

· 病案报道 ·

胸腔镜辅助小切口切除纵隔异位恶性潜能未定的甲状腺滤泡性肿瘤 1 例

高永山¹, 姜伟华¹, 董跃华¹, 刘博²

1. 河北北方学院附属第一医院胸心外科, 河北 张家口 075000; 2. 河北北方学院附属第一医院病理科, 河北 张家口 075000

关键词: 异位甲状腺; 纵隔肿瘤; 恶性潜能未定

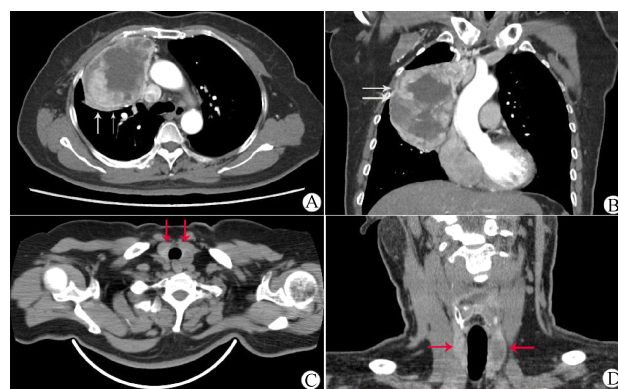
中图分类号: R736.1 文献标识码: D 文章编号: 1674-8182(2022)04-0549-03

颈部正常解剖位置之外出现的甲状腺组织均称之为异位甲状腺(ectopic thyroid gland, ETG)^[1], 而 ETG 发生于纵隔者所占比例不到 1%, 因其发病率低且缺乏特异性临床表现故容易与其它纵隔肿瘤混淆而误诊^[2]。本文报道应用胸腔镜辅助小切口手术完整切除的异位于纵隔的恶性潜能未定的甲状腺滤泡性肿瘤(follicular thyroid tumors of uncertain malignant potential, FT-UMP) 1 例, 以探讨其临床特征、诊断、治疗及预后, 同时经过检索发现, 这也是首次关于该病理类型纵隔 ETG 的病例报告。

1 病例资料

患者, 女性, 59 岁, 因“右侧肩部不适伴气短 2 月”于 2018 年 3 月 30 日入院。胸部增强 CT 示: 右侧胸腔囊实性混合肿块, 形态欠规则, 密度不均匀, 增强扫描各期明显不均匀强化, 右肺上叶前段局部受压(图 1A、1B)。颈部 CT 示: 患者正常位置存在甲状腺组织(图 1C、1D)。入院查血常规、凝血功能及肿瘤标记物均未见明显异常。甲状腺功能: 甲状腺素(T4) 7.11 μg/dl(正常范围 5.10~14.10 μg/dl)、三碘甲状腺原氨酸(T3) 162.4 ng/ml(正常范围 80.00~200.00 ng/ml)、促甲状腺激素(TSH) 2.17 mIU/L(正常范围 0.27~4.20 mIU/L)、游离三碘甲状腺原氨酸(FT3) 4.07 pg/ml(正常范围 2.00~4.40 pg/ml)、游离甲状腺素(FT4) 1.03 ng/dl(正常范围 0.93~1.70 ng/dl)、甲状腺球蛋白(Tg) > 1 000 ng/dl(正常范围 1.00~55.00 ng/dl)。2018 年 4 月 3 日行手术治疗,

全麻后予以双腔气管插管, 健侧折刀卧位, 单肺通气, 取腋中线第 7 肋间置入 trocar 和 30° 镜头, 探查见: 右侧胸腔巨大肿瘤, 大小约 11 cm×10 cm×7 cm, 呈囊实性, 包膜完整, 表面布满迂曲的滋养血管, 右肺上叶部分受压不张, 然后在腋前线第 4 肋间做辅助小切口长约 10 cm, 用电刀联合超声刀将肿瘤予以完整切除。术后病理检测: 标本大小约 11.5 cm×10.3 cm×6.9 cm, 包膜部分完整(图 2A)。将肿瘤的包膜组织全部取材后镜下发现: 肿瘤组织由分化良好的滤泡细胞组成, 细胞异型性小, 无甲状腺乳头状癌核型改变(图 2B); 可疑包膜及血管侵犯: 肿瘤细胞侵犯包膜但未穿透, 呈蘑菇头样(图 2C); 可疑血管侵犯: 血管腔内肿瘤细胞巢缺乏内皮细胞被覆(图 2D)。病理诊断: FT-UMP。术后随访 40 个月, 患者无不适, 亦未见复发。



注: A、B 为右侧胸腔囊实性混合肿块的横切面及纵切面(灰色箭头所示); C、D 为正常位置甲状腺的横切面及纵切面(红色箭头所示)。

图 1 患者术前 CT 影像

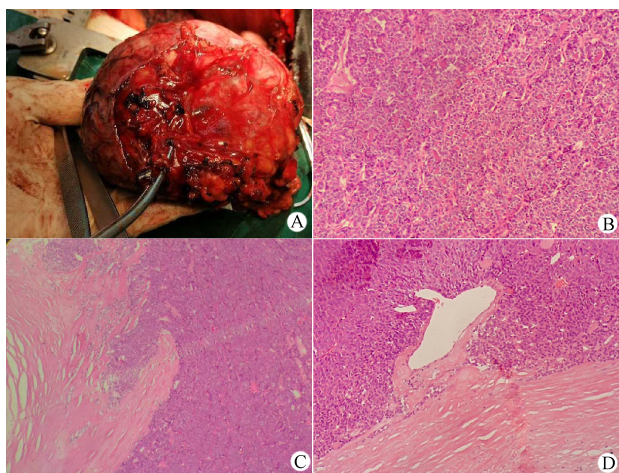
Fig. 1 Preoperative CT of the patient

DOI: 10.13429/j.cnki.cjcr.2022.04.022

基金项目: 张家口市科学技术局市级科技计划项目(1921033D)

通信作者: 刘博, E-mail: Liubo8118@163.com

出版日期: 2022-04-20



注:A为包膜完整且表面布满迂曲血管的离体标本;B示肿块由分化良好的普通滤泡细胞组成,无乳头状癌核型改变特征(HE染色,10×10);C示包膜可疑侵犯(HE染色,4×10);D示血管可疑侵犯(HE染色,10×10)。

图2 肿瘤离体标本及病理结果

Fig. 2 Resected specimen and the postoperative pathology

2 讨论

ETG约90%发生于舌根部,也有文献报道其出现在其它部位,如心室^[3]、肺部^[4]、胃^[5]及肾上腺^[6]等,而ETG发生于纵隔者所占比例不到1%^[2]。ETG的发病机制目前尚不清楚,但有研究表明,甲状腺的成熟和分化重要的基因转录因子TTF-1、TTF-2、BRAF和TERT等的突变可能会导致甲状腺迁移异常而出现ETG^[7-8]。

ETG与正常甲状腺组织来源相同,所以其可发生正常甲状腺可能出现的所有疾病,如甲状腺肿、甲状腺腺瘤等,甚至会有不到1%的患者发生恶变^[9]。既往关于纵隔ETG继发良性及恶性肿瘤的病例也均有报道^[10-12],而本文报道此例为FT-UMP,笔者以“纵隔、异位甲状腺”为检索式,经检索CNKI、万方及PubMed全文数据库,迄今发表的所有相关病例报告及文献回顾中,均未见到该病理类型的纵隔ETG的报道。FT-UMP是2017版WHO对内分泌肿瘤的分类进行全面更新后引入的一组甲状腺交界性肿瘤概念^[13],诊断FT-UMP需要满足下列条件:(1)缺乏乳头状癌核型特征的滤泡性肿瘤;(2)包膜或血管侵犯不确定。另外在取材包膜较厚的甲状腺结节时,一定要将肿瘤的包膜组织全部取材,这有利于镜下观察血管和包膜情况,且对于包膜侵犯不确定的病理切片,需要连续深切片^[14]。

关于ETG临床上仍没有统一的治疗标准,但临床上目前对ETG伴甲状腺功能异常、有症状或继发

肿瘤者建议手术切除。但术前应查明正位甲状腺是否存在,避免盲目切除而致甲状腺功能减退或丧失,既往就有研究报道将ETG误诊为甲状舌管囊肿,切除后患儿甲状腺功能低下而引起医疗纠纷的案例^[15]。本例因为存在临床症状,同时影像学显示右侧胸腔巨大占位,据此无论占位的性质如何,均需要手术切除,手术前也征求了患者自己的意愿,所以术前并未行穿刺活检而直接手术切除。另外高达2/3的ETG患者会发生甲状腺功能减退^[16],因此术前均需要进行甲状腺功能检查。本病例正常解剖位置存在甲状腺,术前甲状腺功能检测正常,行肿瘤切除后随访患者无不适,未见复发转移,术后甲状腺功能也一直处于正常范围内。

FT-UMP属于交界性肿瘤,是一类具有惰性生物学行为的肿瘤,很少发生复发或转移,目前认为手术完整切除后以观察、随访为主^[17]。也有研究认为,对于这类肿瘤术后要定期监测Tg水平,特别是肿瘤>4cm的患者,如术后Tg水平持续升高,应警惕复发转移的可能^[18]。本例患者术前Tg明显升高(>1000ng/dl),术后3月复查甲状腺功能时Tg已回落至正常范围,后期随访中Tg也一直处于正常水平。

综上所述,当纵隔出现囊实性混合密度肿块时要考虑ETG的可能,对于纵隔ETG建议尽早手术切除,但术前应查明正位甲状腺是否存在及术后定期监测甲状腺功能。

参考文献

- [1] Walz PC, Iwenofu OH, Essig GF. Ectopic mediastinal goiter successfully managed via cervical approach: case report and review of the literature[J]. *Head Neck*, 2013, 35(3): E94-E97.
- [2] Roh E, Hong ES, Ahn HY, et al. A case of mediastinal ectopic thyroid presenting with a paratracheal mass[J]. *Korean J Intern Med*, 2013, 28(3): 361-364.
- [3] 盛林丽,陈强,韩丹.右心室异位甲状腺腺瘤一例[J].*中华放射学杂志*,2019,53(11):1018-1019.
Sheng LL, Chen Q, Han D. Ectopic thyroid adenoma in right ventricular: a case report [J]. *Chin J Radiol*, 2019, 53(11): 1018-1019.
- [4] Zhang W, Zhang H, Hou Q, et al. Ectopic thyroid microfollicular adenoma in the lung: a case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2019, 98(35): e16832.
- [5] Rajabi P, Eftekhari SM, Rouhani E, et al. Ectopic thyroid in stomach; a case report [J]. *Iran J Pathol*, 2018, 13(1): 103-105.
- [6] Paunovic I, Rovcanin B, Jovanovic M, et al. Ectopic thyroid tissue in adrenal gland, case report and review of literature [J]. *Gland Surg*, 2020, 9(5): 1573-1578.

- [7] Nettore IC, Cacace V, De Fusco C, et al. The molecular causes of thyroid dysgenesis: a systematic review [J]. *J Endocrinol Invest*, 2013, 36(8): 654-664.
- [8] Stenman A, Koman A, Ihre-Lundgren C, et al. Metastatic-prone telomerase reverse transcriptase (TERT) promoter and v-Raf murine sarcoma viral oncogene homolog B (BRAF) mutated tall cell variant of papillary thyroid carcinoma arising in ectopic thyroid tissue: a case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2021, 100(2): e24237.
- [9] Noussios G, Anagnostis P, Goulis DG, et al. Ectopic thyroid tissue: anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity [J]. *Eur J Endocrinol*, 2011, 165(3): 375-382.
- [10] Shafiee S, Sadrizade A, Jafarian A, et al. Ectopic papillary thyroid carcinoma in the mediastinum without any tumoral involvement in the thyroid gland. A Case report [J]. *Asia Ocean J Nucl Med Biol*, 2013, 1(1): 44-46.
- [11] Lee WS, Kim YH, Chee HK, et al. A 7.3×5.3×3.5 cm heterotopic thyroid in the posterior mediastinum in a patient with situs inversus totalis [J]. *J Thorac Dis*, 2014, 6(5): E39-E42.
- [12] 刘晖, 崔全才. 纵隔异位印戒细胞型甲状腺滤泡状腺瘤一例 [J]. *中华病理学杂志*, 2001, 30(5): 394-395.
Liu H, Cui QC. A case of mediastinal ectopic signet ring cell type thyroid follicular adenoma [J]. *Chin J Pathol*, 2001, 30(5): 394-395.
- [13] 刘志艳, 周庚寅, Kennichi Kakudo, 等. 2017 版 WHO 甲状腺肿瘤分类解读 [J]. *中华病理学杂志*, 2018, 47(4): 302-306.
Liu ZY, Zhou GY, Kakudo K, et al. Interpretation of the fourth edition of WHO pathological classification of the thyroid tumor in 2017 [J]. *Chin J Pathol*, 2018, 47(4): 302-306.
- [14] 刘志艳. 具有乳头样核特征的非浸润性甲状腺滤泡性肿瘤及其诊断标准 [J]. *中华病理学杂志*, 2017, 46(3): 205-208.
Liu ZY. Diagnostic criteria of noninvasive follicular thyroid neoplasm with papillary-like nuclear features [J]. *Chin J Pathol*, 2017, 46(3): 205-208.
- [15] 张云宏, 王广军, 贾氢, 等. 罕见异位甲状腺腺瘤误诊切除引发医疗纠纷的思考 [J]. *法律与医学杂志*, 2006, 13(2): 88-89.
Zhang Yh, Wang Gj, Jia Q, et al. Considerations of the medical liability disputes caused by misdiagnosis and excision in rare ectopic thyroid adenoma [J]. *J Law Med*, 2006, 13(2): 88-89.
- [16] Demirhan R, Onan B, Oz K, et al. Posterior mediastinal ectopic thyroid: an unusual cause for dysphagia [J]. *Ann Thorac Surg*, 2009, 88(2): 656-659.
- [17] 王学菊, 王雪梅, 陈桂秋. 恶性潜能未定的甲状腺肿瘤诊断研究进展 [J]. *中国实验诊断学*, 2020, 24(11): 1901-1903.
Wang XJ, Wang XM, Chen GQ. The diagnostic progress of follicular thyroid tumors of uncertain malignant potential [J]. *Zhongguo Shi Yan Zhen Duan Xue*, 2020, 24(11): 1901-1903.
- [18] Geramizadeh B, Maleki Z. Non-invasive follicular thyroid neoplasm with papillary-like nuclear features (NIFTP): a review and update [J]. *Endocrine*, 2019, 64(3): 433-440.
收稿日期: 2021-08-06 修回日期: 2021-10-31 编辑: 石嘉莹

(上接第 548 页)

- [6] Chehab O, Abdallah N, Kanj A, et al. Impact of immune thrombocytopenic purpura on clinical outcomes in patients with acute myocardial infarction [J]. *Clin Cardiol*, 2020, 43(1): 50-59.
- [7] Roh JW, Lim S, Hwang Y, et al. Ischemic and bleeding events associated with thrombocytopenia and thrombocytosis after percutaneous coronary intervention in patients with acute myocardial infarction [J]. *J Clin Med*, 2020, 9(10): 3370.
- [8] Liu R, Liu J, Yang JG, et al. Association of thrombocytopenia with in-hospital outcome in patients with acute ST-segment elevated myocardial infarction [J]. *Platelets*, 2019, 30(7): 844-853.
- [9] Hakim DA, Dargas GD, Caixeta A, et al. Impact of baseline thrombocytopenia on the early and late outcomes after ST-elevation myocardial infarction treated with primary angioplasty: analysis from the Harmonizing Outcomes with Revascularization and Stents in Acute Myocardial Infarction (HORIZONS-AMI) trial [J]. *Am Heart J*, 2011, 161(2): 391-396.
- [10] 中国医师协会心血管内科医师分会血栓防治专业委员会. 急性冠状动脉综合征特殊人群抗血小板治疗中国专家建议 [J]. *中华心血管病杂志*, 2018, 46(4): 255-266.
Thrombosis Prevention and Treatment Professional Committee of Cardiovascular Physicians Branch of Chinese Medical Association. Chinese expert recommendations on antiplatelet therapy for special populations with acute coronary syndrome [J]. *Chin J Cardiol Dis*, 2018, 46(4): 255-266.
- [11] Al-Lawati K, Osheiba M, Lester W, et al. Management of acute myocardial infarction in a patient with idiopathic thrombocytopenic purpura, the value of optical coherence tomography: a case report [J]. *Eur Heart J Case Rep*, 2020, 4(6): 1-5.
- [12] 廖付军, 鲍海龙, 牛力, 等. 比伐卢定在高出血风险 ACS 患者 PCI 术中的应用研究 [J]. *重庆医学*, 2021, 50(4): 563-566, 572.
Liao FJ, Bao HL, Niu L, et al. Study on the application of bivalirudin in PCI of high bleeding risk ACS patients [J]. *Chongqing Med*, 2021, 50(4): 563-566, 572.
收稿日期: 2021-08-24 修回日期: 2021-10-20 编辑: 石嘉莹