

# Tiroiditis agudas y abscesos cervicales como manifestaciones de las fístulas del seno piriforme

M.S. Fernández Córdoba, J. González Piñera, E. Hernández Anselmi, R. Ruiz Cano\*

*Servicios de Cirugía Pediátrica y \*Pediatria. Complejo Hospitalario Universitario de Albacete.*

## RESUMEN

Las fístulas del seno piriforme son malformaciones poco frecuentes que causan abscesos cervicales recurrentes y tiroiditis agudas supurativas, cuya incidencia general es muy baja por la resistencia de la glándula tiroidea a la infección. El objetivo de este trabajo es describir la presentación clínica, diagnóstico, tratamiento y evolución de cuatro casos de fístulas del seno piriforme en niños tratadas en nuestro hospital en los últimos 15 años. Todos debutaron con tumoración inflamatoria laterocervical izquierda, con signos ecográficos de tiroiditis aguda supurativa en dos casos y con masas heterogéneas cercanas al istmo tiroideo en el resto. Las fístulas consiguieron ponerse de manifiesto con esofagogramas y/o fibrolaringoscopias. El tratamiento consistió en antibioterapia de amplio espectro y drenaje quirúrgico en la fase aguda, con posterior fistulectomía, asociando hemitiroidectomía izquierda en dos casos. Todos los pacientes permanecieron asintomáticos tras el tratamiento, a excepción de una niña con recidiva siete años después. Para realizar un adecuado diagnóstico se precisa un alto índice de sospecha. Hay que conseguir delimitar la fístula, siendo la mejor opción terapéutica la exéresis completa de la misma por un abordaje cervical hasta desconectarla de su origen en hipofaringe. Para evitar recidivas se recomienda la resección de la porción de la glándula tiroidea implicada.

**PALABRAS CLAVE:** Fístula del seno piriforme; Tiroiditis aguda supurativa; Absceso cervical; Niños.

## ACUTE THYROIDITIS AND CERVICAL ABSCESSSES AS MANIFESTATIONS OF THE PYRIFORM SINUS FISTULAE

### ABSTRACT

Pyriform sinus fistula is a rare malformation causing recurrent cervical abscesses and acute suppurative thyroiditis, with a low incidence in general, as the thyroid gland is remarkably resistant to infections. The aim of this paper is to describe the clinical data, diagnosis, treatment and evolution of four cases of pyriform sinus fistulas treated at our institution over the last 15-year period. All appeared at the beginning with

**Correspondencia:** M<sup>a</sup> Soledad Fernández Córdoba. Calle Clavileño nº 3, 2º P. 02006 Albacete. E-mail: msfernandezc@sescam.jccm.es.

*Este trabajo ha sido presentado en el IV Congreso Ibérico de Cirugía Pediátrica, XLVII Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica, XVI Congreso da Sociedade Portuguesa, en Junio de 2008.*

Recibido: Junio 2008

Aceptado: Junio 2009

left laterocervical inflammatory tumours, with radiological signs of acute suppurative thyroiditis in one case and with heterogeneous masses near the isthmus of the thyroid gland in the rest of them. The fistulous tracts were delineated by barium studies and/or fibro-laryngoscopy. The treatment of the acute phase consisted of broad-spectrum antibiotic therapy with an initial incision and drainage procedures. At the end, a subsequent fistulectomy was made. A left hemithyroidectomy was accomplished at two cases. All the patients remained asymptomatic after the treatment except one girl that suffered recurrence seven years later. For a suitable diagnosis a high index of suspicion are necessary. The best therapeutic option is a good delineation and complete excision of the fistulous tract by cervical approach until disconnecting it of its origin at the hypopharynx. In order to avoid recurrences, the resection of the portion of the involved thyroid gland is recommended.

**KEY WORDS:** Pyriform sinus fistula; Acute suppurative thyroiditis; Cervical abscess; Children.

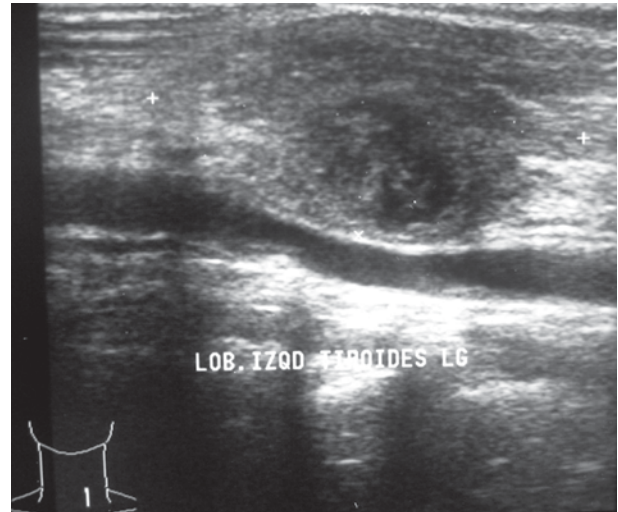
## INTRODUCCIÓN

Las fístulas del seno piriforme (FSP) representan las malformaciones menos comunes de los arcos branquiales y aparecen por un desarrollo anómalo del tercer o cuarto arco<sup>(1,2)</sup>. Son causas poco frecuentes de abscesos cervicales y tiroiditis agudas supurativas, dada la resistencia de la glándula tiroidea a la infección local<sup>(3,4)</sup>. Deben sospecharse cuando aparecen este tipo de procesos de forma recurrente en niños, particularmente en el lado izquierdo del cuello<sup>(3,5)</sup>. El no sospechar su existencia contribuye a las recurrencias, ya que el tratamiento resolutivo no se consigue con un simple drenaje o resección local, sino con la exéresis de la totalidad de la fístula hasta la desconexión de su origen en hipofaringe, para lo cual es necesario identificar el trayecto fistuloso<sup>(1)</sup>.

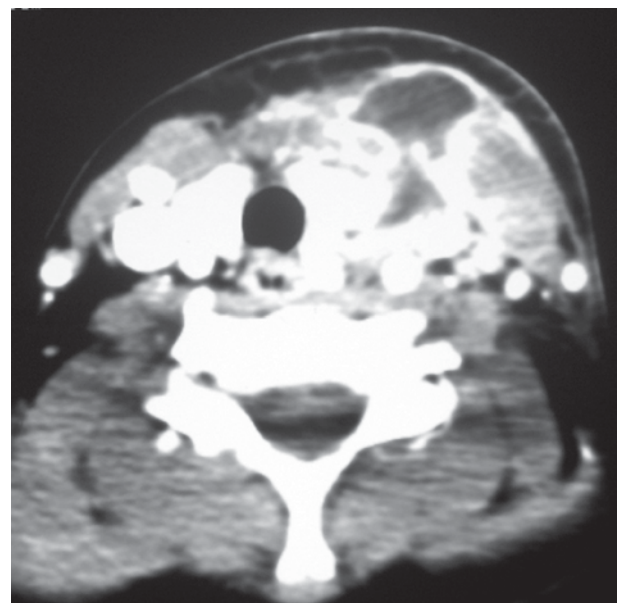
El objetivo de este trabajo es revisar los casos de FSP en niños tratadas en nuestro hospital, analizando las dificultades encontradas en su diagnóstico y valorando si el tratamiento empleado ha sido el más adecuado en función de los resultados obtenidos una vez revisada la literatura al respecto.



**Figura 1.** Se aprecia tumefacción laterocervical izquierda sobre la celda tiroidea.



**Figura 2.** Imagen ecográfica transversal que muestra un lóbulo izquierdo tiroideo mal delimitado con un absceso a ese nivel.



**Figura 3.** TAC cervical que muestra absceso multiloculado laterocervical izquierdo en el espacio visceral adyacente al lóbulo tiroideo del mismo lado y que desplaza la tráquea hacia la derecha.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se realiza un estudio retrospectivo de los casos de FSP en niños que han sido tratados en el Complejo Hospitalario Universitario de Albacete en los últimos 15 años, atendiendo a su presentación clínica, técnicas de imagen empleadas, tratamiento y evolución. En todos se realizaron estudios ecográficos y en tres casos tomografías computarizadas. La delimitación de la fístula se consiguió con esofagogramas baritados y/o con fibrolaringoscopias. El tratamiento consistió en antibioticoterapia de amplio espectro y drenaje quirúrgico en la fase aguda, con posterior fistulectomía en un segundo tiempo.

## RESULTADOS

Entre Febrero de 1993 y Enero de 2008, han sido diagnosticados en nuestro centro cuatro niños con FSP en el lado izquierdo (un varón de dos años, una niña de cinco y dos niñas de siete años). Todos debutaron con una tumefacción laterocervical izquierda a nivel de la celda tiroidea con signos inflamatorios locales, asociados a fiebre y odinofagia (Fig. 1). La analítica mostró datos compatibles con infección aguda. Dos de los pacientes presentaron abscesos cervicales recidivantes antes de establecerse el diagnóstico definitivo, habiendo transcurrido entre 7 meses y un año y medio respectivamente.

En todos se realizaron estudios ecográficos cervicales, hallando en dos casos masas heterogéneas cercanas al istmo tiroideo y en los otros dos signos compatibles con tiroiditis aguda supurativa con abscesos intraglandulares (Fig. 2). Se realizaron tomografías computarizadas a tres de los pacientes, donde se objetivaron masas heterogéneas con captación periférica de contraste, de bordes mal delimitados en el lóbulo tiroideo izquierdo o adyacentes al mismo (Fig. 3). A todos se les practicó un esofagograma baritado que confirmó sólo en dos casos la existencia de un trayecto fistuloso (Fig. 4). En uno de los niños con esofagograma negativo, se inyectó con-



**Figura 4.** Esófagograma baritado donde se aprecia un trayecto fistuloso que se origina en el seno piriforme izquierdo.

traste hidrosoluble a través del orificio de drenaje cutáneo y se puso de manifiesto la conexión entre la cavidad inflamatoria y el seno piriforme. Se realizaron tres fibrolaringoscopias, mostrando todas ellas el origen del sinus (Fig. 5). En los niños diagnosticados de tiroiditis aguda supurativa, la gammagrafía mostró ausencia de captación en el lóbulo tiroideo afecto.

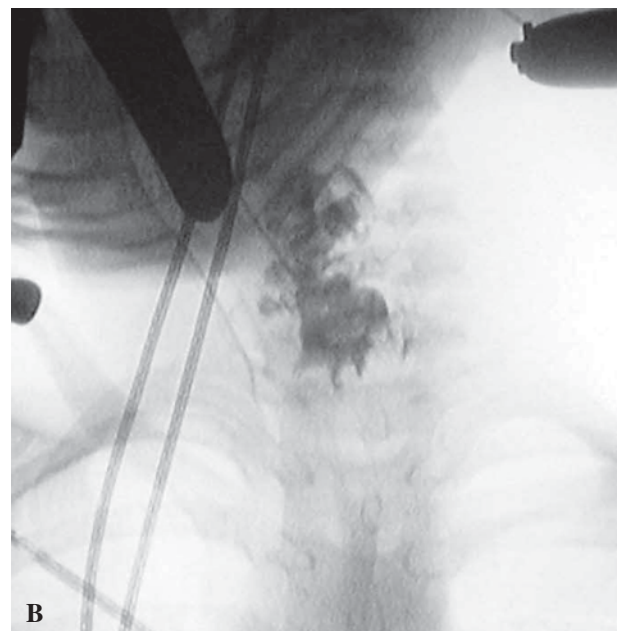
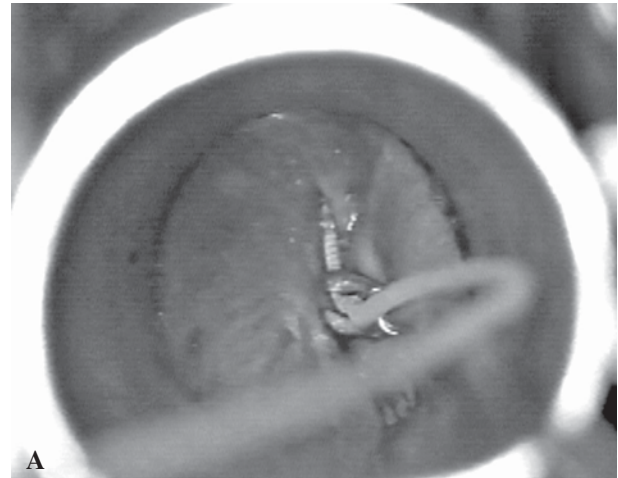
El tratamiento consistió en antibioticoterapia de amplio espectro y drenaje quirúrgico en la fase aguda, con posterior fistulectomía en un segundo tiempo. Se realizó hemitiroidectomía izquierda asociada a fistulectomía en un caso. Los cultivos obtenidos tras el drenaje revelaron crecimiento bacteriano mixto, con predominio de *Streptococcus viridans* sensible a penicilina. En una paciente se aislaron *Eikenella corrodens* y *Actinomyces Sp* también sensibles a penicilina.

Hasta el momento actual, tras un seguimiento de entre 3 meses y 14 años, todos los pacientes han permanecido asintomáticos, a excepción de una niña que presentó recidiva 7 años después de la fistulectomía, obligando a realizar una hemitiroidectomía izquierda como tercer procedimiento.

El estudio histológico del tejido extirpado mostró tractos fistulosos delineados por epitelio escamoso estratificado.

## DISCUSIÓN

Las FSP derivan del III o IV arco branquial, originándose en hipofaringe a nivel del seno piriforme, penetrando en el músculo cricoideo y llegando al ápex del lóbulo tiroideo o al tejido adyacente, generalmente en el lado izquierdo<sup>(1,2,4,6)</sup>. La teoría que apoya el origen en el tercer arco está basada en la evidencia de tejido tímico en algunos casos y la que apoya el



**Figura 5.** A) Imagen de laringoscopia directa donde se visualiza el origen de la fístula en el seno piriforme izquierdo, insinuándose un catéter de 3 ChFr a su través. B) Al introducir contraste por el catéter, se dibuja la fístula que comunica con la cavidad inflamatoria.

origen en el cuarto arco se fundamenta en la localización anatómica de la fístula, que tiene un curso similar al nervio laríngeo recurrente<sup>(4)</sup>. Suelen denominarse como “fístulas” a pesar de ser verdaderos sinus donde la apertura cutánea es poco común y cuando aparece suele ser secundaria a infecciones y drenajes quirúrgicos<sup>(6,7)</sup>. La tendencia a presentarse más en un lado que en otro del cuello (87-95% aparecen en el lado izquierdo<sup>(3,4)</sup>) puede deberse a la asimetría de cuarto arco branquial para formar el arco aórtico y la arteria innominada<sup>(2,8)</sup>. Tienden a sobreinfectarse tras procesos infecciosos del tracto respiratorio superior, lo que se atribuye al acumulo de secreciones<sup>(2,9)</sup>.

Estas fístulas son una causa poco frecuente de abscesos cervicales recurrentes y tiroiditis agudas supurativas. Las tiroi-



ditis además son poco comunes, particularmente en niños, ya que la glándula tiroidea es marcadamente resistente a las infecciones debido a su anatomía con un rico aporte vascular y linfático, alto contenido en yodo con propiedades antisépticas y la existencia de una cápsula fibrosa protectora<sup>(3,5,7)</sup>. Pueden producir ronquera y alteraciones de la voz, sin embargo, no es habitual que produzcan obstrucción de la vía aérea<sup>(2)</sup>. Los pacientes suelen ser eutiroides<sup>(10)</sup>.

Las tiroiditis agudas supurativas y los abscesos cervicales debidos a FSP son un reto en términos de diagnóstico y tratamiento, ya que las recurrencias son comunes a pesar de realizar una disección meticulosa, y cuando éstas aparecen tras la cirugía, están demostrando que la fístula no ha sido completamente identificada y reseca<sup>(1)</sup>. En la literatura se han presentado pequeñas series con un reducido número de pacientes, siendo habitual encontrar casos donde se han realizado varios procedimientos quirúrgicos antes de llegar a un diagnóstico de certeza<sup>(5-7,12)</sup>. Hay autores que describen periodos de tiempo entre el inicio de los síntomas y el establecimiento del diagnóstico de entre 3 y 34 años de edad<sup>(13)</sup>, lo cual da una idea del desconocimiento de esta patología. Un alto índice de sospecha es la clave del diagnóstico, al tratarse de una anomalía poco frecuente.

La ecografía es el estudio de imagen de primera elección en toda masa cervical en niños<sup>(2,6,14)</sup>. Si aparece una inflamación del tiroides o un absceso adyacente, puede ser la primera pista hacia el diagnóstico y se tendrán que emplear otros procedimientos para completarlo. La visualización ecográfica de burbujas de aire dentro de la lesión al hacer un Valsalva, puede ser indicio de esta patología<sup>(6,9)</sup>. En comparación con la resonancia magnética nuclear, la tomografía computarizada (TAC) es superior para el diagnóstico por su capacidad para definir al tejido tiroideo y para detectar gas en el trayecto fistuloso, que se consigue haciendo beber al paciente bebidas carbonatadas previamente<sup>(2,3,5,7)</sup>. El esofagograma baritado o el TAC con contraste oral pueden presentar falsos negativos por oclusión de la apertura del sinus por edema o secreciones<sup>(2,3)</sup>. Al igual que publican otros autores<sup>(3,7,15)</sup>, sólo hemos conseguido la delineación de la fístula con estudios baritados en el 50% de los pacientes, por lo que parece que esta prueba no es concluyente para el diagnóstico. Algunos proponen repetir el esofagograma tras la resolución del cuadro agudo y emplear contrastes hidrosolubles para evitar estos falsos negativos<sup>(1,4-6,9,10)</sup>. Cuando existe una apertura en la piel, la inyección directa de contraste puede mostrar la conexión entre la cavidad inflamatoria y el seno piriforme<sup>(9)</sup>. El mejor método para delinear la fístula es la laringoscopia con canalización del sinus e inyección de algún pigmento como el azul de metileno, que ayudará durante la cirugía para detectar el trayecto<sup>(1,4)</sup>, pero esta exploración debe hacerse en quirófano.

La opción terapéutica más adecuada es la identificación y exéresis completa de la fístula por un abordaje cervical hasta desconectarla de su origen alto en hipofaringe<sup>(1-3,6)</sup>. En casos de presentación aguda con masa cervical inflamatoria, debe

realizarse un tratamiento escalonado, primero con antibiocioterapia de amplio espectro que cubra los microorganismos de la flora oral, incisión y drenaje del absceso si es necesario, y más tarde, una vez enfriado el absceso, realizar una faringo-laringoscopia con canalización de la fístula y exéresis completa de la misma<sup>(6,16)</sup>. Se debe hacer una disección meticulosa del cuello para visualizar y respetar los nervios laríngeo recurrente y superior, lo cual a veces no es sencillo si ha habido cuadros de infección previos. Para evitar recidivas se recomienda la resección de la porción de la glándula tiroidea implicada<sup>(1,3,6)</sup>, aunque algunos autores consideran que con la ligadura alta y la exéresis completa de la fístula, sin realizar hemitiroidectomía o istmosectomía es suficiente para el correcto tratamiento<sup>(17)</sup>. En nuestra pequeña serie, hemos tenido que hacer hemitiroidectomía en dos ocasiones, siendo una de ellas tras una recidiva a los 7 años de haber realizado la fistulectomía. Recientemente se han reportado casos tratados con quimiocauterización con ácido tricloroacético en la apertura interna de la fístula<sup>(15,18)</sup> y con aplicación de Histoacryl<sup>(3)</sup> tras la exéresis, con buenos resultados. En algún caso se ha tratado únicamente con sellado de la fístula con adhesivo de fibrina sin conocerse los resultados a largo plazo de este procedimiento<sup>(19)</sup>. Aunque se supone que la línea epitelial del tracto fistuloso puede destruirse por infecciones recurrentes, la ausencia de este epitelio en la muestra escindida debiera hacernos sospechar que el trayecto no ha sido encontrado y que pueden aparecer recurrencias futuras<sup>(6)</sup>.

Los patógenos implicados suelen formar parte de la flora orofaríngea, siendo los más frecuentemente aislados los de la familia estreptococcica, al igual que ocurre en otras series<sup>(3,12)</sup>. La sensibilidad de estos gérmenes justifica la mejor pauta antibiótica de inicio, que pensamos que es la penicilina o sus derivados.

En conclusión, el aspecto más importante en el manejo de las fístulas del seno piriforme es sospechar de su existencia ante la presencia de procesos inflamatorios recurrentes en la región inferior izquierda cervical. Se deben orientar los métodos de diagnóstico a la búsqueda y delimitación de la fístula, ya que ésta debe ser completamente escindida. La laringoscopia prequirúrgica con canulación del sinus facilita el procedimiento. La resección del lóbulo tiroideo contiguo es controvertida y requiere mayor evidencia, aunque pensamos que puede evitar la aparición de recurrencias.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Franciosi JP, Sell LL, Conley SF, Bolender DL. Pyriform sinus malformations: a cadaveric representation. *J Pediatr Surg* 2002; 37: 533-538.
2. Gan YU, Lam SL. Imaging findings in acute neck infection due to pyriform sinus fistula. *Ann Acad Med Singapore* 2004;33(5): 636-40.
3. Sai Prasad TR, Chong CL, Mani A, Chui CH, Tan CE, Tee WS, Jacobsen AS. Acute suppurative thyroiditis in children secondary to pyriform sinus fistula. *Pediatr Surg Int* 2007; 23(8): 779-83.

4. Seki N, Himi T. Retrospective review of 13 cases of pyriform sinus fistula. *Am J Otolaryngol* 2007; 28(1): 55-58.
5. Martín del Rey R, Ortí A, Gregori P, Andrés V, Otero MC, Pérez-Tamarit D, Carles C, Asensi F. Fístulas de seno piriforme. *An Esp Pediatr* 2002; 56: 185-188.
6. Liberman M, Kay S, Emil S, Flageole H, Nguyen LT, Tewfik TL, Oudjhane K, Laberge JM. Ten years of experience with third and fourth branchial remnants. *J Pediatr Surg* 2002; 37: 685-690.
7. Park SW, Han MH, Sung MH, Kim I, Kim KH, Chang KH, Han MC. Neck infection associated with pyriform sinus fistula: Imaging findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000; 21(5): 817-822.
8. Mouri N, Muraji T, Nishijima E, Tsugawa C. Reappraisal of lateral cervical cysts in neonates: pyriform sinus cysts as an anatomy-based nomenclature. *J Pediatr Surg* 1998; 33: 1141-1144.
9. Wang HK, Tiu CM, Chou YH, Chang CY. Imaging studies of pyriform sinus fistula. *Pediatr Radiol* 2003; 33: 328-333.
10. Miller D, Hill JL, Sun CC, O'Brien DS, Haller JA. The diagnosis and management of pyriform sinus fistulae in infants and young children. *J Pediatr Surg* 1983; 18: 377-381.
11. Miyauchi A, Matsuzuka F, Kuma K, Takai S. Pyriform sinus fistula: an underlying abnormality common in patients with acute suppurative thyroiditis. *World J Surg* 1990; 14: 400-405.
12. Chi H, Lee YJ, Chiu NC, Huang FY, Huang CY, Lee KS, Shih SL, Shih BF. Acute suppurative thyroiditis in children. *Pediatr Infect Dis* 2002; 21 (5): 384-387.
13. Lee FP. Occult congenital pyriform sinus fistula causing recurrent left lower neck abscess. *Head Neck* 1999; 21 (7): 671-676.
14. Molina R, Muro D, Monedero MD, Izquierdo M, Sangüesa C, Sanchís JM. Diagnostic imaging of pyriform sinus fistulas. *Radiologia*. 2006; 48(6): 385-90.
15. Kim KH, Sung MW, Koh TY, Oh SH, Kim IS. Pyriform sinus fistula: management with chemocauterization of the internal opening. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2000; 109: 452-456.
16. Kubota M, Suita S, Kamimura T, Zaizen Y. Surgical strategy for the treatment of pyriform sinus fistula. *J Pediatr Surg* 1997; 32: 34-37.
17. Honzumi M, Suzuki H, Tsukamoto Y. Surgical resection for pyriform sinus fistula. *J Pediatr Surg* 1993; 28: 877-879.
18. Pereira KD, Smith SL. Endoscopic chemical cautery of pyriform sinus tracts: a safe new technique. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2008; 72(2): 185-8.
19. Cigliano B, Cipolletta L, Baltogiannis N, Esposito C, Settini A. Endoscopic fibrin sealing of congenital pyriform sinus fistula. *Surg Endosc* 2004; 18: 554.