



Carcinoma de Estirpe Tiroidea en Quistes Tiroglosos

Presentación de 3 Casos

J. F. PATIÑO, MD, FACS (Hon), SCC (Hon); H. HARKER, MD; G. SUPELANO, MD, SCC;
F. CAVANZO, MD.

Palabras claves: Lesión congénita cervical, Tracto tirogloso, Quiste tirogloso, Carcinoma de estirpe tiroideo.

La aparición de carcinomas de estirpe tiroidea en quistes tiroglosos, que representan un remanente embriológico anormal del tracto tirogloso y a su vez la lesión congénita más común en el cuello, es un fenómeno raro, aunque no sorprendente en virtud de la relación embrionaria con la glándula tiroides.

Además, algunos estudios demuestran una alta frecuencia de tejido tiroideo funcionante en quistes tiroglosos libres de neoplasia.

Los autores presentan 3 nuevos casos de carcinoma de estirpe tiroidea en quistes tiroglosos y hacen una revisión de la literatura. Se piensa que hasta 1993 aparecían menos de 150 casos en la literatura mundial.

INTRODUCCION

El desarrollo de carcinomas de estirpe tiroidea en quistes tiroglosos constituye un fenómeno raro, pero no sorprendente. En efecto, el quiste tirogloso, un remanente embriológico anormal del tracto tirogloso, es la lesión congénita más común en el cuello; se presenta, según Topf y col. (2), con una frecuencia dos veces mayor que la de las anomalías de las hendiduras branquiales y, excluyendo los tumores de origen linfático, representa el 40% de todos los tumores primarios del cuello. Remanentes del tracto tirogloso, que es el vestigio embrionario del descenso de la glándula tiroides desde el agujero ciego en el aspecto ventral de la faringe embrionaria, hasta su posición normal en el cuello, se encuentran en el 7% de la población. En una reciente revisión, Topf y col. (2) informan que al estudiar los quistes tiroglosos con gamagrafía, aproximadamente una tercera parte de ellos contiene tejido tiroideo funcio-

nante; pero si se hacen cortes histológicos seriados se encuentra tejido tiroideo hasta en el 62% de los casos (2, 3).

En 1982 Pilheu de Buenos Aires (1) informó 2 casos de carcinoma de estirpe tiroidea en quistes tiroglosos, uno folicular y uno papilar, en dos mujeres de 29 y 31 años respectivamente; la designación de "estirpe tiroidea" dada por Pilheu nos parece muy adecuada, por cuanto significa la naturaleza histológica de la lesión, así como su origen embriológico. Al final de su presentación ante la Academia Argentina de Cirugía, los Dres. J. Yoel y P. Hulskamp aportaron sendos casos de quistes tiroglosos con tejido tiroideo; una niña de 4 años, en quien se halló 1 nódulo tiroideo macrofolicular (libre de cáncer) y una mujer de 27 años en quien se halló carcinoma papilar (1).

Con una incidencia tan elevada de tejido tiroideo en la pared de los quistes tiroglosos, quistes que no son más que un vestigio del tracto de descenso de la glándula tiroides o conducto tirogloso, a partir de su origen como una invaginación del endodermo de la pared ventral de la faringe (4), no es motivo de sorpresa que se presente en ellos el carcinoma de estirpe tiroidea. Sin embargo, es probable que el hallazgo de carcinoma en el tejido tiroideo de los quistes tiroglosos sea realmente bajo, del orden del 1% según Trail y col (3), y del 1 al 2% según Livolsi y col (22, 23). El primer informe en la literatura se atribuyó a Brentano (19) en 1911 y a Ucherman en 1915 (20), y en la literatura norteamericana a Owens y col en 1927 (13); según Renard y col (21), hasta 1990 se habían informado 146 casos en la literatura.

En Latinoamérica se han hecho algunas publicaciones sobre quistes tiroglosos (1, 4, 5-7). Además de Pilheu (1) de Argentina, solo Brust y col (4) de Brazil, han informado la presencia de carcinomas de tejido tiroideo, según una reciente búsqueda bibliográfica hecha en LILACS (a partir de diciembre de 1988).

En el Centro Médico de los Andes de la Fundación Santa Fe de Bogotá se han hallado 3 casos de carcinoma papilar de estirpe tiroidea en pacientes sometidos a resección de quistes tiroglosos, en los primeros 6 años de funcionamiento. Otro caso fue operado por uno de los autores (GS)

Doctores: José Félix Patiño; Hernando Harker; Guillermo Supelano; Francisco Cavanzo, de los Deptos. de Cirugía y Patología de la FSFB y del Hospital Simón Bolívar, Bogotá, D.C., Colombia.

en el Hospital Simón Bolívar de Bogotá, para el total de 3 nuevos casos que ahora reportamos, y que se suman a los otros 146 o más que han sido informados previamente en la literatura internacional.

PACIENTES Y METODOS

Caso N° 1

Una mujer de 36 años presentaba una masa en la parte supraglótica del cuello con ligera mayor prominencia sobre el lado derecho. Los exámenes clínicos y de laboratorio demostraron hallazgos normales, con función eutiroides. La gamagrafía del tiroides con I-131 mostró captación del 13% a las 24 horas y una imagen tiroidea aparentemente normal. Una tomografía computadorizada (TAC) del cuello mostró una masa de densidad de tejidos blandos con diámetro de 45 mm ubicada por delante del hueso hioides, la cual se extendía hasta hacer contacto con la glándula tiroides en la línea media.

La paciente fue sometida a resección de un quiste tirogloso relativamente voluminoso. El examen histopatológico reveló la presencia de un nódulo liso sobre su pared, el cual al corte demostró ser un adenocarcinoma papilar de estirpe tiroidea. La paciente recibe terapia de supresión de TSH desde entonces y se halla en perfectas condiciones.

Caso N° 2

Mujer de 19 años, quien consultó por la presencia de una masa en la región anterior del cuello, de 2 meses de evolución, la cual mostraba aumento progresivo en su tamaño, sin otra sintomatología. En el examen físico la masa se encontraba sobre la línea media, inmediatamente por encima del cartílago tiroides, con ligero desplazamiento hacia la derecha. Los exámenes de función tiroidea aparecieron dentro de límites normales; no se practicó gamagrafía de la glándula tiroides. La paciente fue sometida a resección del quiste tirogloso y en el estudio histopatológico se encontró carcinoma papilar del tiroides, bien diferenciado. Se practicó gamagrafía postoperatoria de la glándula tiroides, estudio que no demostró anormalidades. Sin tratamiento de supresión, la paciente se encuentra en excelente estado 4 años después de la operación.

Caso N° 3

Mujer de 32 años con embarazo en curso, con masa de 3 x 2 cm ubicada en la región suprahioides de 3 meses de evolución, compatible con quiste tirogloso. La aspiración con aguja fina demostró células no neoplásicas. La TAC comprobó la presencia de una masa quística que comprometía el cuerpo del hueso hioides y la gamagrafía mostró una glándula tiroides alejada de la masa cervical, de tamaño y captación normales. Se realizó extirpación quirúrgica del quiste tirogloso sin complicaciones, y en el exa-

men histopatológico se encontró un carcinoma papilar de estirpe tiroideo en el interior del quiste. Con terapia de supresión la paciente se halla en perfectas condiciones a los 3 años de operada.

DISCUSION

En 1976 Windstrom y col (11) informaron sobre 86 casos de carcinoma tirogloso primario, recopilados de la literatura y añadieron 3 de su propia experiencia, para un total de 89. La distribución de los 89 casos fue la siguiente: 77 adenocarcinomas papilares, 1 carcinoma folicular, 3 adenocarcinomas mixtos folicular y papilar, 2 adenocarcinomas, 1 carcinoma de bajo grado y 5 carcinomas escamocelulares. En esta recopilación el carcinoma papilar apareció como el más frecuente con una incidencia de 87%, lo cual coincide con la incidencia que informan Traily y col del 75 al 85% en su artículo de 1977 (3). Casos aislados de adenocarcinoma folicular también han sido informados (9).

Otros autores han publicado informes más recientes (8-10, 15, 16, 21 y 23), que en general coinciden con el hallazgo predominante del carcinoma papilar y con la conducta de simple resección del quiste por la técnica clásica de Sistrunk (17, 23).

En general, los carcinomas que se desarrollan en quistes tiroglosos son de bajo grado de malignidad y se mantienen confinados a la pared del quiste por largos períodos de su evolución. Se trata de carcinomas de origen *de novo*, y no de metástasis de la vecina glándula tiroides. Las metástasis ganglionares son tardías y pueden ser detectadas en repetidos y prolongados exámenes de seguimiento; no constituyen, en las series informadas, un serio problema desde el punto de vista de su manejo. Como es de esperarse, los resultados del tratamiento y el pronóstico son extremadamente favorables (3).

Las metástasis del cáncer tirogloso son muy raras, alrededor del 10%, según Page y col (14), quienes afirman que la actividad biológica de estas lesiones es similar en muchos aspectos a la de las neoplasias histológicamente iguales que ocurren en la glándula tiroides. Estos autores comparten la idea de que los carcinomas tiroideos de los quistes tiroglosos son tumores primarios y no metástasis de tumores de la glándula tiroides.

El tratamiento quirúrgico, cuando se encuentre un quiste con sospecha de carcinoma por la presencia de células malignas en la aspiración-biopsia-citología (ABC) preoperatoria, debe consistir en la resección ortodoxa del quiste tirogloso con un fragmento del hueso hioides y del tracto tirogloso hasta su origen en la base de la lengua, procedimiento originalmente descrito por Sistrunk (17, 18), con cuidadosa exploración para determinar si hay ganglios anormales.

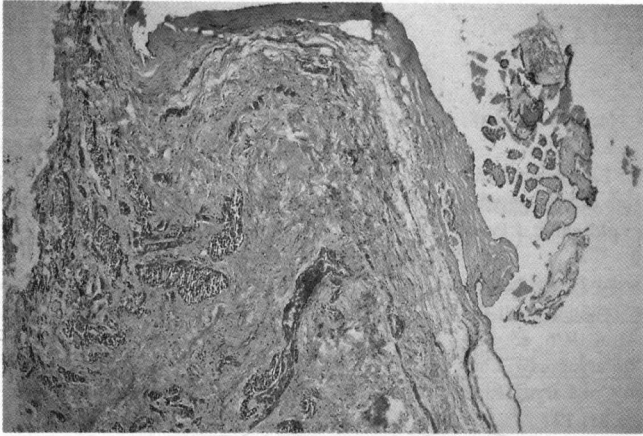


Fig. 1. En las paredes del quiste tirogloso se identifica claramente tejido tiroideo residual (izquierda). El tumor papilar crece hacia la luz del quiste (derecha). (H&E x 40).

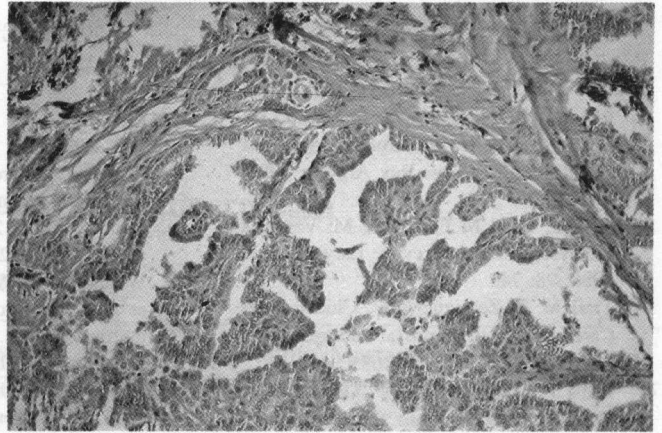


Fig. 3. El carácter papilar y quístico del tumor se demuestra muy bien en esta preparación. (H&E x 100).

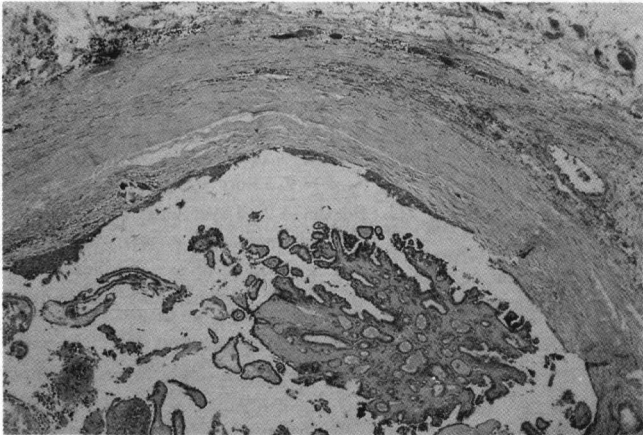


Fig. 2. La pared del quiste es gruesa y fibrosa. El tumor tapiza su superficie interna y llena parcialmente la luz (H&E x 250).

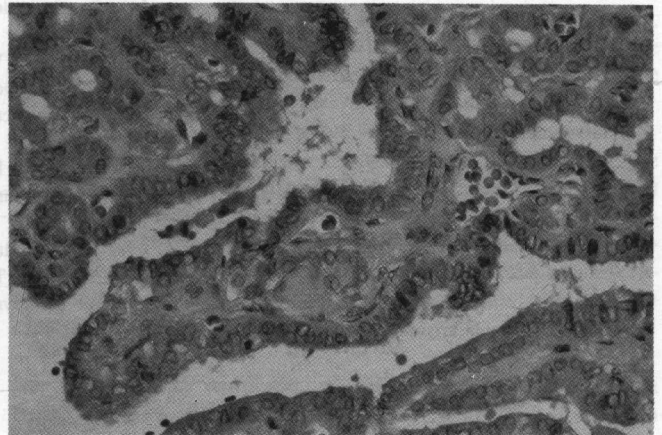


Fig. 4. Las papilas bien vascularizadas están tapizadas por células cuboidales con núcleos claros o vesiculares, característicos de los carcinomas papilares de estirpe tiroidea. (H&E x 250).

Cuando se haya comprobado la presencia de células neoplásicas en un examen preoperatorio, el cirujano debe asesorarse del patólogo en el curso de la operación y realizar cortes por congelación para determinar el tipo histológico del tumor, a fin de poder efectuar el procedimiento adecuado, incluyendo o no disección ganglionar.

Cuando se realice la resección de un quiste tirogloso y se encuentre un carcinoma insospechado en ausencia de signos de extensión externa, la operación ortodoxa es generalmente suficiente y sólo basta considerar la conveniencia de iniciar terapia de supresión de TSH si se comprueba la naturaleza papilar o folicular del tumor.

Según la revisión de Kum et al (24) publicada en 1993, menos de 150 casos de carcinoma originado en quistes tiroglosos han sido informados en la literatura mundial. Bdesha y Layer (25) al aportar un caso adicional manifiestan su acuerdo sobre el tratamiento mediante el procedimiento de Sistrunk, pero proponen la administración

postoperatoria del tiroxina para suprimir TSH, al igual que en un carcinoma propio de la tiroides.

ABSTRACT

Presence of thyroid carcinoma in a thyroglossal duct represents remanent of tissue from embryological origin. Although is a rare event it is not surprising due to the embryological relation between the thyroglossal duct cyst, the most frequent congenital lesion in the neck and the thyroid tissue.

Besides, many publications have described the presence of thyroidtissue in the thyroglossal duct with out malignancy.

Three cases are presented with an extensive review of the literature, less than 150 cases have been reported in the world literature.

REFERENCIAS

1. Pilheu F R, Ahumada J C, Marmo A: Carcinomas de extirpe tiroidea originados en quistes tiroglosos. *Rev Arg Cir* 1982; 43: 17-20
2. Topf P, Fried M P, Strome M: Vagaries of thyroglossal duct cysts. *Laryngoscope* 1988; 98: 740
3. Trail M L, Zeringue G P, Chicola J P: Carcinoma in thyroglossal duct remnants. *Laryngoscope* 1977; 87: 1685
4. Brust J A, Novaes L de P, Oliveira R et al: Carcinoma de cisto tireoglosso. *Ars Curandi* 1985; 18: 135
5. Winderowitz C A, Feliciano N, A Garcette C B N et al: Cisto tireoglosso. *Rev Bras Cir* 1985; 75: 77
6. Montovani J C, Berselli J C, Bachi C E: Cistos e fistulas do ducto tireoglosso. *Rev Bras Otorrinolaringol* 1986; 52: 7
7. Yakaheshi Monroy T, Garza Villasesor L: Quistes del conducto tiroglosso: tratamiento quirúrgico. *Rev Invest Clin* 1987; 39: 223
8. Pitts W C, Tanl E M, Skoog L: Papillary carcinoma in fine needle aspiration. Smears of thyroglostal duct lesion (letter). *Acta Cytol* 1988; 32: 599
9. Johnson L A, Polga J P: Follicular adeno-carcinoma arising in a thyroglossar duct remanant. *Clin Nucl Med* 1988; 150: 1749
10. Borger J A, Bercu B B: Papillary follicular carcinoma arising in a thyroglossar duct cyst in a 12 years old child. *J Pediatr Surg* 1988; 23: 362
11. Windstrom A, Magnusson P, Hallberg P et al: Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct. *Ann Otol* 1976; 85: 286
12. Vehermann H: Ottolaryngogogischer Verein in christiani. *Int Cbl Laryng Rhin* 1915; *Ve Wissenschaften* 31: 197
13. Owens H R, Ingelby H: Carcinoma of thyroglossal duct remnants. *Am J Surg* 1927; 85: 132
14. Page C P, Kemmerer W T, Haff R C, Mazzaferri E L: Thyroid carcinomas arising in thyroglossal ducts. *Ann Surg* 1974; 80: 799
15. Katergiannakis V, Monouras A, Tzardis P et al: Thyroglossal duct cyst carcinoma (report of two cases) *Am Surg* 1988; 54: 315
16. LaRouere M J, Drake A F, Baker S R et al: Evaluation and management of a carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. *Am J Otolaryngol* 1987; 8: 351
17. Sistrunk W E: The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract. *Ann Surg* 1920; 71: 121
18. Sistrunk W E: Technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct.
19. Brentano H: Struma Aberrata Lingual mit Drusen Metastasen. *Med Wschr* 1911; 37: 665
20. Ucherman H: Otolaryngogogischerkerein in christiania. *Int Cbl Largng Rhin V Wissenschaften* 1915; 31: 197
21. Renard T H, Choucair R J, Stevenson W D: Carcinoma of the thyroglossal duct. *Surg Gynecol Obstet* 1990; 171: 305
22. LiVolsi V A, Perzin K H, Savetzky L: Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal ducto tissue). *Cancer* 1974; 34: 1303
23. Orr R R, Kappel D A, McConell D V: Carcinoma arising within thyroglossal duct remnants: Care report and review of the literature. *Contemp Surg* 1987; 31: 99
24. Kum C K, Goh P, Teh M: Papillary carcinoma arising in a thyroglossalcyst. *Aust N Z J Surg* 1993; 63: 738
25. Bdesha A S, Layer G T: Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst: a report of a case and literature review (letter; comment) *Br J Surg* 1992; 79: 1248