

Papiller tiroid kanserinde tiroglobulin yüksekliğinin nadir bir nedeni: Tiroglossal kanal kistinde rezidü tiroid dokusu

A rare cause of elevated thyroglobulin level in papillary thyroid cancer: residual thyroid tissue in thyroglossal canal cyst

Semra Aytürk¹, Mehmet Çelik¹, Atakan Sezer², Nuray Can³, Ebru Taştekin³, Ahmet Küçükarda⁴, Ali Gökyer⁴, Funda Üstün⁵, Sibel Güldiken¹, Ayşe Armağan Tuğrul¹

¹Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları Bilim Dalı, Edirne

²Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Genel Cerrahi Anabilim Dalı, Edirne

³Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Edirne

⁴Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Edirne

⁵Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Nükleer Tıp Anabilim Dalı, Edirne

Özet

İyi diferansiye tiroid kanserleri tüm primer tiroid kanserlerinin %90'ını oluşturmaktadır. Hastaların cerrahi sonrası 6 aylık periyodlarla boyun ultrasonografisi, tiroid stimulan hormon (TSH), tiroglobulin (Tg) ve anti-tiroglobulin (anti-Tg) düzeyleri ile takip edilmesi gereklidir. İzlemede anti-Tg negatifliğine rağmen ısrarlı Tg yüksekliği saptanın ise diferansiye tiroid kanserinin nüksü, rezidüsü veya metastazı düşünülmelidir. Daha nadir olarak bazı olgularda ektopik tiroid dokusu da görülebilmektedir. Biz total tiroidektomi sonrası takiplerinde Tg yüksekliği saptanan ve görüntüleme yöntemleri ile tiroglossal kanal kist (TKK) içerisinde ektopik tiroid dokusu tespit edilen bir papiller tiroid karsinomu olgusu sunmayı amaçladık.

Anahtar kelimeler: Ektopik tiroid dokusu, tiroglossal duktus kisti, tiroid karsinomu

Abstract

Well differentiated thyroid cancers comprise 90% of all primary thyroid cancers. Patients must be evaluated every 6 months with neck ultrasonography, thyroid stimulating hormone (TSH), thyroglobulin (Tg) and anti-thyroglobulin (anti-Tg) level measurements. During follow-up, detection of persistent Tg level increase despite anti-Tg negativity may be due to recurrence, residue or metastasis of differentiated thyroid cancer. In rare instances, ectopic thyroid tissue may be present. We aimed to present a papillary thyroid carcinoma case who was diagnosed with ectopic thyroid tissue in thyroglossal canal cyst (TCC) by imaging modalities after detection of increased Tg level following total thyroidectomy.

Key words: Ectopic thyroid tissue, thyroglossal ductus cyst, thyroid carcinoma

Giriş

Tiroglossal kanal kistleri; doğumsal orta hat boyun kitellerinin en sık nedenidir. Çoğunlukla çocukluk çağında tespit edilmekle beraber, bulgu vermeyen hastalarda ilerleyen yaşlarda boyunda yutkunmakla hareket eden ağrısız kitle ya da cilde fistülize olan tiroglossal kist fis-

tülü şeklinde belirti verebilir. Her iki cinste eşit oranda görülmektedir¹. Tanısında öykü, fizik muayene, görüntüleme yöntemleri ve ince iğne aspirasyon biyopsisi (İİAB) önemlidir. TKK'in tiroid dokusu içermesi halinde salgısal fonksiyonu mevcuttur ve primer tiroid tümörleri tiroglossal kist zemininde de gelişebilmektedir².

Yazışma Adresi | Correspondence: Dr. Semra Aytürk

Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, İç Hastalıkları Anabilim Dalı, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları Bilim Dalı, 22030 Edirne
e-posta: s.ayturk@hotmail.com

Başvuru tarihi | Submitted on: 29.08.2014

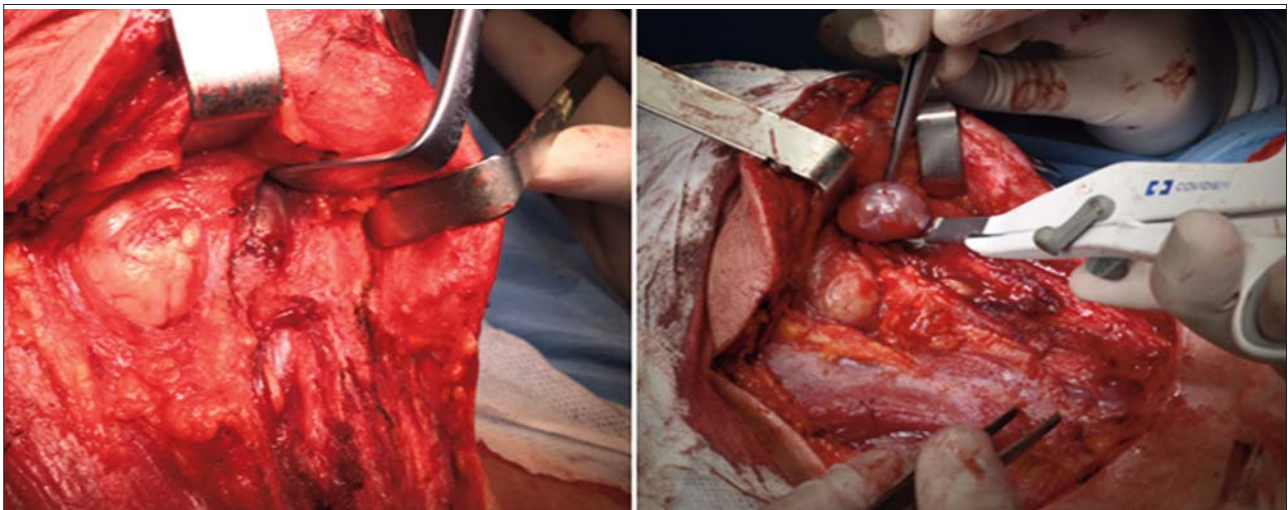
Kabul tarihi | Accepted on: 25.10.2014

Biz total tiroidektomi operasyonu sonrası papiller tiroid karsinomu (PTK) saptanan ve takiplerinde Tg yüksekliği olan, görüntüleme yöntemleri ile TKK içerisinde ek-topik tiroid dokusu tespit edilen bir vakayı sunmayı amaçladık.

Olgu

Beş yıldır multinodüler guatr tanısı olan 40 yaşında bayan hasta kontrol amacıyla kliniğimize yönlendirilmiş. Aktif yakınması olmayan hastanın fizik muayenesinde vital bulguları normaldi. Baş-boyun muayenesinde difüz olarak büyümüş tiroid bezi ile sağ lobta yaklaşık 2 cm boyutunda nodül tespit edildi. Hastanın diğer sistem muayenesine özellik yoktu. Laboratuvar tetkiklerinde; FT3: 3.18 pg/ml (normal: 2-4.2), FT4: 0.83 ng/dl (normal: 0.8-1.8), TSH: 0.65 mIU/ml (normal: 0.55-4.78), anti-TPO ve anti-Tg negatif ve tiroid reseptör antikorları: 12.8 U/L (normal: 9-14) bulundu. Boyun ultrasonografisinde (USG); bilateral tiroid gland ekojenitesi azalmış ve heterojen, en büyüğü sağ lob alt polde 20x10 mm ve sol lob alt polde 11x9 mm olmak üzere isthmusun da dahil olduğu bir çok alanda, kistik nekrotik karakterde, hipoekojen multipl solid nodüller saptandı. İsthmustaki nodülde mikrokalsifikasyon saptanması üzerine yapılan İİAB sonucu folliküler neoplazi şüphesi gelince multinodüler guatr olan hastaya total tiroidektomi uygulandı. Histopatolojik incelemede, tiroid sol lobta tümör boyutu 7,5 ve 2,5 mm olan, 2 odak halinde PTK klasik varyant saptandı ve lenfovasküler invazyonun olmadığı rapor edildi. Levotiroksin verilerek TSH baskılama tedavisi ile takibe alınan hastanın operasyon sonrası 6.haftada istenen laboratuvar testlerinde; FT4: 0.76

ng/dl (normal: 0.7-1.48), TSH: 15.4 mIU/ml (normal: 0.35-4.94), Tg: 119 ng/ml (normal: 1.6-60), anti-Tg: 1.63 I/ml (normal: 0-4) olarak bulundu. Eş zamanlı yapılan boyun USG'de; total tiroidektomili olguda isthmus sağ üst lob bileşkesinde 5x13x17 mm ve sol tiroid lojunda 3x8x10 mm boyutlarında tiroid dokusu izlendi. Tirod sintigrafisinde boyun orta hatta iki odakta bakiye doku ile uyumlu görünüm saptandı. Tamamlayıcı tiroidektomi operasyonu yapıldı. Patoloji raporu, hafif dereceli lenfosittik tiroidit ile uyumlu rejeneratif değişiklikler olarak yorumlandı. Hastanın poliklinik takiplerinde TSH baskılanmasına rağmen Tg düzeylerinin yüksek (106 ng/ml) seyretmesi nedeni ile yapılan kontrol boyun USG'de; isthmus superiorunda 6x6x15 mm boyutunda rezidü tiroid dokusu saptandı. Tiroid sintigrafisinde boyun orta hatta uyan alandaki bakiye doku ön planda tiroglossal kanal kaynaklı ektopik tiroid dokusu olarak değerlendirildi. Hasta tekrar tamamlayıcı tiroidektomi yapılması amacı ile ameliyata alındı. Eski insizyon üzerinden yapılan kesi ile strep kaslar ayrılarak trakea bulundu. Kraniale doğru diseksiyona devam edildi ve tiroglossal kanal bulundu. Lezyon diseke edilmesi ile hyoid kemik altında seyrettiği görüldü. Sistrunk ameliyatı yapılması planlandı. Hyoid kemik korpusu eksize edilerek ektopik gland eksplore edildi ve total olarak çıkartıldı (Resim 1). Histopatolojik incelemede sonucunda; hyoid kemik korpusu, tiroid dokusu ve tiroglossal kanal artığı saptandı. Cerrahiden 6 hafta sonra bakılan Tg seviyesi <1 ng/ml saptanan hastanın sebat eden Tg düzeylerindeki yüksekliğin tiroglossal kanal artığı içindeki tiroid dokusuna bağlı olduğu tespit edildi. Hasta levotiroksin baskılama tedavisi ile takibe alındı.



Resim 1. Tiroglossal duktus

Tartışma

İyi diferansiye tiroid kanserleri tüm primer tiroid kanserlerinin %90'ını oluşturmaktadır. Düşük riskli grupta (cerrahi tam rezeksiyon, iyi histolojik tip, tümör boyutu <1 cm ve N0M0, ailevi tiroid kanseri öyküsü olmaması) yaşam beklentisi oldukça yüksektir. Cerrahi olarak tam rezeksiyon yapıldıktan sonra hastaların, radyoaktif iyot tedavisi verilip verilmediğine bakılmaksızın 6 aylık periyotlarda TSH, Tg, anti-Tg ve boyun USG ile takiplerinin yapılması gereklidir. Bu takipler esnasında boyun USG'de rezidü/nüks lehine bulgu olması durumunda veya USG'de kuşku bulgu saptanmasa bile Tg düzeylerinde yükseklik tespit edildiği zaman ek tetkiklere başvurulmalıdır³. Olgumuzda total tiroidektomi sonrası multifokal, tümör boyutu <1 cm, klasik varyant PTK saptandı. Hastanın takipleri esnasında boyun USG'de rezidü ile uyumlu alan ve sebat eden Tg yüksekliği saptanması üzerine ikinci operasyon uygulandı. Özellikle hiyoid kemik altında tiroglossal kanal içinde bulunan ektoptik dokularda cerrahi prosedüre bağlı olarak rekürrens oranı yüksektir. Olgumuzda da ikinci operasyon sonrası yapılan bakiye kontrolünde boyun USG ve tiroid sintigrafisinde boyun orta hatta uyan alanda bakiye tiroid dokusu ile uyumlu bir alan mevcuttu ve Tg seviyelerindeki yükseklik sebat etmekteydi. Ön planda tiroglossal duktus içinde ektoptik tiroid dokusu olarak değerlendirildi.

Tiroid bezi embriyogenik gelişim döneminde dil kökünde anatomik yerine yedinci haftada göçünü tamamlar ve tiroglossal kanal embriyogenezin 8-10. haftasında obliterasyona uğruyarak kaybolur. Tiroglossal kanal anomalileri, tiroglossal kanalın obliterasyon yetersizliği nedeni ile gelişir. Genellikle kist şeklinde görülmesine rağmen cilde açılarak fistüleze olabilir. TKK'leri boyun orta hatta intralingual, suprahoid, tirohiyoid ve suprasternal olmak üzere dil kökünden suprasternal çentiğe kadar olan alanlarda bulunabilir. Olguların %75'inde boyun orta hatta hiyoid kemik altında saptanır^{4,5}. Her iki cinsiyette eşit görülür. Çocukluk çağında daha sık rastlanmasına rağmen erişkin dönemde görülme oranı %7 olarak bildirilmiştir^{6,7}. TKK'de en yaygın sorun enfeksiyon iken, malign transformasyon nadir olarak görülmektedir. Yapılan çalışmalarda karsinom sıklığı %1-1.3 olarak bildirilmiştir⁴⁸. En sık görülen malignite %75-85 ektoptik tiroid dokusundan kaynaklanan PTK'dır ve kadınlarda daha sık görülür^{9,10}.

Ektoptik tiroid dokusu nadir görülen asemptomatik konjenital bir anomalidir. Prevelansı yüzbin-üçyüzbinde birdir ve kadınlarda daha sık görülmektedir¹¹. Ektoptik tiroid dokusu sublingual, prelarengal ve mediastinal alanlarda, trakea, farenks ve özefagus içinde rapor edilmiştir. Yerleşim yerine ve kitle boyutuna bağlı olarak disfoni, disfaji ve dispne görülebilmektedir¹². Ektoptik tiroid dokusunun oluşumu tam anlaşılmamasına rağmen çe-

şitli genlerdeki mutasyonlar öne sürülmüştür. Tiroid transkripsin faktör 2 (TTF-2), Pax 8 gen mutasyonu ektoptik migrasyon ile ilişkilendirilmiştir¹³. Tiroid sintigrafisi tiroglossal kanal içindeki ektoptik tiroid dokusunu tespit etmek için kullanılabilir. Tiroglossal kanal içindeki ektoptik tiroid dokusunda cerrahi endikasyonları; disfaji, dispne, kanamalar, kontrol edilemeyen hipertiroidizm ve malign transformasyon şüphesidir¹⁴.

Multifokal PTK olan ve radyoaktif iyot almamış olan olgumuza, takipleri sırasında tespit edilen tiroglossal kanaldaki ektoptik tiroid dokusu; hem Tg seviyeleri ile nüks/metastaz takibinin yapılabilmesi hem de ektoptik dokunun malignite riski taşınması nedeni ile tekrar cerrahi operasyon uygulanmıştır. Cerrahi teknik olarak günümüzde en sık Sistrunk ameliyatı uygulanmaktadır. Sistrunk tekniğinde kist ve hyoid kemik gövdesi çıkarılmaktadır¹⁵. Tiroglossal kanal içindeki ektoptik dokunun tek başına eksizyonu veya kistektomi şeklindeki cerrahi prosedürlerin yüksek oranda rekürrense neden olduğu gösterilmiştir¹⁶. Olgumuza da Sistrunk operasyonu uygulanmış olup, takiplerinde Tg seviyelerinin <1 ng/ml olduğu saptanarak levotiroksin ile TSH baskılama tedavisi uygulanarak takibe alınmıştır.

Sonuç

Total tiroidektomi uygulanmış PTK olan hastaların takibinde anti-Tg negatif olmasına rağmen sebat eden Tg seviyelerindeki yüksekliğin nedenleri arasında nadiren de olsa tiroglossal kanal kaynaklı ektoptik tiroid dokusu olabileceği ve bu durumlarda uygulanan Sistrunk cerrahi tekniği ile rekürrens oranının azaltılabileceğini düşünmekteyiz.

Kaynaklar

1. Al-Khateeb TH, Al Zoubi F. Congenital neck masses: a descriptive retrospective study of 252 cases. *J Oral Maxillofacial Surgery* 2007;65:2242-7.
2. Mondin V, Ferlito A, Muzzi E, Silver CE, Fagan JJ, Devaney KO, Rinaldo A. Thyroglossal duct cyst: personal experience and literature review. *Auris Nasus Larynx* 2008;35:11-25.
3. American Thyroid Association (ATA) Guidelines Taskforce on Thyroid Nodules and Differentiated Thyroid Cancer, Cooper DS, Doherty GM, Haugen BR, Kloos RT, Lee SL, Mandel SJ, Mazzaferri EL, McIver B, Pacini F, Schlumberger M, Sherman SI, Steward DL, Tuttle RM. Revised American Thyroid Association management guidelines for patients with thyroid nodules and differentiated thyroid cancer. *Thyroid* 2009;19:1167.
4. Allard RH. The thyroglossal cyst. *Head Neck Surg* 1982; 5: 134- 46.
5. Van Vuuren PA, Balm AJ, Gregor RT, Hilgers FJ, Loftus BM, Delprat CC, et al. Carcinoma arising in thyroglossal remnants. *Clin Otolaryngol* 1994;19:509-15.
6. Telander RL, Deane SA. Thyroglossal and branchial cleft cysts and sinuses. *Surg Clin North Am* 1977;57:779-91.
7. Ellis PD, Van Nostrand AW. The applied anatomy of thyroglossal tract remnants. *Laryngoscope* 1977;87:765-70.
8. Doshi SV, Cruz RM, Hilsinger RL Jr. Thyroglossal duct carci-

- noma: a large case series. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2001;110:734-8.
9. Boswell WC, Zoller M, Williams JS, Lord SA, Check W. Thyroglossal duct carcinoma. *Am Surg* 1994;60:650-5.
 10. Kennedy TL, Whitaker M, Wadiah G. Thyroglossal duct carcinoma: a rational approach to management. *Laryngoscope* 1998;108:1154-8.
 11. Noussios G, Anagnostis P, Goulis DG, Lappas D, Natsis K. Ectopic thyroid tissue: anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity. *Eur J Endocrinol* 2011;165:375-82.
 12. Toso A, Colombani F, Averono G, Aluffi P, Pia F. Lingual thyroid causing dysphagia and dyspnoea. Case reports and review of the literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2009;29:213-7.
 13. Maino K, Skelton H, Yeager J, Smith KJ. Benign ectopic thyroid tissue in a cutaneous location: a case report and review. *J Cutan Pathol* 2004;31:195-8.
- 1- Pelizzo Mr, Torresan F, Grassetto G, Briani G, Marzola Mc, Rubello D. Imaging identifies submandibular ectopic thyroid tissue. *Clin Nucl Med* 2011;36:728-30.
 - 2- Sistrunk WE. The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract. *Ann Surg* 1920;71:121-6 (Abstract).
 - 3- Flageole H, Laberge JM, Ngyuyen LT, Adolph VR, Guttman FM. Reoperation for cysts of the thyroglossal duct. *Can J Surg* 1995;38:225-9.