

## Cáncer diferenciado de tiroides en tiroides lingual, presentación de un caso

Vjerocka Inostroza<sup>1</sup>, Francisca Gajardo<sup>1</sup>, Cristóbal Campos<sup>1</sup>, Marcelo Mardones<sup>1</sup>, Félix Vásquez<sup>1</sup>, Nicolás Crisosto<sup>2</sup>, Cecilia Pereira<sup>1</sup>, Paola Hernández<sup>1</sup>, Amanda Ladrón de Guevara<sup>2</sup>, Miguel Domínguez<sup>1</sup>, Jaime Morán<sup>3</sup>, Andrés Rodríguez<sup>4</sup>, Patricia Arroyo<sup>5</sup>, Gilda Donoso<sup>6</sup> y Erika Díaz<sup>1</sup>

### *Differentiated thyroid cancer in the lingual thyroid, presentation of a case*

*The lingual thyroid carcinoma is very uncommon neoplasia with an incidence of less than 1%. The papillary variant is the most frequent. Cervical MRI helps differentiate muscle from thyroid tissue. The definitive diagnosis is given by histology. Management is similar to that of orthotopic thyroid cancer. We present the case of a 23-year-old woman with hypothyroidism undergoing treatment with dysphagia and sensation of pharyngeal foreign body and malodorous oral bleeding. Nasopharyngoscopy showed a rounded mass at the base of the tongue; the biopsy was compatible with thyroid neoplasia. Image study with ultrasound confirms empty thyroid bed with presence of lingual ectopic thyroid. The team of surgeons performed surgery with Trotter Technique, they removed a tumor of 4 centimeters of diameter. The definitive biopsy concludes minimally invasive follicular carcinoma. The treatment was completed with 100 mCi of radioiodine. Systemic screening at 7 days was negative, as the post-operative thyroglobulin (Tg).*

**Key words:** Ectopic thyroid, thyroid cancer, lingual thyroid.

<sup>1</sup>Unidad de Endocrinología Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

<sup>2</sup>Departamento Medicina Occidente Universidad de Chile. Santiago, Chile.

<sup>3</sup>Unidad de Cirugía de Cabeza y Cuello Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

<sup>4</sup>Servicio de Anatomía Patológica Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

<sup>5</sup>Servicio Radiología Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

<sup>6</sup>Servicio de Medicina Nuclear Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.

Autores no declaran ningún conflicto de interés basado en ICMJE Form for Disclosure of Potential Conflicts of Interest.

#### Correspondencia:

Erika Díaz Vargas  
Huérfanos 3255, Hospital San Juan de Dios. Santiago, Chile.  
Teléfono: 225742338  
kikadoc@gmail.com

Recibido: 12/04/2017  
Aceptado: 08/06/2017

### Introducción

Se considera una glándula tiroides (GT) ectópica cuando ésta no se localiza en la región anterior del cuello, entre el segundo y cuarto cartílago traqueal<sup>5</sup>. La ubicación más frecuente de tejido tiroideo ectópico (TTE) es en la base de la lengua, lo que se denomina tiroides lingual (TL), el cual en la mayoría de los casos es asintomático y puede desarrollar cualquier enfermedad que afecte a la GT, incluyendo neoplasias<sup>5</sup>.

El carcinoma de TL (CTL) es muy infrecuente con una incidencia menor al 1%. Se presenta principalmente en mujeres en una razón de 2:1 luego de los 30 años, siendo el tipo papilar la histología predominante<sup>5</sup>. Dado la rareza de esta condición, ha sido muy difícil caracterizar la historia

natural de la enfermedad. En su variante papilar se ha reportado metástasis locorregionales, mientras que la variante folicular tiende a diseminarse a distancia principalmente a pulmón y mediastino en el 20 y 14% respectivamente<sup>5</sup>.

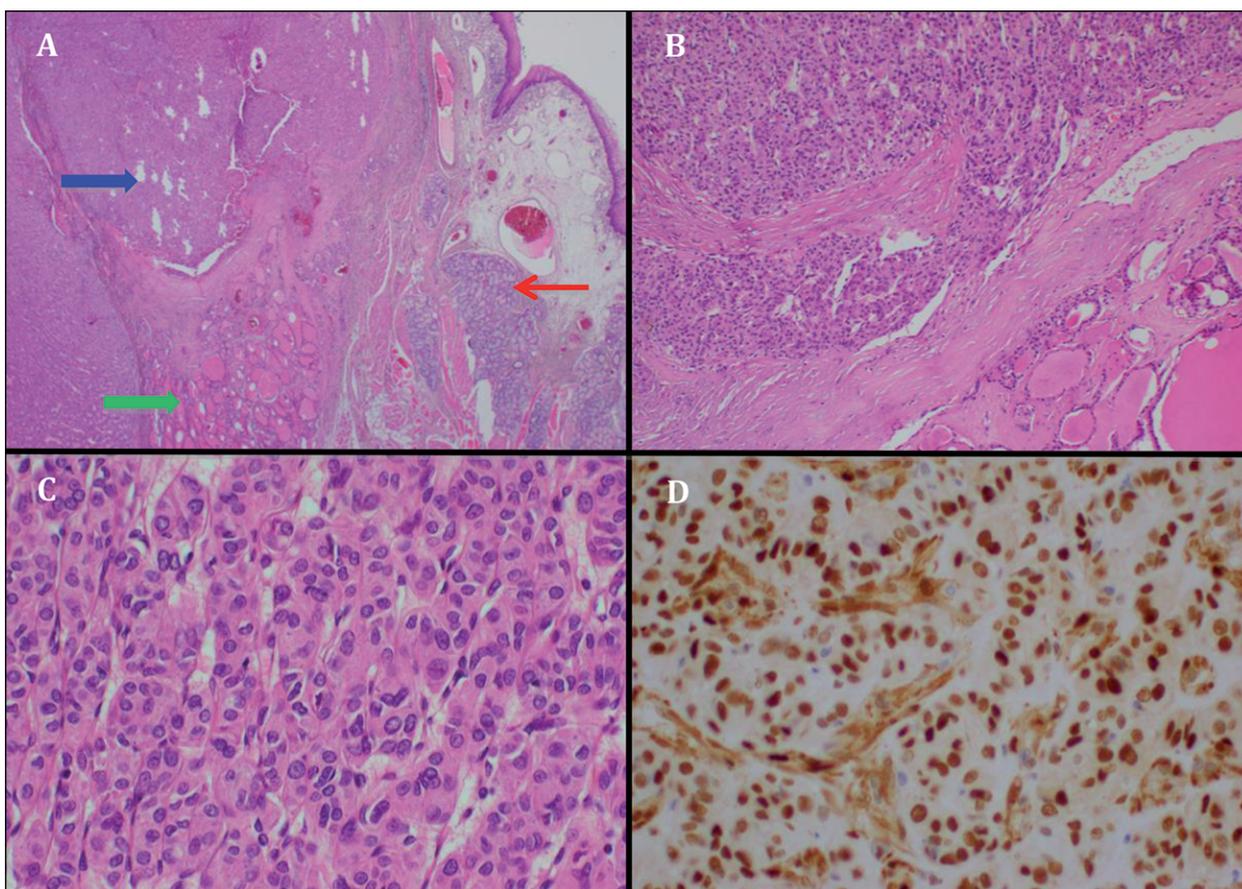
El diagnóstico del CTL generalmente se realiza en forma tardía ya que sus síntomas son inespecíficos incluyendo disnea, disfonía y sensación de cuerpo extraño al deglutir. Menos frecuente son la disfagia y la hemoptisis. Frente a la sospecha, se sugiere realizar estudio imagenológico con técnicas no invasivas tales como tomografía computada (TC) o RM<sup>4</sup>. La ecografía cervical se utiliza para evaluar compromiso locorregional. El diagnóstico definitivo se realiza con biopsia de la lesión. Si la histología resulta sugerente de CTL el manejo es el mismo que para el cáncer en GT ortotópica<sup>2</sup>.

## Caso Clínico

### Caso clínico

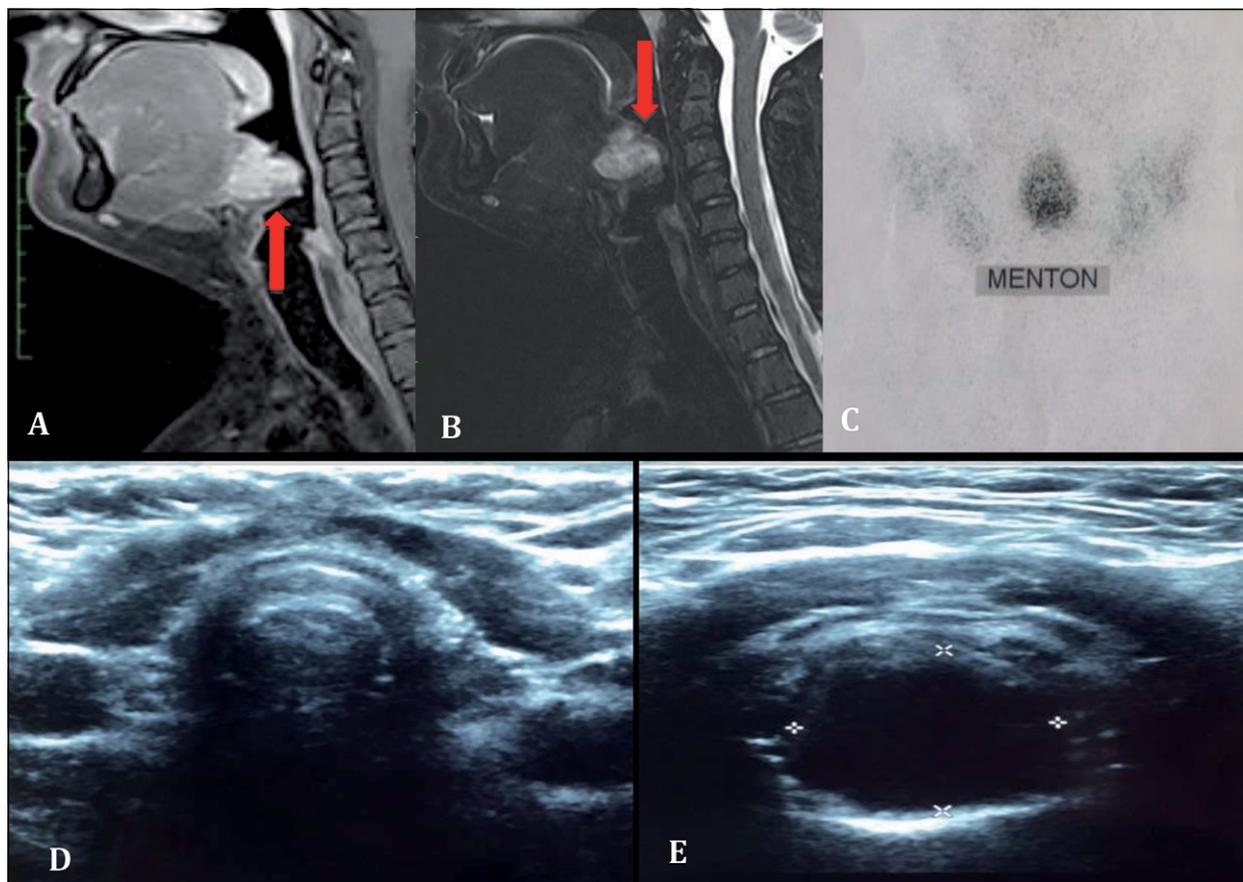
Mujer de 23 años, fumadora de 2 paquetes/año, con antecedentes de hipotiroidismo desde los 20 años en tratamiento con levotiroxina, subtratada. Consulta por cuadro de 5 meses de evolución caracterizado por odinofagia leve y sensación de cuerpo extraño orofaríngeo, asociado a episodios de sangrado bucal de mal olor. Se realiza nasofibroscopia encontrando en línea media una masa redondeada en la base de la lengua cuya biopsia describe neoplasia tiroidea con patrón sólido y ulcerada que infiltra la cápsula tumoral sin traspasarla (Figura 1A y 1B) constituida por células epiteloides de gran tamaño formando nidos, cordones, trabéculas y áreas sólidas con núcleos irregulares atípicos (Figura 1C). La Inmunohistoquímica demostró: Factor 1 de Transcripción Tiroidea (TTF-1) (+), Ciclina D1 (+), Citoqueratina 7 de membrana en células tumora-

les (+), HBME -1 (+), Focal de algunas células tumorales, Citoqueratina 20 (-), CEA(-) y Sinaptofisina (-) (Figura 1D) RM cervical muestra ocupación de la vallécula por tejido de partes blandas, de estructura discretamente heterogénea de baja señal en T1 e hiperintenso en T2 que se impregna tras la administración de gadolinio, de 20 x 20 x 22 mm en los ejes mayores y que desplaza la epiglotis hacia caudal. No se visualiza glándula tiroidea en el opérculo torácico ni región cervical anterior (Figura 2A y B). En cintigrama tiroideo se observa concentración del radiofármaco sólo en un área ovalada de localización sublingual en la línea media (Figura 2C) concluyendo presencia de TTE. Ecografía cervical confirma lecho tiroideo vacío (Figura 2D) y un nódulo sólido hipocogénico de 19 x 20 x 20 mm en base de la lengua (Figura 2E) sin evidencia de extensión locorregional. Se presenta en Comité de Tiroides, indicándose cirugía. En el procedimiento se ve



**Figura 1. A)** Estudio de anatomía patológica de tumor lingual resecado muestra neoplasia tiroidea (Flecha azul) que se desarrolla en parénquima tiroideo normotípico (Flecha verde) focalmente revestido por mucosa oral (Flecha roja) (Tinción Hematoxilina-Eosina (HE), 2x); **B)** Se observa lesión que infiltra la cápsula tumoral sin traspasarla (HE, 10x); **C)** Células epiteloides de gran tamaño de citoplasma moderado, amplio y eosinófilo con núcleos irregulares atípicos de cromatina clara y nucleolo visible (HE, 40x); **D)** Inmunohistoquímica: Ciclina D1 positivo nuclear intenso en las células tumorales (40x).

## Caso Clínico



**Figura 2.** A y B) RM cervical con gadolinio, corte sagital, secuencia T1 y T2 respectivamente con saturación grasa. Flecha señala lesión tumoral; C) Cintigrama tiroideo con TC99 en proyección anterior demuestra lecho tiroideo vacío; D) y E) Ecografía cervical muestra ausencia de glándula tiroidea (D) y nódulo sólido en base de la lengua (E).

y palpa tumor en base de lengua de aproximadamente 40 mm de diámetro mayor, friable, bastante superficial, bien delimitado. Se secciona la lengua en línea media, se identifica tumor reseándolo completamente. La biopsia definitiva concluye carcinoma folicular mínimamente invasor con dos permeaciones vasculares. Se indica radioablación con 100 mCi de I-131, el rastreo sistémico a los 7 días fue negativo. Los valores de TSH y Tg se presentan en Tabla 1. Actualmente la paciente está en seguimiento bajo terapia de sustitución con levotiroxina, eutiroides desde el punto de vista clínico y de laboratorio.

### Discusión

Se presenta este caso dado la infrecuencia del CTL.

La GT se origina en el embrión como una invaginación mesodérmica en el piso faríngeo dando origen al *foramen*

**Tabla 1.** Seguimiento de TSH y Tg

Fecha	Previo a Cirugía	30 días post cirugía	5 meses post cirugía
TSH (0,34-5,6)*uIU/ml	19	220	0,73
Tg (< 0,68)*ng/ml	25	0,14	< 0,1
Ac anti Tg (< 138)*Ud	19	18	27

\*VN para laboratorio clínico Hospital San Juan de Dios.

*cecum* a partir del cual desciende hasta ubicarse en forma definitiva por delante de la tráquea<sup>6</sup>. Ocasionalmente, el primordio tiroideo no puede descender correctamente lo que provoca alteraciones de la organogénesis tiroidea resultado en una GT localizada en posición inusual, hipoplásica o ausente<sup>5</sup>. La disorganogénesis tiroidea se considera una patología esporádica. Sin embargo, 5% de los casos podría tener algún factor genético asociado<sup>7</sup>. En la

## Caso Clínico

literatura se describe presencia TTE en base de lengua, región submandibular, laringe, mediastino, tráquea y esófago siendo el TL la forma más común de ectopia tiroidea<sup>5</sup>.

El carcinoma tiroideo originado a partir de un TL es una rareza. El primer caso descrito en la literatura fue reportado en 1910 por Gunn y Rutgers<sup>1</sup> y en el último siglo se ha publicado sólo 52 nuevos casos de los cuales el 65% fueron carcinomas papilares<sup>5</sup>. Sin embargo, la relación carcinoma papilar *versus* folicular es mayor que en el cáncer ortotópico (2:1 *versus* 4:1). No hay factores de riesgo específicos para CTL y la historia natural de la enfermedad sigue siendo desconocida dado lo inusual de esta condición.

En el diagnóstico diferencial de esta patología debemos incluir quistes del conducto tirogloso, linfoma, linfangioma, hemangioma, hipertrofia de la tonsila lingual entre otros. El diagnóstico definitivo lo da la histología y el tratamiento es quirúrgico. En cuanto a la conducta quirúrgica, en este caso, dado la ubicación del tumor, mediante Técnica de Trotter se logró la resección completa del tumor<sup>3</sup>, procedimiento que se realizó sin incidentes. Posterior a la cirugía, se presentó el caso en Comité y dado la histología encontrada se indicó 100 mCi de I-131 cuyo rastreo sistémico fue negativo.

En conclusión, el TL es muy infrecuente sin embargo, puede albergar una neoplasia. El diagnóstico temprano es difícil ya que los síntomas y signos son inespecíficos. Ante la sospecha se sugiere realizar estudio con imágenes y si la histología es compatible la conducta es quirúrgica.

Cabe destacar la importancia de la evaluación multidisciplinaria para asegurar un tratamiento exitoso.

## Referencias bibliográficas

1. Singh B, Joshi H, Chakravarty M. 1979. Carcinoma of the Lingual thyroid: review and case report. *The Journal of Laryngology and Otology* 93: 839-44.
2. Shah B, Ravichand C, Juluri S, Agarwal A, Pramesh C, Mistry R. 2007. Ectopic Thyroid Cancer. Case Report. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 13: 122-4.
3. Barrera JL, Dolores R. 2008. Abordaje combinado transoral y transmandibular para tumores de la columna cervical anterior. Revisión de la literatura e informe de un caso. *Cir Ciruj* 76: 425-8.
4. Rui-Min M, Lin Lv, Zheng SR, You J, Huang DP, Guo GL. 2016. Primary ectopic substernal thyroid cancer with trachea relapse: a case report and opinions of management. *World J Surg Oncol* 14: 94.
5. Sturniolo G, Violi MA, Galletti B, Baldari S, Campenni A, Vermiglio F, Moleti M. 2016. Differentiated thyroid carcinoma in lingual thyroid. *Endocrine* 51: 189-98.
6. Stathatos N. Anatomy and Physiology of the Thyroid Gland: Clinical Correlates to Thyroid Cancer. En: Wartofsky L, ed and Van Nostrand D. *Thyroid Cancer: A Comprehensive Guide to Clinical Management*, Editorial Humana Press Inc. 2006, p. 3-7
7. Cooper D. Embriogenia, anatomía e histología. En Gardner D, ed. *Greenspan Endocrinología básica y clínica*, Editorial McGraw.