

Metástasis ganglionar cervical bilateral de un cáncer originado en un quiste tirogloso

Bilateral lymph node metastases from a thyroglossal duct cyst carcinoma

Gustavo J. Armand Ugon , Cecilia Chambón , Daniel A. González 

Clínica Quirúrgica 3,
Facultad de Medicina,
Universidad de la
República, Montevideo,
Uruguay.

Nombre y dirección de
correo electrónico;
Gustavo J. Armand
Ugon. gusad@adinet.com.uy

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.

Conflicts of interest
None declared.

Correspondencia
Correspondence:
Gustavo J. Armand Ugon
E-mail:
gusad@adinet.com.uy

RESUMEN

Presentamos una paciente de 47 años, sexo femenino, tiroidectomía total por bocio multinodular hace 20 años. Consulta por adenomegalias yúgulo-carotídeas bilaterales cuya citopunción evidenció metástasis ganglionar bilateral de cáncer papilar de tiroides. Ecografía y tomografía evidenciaron quiste tirogloso. Cirugía: operación de Sistrunk más vaciamiento cervical central y bilateral selectivo. Anatomía patológica: cáncer papilar de tiroides en quiste tirogloso, adenomegalias metastásicas. El 5-7% de los quistes tiroglosos tienen tejido tiroideo, el 1% de ellos desarrollarán carcinoma, y de estos, un 7-15% presentarán metástasis ganglionar cervical. Informamos una patología infrecuente con una inusual presentación clínica: adenomegalias cervicales bilaterales, cuya citopunción orientó la búsqueda del tumor primario.

■ **Palabras clave:** quiste tirogloso, cáncer de tiroides, carcinoma papilar.

ABSTRACT

We report the case of a 47-year-old female patient with a history of total thyroidectomy 20 years before due to multinodular goiter, with palpable jugular-carotid lymph nodes in both side of the neck. The fine needle aspiration biopsy revealed bilateral lymph node metastases of a papillary thyroid carcinoma. A thyroglossal duct cyst was found on ultrasound and computed tomography scan. Surgery: Sistrunk procedure plus selective central and bilateral selective neck dissection. Pathology report: papillary thyroid carcinoma in a thyroglossal duct cyst with lymph node metastases. Thyroid gland tissue may be present in 5-7% of thyroglossal duct cysts; 1% may develop cancer and cervical lymph node metastases will occur in 7-15%. We report a rare condition with unusual clinical presentation: bilateral enlargement of neck lymph nodes with a positive fine needle aspiration biopsy that guided the search for the primary tumor.

■ **Keywords:** thyroglossal cyst, thyroid cancer, papillary carcinoma.

Recibido | Received
22-12-20
Aceptado | Accepted
12-03-21

ID ORCID: Gustavo J. Armand Ugon, 0000-0003-2636-0867; Cecilia Chambón, 0000-0001-9388-8886; Daniel A. González, 0000-0003-3916-9201.

La glándula tiroides se desarrolla entre las semanas 3^a y 4^a del embrión, a partir de un acúmulo de células endodérmicas en la faringe, a nivel del agujero ciego (vértice de la "V" lingual). Desciende hacia el cuello, hasta su ubicación definitiva, permaneciendo vinculada al agujero ciego por el conducto tirogloso que desaparece entre las semanas 8^a y 10^a. El conducto tirogloso se oblitera, originando el tracto tirogloso, que persiste en el 7% de los adultos. La falta de obliteración del tracto tirogloso, generalmente parcial, origina el quiste tirogloso^{1,2}.

Los quistes tiroglosos son la patología congénita más frecuente del cuello¹. El 70% de los quistes tiroglosos se topografían en la línea media, mientras que el 80% son infrahioideos¹⁻⁴.

Solo el 7% de los quistes tiroglosos se diagnostican en el adulto. La presentación clínica más frecuente corresponde a una tumoración del cuello, sobre la línea media, que asciende cuando el paciente saca la lengua, no habiendo diferencias entre la presentación

clínica de las lesiones benignas y las malignas (estas últimas generalmente son un hallazgo anatomopatológico posoperatorio)¹⁻⁵.

El 5 al 7% de los quistes tiroglosos contienen tejido tiroideo, pero solo en 1/3 de los casos es funcional.

El 1% de los quistes tiroglosos desarrollarán un carcinoma y el 94% de ellos se presentarán en adultos, incidencia que es algo mayor ya que, a diferencia de los niños, no todos los quistes tiroglosos del adulto se operan. El carcinoma del quiste tirogloso es más frecuente en mujeres (relación 2 a 1) y entre los 20 y los 50 años².

Presentamos el caso de una paciente de 47 años, sexo femenino, con antecedente de cirugía tiroidea, tiroidectomía total, realizada hace 20 años por bocio multinodular. En eufunción tiroidea, tratada con T4 100 µg/día. En control y seguimiento con endocrinólogo se palpan adenomegalias yúgulo-carotídeas bilaterales, cuya citopunción diagnosticó metástasis ganglionar bilateral de un cáncer papilar de tiroides.

La ecografía y la tomografía de cuello evidenciaron nódulo sólido quístico, mal delimitado, ligeramente redondeado, de 2 cm de diámetro, de paredes irregulares, inmediatamente por delante de la membrana tirohioidea, parcialmente cubierto por músculo tirohioideo derecho, con características de quiste del tracto tirogloso y múltiples adenomegalias yúgulo-carotídeas bilaterales, prelaríngeas y pretraqueales.

En la topografía referida se palpa nódulo sin las características semiológicas de un quiste del tracto tirogloso, que interpretamos como consecuencia de la relación del nódulo con el músculo tirohioideo derecho (que lo cubre parcialmente y, por tanto, lo fija).

El abordaje quirúrgico se realizó por una cervicotomía transversa tipo Kocher, de la cirugía previa, más cervicotomía oblicua preesternocleidomastoideo bilateral. Se resecó el quiste tirogloso con técnica de Sistrunk (Fig. 1) y se realizó el vaciamiento ganglionar cervical selectivo del compartimento central y los compartimentos laterales derecho e izquierdo.

El posoperatorio transcurrió con buen nivel de analgesia y sin cambios en la voz. Presentó un hipoparatiroidismo transitorio que requirió tratamiento con calcio y vitamina D, vía oral, por 25 días. En control en policlínica constatamos cicatrización queloide, con mal resultado estético.

La anatomía patológica confirmó un cáncer papilar de tiroides en quiste tirogloso y compromiso ganglionar central y bilateral (5 ganglios de 74 reseca-dos). Del informe anatomopatológico destacamos: se reconoce una proliferación epitelial atípica con patrón arquitectural papilar y folicular, construida por células con citoplasma eosinófilo y núcleos sobremontados, con aspecto ópticamente vacío y membrana nuclear gruesa. Se reconoce epitelio simple revistiendo pared de cavidad en la periferia de la referida proliferación epitelial.

Este resultado anatomopatológico descarta otros diagnósticos diferenciales de una tumoración de la línea media anterior de cuello, como quiste epidermoide, dermoide, o teratoide, lipoma, linfangitis, o la patología del lóbulo piramidal de la glándula tiroides que, tal como plantea Montesinos⁶, puede no identificarse y por tanto no extirparse durante una tiroidectomía. Esta persistencia del lóbulo piramidal podría desarrollar patología tiroidea tanto benigna como maligna.

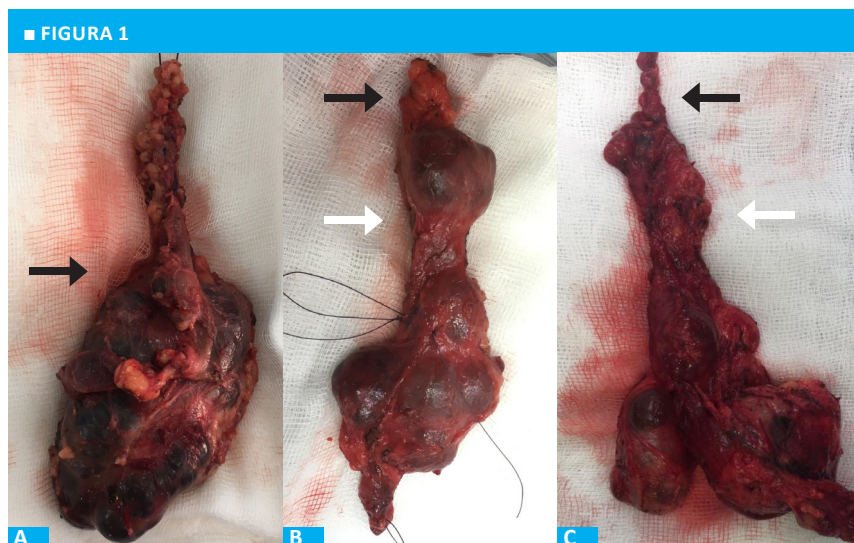
La primera publicación de un carcinoma de un quiste tirogloso fue realizada en 1911 por Brentano, seguida por la de Ucherman en 1915. Se contabilizan unos 280 casos publicados hasta el año 2015⁴. El tipo papilar es el más frecuente (85%), seguido por escamocelular (6%) y el folicular (3%); el resto corresponden al tipo mixto, anaplásico y de células de Hürtle^{1,4}.

El 27% de los carcinomas de un quiste tirogloso presentarán un cáncer tiroides sincrónico; el 7 al 15%, metástasis ganglionares y el 1,3%, metástasis a distancia^{1-3,5}.

Dos teorías intentan explicar el desarrollo del carcinoma de un quiste tirogloso. La más aceptada es el crecimiento "de novo" a partir del tejido tiroideo presente en el quiste. La otra plantea que se trata de metástasis de un cáncer de la glándula tiroides²⁻⁴.

El carcinoma de un quiste tirogloso es de crecimiento lento, con bajo grado de malignidad; la mayoría permanecen en etapa local. Las metástasis ganglionares son poco frecuentes y tardías, y le caben las mismas consideraciones, en cuanto a diagnóstico y tratamiento, que a las originadas a partir de un cáncer de la glándula tiroides^{1,3}.

Los quistes tiroglosos se estudian con ecografía de cuello que permite evaluar, además, la glándula tiroides y eventuales adenomegalias. Los quistes que presentan ecoestructura sólido-quística, crecimiento hacia la cavidad del quiste o paredes irregulares pueden ser malignos y deben estudiarse con citopunción



A: Quiste y tracto tirogloso, cuerpo del hueso hioides (flecha negra).

B: Vaciamiento lateral derecho, apical (flecha negra), borde externo (flecha blanca).

C: Vaciamiento lateral izquierdo, apical (flecha negra), borde externo (flecha blanca).

ecoguiada (orientada hacia la zona de paredes irregulares y/o los referidos crecimientos)^{1,2,5}.

El tratamiento más aceptado, y considerado suficiente, para el carcinoma de un quiste tirogloso consiste en la resección mediante la operación de Sistrunk, con una tasa general de curación superior al 95%⁴. La existencia de ganglios metastásicos obliga a realizar un vaciamiento ganglionar cervical siguiendo los mismos principios oncológicos que en el cáncer diferenciado de tiroides^{1, 4}.

La realización de tiroidectomía total, además de la operación de Sistrunk, seguida de radioyodo y hormonoterapia supresiva en el posoperatorio, es controvertida. Se justificaría por la posibilidad de cáncer de tiroides

concomitante y, además, facilitaría el seguimiento con tiroglobulina, y el uso de radioyodo (sea como herramienta diagnóstica o terapéutica o ambas). Existe una clasificación de riesgo, con 3 categorías (presentada en la Tabla 1), que ayuda en la toma de decisiones una vez confirmado el carcinoma de un quiste tirogloso^{1,2,4}.

Describimos una patología infrecuente, el carcinoma de un quiste tirogloso, con una inusual presentación clínica sin la semiología característica de los quistes tiroglosos, en una paciente tiroidectomizada por bocio multinodular 20 años antes. La citopunción de adenomegalias cervicales bilaterales, metastásicas para cáncer de tiroides, orientó los estudios diagnósticos y definió la terapéutica.

■ TABLA 1

Clasificación de riesgo

	Bajo riesgo	Moderado riesgo	Alto riesgo
Edad	Menor 40 años	Mayor de 40 años	Mayor de 40 años
Presencia de nódulo tiroideo	No	Sí	Sí
Tamaño del QTG	Menor 1 cm	Mayor 1 cm	Mayor 1 cm
Histología	Tipo clásico de 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

Tomado de: Tharmabala M, Kanthan R. Incidental thyroid papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst, management dilemmas. Int J Surg Case Rep. 2013;4:58-61.

■ ENGLISH VERSION

The thyroid gland development starts between the 3rd and 4th weeks of gestation as a proliferation of endodermal cells of the pharynx at the level of the foramen cecum (in the apex of tongue). From there, it descends to the neck to its final position and remains connected to the foramen cecum by the thyroglossal duct, which involutes and atrophies between 8 and 10 weeks of gestation¹. The thyroglossal duct obliterates forming the thyroglossal tract which persists in 7% of adults. The lack of obliteration of the thyroglossal tract, generally partial, gives rise to thyroglossal duct cysts^{1,2}.

Thyroglossal duct cysts are the most frequently congenital anomalies of the neck¹. In 70% of the cases, they present as midline neck cysts and 80% occur at the infrahyoid level.

Only 7% of thyroglossal duct cysts are diagnosed in adults. The most common clinical presentation corresponds to a midline neck mass that elevates with tongue protrusion. There are no differences in the clinical presentation of benign or malignant lesions, which are generally diagnosed postoperatively with the pathological report¹⁻⁵.

Thyroid gland tissue may be present in 5-7% of thyroglossal duct cysts, but only 1/3 of them contain functioning thyroid tissue.

One percent of thyroglossal duct cysts will undergo neoplastic transformation and 94% will occur in adults. This incidence is somewhat higher because not all thyroglossal duct cysts are resected in adults as they are in children. Thyroglossal duct cyst carcinomas are more common in women (female-to-male ratio 2:1) between 20 and 50 years².

We report the case of a 47-year-old female patient with a history of surgery of the thyroid gland (total thyroidectomy) 20 years before due to multinodular goiter. The patient was receiving T4 100 µg/day and was clinically euthyroid. During a follow-up visit, the endocrinologist palpated enlarged jugular-carotid lymph nodes in both side of the neck. The fine needle aspiration biopsy revealed bilateral lymph node metastases of a papillary thyroid carcinoma.

The ultrasound and computed tomography scan of the neck demonstrated the presence of a poorly defined, slightly round cystic nodule with solid

component, with a diameter of 2 cm and irregular margins, immediately anterior to the thyrohyoid membrane. The nodule was partially covered by the right thyrohyoid muscle and had the features of a thyroglossal duct cyst. Bilateral jugular-carotid, pretracheal and prelaryngeal lymph nodes were also present.

On palpation, the nodule did not have the characteristics of a thyroglossal duct cyst, which we interpreted because of the relationship of the nodule with the right thyrohyoid muscle (which partially covered the nodule and was thus attached to it).

On surgery, the nodule was approached using the transverse collar incision (Kocher cervicotomy) of the previous surgery plus bilateral oblique cervicotomy along the anterior border of the sternocleidomastoid muscle. The thyroglossal duct cyst was resected using the Sistrunk procedure (Fig. 1) with selective neck dissection of the central compartment and of the right and left lateral compartments.

The postoperative period was well tolerated with adequate analgesia and no voice changes. The patient presented a transient hypoparathyroidism that required treatment with oral calcium and vitamin D for 25 days. During follow-up in the outpatient clinic a keloid scar with poor esthetic result was visible.

The pathology report confirmed the presence of a papillary thyroid carcinoma in a thyroglossal duct cyst with involvement of the central and lateral lymph nodes (5 positive lymph nodes of the 74 resected). The outstanding findings of the pathology report were an atypical epithelial proliferation with papillary and follicular architecture, made up of cells with eosinophilic cytoplasm and nuclear overlapping, optically clear nuclei and thickened nuclear membrane. Simple epithelium could be recognized lining the wall of the cavity at the periphery of the epithelial proliferation.

This anatomopathological finding excludes

other differential diagnoses of anterior midline neck masses, as epidermoid cyst, dermoid cyst, or teratoid cyst, lipoma, lymphangitis, or disorders of the pyramidal lobe of the thyroid gland, which, as Montesinos⁶ suggested, may not be identified and therefore not removed during a thyroidectomy. The persistence of the pyramidal lobe can lead to the development of benign or malignant tumors of the thyroid gland.

Brentano in 1911 and Uchermann in 1915 were the first to describe a thyroglossal duct cyst carcinoma. About 280 cases have been published by 2015⁴. Papillary thyroid carcinoma is the most common type (85%), followed by squamous cell carcinoma (6%) and follicular neoplasm (3%); carcinoma with mixed features, anaplastic carcinoma and Hurthle cell type have also been reported^{1,4}.

Thyroglossal duct cyst carcinoma with synchronous thyroid gland carcinoma occurs in 27% of the cases. The incidence of lymph node metastases ranges between 7 and 15%, and 1.3% of the cases present distant metastases.

Two theories attempt to explain the development of thyroglossal duct cyst carcinoma. The most accepted theory is that the carcinoma is more likely to have developed de novo within the thyroglossal duct cyst. For the other theory, the carcinoma develops from a metastasis of a thyroid carcinoma^{2,4}.

Thyroglossal duct cyst carcinomas are slow-growing tumors with low grade of malignancy. Most tumors do not spread beyond their original location. Lymph node metastases are rare and occur late during disease progression. When they develop, their diagnosis and treatment is the same as lymph node metastases of a thyroid carcinoma^{3,3}.

The evaluation of thyroglossal duct cysts requires ultrasound of the neck that also provides assessment of the thyroid gland and lymph nodes. Those cysts with solid components growing inside or



A: Thyroglossal duct cyst and tract, hyoid bone body (black arrow).

B: Right lateral neck dissection, apex (black arrow), external border (white arrow).

C: Left lateral neck dissection, apical (black arrow), external border (white arrow).

with irregular borders may be malignant and should be evaluated with ultrasound-guided fine needle aspiration biopsy (obtaining the sample from the irregular borders and solid components).

The Sistrunk procedure is the most widely accepted treatment for thyroglossal duct cyst carcinoma and is curative, with an overall success rate > 95%⁴. The presence of lymph node metastases requires cervical lymph node clearance following the same oncologic principles as in differentiated thyroid cancer^{1,4}.

The use of total thyroidectomy in addition to the Sistrunk procedure, followed by postoperative radioactive iodine and suppressive hormone therapy, is controversial. It would be justified by the possibility of concomitant thyroid cancer, and, in addition, it would

facilitate follow-up with thyroglobulin and the use of radioactive iodine (either as a diagnostic tool or a therapeutic tool or both). Table 1 presents a model for risk stratification of these patients in three categories to help in decision-making once the diagnosis of thyroglossal duct carcinoma has been confirmed^{1,2,4}.

We have described a case of an uncommon condition, thyroglossal duct cyst carcinoma, with an unusual clinical presentation without the characteristic signs of thyroglossal duct cysts, in a female patient who had undergone thyroidectomy for multinodular goiter 20 years before. Fine needle aspiration biopsy of the bilateral cervical lymph nodes provided the diagnosis of metastatic thyroid cancer, guided the diagnostic tests, and defined the therapeutic approach.

■ TABLE 1

	Classification of risk		
	Low risk	Moderate risk	High risk
Age	< 40 years	> 40 years	> 40 years
Thyroid mass	No	Yes	Yes
Size of lesion	< 1 cm	> 1 cm	> 1 cm
Histology	Classical, low grade	Tall cell, columnar, diffuse sclerosing, high grade	Tall cell, columnar, diffuse sclerosing, high grade
Resection margins	Free	Involved	Involved
Focal lesion	Unifocal	Multifocal	Multifocal
Cyst wall invasion	No	Yes	Yes
Lymph node/vascular invasion	No	No	Yes

From Tharmabala M, Kanthan R. Incidental thyroid papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst, management dilemmas. *Int J Surg Case Rep.* 2013;4:58-61.

Referencias bibliográficas /References

1. Patrucco M, Faure E, Nistal C, Moldes S y col. Carcinoma papilar en quiste tirogloso. Propuesta de algoritmo diagnóstico y terapéutico. *Revista FASO.* 2015; 22(1):63-9.
2. Storani M, Vázquez A, Cabezón C, Deutsch S y col. Carcinoma en quiste tirogloso. *REAM.* 2010;47(3):18-24.
3. Cabané P, Gac P, Rodríguez F, Morales C y col. Carcinoma papilar de tiroides en quiste del conducto tirogloso. *Rev Chil Cir.* 2015;67(2):141-6.
4. Chala A, Álvarez A, Sanabria Á, Gaitán A. Carcinoma papilar primario en el quiste tirogloso. Serie de casos y revisión de la literatura. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2016;67(2):102-6.
5. Doshi S, Cruz R, Hilsinger R. Thyroglossal duct carcinoma: a large case series. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2001;110:734-8.
6. Montesinos M, Ferro P, Quadri P, Lotti A. Patología en el lóbulo piramidal de la tiroides. *Rev Argent Cirug.* 2015;107(2):72-4.