

Disfagia secundaria a tiroides lingual

Dr. Kuauhyama Luna-Ortiz,* Dr. Mario A. Rascón-Ortiz,*
Dr. Mario Tamez-Velarde,* Dr. Adalberto Mosqueda-Taylor**

* Departamento de Cirugía de Cabeza y Cuello en el Instituto Nacional de Cancerología. ** Departamento de Atención a la Salud, Universidad Autónoma Metropolitana Xochimilco.

Correspondencia: Kuauhyama Luna-Ortiz. Av. San Fernando No. 22, Del. Tlalpan, México, D.F. C.P. 14080.

Correo electrónico: kuauhyama@starmedia.com; kuauhyama@hotmail.com

Recibido para publicación: 10 de octubre de 2003.

Aceptado para publicación: 27 de mayo de 2004.

RESUMEN Antecedentes: la tiroides lingual (TL) es una entidad rara que obedece a un desarrollo embrionario aberrante en el descenso que la glándula experimenta desde su sitio de origen, en la base de la lengua, hasta su sitio eutópico. **Objetivo:** se presenta el caso de TL en una paciente femenina de 30 años de edad, con un cuadro clínico de disfagia y sensación de cuerpo extraño faríngeo de un año de evolución, asociado a hipotiroidismo. **Métodos:** se discute su abordaje diagnóstico y tratamiento. **Resultados:** se diagnostica TL, por lo que se decide realizar una tiroidectomía transoral como procedimiento quirúrgico de elección. El diagnóstico definitivo fue de tejido tiroideo normal, con presencia de abundante material coloide. La paciente tuvo una evolución posquirúrgica sin complicaciones y fue dada de alta al segundo día postoperatorio para su posterior control con gammagrafía con Tc^{99m}. **Conclusión:** la tiroidectomía lingual transoral, seguida de tratamiento hormonal vía oral de por vida es el abordaje adecuado para los pacientes que cursen con sintomatología severa e hipotiroidismo con hipertrofia de la TL.

Palabras clave: tiroides lingual, tiroidectomía lingual transoral, hipotiroidismo, disfagia.

SUMMARY Background: Lingual thyroid is a rare developmental anomaly originating from aberrant embryogenesis during descent of the gland from its site of origin, the foramen caecum, to its eutopic location. **Objective:** We present the case of a 30-year-old female with a history of dysphagia and pharyngeal foreign body sensation over the past 12 months, associated with hypothyroidism. **Methods:** Diagnostic and therapeutic approaches are discussed. **Results:** Diagnosis of lingual thyroid was made and transoral thyroidectomy was performed as procedure-of-choice. Microscopic analysis revealed normal thyroid tissue with abundant colloid. The patient had an uneventful recovery and was discharged 2 days after surgery. Gamma-gram with Tc^{99m} was scheduled for postoperative follow-up. **Conclusions:** Transoral lingual thyroidectomy followed by life-long hormonal therapy is the appropriate approach for patients with severe symptoms due to lingual thyroid hypertrophy associated with hypothyroidism.

Key words: Lingual thyroid, transoral lingual thyroidectomy, hypothyroidism, dysphagia.

INTRODUCCIÓN

En 1869, Hickman describió un tumor congénito de la base de la lengua que comprimía la epiglotis, provocando la muerte por asfixia de un neonato antes de cumplir un día de vida. Hoy en día se sabe que el tumor era una TL y es por ello que se atribuye a Hickman la primera descripción de esta entidad.¹

La glándula tiroides se desarrolla a nivel del foramen cecum, a partir del piso de la faringe primitiva, para luego descender desde la base de la lengua hasta el espacio

pretraqueal anterior al cartílago tiroides. De esta manera, una glándula tiroides ectópica se puede localizar a cualquier nivel del trayecto de descenso, iniciando en la base de la lengua hasta por debajo del hueso hioides.² Se define como ectópica a todo aquel tejido tiroideo que se encuentre fuera de los espacios anatómicos anteriores al segundo, tercero y cuarto anillos traqueales.¹ Hay cuatro formas de tiroides ectópica del tracto aerodigestivo superior que, en orden de frecuencia, son: la tiroides lingual (90%),¹ sublingual (en sus variantes supra o infrahiodea), tiroglosa e intralaringotraqueal.³ Se

han descrito, asimismo, casos muy raros de tejido tiroideo ectópico en ganglios linfáticos cervicales, esófago, senos piriformes, mediastino superior, septum interventricular cardiaco, diafragma e incluso en sitios tan distantes como el hígado.^{3,4}

Se ha calculado la prevalencia de TL en la población mundial en 1:100,000,^{5,6} mostrando dos picos en su distribución por edades, uno a los 12.5 años y otro a los 40.5 años de edad.^{7,8} Tiene un predominio en el sexo femenino con una relación desde 3:1 hasta 7:1, según diferentes series.^{3,5,9} Se ha documentado hipotiroidismo desde 15% hasta 33% de los casos de TL¹⁰ y, similarmente, hasta 30% de TL en casos de hipotiroidismo congénito.¹¹ La TL es el único tejido tiroideo funcional del paciente hasta en 70% de los casos.⁹

Un estudio que incluyó 200 autopsias de individuos "normales" demostró tejido tiroideo ectópico en 10% de los casos, sin diferencias significativas en cuanto al sexo.¹²

El debut clínico de la TL generalmente incluye síntomas como: disfagia, sensación de cuerpo extraño, alteraciones de la voz, obstrucción intermitente de vías aéreas y sangrado. Entre los factores precipitantes del inicio de sintomatología por una TL se describen los estados de estrés metabólico, en los que el requerimiento de hormonas tiroideas aumenta de manera considerable, tales como el embarazo, el inicio de la pubertad, trauma o infecciones;^{6,7} se cree que el organismo es de alguna manera incapaz de satisfacer dichos requerimientos y ello condiciona un aumento en la secreción de hormona estimulante del tiroides (TSH),⁹ con la consecuente estimulación "bociógena" sobre el tejido tiroideo que ulteriormente, y dada su localización, condicionará un amplio, pero muy sugestivo espectro de la sintomatología ya descrita. Se reporta un caso de TL en una paciente con un cuadro de disfagia, para discutir abordaje diagnóstico y tratamiento.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 30 años de edad, la cual acude a consulta por disfagia a sólidos y sensación de cuerpo extraño en la orofaringe y laringe de un año de evolución. Aunado al cuadro se reporta pérdida ponderal de 7 kg (correspondiente a 11% de su peso), además de antecedente de infecciones recurrentes de vías aéreas superiores. No refiere antecedentes de embarazos ni cirugías. A la exploración física se encontró un tumor en la base de la lengua de aprox. 2 x 2 x 2 cm, color rojizo, con base fija a la superficie de base de la lengua, vascularizado, de con-

sistencia sólida, no doloroso, sin presencia de adenopatías regionales (*Figura 1*). Los resultados de la prueba de función tiroidea fueron los siguientes: T3 = 92.8 ng/dL (normal = 80-220 ng/dL); T4 = 5.15 µg/dL (normal = 4.8 – 12 µg/dL); TSH = 34 µUI/mL (normal = 0.25 – 4.30 µUI/mL).

Se realizó un gammagrama tiroideo con Tc^{99m} mostrando concentración de radiotrazador en forma homogénea a nivel de la base de la lengua, observando tiroides ectópica sin evidencia del tiroides en su posición anatómica normal (*Figura 2*).



Figura 1. Visión intraoral de la lesión ovoidea en base de la lengua, de consistencia firme y color rojizo, con vascularización abundante.

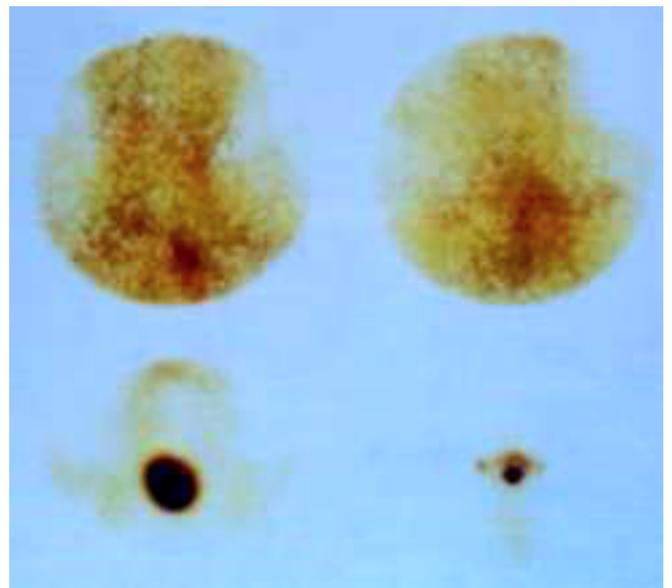


Figura 2. Gammagrafía con Tc^{99m} muestra concentración del radiotrazador en la base de la lengua y ausencia de tiroides en posición normal.

La tomografía computada (TC) mostró una lesión de 2.5 a 3 cm en parte central de la base de la lengua a nivel de la orofaringe en línea media, así como en la región de la vallecula que desplazaba parcialmente la epiglotis, la cual mostraba un reforzamiento lateral y periférico tanto en la TC simple como a la aplicación de contraste (*Figuras 3A y 3B*).

Se realizó tratamiento quirúrgico consistente en tiroidectomía lingual con abordaje transoral. No se contempló el autotrasplante o la transposición debido al hipotiroidismo presente en las pruebas de función tiroidea. El estudio histopatológico de la pieza quirúrgica reveló tejido tiroideo normal, sin evidencia de malignización, con abundante material coloide. A la paciente se le realizó un rastreo con Tc⁹⁹ en el cual se confirmó la ausencia de tejido tiroideo y se prescribió tratamiento con tiroxina a dosis fisiológica. Después de tres meses la paciente continúa en control libre de alteración.

DISCUSIÓN

La TL es una entidad rara cuyo debut clínico corresponde a una gran constelación de síntomas, en su mayor parte obstructivos, que abarca desde un inicio agudo de obstrucción de vías aéreas, potencialmente fatal, hasta un inicio tan insidioso con duración de años con sintomatología apenas perceptible.¹⁰ El diagnóstico diferencial incluye carcinoma epidermoide de la base de la lengua o cáncer de laringe supraglótico, tumores vasculares, teratomas, linfomas, tumores de glándulas salivales menores, papilomas, encondromas, granuloma telangiectásico, tu-

berculosis y amiloidosis.^{3,4,7,9} La sintomatología que presentan los pacientes con TL es un verdadero abanico de posibilidades y se debe en gran parte a las características de la localización del tumor, así como a su vasculatura abundante, de manera que el motivo de consulta usualmente será dolor, sensación de cuerpo extraño, disfagia, alteraciones de la voz, sangrado, obstrucción intermitente de las vías aéreas superiores^{1,5,7} e incluso se reporta un caso debutando con apnea obstructiva del sueño.⁶ Una vez que se tiene en mente la posibilidad de tiroides lingual, estos pacientes deben tener pruebas de función tiroidea (PFT) para establecer su condición hormonal tiroidea, a fin de valorar la posibilidad de preservar la glándula tiroides, en caso de situarse en un estado eutiroides.

El centellograma con Tc^{99m} es un estudio seguro de usar, sobre todo en la edad pediátrica y que proporciona una buena imagen y hace fácil el diagnóstico. De hecho, se ha propuesto recurrir al centellograma tiroideo en todo tumor de orofaringe.¹³ La tomografía axial computarizada (TAC), ultrasonido (US) tiroideo y la resonancia magnética (RM) son todos estudios que permiten valorar satisfactoriamente el tamaño y la posición del tumor dentro de la lengua;^{4,14} la TAC sin contraste cobra importancia significativa, ya que el tejido tiroideo mostrará una imagen reforzada en la TAC, obedeciendo al hecho de ser una glándula almacenadora de iodo.

La RM nos mostraría más datos de importancia en relación con estructuras vecinas, así como una imagen de mayor intensidad en relación con la del músculo, tanto en T1 como en T2, motivo por el cual ha cobrado

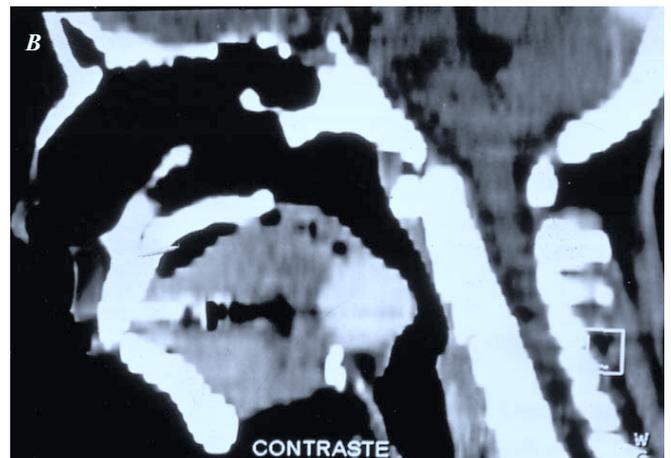


Figura 3. Tomografía computada muestra en: **A)** posición axial y **B)** posición sagital tiroides en la base de la lengua que desplaza parcialmente la epiglotis.

mayor importancia en los últimos años.¹⁴ El consenso actual es también evitar la citología por aspiración con aguja delgada debido a la posibilidad del sangrado, que por el difícil manejo a ese nivel y el riesgo de aspiración puede llegar a poner en riesgo la vida del paciente.¹⁵

El tratamiento médico se recomienda siempre como el de elección a menos que la sintomatología sea lo suficientemente severa para requerir tratamiento quirúrgico inmediato.¹⁶ La presencia de complicaciones como hemorragia, ulceración, o datos de malignización son también indicación para cirugía inmediata.^{15,17} El tratamiento médico de elección es la supresión hormonal con tiroxina (T4), que ha demostrado tener una respuesta efectiva y constante, pero lenta para disminuir el volumen del tumor. Nuestra paciente se rehusó a someterse a tratamiento médico de primera intención, orillada por su severa y progresiva sintomatología de disfagia, por lo cual se propuso la tiroidectomía lingual con abordaje transoral, con los subsecuentes beneficios como el de evitar una amplia cicatriz cervical al mismo tiempo de cursar con una morbilidad posquirúrgica mínima, con la desventaja subsecuente de terapia hormonal de reemplazo permanente.

La administración de I¹³¹ produce resultados más rápidos, pero su uso está proscrito en niños y en mujeres en edad reproductiva, por su potencial carcinogénico y teratogénico, respectivamente,^{8,17} de manera que se reserva su uso en pacientes en edad adulta, con sintomatología severa⁵ y/o alguna contraindicación para la cirugía. Para los pacientes asintomáticos que además cursen con eutiroidismo y que se haya documentado que la TL sea el único tejido tiroideo funcional el tratamiento deberá enfocarse exclusivamente a mantener el estado eutiroides del paciente bajo una vigilancia periódica.^{1,9} Recordemos que el volumen de la TL no aumentará si ésta no recibe estímulo por parte de la TSH y por lo tanto se evitarán los síntomas en este tipo de pacientes. Fue precisamente esta elevación en la TSH de la paciente (34 mUI/mL) la que condicionó el aumento de volumen en la TL y la aparición y progresión de la sintomatología obstructiva, que llegó a ser severa, al punto de casi imposibilitarle la vía oral, con la consecuente pérdida ponderal de 11% de su peso corporal habitual.

Para pacientes con sintomatología leve, la cirugía se indica hasta después de que se haya comprobado una mala respuesta al tratamiento con T4.^{16,18} En el caso de pacientes sintomáticos sin evidencia de otro tejido tiroideo funcional, pero que cursen con eutiroidismo, la mejor opción ha demostrado ser la tiroidectomía lingual con autotrasplante (a pared abdominal, por debajo de la

fascia de los rectos) o transposición a la pared lateral de la faringe^{19,20}; se debe, sin embargo, tener la precaución de suspender la terapia hormonal por los siguientes cinco meses después de la cirugía, aunque nos enfrentemos a un hipotiroidismo posquirúrgico transitorio,²¹ para permitir al injerto funcionar bajo la influencia de la TSH. En ambos casos se recomienda hacer seguimiento a los cuatro meses con gammagrafía tiroidea. Esta modalidad de tratamiento evitará la necesidad de terapia hormonal de por vida.²⁰

Se han descrito varias modalidades de abordaje quirúrgico para la tiroidectomía lingual entre las cuales se encuentran el abordaje transoral con incisión medial de la lengua, la faringotomía lateral, la osteotomía mandibular de la línea media, así como abordajes que combinan dos de estas técnicas.^{15,17,18,20} El abordaje transoral ofrece ventajas entre las cuales podemos mencionar la ausencia obvia de cicatriz cervical (lo cual la hace más atractiva para pacientes jóvenes del sexo femenino, como lo fue este caso) y la ausencia de algunas complicaciones posquirúrgicas como las fístulas. Entre las desventajas que podemos observar en este tipo de abordaje encontramos una potencialmente pobre exposición del campo quirúrgico con un difícil control del sangrado que puede llegar a poner en riesgo la vida del paciente.

La faringotomía lateral es una modalidad descrita como la ideal para la transposición de la TL a la pared lateral de la faringe. La TL se enuclea en su totalidad y su irrigación será posteriormente proporcionada por un pedículo de tejido muscular local; cabe mencionar que para realizar este procedimiento de manera exitosa se requiere de una glándula tiroidea sin anomalías histológicas ni la hipertrofia por excesiva exposición a TSH o degeneración quística, descrita después de la administración de iodo radiactivo.¹⁵ También es importante mencionar que como el área de disección es menor, se puede evitar la traqueostomía con la consecuente disminución de la morbilidad posquirúrgica, que incluyen el edema e infecciones potenciales.²⁰ Además, esta modalidad de abordaje permitirá una excelente evaluación a largo plazo del tejido transpuesto para vigilancia de potencial malignización posterior, ya que hay autores que temen a la malignización del tejido tiroideo ectópico, cuya probabilidad oscila entre 2 y 6%, con reportes en su mayoría de carcinoma folicular y muy pocos casos de carcinoma papilar.^{22,23} La inmensa desventaja que muestra esta modalidad es la alteración estética permanente causada por la transposición a la pared lateral de la faringe, donde el paciente, por razones perfectamente comprensibles,

sobre todo en el sexo femenino, experimentará una sensación de incomodidad e incluso pena al exhibir la glándula reubicada en el cuello.

Por último, la osteotomía mandibular de línea media se describe como una buena opción para tumores de gran tamaño.¹⁶ La importancia de una resección amplia radica en evitar dejar tejido tiroideo para eliminar la posibilidad de un nuevo cuadro sintomático obstructivo en caso de una hipertrofia después de un nuevo estímulo por TSH. En este abordaje se cuenta con buena exposición, lo cual permite una excisión completa, pero se tiene que tomar en cuenta la morbilidad que la osteotomía representa *per se*, con las potenciales consecuencias en términos no sólo estéticos, sino funcionales, con una recuperación lenta y dolorosa, sin mencionar la obvia presencia de una amplia cicatriz residual, que se evitaría en caso de un abordaje transoral. En consecuencia, la osteotomía mandibular medial parece ser un abordaje demasiado agresivo, tomando en cuenta que nos enfrentamos a una entidad benigna en la inmensa mayoría de los casos.

CONCLUSIÓN

La TL es una condición que se debe tener en consideración en todo tumor de base de lengua. El tratamiento de primera elección deberá ser médico a base de supresión hormonal con tiroxina, a menos que la sintomatología sea severa o exista evidencia de complicaciones como sangrado, ulceración o datos de malignización. Es importante que el paciente participe en la decisión terapéutica a seguir, una vez expuestas las diferentes opciones de tratamiento, con sus respectivas ventajas y potenciales complicaciones.

Sobra mencionar que se debe documentar el estado de función tiroidea del paciente, así como una escrupulosa evaluación preoperatoria. En el caso de pacientes con TL hipertrófica e hipotiroidismo, como el caso aquí expuesto, recomendamos la tiroidectomía lingual transoral como modalidad de elección, que permite conseguir una resección completa, evita cicatriz cervical amplia y ha demostrado una morbilidad postoperatoria considerablemente menor que el resto de los abordajes actualmente utilizados. La transposición parece ser una buena opción, con resultados funcionales satisfactorios, sin embargo, la subsecuente angustia causada por la masa

en el cuello y el pésimo resultado estético la hacen poco recomendable.

REFERENCIAS

1. Chanin L, Greenberg L. Pediatric upper airway obstruction due to ectopic thyroid: Classification and case reports. *Laryngoscope* 1988; 98: 422-7.
2. Moore KL, Persaud TV. The developing human: clinically oriented embryology. 6th ed. Philadelphia, PA, USA: W.B. Saunders Co. 1988.
3. Jiménez OV, Ruiz Rico R, Dávila MA, Fernández RE, et al. Intra-laryngeal ectopic thyroid tissue: report of one case and review of the literature. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2002; 53: 54-9.
4. Hazarika P, Siddiqui S, et al. Dual ectopic thyroid: a report of two cases. *J Laryngol Otol* 1998; 12: 393-5.
5. Douglas P, Baker A. Lingual thyroid. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1994; 32: 123-4.
6. Taibah K, Ahmed M, Baessa E, Saleem M, Rifai A, Al-Arifi A. An unusual case of obstructive sleep apnoea presenting during pregnancy. *J Laryngol Otol* 1998; 112: 1189-91.
7. Kansal P, Sakati N, Rifai A, Woodhouse N. Lingual thyroid: diagnosis and treatment. *Arch Int Med* 1987; 147: 2046-8.
8. Scott PM, Soo G, van Hasselt CA, Kew J. Lingual thyroid in a young woman. *Hong Kong Med J* 1997; 3: 111.
9. Quarracino MC, Aguas SC. Lingual thyroid: a clinical case. *Med Oral* 2003; 8: 57-6.
10. Oppenheimer R. Lingual thyroid associated with chronic cough. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2001; 125(4): 433-4.
11. Chan FL, Low LC, Yeung HD, Saing H. Case report: lingual thyroid, a cause of neonatal estridor. *Br J Radiol* 1993; 66: 462-4.
12. Ramos A, Pretorius H. Radionuclide turnover studies on ectopic thyroid glands – case report and survey of the literature. *J Nucl Med* 1985; 26: 258-62.
13. Aktulun C, Demir H, Berk F, Kir KM. Diagnosis of complete ectopic lingual thyroid with Tc-99m pertechnetate scintigraphy. *Clin Nucl Med* 2001; 26: 933-5.
14. Guneri A, Ceryan K, Igci E, Kovanlikaya A. lingual thyroid: the diagnostic value of magnetic resonance imaging. *J Laryngol Otol* 1991; 105: 493-5.
15. Vairaktaris E, Semergidis T, Christopoulou P, et al. Lingual thyroid: a new surgical approach – a case report. *J Craniomaxillofac Surg* 1994; 22: 307-10.
16. Akyol MU, Ozcan M. Lingual thyroid. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1996; 115: 483-4.
17. Atiyeh BS, Abdelnour A, Haddad FF, Ahmad H. Lingual thyroid: tongue splitting incision for transoral excision. *J Laryngol Otol* 1995; 109: 520-4.
18. Zitsman JL, Lala VR, Prakashchandra MR. Combined cervical and intraoral approach to lingual thyroid: a case report. *Head Neck* 1998; 20: 79-82.
19. Minuto FM, Fazzuoli L, Rollandi GA, et al. Successful autotransplantation of lingual thyroid: 37-year follow-up. *Lancet* 1995; 346: 910.
20. Rojananin S, Ungkanont K. Transposition of the lingual thyroid: a new alternative technique. *Head Neck* 1999; 20: 79-82.
21. Alderson DJ, Lannigan FJ. Lingual thyroid presenting after previous thyroglossal cyst excision. *J Laryngol Otol* 1994; 108: 341-3.
22. Goldstein B, Westra WH, Califano J. Multifocal papillary thyroid carcinoma arising in a lingual thyroid: a case report. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002; 128: 1198-200.
23. Diaz AA, Bickel JT, Loy TS, et al. Follicular carcinoma with clear cell change arising in lingual thyroid. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1992; 74: 206-11.