

Tiroglossal duktus kistinden kaynaklanan papiller karsinom

Papillary carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst

Dr. Recep YAĞIZ,¹ Dr. Abdullah TAŞ,¹ Dr. Şemsi ALTANER,² Dr. Ahmet KARASALIHOĞLU¹

Tiroglossal duktus kisti boyun orta hat kitleleri içinde en sık karşılaşılan doğuştan anomalidir. Bu kistten karsinom gelişimi ise nadir olup, en sık histolojik tipini papiller karsinom oluşturmaktadır. Bu yazıda, boyun orta hattında hiyoid kemik hizasında, ağrısız ve yutkunmakla hareketli kitle saptanan 23 yaşında erkek hasta sunuldu. Hastaya tiroglossal duktus kisti öntanısıyla Sistrunk ameliyatı uygulandı. Cerrahi örneğin histopatolojik incelemesi, tiroglossal duktus kistinden kaynaklanan papiller karsinom olarak bildirildi. Ameliyat sonrası dönemde tiroid supresyon tedavisine başlandı. Hasta planlı poliklinik kontrolleri ile 30 aydır hastaliksiz olarak takip edilmektedir.

Anahtar Sözcükler: Papiller karsinom; tiroglossal kist/patoloji/cerrahi; tiroid neoplazileri.

Thyroglossal duct cyst is the most common midline congenital neck anomaly. Carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst is a rare entity, the most common histological type being papillary carcinoma. A 23-year-old male patient presented with a painless mass at the level of the hyoid bone in the midline of the neck. It was mobile on swallowing. With an initial diagnosis of thyroglossal duct cyst, the lesion was removed with the Sistrunk procedure. Histopathological examination of the surgical specimen showed papillary carcinoma arising from the thyroglossal duct cyst. Thyroid suppression therapy was initiated postoperatively. The patient has been under follow-up for 30 months with no recurrence.

Key Words: Carcinoma papillary; thyroglossal cyst/pathology/surgery; thyroid neoplasms.

Embriyonal yaşamda, tiroid bezinin dil kökünden normal anatomik pozisyonuna inişi sonrası tiroglossal duktus (TGD) involüsyona uğrar. Tiroglossal duktusta involüsyon tam gerçekleşmediğinde geride kalan embriyolojik kalıntılardan tiroglossal duktus kisti (TGDK) gelişebilmektedir. Tiroglossal duktus kisti boyun orta hat kitleleri içinde en sık karşılaşılan doğuştan anomalidir.^[1-3] Tiroglossal duktus kistlerinden karsinom gelişimi ise nadir olup, kistlerin yaklaşık %1'inde tespit edilmektedir.^[1,2] Karsinomların en sık histolojik tipini papiller karsinom oluşturmaktadır.

Tiroglossal duktus kistinden kaynaklanan karsinomun, klinik olarak iyi huylu TGDK'den ayrılabilmesi ve ameliyat öncesi malignite tanısının konabilmesi zordur. Bu nedenle karsinom tanısı sıklıkla cerrahi sonrası konur.^[3,4] Tiroglossal duktus kistinin tedavisi için önerilen Sistrunk işlemi^[5] üzerinde tam bir uzlaşma olmasına rağmen, kisten kaynaklanan papiller karsinomun tedavisi tartışmalıdır.

Bu çalışmada, TGDK'den kaynaklanan bir papiller karsinom olgusu nedeniyle literatür bilgileri gözden geçirilerek tedavi yaklaşımları sunulmuştur.

◆ Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, ¹KBB Hastalıkları Anabilim Dalı, ²Patoloji Anabilim Dalı (Departments of ¹Otolaryngology and ²Pathology, Medicine Faculty of Trakya University), Edirne, Turkey.

◆ Dergiye geliş tarihi - 16 Ekim 2004 (Received - October 16, 2004). Düzeltme isteği - 16 Mart 2005 (Request for revision - March 16, 2005). Yayın için kabul tarihi - 29 Mart 2005 (Accepted for publication - March 29, 2005).

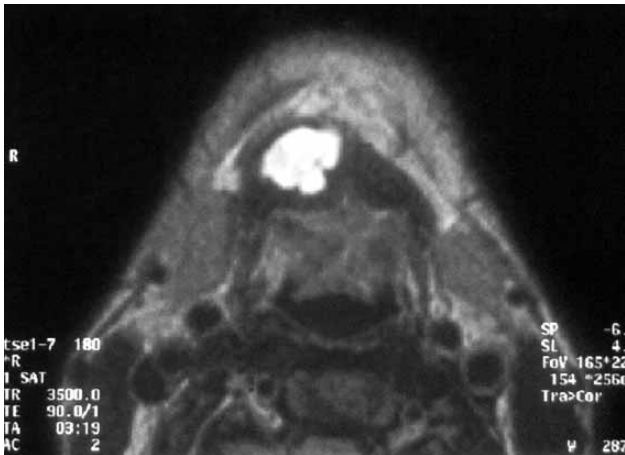
◆ İletişim adresi (Correspondence): Dr. Recep Yağız, Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, 22030 Edirne, Turkey. Tel: +90 284 - 235 76 41 / 1230 Faks (Fax): +90 284 - 235 27 30 e-posta (e-mail): recepyagiz@yahoo.com

OLGU SUNUMU

Yirmi üç yaşında erkek hasta, Mart 2001 tarihinde boyun ön kısmında üç yıldır bulunan şişlik yakınmasıyla başvurdu. Fizik muayenede; boyunda hiyoid kemik hizasında, orta hattın hemen sağında yaklaşık 3x2 cm ölçülerinde ağrısız ve yutkunmakla hareketli kitle tespit edildi. Boyunda patolojik boyutta lenf nodu saptanmadı. Tiroid bezinin ultrasonografik (US) ve sintigrafik incelemesinde; tiroid normal boyutlarda, aktivite dağılımı homojendi ve boyunda patolojik aktivite tutulumu izlenmedi. Manyetik rezonans görüntüleme (MRG), kitlenin orta hattın hafif sağında, düzgün konturlu, multilobüle 2x1 cm boyutlarında, T₂ sekanslarda yüksek sinyal özelliğinde kistik lezyon olduğu görüldü (Şekil 1). Hastaya TGDK ön tanısı ile ameliyat önerildi. Hasta ilk ameliyat önerisinden yaklaşık altı ay sonra, boyun kitlesinde büyüme nedeniyle tekrar müracaat ettiğinde, genel anestezi altında Sistrunk ameliyatı uygulandı. Cerrahi spesimenin histopatolojik incelemesi, kist zemininden kaynaklanan papiller karsinom olarak bildirildi. Hastaya ameliyat sonrası üçüncü ayda, boyun MRG ve tiroid US ve sintigrafi uygulandı. Boyun ve tiroid bezinde patolojik lezyon izlenmedi, tiroid süpresyon tedavisi başlandı. Hasta, üç-altı ay arası poliklinik kontrolleri ve altı ayda bir boyun MRG, tiroid US ve sintigrafi ile takip edilmekte olup, 30 aylık takibini hastaliksız olarak tamamladı.

Patolojik inceleme

Makroskopik incelemede, materyal az miktarda ki kemik dokusuna yapışık, yaklaşık 4.4x2.5x1.5 cm



Şekil 1 - Manyetik rezonans görüntüleme, hiyoid seviyesinde orta hattın hafif sağında, düzgün konturlu, multilobüle 2x1 cm boyutunda, T₂ sekansında yüksek sinyal özelliğinde kistik lezyon görülmekte.

boyutlarında ortası kistik yapıdan oluşmaktaydı. Kist iyi sınırlıydı ve genelde düzgün yüzeyleydi. Kist içerisinde kist lümenine doğru büyüyen 0.9x0.7x0.5 cm ölçülerinde papiller bir alan tespit edildi.

Histolojik incelemede, kalın fibröz yapıda duvara sahip, iç yüzü küboidal ve skuamöz epitelle çevrili kistik yapı görüldü. Kist lümeni buzlu-cam görünümünde nukleuslu tek sıralı epitelle çevrili papiller yapıda tümöral oluşumla doluydu. Tümörde yer yer psammoma cismi yapıları dikkat çekti ve kist duvarında normal tiroid dokusu bulunmaktaydı (Şekil 2). Kist duvarı dışına tümör invazyonu yoktu. Lenfatik ve damar yapıları içinde tümör görülmedi.

TARTIŞMA

Embriyogenезin dördüncü haftasında gelişmeye başlayan ilk endokrin bez olan tiroid bezi, dil kökünden tiroid kıkırdak önündeki bilinen anatomik yerine göçünü yedinci haftada tamamlar. Tiroglossal duktus 8-10. embriyogenез haftalarında involüsyona uğrar ve kaybolur. Bu involüsyon tam gerçekleşmediğinde, TGD kalıntılarından göç yolu üzerinde herhangi bir noktada, sıklıkla da hiyoid kemik ile tiroid bezi arasında TGDK gelişebilmektedir.^[2,3,6] Tiroglossal duktus kisti duvarı silyalı solunum epiteli ve/veya skuamöz epitel ile örtülü olup, olguların %62'sinden fazlasında normal tiroid dokusu içermektedir. Tiroglossal duktus kisti en sık karşılaşılan doğuştan boyun orta hat kitlesi olmasına rağmen, kistten kaynaklanan karsinom gelişimi nadirdir.^[7] Geniş olgulu iki farklı çalışmada,^[1,4] karsinom yaygınlığı sırasıyla %1 ve %1.3 olarak bildirilmiştir. Tiroglossal duktus kisti her iki cinsiyette eşit oranda görülmesine rağmen, karsinom gelişimi kadınlarda 1.6/1'lik bir orantısal üstünlüğe sahiptir.^[2] Tiroglossal duktus karsinomlarının en sık histolojik tipini %75-85'lik oranla papiller karsinom oluşturur.^[8,9]

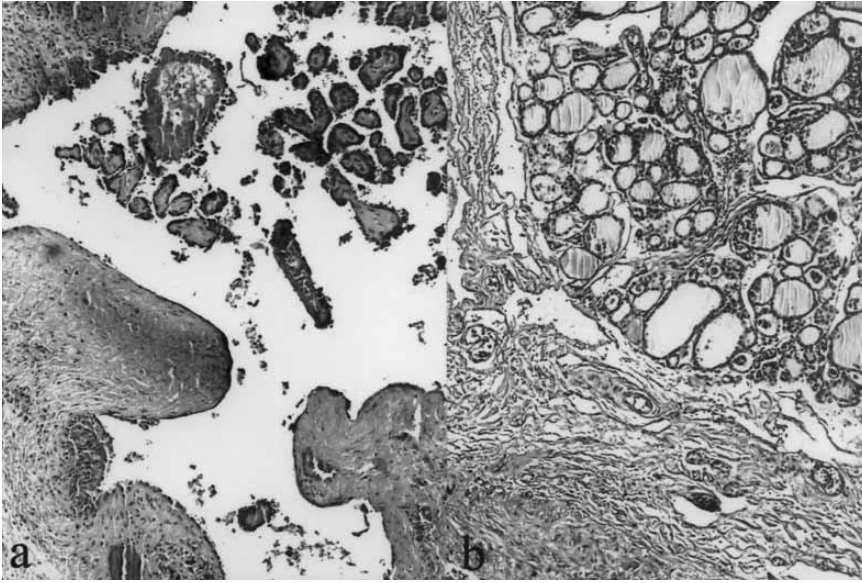
Tiroglossal duktus kistin primer papiller karsinomu tanısı için; kist duvarında skuamöz veya solunum epiteli tabakasının ve normal tiroid foliküllerinin bulunması ve tiroid bezinin klinik olarak normal olması aranan belirli kriterlerdir.^[6,8,9] Bizim olgumuzda, klinik ve radyolojik olarak tiroid bezinin normal olması, cerrahi spesimenin histolojik incelemesinde; kistik lezyonun iç yüzünün küboidal ve skuamöz epitelle çevrili olması ve kist duvarında normal tiroid dokusunun bulunması papiller karsinomun kist zemininden primer olarak kaynaklandığını gösteren bulgulardır. Tiroglossal duktusun iyi huylu kisti ile

karsinom gelişen kistin klinik olarak zor ayırt edilebilmesi nedeniyle, karsinom tanısı sıklıkla cerrahi sonrasına kalır.^[3,4] Ancak, ameliyat öncesi ince iğne aspirasyon biyopsisi (İİAB) ile papiller karsinom tanısının konabileceği,^[10] bilgisayarlı tomografi (BT)^[5,6,11] ve MRG'de^[3] kist içinde solid doku ve BT'de kalsifikasyon bulgularının da iyi huylu TGDK'den ayırıcı tanıda önemli olduğu bildirilmektedir.

Papiller karsinomun TGDK'nin primer lezyonu mu yoksa okült bir tiroid kanserinin yayılımı mı olduğu, bu tümörün kaynağı konusundaki önemli tartışma noktasını oluşturur. Çoğu araştırmacı papiller karsinomların tiroid bezinden metastatik yayılımdan ziyade TGDK'den de novo kaynaklandığına inanmaktadırlar.^[2,4,6] Bu görüşü, olguların %62'sinde normal ektopik tiroid foliküllerinin kist duvarında ve papiller karsinom içeren TGD kalıntılarındaki sıklıkla bulunması gerçeği desteklemektedir.^[7] Ayrıca, tiroidektomi uygulanan TGDK karsinomlu olgularda okült tiroid karsinomu yaygınlığı %11 ile 27 arasında bildirilmiştir.^[9,12] Bu bulgular ile TGDK ve tiroid bezinde senkronize oluşan papiller karsinomlar, metastatik yayılımdan ziyade multifokal primer tümör oluşumu şeklinde açıklanabilir. Ayrıca, TGDK'de medüller karsinomun hiç tespit edilmiş olması da de novo teoriyi desteklemektedir.^[2] Papiller karsinomun okült bir tiroid karsinomunun yayılımı olduğu görüşünü savunanlar, TGD'nin tiroid karsinomunun yayılımı için doğal bir yol olarak rol oynayabileceğine inanmaktadırlar. Bu nedenle klinik olarak tiroid bezinde tespit edilebilen bir lezyon

olmaksızın papiller tiroid karsinomunun yayılım yapabileceği ileri sürülür.^[9,12] Ancak, metastatik yayılım teorisinin dayanağı olan TGD'nin doğal yol rolü, kist içinden tiroid bezine karsinom yayılımında da geçerli olabilir. Özellikle kist duvarını aşarak çevre dokuya invazyon yapmış, 1 cm ve üzerindeki invaziv karakterli büyük tümörler multifokal tümör oluşumu ile sonuçlanabilir.^[8]

Tiroglossal duktus kistin papiller karsinomunda tedavi yaklaşımı da tartışmalıdır. Tümörün kaynağı konusundaki tartışmanın devamı niteliğindedir. Tiroglossal duktusun selim kistlerinde en yaygın yaklaşım; kist ile birlikte hiyoid kemiğin orta parçasının ve duktusun foramen çekuma kadar izlenerek tek blok halinde eksize edilmesi şeklindeki Sistrunk işlemidir.^[5] Kistten kaynaklanan papiller karsinomun tedavisindeki tartışma, sadece Sistrunk işleminin yeterli olup olmayacağı ve tiroid bezi ile ilgili olarak ne yapılacağı konusuna odaklanmaktadır. Kristensen ve ark.^[13] kist duvarında normal ektopik tiroid foliküllerinin bulunduğu, kist duvarını aşan tümör invazyonu veya servikal lenf nodlarına yayılım bulunmadığı ve tiroid bezinin normal olduğu durumlarda Sistrunk işlemini ve ameliyat sonrası dönemde tiroid süpresyon tedavisini önermektedirler. Bu şekilde tedavi edilen papiller karsinomlarda %95'lik bir kür oranının elde edildiği bildirilmektedir.^[2,9,12] Metastatik yayılım teorisini savunanlar kist duvarında tümör invazyonu veya yayılım bulgusu bulunmadığında da total tiroidektomi uzun süreli izlem için önermektedirler. Yakın zamanda, literatürde geniş



Şekil 2 - Küboidal epitelle çevrili tiroglossal kist. (a) Kist içinde papiller karsinom görülmekte (H-E x 100). (b) Kist duvarında normal tiroid dokusu görülmekte (H-E x 50).

bir çalışma (14 olgu) sunan Doshi ve ark.^[4] ise, boyun eksplorasyonu ile şüpheli lenf nodu veya tiroid bezi kitlesinden negatif biyopsi elde edildiğinde sadece Sistrunk ameliyatının yeterli olacağını, pozitif lenf nodu varlığında modifiye boyun diseksiyonunu, tiroid bezinde frozen ile malignite doğrulandığında total tiroidektomiye ilave radyoaktif iyot ile ablasyon ve tiroid süpresyonunu önermektedir. Olgumuzda, kistin iyi sınırlı ve düzgün yüzeyle olması, tümör çapının 1 cm'den küçük olması, kist duvarı dışına tümör invazyonunun olmaması, boyunda klinik ve radyolojik olarak lenfadenopati bulunmaması ve tümörün kist zemininden primer olarak kaynaklandığını gösteren bulgular nedeniyle sadece Sistrunk ameliyatının yeterli olacağını düşündük. Ayrıca, papiller karsinomun tiroid stimulan hormona (TSH) bağımlı olması ve tiroid bezinin potansiyel bir risk altında bulunması nedeniyle hastamıza tiroid süpresyon tedavisi başlanmıştır.

Tiroglossal duktus kistinin hacmi ve kist hacmindeki değişikliklerle karsinom varlığı/gelişimi arasında bir ilişki bulunamamıştır.^[7] Literatürde sunulan kistten kaynaklanan papiller karsinom olguları gözden geçirildiğinde,^[2,4,6,7,9,10,14] tümörün boyutu ile servikal lenf nodu yayılımı ve tiroidin tutulumu arasında, ayrıca lenf nodu yayılımı varlığı ile tiroid tutulumu arasında bir paralellik izlenmemektedir. Bu nedenle, şüpheli bir kist varlığında (klinik, radyolojik veya İİAB bulguları ile) boyun bölgesinin dikkatli bir muayenesi ve radyolojik olarak (US, BT veya MRG) değerlendirilmesi, şüphe varlığında boyun eksplorasyonu ve lenf nodu biyopsisi yapılması, tiroid bezinin sintigrafi, US ve/veya MRG sonucu kitle şüphesinde İİAB, gereğinde cerrahi eksplorasyonla frozen yapılması gerekmektedir. Boyunda pozitif lenf nodu varlığında boyun diseksiyonu, tiroid kitlesinin pozitifliğinde total tiroidektomi uygulanır.

Sonuç olarak, TGDK zemininden kaynaklanan papiller karsinomda, klinik ve radyolojik olarak boyun ve tiroid bezi negatif olduğunda sadece Sistrunk işleminin yeterli olacağına, ancak papiller karsinomun TSH bağımlı olması ve tiroid bezinin po-

tansiyel bir risk altında bulunması nedeniyle tiroid süpresyonunun gerekli olduğuna inanıyoruz. Ayrıca, papiller karsinomun çok yavaş büyüme göstermesi nedeniyle hastaların yakın ve uzun süreli takibi gereklidir.

KAYNAKLAR

1. Allard RHB. The thyroglossal cyst. *Head Neck Surg* 1982;5:134-46.
2. 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.
3. Glastonbury CM, Davidson HC, Haller JR, Harnsberger HR. The CT and MR imaging features of carcinoma arising in thyroglossal duct remnants. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000;21:770-4.
4. Doshi SV, Cruz RM, Hilsinger RL Jr. Thyroglossal duct carcinoma: a large case series. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2001;110:734-8.
5. Sistrunk WE. Technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct. *Surg Gynecol Obst* 1928;46:109-12.
6. Samara C, Bechrakis I, Kavadias S, Papadopoulos A, Maniatis V, Strigaris K. Thyroglossal duct cyst carcinoma: case report and review of the literature, with emphasis on CT findings. *Neuroradiology* 2001;43:647-9.
7. Wigley TL, Chonkich GD, Wat BY. Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1997;116:386-8.
8. Boswell WC, Zoller M, Williams JS, Lord SA, Check W. Thyroglossal duct carcinoma. *Am Surg* 1994;60:650-5.
9. Kennedy TL, Whitaker M, Wadiah G. Thyroglossal duct carcinoma: a rational approach to management. *Laryngoscope* 1998;108(8 Pt 1):1154-8.
10. Yang YJ, Haghiri S, Wanamaker JR, Powers CN. Diagnosis of papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst by fine-needle aspiration biopsy. *Arch Pathol Lab Med* 2000;124:139-42.
11. Branstetter BF, Weissman JL, Kennedy TL, Whitaker M. The CT appearance of thyroglossal duct carcinoma. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000;21:1547-50.
12. Pribitkin EA, Friedman O. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128:461-2.
13. Kristensen S, Juul A, Moesner J. Thyroglossal cyst carcinoma. *J Laryngol Otol* 1984;98:1277-80.
14. Yildiz K, Koksall H, Ozoran Y, Muhtar H, Telatar M. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant with normal thyroid gland. *J Laryngol Otol* 1993;107:1174-6.