



COMUNICACIÓN BREVE

## Carcinoma papilar primario en el quiste tirogloso. Serie de casos y revisión de la literatura



Andrés Chala<sup>a,\*</sup>, Andrés Álvarez<sup>b</sup>, Álvaro Sanabria<sup>c</sup> y Alejandro Gaitán<sup>d</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello, Facultad de Salud, Universidad de Caldas, Manizales, Colombia

<sup>b</sup> Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello, Clínica de la Policía, Bogotá, Colombia

<sup>c</sup> Unidad de Oncología, Hospital Pablo Tobón Uribe, Facultad de Medicina, Universidad de Antioquia, Medellín, Colombia

<sup>d</sup> Cirugía General, Facultad de Salud, Universidad de Caldas, Manizales, Colombia

Recibido el 16 de enero de 2015; aceptado el 9 de abril de 2015

Disponible en Internet el 12 de agosto de 2015

### PALABRAS CLAVE

Quiste tirogloso;  
Carcinoma del quiste;  
Tiroidectomía;  
Sistrunk

### KEYWORDS

Thyroglossal cyst;  
Cyst carcinoma;  
Thyroidectomy;  
Sistrunk

**Resumen** El quiste del conducto tirogloso se puede manifestar excepcionalmente como un carcinoma primario. Se presenta una serie de 6 casos de pacientes adultos que consultaron por masa suprahiodea o paralaríngea asintomática de larga evolución. Las imágenes mostraron una masa heterogénea con extensión a tejidos blandos. La biopsia aspirativa de la lesión no contribuyó al diagnóstico. En todos los casos se realizó cirugía de Sistrunk, en 3 casos combinada con tiroidectomía total y en uno, con vaciamiento. El curso posquirúrgico fue favorable. No requirieron tratamiento adicional y no presentaron recurrencias. El manejo es controvertido debido a los pocos casos reportados. Se han propuesto algunas clasificaciones basadas en el tamaño y la extensión para definir el tratamiento quirúrgico.

© 2015 Elsevier España, S.L.U. y Sociedad Española de Otorrinolaringología y Patología Cérvico-Facial. Todos los derechos reservados.

### Primary papillary carcinoma in thyroglossal cysts. Case reports and literature review

**Abstract** The thyroglossal cyst can exceptionally appear as a primary cyst carcinoma. We discuss a series of 6 adult patients, assessed for long-lasting asymptomatic suprahyoid or lateral-to-larynx mass. The images showed a heterogeneous mass invading adjacent soft tissues. Fine needle aspiration biopsy did not contribute to diagnosis. We performed a Sistrunk procedure in all cases, 3 combined with total thyroidectomy and 1 with neck dissection. The postoperative course was favourable. No additional treatment was required, without evidence of recurrence in follow-up. The management is controversial due to the limited number of cases reported. Some

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [andreschalag@ucaldas.edu.co](mailto:andreschalag@ucaldas.edu.co) (A. Chala).

classifications based on size and extent have been proposed to define the surgical treatment of such cysts.

© 2015 Elsevier España, S.L.U. y Sociedad Española de Otorrinolaringología y Patología Cérvico-Facial. All rights reserved.

## Introducción

La glándula tiroidea comienza a desarrollarse durante la tercera semana del embarazo. Está comunicada con la lengua por el conducto tirogloso, que normalmente involuciona a la octava semana de vida. Simultáneamente, el hueso hioides se desarrolla desde los arcos branquiales segundo y tercero, lo que permite su íntima interconexión. Si el proceso de obliteración falla, debido al tapizado epitelial secretor de ese conducto, se puede presentar un seno o un quiste<sup>1</sup>. El quiste del conducto tirogloso es la anomalía congénita de la línea media cervical más frecuente en niños. Se presenta desde la base de la lengua hasta la parte inferior de la línea media del cuello. El 60% se encuentra entre el hueso hioides y el cartílago tiroideos, el 13% es retroesternal, el 24% está encima del hioides y el 2% es submentoniano. El 70% se localiza en la línea media, el resto son paramedianos<sup>2</sup>. La mitad de los casos se diagnostican en mayores de 20 años.

Se ha reportado que hasta un 1,5% de los quistes del conducto tirogloso albergan un carcinoma, usualmente manifiesto después de los 40 años. Existen en la literatura poco menos de 200 casos reportados. Debido a su baja incidencia, el manejo de esta entidad es controvertido y no existe consenso. El objetivo de este artículo es presentar 6 casos de pacientes con carcinoma del quiste tirogloso, su tratamiento, evolución postoperatoria y seguimiento y revisar los hallazgos de la literatura, con énfasis en el tratamiento quirúrgico que ofrezca mejores resultados oncológicos.

## Métodos

Se realizó la revisión de la historia clínica de 6 pacientes tratados por el Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello de la Facultad de Salud de la Universidad de Caldas y en la Clínica de la Policía de Bogotá entre el 1 de enero de 2000 y el 31 de diciembre de 2013. Se evaluó la presentación clínica, los síntomas, las imágenes diagnósticas, el resultado de la biopsia aspirativa con aguja fina (BACAF), la cirugía realizada, el informe de la enfermedad y la evolución durante el seguimiento basado en aspectos clínicos e imagenológicos. Se definió recurrencia cuando se identificó una masa en el lecho quirúrgico o la aparición de ganglios con una biopsia confirmatoria de carcinoma. El seguimiento se calculó desde la fecha de la cirugía hasta el último control clínico. La decisión de procedimiento quirúrgico y el esquema de seguimiento fueron determinados por el cirujano tratante. En el seguimiento se consideró la realización de exámenes de imágenes (ecografía o tomografía) y, para aquellos pacientes a

quienes se les practicó tiroidectomía total, la medición de marcadores séricos específicos (tiroglobulina y anticuerpos antitiroglobulina), se incluyó una consulta cada 4 meses para evaluar recaída tumoral local o regional, ultrasonografía de cuello y rayos X de tórax anual. Cuando se identificaron nódulos tiroideos concomitantes, se obtuvo una BACAF para determinar su característica histológica.

## Resultados

Se encontró a 6 pacientes, 5 mujeres y un hombre, con edades entre 38 y 58 años y edad media de 48,8 años (tabla 1). El síntoma primordial fue una masa indolora de crecimiento lento, con pocos síntomas compresivos, a excepción de una paciente que refería disfagia. Una paciente con extensión al cartílago laríngeo consultó por dolor local. La localización fue variable: 2 lesiones exclusivamente en línea media suprahioidea, una con extensión submaxilar, una a piso de boca, una paralaríngea y una a hipofaringe.

En todos los casos se realizó inicialmente una ecografía que evidenció una lesión heterogénea (sólida y quística). La tomografía preoperatoria en todos mostró una lesión sólida con componente quístico, casi siempre con extensión extracapsular a tejidos blandos adyacentes con mala definición de sus bordes (fig. 1). El tamaño de la lesión estuvo entre 3 y 5 cm. La BACAF del quiste no pudo definir malignidad y en 2 ocasiones, cuando se encontró un nódulo tiroideo asociado, su BACAF señaló neoplasia folicular.

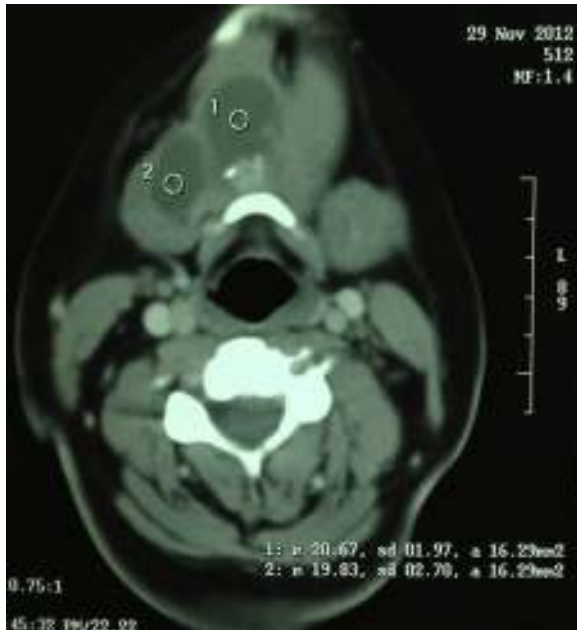
En todos los casos se realizó el procedimiento de Sistrunk, y en 2 se combinó con tiroidectomía total (fig. 2). La anatomía patológica confirmó carcinoma papilar de variedad usual en 5 casos y de variedad folicular en uno (fig. 3). Los hallazgos en la tiroides correspondieron a adenoma folicular. En 5 pacientes no fue necesario manejo adicional. En el seguimiento, al 4.º mes postoperatorio un paciente presentó adenomegalia cervical lateral de 2,5 cm de diámetro; ante la sospecha de recidiva locorregional, se realizó BACAF que indicó carcinoma papilar metastásico, por lo cual se realizó vaciamiento modificado en combinación con tiroidectomía total. La enfermedad reportó un bocio con 0 de 66 ganglios afectados. No se presentaron complicaciones de los procedimientos quirúrgicos. Hasta la fecha no hay recaída tumoral en ninguno de los casos.

## Discusión

Se ha reportado en la literatura que hasta un 1,5% de los quistes del conducto tirogloso pueden albergar un

**Tabla 1** Resultados

Edad	Sexo	Extensión	Síntomas	Tamaño cm	Nódulo tiroides	Tiroidectomía	Variedad
42	Fem	Piso boca	Odinofagia	5	Sí	Sí	Papilar folicular
38	Fem	Suprahiodea	Masa	3	Sí	Sí	Papilar usual
53	Fem	Submaxilar	Masa	5	No	No	Papilar usual
56	Masc	Hipofaringe	Disfagia	5	No	No	Papilar usual
58	Fem	Suprahiodea	Masa	4	No	Sí	Papilar usual
46	Fem	Paralaríngea	Dolor	5	No	No	Papilar usual



**Figura 1** Tomografía de cuello con contraste que evidencia una lesión heterogénea (sólida y líquida) de contorno mal definido y de localización suprahiodea derecha con compresión de la submaxilar e infiltración del piso de boca.

carcinoma. En razón de su baja frecuencia, la información sobre los hallazgos clínicos que indican malignidad es escasa.

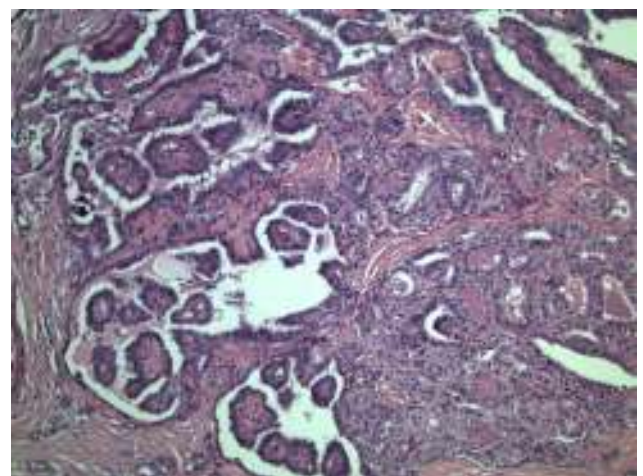
Hasta el 62% de los pacientes con carcinoma del quiste tirogloso tienen tejido tiroideo ectópico y se cree que este es el nido para la transformación neoplásica de novo. Otra teoría propone que, en realidad, el carcinoma del quiste corresponde a una metástasis, con foco primario en un cáncer oculto de tiroides<sup>3</sup>.

El quiste tirogloso se diagnostica habitualmente antes de los 10 años de edad, aunque un tercio ocurre en mayores de 20 años<sup>4</sup>. El 1,5% pueden albergar un carcinoma, usualmente incidental, descubierto en el estudio de los especímenes quirúrgicos; el 87% son papilares, 5% escamocelulares, 1,7% foliculares y 0,9% anaplásicos<sup>5</sup>. Los pacientes de esta serie no se ajustan a los datos epidemiológicos encontrados por otros y ocurrieron más frecuentemente en mujeres con una relación 6:1, pero sí con la edad media de presentación de 40 años. A la fecha solo se han reportado 22 casos en población pediátrica<sup>6</sup>.

El carcinoma tiene una manifestación clínica similar a la de los quistes benignos. De manera infrecuente presentan síntomas de disfonía o disfagia. Generalmente aparecen



**Figura 2** Resección en bloque de un carcinoma del quiste tirogloso (hueso hioides, tejidos blandos, quiste y glándula tiroides).



**Figura 3** Anatomía patológica de un carcinoma papilar clásico dentro del quiste tirogloso. Tinción Hematoxilina-eosina y aumentos 4x.

**Tabla 2** Estratificación del riesgo según Tharmabala et al.<sup>12</sup> y posterior a procedimiento de Sistrunk

	Bajo riesgo	Riesgo moderado	Alto riesgo
Edad	<40	>40	>40
Presencia de masa tiroidea	No	Sí	Sí
Tamaño de la lesión (cm)	<1	>1	>1
Histología	Tipo clásico bajo grado	Células altas, columnar, esclerosante difuso, alto grado	Células altas, columnar, esclerosante difuso, alto grado
Márgenes de resección	Libres	Comprometidos	Comprometidos
Focalidad	Unifocal	Multifocal	Multifocal
Invasión de la pared del quiste	No	Sí	Sí
Invasión nodal y vascular	No	No	Sí

como una masa asintomática en la línea media del cuello, aunque existen casos de localización lateral cervical<sup>7</sup>. En esta serie, la mayoría consultó con masa en localizaciones diferentes a la clásica. En la mayoría de los casos, los pacientes se encuentran eutiroideos. El diagnóstico de cáncer se hace usualmente después de la resección quirúrgica; son localmente invasivos el 21%, y el 11% hacen metástasis a los ganglios cervicales<sup>8</sup>.

Para el diagnóstico histológico se utilizan los criterios de Widström<sup>9</sup>, que indican que el carcinoma debe estar dentro de la pared del remanente del conducto, debe diferenciarse de una metástasis ganglionar quística mediante la demostración de una capa de epitelio escamoso y de la presencia de folículos tiroideos normales en la pared del remanente del conducto; no debe existir ningún tumor maligno en la glándula tiroides.

Las técnicas de imagen, como la ecografía, la gammagrafía y la tomografía computarizada, usualmente no son útiles para diagnosticar preoperatoriamente la malignidad. En los pacientes de esta serie se encontraron algunos hallazgos sugestivos de malignidad descritos por otros, como la presencia de una lesión mural en el quiste, a veces con microcalcificaciones, la invasión de la pared del quiste, una imagen sólida dentro del quiste o a lo largo del conducto tirogloso, o una masa compleja invasiva en la línea media<sup>10</sup>. La tomografía es útil para determinar la extensión del abordaje quirúrgico; se debe realizar a pacientes de edad avanzada, a aquellos con infección reciente o con síntomas laríngeos.

La BACAF arroja un resultado correcto solo en el 66% de los casos, pero puede usarse como una herramienta adicional para el diagnóstico<sup>11</sup>.

El abordaje terapéutico del carcinoma del quiste tirogloso es controvertido. No existe consenso con respecto a la necesidad o no de tratamientos adicionales al procedimiento de Sistrunk, como la tiroidectomía total con o sin vaciamiento ganglionar central o modificado de cuello, la terapia con yodo radioactivo y la supresión hormonal<sup>12-14</sup>. La resección quirúrgica completa del quiste, incluyendo el tracto tirogloso y la parte central del hueso hioides (técnica de Sistrunk), puede ser suficiente para el manejo definitivo. En el análisis de Patel<sup>15</sup>, el único predictor significativo de supervivencia global fue la radicalidad de la resección del quiste. Los pacientes tratados con resección simple tuvieron peor pronóstico que aquellos con el procedimiento de

Sistrunk, con una tasa general de curación superior al 95%. Otros consideran la tiroidectomía rutinaria adicional al Sistrunk en todos los pacientes por la posibilidad de cáncer de tiroides concomitante en un 11-45%, por la posible utilización posterior de yodo radioactivo y para facilitar la utilidad de la tiroglobulina para el seguimiento.

La estratificación por riesgo es una propuesta para identificar pacientes que se beneficiarían del tratamiento quirúrgico más extenso<sup>12</sup>. En presencia de una glándula tiroidea clínica e imagenológicamente normal, el procedimiento de Sistrunk sin tiroidectomía es válido en menores de 45 años sin antecedente de irradiación en el cuello, con tumor menor de 1,5 cm, sin invasión de la pared del quiste, de bajo grado, márgenes libres y sin metástasis ganglionar o distante. Se recomienda tiroidectomía en pacientes mayores de 45 años o con historia de irradiación cervical, para cualquier lesión que se encuentre en la glándula, o en tumor mayor de 1,5 cm con invasión de la pared del quiste. Cuando exista diseminación local, con compromiso ganglionar o metastásico, se recomienda el manejo similar al del cáncer papilar de tiroides.

El desafío es si complementar el procedimiento con tiroidectomía o no, cuando el reporte informa carcinoma en el quiste tirogloso. Tharmabala<sup>12</sup> propone la estratificación del riesgo en 3 categorías (tabla 2). Para bajo riesgo, observar y esperar; para riesgo moderado, tiroidectomía total, terapia supresora hormonal y yodo radioactivo y para el grupo de riesgo alto, adicionar disección ganglionar cervical. Todos deben tener seguimiento con ecografía de cuello y ser reevaluados cada 6 meses durante el primer año, y luego de forma anual. El pronóstico del carcinoma del conducto tirogloso es similar al del cáncer papilar de tiroides.

## Conclusiones

La presentación clínica y algunos hallazgos como masas de aspecto irregular que se extienden a tejidos blandos adyacentes, de localización variable incluso lateral, hacen sospechar la presencia de carcinoma, lo cual permite planear el abordaje quirúrgico apropiado previo a la cirugía. El procedimiento de Sistrunk parece ser suficiente, y solo casos seleccionados se benefician de realizar tiroidectomía o vaciamiento linfático de cuello. La estratificación tumoral



basada en el tamaño tumoral, los hallazgos histopatológicos, la invasión a tejidos adyacentes, los bordes de resección, la edad y la presencia de compromiso ganglionar o metastásico podrían ser útiles para planificar el manejo terapéutico. El seguimiento es similar al del carcinoma papilar de tiroides, generalmente basado en criterios clínicos e imaginológicos.

### Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

### Bibliografía

- Gross E, Sichel JY. Congenital neck lesions. *Surg Clin North Am.* 2006;86:383–92, ix.
- Carter Y, Yeutter N, Mazeh H. Thyroglossal duct remnant carcinoma: Beyond the Sistrunk procedure. *Surg Oncol.* 2014;23:161–6.
- Tracy TF Jr, Muratore CS. Management of common head and neck masses. *Semin Pediatric Surg.* 2007;16:3–13.
- Goins MR, Beasley MS. Pediatric neck masses. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2012;24:457–68.
- Senthilkumar R, Neville JF, Aravind R. Malignant thyroglossal duct cyst with synchronous occult thyroid gland papillary carcinoma. *Indian J Endocrinol Metab.* 2013;17:936–8.
- Choi YM, Kim TY, Song DE, Hong SJ, Jang EK, Jeon MJ, et al. Papillary thyroid carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst: A single institution experience. *Endocr J.* 2013;60:665–70.
- Yamada S, Noguchi H, Nabeshima A, Tasaki T, Kitada S, Guo X, et al. Papillary carcinoma arising in thyroglossal duct cyst in the lateral neck. *Pathol Res Pract.* 2013;209:674–8.
- Olimpia Cid M, Carvalho Martins A, Zagalo C, Leite V, Brito JA, Vera-Cruz P. Papillary thyroid carcinoma of thyroglossal duct cyst: A retrospective analysis. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord).* 2012;133(4–5):213–6.
- Widstrom A, Magnusson P, Hallberg O, Hellqvist H, Riiber H. Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1976;85(2 pt.1):286–90.
- Aculate NR, Jones HB, Bansal A, Ho MW. Papillary carcinoma within a thyroglossal duct cyst: Significance of a central solid component on ultrasound imaging. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2014;52:277–8.
- Yang SI, Park KK, Kim JH. Papillary carcinoma arising from thyroglossal duct cyst with thyroid and lateral neck metastasis. *Int J Surg Case Rep.* 2013;4:704–7.
- Tharmabala M, Kanthan R. Incidental thyroid papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst - management dilemmas. *Int J Surg Case Rep.* 2013;4:58–61.
- Pacheco Ojeda L, Caiza Sanchez A, Martinez AL. Thyroglossal duct cysts. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 1999;50:531–3 [en español].
- Alarcón RST, Ortega P, Delgado C, CasanuevaF NovoaM. Carcinoma papilar en quiste tirogloso: Reporte de 4 casos y revisión de la literatura. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello.* 2011;71:5.
- Patel SG, Escrig M, Shaha AR, Singh B, Shah JP. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst. *J Surg Oncol.* 2002;79:134–9, discussion 140-131.