

## Wole zamostkowe z towarzyszącym chłonnikiem opłucnowym – opis przypadku

Retrosternal goitre associated with chylothorax: case report

Przemysław Bławat<sup>1,2</sup>, Janusz Kowalewski<sup>1,2</sup>, Maciej Danczewicz<sup>1,2</sup>, Mariusz Bella<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Katedra i Klinika Chirurgii Klatki Piersiowej i Nowotworów Collegium Medicum im. L. Rydygiera w Bydgoszczy Uniwersytetu Mikołaja Kopernika w Toruniu

<sup>2</sup>Oddział Kliniczny Chirurgii Klatki Piersiowej i Nowotworów Centrum Onkologii im. prof. F. Łukaszczyka w Bydgoszczy

Kardiochirurgia i Torakochirurgia Polska 2012; 2: 216–218

### Streszczenie

Wole zamostkowe należy do bardzo rzadkich przyczyn chłonnika opłucnowego. Dotychczas opisano tylko 7 takich przypadków. W niniejszym artykule analizujemy przypadek 75-letniej kobiety z chłonnikiem do prawej jamy opłucnej i zespołem żyły głównej górnej. Powyższe objawy spowodowane były wolem zamostkowym. Trwający przez wiele dni chłonnik powodował u chorej duszność i kaszel, a olbrzymi guz śródpiersia zaciskał żyłę główną górną i przesunął tchawicę oraz duże naczynia odchodzące od łuku aorty. Przyczynę chłonnika potwierdzono klinicznie brakiem retencji chłonnika w opłucnej po radykalnym wycięciu gruczolaka tarczycy. Po zabiegu stwierdzono także stopniowe ustępowanie objawów zespołu żyły głównej górnej. Przypadek ten poddano dyskusji w kontekście opisanego w literaturze zagadnienia.

**Słowa kluczowe:** chłonnik opłucnowy, płyn w jamie opłucnej, wole zamostkowe, guz śródpiersia.

### Wstęp

Chłonnik opłucnowy należy do rzadkości. Po raz pierwszy został opisany przez Bartoleta w 1633 r. [1]. Dotychczas opisano wiele przyczyn chłonnika opłucnowego. Klasycznie dzieli się je na 4 grupy: urazy, nowotwory, choroby nienowotworowe i przyczyny nieznanne [2–6]. Do urazowych przyczyn chłonnika opłucnowego zalicza się przede wszystkim interwencje torakochirurgiczne, natomiast najczęstszą przyczynę nieurazową stanowią chłoniaki [4]. Chłonnik spowodowany wolem zamostkowym opisywany jest w literaturze wyjątkowo rzadko [6]. W niniejszej pracy autorzy przedstawiają przypadek pacjentki z olbrzymim wolem zamostkowym powodującym chłonnik opłucnowy i objawy zespołu żyły głównej górnej.

### Abstract

Retrosternal goitre is a very unusual cause of chylothorax. Until now, to our knowledge, only seven such cases have been reported. In this article, we describe a case of right chylothorax associated with superior vena cava syndrome in a 75-year-old female patient. The above-mentioned symptoms were caused by retrosternal goitre. Chylothorax lasting many days caused a cough and dyspnoea in the patient and a giant mediastinal tumour caused compression of the superior vena cava and displacement of the trachea and aortic arch vessels. The cause of chylothorax was confirmed clinically by no retention of chyle in pleural space after radical excision of thyroid adenoma. After surgical removal, symptoms of superior vena cava syndrome decreased progressively. This case is discussed in the context of the topic described in the literature.

**Key words:** chylothorax, pleural effusion, retrosternal goitre, mediastinal tumour.

### Opis przypadku

Chora, lat 75, zgłosiła się do szpitala z powodu trwającego od kilku miesięcy kaszlu i obniżonej tolerancji wysiłku. Zauważyła stopniowe poszerzanie się naczyń żylnych na szyi i w górnej części klatki piersiowej. Była skutecznie leczona z powodu nadciśnienia tętniczego, nie przebywała żadnych zabiegów operacyjnych i nie doznała w ostatnim czasie jakiegokolwiek urazu.

Przy przyjęciu u chorej zaobserwowano nasilone objawy zespołu żyły głównej górnej, cechy obecności płynu w prawej jamie opłucnej i guzowatą masę po lewej stronie szyi schodzącą za mostek, bez możliwości określenia jej dolnej granicy.

Na standardowym rentgenogramie (RTG) klatki piersiowej potwierdzono obecność płynu w opłucnej prawej, po-

szerzenie górnej części cienia środkowego, a także zwężenie i przemieszczenie tchawicy na stronę prawą. W badaniach laboratoryjnych stwierdzono prawidłowe stężenia hormonów tarczycy i tyreotropiny (ang. *thyroid-stimulating hormone* – TSH).

Pacjentce wykonano diagnostyczną punkcję prawej jamy opłucnej, aspirując 2000 ml mlecznego płynu. W badaniach biochemicznych potwierdzono jego chłonny charakter (c.w. – 1021 g/l, pH – 7,43, białko – 42 g/l, tłuszcz całkowity – 178 mmol/l, cholesterol – 1,81 mmol/l, trójglicerydy – 2,32 mmol/l, wskaźnik cholesterol/trójglicerydy – 0,78, glukoza – 8,1 mmol/l, mocznik – 1,3 mmol/l, limfocyty  $2,2 \times 10^9/l$ ). Ze względu na prawostronną odmě po punkcji do jamy opłucnej wprowadzono dren. W kolejnych dobach stwierdzano stopniowe zmniejszanie się ilości ewakuowanego płynu i rozprężenie płuca prawego, w związku z czym dren usunięto.

W wykonanej tomografii komputerowej (ang. *computed tomography* – CT) klatki piersiowej w górnym śródpiersiu uwidoczniono rozległą masę o wymiarach 93 mm × 83 mm × 90 mm wychodzącą z lewego płata tarczycy i jej cieśni, przemieszczającą na prawą stronę tchawicę i zwężającą jej światło do ok. 7 mm. Obrys zmiany w CT był gładki i wykazywał wyraźne, niejednorodne wzmocnienie po podaniu środka kontrastowego. W centrum zmiany stwierdzono zwapnienia. Wykazano również modelowanie przez guz dużych naczyń odchodzących od łuku aorty (ryc. 1).

Wykonano biopsję aspiracyjną cienkoigłową guza pod kontrolą ultrasonografii, nie uzyskując jednoznacznego wyniku cytologicznego (treść surowiczokrwista z dużą ilością granulocytów).

W celu potwierdzenia charakteru zmiany wykonano scyntyografię tarczycy. Po podaniu znacznika uwidoczniono zamostkowo owalne ognisko gromadzenia jodu o wymiarach ok. 10 cm × 10 cm × 10 cm. Po 24 godzinach od podania izotopu jodochwytność zmiany wyniosła 49%. W obrębie prawego płata tarczycy nie stwierdzono gromadzenia znacznika.

Biorąc pod uwagę prawdopodobnie łagodny charakter histologiczny zmiany z jednoczesną jej kliniczną złośliwo-

ścią (zwężenie dróg oddechowych z dusznością i zespołem żyły głównej górnej) zdecydowano o wykonaniu zabiegu radykalnego usunięcia guza.

Z dostępu szyjnego i drogą podłużnej sternotomii usunięto w całości lewy płatek tarczycy wraz z guzem (ryc. 2). Prawidłowej wielkości prawy płatek tarczycy pozostawiono. Podczas zabiegu otwarto także prawą opłucną i odesano z niej ok. 300 ml mlecznego płynu. Podczas inspekcji jamy opłucnej z pomocą wideoskopu nie zlokalizowano miejsca wycieku chłonki. W prawej jamie opłucnej oraz w łożu po usunięciu guza pozostawiono drenaż. W ostatecznym wyniku badania histopatologicznego wyciętego w całości guza rozpoznano gruczolaka pęcherzykowego tarczycy.

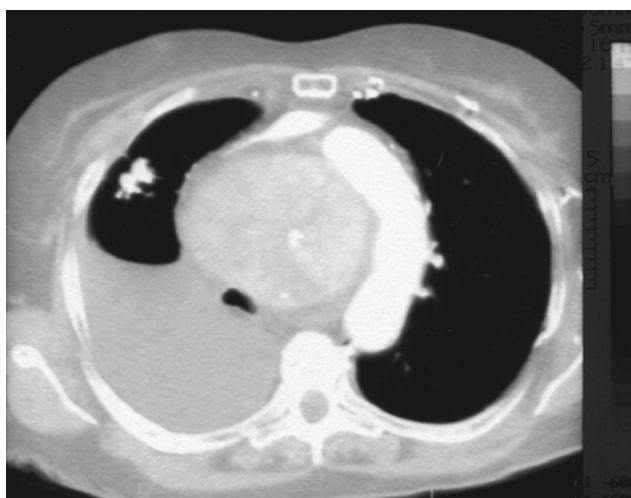
W pierwszych dobach po zabiegu uzyskiwano w dobowym drenażu 400–500 ml surowiczokrwistego płynu, a po 4 dobach od zabiegu ilość płynu zmniejszyła się do 50 ml. Ze względu na brak przecieku powietrza, a także radiologiczne i kliniczne cechy rozprężenia płuc zdecydowano o usunięciu drenów. W kolejnych dniach nie obserwowano nawrotu duszności, a na kontrolnych zdjęciach rentgenowskich klatki piersiowej nie stwierdzano narastania płynu w prawej jamie opłucnej.

Po zabiegu obserwowano stopniowe ustępowanie objawów zespołu żyły głównej górnej. Stężenia hormonów tarczycy, TSH i wapnia po zabiegu chirurgicznym utrzymywały się w granicach normy. W 8. dobie po operacji chorą wypisano do domu w dobrym stanie ogólnym.

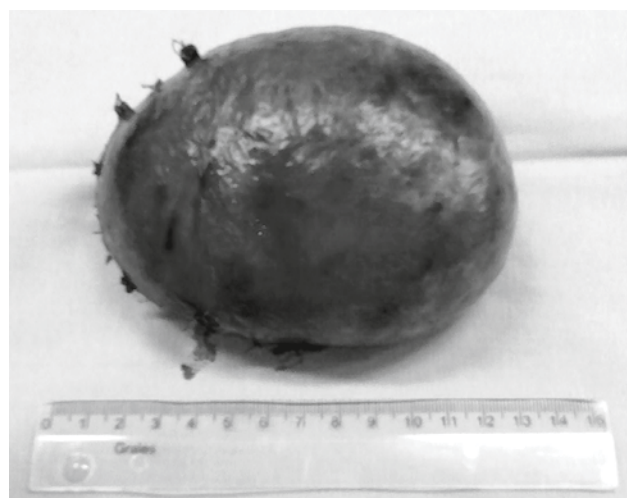
Miesiąc po usunięciu guza chora zgłosiła się na kontrolną wizytę ambulatoryjną. Nie zgłaszała żadnych dolegliwości. Rana zagoiła się prawidłowo. W kontrolnych badaniach RTG klatki piersiowej (1, 3 i 6 miesięcy po zabiegu) nie stwierdzono obecności płynu w jamach opłucnowych.

## Dyskusja

Po raz pierwszy chłonkotok opłucnowy spowodowany wolem zamostkowym został opisany w 1964 r. przez White'a [7]. Dotychczas opublikowano tylko 7 prac, w których



Ryc. 1. Obraz CT klatki piersiowej ukazujący guz śródpiersia



Ryc. 2. Usunięty guz śródpiersia (łac. *adenoma folliculare*)

przedstawiano pacjentów z chłonnokotkiem opłucnowym, którego przyczyną było powiększenie tarczycy.

Wole zamostkowe stanowi bardzo rzadką postać powiększenia tarczycy. Obecność ponad 80% gruczołu za mostkiem stwierdza się u mniej niż 1% chorych operowanych z powodu tego schorzenia [8]. Wole zamostkowe najczęściej występuje u kobiet i w 85–90% znajduje się w śródpiersiu przednim [9].

Duże wole może uciskać i przesuwac tchawicę i duże naczynia odchodzące od łuku aorty jak w opisanym przez nas przypadku. Do objawów związanych z uciskiem dróg oddechowych zalicza się: kaszel, duszność, stridor, a w skrajnych przypadkach śmierć przez uduszenie [9]. Z kolei ucisk na duże naczynia żyłne może skutkować zespołem żyły głównej górnej, żylakami przetyku i powstawaniem powierzchownego krążenia obocznego [9, 10]. U opisywanej pacjentki uciskowa przyczyna zespołu żyły głównej górnej została potwierdzona po całkowitym usunięciu lewego płata tarczycy. Po zabiegu u chorej obserwowano szybkie ustępowanie obrzęku szyi i twarzy, a także zmniejszenie wypełnienia powierzchownych naczyń krążenia żylnego.

Wole może również powodować ucisk przetyku i związane z tym objawy: zaburzenia połykania i krztuszenie się. Większość pacjentów z wolem zamostkowym jest w stadium eutyreozy [7], podobnie jak opisywana w niniejszej pracy pacjentka.

Przy dużej masie guza stwierdza się również objawy ucisku na nerw przeponowy i splot ramienny, opisywano także przypadki wola z towarzyszącym zespołem Hornera [9].

Jak wcześniej wspomniano, chłonnokotek należy do bardzo rzadkich powikłań wola zamostkowego i jest najczęściej spowodowany uciskiem na przewód piersiowy. Wzrost ciśnienia w przewodzie piersiowym doprowadza do jego stopniowego poszerzenia, co skutkuje niewydolnością układu zastawkowego i odpływem wstecznym limfy. Przesączanie chłonki do jamy opłucnej związane jest ze wzrostem ciśnienia hydrostatycznego w przewodzie piersiowym względem jamy opłucnej, a także z rozszczelnieniem lub w skrajnych przypadkach z ciśnieniowym uszkodzeniem przewodu piersiowego lub drobnych naczyń limfatycznych, których ściana zbudowana jest wyłącznie z komórek śródbłonka [5]. Poza jamą opłucnej w pojedynczych przy-

padkach chłonka może gromadzić się również w tkankach śródpiersia i w worku osierdziowym [9].

W leczeniu chłonnokotku opłucnowego stosuje się takie metody, jak: dieta, naprawa miejsca uszkodzonego, podwiązanie przewodu piersiowego, pleurodeza i usunięcie zmiany uciskającej przewód piersiowy [2, 4, 5]. U niektórych pacjentów leczenie farmakologiczne lub za pomocą radioaktywnego jodu  $^{131}\text{I}$  doprowadza do zmniejszenia masy guza, zniesienia jego ucisku na struktury śródpiersia i okazuje się wystarczające do ustąpienia chłonnokotku [8].

Zarówno w naszej obserwacji, jak i w innych opisanych w piśmiennictwie przypadkach [6, 9, 10] czysto mechaniczny charakter chłonnokotku opłucnowego został potwierdzony brakiem retencji płynu w jamie opłucnej po usunięciu wola. Należy przy tym zaznaczyć, że interwencja chirurgiczna dotyczyła wyłącznie resekcji guza, nie ingerowała natomiast w przewód piersiowy.

Opisany przypadek pokazuje rzadką przyczynę chłonnokotku opłucnowego, którą trzeba mieć jednak na uwadze, gdyż istnieje skuteczne leczenie przyczynowe takiego chłonnokotku.

#### Piśmiennictwo

1. Bower GC. Chylothorax: observations in 20 cases. *Dis Chest* 1964; 46: 464-468.
2. Riquet M, Assouad J, Le Pimpec Barthes F. Traitement du chylothorax. *EMC-Chirurgie* 2004; 662-681.
3. Nair SK, Petko M, Hayward MP. Aetiology and management of chylothorax in adults. *Eur J Cardiothorac Surg* 2007; 32: 362-369.
4. Butscher K, Charpentier C, Audibert G, Grosdidier G, Laxenaire MC. Chylothorax après traumatisme fermé du thorax. *Ann Fr Anesth Reanim* 1996; 15: 185-188.
5. Valentine VG, Raffin TA. The management of chylothorax. *Chest* 1992; 102: 586-591.
6. Velmans N, Hachulla E, Proye C, Grobois IM, Rémy J. [Lymphatic duct compression by an endothoracic goiter: an exceptional observation]. *Rev Med Interne* 2000; 21: 112-113.
7. White AG. Chylothorax due to toxic thyroid adenoma. *Proc R Soc Med* 1964; 57: 1131-1132.
8. Hiroi N, Sakamoto Y, Urita Y, Higa M, Kuboki K, Yoshino G. Graves' disease with intractable diarrhea, chylous ascites, and chylothorax: a case report. *Thyroid* 2007; 17: 1299-1303.
9. Jonklaas J. Lymphatic compromise associated with substernal goiter. *Am J Med* 1998; 105: 349-352.
10. Delgado C, Martin M, de la Portilla F. Retrosternal goiter associated with chylothorax. *Chest* 1994; 106: 1924-1925.