

DOI:10. 11798/j. issn. 1007-1520. 202005023

· 临床报道 ·

甲状腺乳头状癌合并颈部局灶型 Castleman 病 1 例

隋成秋, 孙 辉, 薛高峰, 张大奇

(吉林大学中日联谊医院 甲状腺外科 吉林省外科转化医学重点实验室 吉林省甲状腺疾病防治工程实验室, 吉林 长春 130033)

摘 要: **目的** 探讨甲状腺乳头状癌(PTC)合并颈部局灶型 Castleman 病 (UCD)的临床诊治经验。**方法** 回顾性分析 1 例 PTC 合并颈部 UCD 的临床病例资料,并检索国内外文献。该患者术前行甲状腺结节穿刺细胞学检查(FNA)倾向 PTC,合并右颈侧区淋巴结肿大,行甲状腺右侧腺叶合并峡部切除及右颈 II、III、IV、VI 区淋巴结清扫术。**结果** 术后切口愈合良好,无声音嘶哑及低钙症状,术后 4 d 治愈出院。术后随访 6 个月无复发。术后病理证实颈侧区肿大淋巴结为 UCD。**结论** PTC 合并 UCD 极为罕见,且 UCD 的术前诊断较为困难,但手术切除多可治愈;PTC 合并颈部淋巴结肿大者,临床医生不仅需考虑甲状腺癌转移淋巴结可能,还需警惕 UCD 的存在。

关 键 词: 甲状腺手术;甲状腺乳头状癌;Castleman 病;肿大淋巴结;颈侧区淋巴结清扫

中图分类号: R739. 91

Papillary thyroid carcinoma with cervical unicentric
Castleman disease: a case report

SUI Chengqiu, SUN Hui, XUE Gaofeng, ZHANG Daqi

(Department of Thyroid Surgery, China-Japan Union Hospital, Jilin University, Jilin Provincial Key Laboratory of Surgical Translational Medicine, Jilin Provincial Engineering Laboratory of Thyroid Disease Prevention and Control, Changchun 130033, China)

Abstract: **Objective** To investigate the clinical diagnosis and treatment of papillary thyroid carcinoma (PTC) with cervical Unicentric Castleman disease (UCD). **Methods** A retrospective analysis was performed on the clinical data of 1 case of PTC with cervical UCD. Then, we searched domestic and foreign literature, and summarized the main points of clinical diagnosis and treatment. The patient underwent preoperative thyroid nodule biopsy cytology (FNA) for PTC with lymph node enlargement in the right cervical region, which was underwent the right thyroid gland lobules and isthmic resection and dissection of lymph node II, III, IV and VI in the right cervical region. **Results** The patient was cured and discharged 4 days after the operation, his wound healed well without symptoms of hoarseness or hypocalcemia postoperative, and no recurrence by followed up for 6 months. Postoperative pathology confirmed that the enlarged lymph nodes in the lateral cervical region for UCDs. **Conclusion** PTC combined with UCD was extremely rare, and preoperative diagnosis of UCD was difficult. But surgical removal can often cure the disease. For patients with PTC combined with cervical enlarged lymph nodes, clinicians should not only consider the possibility of thyroid cancer metastatic lymph nodes, but also be alert to the presence of UCD.

Keywords: Thyroid surgery; Papillary thyroid cancer; Castleman disease; Enlarged lymph nodes; Lateral lymph node dissection

基金项目:吉林省科技发展规划项目基金(20190201225JC);吉林省科学技术厅(20190201275JC);吉林省直卫生专项项目(2018SCZ007)。
第一作者简介:隋成秋,女,在读硕士研究生。
通信作者:张大奇,Email: daqizhang@yeah.net

1 资料与方法

1.1 一般资料

患者,女,28 岁,因“体检发现甲状腺结节 3 个月”入院。该患者既往体健,病程中甲状腺结节无明显增大,于我科门诊行甲状腺右叶结节细针穿刺细胞学检查(fine-needle aspiration, FNA)结果示倾向恶性。为求进一步明确诊治,遂收入我科拟行手术治疗。入院查体:颈前静脉曲张及手术瘢痕,余无异常,甲状腺双叶未触及明显肿物、未闻及血管杂音。双侧颈部及锁骨上区未触及明显肿大淋巴结。颈部超声检查示:甲状腺右叶上极可见一低回声,大小约 0.38 cm×0.49 cm,纵横比>1,边缘不规则,内可见点状强回声<1 mm。甲状腺左叶可见多个混合回声,较大的大小约 0.25 cm×0.20 cm,纵横比<1,边缘光滑,无局灶强回声。峡部未见明显占位性病变。右锁骨上窝可见多个低回声淋巴结,较大的约 2.39 cm×1.42 cm,结构不清;右颈(III、IV 区)可见多个椭圆形淋巴结,较大的约 0.72 cm×0.33 cm,结构欠清。颈部 CT 检查示:双侧甲状腺大小、形态如常,甲状腺右侧叶内可见类圆形稍低密度影,边界不清,直径约 0.4 cm,CT 值约 71 Hu(图 1A);胸廓入口右侧颈动脉鞘内可见团块影,边缘清楚,大小约 2.8 cm×1.4 cm,增强扫描呈明显均匀强化影(图 1B)。术前 FNA 结果示:甲状腺右叶结节,见异型细胞倾向甲状腺乳头状癌;右颈 IV 区淋巴结见大量淋巴细胞未见癌细胞,洗脱液 Tg:6.75ng/mL,外周血 Tg:6.34ng/mL。

1.2 治疗方法

患者入院完善相关辅助检查后行手术治疗。取颈部低领弧形切口长约 6 cm,行甲状腺右叶全切、峡部切除及右 VI 区淋巴结清扫。随后打开右颈鞘,可见术前穿刺的 IV 区淋巴结大小约 3 cm×2 cm,质韧

(图 2),部分向下延伸至静脉角处,与颈内静脉、颈总动脉、迷走神经、膈神经及颈丛神经均粘连较严重,精细化操作将该区域淋巴结与周围组织彻底分离,随后切除右侧 II、III 及 IV 区淋巴结,送病理检查。

2 结果

术后切口愈合良好,无声音嘶哑及低钙症状,术后 4 d 治愈出院。术后随访 6 个月无复发。术后石蜡病理结果:(右叶)甲状腺乳头状癌(直径 0.4 cm)周围呈淋巴细胞性甲状腺炎,(峡部)淋巴结淋巴细胞性甲状腺炎,(中央组)淋巴结未见癌转移(0/10),(右颈 II、III 区淋巴结)淋巴结转移癌(1/12)转移灶最大径 0.3 cm。右颈 IV 区淋巴结未见癌转移(0/2),淋巴结内见较多增生玻变的血管、间质纤维化、淋巴滤泡萎缩,组织学形态符合透明血管型淋巴结 Castleman 病(Castleman disease, CD),见图 3。

3 讨论

3.1 FNA 诊断 CD 的局限性

本病例为甲状腺结节与右颈部淋巴结肿大并存,术前行 IV 区淋巴结 FNA,结果为阴性,洗脱液 Tg:6.75 ng/mL,基本可排除淋巴结转移癌,但 CT 增强扫描提示该淋巴结呈明显均匀强化,符合肿瘤特征,故术中决定将其切除,术后回顾性分析该淋巴结 CT 特征同局灶型 CD(unicentric CD, UCD)在 CT 扫描中常见的高对比度增强和钙化相似^[1],病理证实该淋巴结为 UCD。这一结果表明目前应用 FNA 联合洗脱液检查对诊断 PTC 颈部淋巴结转移具有特异性,但对 UCD 的诊断尚存在一定的困难。UCD 主要取决于组织病理学的特征性改变,包括“洋葱皮样”、“棒棒糖样”外观等^[2],而上述特征在细胞涂片上则无法观察到。另外,CD 的发病率较低,平均为每百万人每年 21~25 例^[3],UCD 更为罕

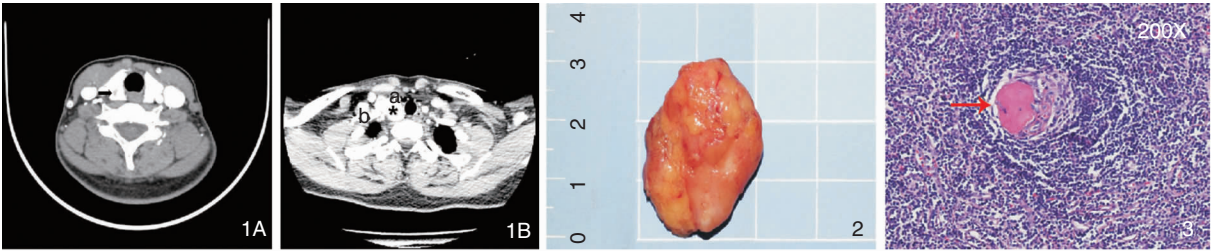


图 1 颈部 CT 扫描图片 1A:显示一个直径约 0.4 cm 左右的类圆形甲状腺稍低密度影(箭头所指);1B:显示右侧颈总动脉(a)及锁骨下动脉(b)夹角处一均匀强化肿物(*) 图 2 CD 标本大小约 3 cm×2 cm 图 3 病理图片示淋巴细胞环绕中心呈层状排列如“洋葱皮样”改变,箭头所指处显示生发中心内血管壁明显的玻璃样变性 (HE ×200)

见^[4],病理医生可能对UCD的细胞形态结构认知存在一定局限性。

3.2 CD的临床特征

CD主要分为两种不同类型,二者除呈现不同的临床病理特征外,其治疗方式也大有不同^[5]:①UCD,病变仅累及单个淋巴结,或至多限于单个区域内的一组相邻淋巴结,病理学通常表现为透明血管变异,常无临床症状,好发于纵隔与头颈部,手术切除多可治愈^[6];②多中心型CD(multicentric CD, MCD)又分为2种,其一为特发性MCD(idiopathic MCD, iMCD),病理学通常表现为浆细胞变异,并存炎症改变、淋巴细胞增殖等,临床上表现为弥漫性淋巴结病,全身症状严重,有时可出现多器官功能障碍,危及生命,对于iMCD来说,完整的手术切除几无可能,而白介素-6(interleukin-6, IL-6)通路则为其主要的治疗靶点^[7];其二为人类疱疹病毒8型(human herpes virus 8, HHV-8)MCD,因HIV感染后HHV-8可诱导浆母细胞引起细胞因子风暴,故其临床表现与iMCD相似,应用利妥昔单抗的靶向B细胞治疗极为有效^[8]。经统计后发现MCD患者的5年总生存率仅为65%,而UCD患者的5年总生存率可达91%,预后较好^[9]。此外,UCD的发病在男女之间并无差异,发病年龄则存在较大差异(3~50岁),大多数UCD患者的好发年龄均为20岁左右^[10],与本例相符。

3.3 颈侧区淋巴结清扫的意义

对于分化型甲状腺癌合并颈侧区肿大淋巴结者,并不主张行预防性颈侧区淋巴结清扫^[11]。回顾本病例的诊疗过程,术前检查可基本排除颈部淋巴结继发性甲状腺转移癌(cN1b期)可能,为排除其他疾病切除该肿大淋巴结送检病理,基于该患者“甲状腺癌”的临床诊断,同时进行了预防性颈侧II、III、IV区淋巴结清扫,结果术后病理证实右颈侧区甲状腺癌转移淋巴结1枚。由此,我们发现,PTC存在潜在的甲状腺癌转移灶。然而,对于潜在淋巴结转移灶的发生率暂无确切数据报道,并且多数学者认为PTC的隐匿性转移并不影响其生存率。但对本例患者来说,此次预防性颈侧区淋巴结清扫则意义重大,不仅手术治疗UCD,达到了满意的治疗效果,同时切除了潜在甲状腺癌转移灶,大大降低了复发的可能。故建议对PTC合并颈侧区异常肿大淋巴结者,进行颈部预防性择区淋巴结清扫,而非单个肿大淋巴结切除。

通过对本例患者的治疗,我们发现:①UCD极为罕见,目前,FNA无法明确诊断,手术切除为主要的治

疗方式,且预后良好;②对于年轻的PTC患者,若影像学提示局部肿大淋巴结,临床医生不仅要考虑甲状腺癌转移可能,还需考虑其他可能造成颈部淋巴结肿大的疾病,特别是罕见疾病;③对于PTC合并颈侧区淋巴结肿大者,建议进行预防性颈部淋巴结择区清扫,而非单个淋巴结切除;④PTC患者行预防性颈侧区淋巴结清扫,可能切除潜在甲状腺癌转移灶,从而降低甲状腺癌的复发率,甚至再次手术的风险,但预防性淋巴结清扫尚存争议,临床医师应慎重选择。

参考文献:

- [1] Haap M, Wiefels J, Horger M, et al. Clinical, laboratory and imaging findings in Castleman's disease- The subtype decides [J]. Blood Rev, 2018, 32(3): 225-234.
- [2] Wu D, Lim MS, Jaffe ES. Pathology of Castleman Disease [J]. Hematol Oncol Clin North Am, 2018, 32(1): 37-52.
- [3] Munshi N, Mehra M, van de Velde H, et al. Use of a claims database to characterize and estimate the incidence rate for Castleman disease [J]. Leuk lymphoma, 2015, 56(5): 1252-1260.
- [4] Wong RSM. Unicentric castleman disease [J]. Hematol Oncol Clinics North Am, 2018, 32(1): 65-73.
- [5] Oksenhendler E, Boutboul D, Fajgenbaum D, et al. The full spectrum of Castleman disease: 273 patients studied over 20 years [J]. Br J Haematol, 2018, 180(2): 206-216.
- [6] Mitsos S, Stamatopoulos A, Patrini D, et al. The role of surgical resection in Unicentric Castleman's disease: a systematic review [J]. Adv Respir Med, 2018, 86(1): 36-43.
- [7] Nishimoto N, Sasai M, Shima Y, et al. Improvement in Castleman's disease by humanized anti-interleukin-6 receptor antibody therapy [J]. Blood, 2000, 95(1): 56-61.
- [8] Bower M, Powles T, Williams S, et al. Brief communication: rituximab in HIV-associated multicentric Castleman disease [J]. Ann Inter Med, 2007, 147(12): 836-839.
- [9] van Rhee F, Greenway A, Stone K. Treatment of idiopathic castleman disease [J]. Hematol Oncol Clinics North Am, 2018, 32(1): 89-106.
- [10] Kligerman SJ, Auerbach A, Franks TJ, et al. Castleman disease of the thorax: clinical, radiologic, and pathologic correlation: from the radiologic pathology archives [J]. Radiographics, 2016, 36(5): 1309-1332.
- [11] 徐震纲, 刘绍严. 分化型甲状腺癌颈侧区淋巴结清扫专家共识(2017版) [J]. 中国实用外科杂志, 2017, 37(9): 985-991.

(收稿日期:2019-12-11)

本文引用格式:隋成秋,孙 辉,薛高峰,等. 甲状腺乳头状癌合并颈部局灶型 Castleman 病 1 例 [J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2020, 26 (5): 584-586. DOI: 10. 11798/j. issn. 1007-1520. 202005023

Cite this article as: SUI Chengqiu, SUN Hui, XUE Gaofeng, et al. Papillary thyroid carcinoma with cervical unicentric Castleman disease: a case report [J]. Chin J Otorhinolaryngol Skull Base Surg, 2020, 26 (5): 584-586. DOI: 10. 11798/j. issn. 1007-1520. 202005023