

CARTA CIENTÍFICA

Carcinoma papilar de tiroides sobre quiste del conducto tirogloso: una serie de siete casos



Papillary thyroid carcinoma on thyroglossal duct cyst: a series of 7 cases

El quiste del conducto tirogloso (QCT) es la lesión quística cervical más frecuente. La aparición de un carcinoma sobre un QCT es un hallazgo raro, con una prevalencia inferior al 1%. El carcinoma papilar (CP) representa más del 90% de los casos de malignidad, seguido del papilar mixto y del carcinoma folicular^{1,2}.

El propósito de este trabajo es presentar un análisis retrospectivo descriptivo de una serie de casos con diagnóstico de CP sobre QCT en un hospital de tercer nivel entre los años 2006 y 2023. De la cohorte de 442 pacientes con

CP, se diagnosticó CP sobre QCT en siete casos (1,58%). El objetivo del estudio es analizar las características clínicas, los tratamientos realizados y los resultados finales en esta cohorte (tabla 1).

El diagnóstico suele realizarse en la edad adulta, con predominancia sobre el sexo femenino³, si bien en nuestro estudio un 42,9% eran mujeres, con una media de edad al diagnóstico de 54 años. El diagnóstico de CP sobre QCT es histológico tras extirpación del quiste. La incidencia de malignidad varía desde menos de 1% hasta casi un 20% según las series. La presentación clínica es similar a los casos de QCT benigno, generalmente en forma de masa cervical en línea media. En un 71,4% de los casos del estudio el motivo de consulta fue la valoración del QCT y en un 28,6% el estudio de nodularidad tiroidea.

Se recomienda además descartar lesiones malignas en la glándula tiroides, ya que algunos estudios sugieren que entre un 11-33% de los casos presentan carcinoma tiroideo, aunque

Tabla 1 Características clínicas, tratamientos y resultados finales de la serie de pacientes con carcinoma papilar sobre quiste de conducto tirogloso

	Caso 1	Caso 2	Caso 3	Caso 4	Caso 5	Caso 6	Caso 7
Año diagnóstico	2006	2007	2010	2014	2023	2023	2023
Sexo	V	V	M	M	M	V	V
Edad al diagnóstico	72	44	55	70	41	52	48
Motivo del diagnóstico	Estudio de nódulo tiroideo	Estudio de nódulo tiroideo	Síntomas compresivos del QCT	Hallazgo incidental en EF	Hallazgo incidental en ECO cervical	Síntomas compresivos del QCT	Síntomas compresivos del QCT
PAAF del quiste	Maligna	Maligna	No realizada	Maligna	Maligna	No realizada	Benigna
Tamaño del CP (cm)	DC	0,4	NI	2,6	0,9	1,2	1,2
Adenopatías con metástasis	No	Sí (unilaterales)	No	No	No	No	No
Tratamiento quirúrgico	PS+TT	PS+TT+LD (VCC ipsilateral)	PS+TT+LD	PS+TT	PS+TT	PS	PS
Estudio molecular (BRAF)	V600E	V600E	Wild type	V600E	V600E	No realizado	V600E
Tratamiento con I-131	Sí	Sí	Sí	Sí	No	No	No
Clasificación de riesgo (ATA 2015)	Bajo riesgo	Riesgo intermedio	Bajo riesgo	Bajo riesgo	Bajo riesgo	Bajo riesgo	Bajo riesgo
Estratificación dinámica del riesgo	RE	RE	RE	RE	RE	RE	RE

M: mujer. V: varón. EF: exploración física. ECO: ecografía. QCT: quiste del conducto tirogloso. cm: centímetros. NI: no informado. DC: desconocido. PS: procedimiento de Sistrunk. TT: tiroidectomía total. LD: linfadenectomía. VCC: vaciamiento cervical central. I: yodo.; BRAF: B-Raf proto-oncogene. ATA: American Thyroid Association. RE: respuesta excelente.

<https://doi.org/10.1016/j.endinu.2024.06.001>

2530-0164/© 2024 SEEN y SED. Publicado por Elsevier España, S.L.U. All rights are reserved, including those for text y data mining, AI training, y similar technologies.

es difícil diferenciar si se tratan de neoplasias sincrónicas o carcinomas primarios independientes⁴. A cinco de nuestros pacientes se les realizó punción aspiración con aguja fina (PAAF) prequirúrgica del QCT: en cuatro la citología presentó criterios de malignidad y en uno de benignidad. En los dos pacientes restantes el hallazgo fue incidental en el estudio anatomopatológico tras la cirugía del QCT.

El tratamiento de QCT con sospecha de malignidad es quirúrgico. La intervención de Sistrunk (PS) es el tratamiento quirúrgico *gold standard*. La tendencia actual en el manejo de los carcinomas papilares de tiroides (CPT) sobre QCT es reservar la tiroidectomía total (TT) profiláctica, el vaciamiento ganglionar cervical y el tratamiento con radioyodo para pacientes de alto riesgo (mayores 55 años, tamaño mayor de 4 cm, carcinoma de células escamosas, invasión extracapsular o vascular, márgenes positivos, metástasis ganglionar o a distancia) o con lesiones malignas tiroideas coincidentes^{5,6}. No obstante, no siempre ha sido así y en muchos casos el tratamiento quirúrgico del CPT sobre QCT incluía TT aunque no hubiera constancia radiológica de nodularidad. La elección de un abordaje más conservador se basa hoy en día en la utilización de pruebas diagnósticas preoperatorias que nos ayudan a descartar enfermedad local o a distancia, el conocimiento sobre la ausencia de influencia de la invasión ganglionar microscópica en la supervivencia a largo plazo, la alta tasa de curación con el PS y la posibilidad de seguimiento a largo plazo.

Como se muestra en la [tabla 1](#), en nuestra serie, el 71,4% de los casos fue tratado con PS y TT, aunque en uno de los casos la TT y linfadenectomía se realizó de forma diferida (caso 3), caso en el cual no se realizó PAAF prequirúrgica. En los casos restantes más recientes (casos 6 y 7), el procedimiento fue únicamente el PS ya que las características anatomopatológicas eran de bajo riesgo (lesiones < 1 cm, encapsuladas, sin rotura de cápsula, ni invasión vascular ni peri-neural) y la glándula tiroides no mostraba lesiones ecográficas sospechosas de malignidad. El caso 2 presentaba nódulos tiroideos con PAAF categoría III de Bethesda y otro un nódulo con sospecha citológica de CP (que no se confirmó posteriormente). En todos los casos de nuestra serie, el CP estaba localizado en el QCT sin evidencia de afectación maligna tiroidea. En el caso 3 se realizó vaciamiento central profiláctico (negativo) y en el caso 2 se extirpó un ganglio perihioideo que fue positivo para metástasis de CP.

El pronóstico del CP sobre QCT es excelente, con tasas de supervivencia del 95% a los 10 años, y la presencia de metástasis a distancia es inusual⁷. No obstante, es necesario realizar una estadificación de riesgo para orientar las decisiones terapéuticas. Excepto a los dos pacientes del estudio a los que únicamente se realizó el PS, el resto fueron clasificados como Estadio I (AJCC 8ª Edición)⁸ con bajo riesgo de recurrencia (ATA 2015)^{6,9}. En el 71,4% de nuestros pacientes se detectó mutación BRAF (*B-Raf proto-oncogene*) V600E. La positividad para BRAF en neoplasias tiroideas parece ser un factor predictivo de enfermedad localmente avanzada y más probabilidad de recurrencia. Para algunos autores, la presencia de la mutación en la PAAF de los QCT puede servir como un indicador preoperatorio para realizar una TT junto con el PS¹⁰. No obstante, su positividad no se ha relacionado con empeoramiento en la supervivencia libre de enfermedad ni con peores resultados finales¹¹. El 57,1%

de nuestros pacientes recibieron radioyodo en dosis única, con una media de 82 mCi ($DE \pm 54$ mCi). La respuesta al tratamiento fue excelente, sin recidivas y sin evidencia de enfermedad en el momento en el que se ha realizado la recopilación de los datos, teniendo en cuenta que tres de los pacientes se han seguido durante 12 meses.

En conclusión, el CP sobre QCT es una forma poco frecuente de CP, con un pronóstico excelente. Es necesario realizar un correcto estadiaje prequirúrgico para decidir el mejor abordaje. Dado el buen pronóstico de estos tumores, posiblemente solo el abordaje quirúrgico sobre el QCT sería suficiente como opción terapéutica, salvo que se sospeche afectación de la glándula tiroides.

Financiación

Este estudio se ha realizado sin ninguna financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses en relación con los datos publicados.

Bibliografía

1. Thompson LDR, Herrera HB, Lau SK. Thyroglossal Duct Cyst Carcinomas: A Clinicopathologic Series of 22 Cases with Staging Recommendations. *Head Neck Pathol*. 2017;11(2):175–85, <http://dx.doi.org/10.1007/s12105-016-0757-y>.
2. Randolph GW. Thyroglossal duct cysts and ectopic thyroid tissue. En: Fundakowski C, Felger E, Maghami E, editores. *Surgery of the Thyroid and Parathyroid Glands*. 3rd ed Elsevier; 2021. p. 50.
3. Rayess HM, Monk I, Svider PF, Gupta A, Raza SN, Lin HS. Thyroglossal Duct Cyst Carcinoma: A Systematic Review of Clinical Features and Outcomes. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2017;156(5):794–802, <http://dx.doi.org/10.1177/0194599817696504>.
4. Zizic M, Faquin W, Stephen AE, Kamani D, Nehme R, Slough CM, et al. Upper neck papillary thyroid cancer (UPTC): A new proposed term for the composite of thyroglossal duct cyst-associated papillary thyroid cancer, pyramidal lobe papillary thyroid cancer, and Delphian node papillary thyroid cancer metastasis. *Laryngoscope*. 2016;126(7):1709–14, <http://dx.doi.org/10.1002/lary.25824>.
5. Wood CB, Bigcas JL, Alava I, Bischoff L, Langerman A, Kim Y. Papillary-Type Carcinoma of the Thyroglossal Duct Cyst: The Case for Conservative Management. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2018;127(10):710–6, <http://dx.doi.org/10.1177/0003489418791892>.
6. Lancini D, Lombardi D, Piazza C. Evidence and controversies in management of thyroglossal duct cyst carcinoma. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2021;29(2):113–9, <http://dx.doi.org/10.1097/MOO.0000000000000699>.
7. Heshmati HM, Fatourehchi V, van Heerden JA, Hay ID, Goellner JR. Thyroglossal duct carcinoma: report of 12 cases. *Mayo Clin Proc*. 1997;72(4):315–9, <http://dx.doi.org/10.4065/72.4.315>.
8. Perrier ND, Brierley JD, Tuttle RM. Differentiated and anaplastic thyroid carcinoma: Major changes in the American Joint Committee on Cancer eighth edition cancer staging manual. *CA Cancer J Clin*. 2018;68:55–63, <http://dx.doi.org/10.3322/caac.21439>.

9. Haugen BR, Alexander EK, Bible KC, Doherty GM, Mandel SJ, Nikiforov YE, et al. 2015 American Thyroid Association Management Guidelines for Adult Patients with Thyroid Nodules and Differentiated Thyroid Cancer: The American Thyroid Association Guidelines Task Force on Thyroid Nodules and Differentiated Thyroid Cancer. *Thyroid*. 2016;26(1):1–133, <http://dx.doi.org/10.1089/thy.2015.0020>.
10. Bakkar S, Macerola E, Aljarrah Q, Proietti A, Materazzi G, Basolo F, et al. BRAFV600E mutation: a potential predictor of more than a Sistrunk's procedure in patients with thyroglossal duct cyst carcinoma and a normal thyroid gland. *Updates Surg*. 2019;71(4):701–4, <http://dx.doi.org/10.1007/s13304-019-00684-7>.
11. Rossi ED, Martini M, Straccia P, Cocomazzi A, Pennacchia I, Revelli L, et al. Thyroglossal duct cyst cancer most likely arises from

a thyroid gland remnant. *Virchows Arch*. 2014;465(1):67–72, <http://dx.doi.org/10.1007/s00428-014-1583-9>.

Belén M. Martínez Mulero*, Julia Sastre Marcos, María Ruiz de Ancos, Alejandro Raúl Gratacós Gómez y Lucía Manzano Valero

Servicio de Endocrinología y Nutrición, Complejo Hospitalario de Toledo, Toledo, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: belenmmulero94@gmail.com (B.M. Martínez Mulero).