

·病例报告·

¹³¹I 治疗先天性甲状腺单叶缺如合并 Graves 病甲巯咪唑治疗后复发一例

常娅妮 刘建中 晋建华

030001 太原, 山西医科大学第一医院核医学科

通信作者: 晋建华, Email: jjh1225@126.com

DOI: 10.3760/cma.j.issn.1673-4114.2018.02.017

【摘要】 笔者报道了 1 例 ¹³¹I 治疗先天性甲状腺单叶缺如合并 Graves 病甲巯咪唑治疗后复发的病例, 从临床症状、血清学化验、甲状腺超声及颈胸部 SPECT/CT 融合显像等方面分析该病例特点, 并通过文献复习加深了对先天性甲状腺单叶缺如合并 Graves 病的认识。甲状腺单叶缺如合并 Graves 病患者在规律口服抗甲状腺药物治疗后出现复发, 应尽早选择 ¹³¹I 治疗。¹³¹I 治疗仍是先天性甲状腺单叶缺如伴 Graves 病甲巯咪唑治疗后复发患者较为理想的方法。

Case of ¹³¹I therapy in a patient with congenital absence of single thyroid gland lobe combined with Graves' disease and recurrence after methimazole therapy Chang Yani, Liu Jianzhong, Jin Jianhua

Department of Nuclear Medicine, First Hospital of Shanxi Medical University, Taiyuan 030001, China

Corresponding author: Jin Jianhua, Email: jjh1225@126.com

【Abstract】 We report a case of ¹³¹I therapy in a patient with congenital absence of single thyroid gland lobe combined with Graves' disease and recurrence after methimazole therapy. We analyzed the characteristics of this case on the basis of clinical symptoms; auxiliary examination, including serological tests, thyroid ultrasound, and SPECT/CT fusion imaging of neck and chest. Understanding about the congenital absence of single thyroid gland lobe combined with Graves' disease was deepened through literature review. ¹³¹I therapy must be employed as early as possible when a patient with congenital absence of single thyroid gland lobe combined with Graves' disease exhibits recurrence after regular oral antithyroid drug therapy. ¹³¹I therapy is still an ideal method for patients with congenital absence of single thyroid gland lobe combined with Graves' disease and recurrence after methimazole therapy.

甲状腺单叶缺如是一种罕见的先天发育异常, 是指甲状腺其中一个叶和(或)峡部未发育, 于 1866 年由 Handfield-Jones 首次描述^[1]。甲状腺单叶缺如通常是被偶然发现的, 发病率为 0.025%~0.16%^[2]。甲状腺单叶缺如可以合并 Graves 病、甲状腺功能减退症、慢性甲状腺炎、甲状腺癌等疾病^[3], 其中以合并 Graves 病最常见。目前对于 ¹³¹I 治疗先天性甲状腺单叶缺如合并 Graves 病的报道很少, 笔者拟通过本病例及相关文献学习加深对先天性甲状腺单叶缺如合并 Graves 病的认识。

1 患者资料

患者女性, 33 岁, 因“心慌、乏力、手颤、消瘦 1 月余”于 2013 年 4 月就诊我院内分泌科。体格检查结果显示: 皮肤潮湿, 突眼(-), 手颤(+), 甲状腺左叶未扪及, 右叶 II 度肿大、质地中等, 心率 110 次/min、心律齐, 双下肢无水肿。患者既往无甲状腺疾病及颈部手术史。该患者在治

疗前签署了知情同意书。

患者实验室检查结果: 血清游离三碘甲状腺原氨酸 (free triiodothyronine, FT₃) 为 40.55 pmol/L (正常参考值 3.1~6.8 pmol/L), 血清游离甲状腺素 (free thyroxine, FT₄) > 100.0 pmol/L (正常参考值 10~23 pmol/L), TSH 为 0.006 μIU/mL (正常参考值 0.27~4.20 μIU/mL), 抗甲状腺球蛋白抗体为 16.85 U/mL (正常参考值 0~115 U/mL), 甲状腺过氧化物酶抗体为 4.68 U/mL (正常参考值 0~34 U/mL); 肝功能及血常规均正常。超声检查: 甲状腺右叶肿大, 回声不均匀, 血流信号丰富, 左叶未探及。临床诊断为甲状腺左叶缺如合并 Graves 病。给予患者甲巯咪唑治疗: 30 mg/d, 3 个月; 20 mg/d, 3 个月; 10 mg/d, 6 个月; 5 mg/d, 4 个月; 2.5 mg/d, 4 个月。治疗 20 个月后, 甲状腺激素水平恢复正常, 停药。停药 7 个月后患者再次出现甲状腺功能亢进症状, 于我院内分泌科复诊, 甲状腺功能化验结果提示甲状腺功能亢进复发, 再次给予甲巯咪唑治疗: 30 mg/d, 3 个月; 10 mg/d,

4个月; 5 mg/d, 3个月; 2.5 mg/d, 2个月。1年后甲状腺激素水平恢复正常, 停药。停药3个月后甲状腺功能亢进再次复发, 内分泌科推荐患者到我院核医学科行¹³¹I治疗。

患者¹³¹I治疗前行常规检查, 甲状腺24h摄碘率为81.8%, 甲状腺⁹⁹Tc^mO₄显像(图1)估算甲状腺质量为23.4g。为进一步明确单叶缺如是否存在异位甲状腺, 行颈胸部⁹⁹Tc^mO₄ SPECT/CT融合显像检查, SPECT示甲状腺右叶及峡部显影, CT示右叶甲状腺增大, 左叶甲状腺缺如, 在扫描范围内未见明确异位甲状腺组织存在(图2)。按照公式¹³¹I治疗剂量(MBq)=甲状腺质量(g)×计划量(MBq/g)/最高摄碘率或24h摄碘率(%)计算治疗剂量^[4], 结合患者病情给予¹³¹I 130 MBq口服治疗。治疗后3个月复查甲状腺功能, 结果为: FT₃为2.44 pmol/L, FT₄为6.44 pmol/L, TSH为2.94 μIU/mL, 促甲状腺素受体抗体为88.71 U/L。有研究显示, 多数Graves甲状腺功能亢进患者¹³¹I治疗后3个月促甲状腺素受体抗体会异常增高^[5]。6个月后再复查甲状腺功能, 结果为: FT₃为9.72 pmol/L, FT₄为23.13 pmol/L, TSH为0.04 μIU/mL, 促甲状腺素受体抗体为381.56 U/L(正常参考值<5 U/L), 因患者甲状腺功能亢进症状较¹³¹I治疗前明显缓解, 甲状腺激素水平下降, 甲状腺功能亢进症状部分缓解, 故行第2次¹³¹I治疗, 治疗前甲状腺24h摄碘率为78.5%, ⁹⁹Tc^mO₄显像估算甲状腺质量为18.1g。因患者病情多次反复, 本次加大¹³¹I治疗剂量, 根据¹³¹I治疗剂量公式及患者病情给予¹³¹I 222 MBq口服治疗。第2次¹³¹I治疗后3个月复查甲状腺功能, 结果为: FT₃为2.0 pmol/L, FT₄为3.0 pmol/L, TSH为104.17 μIU/mL, 结果提示患者发生早发性甲状腺功能减退, 给予口服左甲状腺素钠片(优甲乐)50 μg/d治疗, 第2次¹³¹I治疗6个月后复查甲状腺激素水平恢复正常, 促甲状腺素受体抗体为13.21 U/L, 患者甲状腺功能亢进症状完全缓解。

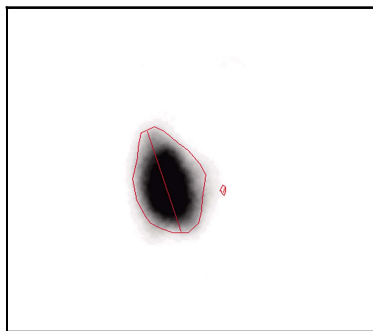


图1 患者女性, 33岁, 先天性左叶甲状腺缺如合并Graves病⁹⁹Tc^mO₄平面显像图 图中, 甲状腺⁹⁹Tc^mO₄平面显像示甲状腺右叶肿大伴摄取能力明显增强, 甲状腺左叶未见显影。甲状腺右叶长轴为6.4 cm, 右叶面积为21.3 cm², 甲状腺质量为23.4 g。

2 讨论

甲状腺单叶缺如的文献报道不多, 合并Graves病的病

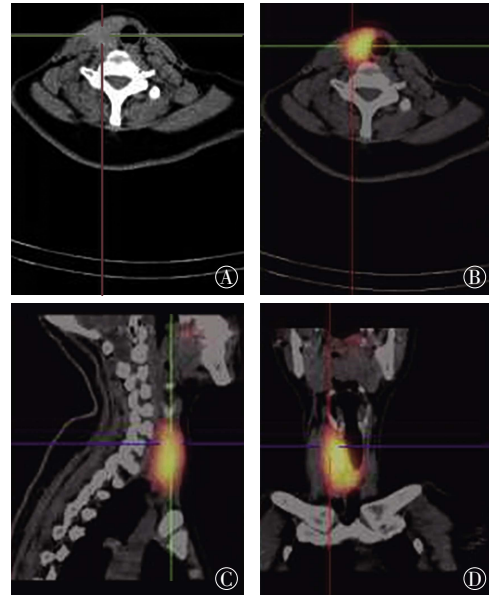


图2 患者女性, 33岁, 颈胸部⁹⁹Tc^mO₄ SPECT/CT断层融合显像图 图中, A: CT横断面图像; B、C、D分别为: SPECT/CT断层融合横断面、矢状断面、冠状断面图像。SPECT示甲状腺右叶及峡部显影, CT示右叶甲状腺增大, 左叶甲状腺缺如, 在扫描范围内未见明确异位甲状腺组织存在。

例报道更少^[6]。甲状腺单叶缺如患者的男女比例为1:3, 左右叶发生比例为4:1^[7]。多数甲状腺单叶缺如患者无明显临床症状, 不易被发现, 仅在合并对侧甲状腺明显肿大或出现甲状腺功能异常时被发现, 或因其他疾病行颈部超声、颈部及胸部CT或MRI检查时偶然发现。

甲状腺放射性核素显像出现单叶显影时, 应首先进行单叶缺如与单叶无功能(常见于单侧甲状腺炎、单侧甲状腺浸润性疾病等)的鉴别。对于单叶缺如, 临床上常用的解剖影像学检查手段(如超声、CT等)即可明确诊断, 而单叶无功能则需功能影像学检查手段(甲状腺放射性核素显像)与解剖影像学检查手段(超声或CT)联合方可明确诊断^[8-10]。单叶缺如合并Graves病时, 需与甲状腺功能亢进单叶受抑制相鉴别, 因为两者在应用¹³¹I治疗时的剂量明显不同, 若单叶受抑制则¹³¹I治疗剂量宜大, 随着亢进的一叶治疗后, 往往受抑制的另一叶功能恢复, 而单叶缺如合并Graves病¹³¹I治疗剂量宜相对保守。本病例结合患者存在典型高代谢症状、甲状腺激素水平、甲状腺超声及颈胸部SPECT/CT融合显像结果, 最终确诊为甲状腺左叶缺如合并Graves病。

甲状腺单叶缺如合并Graves病患者一般以抗甲状腺药物治疗为主, 较少采用¹³¹I治疗或外科手术治疗。本例患者在确诊后行抗甲状腺药物治疗, 但在规范治疗后仍两次复发, 故内分泌科医生推荐使用¹³¹I治疗。在首次¹³¹I治疗时, 考虑到患者甲状腺单叶缺如, 治疗后甲状腺功能减退的概率较大, 故治疗剂量的估算相对保守, ¹³¹I治疗6个月后患者甲状腺功能亢进症状减轻但仍未痊愈, 故行第2次¹³¹I治

疗。考虑患者病程较长,曾用抗甲状腺药物治疗且甲状腺功能亢进反复复发,同时患者急切渴望甲亢早日痊愈后怀孕,本次治疗在常规计算剂量时适当加大治疗剂量, ^{131}I 治疗后3个月复查甲状腺功能,提示患者出现早发性甲状腺功能减退,给予口服左甲状腺素钠片(优甲乐)50 $\mu\text{g}/\text{d}$ 进行治疗, ^{131}I 治疗后6个月复查甲状腺激素水平恢复正常,患者甲状腺功能亢进症状完全缓解。

结合本病例,笔者认为:①甲状腺单叶缺如合并 Graves 病患者在规律口服抗甲状腺药物治疗后若出现复发,应尽早选择使用 ^{131}I 治疗。②对于病程较长、甲状腺质地较硬、抗甲状腺药物治疗后反复复发的患者, ^{131}I 治疗时应加大治疗剂量,争取一次治愈,避免二次或多次 ^{131}I 治疗给患者带来不必要的精神压力和思想负担。③SPECT/CT 融合显像可同时获得甲状腺的解剖和功能影像,可提高对本病诊断的准确性。 ^{131}I 治疗仍是甲状腺先天性单叶缺如伴 Graves 病甲巯咪唑治疗后复发患者较为理想的治疗方法。

利益冲突 本研究由署名作者按以下贡献声明独立开展,不涉及任何利益冲突。

作者贡献声明 常娅妮负责查阅相关文献及论文的撰写;刘建中负责论文的修改与审阅;晋建华负责撰写思路的提出、设计与论文的审阅。

参 考 文 献

- [1] Campenni A, Giovinazzo S, Curtò L, et al. Thyroid hemiagenesis, Graves' disease and differentiated thyroid cancer: a very rare association: case report and review of literature[J]. *Hormones (Athens)*, 2015,14(3):451-458. DOI: 10.14310/horm.2002.1606.
- [2] Tonacchera M, Banco ME, Montanelli L, et al. Genetic analysis of the PAX8 gene in children with congenital hypothyroidism and dysgenetic or eutopic thyroid glands: identification of a novel sequence variant[J]. *Clin Endocrinol (Oxf)*, 2007, 67(1): 34-40. DOI: 10.1111/j.1365-2265.2007.02831.x.
- [3] De Sanctis V, Soliman AT, Di MS, et al. Thyroid hemiagenesis from childhood to adulthood: review of literature and personal experience[J]. *Pediatr Endocrinol Rev*, 2016, 13(3): 612-619. DOI: 10.4084/mjh.20017.001.
- [4] 中华医学会核医学分会. ^{131}I 治疗格雷夫斯甲亢指南(2013版)[J]. *中华核医学与分子影像杂志*, 2013, 33(2): 83-95. DOI: 10.3760/cma.j.issn.2095-2848.2013.02.002. Chinese society of nuclear medicine. Guidelines of ^{131}I therapy in Graves hyperthyroidism(2013 Edition)[J]. *Chin J Nucl Med Mol Imaging*, 2013, 33(2): 83-95.
- [5] 梁雯丽,郑艳,李娜,等. Graves 甲亢患者 ^{131}I 治疗后早期 TRAb 及 TSAb 变化的研究分析[J]. *国际放射医学核医学杂志*, 2016, 40(1): 13-16. DOI: 10.3760/cma.j.issn.1673-4114.2016.01.003. Liang WL, Zheng Y, Li N, et al. Analysis of the changes in early TRAb and TSAb after ^{131}I treatment for patients with Graves hyperthyroidism[J]. *Int J Radiat Med Nucl Med*, 2016, 40(1): 13-16.
- [6] Campenni A, Giovinazzo S, Curtò L, et al. Thyroid hemiagenesis, Graves' disease and differentiated thyroid cancer: a very rare association: case report and review of literature[J]. *Hormones (Athens)*, 2015,14(3): 451-458. DOI: 10.14310/horm. 2002.1606.
- [7] Melnick JC, Stemkowski PE. Thyroid hemiagenesis (hockey stick sign): a review of the world literature and a report of four cases[J]. *J Clin Endocrinol Metab*, 1981, 52(2): 247-251. DOI: 10.1210/jcem-52-2-247.
- [8] Bergami G, Barbuti D, Di MM. Echographic diagnosis of thyroid hemiagenesis[J]. *Minerva Endocrinol*, 1995, 20(3): 195-198.
- [9] Ruchala M, Szczepanek E, Sowiński J. Diagnostic value of radionuclide scanning and ultrasonography in thyroid developmental anomaly imaging[J]. *Nucl Med Rev Cent East Eur*, 2011, 14(1): 21-28. DOI: 10.5603/NMR.2011.0005.
- [10] De Remigis P, D'Angelo M, Bonaduce S, et al. Comparison of ultrasonic scanning and scintiscanning in the evaluation of thyroid hemiagenesis[J]. *J Clin Ultrasound*, 1985, 13(8): 561-563. DOI: 10.1002/1097-0096(199010)13:8<561::AID-JCU1870130808>3.0.CO;2-X.

(收稿日期: 2017-12-09)