

УДК 616.441

АГЕНЕЗИЯ ПЕРЕШЕЙКА ЩИТОВИДНОЙ ЖЕЛЕЗЫ – РЕДКАЯ АНОМАЛИЯ РАЗВИТИЯ: ОПИСАНИЕ СЛУЧАЯ

© Н.А. Огнерубов

Ключевые слова: щитовидная железа; пороки развития; агенезия перешейка.

Приведен обзор литературы по агенезии перешейка щитовидной железы, являющийся редкой врожденной аномалией развития. Автор описывает случай отсутствия перешейка щитовидной железы, выявленный на аутопсии у мужчины 35 лет.

Щитовидная железа является крупной эндокринной железой, расположенной на передней полуокружности трахеи. Она состоит из двух боковых долей – правой и левой, соединенных между собой перешейком. Примерно в трети случаев наблюдается наличие пирамидального отростка, который отходит вверх от перешейка либо от одной из боковых долей железы. Щитовидная железа прикрепляется к трахее, щитовидному и перстневидному хрящам, связкам. Размеры долей составляют: длина 5,0–8,0 см, ширина 2,0–4,0 см, толщина 1,5–2,5 см. Перешеек щитовидной железы лежит спереди от трахеи на уровне от 1 до 3 или от 2 до 4 ее хряща, ширина его в среднем 2,2 см. Щитовидная железа имеет собственную фиброзную капсулу и фасциальное влагалище, образованное висцеральным листком четвертой фасции шеи. Между ними находится слой клетчатки, в котором располагаются артерии, вены и паращитовидные железы [1].

Среди многочисленных пороков развития щитовидной железы чаще всего встречается гемиагенезия, которая включает в себя отсутствие одной доли и/или перешейка. В клинике Майо на протяжении 40 лет во время выполнения оперативных вмешательств на щитовидной железе у 50 000 пациентов было описано только 5 случаев гемиагенезии [2]. Mirkosch P. et al. (1999) при исследованиях щитовидной железы у 71500 пациентов, проведенных на протяжении 9 лет, выявили гемиагенезию только в 10 случаях. К концу 2000 г. в мировой литературе опубликовано два обзора, посвященных этой проблеме [2, 3].

К порокам развития также относится агенезия перешейка щитовидной железы. Под агенезией перешейка щитовидной железы понимают полное врожденное его отсутствие. По данным различных авторов, агенезия перешейка встречается от 5 до 33 % [4–32]. Marshall C.F. (1895) изучал топографию щитовидной железы у 60 трупов детей в возрасте от нескольких недель до 10 лет [5]. По его данным, перешеек отсутствовал в 10 % случаев. Ranade A.V. et al. (2008) обнаружили отсутствие перешейка у 35 трупов (33 %) из 105 случаев [8]. Из них женщин было 8. Согласно исследованию Braun E. et al. (2007), перешеек щитовидной железы отсутствовал в 4 (6,9 %) случаях из 58 трупов [9]. По данным Won H.S., Chung I.H., перешеек отсутствовал в 5 (3 %) случаях [10]. Harjeet A. et al. (2004) при исследовании

трупов 410 мужчин и 160 женщин на северо-западе Индии выявили агенезию перешейка у 45, что составило 7,9 % [30]. Lokanadham S. et al. (2012) обнаружили отсутствие перешейка щитовидной железы у 36-недельного плода женского пола [29]. Daksha Dixit et al. (2009) изучили морфометрические особенности долей щитовидной железы и перешейка у 41 взрослого трупа в возрасте от 37 до 64 лет, из них мужчин было 37, а женщин 4 [6]. При этом в 6 (14,6 %) случаях было выявлено отсутствие перешейка щитовидной железы. Длина правой и левой долей у этих трупов составила в среднем 5,01 и 4,71 см, соответственно. Никаких существенных изменений в сосудисто-нервных взаимоотношениях не выявлено. Соотношение мужчин и женщин при этом было 5:1. Har Simarjit Kaur et al. (2013) выявили агенезию щитовидной железы у трупа женского пола [32].

Агенезия перешейка щитовидной железы не вызывает каких-либо клинических проявлений, однако она может сочетаться с различной патологией щитовидной железы. Alberto Schanaider et al. (2008) обнаружили отсутствие перешейка щитовидной железы у 22-летнего мужчины во время выполнения оперативного вмешательства по поводу узлового зоба [27]. Omer Faruk Ozkan et al. (2012) выявили агенезию перешейка у 41-летней пациентки во время тиреоидэктомии по поводу болезни Грейвса [31].

Клинически диагноз агенезия перешейка может быть установлен при скintiграфии щитовидной железы, УЗИ, компьютерной томографии, магнитно-резонансной томографии, а также во время хирургических вмешательств. Различные находки во время выполнения методов медицинской визуализации требуют проведения дифференциальной диагностики с доброкачественными и злокачественными новообразованиями, узловым зобом, тиреоидитом, метастазами, амилоидозом.

В природе перешеек щитовидной железы может отсутствовать у амфибий, птиц, млекопитающих – сумчатых, китообразных, хищников, макаков-резус и грызунов [4].

Этиология агенезии перешейка на сегодняшний день неизвестна. Ведущую роль при этом играют дефекты эмбрионального развития, в частности, слияние щитовидно-язычного канала по средней линии, которое

приводит к образованию двух независимых долей без перешейка [4]. Кроме того, мутации генов и 22 хромосомы, ответственных за развитие щитовидной железы, могут привести к агенезии перешейка [6, 7].

В табл. 1 приведены случаи агенезии перешейка щитовидной железы по доступным литературным данным, которая, безусловно, не может претендовать на полноту всех публикаций.

Мы наблюдали случай отсутствия перешейка щитовидной железы у мужчины 35 лет на аутопсии. После рассечения мышц шеи были обнаружены две доли щитовидной железы, лежащие по обе стороны трахеи, перешеек при этом отсутствовал (рис. 1). Каждая доля имела пирамидальную форму с вершиной, направленной в бок и вверх. Длина правой доли была 4,5 см, а

левой – 5,0 см. Ширина составила 2,5 и 3,0 см, соответственно. Основания долей располагались на уровне третьего кольца трахеи. На месте перешейка обнаружена рыхлая соединительная ткань, соединяющая доли. Пирамидальный отросток отсутствовал. Расстояние между основаниями долей составило 1,8 см.

Изолированное отсутствие перешейка щитовидной железы встречается крайне редко. Частота ее варьирует от 5 до 33 %. Чаще всего данная аномалия развития наблюдается у мужчин, соотношение мужчин и женщин при этом составляет 5:1. Основной причиной развития агенезии перешейка является аномалия эмбрионального развития. Отсутствие перешейка само по себе не вызывает какой-либо клинической симптоматики, однако оно может сопровождаться морфологическими

Таблица 1

Отсутствие перешейка щитовидной железы по литературным данным

№ п/п	Литературный источник	Пол	Возраст, лет	Метод выявления	Сопутствующее заболевание
1	11	м	3 мес.	аутопсия	
2	12	м	33	аутопсия	
3	13	ж	74	аутопсия	эутиреоидное состояние
4	13	м	31	аутопсия	эутиреоидное состояние
5	14	ж	30	операция	тиреотоксикоз
6	14	ж	21	операция	гипертиреозидизм, аденома
7	15	м	53		тиреотоксикоз
8	9	ж	14	операция	смешанный папиллярный и фолликулярный рак
9	16	ж	23		эутиреоидное состояние
10	10	ж	28	операция	гипертиреозидизм
11	10	ж	39	операция	гипертиреозидизм
12	10	ж	28	операция	гипертиреозидизм
13	17	м	55		эутиреоидное состояние
14	17	ж	58		микседема
15	18	ж	50		
16	18	ж	25		
17	19	м	28		гипертиреозидизм
18	20	ж	58		гипертиреозидизм
19	20	ж	58	операция	токсический зоб
20	20	ж	55		гипертиреозидизм
21	20	ж	66		токсический узловой зоб
22	21	м	37	операция	гиперпаратиреозидизм
23	22	ж	28		
24	2	ж	58	операция	нетоксический, многоузловой зоб, аденома
25	2	м	46	сцинтиграфия	нетоксический, многоузловой зоб
26	26	м	22	операция	
27	8			аутопсия	
28	8			аутопсия	
29	8			аутопсия	
30	8			аутопсия	
31	8			аутопсия	
32	8			аутопсия	
33	32	ж		аутопсия	
34	25	м		аутопсия	
35	31	ж	41	операция	
36	5	ж	8 случаев	аутопсия	
37	5	м	27 случаев	аутопсия	
38.	6		4 случая	аутопсия	
39	7		5 случаев	аутопсия	
40	29	ж	36 недель	аутопсия	
41	30		45 случаев	аутопсия	



Рис. 1. Фото макропрепарата: 1 – правая доля щитовидной железы; 2 – левая доля; 3 – щитовидный хрящ; 4 – трахея

изменениями ткани щитовидной железы с развитием различных ее заболеваний. Наиболее распространенными заболеваниями при этом являются: гипертиреоз, аденома, многоузловой зоб, злокачественные опухоли, тиреотоксикоз, микседема. Данная аномалия является случайной находкой при обследовании по поводу патологии щитовидной железы либо на вскрытии. Различные аномалии могут представлять определенные диагностические и хирургические проблемы во время экстренных ситуаций и операций. В связи с чем глубокие знания анатомии и пороков развития щитовидной железы помогут хирургу в рациональном планировании хирургических вмешательств.

ЛИТЕРАТУРА

1. Островерхов Г.Е., Лубоцкий Д.Н., Бомаш Ю.М. Курс оперативной хирургии и топографической анатомии. М.: Медицина, 1964. С. 387.
2. Melnick J.C., Stemkowski P.E. Thyroid hemiagenesis (hockey stick sign): a review of the world literature and a report of four cases // Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism. 1981. V. 52 (2). P. 247-251. DOI: 10.1210/jcem-52-2-247.
3. Mirkosch P., Gallowitsch H.J., Kresnik E., Molnar M., Gomez I., Lind P. Thyroid hemiagenesis in an endemic goiter area diagnosed by ultrasonography: report of sixteen patients. Department of Nuclear Medicine and Special Endocrinology, Klagenfurt, Austria. Thyroid (impact factor: 4.79). 12/1999; 9(11):1075-84. DOI:10.1089/thy.1999.9.1075.
4. Pastor V.J.F., Gil V.J.A., De Paz Fernández F.J., Cachorro M.B. Agenesis of the thyroid isthmus // Eur. J. Anat. 2006. V. 10. P. 83-84.
5. Marshall C.F. Variations in the form of the thyroid gland in man // J. Anat. Physiol. 1895. V. 29. P. 234-239.
6. Dixit D., Shilpa M.B., Harsh M.P., Ravishankar M.V. Agenesis of isthmus of thyroid gland in adult human cadavers: a case series // Cases Journal. 2009. V. 2. № 4. P. 6640.
7. Gangbo F., Lacombe D., Alberti E.M., Taine L., Saura R., Carles D.N. Trisomy 22 with thyroid isthmus agenesis and absent gall bladder // Genetic Counseling. 2004. V. 15. № 3. P. 311-315.
8. Ranade A.V., Rai R., Pai M.M., Nayak S.R., Prakash, Krishnamurthy A., Narayana S. Anatomical variation of the thyroid gland: possible surgical implications // Singapore Med. J. 2008. V. 49. P. 831-834.
9. Braun E., Windisch G., Wolf G., Hausleitner L., Anderhuber F. The pyramidal lobe: clinical anatomy and its importance in thyroid surgery // Surg Radiol Anat. 2007. V. 29. P. 21-27.
10. Won H.S., Chung I.H. Morphologic variations of the thyroid gland in Korean adults // Korean J. Phys. Antropol. 2002. V. 15. P. 119-125.
11. Hamburger J.L., Hamburger S.W. Thyroidal hemiagenesis // Arch Surg. 1970. V. 100. P. 319.
12. Harada T., Nichikawa Y., Ito K. Aplasia of one thyroid lobe // Am J. Surg. 1972. V. 123. P. 617.
13. Erdheim J. Über schilddrüsenaplasie // Beitr. Pathol. Anat. Allg. Pathol. 1904. V. 35. P. 366.
14. Zuckermann H. Über schilddrüsenaplasie // Frankfurter Z Pathol. 1913. V. 14. P. 126.
15. Hirschfeld S. Aur Kenntnis des halbseitigen schilddrüsenmangels // Centralb. Allg. Pathol. Anat. Pathol. 1931. V. 52. P. 289.
16. Poate H.R.G., Wyndham N. Hemiaplasia of the thyroid gland // Med. J. Aust. 1935. V. 2. P. 514.
17. Mirouze J., Jaffiol C., Seignalet J., Pastorello R., Baldet L. Un diagnostic différentiel: adénome toxique ou agénésie thyroïdienne partielle avec maladie de Basedow du lobe restant // Rev. Fr. Endocrinol Clin. 1967. V. 8. P. 161.
18. Russotto J.A., Boyar R.M. Thyroid hemiagenesis // J. Nucl. Med. 1970. V. 12. P. 186.
19. Burman K.D., Adler R.A., Wartofsky L. Hemiagenesis of the thyroid gland // Am J. Med. 1975. V. 58. P. 143.
20. Blandino G., Princi P. Sulla emiagenesia della tiroide // Minerva Med. 1976. V. 67. P. 1368.
21. Leiba S., Shani M., Zahavi I., Samuel R., Borohowsky S., Ber A. Secondary pituitary insufficiency: report of three cases of ectopia or hemiagenesis of the thyroid gland // Arch. Intern. Med. 1976. V. 136. P. 1010.
22. Hartemann P., Leclerc J., Valdenaire J.C., Leichtmann G., Rio F. L'agenesie thyroïdienne unilaterale: A propos de quatre observations avec hyperthyroïdie // Otoneuroophthalmology. 1976. V. 48. P. 3.
23. Maganini R.J., Narendran K. Hyperthyroidism in a patient with thyroidal hemiagenesis // Ill. Med. J. 1977. V. 151. P. 368.
24. Letonturier P., Hazard J., Tourneur R., Perlemuter L., Angel R. Hemiagenesie thyroïdienne: Lobe thyroïdien unique 8 observations // Nouv Presse Med. 1979. V. 8. P. 1227.
25. Sankar K.D., Bhanu P.S., Bapuji P. Agenesis of isthmus of thyroid gland with embryological and clinical basis // Narayana Medical Journal. 2012. V. 1. № 1. P. 32-34.
26. Kumar G.P., Satyanarayana N., Vishwakarma N., Guha R., Dutta A.K. and Sunitha P. Agenesis of isthmus of thyroid gland, its embryological basis and clinical significance – A case report // Nepal. Med. Coll. J. 2010. V. 12 (4). P. 272-274.
27. Schanider A. and Oliveira P.J. de Thyroid isthmus agenesis associated with solitary nodule: A case report // Cases Journal. 2008. V. 1. P. 211.
28. Chang J., Gerscovich E.O., Dublin A., McGahan J.P. Thyroid Hemiagenesis: A Rare Finding, JUM September 1, 2011. V. 30. № 9. P. 1309-1310.
29. Lokanadham S., Satheesh Naik K., Subhadra Devi V. Thyroid gland isthmus agenesis in autopsied fetus: Case study, Prime Research on Medicine (PROM). 2012. V. 2(1). P. 69-71.
30. Harjeet A., Sahni D., Jit I., Aggarwal A.K. Shape, measurements and weight of the thyroid gland in northwest Indians // Surg Radiol Anat. 2004. V. 26. P. 91-95.
31. Omer Faruk Ozkan, Mehmet Asik, Huseyin Toman, Faruk Ozkul, Oztekin Cıkman, and Muammer Karaayvaz. Agenesis of Isthmus of the Thyroid Gland in a Patient with Graves-Basedow Disease and a Solitary Nodule, Case Reports in Surgery. 2013. V. 2013. Article ID 608481, 2 pages.
32. Har Simarjit Kaur, Upasna Kumar, Sukhminder Jit Singh Bajwa, Gurdeep Singh Kalyan. Absent thyroid isthmus: Embryological and clinical implications of a rare variation of thyroid gland revisited, Thyroid Research & Practice. 2013. V. 10. Issue 2. P. 80-82.

Поступила в редакцию 26 сентября 2013 г.

Ognerubov N.A. ISTHMUS AGENESIS OF THYROID GLAND – RARE MALFORMATION: CASE REPORT

The literature review of the isthmus agenesis of the thyroid gland, which is a rare congenital anomaly, is given. The author describes a case of absence of the isthmus of thyroid gland detected at autopsy in men of 35 years.

Key words: thyroid; malformations; agenesis of isthmus.