



## Wole Riedela — rzadka i trudna diagnostycznie przyczyna chirurgicznego leczenia wola

Riedel's goitre — rare and difficult to diagnose reason for surgical treatment of goiters

Grzegorz Buła, Witold Truchanowski, Jacek Gawrychowski

Katedra i Oddział Kliniczny Chirurgii Ogólnej, Śląski Uniwersytet Medyczny, Bytom

### Streszczenie

**Wstęp:** W pracy przedstawiono opis przypadku chorej leczonej operacyjnie z powodu wola Riedela. W okresie od 01.01.2000 roku do 31.12.2007 roku operacyjnie leczono 4775 chorych z powodu różnych postaci wola. Zapalenie tarczycy rozpoznano u 193 (4,0%) z nich, z czego u jednej chorej (0,5%) stwierdzono wole Riedela.

**Opis przypadku:** Chorą (P.G.) w wieku 51 lat (historia choroby nr 1377/2007) przyjęto do kliniki z powodu znacznego stopnia duszności wdechowo-wydechowej z zaznaczonym stridorem i rozpoznany wolem zamostkowym, podejrzanym o proces nowotworowy. Gruczoł tarczowy był twardy, schodzący lewym płatem poza mostek. Nie stwierdzono zaburzeń czynności hormonalnej tarczycy, ani podwyższonego miana przeciwciał przeciw peroksydazie tarczycowej. Badanie USG wykazało powiększoną tarczycę z naciekiem śródpiersia, przebudowaną guzkowo, hipoechogeniczną. Biopsja cienkoigłowa przemawiała za guzem koloidowym tarczycy. Badanie radiologiczne klatki piersiowej i szyi wykazało poszerzenie cienia górnego śródpiersia i zwężenie tchawicy. Za pomocą badania laryngologicznego stwierdzono porażenie lewego fałdu głosowego. Chorą operowano w znieczuleniu ogólnym dotchawiczym. Dokonano częściowego wycięcia obydwu płatów tarczycy wraz z cieśnią i odbarceniem zmienionej malacyjnie tchawicy. Przebieg pooperacyjny był bez powikłań. W badaniu histopatologicznym potwierdzono istnienie wola Riedela. Chorą wypisano do domu w stanie ogólnym dobrym, pozostawała pod stałą kontrolą ambulatoryjną — zmarła 1,5 roku po operacji z powodu postępującej niewydolności oddechowej, będącej wynikiem choroby.

**Wnioski:** Przebieg kliniczny wola Riedela może stwarzać znaczne trudności diagnostyczne i wymaga różnicowania z nowotworem złośliwym tarczycy. Leczenie chirurgiczne wola Riedela pozwala na szybkie rozwianie wątpliwości diagnostycznych, poprawę stanu klinicznego i komfortu życia chorych. (*Endokrynol Pol* 2009; 60 (6): 488–491)

**Słowa kluczowe:** zapalenia tarczycy, wole Riedela, nowotwory tarczycy

### Abstract

**Introduction:** The paper reports a female patient treated surgically for Riedel's goitre. A total of 4775 patients were treated surgically between 1 January 2000 and 31 December 2007 for various types of goiters. Thyroiditis was diagnosed in 193 (4.0%) cases. Among them Riedel's goitre was found in one (0.5%).

**Case report:** A 51-year-old woman P.G. (case record No. 1377/2007) was admitted to our hospital with considerable dyspnea, both inspiratory and expiratory, accompanied by marked stridor and retrosternal goitre, the latter suspected of neoplastic process. Thyroid gland was hard, its left lobe extending behind the sternum. No disorders in thyroid hormonal function or high antibody titre against thyroid peroxidase were observed. Ultrasonography revealed large thyroid gland with mediastinal invasion, nodulated and hypoechogenic. Fine-needle biopsy suggested thyroid colloid tumor. X-ray of the chest and neck revealed wide upper portion of the mediastinum and narrow trachea. Laryngological examination confirmed paralysis of left vocal fold. The patient was operated under general endotracheal anesthesia. Both thyroid lobes were partially resected together with the isthmus, and malacic trachea was decompressed. No complications were observed during postoperative period. Paraffin histopathological examination confirmed the presence of Riedel's goitre.

The patient was discharged in general good condition. She was under regular follow-up control and died 1.5 year after operation from further progress of the disease.

**Conclusions:** Clinical course of Riedel's goitre may cause remarkable diagnostic problems, and requires a differentiation with thyroid malignant tumor. Surgical treatment of Riedel's goiters helps to quickly obtain correct diagnosis and improve both clinical condition and life comfort of the patients. (*Pol J Endocrinol* 2009; 60 (6): 488–491)

**Key words:** thyroiditis, Riedel's goitre, thyroid cancers



Dr n. med. Grzegorz Buła, Oddział Kliniczny Chirurgii Ogólnej SUM, ul. Batorego 15, 41-902 Bytom, tel.: 032 786 15 15; faks: 032 786 15 18, e-mail: gregor6007@onet.eu

## Wstęp

Spośród wszystkich postaci zapaleń tarczycy wole Riedela, zwane też wolem drewnowatym bądź naciekającym, rozpoznawane jest niezmiernie rzadko [1–3]. Ze względu na przebieg kliniczny i jego etiopatogenezę chorobę tę zalicza się do grupy przewlekłych, nieropnych zapaleń tarczycy [2, 3]. Mimo znacznego postępu wiedzy medycznej i metod diagnostycznych choroba stwarza nadal znaczne trudności rozpoznawcze i lecznicze, często wymagając różnicowania z rakiem tarczycy [4–7].

Celem pracy jest przedstawienie opisu przypadku chorej leczonej operacyjnie z powodu wola Riedela.

W okresie od 01.01.2000 roku do 31.12.2007 roku z powodu różnych postaci wola operacyjnie leczono 4775 chorych. Zapalenia tarczycy rozpoznano u 193 (4,0%) z nich, z czego u jednej chorej (0,5%) stwierdzono wole Riedela.

## Opis przypadku

Chorą (P.G.) w wieku 51 lat (historia choroby nr 1377/2007) przyjęto do kliniki z powodu znacznego stopnia duszności wdechowo-wydechowej z zaznaczonym stridorem i radiologicznie rozpoznany wolem zamostkowym, podejrzanym o proces nowotworowy.

W badaniu przedmiotowym stwierdzono powiększenie obwodu szyi z wyczuwalnym w rzucie tarczycy oporem odpowiadającym powiększonym płatom gruczołu, wielkości  $7 \times 4$  cm (prawy) i  $10 \times 6$  cm (lewy). Spoistość gruczołu była wzmożona, płat lewy twardy, schodzący poza mostek. Okoliczne węzły chłonne były niepowiększone. Osłuchowo nad tchawicą był słyszalny odgłos krtaniowy. Fonacja była matowa z towarzyszącą chrypką. Płuca były bez cech zastoju, szmer pęcherzykowy, symetryczny. Akcja serca była miarowa 88 uderzeń na minutę, tony czyste, wartości ciśnienia tętniczego wynosiły 120/70 mm Hg, nie było obrzęków na obwodzie. W zakresie jamy brzusznej w badaniu przedmiotowym nie stwierdzono odchyleń od normy.

Nie stwierdzono zaburzeń czynności hormonalnej tarczycy. Stężenia hormonów tarczycy w surowicy krwi, oznaczane metodą elektrochemiluminescencji „ECLIA” firmy Roche Diagnostics GmbH, były w normie i wynosiły: wolnej trijodotyroniny —  $fT_3 = 4,3$  pmol/l (norma: 3,08–6,79 pmol/l); wolnej tyroksyny —  $fT_4 = 14,9$  pmol/l (norma: 11,99–22,01 pmol/l); tyreotropiny — TSH (*thyroid stimulating hormone*) = 0,88 mjm./l (norma: 0,27–4,2 mjm./l). Miano przeciwciał przeciw peroksydazie tarczycowej TPO-ab, oznaczanych również metodą elektrochemiluminescencji „ECLIA” firmy Roche Diagnostics GmbH, wynosiło 5,07 jm./ml (norma < 34). Stężenie antygenu rakowo-łożniowego CEA wynosiło 3,2 ng/ml.

Stężenie wapnia zjonizowanego  $Ca^{2+}$  w surowicy krwi wynosiło 0,98 mmol/l (norma: 1,00–1,28 mmol/l). W badaniu morfotycznym krwi obwodowej stwierdzono zawartość: leukocytów  $12,0 \times 10^3$ /ul (norma:  $4-10 \times 10^3$ /ul); erytrocytów —  $5,14 \times 10^6$ /ul (norma:  $4,0-5,2 \times 10^6$ /ul); płytek krwi —  $436 \times 10^3$ /ul (norma:  $150-400 \times 10^3$ /ul); hemoglobiny — 15,3 g/dl (norma: 12–16 g/dl); hematokrytu — 44,8% (norma: 36–47%). Odczyn Biernackiego wynosił 17 mm/h.

W badaniu ultrasonograficznym (USG) stwierdzono znaczne powiększenie gruczołu tarczowego z obecnością nacieku na duże naczynia szyjne i śródpiersie górne, szczególnie po stronie lewej. Płat lewy gruczołu schodził nisko poza mostek, jego dolny biegun był niemożliwy do oceny. Miąższ gruczołu w całości był przebudowany guzkowo, hipoechogeniczny. Ocena cytologiczna materiału pozyskanego drogą biopsji cienkoigłowej przemawiała za guzem koloidowym tarczycy.

W badaniu radiologicznym klatki piersiowej stwierdzono: pola płucne bez zmian ogniskowych, poszerzenie cienia śródpiersia w jego części górnej, sylwetkę serca prawidłową. Stwierdzono zwężenie tchawicy na wysokości jej wejścia do klatki piersiowej z zarzucaniem kontrastu do dróg oddechowych w trakcie skopii. Badanie kontrastowe przełyku nie wykazało odchyleń. Wykonana spiralna tomografia komputerowa klatki piersiowej i śródpiersia z podaniem kontrastowym potwierdziła obecność w śródpiersiu górnym zmiany guzowatej o niskiej gęstości, wychodzącej najpewniej z lewego płata tarczycy, sięgającej łuku aorty i naciekającej na tętnicę szyjną wspólną lewą i tętnicę podobojczykową lewą. Guz, uciskając tchawicę na poziomie Th3–4, powodował krytyczne przewężenie jej światła do 0,5 cm na odcinku długości około 1 cm. Miąższ tarczycy miał charakter guzkowaty. Innych zmian nie stwierdzono.

Konsultacja laryngologiczna wykazała porażenie lewego fałdu głosowego, co potwierdzono podczas fibrolaryngotracheoskopii, nagłośniowa była niezmiennona. Fałdy głosowe były równe, blade, lewy w ustawieniu przyśrodkowym, nieruchomy. Chrzóstka nalewkowata lewa była przesunięta ku przodowi. Ruchomość prawej połowy krtani była zachowana, a okolica podgłośniowa niezmiennona. Poniżej stwierdzono klepsydrowate zwężenie tchawicy (ściany przedniej i bocznych), obejmujące prawie całą jej długość, w najważniejszym miejscu dochodzące do średnicy około 0,5 cm. Światło tchawicy ulegało poszerzeniu nad rozwidleniem. Śluzówka tchawicy była przekrwiona, gładka.

Po kwalifikacji internistycznej chorą operowano dnia 12 października 2007 roku w znieczuleniu ogólnym dotchawicznym. Dokonano częściowego wycięcia obydwu płatów tarczycy wraz z cieśnią i odbarczeniem zmienionej malacyjnie tchawicy. Śródoperacyjnie

stwierdzono w łączności z płatem lewym naciek obejmujący śródpiersie górne. Całość obrazu śródoperacyjnego nasuwała podejrzenie procesu nowotworowego, a ustalenie ostatecznego rozpoznania — wola Riedela — było możliwe dopiero na podstawie badania histopatologicznego, potwierdzonego przez dwóch niezależnych histopatologów, w tym z ośrodka konsultacyjnego o wyższym stopniu referencyjności. W obrazie histopatologicznym tarczycy (szczególnie płata lewego) obecne były liczne guzki koloidowe z nasilonymi cechami włóknienia, w obszarze którego stwierdzono drobne komórki pochodzenia tarczycowego układające się w „ścieżki”, barwienie karminem ujemne. Nasilone cechy włóknienia były również obecne w wycinkach pobranych ze śródpiersia.

Przebieg pooperacyjny był bez powikłań. Chora wypisano do domu w stanie ogólnym dobrym, była wydolna krążeniowo i oddechowo. Pozostawała w stałej kontroli w przyklinicznej Poradni Chirurgicznej Chorób Tarczycy. Chora zmarła 1,5 roku po operacji wskutek niewydolności oddechowej, będącej wynikiem dalszego postępu choroby.

## Dyskusja

Przypadek opisywanej pacjentki potwierdza doniesienia innych autorów co do niezmiernie rzadkości występowania wola Riedela [8–10]. Odsetek chorych operowanych z tego powodu jest niewielki, co potwierdza przedstawiony przez autorów niniejszej pracy materiał kliniczny, jak również doniesienia z piśmiennictwa zarówno polskiego, jak i zagranicznego. W *Mayo Clinic* w latach 1920–1984 operowano z powodu zapalenia Riedela jedynie 37 chorych na 57 tysięcy wszystkich operacji wola, natomiast w Klinice Chirurgii Endokrynologicznej w Krakowie odpowiednio 3 chorych na 5149 operowanych w latach 1989–2000 [11, 12].

Wyraźnie częściej odnotowuje się zachorowania u kobiet niż u mężczyzn (ok. 4:1) w przedziale wiekowym 40–60 lat [11, 13].

Etiologia choroby Riedela w dalszym ciągu jest do końca nieznana. Występujące czasem wysokie przedoperacyjne stężenie w surowicy krwi przeciwciał przeciw peroksydazie tarczycowej może przemawiać za jej autoimmunologiczną przyczyną [14–16], czego jednak nie obserwowano u opisywanej chorej. Zwraca się również uwagę na współistnienie u części chorych objawów pierwotnego włóknienia narządowego [17, 18]. Najczęściej dotyczy ono ślinianek, oczodołów, gruczołów łzowych, śródpiersia, płuc, dróg żółciowych oraz przestrzeni zaotrzewnowej. Rozlane zmiany włókniste w śródpiersiu dotyczyły również przedstawionej chorej, podobnie jak nasilony proces włóknienia w samej tarczycy, przekraczający jej torebkę.

Pomimo że od czasu, kiedy w 1896 roku Bernard Riedel po raz pierwszy podał opis chorych z **wolem twardości żelaza** [1] nastąpił znaczny postęp metod diagnostycznych, to jednak w rozpoznaniu choroby w dalszym ciągu istotne znaczenie odgrywa obraz kliniczny. Do wiodących objawów zalicza się bez wątpienia powiększenie gruczołu tarczycowego, najczęściej stosunkowo niewielkich rozmiarów, połączone z jego wybitną, wręcz kamienną spistością. Bywa, że tarczyca powiększa się gwałtownie. Choroba dynamiką zmian przypomina wówczas raka anaplastycznego tarczycy lub też chłoniaka [4, 7, 8]. Podejrzenie procesu nowotworowego jest tym większe, kiedy wskutek postępujących zmian włóknistych pojawia się dysfagia, chrypka czy też postępująca duszność połączona ze stridorem. Jest to wynik zmian włóknistych śródpiersia obejmujących także nerwy krtaniowe wsteczne i prowadzących, jak u opisywanej chorej, do ich porażenia. Czynność tarczycy, również podobnie jak u opisywanej chorej, pozostaje często prawidłowa. Jednak wraz z postępowaniem procesu włóknistego w obrębie miększu tarczycy może dochodzić do objawów niedoczynności gruczołu [19]. Wykraczający poza torebkę tarczycy proces włóknisty może obejmować również przytarczyce i prowadzić do ich niedoczynności i wystąpienia hipokalcemii, co potwierdza przypadek pacjentki leczonej przez autorów niniejszej pracy [18, 19].

Pomimo stosowania najnowocześniejszych metod obrazowych — zarówno ultrasonograficznych, scyntygraficznych, jak i radiologicznych, w tym także spiralnej tomografii komputerowej czy rezonansu magnetycznego — różnicowanie z procesem nowotworowym często jest niemożliwe [13, 20]. Celowana biopsja aspiracyjna cienkoigłowa również nie pozwala na pewne rozpoznanie, co zresztą potwierdza wynik badania biopsji aspiracyjnej przeprowadzony u opisywanej chorej [9, 21].

Wole Riedela wymaga również różnicowania z wolem w przebiegu choroby Hashimoto, natomiast szczególnie z jej rzadszą (ok. 10%) postacią włókniejącą [3, 22, 23]. Tarczyca jest wówczas mała z obecnością w jej obrębie zapalnego nacieku limfocytno-plazmocytnego, jednak o mniejszym stopniu nasilenia niż w postaci klasycznej choroby. Podobnie obserwuje się przekształcanie się komórek pęcherzykowych w onkocytno [22, 23]. W przeciwieństwie do wola Riedela proces zapalny nie obejmuje torebki gruczołu i proces włóknienia nie przekracza jego granic oraz nie dotyczy okolicznych tkanek i narządów. Mimo to mogą występować objawy ucisku otaczających tarczyce struktur [3].

Zarówno przebieg kliniczny, jak i niepewne wyniki badań diagnostycznych, a także częste trudności w różnicowaniu z nowotworem złośliwym tarczycy, stanowią wskazania do leczenia chirurgicznego. Zakres ope-

racji najczęściej bywa ograniczony do częściowej resekcji obydwu płatów tarczycy z odbarzeniem tchawicy, podobnie jak u opisywanej chorej [1, 8, 9, 12]. Doniesienia o korzystnym wpływie terapii kortykosteroidami [17, 19] czy tamoksifenem [8, 24, 25] wydają się cennym uzupełnieniem leczenia operacyjnego, które pozwala na rozwianie wątpliwości diagnostycznych, zapewnia ustąpienie objawów uciskowych i ratuje życie.

## Wnioski

Przebieg kliniczny wola Riedela może stwarzać znaczne trudności diagnostyczne i wymaga różnicowania z nowotworem złośliwym tarczycy. Leczenie chirurgiczne wola Riedela pozwala na szybkie rozwianie wątpliwości diagnostycznych, poprawę stanu klinicznego i komfortu życia chorych.

## Piśmiennictwo

- Riedel BM. Die chronische, zur bildung eisenharter tumoren fuhrende entzündung der schildruse. *Verh Dtsch Ges Chir* 1896; 25: 101–105.
- Bindra A, Braunstein G. Thyroiditis. *Am Fam Physician* 2006; 73: 1769–1776.
- Slatosky J, Shipton B, Wahba H. Thyroiditis: differential diagnosis and management. *Am Fam Physician* 2000; 61: 1047–1052.
- Papi G, LiVolsi VA. Current concepts on riedel thyroiditis. *Am J Clin Pathol* 2004; 121 (supl.): S50–S63.
- Annaert M, Thijs M, Sciot R i wsp. Riedel's thyroiditis occurring in a multinodular goiter, mimicking thyroid cancer. *J Clin Endocrinol Metab* 2007; 92: 2005–2006.
- Hao SP, Chen JF, Yen KC. Riedel's thyroiditis associated with follicular carcinoma. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 1999; 256: 470–472.
- Vigouroux C, Escourolle H, Mosnier-Pudar H i wsp. Riedel's thyroiditis and lymphoma. Diagnostic difficulties. *Presse Med* 1996; 25: 28–30.
- Perimenis P, Marcelli S, Leteurtre E i wsp. Riedel's thyroiditis: current aspects. *Presse Med* 2008; 37: 1015–1021.
- al-Hilaly MA, Koshi PD, Nasr AN i wsp. Riedel's thyroiditis. Case report. *Acta Chir Scand* 1990; 156: 237–239.
- Kabalak T, Ozgen AG, Günel O i wsp. Occurrence of Riedel's thyroiditis in the course of sub-acute thyroiditis. *J Endocrinol Invest* 2000; 23: 399–401.
- Hay ID. Thyroiditis: a clinical update. *Mayo Clin Proc* 1985; 60: 836–843.
- Cichoń W, Frey J, Jamski J i wsp. Thyroiditis in patients operated on for goiter. *Przegl Lek* 2002; 59: 129–131.
- Cho MH, Kim CS, Park JS i wsp. Riedel's thyroiditis in a patient with recurrent subacute thyroiditis: a case report and review of the literature. *Endocr J* 2007; 54: 559–562.
- Geenen V, Wazee E, Moutschen M i wsp. Autoimmune thyroiditis. *Rev Med Liege* 2001; 56: 72–78.
- Caturegli P, Kimura H, Rocchi R i wsp. Autoimmune thyroid diseases. *Curr Opin Rheumatol* 2007; 19: 44–48.
- Zelmanovitz F, Zelmanovitz T, Beck M i wsp. Riedel's thyroiditis associated with high titers of antimicrosomal and antithyroglobulin antibodies and hypothyroidism. *J Endocrinol Invest* 1994; 17: 733–737.
- Tütüncü NB, Erbas T, Bayraktar M i wsp. Multifocal idiopathic fibrosclerosis manifesting with Riedel's thyroiditis. *Endocr Pract* 2000; 6: 447–449.
- Casoli P, Tumiati B. Hypoparathyroidism secondary to Riedel's thyroiditis. A case report and a review of the literature. *Ann Ital Med Int* 1999; 14: 54–57.
- Lo JC, Loh KC, Rubin AL, Cha I i wsp. Riedel's thyroiditis presenting with hypothyroidism and hypoparathyroidism: dramatic response to glucocorticoid and thyroxine therapy. *Clin Endocrinol (Oxf)* 1998; 48: 815–818.
- Pérez Fontán FJ, Cordido Carballido F, Pombo Felipe F i wsp. Riedel thyroiditis: US, CT, and MR evaluation. *J Comput Assist Tomogr* 1993; 17: 324–325.
- Harigopal M, Sahoo S, Recant WM i wsp. Fine-needle aspiration of Riedel's disease: report of a case and review of the literature. *Diagn Cytopathol* 2004; 30: 193–197.
- Michels JJ, Blanc-Fournier C. What diagnosis can be made by the pathologist in a case of sclerosing thyroiditis? *Ann Pathol* 2008; 28: 263–267.
- Zimmermann-Belsing T, Rønn AM, Feldt-Rasmussen UF i wsp. Invasive fibrous thyroiditis-Riedel's goiter. A review of the literature and a case report. *Ugeskr Laeger* 1993; 155: 1121–1125.
- De M, Jaap A, Dempster J. Tamoxifen therapy in steroid-resistant Riedel's disease. *Scott Med J* 2002; 47: 12–13.
- Pritchik K, Newkirk K, Garlich P i wsp. Tamoxifen therapy for Riedel's thyroiditis. *Laryngoscope* 2004; 114: 1758–1760.