

Lingual Tiroidde Disfaji: Olgu Sunumu

Dysphagia Due To Lingual Thyroid: Case Report

Dr. Timur AKÇAM*, Dr. Altan ATALAY*, Dr. Mustafa GEREK*, Dr. Yalçın ÖZKAPTAN*,
*Gülhane Askeri Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı

ÖZET

Yirmi iki yaşında erkek hasta disfaji ve disfoni şikayetleri ile başvurdu. Fizik muayenede dil kökünde 4 cm çapında kitle saptandı. Boyun tomografisi ve magnetik rezonans görüntülemeye tiroid bezinin normal lokalizasyonda bulunmadığı, dil kökündeki kitlenin tiroid dokusu ile uyumlu olduğu saptandı. Bu bulgular tiroid sintigrafisi ile desteklendi. Fiberoptik endoskopik yutma çalışmasında katı gıda alımı sonrası kitle yüzeyinde gıda birikimi olduğu ve hastanın bunu 3-4 yutkunmada temizlediği saptandı. Modifiye baryumlu yutma çalışmasında lateral pozisyonda epiglotun larengeal vestibülü kapatamadığı, gıdanın postkrikoid bölgeden özefagusa ilerlediği ve katı gıdalarda ardışık yutma hareketi ile farenksin temizlendiği gözlemlendi. Postoperatif 10.uncu günde yapılan yutma çalışmalarında tüm gıdalarda yutma normal olarak değerlendirildi.

Anahtar Kelimeler

Yutma, disfaji, lingual tiroid

ABSTRACT

Twenty two-year old male patient presented with complaints of dysphagia and dysphonia. Physical examination revealed a mass of 4 cm in diameter at the tongue base. On the computerized tomography and magnetic resonance imaging of the neck, the thyroid gland was not seen on the normal localization and the mass which was located at the tongue base was compatible with ectopic lingual tissue. These findings were confirmed by thyroid scintigraphy. In fiberoptic evaluation of swallowing, pooling of the bolus was noted due to the mass and the patient clears it after three or four swallowing efforts. Modified barium swallow study in lateral position, revealed that the epiglottis did not cover the laryngeal vestibule, the bolus transmits to the esophagus from postcricoid area, and pharynx cleared after a few concurrent swallowing efforts. On the postoperative 10th day, swallowing studies with all types of food showed normal function.

Keywords

Swallowing, dysphagia, lingual thyroid

Çalışmanın yapıldığı klinik(ler): **Gülhane Askeri Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı**
Çalışmanın Dergiye Ulaştığı Tarih: **22.03.2004** • Çalışmanın Basıma Kabul Edildiği Tarih: **15.06.2004**

Yazışma Adresi

Yrd.Doç.Dr. M. Timur AKÇAM

GATA Kulak Burun Boğaz Anabilim Dalı 06018 Etlik/ ANKARA

Tel: 0 312 304 57 01-304 57 09 GSM: 0 532 694 85 74 Faks: 0 312 321 77 78 E-Posta: Takcam@tnn.net,Takcam@gata.edu.tr

GİRİŞ

Tiroid bezi embriyolojik olarak bir adet medial primordium ve daha küçük bir çift lateral primordiumdan gelişmektedir. Lateral primordium tiroid folliküllerinin oluşumuna katılmayıp, kalsitonin üretimi yapan parafoliküler C hücrelerini oluşturur. Medial primordium birinci ve ikinci farengeal poşlar arasındaki ventral farenksin orta hattında bir endodermal divertikül olarak gelişim gösteren ilk farengeal yapıdır ve gebeliğin üçüncü haftasının sonundan itibaren ayırt edilebilir hale gelir. Bu divertikül lobülenerik iki lob oluşturur ve bu iki lob farenksten kaynaklandıkları yerde tiroglossal kanal adı verilen bir tüp ile birleşir. Tiroglossal kanalın farengeal bağlantısı dil oluşumunun olduğu farenksin ventral yüzündedir. Tiroid primordium, tiroglossal kanalın yolunu takip ederek, gelişmekte olan hyoid kemiğinin önünden geçerek aşağıya iner. Yedinci haftanın sonuna kadar tiroid konsantrik bir şekil alarak gelişmekte olan trakeanın önüne yerleşir. Bu süre içerisinde de kanal lümeni kapanarak sap şeklinde bir bağlantı halini alır ve kanalın farengeal bağlantı noktası dil sırtında sulkus terminalisin tepesinde foramen caecum olarak belirir (13).

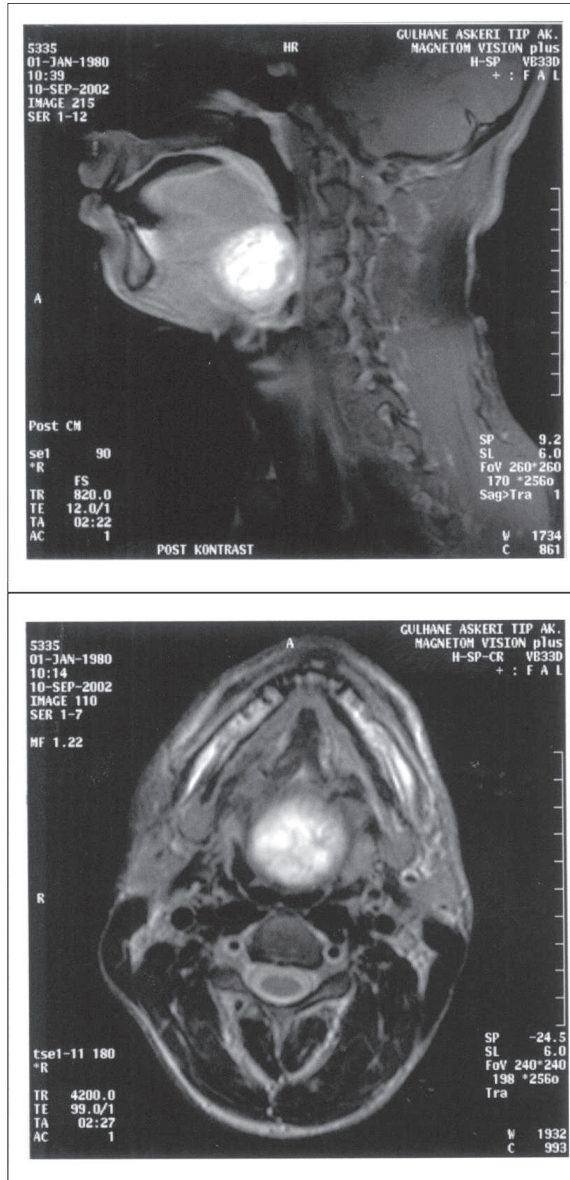
Tiroid dokusunun embriyolojik olarak gelişiminde meydana gelen bozukluklar sonucu olduğu kabul edilen ektopik tiroid dokusunun, dil kökü orta hattında yerleşim göstermesi lingual tiroid olarak adlandırılmaktadır. Lingual tiroid circumvallele papilla ve epiglot arasında herhangi bir yerde bulunabilir. Bu durumun patogenezi henüz açıklık kazanmamakla birlikte, maternal antitiroid immünglobulinlerin glandın normal lokalizasyonuna inmesini durdurabileceği ve hastanın hayatının daha sonraki dönemlerinde tiroid fonksiyonlarının zayıflamasına yol açabileceği ileri sürülmüştür (14).

Kadınlarda görülme sıklığı erkeklere göre 4-7 kat daha fazla bildirilmektedir (6). Lingual tiroid olgularının çoğu asemptomatik seyir gösterir. Özellikle puberte dönemine yakın zamanlarda ve bayanlarda semptomatik olarak ortaya çıkış insidansı artmaktadır. Semptomatik olgularda yerleşim yerinin anatomik öneminden dolayı kitlenin boyutu ile ilişkili olarak disfaji, dispne, disfoni (sıcak patates konuşması) sıklıkla görülebilen semptomlardır. Bu çalışmada disfaji ve disfoni şikayeti olan bir lingual tiroid olgusu sunulmuştur.

OLGU SUNUMU

Yaklaşık 8 yıldır gittikçe artış gösteren ses kalitesinde bozukluk ve yutma güçlüğü şikayeti bulunan 22 yaşında erkek hasta KBB polikliniğine müracaat etti. Hasta boğuk bir ses tonu ile konuşması sebebiyle zaman zaman konuşmasının anlaşılamadığını, son zamanlarda katı gıdaları alırken yutma güçlüğü çektiğini ve boğazında takılma hissi oluştuğunu ifade etmekteydi. Tıbbi hikayesi özellik göstermeyen hasta boğaz ağrısı ve kitleden kaynaklanan kanama tanımlamamıştır. Orofarengeal muayenede dil kökünde küresel görünümüne kitle varlığı saptandı. Kitlenin daha detaylı değerlendirilmesi için yapılan teleskopik muayenede postkrikoid bölge dışında larenksin değerlendirilmesini engelleyen dil kökünden kaynaklı 4 cm çapında, düzgün yüzeyli yüzeyel damarların belirginleşmiş olduğu, yüzeyi sağlıklı görünümde mukoza ile örtülü, nonpulsatil kitle lezyonu izlendi.

Boyun ultrasonografisinde submental bölgede yaklaşık 3,5 cm çapında heterojen ekoda kitle lezyonu izlenirken, tiroid lokalizasyonunda tiroid parankim ekosu izlenmedi. Opaklı boyun tomografisinde ise dil kökü seviyesinden başlayıp orofarenks içine doğru polipoid tarzda uzanım gösteren ve larenks hava sütununu belirgin derecede oblitere eden, aşağı doğru uzanım gösterip, inferior da hiyoid kemik seviyesine kadar uzanan 4x4x5 cm ebadında düzgün kontürlü, santralde nekrozu düşündürülen hipodens alanlar bulunan diğer kesimlerde homojen kontrastlanma gösteren kitle lezyonu saptandı. Tiroid glandın her iki lobu normal lokalizasyonunda izlenmedi. Manyetik rezonans görüntüleme tetkikinde ise dil kökünde vallekülayı ve ariepiglottik alanı doldurarak epiglotu posteriora doğru belirgin şekilde deplase eden ve bu lokalizasyonda hava sütununda daralmaya neden olan, intrinsik dil kasları içine doğru uzanım gösteren 3x4 cm boyutlarında, düzgün kontürlü, T1 ağırlıklı sekanslarda çevre kas grubuna göre heterojen hipointens, T2 ağırlıklı sekanslarda heterojen hiperintens görünümle karakterize, paramagnetik kontrast madde tatbikinden sonra heterojen tarzda yoğun kontrastlanma gösteren kitle lezyonu saptanmıştır. (Resim 1) Tecnesyum-99M ile yapılan tiroid sintigrafisinde boyun orta hatta tiroid loju süperiorunda dil köküne uyan bölgede fokal artmış aktivite tutulumunun izlendiği, tiroid lojunda aktivite tutulumunun izlenmedi-



Resim 1. T1 Ağırlıklı MRG tetkikinde paramagnetik kontrast madde tatbikinden sonra heterojen tarzda yoğun kontrastlanma gösteren kitle lezyonu (a-Sagittal kesit b- Aksiyel kesit)

ği görüldü. Tiroid fonksiyon testlerinde ise serbest T3:3.23 pg/ml (Referans değer=2.3-4.2pg/ml) serbest T4:1.06 ng/ml (Referans değer=0.89-1.76ng/ml), TSH: 7.28 mIU/ml (Referans değer=0.35-5.5 mIU/ml), parathormon düzeyi :25.8 pg/ml (Referans değer=10-71pg/ml) olarak bulundu.

Yutma güçlüğü şikayetini daha iyi değerlendirebilmek için hastaya yutma çalışmaları yapıldı. Fiberoptik endoskopik yutma çalışmasında larenks giri-

şini ileri derecede oblitere eden kitle nedeniyle vokal foldlar, band ventriküller, ariepiglottik plika, ve piriform sinüsler değerlendirilemedi, postkrikoid bölge ve piriform sinüslerin apeksi sağlıklı olarak izlendi. Hastaya sırasıyla gıda boyası ile boyanmış 10'ar mililitrelik sıvı, püre ve katı gıdalar yutturuldu. Sıvı ve püre kıvamlı gıda alımı sonrası görülebilen alanlarda ve kitle yüzeyinde gıda göllenmesi izlenmedi. Sıvı gıdaya karşı aspirasyonu düşündürecek öksürük semptomu izlenmedi. Katı gıda alımı sonrası kitle yüzeyinde gıda birikimi olduğu ve hastanın bunu 3-4 yutkunmada tamamen temizlediği tespit edildi. Ayakta 10'ar mililitrelik sıvı baryumla karıştırılmış sıvı, püre ve katı gıdalar yutturularak yapılan modifiye baryumlu yutma çalışmasında her üç gıda tipinde de oral faz normal olarak değerlendirildi. Farengeal faz ise sıvı ve püre kıvamlı gıdalarda tamamen normal olarak değerlendirildi. Katı gıdalarda ise lateral pozisyonda larenks elevasyonu ve hiyoid kemiğin antero-süperior hareketi normal olarak izlendi, ancak epiglotun larengeal vestibülü kapatamadığı, gıdanın postkrikoid bölgeden özefagusa ilerlediği ve ardışık yutma hareketi ile farenksin temizlendiği gözlemlendi. Yutmanın özefageal fazı ise her 3 kıvamda ki gıdada da normal olarak değerlendirildi.

Kitlenin lokalizasyonu ve boyutları sebebiyle muhtemel obstruktif uyku apnesi varlığını araştırmak üzere hastaya polisomnografi yapıldı ancak uykuda solunum patolojisi saptanmadı.

Hastaya tüm bu bulguların ışığında genel anestezi altında transhyoid insizyon ile kitle eksizyonu yapıldı ve ameliyat sonrası eksizyonel biyopsi noduler ektopik lingual tiroid dokusu olarak rapor edildi. Hastaya levotiroksin replasman tedavisi başlandı. Postoperatif dönemde dil kökünde hava yolunu kapatmayacak düzeyde ödem izlendi. Hasta postoperatif dönemde fistül riskini azaltmak için ve muhtemel disfaji sebebiyle 3 gün nazogastrik olarak beslendi; sonrasında sıvı ve yumuşak gıdalarla oral beslenmeye geçildi. Postoperatif 10. günde fonksiyonel endoskopik yutma çalışması yapıldı ve sıvı, yarı katı ve katı gıdalarla vallekula ve piriform sinüste göllenme, larenkse yönelme ve aspirasyon olmadığı, farenksin normal olarak yutma ile boşaldığı saptandı.

TARTIŞMA

Lingual tiroid, dilin ön üçte iki ve posterior üçte birlik bölümlerin birleşme yerinde en sık görülen

benign kitle lezyonudur (6). İnfant ve çocuk otoposilerinde elde edilen spesimenlerin seri kesitlerinin incelenmesi sonucu %41.3 olguda tiroglossal kanal veya ektoptik tiroid dokusuna rastlanmıştır (9). Williams ve arkadaşları ise ardı ardına yapılan 29000 otopsinin sadece 4'ünde lingual tiroid dokusu saptamıştır (15). İzotopik çalışmalar kişilerin yaklaşık olarak %30'unda tiroglossal kanal boyunca fonksiyon gösteren tiroid dokusu bulunduğunu; ektoptik tiroid dokusu bulunan olguların %70'inde ise tiroid dokusunun tamamen dilde bulunduğu gösterilmiştir. Tüm ektoptik tiroid dokusu vakalarının %90'ı dilde görülmektedir (12).

Ektoptik tiroid dokusu bir çok şekilde bulunabilmekle birlikte, sıklıkla rutin KBB muayenesi esnasında saptanan asemptomatik lingual bir kitledir. Nadiren görülen semptomatik olgularda ise semptomlar orofarengeal obstrüksiyon ile ilişkilidir. Obstrüksiyonun derecesine bağlı olarak değişen derecede disfoni, dispne ve oral beslenmenin bozulduğu veya bozulmadığı disfaji sıklıkla saptanan semptomlardır (12). Bir diğer sık rastlanan semptom ise kitleden kaynaklanan kanamadır (3). Dil kökü seviyesinde hava yolunun obstrüksiyonuna bağlı olarak nadiren obstrüktif uyku apnesine de sebep olabilmektedir (10). Bizim olgumuzda da disfaji ve disfoni temel semptomlar olarak saptanmış, ancak kitlenin yerleşimi ve boyutu obstrüktif uyku apnesi olasılığını kuvvetle düşündürmesine karşın uyku çalışmasında apne saptanmamıştır. Aberran yerleşimli tiroid dokusunda hipertrofinin puberte, gebelik, enfeksiyon ve travma gibi metabolik stresin artması sonucu serum TSH seviyesindeki artıştan kaynaklanabileceği belirtilmiştir (10). Puberte döneminin başlamasıyla birlikte semptomların ortaya çıkışı bu olguda da bu görüşü desteklemektedir.

Lingual tiroid, genellikle dil kökünde tek, yuvarlak, birkaç cm büyüklüğünde, vaskülerize yumuşak doku kitlelesi görünümünde izlenir. Kitleden kanama olduğu takdirde kitle yüzeyinde ülserasyonlar veya kan krutları görülebilir. Boyun ultrasonografisi, boyun BT, boyun MRI ve Tc-99m tiroid sintigrafisi tanıda kullanılabilen radyolojik görüntüleme yöntemleridir. Ultrasonografi ile normal lokalizasyonda tiroid dokusu ve ektoptik tiroid dokusunda kist ve nodül varlığı muayeneyi yapan kişinin bu konudaki tecrübesi ölçüsünde saptanabilir. Bilgisayarlı tomografi incelemesinde tiroid dokusu iodiine içermesinden dolayı kontrast madde enjeksiyonu

olmaksızın kontrastlanma gösterir (5). MRI'da ise normal tiroid dokusu sinyal intensitesi T1 ve T2 ağırlıklı görüntülerde kas dokusundan daha yüksektir. Dil kökünde bu intensite farklılığı ile lingual tiroid ayırt edilebilir. Kalsifikasyonlar ve kistik değişiklikler en iyi T2 ağırlıklı görüntülerde tanımlanır ve sırasıyla düşük ve yüksek intensite alanları olarak görülürler (5,6). Tanı aşamasında kitlenin tiroid dokusu olup olmadığı ve normal yerleşimli fonksiyonel tiroid dokusunun varlığı Tc-99m pertecnetat ile yapılan sintigrafik inceleme ile en doğru biçimde saptanabilmektedir (1).

Oral, farengeal ve özefageal fazlardan oluşan normal yutma fonksiyonun oral fazı ve farengeal fazı dil ve dil kökü patolojilerinden etkilenebilir. Orofarengeal disfajide yutmanın başlatılması veya bolusun ağızdan üst özefagusa aktarılmasında sorun yaşanmaktadır. Dilin fonksiyonel üçte iki ön bölümü yutmanın oral fazı için çok büyük öneme sahip olmakla birlikte, posterior üçte bir bölümünü oluşturan dil kökü de dil-yumuşak damak temasını sağlayarak bolusun farenkse taşınmasına katkıda bulunur (2). Palatoglossal plikalara ulaşan bolus, refleks olarak farengeal fazı başlatarak dil kökünün geriye doğru yükselmesine ve larenksin elevasyonuna sebep olur. Bu esnada arkaya aşağıya doğru hareket eden epiglot üzerinden bolus kayarak priform sinüslere ulaşır. Epiglotun posterior kapanma hareketi bolusu özefagusa yönlendirirken aynı zamanda hava yolunun bolustan korunmasına yardımcı olur. Bu olguda epiglotun posterior kapanma hareketinde lingual tiroidin kısıtlılık oluşturduğu saptanmıştır. Ancak hava yolunun asıl koruma fonksiyonu olan larengeal vestibülün kapanması normal olduğundan aspirasyon semptomları oluşmamıştır. Seri yutkunma yada tekrarlanan yutkunma farenksin tam olarak boşaltılamaması sonucu saptanan bir bulgudur. Genellikle oral ve farengeal kaslardaki zayıflık sonucu patolojik olarak saptanmakla birlikte, çok fazla gıda alınması sonucu normal olarak da görülebilen bir durumdur (7). Lingual tiroid ise katı bolusun mekanik olarak priform sinüse geçişini engellemekte ve bu geçiş ancak tekrarlanan yutmalarla sağlanabilmektedir. Genellikle nörolojik fonksiyonları zayıflamış ya da yutma mekanizmasında koordinasyon bozukluğu olan hastalar sıvı gıdalarda yutma problemleri yaşarken, mekanik obstrüksiyon bulunan hastalar daha çok katı gıdalarda yutma güclüğü yaşamaktadır (8,11). Lingual tiroidin teda-

vi edilmesi bu bulguların normale dönmesini sağlamaktadır. Fiberoptik endoskopik yutma çalışması lingual tiroide olduğu gibi dil kökünde yerleşim gösteren kitlelerde yutmayı kısıtlayan kitlenin anatomik sınırlarının daha iyi değerlendirilmesini sağlamaktadır. Bu çalışma sonucu kitle üzerinde gıdaların takılması direk olarak değerlendirilebilmektedir. Dil kökü ve epiglot hareketini yeterli olarak değerlendirmeyi sağlamamaktadır.

Lingual tiroid saptanan olguların tedavisinin belirlenmesi kitlenin boyutları, lokal semptomların varlığı, hastanın yaşı, tiroid bezinin durumu, ülse rasyon, kanama, kistik dejenerasyon veya malignite gibi birçok faktöre bağlıdır. Klinik semptomların bulunmadığı durumlarda süpresyon tedavisi ile kitlerde yavaş, ancak belirgin bir gerileme elde edilebilir. Cerrahi eksizyon endikasyonları genellikle ciddi veya tekrarlayan hemoraji, disfajiye sebep olan gland büyümesi, belirgin hava yolu darlığı, malignite şüphesi ve disfonidir (3,4). Radyoaktif iyot tedavisi daha çok cerrahiye uygun olmayan yaşlı hastalarda kullanılmaktadır, ve bu tedavi yönteminin genç

hastalarda kullanılması gonadlara ve diğer organlara zarar vereceğinden kontrendikedir (4).

Lingual tiroid cerrahi olarak transoral olarak ya da transhyoid veya lateral pharyngotomi yaklaşımı ile eksternal boyun insiyonu kullanılarak çıkartılabilir. Transoral yaklaşım küçük lezyonların tedavisinde iyi bir tekniktir. Görüşün kısıtlı olması ve yaşamı tehdit edebilecek düzeyde kanama olasılığına karşın kanama kontrolünün her zaman tam yapılabileceği transoral yaklaşımın dezavantajlarıdır. Buna karşın yukarıda bahsedilen diğer girişimlerin tersine boyundaki vital yapıların zedelenme, fistül formasyonu, derin boyun enfeksiyonu riskinin ve görünen skarın daha az olması bu tekniğin avantajlarını oluşturmaktadır.

Sonuç olarak lingual tiroid özellikle katı gıdalarda yutma güçlüğü, takılma hissi gibi disfaji semptomları ve disfoniyeye sebep olabilen nadir bir patolojidir. Cerrahi eksizyon sonrasında bu semptomlar kısa sürede normale dönmekte ve hastanın yaşam konforu hormon replasmanına bağlı olmanın dışında dramatik olarak düzelmektedir.

KAYNAKLAR

1. Aktolun C, Demir H, Berk F, Metin Kir K. Diagnosis of complete ectopic lingual thyroid with Tc-99m pertechnetate scintigraphy. Clin Nucl Med. 26(11):933-5, 2001.
2. Aviv JE. The normal swallow. In Carrau RL, Murry T. Comprehensive management of swallowing disorders. Singular Publishing Group, USA Sayfa 23-30, 1999.
3. Chiu TT, Su CY, Hwang CF, Chien CY, Eng HL. Massive bleeding from an ectopic lingual thyroid follicular adenoma during pregnancy. Am J Otolaryngol. 23(3):185-8, 2002.
4. Gallo A, Leonetti F, Torri E, Manciooco V, Simonelli M, DeVincentiis M. Ectopic lingual thyroid as unusual cause of severe dysphagia. Dysphagia 16(3):220-3, 2001.
5. Guneri A, Ceryan K, Igeci E, Kovanlikaya A. Lingual thyroid: the diagnostic value of magnetic resonance imaging. J Laryngol Otol. 105(6):493-5, 1991.
6. Kalan A, Tariq M. Lingual thyroid gland: clinical evaluation and comprehensive management. Ear Nose Throat J. 78(5):340-1, 345-9, 1999.
7. Perlman AL, Lu C, Jones B. Radiographic contrast examination of the mouth, pharynx and esophagus. In Deglutition and its disorders : anatomy, physiology, clinical diagnosis, and management / edited by Adrienne L. Perlman, Konrad S. Schulze-Delrieu. San Diego : Singular Pub. Group, Chapter 6, sayfa 153-199, 1997.
8. Schindler JS Kelly JH. Swallowing disorders in the elderly. Laryngoscope 112: 589-602, 2002.
9. Sprinzl GM, Koebke J, Wimmers-Klick J, Eckel HE, Thumfart WF. Morphology of the human thyroglossal tract: a histologic and macroscopic study in infants and children. Ann Otol Rhinol Laryngol.;109(12 Pt 1):1135-9, 2000.
10. Taibah K, Ahmed M, Baessa E, Saleem M, Rifai A, al-Arifi A. An unusual cause of obstructive sleep apnoea presenting during pregnancy. J Laryngol Otol.112(12):1189-91, 1998.
11. Taylor J, Tighe JV. A minor salivary gland tumour presenting with dysphagia. J Laryngol Otol 113: 569-572, 1999.
12. Thomas G, Hoilat R, Daniels JS, Kalagie W. Ectopic lingual thyroid: A case report. Int J Oral Maxillofac Surg. 32(2):219-21, 2003.
13. Todd NW. Common congenital anomalies of the neck. Embryology and surgical anatomy. Surg Clin North Am. 73(4):599-610, 1993.
14. Van der Gaag RD, Drexhage HA, Dussault JH. Role of maternal immunoglobulins blocking TSH-induced thyroid growth in sporadic forms of congenital hypothyroidism. Lancet. 1(8423):246-50, 1985.
15. Williams ED, Toyn CE, Harach HR. The ultimobranchial gland and congenital thyroid abnormalities in man. J Pathol. 159(2):135-41, 1989.