

گزارش دو مورد بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگوسال

چکیده:

مقدمه و هدف: بدخیمی مجرای کیست تیروگوسال از تومورهای ناشایع خط وسط گردن است که اکثر مواقع پس از برداشتن کیست تشخیص داده می‌شود و شیوع این تومور حدود ۱-۱/۵ درصد است. در این مقاله دو مورد از بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگوسال گزارش می‌شود.

معرفی بیمار: بیماران دو زن ۲۴ و ۱۶ ساله بودند که در سال‌های ۱۳۷۹ و ۱۳۷۷ به دلیل توده‌ای در ناحیه خط وسط گردن به بیمارستان خلیلی دانشگاه علوم پزشکی شیراز مراجعه نموده بودند. آزمایش‌های پاراکلینیکی جهت بدخیمی در کیست تیروگوسال هر دو منفی بود، اما پس از جراحی هر دو بدخیمی پاپیلاری در کیست تیروگوسال داشتند و در طول ۸ و ۶ سال گذشته تنها تحت پیگیری قرار گرفتند و از عمل جراحی دوم و برداشتن تیروئید و درمان با ید رادیواکتیو اجتناب شد.

نتیجه‌گیری: نمونه‌برداری با سوزن و سونوگرافی در کیست تیروگوسال از جهت رد بدخیمی منفی کاذب بالایی دارد، لذا تست‌های پاراکلینیکی به هیچ عنوان رد کننده بدخیمی نیستند و تنها راه قطعی رد بدخیمی در کیست تیروگوسال برداشتن آن است. از سوی دیگر در درمان آن نیز اختلاف نظر جدی وجود دارد، به طوری که بعضی معتقد به برداشتن کامل تیروئید هستند، اما در صورتی که تیروئید، غدد لنفاوی و لبه‌های توده برداشته شده درگیر نباشند لزومی به برداشتن تیروئید و تحمیل عوارض آن برای بیمار نیست، زیرا این بدخیمی پیش‌آگهی بسیار خوبی دارد و از سوی دیگر درگیری احتمالی تیروئید را می‌توان با پیگیری‌های مرتب تشخیص داد.

واژه‌های کلیدی: بدخیمی کیست تیروگوسال، پاپیلاری کارسینوما، جراحی سیستماتیک

دکتر سید بصیر هاشمی *

دکتر سید حسین دستغیب حسینی **

*متخصص گوش و حلق و بینی و جراحی سر و گردن، دانشیار دانشگاه علوم پزشکی شیراز، دانشکده پزشکی، بخش گوش و حلق و بینی و جراحی سر و گردن
**دستیار تخصصی گوش و حلق و بینی و جراحی سر و گردن، دانشگاه علوم پزشکی شیراز، دانشکده پزشکی، بخش گوش و حلق و بینی و جراحی سر و گردن

تاریخ وصول: ۱۳۸۵/۰۷/۰۷

تاریخ پذیرش: ۱۳۸۵/۰۷/۲۰

مؤلف مسئول: دکتر سید بصیر هاشمی

پست الکترونیک: hashemib@yahoo.com

مقدمه

کیست تیروگلوکوسال شایع‌ترین اختلال مادرزادی در تکامل تیروئید و شایع‌ترین توده گردنی خط وسط در کودکان است (۱). میزان شیوع مجرای تیروگلوکوسال در جامعه حدود ۷ درصد است (۲) که کیست آن می‌تواند در هر سنی خود را بروز دهد. به طوری که ۲۵ درصد موارد در زمان تولد، یک سوم موارد بعد از سن ۳۰ سالگی و بقیه در دوره نوجوانی خود را نشان می‌دهند (۴ و ۳). محل این کیست‌ها معمولاً بین غده تیروئید و استخوان هایونئید (۱۱ درصد) و بقیه در ناحیه سوپراهایونئید (۲۴ درصد)، سوپراسترنال (۱۳ درصد) و داخل زبانی (۲-۱ درصد) قرار دارند. با وجودی که این کیست‌ها در خط وسط گردن قرار دارند، می‌توان آنها را با فاصله ۲ سانتی‌متر از خط وسط نیز دید (۲).

در طول زمان تجمع ترشحات یا التهاب موضعی درون مجرا منجر به تشکیل کیست می‌گردد که در این مرحله توده‌ای بی‌علامت است که با ازدیاد ترشحات به تدریج بزرگتر می‌شود (۷-۵). منتهی این کیست‌ها متعاقب یک عفونت دستگاه تنفسی فوقانی دچار التهاب شده و به سرعت بزرگ می‌شود و علت آن التهاب غدد لنفاوی ناحیه، تجمع ترشحات و بسته شدن مسیر تخلیه از طریق دهانه سکوم است (۶).

درمان انتخابی کیست تیروگلوکوسال عمل جراحی سیسترانک^(۱) است، به طوری که علاوه بر برداشتن مجرا، باید حدود ۱-۱/۵ سانتی‌متر از استخوان هایونئید را نیز برداشت تا از قطع

مسیر مجرا در طول آن جلوگیری شود و احتمال عود کمتر شود، همچنین سلول‌های سرطانی احتمالی باقی نمانند (۲).

بدخیمی کیست تیروگلوکوسال ناشایع است و حدود ۱-۱/۵ درصد از کیست‌های تیروگلوکوسال دچار بدخیمی می‌شوند (۱). شایع‌ترین نوع هیستولوژیک بدخیمی تیروگلوکوسال در ۹۳ درصد موارد کارسینوم پاپیلاری است و کارسینوم سلول سنگفرشی ۵ درصد موارد را تشکیل می‌دهد. انواع دیگر به ترتیب شامل: پاپیلاری - فولیکولار، آناپلاستیک و هرتل^(۲) می‌باشد. البته هیچ موردی از کارسینوم مدولاری برخاسته از مجرای تیروگلوکوسال گزارش نشده است (۸ و ۷). در این مقاله دو مورد از بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگلوکوسال گزارش می‌شود.

معرفی بیمار

مورد اول زن ۲۴ ساله ساکن شیراز بود که سابقه‌ای از فاکتورهای مساعد کننده بدخیمی نداشتند و دو سال قبل از مراجعه دچار توده‌ای در ناحیه سوپرا هایونئید شده بود که به تدریج بزرگ و سخت شده و به استخوان هایونئید چسبندگی پیدا کرده بود. علی‌رغم علایم کلینیکی جواب آسپیراسیون با سوزن ظریف و سونوگرافی منفی گزارش شده بود. بیمار در سال ۱۳۷۹ در بیمارستان خلیلی دانشگاه علوم پزشکی شیراز تحت عمل جراحی قرار گرفت و توده

1-Sistrunk
2-Hurtle

در دو بیمار عنوان شده دو تظاهر متفاوت از بدخیمی کیست تیروگوسال بحث شده است. یکی بدون علامت بوده و دیگری با چسبندگی و دیگر مشخصات بدخیمی بروز کرده است، ولی سونوگرافی و معاینه بالینی تیروئید در هر دو نرمال گزارش شده بود. لذا درمان تنها، به برداشتن توده و پیگیری‌های دراز مدت محدود شد و از برداشتن تیروئید صرف‌نظر شد.

اولین نکته که در این دو بیمار مورد توجه قرار گرفت که البته در بسیاری از گزارش‌های دیگر ذکر شده است منفی بودن نتایج آسپیراسیون با سوزن با وجود مثبت بودن اکسینزال بیوپسی در آنها و تشخیص بدخیمی بعد و نه قبل از جراحی بود (۹-۱۳). به عبارت دیگر نمونه‌برداری با سوزن با وجودی که می‌تواند در مواردی تأیید کننده بدخیمی باشد، اما به هیچ عنوان رد کننده آن نیست که این برخلاف ندول‌های تیروئید است که نمونه‌برداری با سوزن ارزش تشخیصی بالایی دارد و دیگر آن که اکثر بدخیمی‌های کیست به صورت یک کیست تیروگوسال بی‌علامت خود را نشان می‌دهند و بعد از جراحی و اکسینزال بیوپسی تشخیص بدخیمی داده می‌شود. از طرف دیگر با وجودی که اندازه متوسط کیست‌های بدخیم را به طور متوسط ۴-۲ سانتی‌متر گزارش کرده‌اند (۱۳)، اندازه کیست نیز رد کننده بدخیمی نیست. به طوری که در یکی از بیماران مورد مطالعه که کاملاً بی‌علامت بود و اندازه کیست او تنها یک سانتی‌متر بود، تهاجم به کپسول نیز وجود داشت.

و استخوان هایوئید کامل برداشته شدند. جواب نمونه پاتولوژی بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگوسال با لبه‌های غیردرگیر و با اندازه‌ای حدود ۱/۵ سانتی‌متر مربع گزارش شد. با توجه به نرمال بودن بافت تیروئید در معاینه و سونوگرافی از برداشتن غده تیروئید صرف‌نظر شد و در شش سال گذشته نیز نشانه‌ای از عود موضعی یا متاستاز یافت نشده است.

مورد دوم دختر ۱۶ ساله ساکن یاسوج بود که دچار توده‌ای کیستیک به اندازه یک سانتی‌متر در خط وسط و در زیر غضروف تیروئید شده بود که با عمل بلع حرکت می‌کرد، لذا با تشخیص کیست تیروگوسال در سال ۱۳۷۷ در بیمارستان خلیلی تحت عمل جراحی قرار گرفت. جواب پاتولوژی، بدخیمی پاپیلاری گزارش شد که تهاجم به کپسول نیز داده بود. در طول پیگیری شش ساله این بیمار نیز نشانه مشکوکی یافت نشده است.

بحث و نتیجه‌گیری

بدخیمی مجرای کیست تیروگوسال از تومورهای ناشایع خط وسط گردن است که اکثر مواقع پس از برداشتن کیست تشخیص داده می‌شود و شیوع این تومور حدود ۱-۱/۵ درصد است (۱). در این مقاله دو مورد از بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگوسال گزارش می‌شود. در این مقاله دو مورد از بدخیمی پاپیلاری کیست تیروگوسال گزارش می‌شود.

با توجه به مطالب عنوان شده علایم بالینی، سونوگرافی و اسکن و نمونه برداری با سوزن جهت پیگیری کیست تیروگلو سال ناکافی بوده و تنها راه تمایز کیست تیروگلو سال از بدخیمی آن و جلوگیری از عوارض احتمالی، برداشت وسیع و کامل کیست در مراحل اولیه است، بنابراین با کیست تیروگلو سال باید مانند هر توده ناشناخته گردنی برخورد شده و برداشته شود.

لازم به ذکر است کیست تیروگلو سال در ۰/۶ درصد از موارد دچار عفونت حاد شده و ۳۳ درصد این موارد به فیسچول تبدیل می‌گردد (۲) و احتمال بالای بروز چنین عوارضی دلیل دیگری بر ضرورت برداشت کیست تیروگلو سال در مراحل اولیه است. نکته دیگر آن که درمان آنتی‌بیوتیکی کیست‌های تیروگلو سال دچار التهاب حاد، اگر چه اندازه آنها را کوچک می‌نماید، اما بر خلاف دیگر توده‌های گردنی ضرورت برداشتن آنها را منتفی نمی‌کند، زیرا کیست‌های تیروگلو سال که یک بار دچار التهاب حاد شده‌اند شانس عفونت حاد آنها و یا تبدیل آنها به فیسچول چندین برابر می‌شود (۳).

نحوه درمان کیست تیروگلو سال نیز بحث‌برانگیز است، زیرا با توجه به ناشایع بودن این تومور نه تنها درمان واحدی برای آن مطرح نیست، بلکه به شدت اختلاف نظر در مورد آن وجود دارد. شاید در آینده با انجام یک متاآنالیز از موارد گزارش شده بتوان به طرح درمانی واحدی دست یافت.

در زمان مراجعه این دو بیمار و هنگام تعیین طرح درمانی تصمیم به حفظ تیروئید گرفته شد، زیرا لبه‌های بافت برداشته شده به وسیله بدخیمی درگیر نشده بود و از طرف دیگر غده تیروئید و غدد لنفاوی گردنی سالم بودند. همچنین هیچ دلیل آماری قابل قبول و اثبات شده‌ای برای برداشت تیروئید وجود نداشت و ندارد. پیش آگهی بدخیمی پاپیلاری بسیار عالی است (۱۴) و احتمال درگیری تیروئید و طرح تومور اولیه چند کانونی که طرفداران برداشتن تیروئید به آن معتقدند (۱۵) دلیل خوبی برای برداشتن تیروئید نیست، زیرا با پیگیری‌های منظم با سونوگرافی و اسکن تیروئید می‌توان تومورهای همزمان تیروئید در مراحل اولیه تشخیص داد و در صورت لزوم اقدام به برداشت تیروئید کرد. نتایج مطالعه پاتل و همکاران^(۱) (۲۰۰۲) که در طول ۱۰ - ۵ سال ۶۲ بیمار را که از مراکز مختلف گزارش شده بودند را مورد بررسی قرار داده بودند، نشان دادند که در صورت طبیعی بودن تیروئید هیچ تفاوت آماری در بقاء بیمارانی که تیروئید آنها برداشته شده بود و آنهایی که تیروئید آنها حفظ شده بود وجود نداشت و در طول ۵ تا ۱۰ سال پیگیری بیمارانی که تیروئید سالم داشتند، هیچ یک از بین نرفته بودند. به عبارت دیگر پیش آگهی بدخیمی کیست تیروگلو سال با تیروئید سالم بسیار عالی بوده است (۱۶). نتایج مربوط به دو بیمار این مطالعه نیز با نتایج

1-Patel et al

میان برده شوند، در غیر این صورت عمل جراحی اولیه با پیگیری‌های مرتب کفایت می‌کند.

مطالعه پاتل و همکاران (۲۰۰۲) همخوانی داشت، به طوری که این بیماران در طول ۸-۶ سال گذشته دچار مشکلی نشده بودند .

لازم به ذکر است که تعداد معدودی از جراحان، بیماران را به دو گروه با خطر بالا و پایین تقسیم‌بندی می‌کنند. در این روش تهاجم به کپسول کیست، سابقه رادیاسیون در زمان کودکی یا گروه سنی اطفال به عنوان عوامل خطرزا معرفی شده‌اند و بعد از جمع‌بندی این عوامل جراح تصمیم به برداشت یا حفظ تیروئید می‌نماید (۱۹ - ۱۷).

البته روش‌های درمانی دیگری نیز وجود دارد، به طوری که بسیاری به قربانی کردن تیروئید و برداشتن کامل آن به همراه استفاده از ید رادیواکتیو در تمام بیماران مبتلا به بدخیمی کیست تیروگلو سال تمایل دارند (۲۰ و ۱۳). این گروه یا به تداخل تهاجمی یا به نظریه تومور اولیه چند کانونی معتقد هستند و بیان می‌دارند که امکان دارد غده تیروئید به صورت نهفته درگیر باشد.

به طور کلی نتیجه‌گیری می‌شود تنها در صورتی باید اقدام به برداشتن تیروئید کرد که یا خود تیروئید درگیر باشد و یا غدد لنفاوی گردنی و یا لبه‌های توده برداشته شده درگیر باشد که با توجه به پخش سلول‌های سرطانی در گردن بهتر است گردن باز شده، تیروئید، غدد لنفاوی و دیگر بافت‌های احتمالی درگیر برداشته شود و بعد با استفاده از ید رادیواکتیو سلول‌های احتمالی بدخیم باقی مانده از

Two Case Report of Papillary Carcinoma of Thyroglossal Duct Cyst

Hashemi SB*,
Dastgheib Hosseini SH**.

*Associate Professor of Otorhinolaryngology, Department of Otolaryngology, Head & Neck Surgery, Faculty Medicine, Shiraz University of Medical Sciences, Shiraz, Iran

**Assistant of Otorhinolaryngology, Department of Otolaryngology, Head & Neck Surgery, Faculty Medicine, Shiraz University of Medical Sciences, Shiraz, Iran

KEYWORDS:
Thyroglossal cyst carcinoma,
Papillary carcinoma,
Sistrunk surgery

Received: 7/5/1385
Accepted: 30/7/1385

Corresponding Author: Hashemi SB
E-mail: hashemib@yahoo.com

ABSTRACT:

Introduction & Objective: Thyroglossal duct carcinoma is a rare midline neck carcinoma that is usually diagnosed postoperatively. Its incidence is about 1-1.5%. This article presents two cases of thyroglossal duct cyst carcinoma and their diagnosis and the management methods are described.

Case: Our patients were 24 and 16 year old ladies that referred to Khalili hospital with chief complaint of midline neck mass in 1379, 1377. Their para-clinical tests were negative for malignancy but papillary carcinoma was detected after surgery. They have only been followed up for few years without any thyroidectomy and radioiodine therapy.

Conclusion: There is high false negativity in fine needle aspiration and sonography for ruling out malignancy in thyroglossal cyst; therefore, para clinical tests cannot rule out malignancy and excisional biopsy is the only definite way for ruling out thyroglossal cyst carcinoma. On the other hand, severe controversy exists in managing of thyroglossal cyst carcinoma. While some surgeons are interested in total thyroidectomy and radioiodine ablation, it is not necessary to do thyroidectomy if the thyroid gland, lymph nodes and excised mass margins are free of malignancy because excellent prognosis of thyroglossal cyst carcinoma and probable thyroid involvement can be found by close follow up.

REFERENCES :

1. Weiss SD, Orlish CC. Primary papillary carcinoma of thyroglossal duct cyst :report of a case and review of literature . Br J Surg 1991;78:87-9.
2. Charles M, Robin T. Cotton .Congenital thyroid cysts and ectopic thyroid . In :Falk SA(editor). Thyroid disease. 2nd ed. Philadelphia: Lippincott -Raven;1997; 467-73.
3. Degroot LJ, Jameson JL. Surgery of thyroid. In:Krester D, Grossmen A, Marshal J(editors). Endocrinology. 4th ed. Philadelphia: W.B. Saundres company; 2001; 1581-608.
4. Anniball MD, Cerasdi V, Compioni N. Papillary carcinoma of thyroglossal duct cysts: report of a case and review of the literature. Chir Ital 2000; 52(4): 435-9.
5. Katz AD, Hachigan M. Thyroglossal duct cyst: A third year experience with emphasis on occurrence in older patients. Am J Surg 1988; 155: 741-4.
6. Noyek AM, Friedberg J. Thyroglossal duct and ectopic thyroid disorders. Otolaryngology Clin North Am 1981; 14: 187-201.
7. Doshi SV, Cruz RM, Hilsinger RL. Thyroglossal duct carcinoma: a large case series . Ann Otol Rhinol Laryngol 2001; 110(8): 734-8.
8. Pribitkin BA, Friedman O. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant. Arch Otolaryngol Head and Neck Surg 2002; 128(4): 461-4.
9. Cote DN, Stargis EM, Miller RH. Thyroglossal cyst carcinoma :an unusual case of Hurthle cell carcinoma. Otolaryngology Head and Neck Surg 1995; 113: 153-6.
10. Samora C, Bechrakis I, Strigaris K. Thyroglossal cyst carcinoma: case report and review of the literature with emphasis on CT finding. Neuroradiology 2001; 43(8): 647-9.
11. Pai RR, Raghuvveer CV. Primary papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst. Indin J Cancer 2000; 37(2-3): 111-3.
12. Hsu CY, Tsay SH, Chiang H. Papillary carcinoma of thyroglossal duct cyst: a case report. Zhonghua Yi Xue Za Zhi 1995; 55(2): 199-202 (Article in Taipie).
13. Peterz A, Leiberman E, Kapelushnik J. Thyroglossal duct carcinoma in children: case presentation and review of the literature. Thyroid 2004; 14(9): 777-85.
14. Stephan YL, Mandel SJ, Weber RS. Management of thyroid neoplasms .In: Cummings CW, Flint PW ,Harker LA(editors). Cummings Otolaryngology Head and Neck Surgery. 4th ed. Pennsylvania: Mosby; 2005; 2687-722.
15. Annibale M, Cerasdi V, Barbaraso A. Papillary carcinoma of thyroglossal duct cysts: Report of case and review of literature. Chir Ital 2000; 52(4): 435-439.
16. Patel SG, Escrig M, Shaha AR, Singh B, Ahah JP. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst. J Surg Oncol 2002; 79(3): 134-9.
17. Peterz A, Leibermn E. Thyroglossal duct carcinoma in children: case presentation and review of the literature. Thyroid 2004; 14(9): 777-85.
18. Astl J, Duskova J, Kraus J. Coincidence of thyroid tumor and thyroglossal duct remnant. Review of literature and presentation of three cases. Tumori 2003; 89(3): 314- 20.
19. Luna-Ortiz K, Hutodo-Lopez LM, Valderrama-Landaeta JL. Thyroglossal duct cyst with papillary carcinoma: what must be done?. Thyroid 2004; 14(5): 363-6.
20. Miccoli P, Minuto MN, Galleri D, Puccini M. Extent of surgery in thyroglossal duct carcinoma: reflections on a series of eighteen cases. Thyroid 2004; 14(2): 121-3.