

Metástasis en tejido fibroadiposo de un cáncer primario de quiste tirogloso a 23 años de su diagnóstico inicial

Mariel Altonaga¹, Aníbal Rodríguez Pecora¹, Graciela Bessone¹, Leonardo Demaría², Héctor Di Giorno²

¹Servicio de Endocrinología del Hospital Provincial del Centenario.

²Servicio de Cirugía, Sección Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Provincial del Centenario.
Rosario, Argentina.

Glánd Tir Paratir 2008; (17): 39-42

Resumen

Se presenta el caso de un paciente de 54 años de edad que consultó en octubre de 2006 por tumoración de 2 cm a nivel de la inserción esternal del esternocleidomastoideo izquierdo. Como antecedente de jerarquía, había tenido 23 años atrás una operación de Sistrunk por quiste tirogloso. Por diagnóstico anatomopatológico de carcinoma papilar de quiste tirogloso, se le efectuó ulterior tiroidectomía total sin identificar focos neoplásicos y se le administraron dos dosis terapéuticas de I¹³¹. Tres barridos de cuerpo entero con I¹³¹ posteriores fueron negativos. Entre los exámenes complementarios actuales se destacan: tiroglobulina mayor de 300 ng/ml; barrido de cuerpo entero con I¹³¹ negativo; punción aspirativa con aguja fina: negativa para células neoplásicas. La tumoración fue extirpada en marzo de 2007. La anatomía patológica informó metástasis libre en tejido fibroadiposo de cáncer papilar tiroideo. La aparición de carcinoma en el quiste del conducto tirogloso es sumamente rara, menos del 1% de los casos. Se han publicado alrededor de 250 casos en la literatura internacional.

Palabras clave: quiste tirogloso; cáncer papilar de tiroides; enfermedad metastásica

Summary

Metastasis in fibroadipose tissue of a papillary thyroid cancer originated in a thyroglossal cyst, 23 years after the original diagnosis

A 54-year-old male patient presented in October 2006 with a 2 cm lump near the sternal insertion of the left sterno-cleido-mastoid muscle. He had been operated on 23 years ago to remove a thyroglossal cyst. The pathological study informed differentiated thyroid cancer (papillary), and a total thyroidectomy was performed. The thyroid gland did not contain foci of papillary cancer. Two therapeutic doses of I¹³¹ were administered, and three whole body scans (WBS) during follow-up were negative. In the evaluation done in October 2006, serum thyroglobulin was elevated (>300 ng/ml), WBS was negative, and the fine needle aspiration cytology was negative for malignant cells. The cervical tumor was surgically removed in March 2007. It was found to be a metastasis of papillary thyroid cancer in fibroadipose tissue. Carcinomas in thyroglossal cysts are extremely rare (less than 1% of cases). There are around 250 case reports in the literature.

Key words: thyroglossal cysts; papillary thyroid cancer; metastatic disease

Se presenta el caso de un paciente de 54 años de edad con metástasis libre en tejido fibroadiposo de cáncer papilar primario de quiste del conducto tirogloso a 23 años del diagnóstico.

Caso clínico

El paciente es un varón de 54 años de edad. Consultó por primera vez al Servicio de Cirugía de Cabeza y Cuello del Hospital Provincial del Centenario en octubre de 2006 por presentar una tumoración de alrededor de 2 cm en la in-

Recibido para publicación: 28/11/07

Aceptado: 09/03/08

Correspondencia: Mariel Altonaga

e-mail: marielaltonaga@infovia.com.ar

serción esternal del esternocleidomastoideo izquierdo que había notado hacía 6 meses.

Examen físico: se palpaba tumoración dura en dicha localización. Como antecedente de jeraarquía el paciente refería haber presentado quiste tirogloso por lo que fue sometido a operación de Sistrunk en otra institución en septiembre de 1983, hace 23 años. Debido a los hallazgos histopatológicos de carcinoma papilífero tiroideo desarrollado en la pared del quiste tirogloso, con focos de infiltración de todo el espesor parietal, fue sometido a tiroidectomía total en octubre de 1983 sin identificar focos neoplásicos. Recibió dos dosis terapéuticas de I^{131} (se desconoce dosis) en 1983 y 1985. A posteriori tres barridos de cuerpo entero con I^{131} fueron negativos (en 1986, 1988 y 1990). No se cuenta con dosajes de tiroglobulina. Estaba medicado con 200 $\mu\text{g}/\text{día}$ de levotiroxina al momento de la consulta.

Exámenes complementarios: la ecografía de partes blandas (setiembre de 2006) informó "Masa ocupante de espacio en región cervical izquierda en proyección de la tumoración palpable, de características mixtas, predominantemente sólida, sumamente heterogénea, con algunas áreas focales líquidas, que presenta vasos tortuosos en su interior con dimensiones de 22 x 24 mm. No se identifican adenopatías láaterocervicales". La punción aspirativa con aguja fina fue negativa para células neoplásicas.

Tiroglobulina sérica: mayor a 300 ng/ml. Anticuerpos antimicrosomales y antitiroglobulina negativos (método: aglutinación de partículas de gelatina).

Barrido de cuerpo entero con 2 milicurios de I^{131} : no se detectó concentración del trazador en proyección del nódulo cervical en estudio, ni en el resto del organismo que pudiese sugerir la presencia de tejido tiroideo captante. En marzo de 2007 fue intervenido quirúrgicamente (Figuras 1-2). Se le extirpó una tumoración de 3,5 x 3,0 cm, cuyo informe anatomopatológico fue: "Metástasis libre en tejido fibroadiposo de carcinoma papilar altamente compatible con origen tiroideo. No se identifican ganglios linfáti-

cos. El estudio de márgenes demuestra que focalmente existe contacto con la lesión".

Análisis mayo de 2007

- Anticuerpos antitiroglobulina: negativos.
- TSH: 98 $\mu\text{UI}/\text{ml}$.
- Tiroglobulina estimulada: 0,67 ng/ml. Recibió dosis terapéutica de 200 milicurios de I^{131} en mayo de 2007, con barrido de cuerpo entero a los 7 días, no definiéndose acúmulos focales anormales que pudiesen sugerir la presencia de tejido tiroideo. Actualmente en tratamiento con levotiroxina, 150 $\mu\text{g}/\text{día}$.



Figura 1. Exéresis quirúrgica de la metástasis en tejidos blandos del cuello.



Figura 2. Metástasis en tejidos blandos. Microscopía. Pieza quirúrgica seccionada

Consideraciones

Durante la embriogénesis las células que van a constituir la tiroides migran desde la base de la lengua hasta la base anterior del cuello a tra-

vés del conducto tirogloso. Éste se forma a partir de la 4ª semana de la vida embrionaria y se oblitera entre la 8ª y la 10ª semana. El quiste del conducto tirogloso es una anomalía congénita resultado de la retención del tracto epitelial entre la tiroides, el *foramen coecum* y el piso de la faringe. Estos remanentes embriológicos se encuentran presentes en el 7% de los adultos. Está revestido internamente por epitelio columnar ciliado, que evoluciona hacia un epitelio cuboide capaz de sufrir metaplasia escamosa y contener tejido tiroideo ectópico en el 5 al 62% de los casos¹. Los quistes del conducto tirogloso se ubican a lo largo del trayecto entre el vértice de la V lingual y la ubicación definitiva de la glándula tiroides sobre los 2º y 3º anillos traqueales¹. Son más frecuentes en la infancia y la adolescencia, con igual distribución entre los sexos. Constituyen el 70% de los quistes cervicales en la infancia. Más del 50% se presentan en niños menores de 10 años. Ante un quiste del conducto tirogloso corresponde efectuar un examen físico exhaustivo, ecografía del cuello, punción aspirativa con aguja fina y de ser necesario tomografía axial computada. Los carcinomas del quiste tirogloso son raros (1-2%)^{2,3}. Los primeros casos fueron descritos por Brantano en 1911⁴ y Uchermann en 1915⁵. Hasta el año 2006 fueron publicados alrededor de 250 casos en la literatura internacional^{6,7}. La incidencia en mujeres es levemente superior a la observada en hombres⁸. Si bien se han informado casos entre los 6 y 75 años de edad⁹, son más frecuentes entre los 40 y 60 años⁷. La causa de la transformación maligna es desconocida. Se origina del tejido tiroideo que constituye esta lesión. Se sospechará una lesión maligna ante la presencia de un tumor sólido, adenopatías cervicales asociadas, disfagia y/o disfonía. Es aconsejable la exéresis de todos los quistes del conducto tirogloso en adultos⁸. La ecografía es de fácil realización, inocua, de bajo costo y permite evaluar simultáneamente la tiroides, el quiste del conducto tirogloso y las cadenas ganglionares cervicales. La punción aspirativa con aguja fina del quiste tirogloso bajo guía ecográfica es un método de baja sensibilidad, con un alto porcentaje de falsos negativos (hasta el 44%). Contribuyen a ello la localización del tumor en una sola área de la

pared del quiste, su pequeño tamaño, si se trata de un nódulo mural o calcificación, así como la hipocelularidad del aspirado por dilución con el contenido del quiste. La tomografía axial computada puede brindar datos de sospecha de malignidad como gran tamaño, multilobulación y la presencia de calcificaciones. El tratamiento quirúrgico del quiste tirogloso es la extirpación con la técnica de Sistrunk, que consiste en resecar el quiste y el conducto con la parte media del hueso hioides con disección ascendente hasta el conducto lingual y en forma descendente hasta descubrir la pirámide de Lalouette. Para el diagnóstico de carcinoma primario de quiste tirogloso se debe encontrar epitelio ductal al lado del tejido carcinomatoso, siendo obviamente normal la glándula tiroides. La mayoría de los diagnósticos son brindados por el examen patológico de la pieza operatoria. En relación a los tipos histológicos el más frecuente es el carcinoma papilar (75-85%)¹⁰. Le siguen: carcinoma mixto papilar-folicular 7%; carcinoma de células escamosas o epidermoide 5% (peor pronóstico); carcinoma folicular 1%; carcinoma anaplásico menos del 1%. También se han descrito carcinoma aislado de células de Hürthle; carcinoma mixto papilar/escamoso y medular⁴. Los tumores localizados cerca del *foramen caecum* tienden a ser carcinomas de células escamosas, mientras que los ubicados más abajo suelen ser carcinomas papilares⁹. En presencia de carcinoma no existe consenso respecto a la necesidad de tiroidectomía total, dosis terapéutica de I¹³¹ y tratamiento con levotiroxina. El tumor suele crecer lentamente y permanece circunscripto por un largo período, e incluso con metástasis la mayoría de las muertes obedecen a otras causas. La invasión directa del hueso hioides ocurre en el 30%. Las metástasis en ganglios cervicales ocurre en el 7% contra el 87% observado en el carcinoma de tiroides. El pronóstico es favorable y semejante al del cáncer papilar de tiroides⁹. La mortalidad es baja, menor del 2% a los 5 años⁶. Algunos autores sugieren la tiroidectomía total cuando el carcinoma del quiste tirogloso es mayor de 1 cm o cuando la invasión está más allá de la pared del quiste. Otros autores sugieren asociar la tiroidectomía total como tratamiento complementario en el carcinoma del quiste

tirogloso dada la prevalencia hallada de focos de carcinoma intratiroideo (11-25%)⁴ asumiendo que el carcinoma puede ser multifocal y puede existir invasión linfática de la tiroides¹¹, también para facilitar la ablación con I¹³¹ y con el fin de optimizar el seguimiento posterior con determinaciones de tiroglobulina como marcador tumoral¹² y de barridos de cuerpo entero con I¹³¹ con fines diagnósticos y terapéuticos¹. Las metástasis cervicales también deben ser reseadas. El riesgo de recurrencias y metástasis regionales es bajo, de alrededor del 2 al 7%⁴, inferior al cáncer papilar de tiroides. La presencia de metástasis a distancia es menor del 2%. Boswell y col. han informado que sobre un total de 108 pacientes, dos de ellos presentaron metástasis a distancia en pulmón e hígado¹³. El carcinoma epidermoide tiene peor pronóstico y se recomienda en estos casos radioterapia postoperatoria.

El interés de este caso es que se trata de un varón (los carcinomas suelen ser más frecuentes en mujeres), con diagnóstico inicial a los 30 años de edad (más frecuentes entre los 40 y 60 años) que fue sometido a operación de Sistrunk, tiroidectomía total complementaria y dosis ablativa con I¹³¹ y que presenta metástasis libre en tejido fibroadiposo a 23 años del diagnóstico primario.

Bibliografía

1. Storani M E, Vázquez A, Alcaraz G: Carcinoma tiroideo en quiste tirogloso: estudio multicéntrico: reporte de 22 casos. *Rev Arg Endocrinol Metab* 2005; 42: 51-53.
2. Kazemi M, Assadi M, Kazemi AA, Ghazvini LA: Primary papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst. *Hell J Nucl Med* 2006; 9: 241-247.
3. Zivaljevic V, Bozic V: Papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst. *Acta Chir Belg* 2006; 106: 252-253.
4. Vegas Y, Goubaira J E, Perfetti W, Scarton López J, López J G, Mora V: Cáncer papilar primario en quiste del conducto tirogloso: A propósito de un caso. *Rev Venez Oncol* 2006; 18: 49-53.
5. Montero García C, Keituqwa Yañez T, Alvarez Domínguez J, Marqués Rebollo L, Blasco Huelva A: Carcinoma papilar sobre quiste de conducto tirogloso. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2001; 52: 75-78.
6. Cannizaro MA, Costanzo M, Fiorenza G, Cavallaro A, Galasso M G, Arcerito M C, Marziani A, Cannizaro M T, Veroux M: Papillary carcinoma in an isthmic thyroglossal duct cyst: clinical considerations. *Chir Ital* 2006; 58: 105-111.
7. Tan G C, Shiran M S, Swaminathan M, Phang K S, Clarence-Ko CH, Jeevanan J. Papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst in 15- year- old girl. *Int J Ped Otorhinol Extra* 2007; 2: 72-75.
8. García Iyán V, Arzuaga Anderson I, Alvarez Navarro M del C, Alfonso Barrios G: Carcinoma papilar tiroideo originado en la pared de un quiste tirogloso. Reporte de un caso. *Rev Cubana Oncol* 2001; 17: 124-127.
9. Herter NT: Quistes, fístulas y neoplasias del conducto tirogloso. En: Novelli JL, Sánchez A (eds) *Patología Quirúrgica de la Glándula Tiroides*. Rosario; UNR Editora, 1997. Pp 35-43.
10. Srinivasan R, Ranjini K, Vadhiraja B M: Primary papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst- a case report. *Indian J Pathol Microbiol* 2005; 48: 228-230.
11. Falvo L, Giacomelli L, Vanni B, Marzolio A, Guerriero G, De Antoni E: Papillary thyroid carcinoma in thyroglossal duct cyst: case report and literature review. *Int Surg*, 2006; 91: 141-146.
12. Echenique Elizondo M. Cáncer tiroideo sobre quiste de conducto tirogloso. *Cirugía Esp* 2000; 67: 567-571.
13. Boswell WC, Zoller M, Williams JS, Lord SA, Check W. Thyroglossal duct carcinoma. *Am Surg* 1994; 60: 650-655.