

PAPILLARY CARCINOMA OF HYOID
CARCINOMA PAPILAR DEL HIOIDES

Dr. Javier López-Gómez¹

Dirección: Calle Xochicalco 52. Dpto 602. Col. Narvarte. Del. Benito Juárez. CP 03020. México D.F.
México. Tel. (52) 5554-085227. E-mail: dr.javierlogom@gmail.com

¹Departamento de Cirugía Oncológica, Instituto Nacional de Cancerología, México. Av. San
Fernando No. 22. Col. Sección XVI. Tlalpan C.P. 14080

Resumen

Antecedentes: El quiste del conducto tirogloso es una anomalía común con una incidencia del 7% en adultos, la tasa de carcinoma papilar en el quiste de conducto tirogloso es de 0,7 a 1,6% y son extremadamente raras las originadas en el hueso hioides. **Material y métodos:** Un paciente masculino de 60 años de edad, se presenta con un tumor en cuello anterior. La TC reveló un tumor hioides. Se realizó resección ósea del hioides; el informe patológico muestra un *carcinoma papilar convencional en tejido óseo*. Descartamos tumor primario en glándula tiroidea. Cinco años más tarde, desarrolló una recurrencia ganglionar. Se realizó tiroidectomía total y una disección selectiva del cuello izquierdo (niveles de II a IV). Recibió tratamiento adyuvante con yodo radioactivo. **Resultados:** El cáncer hioides se origina en los restos persistentes del conducto tirogloso dentro del hueso hioides. **Conclusión:** Proponemos agregar una nueva subdivisión a la patología derivada de los restos de conductos tiroglosos. El abordaje diagnóstico con ecografía y TC son necesarios. Un primario en la glándula tiroidea debe descartarse, y luego debe extraerse todo el hueso hioides. Se debe considerar el tratamiento de la glándula tiroidea y el cuello cuando existen factores de riesgo significativos de recurrencia, de manera similar al cáncer de tiroides según la evaluación del riesgo. Se reporta el primer caso de cáncer papilar originado en el hueso hioides
Palabras clave: Carcinoma papilar de hioides, cáncer hioides, cáncer de hioides papilar.

Abstract

Background: Thyroglossal duct cyst is a common anomaly with an incidence of 7% in adults, the rate of carcinoma in thyroglossal duct cyst is 0.7–1.6%, and are extremely rare those originated in the hyoid bone. **Material and methods:** A 60 years old male patient, had a hard mass in the anterior neck. CT revealed a hyoid tumor. Hyoid bone resection was performed; the pathological report shows a conventional papillary carcinoma in bone tissue. We rule out primary tumor in thyroid gland. Five years later, he developed a neck node recurrence. Total thyroidectomy and a selective left neck dissection (II–IV levels) was performed. He received radioiodine adjuvant treatment. **Results:** Hyoid cancer originates of a persistent thyroglossal duct remnants inside hyoid bone. **Conclusion:** We propose to add a new subdivision to pathology derived from thyroglossal duct remnants. The diagnostic approach with ultrasound and CT are necessary. A primary in the thyroid gland must be discarded, and then the entire hyoid bone must be removed. Treatment of the thyroid gland and neck should be considered when there are significant risk factors of recurrence, similarly to thyroid cancer based on the risk assessment. The first case of papillary cancer originated in the hioides is reported

Key words: Papillary carcinoma of hyoid, Hyoid Cancer, Papillary hyoid cancer

Antecedentes

La tiroides comienza a desarrollarse en la etapa embrionaria en la 3-5 semanas en el área que luego se convierte en el foramen ciego, desciende en la línea media a través de los músculos de la lengua y luego anterior al hueso hioides y la laringe (30% se encontrara posterior al hioides), para anular la cuarta arteria del arco faríngeo y alcanzar su posición paratraqueal en la 7ta semana de gestación, dejando que el conducto tirogloso se borre y desaparezca en la semana 9-10. Si la obliteración falla, los restos del conducto tirogloso (TGD) son propensos a convertirse en un quiste del conducto tirogloso (TGDC).¹⁻⁶ El TGDC tiene una incidencia del 7% en adultos, representa el 70% de todas las anomalías congénitas del cuello y más del 50% contiene tejido tiroideo con función ectópica. Es más frecuente en las dos primeras décadas de vida.^{1,4,15} La tasa de carcinoma en TGDC es del 0.7-1.6%,¹⁴ y la mayoría de las veces es un carcinoma papilar bien diferenciado, ya que el carcinoma de tiroides (PTC) menos común es un carcinoma folicular.⁶

La presentación clínica es de un tumor en la línea media del cuello en el hueso hioides. El revestimiento epitelial del TGDC varía desde el epitelio escamoso hasta el epitelio cilíndrico ciliado pseudoestratificado. El tejido de la glándula salival o tiroides puede verse en la pared del quiste.^{4,6} Los estudios de imagen muestran un tumor a nivel del hueso hioides. En la ecografía aparece como masas quísticas bien definidas, con paredes delgadas y realce tardío.⁷ La biopsia con aguja de aspiración fina (FNA) en TGDC tuvo sensibilidad moderada.⁸ La tomografía es muy sensible para evaluar el hueso, se usa para evaluar el sitio del tumor, la relación con las estructuras y

características adyacentes, como el grosor de las paredes, los márgenes, los septos internos, el realce del borde, la densidad interna y la presencia o ausencia de glándula tiroidea.⁹ Se recomienda la extirpación quirúrgica del TGDC, debido a la probabilidad de infecciones recurrentes y la posibilidad rara de malignidad.⁴ El procedimiento Sistrunk ha sido un procedimiento quirúrgico estándar para la TGDC, el objetivo principal es la eliminación completa del quiste y el conducto.^{2,4,10} La tasa de recurrencia es menor de 5-30%. La operación Sistrunk es adecuada para la mayoría de los pacientes con carcinoma TGDC diagnosticado incidentalmente en presencia de una glándula tiroidea clínica y radiológicamente normal.^{4,13} No hay informes sobre la técnica quirúrgica del carcinoma en el hioides.

Material y Métodos

Pacientes masculinos de 60 años de edad, con antecedentes de tabaquismo, presento una masa cervical anterior en la línea media que creció lenta y progresivamente a lo largo de dos años, asociada a salivación excesiva y ronquera; el examen físico reveló una masa dura localizada en el cuello anterior. Las pruebas funcionales de la tiroidea, la tiroxina sérica (T4), la triyodotironina libre (T3) y la hormona estimulante de la tiroidea (TSH) estuvieron dentro de los límites normales. Una tomografía computarizada (TC) reveló una gran masa sólida y heterogénea, a nivel del hueso hioides de 55 × 35 × 39 mm de tamaño, que se extendió al cartílago tiroideo (Figura 1).¹⁸ Decidimos un tratamiento quirúrgico. Se realizó una resección del hueso hioides, encontrando un tumor óseo hioides de 7 × 4 cm. El informe patológico reveló una sospecha de carcinoma papilar convencional de 4 × 2 × 1,1 cm en el tejido óseo y la extensión de los tejidos blandos (Figura 2).¹⁸ El ultrasonido se reportó sin hallazgos en glándula tiroidea y los ganglios linfáticos normales. Después de una discusión multidisciplinaria, sospechamos un carcinoma papilar primario del remanente del conducto tirogloso en el hioides y decidimos mantener al paciente bajo vigilancia. Cinco años después, el examen físico reveló ganglios linfáticos cervicales; La ecografía del cuello informó una sospecha de malignidad en el ganglio linfático cervical y la aspiración con aguja fina (FNA) reveló un carcinoma papilar.

La paciente se sometió a tiroidectomía total y disección del cuello izquierdo de los niveles II - IV. La evaluación patológica reveló la glándula tiroidea con bocio multinodular sin ningún foco neoplásico y carcinoma metastásico papilar de tiroidea en 9 de los 17 ganglios linfáticos (Figura 3).¹⁸ Se recomendó el tratamiento con yodo radioactivo postoperatorio y la supresión de la hormona tiroidea. Durante su seguimiento la paciente continua libre de enfermedad.

Resultados

La tasa de carcinoma en TGDC es 0.7–1.6%,¹⁴ de los cuales, los carcinomas papilares de tiroidea bien diferenciados (PTC) representan 66.7–95%, seguidos de folicular 16.7%, variante de células altas 11.1% y PTC clásico con células focales altas 5,6%. El carcinoma medular no se ha descrito en la literatura.^{6,14} De los pacientes sometidos a tiroidectomía, el 50% tenía PTC incidental en la tiroidea con un tamaño de 0.1 a 0.3 cm.^{6,14} *Hay un informe patológico en el que el conducto tirogloso penetró en el hueso hioides, resultado de un crecimiento hacia adelante del hueso hioides después de empujar el TGD por primera vez, la forma del hueso se adapta al TGD y finalmente lo engulle completamente,² esto apoya el diagnóstico de cáncer hioides del caso que estamos presentando.* Las ubicaciones de TGDC se clasifican en 4 subdivisiones: (1) intralingual, (2) suprahiodeo o submental, (3) tirohiodeo, y (4) supraesternal. Proponemos añadir una nueva subdivisión "Hiodeo".

La presentación clínica del caso de presentarse en el hioides es similar a una TGDC, con una masa en la línea media del cuello en el hueso. El resto de TGDC se encuentra justo arriba o debajo del hueso hioides, pero aproximadamente un tercio puede presentarse submentalmente o en niveles cervicales más bajos.⁴ Menos del 1% se encuentran fuera de la línea media.^{1,4} El revestimiento epitelial de un TGDC varía desde el epitelio escamoso hasta el epitelio cilíndrico ciliado pseudoestratificado. El tejido de la glándula salival o el tejido de la glándula tiroidea (22 a 46%) puede verse en la pared del quiste.^{4,6} Los estudios de imagen revelaron un tumor a nivel del hueso hioides. Se identificaron aspectos ecográficos en adultos: anecoicos (28%), homogéneamente hipoeoicos con residuos internos (18%), pseudosólidos (28%) y heterogéneos (28%).⁷ La FNA en TGDC es

moderadamente sensible para una evaluación preoperatoria, con un valor predictivo positivo del 69%.⁸ Pero creemos que el uso principal de la ecografía es evaluar la glándula tiroides y los ganglios linfáticos cervicales y guiar una FNA. La TC es muy sensible para evaluar el hueso. Se utiliza para evaluar el sitio de la masa, la relación con la línea media, las paredes, los márgenes, los septos internos, el aumento del borde, la densidad interna y la presencia o ausencia de la glándula tiroides.⁹ Sugerimos que un paciente con tumor hioides debe ser evaluado con ecografía y TC del cuello. El procedimiento Sistrunk ha sido un procedimiento quirúrgico estándar para el quiste tirogloso benigno, incluye cistectomía en bloque e hioidectomía central, con escisión del tracto hasta el foramen ciego, el objetivo principal es la extirpación completa del quiste y el conducto.^{2,4,10,14}

La tasa de recurrencia es menos del 10%, pero los informes varían entre 5 y 30%. La tasa de recurrencia se ha asociado con un diagnóstico inicial incorrecto en el 50% de los casos, infección previa en el 15% de los casos, ubicaciones inusuales en el 15% de los casos y falta de extirpación del tejido muscular de la base de la lengua y una relativa inexperiencia del cirujano, ambos en el 2% de los casos.^{11,14} La principal complicación de la cirugía para TGDC es la infección (10–70%).⁴ Otras complicaciones son el hematoma, la transfusión de sangre, la apertura de las vías respiratorias o la traqueotomía, la parálisis nerviosa (hipogloso), el hipotiroidismo y la muerte.¹² El espacio posterior del hioides está delimitado caudalmente por el borde inferior del hioides, cranealmente por el borde superior del hioides y la membrana tirohioidea, ventralmente por la superficie posterior del hioides, y dorsalmente por la membrana tirohioidea facilita la resección completa y puede prevenir la resección inadecuada del quiste en el área del hioides, que informa una tasa de recurrencia inferior al 2%.⁴

El tratamiento quirúrgico del carcinoma TGDC se basa en la evaluación del riesgo, similar al cáncer de tiroides bien diferenciado, según las directrices revisadas de 2015 de la American Thyroid Association (ATA).^{15,16} La operación de Sistrunk es adecuada para la mayoría de los pacientes con bajo riesgo con TGDC diagnosticada incidentalmente (sin metástasis locales o distantes, resección completa de manera macroscópica, histología no agresiva, sin invasión vascular, sin metástasis cervicales, menor de 45 años, sin historia de radiación y el tumor menor de 4 cm), la adición de la tiroidectomía total no tuvo un impacto en el resultado, con una tasa de curación del 95%.^{4,13,15}

En pacientes con alto riesgo y la mayoría de riesgo intermedio están destinados a una tiroidectomía total adicional y una terapia postoperatoria de ablación con yodo radiactivo, el control locorregional es la prioridad máxima.^{14, 15} No hay informes sobre la técnica quirúrgica para el cáncer de hioides, pero consideramos que se debe evaluar la ausencia de TGDC y luego extirpar todo el hueso hioides, el tratamiento de la glándula tiroides y el cuello se debe manejar de la misma manera que un cáncer de tiroides; basado en la evaluación de riesgos. En este caso, después de un estudio cuidadoso, no se demostró tumor primario en la glándula tiroides ni en los ganglios linfáticos cervicales. El paciente recurrió al cuello y se realizó la tiroidectomía porque en ese momento tenía indicaciones de terapia de ablación con yodo radiactivo. Este es el primer informe de carcinoma papilar de hioides; ofrecemos una revisión de los mecanismos embrionarios que conducen a esta patología, así como las herramientas de diagnóstico. Proponemos una nueva clasificación de los restos del conducto tirogloso y el tratamiento quirúrgico adecuado para estos pacientes.

Conclusiones

El cáncer hioides se origina como resultado de un TGC persistente de un crecimiento hacia adelante del hueso hioides después de empujar primero el TGD hacia afuera, la forma del hueso se adapta al TGD y, finalmente, lo envuelve por completo. Proponemos agregar una nueva subdivisión a la localización de TGDC (Hioides). La histología y su frecuencia es similar al cáncer de tiroides. El abordaje de diagnóstico debe ser con ultrasonido para evaluar la glándula tiroides y los ganglios linfáticos cervicales y realizar una FNA y una TC para evaluar el hueso. Consideramos que se debe evaluar la ausencia de TGDC, y luego remover todo el hueso hioides, el tratamiento de la glándula tiroides y el cuello se debe manejar de la misma manera que un cáncer de tiroides; basado en la evaluación de riesgos según ATA 2015.

Referencias

1. P.D.M. Ellis, A.W.P. Van Nostrand, The applied anatomy of thyroglossal tract remnants, *Laryngoscope* 87 (1977) 765–770, <http://dx.doi.org/10.1002/lary.5540870512>.
2. M. Horisawa, J. Sasaki, N. Niinomi, T. Yamamoto, T. Ito, Thyroglossal duct remnant penetrating the hyoid bone—a case report, *J. Pediatr. Surg.* 33 (1998) 725–726.
3. Y. Takanashi, Y. Honkura, J.F. Rodriguez-Vazquez, G. Murakami, T. Kawase, Y. Katori, Pyramidal lobe of the thyroid gland and the thyroglossal duct remnant: a study using human fetal sections, *Ann. Anat. Anat. Anzeiger.* 197 (2015) 29–37, <http://dx.doi.org/10.1016/j.aanat.2014.09.001>.
4. K.P.Q. Oomen, V.K. Modi, J. Maddalozzo, Thyroglossal duct cyst and ectopic thyroid, *Otolaryngol. Clin. North Am.* 48 (2015) 15–27, <http://dx.doi.org/10.1016/j.otc.2014.09.003>.
5. R. Shah, K. Gow, S.E. Sobol, Outcome of thyroglossal duct cyst excision is independent of presenting age or symptomatology, *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.* 71 (2007) 1731–1735, <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2007.07.010>.
6. S. Wei, V.A. LiVolsi, Z.W. Baloch, Pathology of thyroglossal duct: an institutional experience, *Endocr. Pathol.* 26 (2015) 75–79, <http://dx.doi.org/10.1007/s12022-015-9354-y>.
7. A.T. Ahuja, A.D. King, W. King, C. Metreweli, Thyroglossal duct cysts: sonographic appearances in adults, *AJNR Am. J. Neuroradiol.* 20 (1999) 579–582.
8. A. Shahin, F.H. Burroughs, J.P. Kirby, S.Z. Ali, Thyroglossal duct cyst: a cytopathologic study of 26 cases, *Diagn. Cytopathol.* 33 (2005) 365–369, <http://dx.doi.org/10.1002/dc.20346>.
9. D.H. Lee, S.H. Jung, T.M. Yoon, J.K. Lee, Y.E. Joo, S.C. Lim, Computed tomographic evaluation of thyroglossal duct cysts in children under 11 years of age, *Chonnam Med. J.* 48 (2012) 179, <http://dx.doi.org/10.4068/cmj.2012.48.3.179>.
10. W.E. Sistrunk, The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract, *Ann. Surg.* 71 (1920) 121–122.2.
11. J.A. Perkins, A.F. Inglis, K.C.Y. Sie, S.C. Manning, Recurrent thyroglossal duct cysts: a 23-year experience and a new method for management, *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.* 115 (2006) 850–856, <http://dx.doi.org/10.1177/000348940611501110>.
12. J. Maddalozzo, T.K. Venkatesan, P. Gupta, Complications associated with the sistrunk procedure, *Laryngoscope* 111 (2001) 119–123, <http://dx.doi.org/10.1097/00005537-200101000-00021>.
13. S.G. Patel, M. Escrig, A.R. Shaha, B. Singh, J.P. Shah, Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst, *J. Surg. Oncol.* 79 (2002) 134–139, <http://dx.doi.org/10.1002/jso.10059>.
14. S. Bakkar, M. Biricotti, G. Stefanini, C.E. Ambrosini, G. Materazzi, P. Miccoli, The extent of surgery in thyroglossal duct carcinoma, *Langenbecks Arch. Surg.* (2016) 1–6, <http://dx.doi.org/10.1007/s00423-016-1460-x>.
15. Y. Carter, N. Yeutter, H. Mazeh, Thyroglossal duct remnant carcinoma: beyond the Sistrunk procedure, *Surg. Oncol.* 23 (2014) 161–166, <http://dx.doi.org/10.1016/j.suronc.2014.07.002>.
16. B.R. Haugen, E.K. Alexander, K.C. Bible, G.M. Doherty, S.J. Mandel, Y.E. Nikiforov, F. Pacini, G.W. Randolph, A.M. Sawka, M. Schlumberger, K.G. Schuff, S.I. Sherman, J.A. Sosa, D.L. Steward, R.M. Tuttle, L. Wartofsky, American Thyroid Association Management Guidelines for adult patients with thyroid nodules and differentiated thyroid cancer: The American Thyroid Association Guidelines Task Force on Thyroid Nodules and Differentiated Thyroid Cancer, *Thyroid* 26 (2015) 1–133, <http://dx.doi.org/10.1089/thy.2015.0020>.
17. R.A. Agha, A.J. Fowler, A. Saeta, I. Barai, S. Rajmohan, D.P. Orgill, The SCARE Statement: consensus-based surgical case report guidelines, *Int. J. Surg.* (2016), <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijssu.2016.08.014>.
18. López-Gómez J, Salazar-Álvarez MA, Granados-García M. Papillary carcinoma of hyoid. *Int J Surg Case Rep.* 2016;28:241-245. doi: 10.1016/j.ijscr.2016.09.043. Epub 2016 Sep 29. PubMed PMID: 27750175; PubMed Central PMCID: PMC5070838.

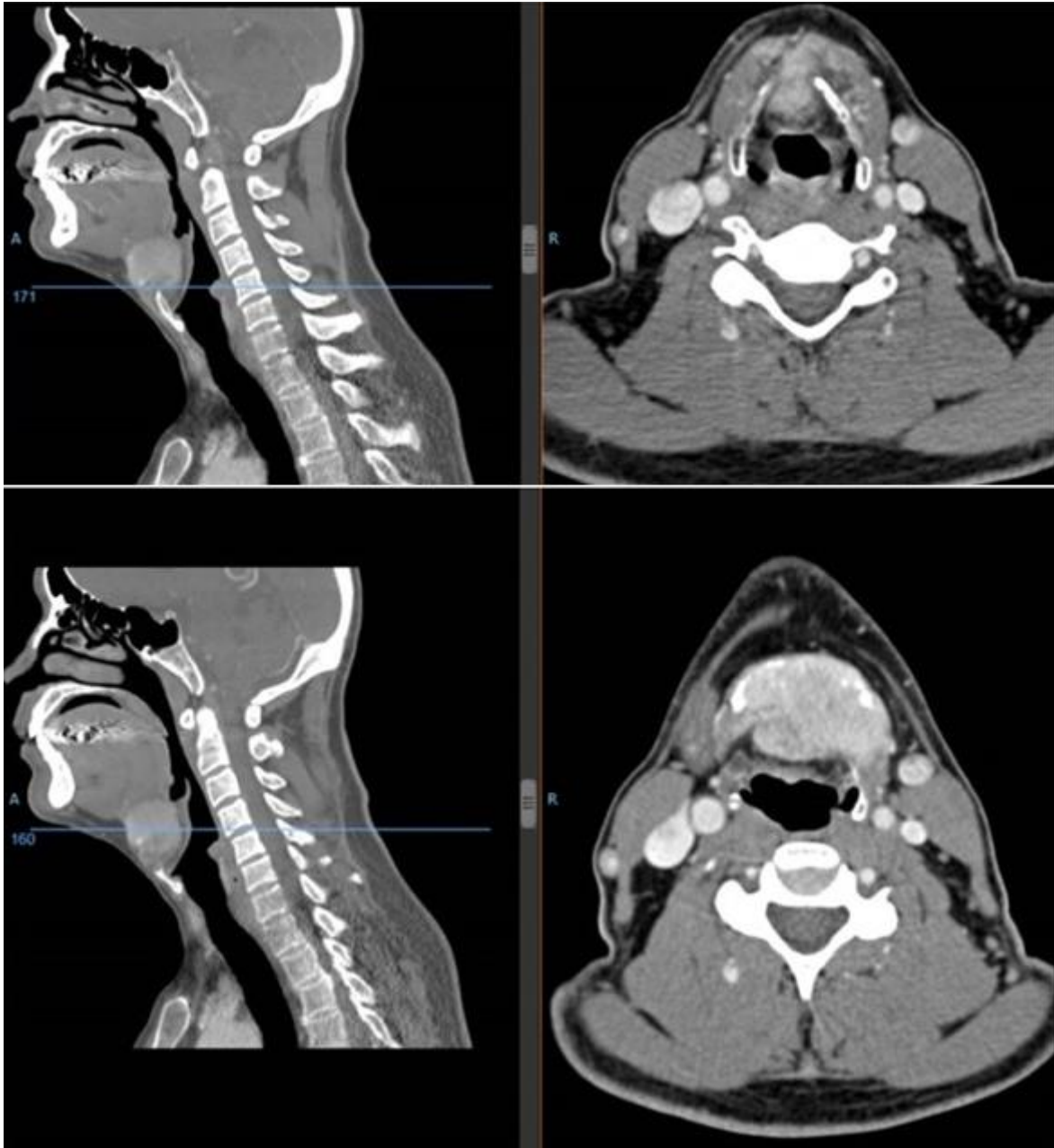


Figura 1. Tomografía computarizada. Arriba Gran masa sólida a nivel del hueso hioides. Abajo Extensión al cartílago tiroides.

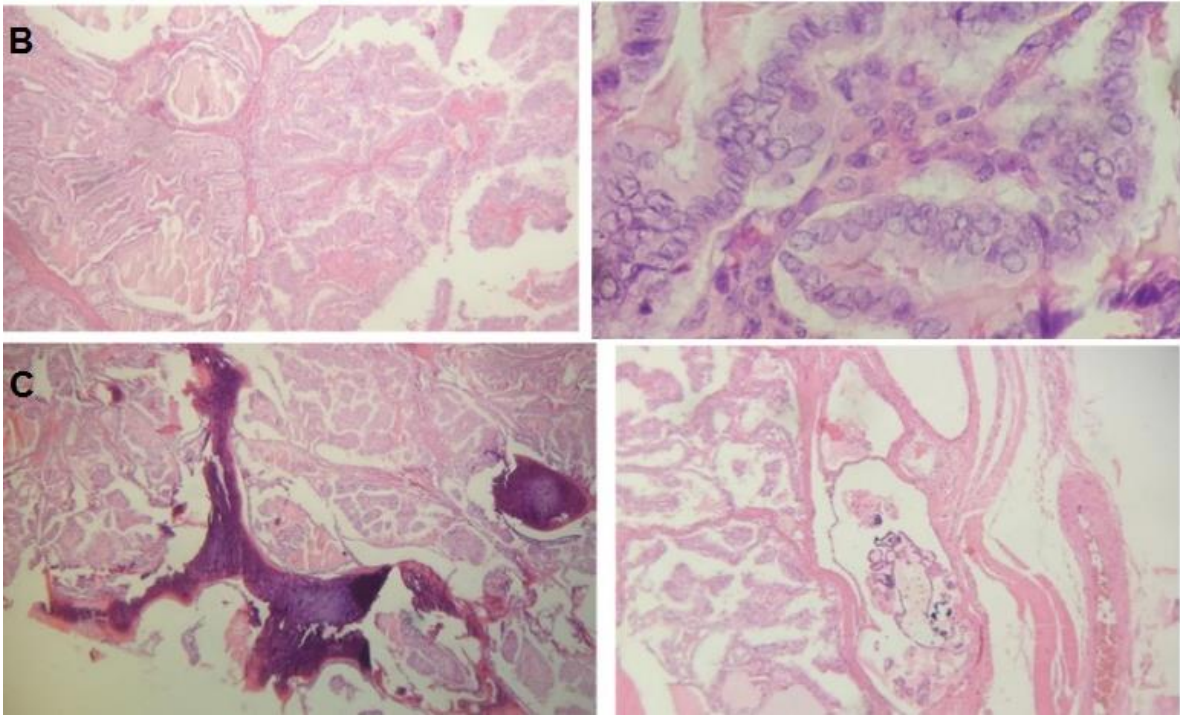


Figura 2: A: Resección del hueso hioideo. B: Se observó tinción de hematoxilina y eosina, una malignidad formando papilas y foliculos. C: Carcinoma papilar con infiltración ósea y permeación vascular.

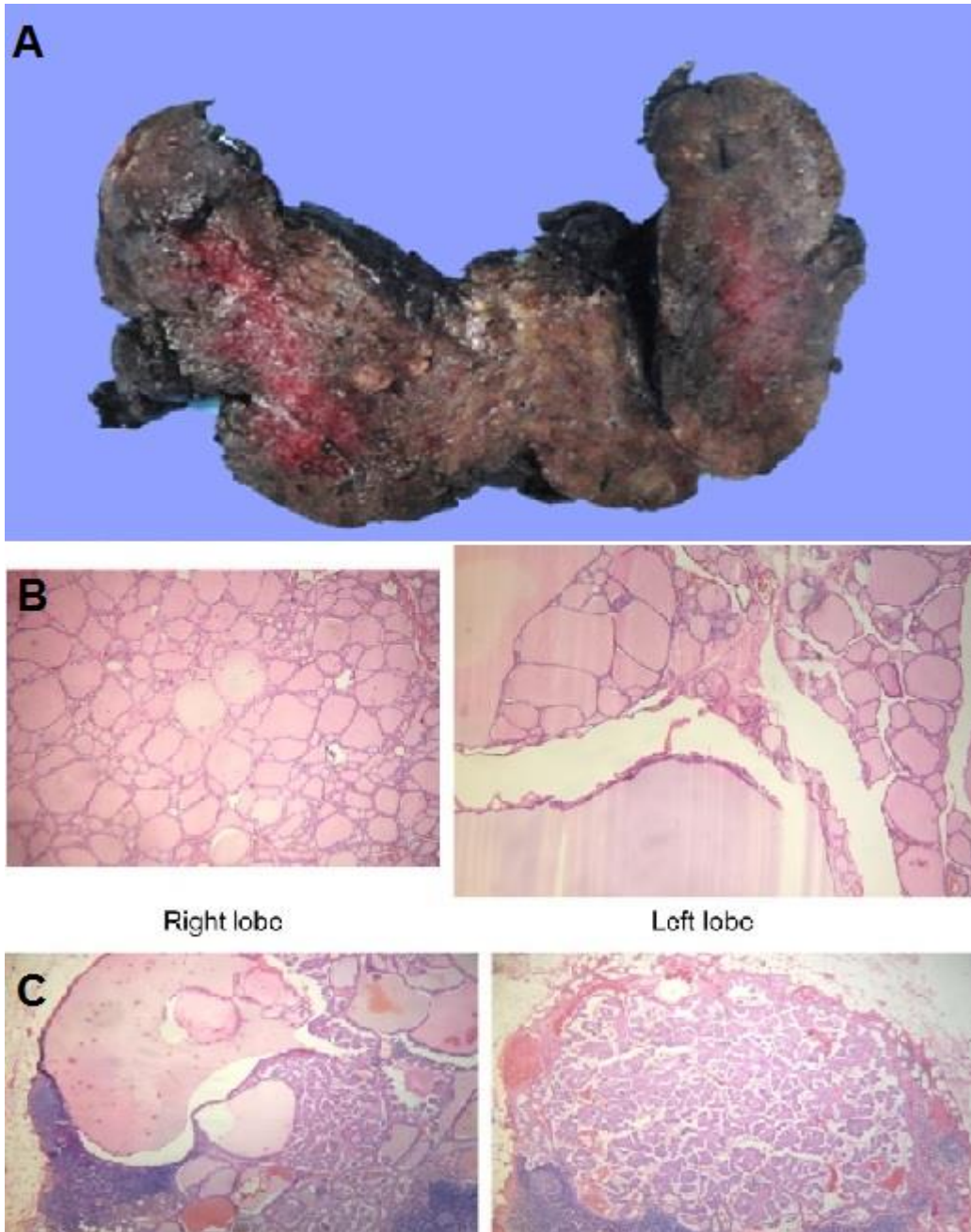
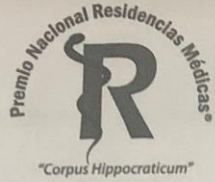


Figura 3. A: Glándula tiroides sin tumor macroscópico. B: Glándula tiroides con bocio multinodular. C: Ganglios linfáticos con metástasis del carcinoma papilar.



CONSENTIMIENTO INFORMADO PARA USO DE DATOS, FOTOGRAFÍAS E IMÁGENES CLÍNICAS PARA REPORTE DE CASO CLÍNICO

Fecha	12/12/2018	
Institución	Instituto Nacional de Cancerología	No Cédula Profesional
Jefe de Enseñanza	Dr. Eduardo Cervera Ceballos	6976907
Medico Titular del curso	Dr. Martin Granados Garcia / Dr. Angel Herrera Gómez	
Residente 01	Luis López Gómez	
Residente 02		
Residente 03		
Título del Caso Clínico	Carcinoma papilar del hioides	

Por medio de la presente, los médicos residentes enlistados en este documento declaran haber informado al Médico Titular del Curso y Jefe de Enseñanza de la Institución sobre su intención de divulgar y hacer público el caso clínico de referencia.

Con propósitos puramente académicos y científicos, haciendo uso de la información que de forma verídica se ha referido: exámenes de laboratorio y demás estudios que han considerado pertinentes.

Se declara que El Jefe de enseñanza y el Profesor Titular del Curso han dado autorización para utilizar fotografías clínicas, estudios y datos utilizadas de manera profesional en el caso clínico de referencia para presentarse en el Premio Nacional de Residencias Médicas.

	Firmas
Jefe de Enseñanza	
Medico Titular del curso	
Residente 01	
Residente 02	
Residente 03	



Ciudad de México 19 diciembre del 2018

Equipo del consejo evaluador del "Premio Nacional de Residencia Medicas"

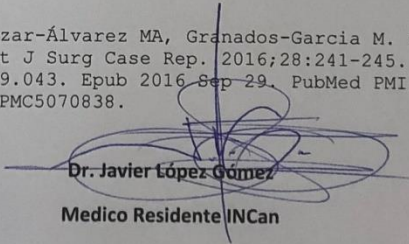
Por medio de la presente, yo el Dr. Javier López Gómez autor de los siguientes artículos publicados en la literatura médica autorizo, el uso del material bibliográfico y gráfico de los siguientes artículos que anuncio a continuación:

1: López-Gómez J, Medina-Ornelas S, Salazar-Álvarez MA, Álvarez-Bojórquez M, Zaragoza-Cruz N, Melchor-Ruan J, Álvarez-Cano A. Radioguided hepatic resection with (18)F-DOPA in a patient with metastatic medullary thyroid carcinoma. Rev Esp Med Nucl Imagen Mol. 2018 Jul - Aug;37(4):244-249. doi: 10.1016/j.remn.2017.12.003. Epub 2018 May 10. English, Spanish. PubMed PMID: 29754940.

2: López-Gómez J, Flores-Vázquez ER, Salazar-Álvarez MA, Adame RY, García-Ortega DY, Cuellar-Hübbe M. Treatment of intimal sarcoma of peripheral veins. Int J Surg Case Rep. 2017;31:93-98. doi: 10.1016/j.ijscr.2017.01.018. Epub 2017 Jan 16. PubMed PMID: 28129609; PubMed Central PMCID: PMC5266490.

3: López-Gómez J, Salazar-Álvarez MA, Adame RY, Alfaro-Goldaracena A, Flores-Vazquez ER, Gonzalez-Infante SH, Padilla-Rosciano AE, López-Basave HN. Metastatic pheochromocytoma to liver without elevation of metanephrines and catecholamines. Int J Surg Case Rep. 2016;29:71-75. doi: 10.1016/j.ijscr.2016.10.050. Epub 2016 Oct 22. PubMed PMID: 27821293; PubMed Central PMCID: PMC5099279.

4: López-Gómez J, Salazar-Álvarez MA, Granados-García M. Papillary carcinoma of hyoid. Int J Surg Case Rep. 2016;28:241-245. doi: 10.1016/j.ijscr.2016.09.043. Epub 2016 Sep 29. PubMed PMID: 27750175; PubMed Central PMCID: PMC5070838.


Dr. Javier López Gómez

Medico Residente INCan