

# Tiroides lingual obstructivo, intervención quirúrgica vía transcervical suprahioidea: reporte de un caso

L. Marcano Sanz, M. Endis Miranda, J. Araujo Astudillo

*Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Regional Vicente Corral Moscoso. Cuenca, Azuay (Ecuador).*

## RESUMEN

**Introducción.** El tratamiento de la tiroides lingual es controvertido y debe individualizarse. Las opciones incluyen el reemplazo hormonal, cirugía en presencia de hemorragia y obstrucción de la vía aérea o digestiva, y la terapia con radioisótopos.

**Caso clínico.** Niña de 8 años de edad, con molestias a la deglución. Se observa masa rosada, muy vascularizada, no dolorosa ni ulcerada, que protruye desde la base de la lengua y cierra prácticamente toda la orofaringe. Ecografía informa ausencia de tejido tiroideo en su posición normal. Tomografía axial computarizada cervical comprueba el diagnóstico y la obstrucción faríngea. Se indicó tratamiento sustitutivo de las hormonas tiroideas. Ante la progresión de los síntomas de disfagia, se indicó cirugía. Se describe la exéresis tiroidea por vía cervical, suprahioidea, con reimplante de láminas de tejido tiroideo. Evolucionó sin complicaciones y se mantiene tratamiento sustitutivo, con excelente estado clínico después de cuatro años.

**PALABRAS CLAVE:** Tiroides; Lingual; Ectópica.

## OBSTRUCTIVE LINGUAL THYROID; SUPRAHYOID INTRACERVICAL SURGICAL PROCEDURE – A CASE REPORT

## ABSTRACT

**Introduction.** The treatment of lingual thyroid is controversial and should be individualized. Options include hormonal replacement, surgery in the presence of bleeding and obstruction of the airway and the digestive tract, and radioisotope therapy.

**Clinical case.** 8-year-old girl presenting with discomfort when swallowing. A pink, well-vascularized mass, not painful or ulcerated, protruding from the base of the tongue and virtually closing the whole oropharynx, was observed. Absence of thyroid tissue in its normal position was reported by the ultrasound department. Cervical computed axial tomography confirmed the diagnosis and the presence of pharyngeal obstruction. Thyroid hormone replacement was established. As a result of dysphagia symptom progression, surgery was indicated. Thyroid removal was performed by means of a cervicotomy, with re-implantation of thyroid

tissue laminas. The postoperative course was uneventful and replacement treatment was maintained, with an excellent clinical status four years later.

**KEY WORDS:** Ectopic; Lingual; Thyroid.

## INTRODUCCIÓN

La tiroides ectópica es un defecto embriológico en el desarrollo de la glándula tiroides por alteración en la migración desde el foramen ciego en la base lingual hasta su localización pretraqueal, entre la tercera y la séptima semana de gestación<sup>(1)</sup>. La presencia de tejido tiroideo ectópico se puede encontrar tanto en el tracto aerodigestivo superior (lingual, sublingual, tirogloso e intralaringotraqueal), como en otras localizaciones a distancia: esófago cervical, mediastino superior, diafragma, corazón<sup>(2)</sup>. Se ha postulado que inmunoglobulinas antitiroideas maternas pueden detener el descenso glandular y predisponer al paciente a una pobre función tiroidea en vida.

La incidencia clínica varía de 1:3.000 a 1:10.000. El tiroides lingual es el único tejido tiroideo funcionando en el 70% de los casos. La presencia de tejido tiroideo ectópico es 3 o 4 veces más frecuente en mujeres que en varones aunque algunos autores estiman que la proporción puede ser de hasta 7:1<sup>(2-5)</sup>.

La forma más frecuente de tiroides ectópico es el lingual, representando 90% de los casos. Las manifestaciones clínicas dependen de la edad del paciente, la función tiroidea y el tamaño de la masa; el diagnóstico se basa fundamentalmente en pruebas de imagen. Por lo general, se presenta como un nódulo submucoso en la base de la lengua<sup>(4,6)</sup>. El tratamiento es controvertido y debe individualizarse en cada paciente<sup>(3-6)</sup>.

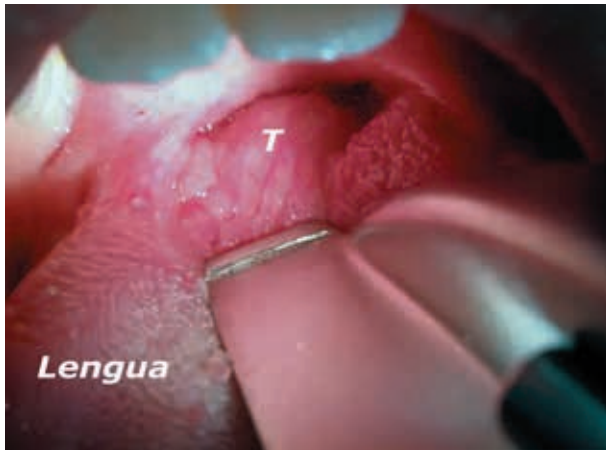
## CASO CLÍNICO

Niña de 8 años de edad, que acude por molestias a la deglución. Al examen físico de la cavidad oral se observa masa

**Correspondencia:** Dr. Luis Enrique Marcano Sanz. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Regional Vicente Corral Moscoso. Avenida 12 de abril y los Arupos. Cuenca, Azuay, Ecuador. 010150.  
E-mail: marcanosanz@gmail.com

Recibido: Abril 2019

Aceptado: Noviembre 2019



**Figura 1.** Masa rosada, muy vascularizada, renitente, no dolorosa ni ulcerada, que protruye desde la base de la lengua y cierra prácticamente toda la orofaringe.

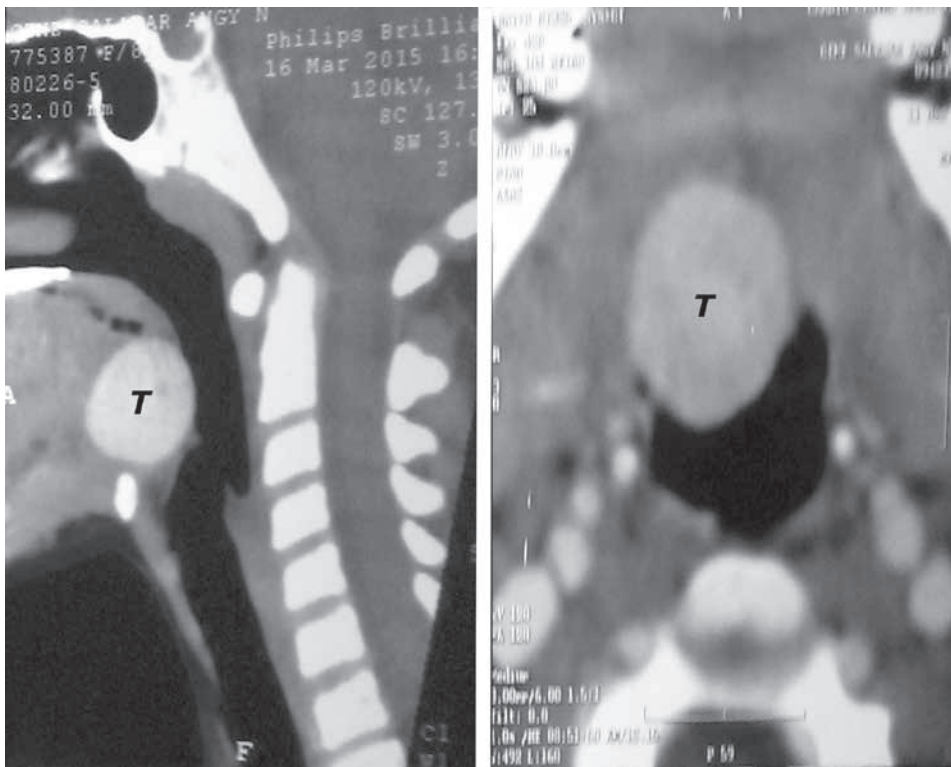
rosada, muy vascularizada, renitente, no dolorosa ni ulcerada, que protruye desde la base de la lengua y cierra prácticamente toda la orofaringe (Fig. 1).

Se sospecha el diagnóstico de tiroides ectópico y se indica ecografía, que informa ausencia de tejido tiroideo en su posición normal y presencia en la base de la lengua. Se realizó tomografía axial computarizada (TAC) cervical (Fig. 2) donde se comprueba el diagnóstico positivo de tiroides lingual.

Se estudia la función de la glándula tiroidea y se obtienen valores de hormona estimulante del tiroides (TSH) = 6,98 UI/ml (valor de referencia 0,4-4 UI/ml) y de tiroglobulina (TG) = 109 (valor de referencia 0,1-79).

Se indicó tratamiento sustitutivo de las hormonas tiroideas con levotirozina a dosis de 3 µg/kg/día por 4 semanas, sin obtener reducción del tamaño de la masa, aunque sí se normalizaron los valores de la TSH y TG.

Ante la progresión de los síntomas de disfagia, se realizó exéresis quirúrgica de la glándula ectópica. Previa intubación nasotraqueal fibroendoscópica, se realizó incisión transversa cervical a nivel del hueso hioides, se separaron en la línea media los planos musculares suprahioides y se reseco el cuerpo de dicho hueso para facilitar la exposición. Se abrió el músculo milohioideo y se localizó la glándula tiroidea en el espesor de la base de la lengua, asistidos por exploración digital oral para mejorar la protrusión de la masa hacia la zona quirúrgica (Fig. 3). Se realizó exéresis total de la glándula, se reparó el piso muscular de la cavidad oral y se afrontaron los músculos suprahioides en la línea media cervical. Dos pequeñas láminas de la glándula fueron reimplantadas debajo de los músculos submandibulares y el resto se envió a estudio anatomopatológico. Se comprobó la normal permeabilidad de la orofaringe (Fig. 4). Se mantuvo con ventilación mecánica durante 24 horas, evolucionando sin complicaciones. Mantiene tratamiento sustitutivo de las hormonas tiroideas, con excelente estado clínico tras dos años de seguimiento.



**Figura 2.** TAC que muestra la masa en la base de la lengua y ocluye parcialmente la vía digestiva sin compromiso de la vía aérea.



**Figura 3.** Por abordaje cervical con resección del cuerpo del hioides y disección de los músculos suprahioides, se muestra el tejido tiroideo ectópico.

## COMENTARIOS

Hickman<sup>(7)</sup> en 1869, fue el primero en describir el tiroides lingual, en un neonato de sexo femenino que murió por asfixia 16 horas tras el nacimiento. El tejido tiroideo ectópico no presenta mayor riesgo de degeneración maligna en comparación con la glándula tiroidea. La presencia de carcinoma es extremadamente rara (1%)<sup>(3,4,6)</sup>.

El tiroides lingual no se asocia con las glándulas paratiroides, normalmente situadas en su porción posterior, ya que estas se originan a partir del ala dorsal de la tercera y cuarta bolsas faríngeas (presentan un origen embriológico diferente)<sup>(3)</sup>.

La mayoría de los síntomas surgen durante la pubertad, el embarazo o la menstruación. Los signos y síntomas consisten en disfagia, disfonía, disnea, sensación de cuerpo extraño y ocasionalmente hemorragia<sup>(2,4,5)</sup>.

El examen clínico intraoral pone de manifiesto una masa suave, roja, rosada o azul, irregular, de diámetro variable y muy vascularizada en la línea media de la base de la lengua. La evaluación endoscópica de la vía aérea superior determina el tamaño glandular y el compromiso de la vía aérea<sup>(2-5)</sup>.

Las pruebas de función tiroidea a menudo demuestran situaciones de eutiroidismo o hipotiroidismo<sup>(7)</sup> con niveles normales o bajos de T3 y T4 y niveles altos de TSH y tiroglobulina<sup>(2,3,5,6)</sup>.

El estudio más específico para el diagnóstico del tiroides lingual es la gammagrafía con Tc<sup>99</sup> o I<sup>131</sup>. Muestra actividad o captación del radionucleótido en la base de la lengua y no aparente actividad en la posición normal de la glándula en el cuello. Este método evita la necesidad de realizar una biopsia diagnóstica, la cual implica riesgo de hemorragia incoercible o tirotoxicosis aguda, pero tiene el inconveniente de las radiaciones ionizantes y ha sido sustituido por otros más inócuos sobre todo en niños<sup>(3,5)</sup>.

La TAC es útil en la determinación del tamaño glandular. Sin embargo, la mejor técnica no invasiva es la resonancia magnética, permitiendo imágenes multiplanos y una excelente definición de los tejidos blandos<sup>(3,6)</sup>.

La angiografía selectiva de carótida externa puede detectar patrones aberrantes de vascularización. La embolización previa a la cirugía de los vasos nutrientes es un método seguro desde el punto de vista quirúrgico<sup>(3)</sup>.

No existe un consenso real en la literatura sobre la adecuada conducta del tiroides lingual debido a la rareza de esta con-



**Figura 4.** Se muestra el resultado postoperatorio, sin presencia de la masa obstructiva y con un resultado estético adecuado en la incisión.



dición y a las escasas y cortas series publicadas. Sin embargo, parece claro que los objetivos básicos a cubrir son la exéresis completa que elimine la presencia de síntomas obstructivos que en ocasiones puedan poner en peligro la vida del paciente y el control de la función tiroidea<sup>(3,5,6,8)</sup>.

El tratamiento depende de una serie de factores: severidad de los síntomas, tamaño de la lesión, sexo y edad del paciente y función tiroidea. Pacientes eutiroideos con tiroides linguales asintomáticos deben ser vigilados regularmente sin necesidad de tratamiento. Si un tiroides lingual no causa síntomas obstructivos, en principio no existe necesidad de tratamiento quirúrgico y si presenta síntomas de hipotiroidismo puede ser tratado únicamente con suplementos de hormona tiroidea. El objetivo es suprimir los niveles de TSH y eliminar así el estímulo de crecimiento glandular<sup>(3,4,8)</sup>. El tratamiento varía entre 1 y 22 meses y la respuesta efectiva se reporta en alrededor de 60%<sup>(8-11)</sup>.

La ablación con dosis terapéuticas de I<sup>131</sup> radiactivo es un método alternativo de tratamiento, particularmente contraindicado en niños y mujeres en edad fértil<sup>(2-6,9)</sup>.

El tratamiento quirúrgico debe ser considerado en aquellos casos que por su tamaño provocan síntomas obstructivos o hemorrágicos, cuando existe sospecha de malignidad y en casos en los que los síntomas iniciales empeoran tras la terapia supresora<sup>(2,3,5,9)</sup>.

Cuando el tiroides lingual está asociado con tejido tiroideo funcionante en su localización habitual, la escisión total es curativa; en caso contrario, se ha sugerido que el reimplante del tejido tiroideo ectópico extirpado es la forma de tratamiento adecuado para evitar el desarrollo de un estado hipotiroideo que precise aporte hormonal tiroideo de por vida. El tejido es colocado como un injerto libre bajo la fascia del músculo recto anterior del abdomen o en la región submandibular tras ser seccionado en láminas de 4 a 5 mm de espesor, el tratamiento con tiroxina no es administrado en el postoperatorio inmediato para prevenir la supresión del injerto. Un 30% de los pacientes permanecen eutiroideos sin la terapia con tiroxina, lo cual no se ha logrado en la paciente que se reporta ni se cuenta con evidencia del crecimiento del tejido reimplantado<sup>(3,6,9,10)</sup>.

La escisión quirúrgica del tiroides lingual puede ser realizada transoralmente o a través de una cervicotomía media o faringotomía lateral. La mayoría de casos descritos en la literatura han sido resueltos con un abordaje transoral<sup>(3,5,6,10)</sup>. Distintas modificaciones de este abordaje han sido introducidas con el objeto de mejorar la exposición, como incisiones de espesor total en mejilla, labiotomía media, labiomandibulotomía media o glosotomía media. Esta última ofrece un resultado estético adecuado y el riesgo de infección y fístula orocervical postoperatoria es menor. Sin embargo, la vía

transoral, ofrece peor exposición para grandes masas y no favorece un adecuado control de la posible hemorragia intraoperatoria<sup>(3,4,9,10)</sup>.

El abordaje cervical ofrece una mejor visualización global de la lesión, siendo especialmente útil en casos de gran tamaño y localización posterior como en la paciente que se reporta. Existen menos posibilidades de hemorragia intraoperatoria y cuando ocurre el control es más sencillo. Entre sus desventajas figuran la cicatriz cervical y la fístula orocervical postoperatoria. Puede realizarse a través de una faringotomía media trans, supra o infrahioidea o a través de una faringotomía lateral<sup>(2,3,5,6,9,10)</sup>. Aunque se han descrito el uso de láser y radiofrecuencia, no se ha generalizado su empleo y la cirugía continúa siendo de primera elección<sup>(8-10)</sup>. Los centros que disponen de cirugía robótica pueden valerse de esta tecnología y realizar la intervención transoral<sup>(12)</sup>.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Sauk JJ. Ectopic lingual thyroid. *J Pathol.* 1970; 102: 239-43.
2. Marín Fernández AB, Fernández Solís J. Tiroides ectópico lingual. Presentación de un caso y revisión del tratamiento. *Rev Mex Cir Bucal Maxilofac.* 2012; 8: 15-7.
3. Zubillaga Rodríguez I, Sánchez Aniceto G, García Recuero I, Montalvo Moreno JJ. Tiroides lingual: un nuevo abordaje quirúrgico. *Rev Esp Cir Oral Maxilofac.* 2004; 26: 316-24.
4. Betancourt AF, Bonnet II, Benedetti-Padrón I, Sáenz JC. Tiroides lingual, revisión del tema. *Rev Colomb Cir.* 2010; 25:231-6.
5. Singh S, Chopra B, Singh A. A rare case of lingual thyroid with hypothyroidism. *Int J Sci Res.* 2015; 4: 7-9.
6. Ghiasi S, Bayazian G, Khansarinia A. Dysphagia and dyspnea by lingual thyroid mass: An appropriate approach. *Egypt J Ear Nose Throat Allied Sci.* 2015; 16: 95-9.
7. Hickman W. Congenital tumour of the base of the tongue, pressing down the epiglottis on the larynx and causing the death of by suffocation sixteen hours after birth. *Trans Pathol Soc. (London)* 1869; 20: 160-3.
8. Aleid H, Alharbi A. Lingual thyroid: a systematic review of hormonal suppression treatment. *J Otolaryngol ENT Res.* 2015; 2: 00026.
9. Haque JA, Rahman HA, Jahan WA. Lingual thyroid diagnosed as a cause of cretinism: A case report. *J Curr Adv Med Res.* 2014; 1: 42-5.
10. Khamassi K, Jaafoura H, Masmoudi F, Lahiani R, Bougacha L, Ben Salah M. Ectopic lingual thyroid. *Case Rep Pediatr.* 2015; 2015: 252357.
11. Amr B, Monib S. Lingual thyroid: A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2011; 2: 313-5.
12. Teo EH, Toh ST, Tay HN, Han HJ. Transoral robotic resection of lingual thyroid: case report. *J Laryngol Otol.* 2013; 127: 1034-7.