

PRESENTACIÓN DE CASO

Carcinoma papilar primario derivado de tejido tiroideo ectópico en tráquea

FRANCISCO HERRERA¹, SANDRA HERRERA², KATHERINE REDONDO², CARLOS OSORIO³,
ALBERTO FERNÁNDEZ³, JUAN GRICE³

Palabras clave: glándula tiroides; neoplasias de la tiroides; tráquea; neoplasias de la tráquea; carcinoma papilar.

Resumen

El carcinoma tiroideo originado en tejido tiroideo ectópico es una entidad clínica poco común; son lesiones que se presentan generalmente como una masa en la línea media, que se desarrolla a partir de un remanente del conducto tirogloso. El hallazgo de una lesión maligna en un verdadero tejido tiroideo aberrante es inusual. Ante su poca frecuencia, se presenta el caso de una paciente en quien se diagnosticó un carcinoma papilar primario derivado de tejido tiroideo ectópico en tráquea.

Introducción

El tejido tiroideo ectópico es una condición rara, producto de la ausencia o de anomalías en la migración del primordio tiroideo desde el agujero ciego hasta su posición anterior en la tráquea¹. Se estima que se presenta en 1 de cada 200.000 personas, cifra que puede aumentar considerablemente hasta 1 de cada 6.000 pacientes con enfermedad tiroidea².

Estas anomalías se clasifican en ectopias tiroideas clásicas y en ectopias tiroideas accesorias o aberrantes, dependiendo de si se ubican o no en la línea de descenso embrionario del primordio tiroideo³. De las formas clásicas, la ubicación lingual es la más común (80 a 90 %) ^{4,5} y, en estos casos, el tejido ectópico constituye el único esbozo funcional de la glándula ⁶⁻⁸. El quiste del conducto tirogloso, también denominado tejido tiroideo ectópico sublingual, se presenta en 2 a 3 % de los casos⁹. En cuanto a las ectopias aberrantes, las subglótico-traqueales, también llamadas cervicales mediales, son las más comunes con una frecuencia de 6 a 7 % ¹⁰, seguidas de las ectopias cervicales laterales, en las cuales se encuentra tejido tiroideo ectópico en ganglios y fascias cervicales, con una frecuencia de 2 a 3 % ¹¹. Sin embargo, cuando existe un exceso de migración, es posible encontrar tejido tiroideo aberrante en órganos intratorácicos e intraabdominales, situación que se presenta en menos de 1 % de todos los casos ¹².

- 1 Médico, cirujano general; docente, Sección de Cirugía General, Facultad de Medicina, Universidad de Cartagena, Cartagena, Colombia; cirujano de Cuello, E.S.E Hospital Universitario del Caribe, Cartagena, Colombia; Grupo de Investigación Scalpelli, Cartagena, Colombia
- 2 Médica patóloga; docente, Sección de Patología, Facultad de Medicina, Universidad de Cartagena, Cartagena, Colombia; Laboratorio de Citopatología, E.S.E Hospital Universitario del Caribe, Cartagena, Colombia; Grupo de Investigación Scalpelli, Cartagena, Colombia
- 3 Estudiante de pregrado, Facultad de Medicina, Universidad de Cartagena, Cartagena, Colombia; Semillero de Investigación Scalpelli, Cartagena, Colombia

Fecha de recibido: 20 de octubre de 2014

Fecha de aprobación: 27 de enero de 2015

Citar como: Herrera F, Herrera S, Redondo K, Osorio C, Fernández A, Grice J. Carcinoma papilar primario derivado de tejido tiroideo ectópico en tráquea. Rev Colomb Cir. 2015;30:62-67.

Revisión del tema

Los casos en que se presentan carcinomas en tejido diferente al tiroideo nativo son raros. La mayoría de

los casos descritos se presentan como una masa en la línea media y se desarrollan a partir de un remanente del conducto tirogloso¹³⁻¹⁵; no obstante, el hallazgo de una lesión maligna en un tejido tiroideo ectópico aberrante, es verdaderamente inusual¹⁶. Hasta la fecha, se han descrito varios tipos de proliferaciones malignas en tejido tiroideo ectópico, siendo el carcinoma papilar la más común^{17,18}.

La tiroides ectópica es una alteración congénita infrecuente, resultado de la migración defectuosa de la tiroides desde su posición inicial embriológica, el agujero ciego (*foramen caecum*), hasta su ubicación final pretraqueal¹⁹. Por tanto, el tejido tiroideo ectópico puede quedar en cualquier localización a lo largo de su recorrido de migración. Su incidencia clínica se estima en 1 de cada 200.000 pacientes, aproximadamente, y la mayoría de los casos se diagnostica entre la tercera y la quinta década de la vida.

Ziemssen fue quien reportó en 1875 el primer caso de tejido tiroideo ectópico de ubicación subglótico-traqueal en un paciente cuya principal manifestación clínica consistía en obstrucción de la vía aérea superior^{20,21}. En 1947, Thoren hizo una revisión de 79 casos que habían sido descritos previamente, logrando estimar en gran medida la frecuencia de esta condición²²; pero, solo en 1953, Gilbert describió que esta condición correspondía a 7 % de las lesiones intratraqueales, aclarando que incluso podría ser más frecuente²³. En 1988, Heise fue el primero en llevar a cabo la resección quirúrgica de uno de estos tumores mediante incisión traqueal y raspado (*curettage*)²⁴.

A pesar de no existir una explicación satisfactoria sobre la etiología del tejido tiroideo ectópico subglótico-traqueal, se encuentran dos importantes teorías que pretenden explicar dicha condición. La primera de ellas, denominada teoría de la malformación, propone que el desarrollo tardío de los anillos de cartílago traqueal, divide la glándula tiroides y aísla un pequeño nido de tejido en la luz traqueal²⁵. La segunda propone que el tejido tiroideo en desarrollo es capaz de invadir los anillos de cartílago traqueal ya formados, lo cual se conoce como la teoría del crecimiento²⁶. Estas teorías, a pesar de ser planteadas a finales del siglo XIX, en la actualidad son objeto de debate.

Hasta la fecha, se han reportado pocos casos de carcinomas primarios en tiroides ectópicas traqueales. En 1979, se reportó un caso de una paciente con una lesión maligna generada de tejido tiroideo ectópico ubicado en la submucosa traqueal, la cual fue sometida a tiroidectomía total más laringotomía parcial²⁷. Posteriormente, en 1999, Har, *et al.*, describieron el caso de una variante de células altas del carcinoma papilar que se derivaría de un tejido tiroideo ectópico ubicado en la submucosa traqueal en un paciente cuyos síntomas consistían únicamente en disnea asociada a estridor²⁸. A diferencia de los casos anteriores, nuestro diagnóstico tuvo confirmación inmunohistoquímica y se practicó resección total de la glándula tiroides, cuya evaluación histopatológica confirmó la ausencia de lesión maligna.

En cuanto a las manifestaciones clínicas, se destacan cuadros de disnea progresiva como el síntoma más común, acompañado o no de tos y disfonía²⁹, mientras que la hemoptisis es un síntoma poco común que, en caso de presentarse, es sugestivo de una lesión maligna²⁴. En nuestro caso, la principal manifestación clínica de la paciente fue disnea acompañada de disfonía, que se atribuyó a la presencia de un bocio coloide. Después de su resección y ante el inicio de hemoptisis, se llevó a cabo una video-fibro-laringoscopia, que evidenció una lesión polipoide traqueal, responsable de dicha sintomatología.

Caso clínico

Se presenta el caso de una paciente de sexo femenino de 51 años de edad, que consultó al Servicio de Cirugía de Cuello del E.S.E. Hospital Universitario del Caribe por presentar una masa en la región anterior del cuello, dependiente de la glándula tiroides, asociada a disnea y disfonía. Una tomografía computadorizada de cuello mostró una lesión sólida de 3,5 cm x 3,0 cm, hipodensa, sin calcificaciones, que reemplazaba en su totalidad el lóbulo tiroideo derecho (figura 1).

En el estudio ecográfico se reportó una lesión en el lóbulo derecho, nodular, heterogénea, de contenido sólido y quístico, de 3,3 cm x 3,1 cm. Se practicó aspiración con aguja fina bajo visión ecográfica, que reveló extendidos indicativos de bocio coloide. La video-fibro-



FIGURA 1. Tomografía computadorizada de cuello: lesión multinodular que reemplaza el lóbulo derecho de la glándula tiroides.

laringoscopia mostró un nódulo sésil, irrigado, de 0,8 cm, ubicado a 2,8 cm de las cuerdas vocales. Tres meses después, en un primer tiempo quirúrgico, se practicó una tiroidectomía subtotal, sin complicaciones. El estudio histopatológico reportó un bocio coloide multinodular y ausencia de cambios neoplásicos.

Se dio de alta a la paciente por parte del Servicio de Cirugía de Cuello y, en vista de la persistencia de disnea, se remitió al Servicio de Cirugía de Tórax por el hallazgo en la video-fibro-laringoscopia. En esta valoración, se consideró la presencia de una lesión subglótica que ameritaba estudio, planteándose los diagnósticos diferenciales de hemangioma y granuloma piógeno, por lo cual se decidió practicar una biopsia.

El estudio histopatológico reportó una lesión constituida por vasos sanguíneos de paredes delgadas y dilatadas, que podría corresponder a un hemangioma, siendo un diagnóstico no conclusivo. Se practicó resección endoscópica de la lesión con asa de polipectomía. El reporte anatómo-patológico reveló un corte de tejido tiroideo conformado por folículos de diferentes tamaños con abundante coloide, en el cual se evidenciaba una lesión

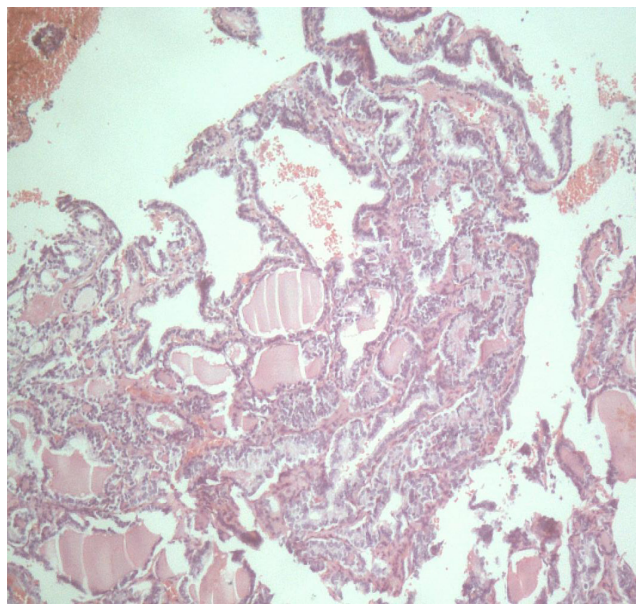


FIGURA 2. Aspecto microscópico de la lesión polipoides traqueal. El corte reveló una lesión de arquitectura papilar. Hematoxilina y eosina, 4X.

de arquitectura papilar (figura 2), formada por células de núcleos ópticamente claros, que poseían hendiduras nucleares y seudoinclusiones intranucleares (figura 3). El análisis inmunohistoquímico confirmó tiroglobulina positiva, factor de transcripción tiroideo de tipo 1 (TTF-1) y citoqueratina 7 (figuras 4-6), confirmándose el diagnóstico de carcinoma papilar de la tiroides.

Nueva tomografía computadorizada de cuello reportó ausencia de lesiones en el lóbulo izquierdo de la glándula tiroides y ausencia de lóbulo derecho por previa tiroidectomía subtotal; ante la presencia de la lesión traqueal, se decidió completar la tiroidectomía, con vaciamiento ganglionar. La evaluación histopatológica de la pieza quirúrgica reportó una glándula tiroides morfológicamente normal, sin presencia de lesión maligna y ganglios negativos. Con estos hallazgos, se concluyó como diagnóstico definitivo el de carcinoma papilar primario derivado de tejido tiroideo ectópico en tráquea. La paciente evolucionó de manera satisfactoria. Un rastreo gammagráfico que reportó negativo. Se ordenó tratamiento de sustitución y controles seriados.

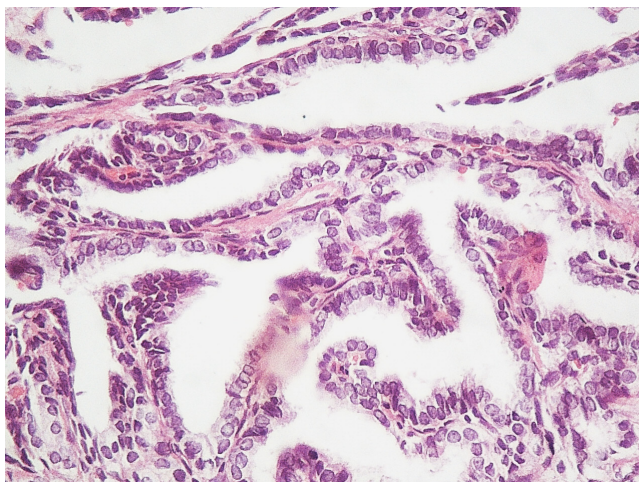


FIGURA 3. Se observan proyecciones papilares tapizadas por células de núcleos irregulares con un patrón de cromatina fina, nucléolos conspicuos, hendiduras nucleares y pseudoinclusiones intranucleares. Hematoxilina y eosina, 40X.

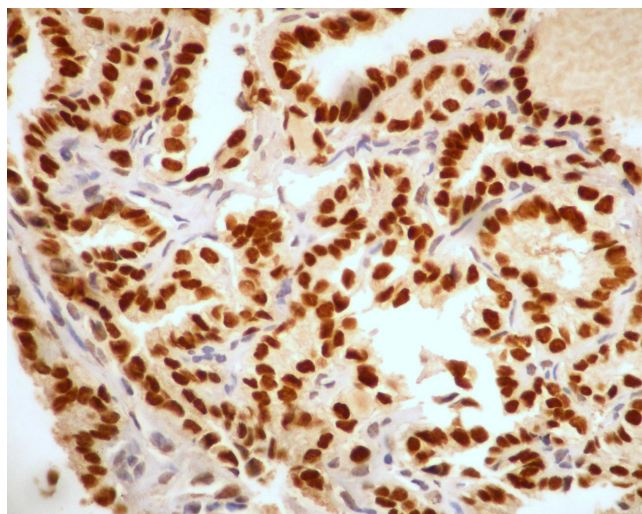


FIGURA 5. Inmunohistoquímica positiva para TTF-1 en el núcleo de las células tumorales. Inmunohistoquímica contra Factor de Crecimiento Tiroideo de Tipo 1, 40X.

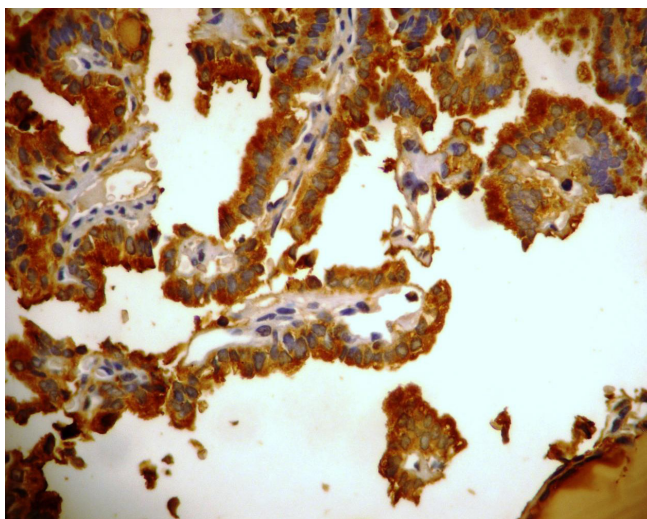


FIGURA 4. Inmunohistoquímica positiva para tiroglobulina en el citoplasma de las células tumorales. Inmunohistoquímica contra tiroglobulina, 40X.

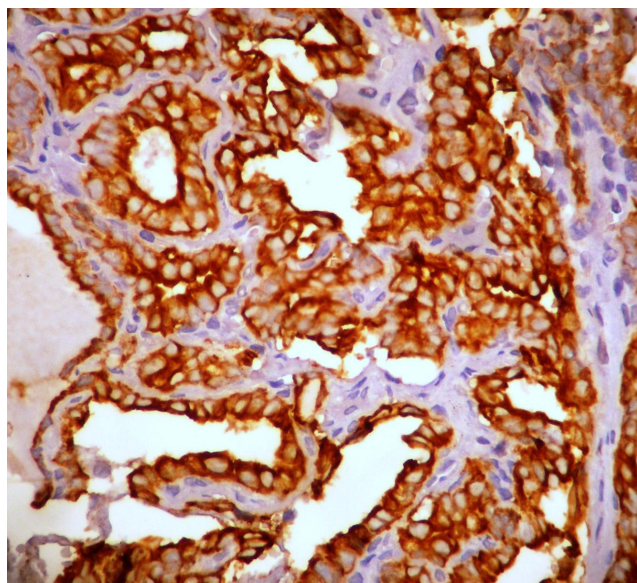


FIGURA 6. Inmunohistoquímica positiva para citoqueratina 7 en la membrana de las células tumorales. Inmunohistoquímica contra citoqueratina 7, 40X.

Conclusión

El presente caso permite revisar una condición inusual, la cual posee una epidemiología reducida y una clínica inespecífica, planteándose como un reto diagnóstico para el personal médico. Concluimos que, a pesar de su baja incidencia y al no existir publicaciones en que se

evalúe el potencial que posee el tejido tiroideo ectópico aberrante para generar una lesión maligna, es recomendable sospechar esta entidad y darle su lugar como un diagnóstico diferencial, en el contexto del paciente con síntomas que hagan sospechar de una obstrucción de la vía aérea superior, en especial, en aquellos con antecedentes de enfermedad tiroidea.

Primary papillary carcinoma originating in tracheal ectopic thyroid tissue

Abstract

Thyroid carcinoma arising from an ectopic thyroid tissue is an uncommon clinical entity. These lesions usually present as a mass in the midline that develops from a thyroglossal duct remainder. The finding of a malignant lesion in true aberrant thyroid tissue is unusual. Given the strangeness of this condition we present the case of a patient in which the diagnosis conducted a primary papillary carcinoma arising from ectopic thyroid tissue in the trachea.

Key word: thyroid gland; thyroid neoplasms; trachea; tracheal neoplasms; carcinoma, papillary.

Referencias

1. Noussios G, Anagnostis P, Goulis DG, Lappas D, Natsis K. Ectopic thyroid tissue: Anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity. *Eur J Endocrinol.* 2011;165:375-82.
2. Nakayama A, Nakayama K, Masaki I, Hayashi T, Shinnakasu M, Hirahara N, *et al.* Primary papillary carcinoma arising from ectopic thyroid tissue in the cervical lymph node: A case report. *J Oral Maxillofac Surg Med Pathol.* 2014. Fecha de consulta: 20 de octubre de 2014. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajoms.2014.02.001>.
3. Cassola JR, Gil I. Embriología y ectopias tiroideas. *Glánd Tir Paratir.* 2008;17:22-7.
4. Montgomery ML. Lingual thyroid. *West J Surg.* 1935;43:66-9.
5. Duque F, Londoño J, Orozco B. Tiroides lingual. Reporte de dos casos, *Revista de la Facultad de Odontología, Universidad de Antioquia.* 2000;11:19-23.
6. Thomas G, Hoilat JS, Kalagie W. Ectopic lingual thyroid: A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2003;32:219-21.
7. Betancourt AF, Bonnet II, Bennedeti I, Sáenz JC. Tiroides lingual, revisión del tema. *Rev Colomb Cir.* 2010;25:231-6.
8. Mesa R, Cataño V, Ospino E, Mendoza L. Tiroides lingual, presentación de un caso y revisión de la literatura. *Tribuna Médica.* 1999;99:229-34.
9. Iglesias P, Pavón I, Olivar J, Montoya T, Elviro R. Tiroides ectópico. *Endocrinol Nutr.* 2007;54:504-7.
10. Batsakis JG. Laryngeal involvement by thyroid diseases. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology.* 1987;96:718-9.
11. Fliegelman LJ, Genden EM, Brandwein M, Mechanick J, Urken ML. Significance and management of thyroid lesions in lymph nodes as an incidental finding during neck dissection. *Head Neck.* 2001;23:855-91.
12. Ballehaninna U. Carcinoma of dual ectopic thyroid gland in patient with cyanotic congenital heart disease: A case report and review of literature. *J Pediatr Surg.* 2013;48:E1-4.
13. Wang YJ. Ectopic thyroid papillary carcinoma presenting as bilateral neck masses. *J Chin Med Assoc.* 2010;73:219-21.
14. González CE. Cáncer primario de tiroides en un quiste tirogloso. *Rev Colomb Cir.* 2008;23:112-6.
15. Guzmán P, Baeza A, Cabello A, Montecinos A, Leal C, Roa J. Carcinoma papilar en quiste del conducto tirogloso: reporte de dos casos. *Rev Méd Chil.* 2008;136:1169-74.
16. Fish J, Robert M, Moore R. Ectopic thyroid tissue and ectopic thyroid carcinoma: Review of literature and report of a case. *Ann Surg.* 1963;157:212-22.
17. LiVolsi VA, Perzin KH, Savetsky L. Carcinoma arising in median ectopic thyroid. *Cancer.* 1974;34:1303-15.
18. Sevinc A. Papillary carcinoma arising in subhyoid ectopic thyroid gland with no orthotopic thyroid tissue. *Am J Surg.* 2010;200:e17-8.
19. Ibrahim NA, Fadeyibi IO. Ectopic thyroid: Etiology, pathology and management. *Hormones (Athens).* 2011;10:261-9.
20. Ziemssen. Über Kopfeschwuelste im Innem des Kehlkopfs und der Luftrohre und ihre Entfernung. *Beitr Kim Chir.* 1875;41:1903-4.
21. Dowling EA, Johnson IM, Collier FC, Dillar RA. Intratracheal goitre: A clinicopathological review. *Ann Surg.* 1962;156:258-67.
22. Thoren L. Intratracheal goitre. *Acta Chir Scand.* 1974;95:405-12.

23. Gilbert GJ, Mazarella LA, Feit LJ. Primary tracheal tumor in infant and adult. *AMA Arch Otolaryngol.* 1953;58:1-9.
24. Osammar JY, Bulman CH, Blewitt RW. Intralaryngotracheal thyroid. *J Laryngo Otol.* 1990;104:733-6.
25. De Felice M, Di Lauro R. Thyroid development and its disorders: Genetic and molecular mechanisms. *Endocr Rev.* 2004; 25:722-46.
26. Tawfik T, Hassan E, Alhag K. Intratracheal ectopic thyroid tissue: Case report and literature review. *Eur J Radiol.* 2008;65:51-4.
27. Rotenberg D, Lawson VG, van Nostrand AW. Thyroid carcinoma presenting as a tracheal tumor. Case report and literature review with reflections on pathogenesis. *J Otolaryngol.* 1979;8:401-10.
28. Hari CK, Brown MJ, Thompson I. Tall cell variant of papillary carcinoma arising from ectopic thyroid tissue in the trachea. *J Laryngol Otol.* 1999;113:183-5.
29. Byrd MC, Thompson LDR, Wieneke JA. Intratracheal ectopic thyroid tissue: Case report and literature review. *Ear Nose Throat J.* 2003;82:514-8.

Correspondencia:
 Grupo de Investigación Scalpelli
 fherreras@gruposcalpelli.com
 Cartagena, Colombia