

• 病例报告 •

## 甲状舌管乳头状癌 1 例

周娇<sup>1</sup> 黄琼玲<sup>1</sup> 鲁明<sup>1</sup> 出树强<sup>2</sup> 张逸铮<sup>1</sup> 郑朝晖<sup>1</sup>

**[摘要]** 本文报道 1 例发生于青年男性的甲状舌管乳头状癌。患者因发现颈前部肿块 2 年入院。术前 B 超、CT 及 MR 示颈前正中皮下以囊性为主的包块,可见不规则钙化影,增强后未见明显强化,考虑甲状舌管囊肿。行 Sistrunk 法甲状舌管囊肿切除术,术后病理报告示甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌,结合免疫组织化学,符合甲状舌管乳头状癌。

**[关键词]** 甲状舌管囊肿;甲状舌管乳头状癌;Sistrunk 法

**DOI:**10.13201/j.issn.2096-7993.2023.06.017

**[中图分类号]** R739.91 **[文献标志码]** D

### Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant: a case report

ZHOU Jiao<sup>1</sup> HUANG Qionglin<sup>1</sup> LU Ming<sup>1</sup> CHU Shuqiang<sup>2</sup>  
ZHANG Yizheng<sup>1</sup> ZHENG Chaohui<sup>1</sup>

(<sup>1</sup>Department of Otolaryngology, Second Affiliated Hospital of Fujian Medical University, Quanzhou, 362000, China; <sup>2</sup>Department of Pathology, Second Affiliated Hospital of Fujian Medical University)

Corresponding author: ZHENG Chaohui, E-mail: drzch91@163.com

**Abstract** This case report has described a case of papillary carcinoma of thyroglossal duct in a young male. This patient was admitted with a mass in the anterior neck for 2 years. Preoperative B-ultrasonography, CT and MR showed a subcutaneous cystic mass with irregular calcification shadow in the central region of the neck without obvious enhancement. Initial diagnosis was thyroglossal duct cyst, and was excised by Sistrunk under general anesthesia. The postoperative pathological examination showed thyroglossal duct cyst combined with thyroid papillary carcinoma, which was confirmed by immunohistochemistry as thyroglossal duct papillary carcinoma.

**Key words** thyroglossal duct cyst; papillary carcinoma of thyroglossal duct; Sistrunk

### 1 病例报告

患者,男,24 岁,因“颈前无痛性肿物 2 年”为主诉入院。入院前 2 年无意中发现颈前正中无痛性肿物,局部无红肿,无声音嘶哑、吞咽困难等不适。体检:颈前正中舌骨水平一肿物,大小 3.5 cm×3.0 cm×2.0 cm,质地中等,表面光滑,边界清,吞咽时可以随舌骨上下活动,左右活动度差。双侧甲状腺未触及肿大及结节,浅表淋巴结未触及肿大。术前甲状腺彩超提示甲状腺右叶实性病变(TI-RADS 3 类),甲状腺左叶未见明显异常;颈部 CT 增强检查提示颈正中中部见边界清楚的圆形囊样低密度灶,右后壁可见不规则钙化影,向下延伸可达喉软骨(图 1)。颈部 MRI 增强检查提示颈正中中部舌骨水平以下至甲状软骨水平见团片状混杂异

常信号,TIWI 呈低信号,T2WI 呈高信号,增强扫描不均匀强化,部分明显强化(图 2)。血常规、生化及甲状腺功能 6 项等检查均无异常。入院后完善检查,在全身麻醉下采用 Sistrunk 术行甲状舌管囊肿切除术。术中沿颈前皮纹做水平切口,分离囊肿至舌骨中部,见囊肿蒂与舌骨体部相连,沿囊壁锐性分离,完整切除囊肿与部分相连舌骨以及少量周围组织。术后病理报告:肿物呈乳头状增生,核毛玻璃样,拥挤重叠,可见核沟,局灶见钙化,符合甲状舌管乳头状癌。结合免疫组织化学:Ki67(约 5%+),Tg(少量+),CK19(+),MC(-),Galectin3(+),CD56(-),甲状腺转录因子-1(TTF-1)(+),PAX-8(+),见图 3。患者出院至今定期复查未见肿瘤复发或远处转移征象,预后良好。

### 2 讨论

甲状腺是人类胚胎中最早发育的内分泌腺之一。在胚胎发育初期,甲状腺始基在下移过程中形成一条与始基相连的细管,称为甲状舌管。此管在

<sup>1</sup>福建医科大学附属第二医院耳鼻咽喉科(福建泉州, 362000)

<sup>2</sup>福建医科大学附属第二医院病理科

通信作者:郑朝晖,E-mail:drzch91@163.com

胚胎第 6 周时开始闭锁退化,至第 8 周时完全消失<sup>[1]</sup>。若闭锁退化不全则可在其走行的任何部位形成囊肿,61%的囊肿发生在舌骨水平或舌骨与甲

状软骨之间,24%位于舌骨上,13%位于胸骨上,2%位于舌内<sup>[2]</sup>。

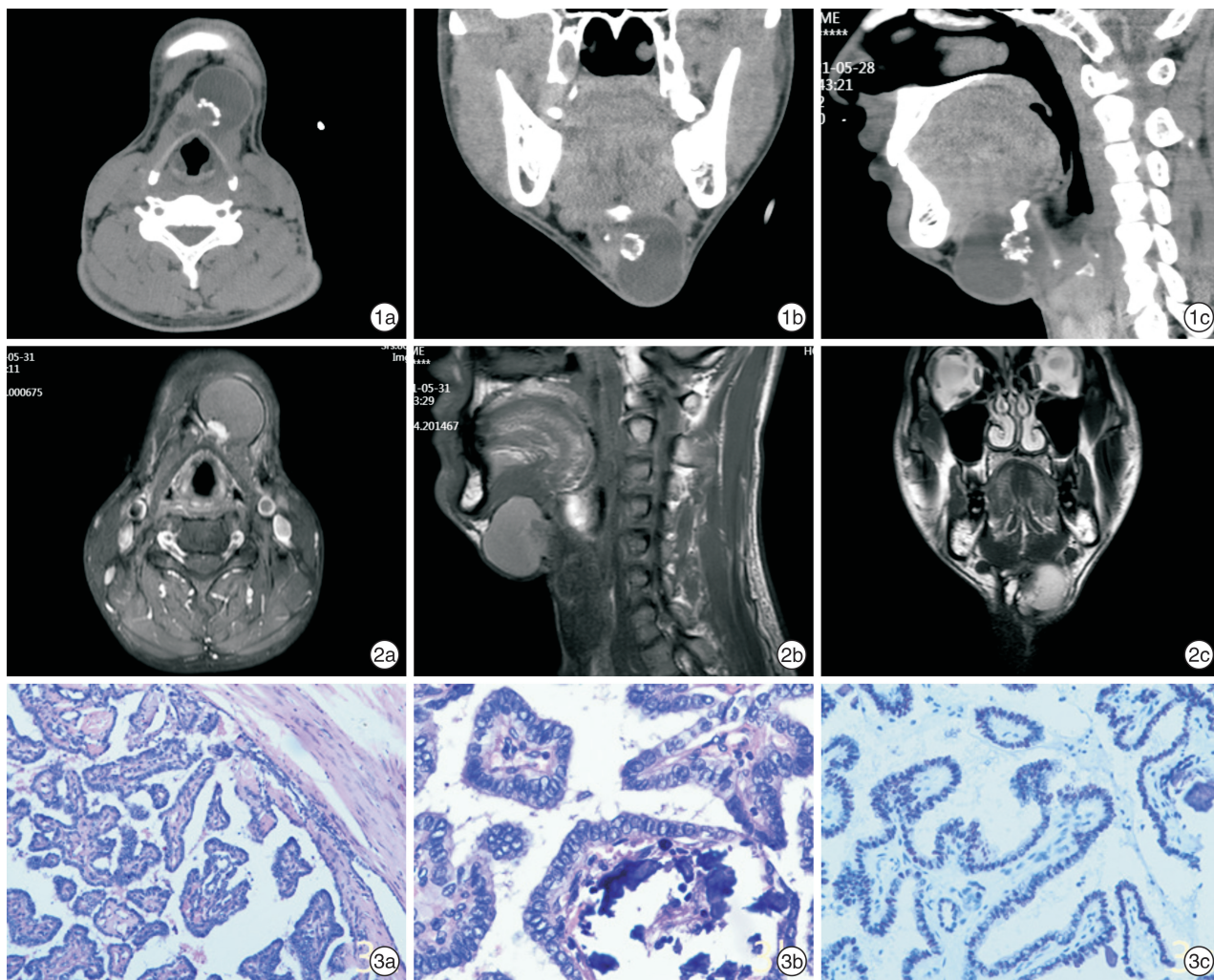


图 1 CT 检查 a~c:颈部 CT 增强检查囊内可见不规则钙化影,与部分舌骨相连; 图 2 MR 检查 a~c:颈部 MR 增强检查 T1WI 呈低信号,T2WI 呈高信号,增强扫描不均匀强化,部分明显强化; 图 3 术后病理所见 a:肿瘤呈乳头状生长 HE×200;b:肿瘤间质可见砂砾体样钙化 HE×400;c:免疫组织化学结果示 TTF-1 呈阳性表达 SP×200。

甲状舌管癌(thyroglossal duct carcinoma, TDCa)是一种临床罕见的恶性肿瘤,约占甲状舌管囊肿(thyroglossal duct cyst, TDCs)的 1%,主要包括乳头状癌(75%~80%)、乳头状-滤泡状混合性癌(7%)、鳞状细胞癌(5%)、滤泡癌(1.7%)、未分化癌和 Hurthle 细胞癌(0.9%)等<sup>[3]</sup>。自 1911 年 Bretano 等报道了首例 TDCs 癌变病例,目前国内外共报道该病约 300 余例<sup>[4-5]</sup>。据统计,TDCs 在成人中发病率约占 7%,男女比例差异无统计学意义。TDCa 各年龄均有发病报道,平均发病年龄为 39 岁,其中女性略高于男性,比例为 2.1 : 1.0<sup>[6]</sup>。

关于 TDCa 的起源多数学者认为是来源于甲状舌管内残留的甲状腺组织,而非甲状舌管囊壁组织或甲状腺转移癌。因 TDCa 的临床表现与 TDCs 相似,缺少特异性,故临床上往往与良性病

变难以鉴别,多数情况下依靠术后病理明确。若肿瘤质硬、活动度差、形态不规则、体积快速增长等表现多怀疑是恶性肿瘤<sup>[7]</sup>。影像学上 TDCa 表现为一种囊肿内含实性成分,其次有钙化、边缘不规则、壁厚分隔<sup>[8]</sup>。而 TDCs 伴感染时 CT 也可能表现囊壁增厚和实性成分的存在,但无钙化表现。因此,钙化的存在很可能是乳头状癌在影像学上的一个特殊标记。

Widstrom 等<sup>[9]</sup>描述了 TDCa 应满足的明确诊断标准:①囊壁有甲状舌管残迹,常有散在的甲状腺滤泡,囊内壁衬有鳞状上皮和纤毛柱状上皮;②癌肿位于甲状舌管部位或 TDCs 内;③原甲状腺部位未见癌组织浸润。而在临床上怀疑为罕见恶性肿瘤的情况下,细针穿刺活检(FNAC)是目前 TDCa 较为常用的术前病理诊断方法,有助于确定

肿瘤性质及手术方式。但 Yang 等<sup>[10]</sup>总结了报道的 17 例 TDCs 细针穿刺活检病例,由于囊液中的异形细胞数较少,其诊断真阳性率为 53%,假阴性率为 47%。所以为了提高诊断率,建议在 B 超引导下,反复对囊肿内的实性或钙化结节进行穿刺活检。

目前关于 TDCa 的治疗方式存在较多争议,但目前多数学者认为单纯的 TDCa 以 Sistrunk 法为宜,不需要后续治疗,其适应证为:①囊壁上有正常的甲状腺滤泡组织;②癌肿未突破囊壁;③甲状腺组织正常;④颈部淋巴结无受累。仅在病变超出上述 4 项范围时才应加行甲状腺切除术和区域性颈淋巴结清扫术<sup>[11]</sup>。也有学者主张 Sistrunk 手术加全甲状腺切除(TT),术后进行放射碘消融治疗(RAI),认为无论肿瘤来源何处,此术式更有利于保证癌肿的局部区域控制<sup>[12-13]</sup>。还有学者主张将患者分为低危和高危人群,低危者具备以下特征:①年龄 < 45 岁;②无辐射暴露史;③肿瘤直径 < 4.0 cm;④无淋巴结及远处转移<sup>[2,11,13]</sup>。高危者具备以下特征:①年龄 ≥ 45 岁;②有辐射暴露史;③肿瘤直径 ≥ 4.0 cm;④合并甲状腺肿瘤;⑤伴有淋巴结和远处器官转移征象者<sup>[14]</sup>。只有被评估为高危 TDCa 患者才接受 Sistrunk 术加 TT 和术后 RAI 治疗,必要时需行区域性颈淋巴结清扫术。本患者符合低危 TDCa 人群,且满足行 Sistrunk 法的适应证。本患者术后 1 年内,定期复查甲状腺彩超及甲功 6 项均未见异常,预后良好,未发现肿瘤复发或转移征象。此后患者自诉良好,未再定期复查。

Patel 等<sup>[15]</sup>总结分析了 62 例 TDCa 患者,发现其 5 年、10 年生存率分别为 100%、95.6%。在 TDCa 手术同时行 TT 的标本中,发现合并隐匿性甲状腺癌的仅为 11.4%~25.0%。原发于 TDCs 的淋巴结转移率为 7.7%~12.0%,远处转移率为 1.3%,而原发于甲状腺乳头状癌的淋巴结转移率为 89.8%<sup>[7,16]</sup>。

综上所述,TDCa 是一种罕见的恶性肿瘤,预后多良好。术前明确肿物性质,有助于制定手术方案。对于低危 TDCa 人群,目前 Sistrunk 手术仍被视为一种有效的外科治疗方法。对于是否行甲状腺手术或颈淋巴结清扫术,应根据患者有无相应的阳性证据来决定,同时需要考虑患者本身是否能接受切除无明确阳性证据的甲状腺以及术后可能带来的较严重并发症。

**利益冲突** 所有作者均声明不存在利益冲突

#### 参考文献

[1] 汪吉宝,孔维佳,黄选兆,等.实用耳鼻咽喉头颈外科学[M].2版.北京:人民卫生出版社,2008:634-634.

- [2] Plaza CP,López ME,Carrasco CE,et al. Management of well-differentiated thyroglossal remnant thyroid carcinoma: time to close the debate? Report of five new cases and proposal of a definitive algorithm for treatment[J]. *Ann Surg Oncol*,2006,13(5):745-752.
- [3] Alatsakis M,Drogouti M,Tsompanidou C,et al. Invasive Thyroglossal Duct Cyst Papillary Carcinoma: A Case Report and Review of the Literature[J]. *Am J Case Rep*,2018,19:757-762.
- [4] 王松祥,黄黎明.甲状舌管乳头状癌一例[J].*中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*,2019,54(7):548-549.
- [5] Pietruszewska W, Wagrowska-Danilewicz M, Józefowicz-Korczyńska M. Papillary carcinoma in thyroglossal duct cyst with uninvolved thyroid. Case report and review of the literature[J]. *Arch Med Sci*,2014,10(5):1061-1065.
- [6] Sanz-Martín B, Aguillo-Gutiérrez E, Román-Gimeno S, et al. Case report: Thyroglossal duct cyst papillary carcinoma in a young male[J]. *Ann Endocrinol (Paris)*,2021,82(2):126-128.
- [7] Glastonbury CM, Davidson HC, Haller JR, et al. The CT and MR imaging features of carcinoma arising in thyroglossal duct remnants[J]. *AJNR Am J Neuroradiol*,2000,21(4):770-774.
- [8] 尹建枚,武欣,刘亚芳,等.甲状舌管癌一例[J].*中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*,2019,54(1):56-57.
- [9] Widström A, Magnusson P, Hallberg O, et al. Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct [J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*,1976,85(2 pt. 1):286-290.
- [10] Yang YJ, Haghiri S, Wanamaker JR, et al. Diagnosis of papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst by fine-needle aspiration biopsy[J]. *Arch Pathol Lab Med*,2000,124(1):139-142.
- [11] 徐蓉,朱新,黄志纯,等.甲状舌管癌的诊治分析[J].*中国实用医药*,2017,12(25):3-5.
- [12] 张佳,董频,孙臻峰,等.甲状舌管乳头状癌的诊治(附 2 例报告)[J].*中国中西医结合耳鼻咽喉科杂志*,2016,24(1):54-55.
- [13] Bakkar S, Biricotti M, Stefanini G, et al. The extent of surgery in thyroglossal cyst carcinoma[J]. *Langenbecks Arch Surg*,2017,402(5):799-804.
- [14] 徐教邦,杨亚楠,赵飞,等.甲状腺及甲状舌管囊状乳头状癌合并颈部淋巴结转移及 BRAF 基因突变一例[J].*中华普通外科杂志*,2021,36(1):42-42.
- [15] Patel SG, Escrig M, Shaha AR, et al. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst[J]. *J Surg Oncol*,2002,79(3):134-9; discussion 140-141.
- [16] 王立娟,曾敏,郭小红,等.甲状舌管乳头状癌的临床病理观察[J].*诊断病理学杂志*,2021,28(1):28-31.  
(收稿日期:2021-11-10 修回日期:2022-12-29)