

Nyelvgyöki daganatot utánzó ritka kórkép: struma lingualis

Boér András, Pólus Károly

Országos Onkológiai Intézet Fej-, Nyak, Állcsont és Rekonstrukciós Sebészeti Osztály, Budapest

A nyelvgyök középvonalaiban a papillae circumvallatae és az epiglottis közt elhelyezkedő ektópiás pajzsmirigy a korai embriogenezis ritka fejlődési rendellenessége. Az elváltozás differenciáldiagnosztikai nehézséget okozhat. Gyakran nyelvgyöki daganatnak tartják. Tünetei idegentest-érzés, nyelési nehézség, légzési panaszok, elkent, nehezen érthető beszéd, ritkán vérzés, esetleg hormonális alulműködés lehetnek. Az általunk kezelt két eset ismertetése során leírjuk a diagnózishoz és a terápiás terv felállításához szükséges klinikai, laboratóriumi, képalkotó vizsgálatokat. Áttekintjük a kezelési lehetőségeket és az általunk választott sebészi eljárást. Az irodalommal egyezően fontosnak tartjuk, hogy csak tüneteket okozó esetekben történjen műtét, melynek során, ha lehetséges, az ép pajzsmirigyállományt vissza kell helyezni a szervezetbe. Mind a panaszmentes, véletlenül felfedezett, mind a panaszokat okozó kezelt esetekben a betegeket követni kell az esetleges késői funkciózavarok miatt. *Magyar Onkológia* 46:347-349, 2002

The ectopic thyroid gland occurring in the midline of the base of tongue is a rare developmental anomaly. It may cause differential diagnostic problems with real malignant tumor. Symptoms, if where are any: foreign-body-feeling, swallowing difficulties, dyspnea, articulation disorders, bleeding and hypothyroidism, but in many cases the diagnosis is accidental. We describe two cases of lingual thyroid gland operated in our department, and discuss the present trends of the treatment of this disease. We agree with most of the authors that only cases presenting with symptoms should be operated, and if possible the normal thyroid tissue should be replaced into the body. However, all discovered cases have to be followed to avoid late hormonal disturbances. *Boér A, Pólus K. Lingual thyroid: A rare disease resembling base of tongue cancer. Hungarian Oncology 46:347-349, 2002*



Bevezetés

A nyelvgyöki struma ritka, kevésbé ismert fejlődési rendellenessége a pajzsmirigynek. A panaszt okozó, elhelyezkedése, tünete, valamint külleme alapján nyelvgyöki daganat gyanúját keltő elváltozással a beteg általában fül-orr-gégészeten vagy szájszészeten jelentkezik. A pajzsmirigyszövet a szokásos praalaryngealis régió helyett a foramen cecum környékén a papillae circumvallatae és az epiglottis lingualis felszín között helyezkedik el (1. ábra).

Az embrionális fejlődés során az elemi szájüregek fenekének az endodermához tartozó legegyszerűsőbb keletkező hámcsap a későbbi foramen cecum, már háromhetes korban megjelenik (14). A pajzsmirigytelep nyakra való süllyedésekor megrekedhet a nyelvgyökön vagy a nyak középső vonalában a nyelvcsont magasságában. Így alakul ki a nyelvgyöki struma ill. a ductus thyreoglossus cysta, melyet középső nyaki cystának is nevezünk.

Az irodalomban 1986-ig Van der Wal (17) összesen 400 esetet talált.

Kóros pajzsmirigyműködés esetén gyakorisága 1:499 (15) és 1:10 000 (19) között fordul elő. Normális pajzsmirigyműködés esetén az incidencia nem ismert, de Baughman (3) egyéb okból elhunytaknál 10%-os panaszmentes előfordulást talált. Nyelvgyöki pajzsmirigy esetén egyéb működő pajzsmirigyszövet 70%-ban sem a nyakon, sem másutt a szervezetben nem található.

Nőkben 2-4-szer gyakoribb az előfordulása (7). Jellegzetes életkor nem határozható meg, kisgyermekkorától időskorig megjelenhet.

Malignus elfajulása rendkívül ritka (4, 7), 4-6%-ban fordul elő (10). Az angol nyelvű szakirodalomban Winslow (20) összesen 27 esetben talált malignus átalakulást.

Esetismertetés

N. A. 25 éves nőbeteg lassan kialakuló nyelési nehézséggel, elkent beszéddel kereste fel más intézet fül-orr-gégészeti osztályát. Kivizsgálás után nyelvgyöki daganat gyanúja miatt altatásban sikertelen próbakivétel végeztek. A beteg ezután jelentkezett intézetünkben. Fizikális vizsgálatkor a nyelv lenyomását követően jól látható volt a nyelvgyök középvonala-

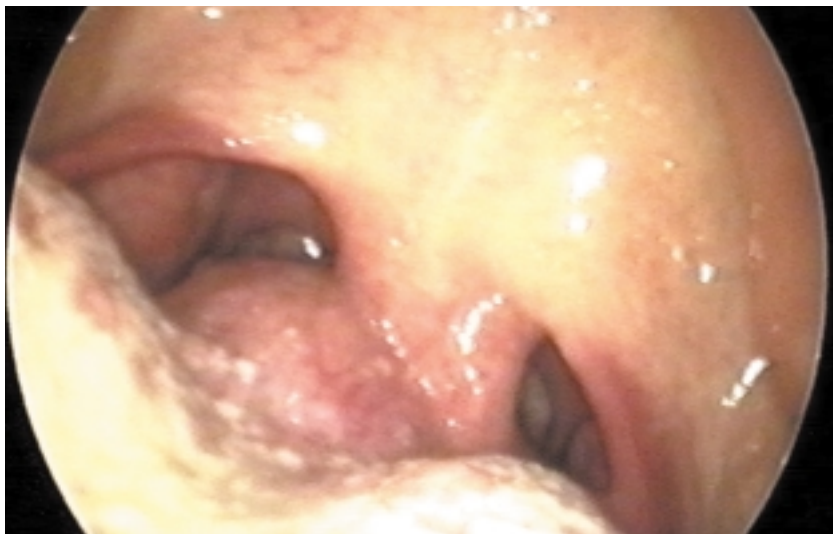
Közlésre érkezett: 2001. április 2.
Elfogadva: 2002. október 8.

Levelezési cím: Dr. Boér András,
Országos Onkológiai Intézet,
1122 Budapest, Ráth György u. 7-9,
Telefon: 224-8600, Fax: 224-8620, e-mail: boer@oncol.hu

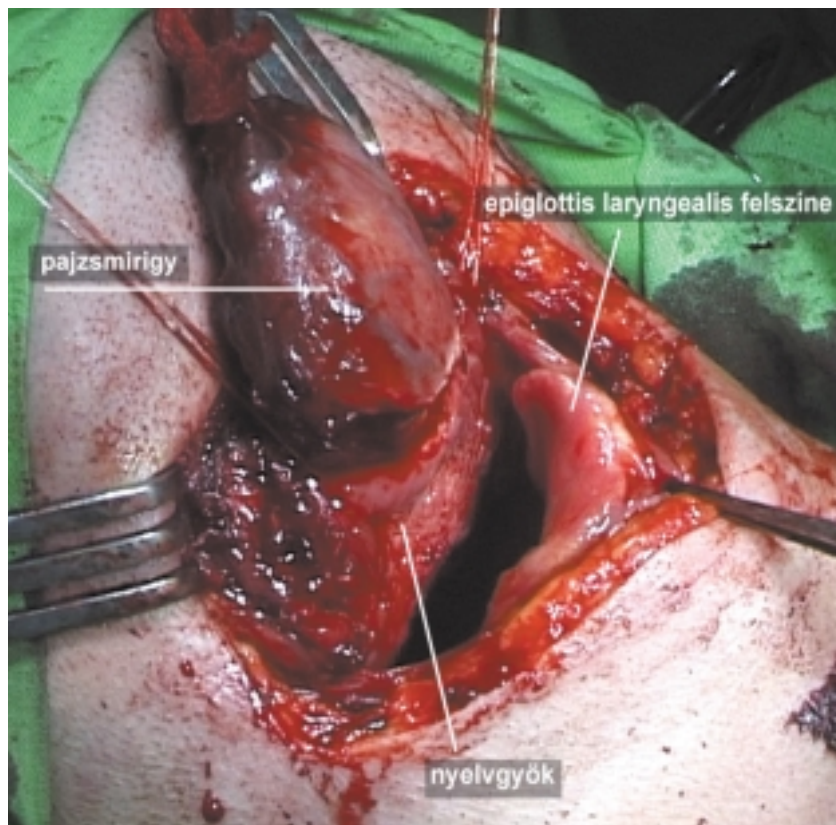
ban 3 cm átmérőjű, ép nyálkahártyával fedett, fokozottan erezett szövetszaporulat. A szájüregben, garatban, gégeben, valamint a nyakon egyéb kóros nem volt észlelhető. Negatív laboratóriumi eredmények mellett az elvégzett 99m Tc-pertechnetát-vizsgálat kizárólag a nyelvgyökön igazolt intenzív izotópfelvételt. Az elvégzett nyaki CT-vizsgálat a nyelvgyökben döntően a középvonalban 3×3×3 cm-es körülírtan halmozó daganatot írt le, a nyak mindkét oldalán számos 1 cm-nél kisebb nyirokcsomóval. A vizsgáló orvos felvetette a lymphoma lehetőségét.

Nasotrachealis intubációval általános érzéstelenítésben transhyoid pharyngotomiát végeztünk. Az ép nyálkahártya alatti tokos pajzsmirigyszövetet eltávolítottuk (2. ábra). A fagyasztásos szövettan maligni-

1. ábra.
Intraoralis felvétel
az uvulát diszlocáló
strumáról



2. ábra. Intraoperatív kép



tást nem igazolt, de a több göbös, kevés ép szövetet tartalmazó strumát a későbbi komplikációk veszélye miatt nem helyeztük vissza a szervezetbe. Réteges sebzárást követően a beteget intubálva az intenzív osztályra helyeztük. Preventív antibiotikus és oedema elleni terápiában részesült. Az oedema csökkenésével a posztoperatív második napon extubáltuk. A beteg rendben gyógyult, jó nyelési funkcióval bocsátottuk el.

Második betegünket, P. L. 43 éves férfibeteget, más intézetben szédüléssel panaszok miatt vizsgálták. Differenciáldiagnosztikai érdekesség, hogy itt a nyelvgyöki elváltozást retenciós cystának tartották. Fizikális vizsgálattal a nyelvgyök középvonalában bőséges felszínű, erezett, tömött tapintatú tumor volt látható. A szájüregben, garatban, gégeben egyéb kórosat nem észleltünk. Negatív laboreredmények mellett az elvégzett pajzsmirigy 99m Tc-pertechnetát-vizsgálat csak a nyelvgyöki régióban igazolt izotópfelvételt. A nyaki CT a nyelvgyökben éles szélű, egyenetlen denzitású, 3 cm átmérőjű tumort írt le egy centiméternél kisebb nyirokcsomókkal.

Intubációs nehézség miatt helyi érzéstelenítésben tracheotomia elvégzésére kényszerültünk, majd transhyoid pharyngotomiát végeztünk. A nyálkahártya alatti tokos képletet in toto eltávolítottuk. Rétegesen zártuk a sebzést és extubálást követően fémkannült helyezettünk a stomába. A műtét utáni 6. napon pharyngocutan sipoly alakult ki, mely konzervatív terápiára két hét alatt záródott. A tokos tumorból fagyasztásos szövettan készült, mely malignitást nem igazolt (3. ábra). Az adenomára való tekintettel anyagot nem használtunk visszahelyezésre.

Mindkét betegünkön tartós hormonpótlásra kényszerültünk.

Megbeszélés

A nyelvgyöki struma sok éven keresztül tünet- és panaszmentes lehet. A betegek leggyakrabban nyelési nehézség, beszédzavar, idegentest-érzés, szájüregi vérzés, fülbe sugárzó fájdalom és légzési panaszok miatt jelentkeznek.

A rendellenes pajzsmirigyszövet elhelyezkedése, az esetek nagy többségében ép nyálkahártyával fedettsége, fokozott erezettsége klinikai gyanút keltethet, melyet biztonsággal Tc-99m vagy J131 izotópvizsgálattal lehet igazolni. A kivizsgáláshoz szükséges a pajzsmirigyhormonszint- (T3, T4) valamint a TSH-vizsgálat. Segítségét nyújthat a nyelvgyöki és nyaki régió CT-, MRI-vizsgálata, valamint a nyaki angiográfia elvégzése. Az elváltozás aspirációs citológiai vizsgálata szintén segíthet a differenciáldiagnosztikában. Szövettani próbakimetszés kockázatos és nem ajánlott a fokozott vérzésveszély miatt.

A nyelvgyöki struma kezelését a méret, a tünetek súlyossága, a pajzsmirigy funkciója és a szövettan határozza meg (8). A kezelés megpróbálható az ektópiás pajzsmirigy funkciójának hormonális visszaszorításával, mely méretcsökkenést eredményezhet, de hosszú távú eredményessége nem mindig észlelhető (5). A panaszokat okozó elváltozást sebészetileg kell ellátni. A sebészeti beavatkozás tervezésekor el kell dönteni a behatolás módját és azt, hogy

az eltávolított ektópiás pajzsmirigy ép részletét érnnyéllel vagy izomnyéllel (9, 13) a nyaki régióba vagy más endokrin szervekhez hasonlóan izomba ültesék vissza, esetleg végleges eltávolítás után hormonpótlást kezdjenek. Számos sebészi eljárást közöltek. A transoralis eltávolítást kisebb elváltozások esetén ajánlják (1). Előnye, hogy nem okoz külső hegeket. Nagyobb struma esetén mandibula osteotomia (16), arteria lingualis ligatura (18) jöhetnek még szóba. Hátrány a feltárás behatároltsága, a vérzések nehézkes ellátása. A nem megfelelő feltárás miatt nem teljes az eltávolítás, és így ismét panaszokat okozva kiújulhat a struma.

Más szerzők nyaki feltárást ajánlanak. Ez lehet suprahyoid, transhyoid (2, 12), és subhyoid (6). A nyaki feltárás ellen érvelők a fertőzésveszélyt, az ideg- és érkepletek sérülését, a kialakuló hegeket és a nyaki sipolyképződést hozzák fel. A nagyobb strumák eltávolításához többen szükségesnek tartják a tracheotomia elvégzését. Mások csak válogatott esetekben ajánlják, amikor tartós oedema várható, de elfogadott a nasotrachealis intubáció utáni 24–48 órás intenzív megfigyelés és az oedema csökkenésével az extubálás.

A transoralis és a nyaki feltárás előnyei kihasználhatóak a két módszer kombinálásával (21).

A pajzsmirigyben termelődő hormonok a szervezet alapanyagcseréjét befolyásolják. Az ektópiás pajzsmirigyet egészében kell eltávolítani, de lehetőség szerint a jobb funkciót eredményező saját hormontermelés biztosítására kell törekedni.

Az eltávolított állomány ép részletét általában a musculus rectus abdominis fasciája alá ültetik be. Az eljárás szövödménye átmeneti hypothyreoidismus, elhalás, tályogképződés lehet, valamint leírtak esztétikai panaszokat is.

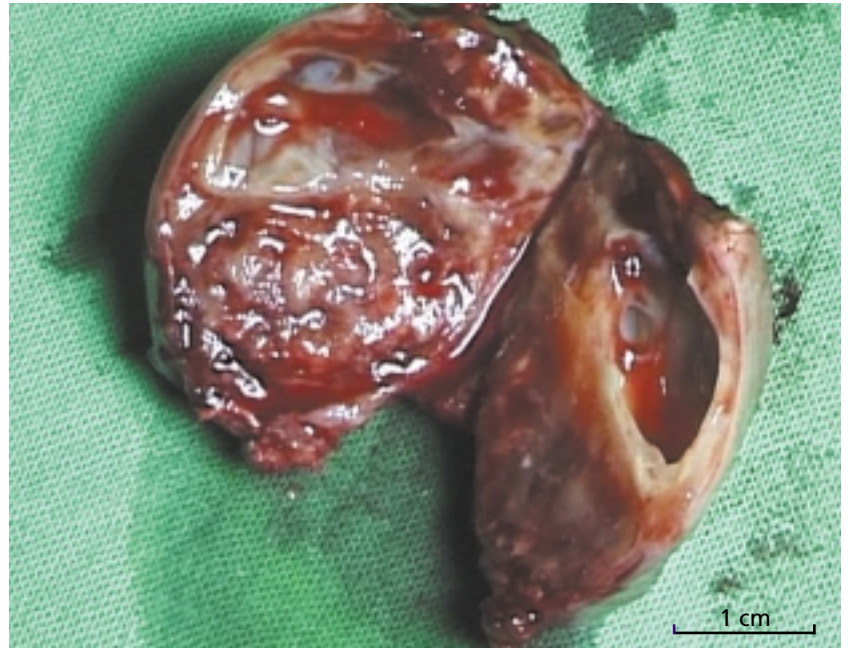
Az ektópiás szövet nyaki régióba való áthelyezését érnnyéllel vagy random vérellátású izomnyéllel is végezték. Ezt az eljárást előnyösebbnek tartják a folyamatos hormontermelés, az áthelyezett állomány életképessége és ellenőrizhetősége miatt.

Alternatív kezelési lehetőség a terápiás dózissú J131-kezelés (11), melynek hátránya a lassú klinikai válasz, a fibrosis, valamint a később kialakuló myx-oedema (7).

Az általunk alkalmazott transhyoid behatolás jó feltárást biztosított. Az ektópiás állomány eltávolítását biztonsággal el lehetett végezni. Két esetünk, valamint az irodalom áttekintése alapján megállapíthatjuk: a panaszokat okozó nyelvgyöki struma ritka, általában jóindulatú elváltozás, mely differenciáldiagnosztikai gondot jelenthet, ezzel veszélyes, nem megfelelő beavatkozásra csábíthatja a gyanútlan operatórt. Belső elválasztású mirigy lévén véletlenül felfedezett, panaszmentes esetben eltávolítása vitatott. Az eltávolítást követően működő pajzsmirigy-szövet visszaültetése javasolt.

Az ellátást végzők tapasztalata az esetek kis száma miatt kevés, ezért feltétlenül szükséges ismertetni őket, hogy minél több esetből lehessen kialakítani az optimális kezelési és követési algoritmust. A felfedezett panaszmentes és panaszokat okozó, kezelt eseteket rendszeresen követni kell a gyakori, évekkel később kialakuló működési zavarok megfelelő ellátása miatt.

3. ábra. Eltávolított struma



Irodalom:

1. Atiyeh BS, Abdelnour A, Haddad FF, Ahmad, H. Lingual thyroid: tongue splitting incision for transoral excision. *J Laryngol Otol* 109:520-524, 1995
2. Bánhidý F. Struma lingualis. *Mschr Ohr hk Wien* 102, 546, 1968
3. Baughman RA. Lingual thyroid and lingual thyroglossal tract remnants – a clinical and histopathologic study with review of the literature. *Oral Surg* 34:781-799, 1972
4. Fish J, Moore RM. Ectopic thyroid tissue and ectopic thyroid carcinoma. *Ann Surg* 157:212-220
5. Gallo WJ, Ellis E. Management of large lingual thyroid in the orthognatic surgery patient. *Oral Surg* 59:344-348, 1985
6. Hilles AD, Black JE. Lingual ectopia of the thyroid gland and autotransplantation. *Br J Surg* 63:924-926, 1976
7. Kamat MR, Kulkarni JN, Desai PB, Jussawalla DJ. Lingual thyroid: a review of 12 cases. *Br J Surg* 66:537-539, 1979
8. Kansal P, Sakati N, Rifai A, Woodhouse N. Lingual thyroid. *Arch Intern Med* 147:2046-2050, 1987
9. Lieberum BW, Cate JF. Diagnostik und Therapie der Zungengrundstruma. *HNO* 44:393-396, 1996
10. Monroe JB, Fahey D. Lingual thyroid. Case report and review of the literature. *Arch Otolaryngol* 101:574-576, 1975
11. Ramos-Gabatin A, Pretorius HT. Radionuclide turnover studies on ectopic thyroid glands. *J Nucl Med* 26:258-262, 1985
12. Réthi A. Die transversale Pharyngotomie als Weg zur Operation der Zungenwurzel und des Kehlkopfes. *Mschr Ohr hk Wien* 82:407, 1948
13. Rojananin S, Ungkanont K. Transposition of the lingual thyroid: a new alternativ technique. *Head Neck* 21:480-483, 1999
14. Szentágothai J. *Functional Anatomy* 3. Kiadás
15. Turot J. Lingual and hyoid thyroid. *Am J Surg* 104:677-681, 1962
16. Vairaktaris E, Semergidis T, Christopoulou P. Lingual thyroid: a new surgical approach: a case report. *J Cranio-maxillofac Surg* 22:307-310, 1994
17. van der Waal N, Weimer JD, van Der Waal J. Lingual thyroid. *Int J Oral Maxillofac Surg* 15:431-436, 1986
18. Weider DJ, Parker W. Lingual thyroid. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 86:841-848, 1977
19. Williams ED, Toyn CE, Harach HR. The ultimobranchial gland and thyroid abnormalities in man. *J Pathol* 159:135-141, 1989
20. Winslow CP, Weisberger EC. Lingual thyroid and neoplastic change: review of the literature and description of a case. *Otolaryngol Head Neck Surg* 117:100-102, 1997
21. Zitsman JL, Lala VR, Rao PM. Combined cervical and intraoral approach to lingual thyroid: a case report. *Head Neck* 20:79-82, 1998