

Glándula Tiroides Lingual: Diagnóstico y Tratamiento

Lingual Thyroid Gland: Diagnosis and Treatment

Blas Antonio Medina Ruíz*; **Marta Osorio***; **Ingrid Rodriguez****; **Blas Romero***** & **Nicolás Ernesto Ottone****,*******

MEDINA, R. B. A.; OSORIO, M.; RODRIGUEZ, I.; ROMERO, B. & OTTONE, N. E. Tiroides lingual: clínica, diagnóstico y tratamiento. Presentación de un caso y revisión de la literatura. *Int. J. Med. Surg. Sci.*, 3(4):1013-1023, 2016.

RESUMEN: La presencia de glándula tiroidea ectópica es una entidad rara. La tiroides lingual es la ectopía mas frecuente, predominando en mujeres. Este tejido glandular es pasible de sufrir todas las patologías que pueden afectar a la glándula normotópica, pudiendo ser sintomática o asintomática. Se presenta un caso de tiroides lingual en una paciente previamente tiroidectomizada que consultó por disnea y disfagia en la unidad de Cirugía de Cabeza y Cuello del Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Central del Instituto de Previsión Social, Asunción, Paraguay. La paciente recibía tratamiento hormonal de reemplazo, mostrando examen funcional normal. La semiología permitió observar un abombamiento de la base de la lengua. La fibroscopía mostró un tumor en base de lengua de unos 3 cm de diámetro, que pudo evaluarse correctamente con una tomografía computada. Ante la sospecha de una tiroides lingual se realizó un centellograma que demostró captación en piso de cavidad oral. Se realizó excéresis tumoral a través de una faringotomía suprahióidea, previa traqueostomía profiláctica. El informe de Anatomía Patológica confirmó el diagnóstico de bocio coloide ectópico.

PALABRAS CLAVE: Glándula tiroides lingual; Ectopía.

INTRODUCCIÓN

La glándula tiroides es la primera glándula endocrina en formarse y lo hace a partir de una invaginación del piso de la faringe primitiva. Este hecho ocurre en la 3° semana de desarrollo embrionario y constituye el primordio medial de la glándula. En la 5° semana se une a este esbozo los primordios laterales que proceden de la 4° o 5° bolsas faringeadas, llevando las células parafoliculares "C" productoras de calcitonina procedentes de la creta neural (Cassola Santana & Gil Jiménez, 2008; Nossios *et al.*, 2011).

Esta estructura desciende hasta el cuello y se ubica por delante de la tráquea en la 7° semana. El descenso deja tras de sí un trayecto llamado tirogloso que regresiona a la 8° semana aproximadamente, sin embargo pueden persistir células tiroideas en cualquier punto del mismo, sea en el punto de origen (foramen ciego) como en su parte terminal, que de hecho en muchas ocasiones persiste como tejido bien estructurado y es llamado lóbulo piramidal (de Lalouette), siendo este hecho considerado una variante normal de la anatomía glandular con

* Cirugía de Cabeza y Cuello, Servicio de ORL, Hospital Central del IPS, Paraguay

** Jefe del Departamento de Anatomía Patológica del HC-IPS, Paraguay.

*** Residente del Departamento de Anatomía Patológica del HC-IPS, Paraguay.

**** Centro de Investigación en Ciencias Odontológicas (CICO), Facultad de Odontología, Universidad de La Frontera, Temuco, Chile.

***** Programa de Doctorado en Ciencias Morfológicas, Facultad de Medicina, Universidad de La Frontera, Temuco, Chile.

una prevalencia muy variable (Cassola Santana & Gil Jiménez Braun *et al.*, 2007; Sturniolo *et al.*, 2008).

El desarrollo de tejido tiroideo fuera de su ubicación habitual en el cuello, por delante de los primeros anillos traqueales, es llamado tiroides ectópico, y se considera debido a una alteración en el descenso normal de la glándula antes mencionado. Esta ectopía puede ubicarse en la línea mediana, en la región lateral del cuello, o fuera del mismo. Las más frecuentes son las cervicales y mediales, y entre éstas, la ubicada en la base de la lengua, siendo más prevalente en mujeres (Cassola Santana & Gil Jiménez).

Hickman (1869) identificó y describió por primera vez esta alteración en una niña de 16 días de nacida; la ubicación ectópica de la glándula provocó la muerte de la paciente por problemas respiratorios (Luna Ortiz *et al.*, 2004; Bianco *et al.*, 2013).

Estudios de autopsia han revelado hasta un 10 % de células tiroideas a nivel de la base de la lengua, a nivel del foramen ciego. El desarrollo glandular en este nivel puede acompañarse o no con tejido tiroideo normotópico, sin embargo, en el 70 % de los casos el único tejido glandular hallado es la de ubicación lingual (Rocha Ruíz *et al.*, 2008)

La funcionalidad de la tiroides lingual es variable, pudiendo ser normo o hipofuncionante en la mayoría de los casos, si bien la hiperfuncionalidad puede presentarse en el marco de un nódulo hiperfuncionante o en el contexto de una enfermedad de Graves (Yangali *et al.*, 2003).

La sintomatología es variable, dependiendo del tamaño y funcionalidad así como de factores relacionados con el paciente, siendo a veces asintomático y resultando ser un hallazgo casual. Otras veces puede presentarse asociado a disnea, disfagia, disfonía, tos seca o sangrado, independientemente este tejido sea portador de patología tiroidea estructural o funcional (Gallo *et al.*, 2001; Oppenheimer, 2001; Rocha Ruíz *et al.*). La sintomatología suele relacionarse con la pubertad o con el embarazo donde se presentan cambios hormonales (Luna Ortiz *et al.*).

Este tejido glandular ectópico puede ser asiento de cáncer de tiroides (Polo Tomas, 1996; Goldstein *et al.*, 2002; Shah *et al.*, 2007; Hari *et al.*, 2009).

La fibroscopía ayuda al diagnóstico al igual que los estudios por imágenes, sobre todo la tomografía computada y la resonancia nuclear magnética (Altay *et al.*, 2012; Bianco *et al.*; Dolezal *et al.*, 2013). La centellografía tiroidea permite evaluar la captación a nivel del piso de la cavidad oral, siendo este detalle de suma importancia para el diagnóstico (Fiaschetti *et al.*, 2016).

En los casos asintomáticos y sin presencia de patología tiroidea asociada, puede ser manejado de manera conservadora, sobre todo si es el único tejido tiroideo funcionante. Los restantes casos requieren de excéresis de tejido ectópico o tratamiento con yodo radiactivo (Sigua Rodriguez, *et al.*, 2015).

La vía de abordaje cervical a través de una faringotomía suprahiodea o lateral es la más frecuentemente utilizada, sin embargo la vía transoral ya sea a través de un abordaje directo o translingual tiene sus indicaciones y actualmente es la vía para realizar la excéresis por cirugía robótica (O'Malley *et al.*, 2006; Calliuglu *et al.*, 2015).

REPORTE DE CASO

Paciente de sexo femenino de 38 años, con historia de 2 años de disfagia y disnea en la posición horizontal que empeora en los últimos meses. Consulta en la unidad de Cirugía de Cabeza y Cuello del Servicio de ORL del Hospital Central del IPS.

Como antecedente personal presenta historia de cirugía tiroidea previa en otro centro asistencial diez años atrás, con informe de anatomía patológica de bocio adenomatoso, refiriendo recibir tratamiento hormonal sustitutivo solo en los dos últimos años. Su perfil tiroideo dentro de rangos normales.

Presenta una ecografía cervical de dos años de antigüedad que informa imagen de for-

ma irregular, bien definida, en región suprahiodea, que mide 15 x 9 x 14 mm.

Al examen físico se constata masa que ocupa gran parte de la base de lengua, siendo sin embargo muy dificultoso su evaluación por oroscopia. La palpación permitió determinar la consistencia firme y elástica así como la lobulación de su superficie, siendo la masa indolora y midiendo aproximadamente 3 cm de diámetro.

Al examen fibroscópico se observa una tumoración rojiza, vascularizada, de 3 cm de diámetro, que ocupa el 90 % de la luz, móvil, pudiendo visualizarse las estructuras subyacentes con la movilización del tumor, estando todos ellos con características de normalidad.

La tomografía computada en cortes axiales, coronales y sagitales (Fig. 1) que muestran una tumoración redondeada, bien delimitada, hiperdensa, localizada en base de lengua, fue de suma utilidad para determinar las características del tumor y las estructuras anatómicas comprometidas por el mismo.

Ante la sospecha de tiroides lingual se solicita una gammagrafía tiroidea con Tecnecio 99 que informa ausencia de captación cervical en el lecho quirúrgico y captación moderadamente intensa en el piso de la boca.

Se decide cirugía y se realiza la excéresis de tumor lingual a través de una faringotomía utilizando una cervicotomía suprahiodea como vía de abordaje previa traqueostomía para ase-

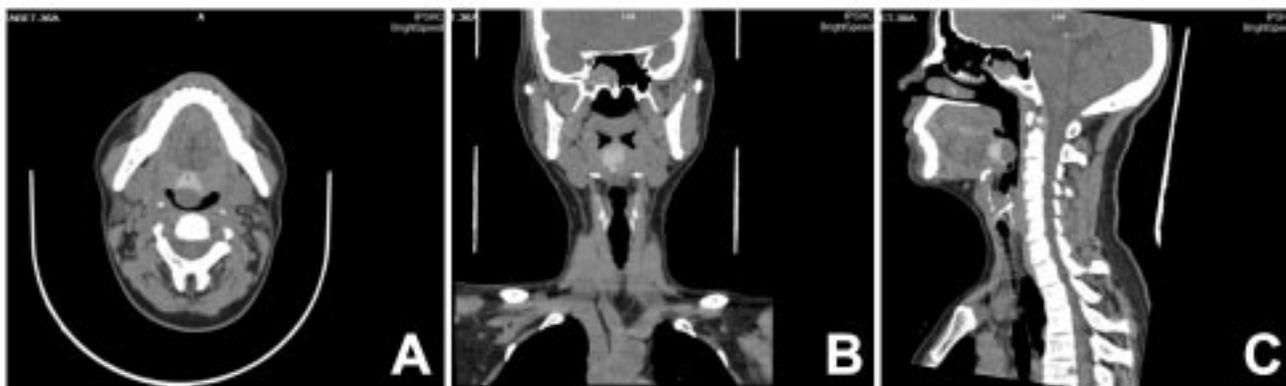


Fig. 1. Imágenes de tomografía computada, en los diferentes planos de cortes (A. Axiales; B. Coronales; C. Sagitales) que permiten identificar las características morfológicas del tumor y las estructuras anatómicas comprometidas.



Fig. 2. Abordaje realizado mediante una cervicotomía suprahiodea para la excéresis de tumor lingual. (Sup.: superior; Inf.: inferior).

gurar la vía aérea (Fig. 2). No se presentaron complicaciones intra ni postoperatorias.

El informe de anatomía patológica confirma el diagnóstico de glándula tiroides lingual rodeado por tejido fibroconectivo, adiposo y músculo esquelético benigno, con dos nódulos coloides de 1,2 y 1 cm de diámetro mayor respectivamente (Fig. 3A). Se presentan las imágenes de la macroscopía al corte de la pieza y la microscopía respectivamente (Figs. 3B, C).



Fig. 3. Anatomía patológica confirmando diagnóstico de glándula tiroides lingual. A. Pieza macroscópica. B. Corte de la pieza macroscópica. C. Microscopía.

DISCUSIÓN

Se presenta un caso de tiroides ectópica lingual en una mujer de 38 años de edad. Las ectopias de la glándula tiroides son entidades raras que afectan más frecuentemente a mujeres en una proporción 4:1, siendo las de ubicación lingual las de mayor prevalencia (Croce *et al.*, 2014). La prevalencia es de 1 por 100.000 a 3.000.000 nacimientos, representando 1 de cada 4.000 a 8.000 pacientes con patología tiroidea, siendo hallado en el 7 al 10 % de las autopsias realizadas (Noussios *et al.*; Sauk, 1970). En ciertos periodos de la vida, como la pubertad y el embarazo, en los cuales hay necesidades hormonales aumentadas, estos tejidos ectópicos pueden hipertrofiarse y hacerse sintomáticos (Quarracino & Aguas, 2003).

Se han reportado mutaciones en genes que codifican para factores de transcripción y que participan en el desarrollo tiroideo, sin embargo, hasta la fecha ninguna mutación en genes conocidos se ha asociado con tiroides ectópica (De Felice & Di Lauro, 2004; Noussios *et al.*). También se ha postulado que las inmunoglobulinas antitiroideas maternas pueden detener el descenso glandular, al bloquear el desarrollo tiroideo inducido por la TSH predisponiendo al paciente a una pobre función tiroidea (Betancourt *et al.*, 2010).

Una manera práctica de estudiar a las ectopías tiroideas es dividir las en mediales y la-

terales. Las primeras, las más frecuentes, se ubican sobre todo a nivel de la base de la lengua, en relación con el foramen ciego, o en cualquier otro punto del tracto tirogloso, pudiendo así encontrarse tejido glandular en posición retrotraqueal, intratraqueal, intralaríngeo e incluso en la parte cervical del esófago. A veces este descenso puede excederse y ubicarse en el mediastino, siendo esta última eventualidad muy poco frecuente, habiéndose hallado tejido tiroideo, incluso con patologías en el corazón y grandes vasos, así como en los pulmones (Arriaga & Myers, 1988; Richmond *et al.*, 1990; Osammor *et al.*, 1990; Fujioka *et al.*, 1996; Hirnle *et al.*, 1997; Jiménez Oliver *et al.*, 2002; Williams *et al.*, 2002; Koditis *et al.*, 2003; Ozpolat *et al.*, 2007; Guimaraes *et al.*, 2009; Di Mari *et al.*, 2010). Bien conocido es el struma ovarii, que puede presentar hipertiroidismo en un 5 % de los casos e incluso sufrir transformación maligna del tejido tiroideo (Utsunomiya *et al.*, 2003; Ciccarelli *et al.*, 2004; Makani *et al.*, 2004; Yoo *et al.*, 2008).

Con respecto a las ectopias cervicales laterales o accesorias, estas constituyen una rareza, sin embargo cobran importancia pues en algunos casos pueden ser confundidos con metástasis linfonodal de un cáncer de tiroides (Lazarus & Rosenthal, 1933). En ocasiones puede ubicarse en relación a la vaina carotídea o en quistes branquiales, pudiendo presentar

transformación maligna (Balasubramaniam *et al.*, 1992; Matsumoto *et al.*, 1999; Sidhu *et al.*, 2000; Cappellani *et al.*, 2004).

La tiroides lingual puede ser el único tejido tiroideo existente, esto ocurre en el 70 % de los casos (Hayes Dorado *et al.*, 2009; Rocha Ruíz *et al.*; Quarracino & Aguas). Puede asociarse también a un quiste tirogloso (Alderson & Lannigan, 1994).

Este tejido ectópico puede ser normofuncionante, constituyendo así el único tejido tiroideo funcionante, pero en el 70 % existe hipofunción (Grossman *et al.*, 2004; Cappelli *et al.*, 2006; Quarracino & Aguas; Yangali *et al.*). Es muy raro que este tejido ectópico sea hiperfuncionante ya sea debido a un nódulo autónomo o en el contexto de una enfermedad de Graves (Abdallah-Matta *et al.*, 2002; Kamiko, 2005; Moral Pascual *et al.*, 2007). Es evidente que el caso relatado presentaba hipofunción puesto que recibía tratamiento hormonal. Además la ectopia lingual evidentemente estaba acompañando a una glándula normotópica, esto se confirma por el antecedente de cirugía tiroidea previa y el informe de anatomía patológica consecuente.

La paciente consultó por presentar disfagia y disnea en posición de decúbito dorsal. Normalmente ésta es la sintomatología más frecuentemente referida (Rocha Ruíz *et al.*; Luna Ortiz *et al.*; Bayram *et al.*, 2004; Barnes *et al.*, 2004). En ocasiones puede haber sensación de cuerpo extraño en la faringe (Hayes Dorado *et al.*) e incluso sangrados, a veces graves (Quarracino & Aguas).

La tiroides lingual puede presentarse como una masa que abomba la base de la lengua, pudiendo ésta presentar síntomas o ser asintomática, en el 10 % de los casos, independientemente se trate de una glándula ectópica sin patología agregada o de un tejido glandular portador de nódulos, único o múltiples, habiéndose descrito la transformación maligna del mismo, considerándose su potencialidad de malignización similar a la glándula normotópica (Betancourt *et al.*; Nussbaum *et al.*, 1981; Winslow & Weisberger, 1997; Agrawal *et al.*, 2005). La tiroides lingual del presente caso era portadora de bocio nodular coloide.

En este caso la evaluación semiológica por inspección fue muy difícil y la palpación determinó la presencia de una masa suprahiodea e induración lobulada de consistencia firme y elástica en base de la lengua. La utilización del fibroscopio flexible fue de mucha utilidad para determinar las características del tumor, siendo descrito este método como de sumo valor para este fin (Callioglou *et al.*, 2015; Bianco *et al.*; Rocha Ruíz *et al.*).

La ecografía puede determinar la coexistencia de glándula normotópica y en ocasiones puede mostrar la presencia de un tumor en la región suprahiodea (Croce *et al.*). El Doppler ayuda de manera considerable al evaluar la vascularización de la masa lingual (Ohnishi *et al.*, 2003). En este caso demostró la ausencia de tejido remanente post tiroidectomía total a nivel de la región infrahiodea y una masa irregular pero bien delimitada en la región suprahiodea.

La tomografía computada muestra una masa hiperdensa, bien delimitada, siendo de utilidad los cortes axial, coronal y sagital. Este estudio resultó de suma utilidad en este caso. Si bien la RNM es concebida por algunos autores como de mayor rendimiento diagnóstico no fue solicitado (Bianco *et al.*; Giovagnorio *et al.*, 1996; Takashima *et al.*, 2001;).

La angiografía demuestra generalmente que la tiroides lingual está irrigada por ramas de la arteria lingual, estando ausentes las arterias tiroidea superior e inferior (Bianco *et al.*; Banna & Lasjaunias, 1990; Ramesh Rao *et al.*, 2007). No fue realizado en esta paciente.

En el diagnóstico diferencial de esta entidad se incluyen: hemangiomas, adenoides, tonsila lingual, quistes del conducto tirogloso, teratomas, quistes dermoides, linfadenitis, lipomas, fibromas, papilomas, carcinomas de células escamosas, tumores de glándulas salivales menores, linfomas entre otros (Betancourt *et al.*; Guérin *et al.*, 1997). Existen otras patologías muy raras que también pueden presentar dificultad y confusión al momento del diagnóstico diferencial, tal es el caso de un plasmocitoma extramedular en base de lengua presentado por Martín Batista *et al.* (2012).

La centellografía es el estudio por imágenes más específico en el diagnóstico de tiroides lingual (Betancourt *et al.*; Croce *et al.*). Fue determinante para el diagnóstico prequirúrgico en este caso.

Entre isótopos utilizables resalta el I123 por sus propiedades físicas, que permiten obtener imágenes de mejor calidad con bajos niveles de irradiación corporal, no está disponible en nuestro medio por su media vida corta, siendo substituido por el I131 que ocasiona mayor irradiación corporal (Yangali *et al.*). El tecnecio (Tc99) también tiene utilidad en esta entidad, por sus características físicas (baja irradiación corporal e imágenes de excelente calidad), aunque la acumulación en la cavidad oral puede perjudicar la interpretación de las imágenes. Este método puede dar falsos positivos en casos de dacriocistitis, sinusitis, meningiomas, sialoadenitis, entre otras entidades (Betancourt *et al.*; Ramos Gabatin & Pretorius, 1985; Anand *et al.*, 2006).

No todo el tejido tiroideo lingual es funcional, por lo tanto, la ausencia de captación no excluye el diagnóstico; en estos casos, una biopsia por aspiración con aguja fina o una biopsia a cielo abierto de la masa puede permitir llegar a un diagnóstico exacto, sin embargo existe un riesgo alto de sangrado en estos procedimientos (Croce *et al.*; Luna Ortiz *et al.*; Aktolun *et al.*, 2001).

El manejo de la tiroides lingual depende de la sintomatología, tamaño de la lesión, sexo y edad del paciente así como de la funcionalidad tiroidea y debe ser individualizado; en la infancia, el objetivo es restaurar la función tiroidea si esta está alterada. Los pacientes eutiroideos con tiroides linguales asintomáticos deben ser vigilados regularmente sin necesidad de tratamiento. Los pacientes con pocas complicaciones y tiroides lingual de pequeño tamaño, pueden tratarse con supresión médica con L-tiroxina. El objetivo es suprimir los niveles de TSH y eliminar así el estímulo de crecimiento glandular. Sin embargo, no siempre consigue disminuir el tamaño lesional y en ocasiones implica una terapia prolongada para apreciar cambios significativos en la reducción del tamaño glandular. Está indicada en pacientes con síntomas moderados y en pacientes asintomáticos con niveles elevados de TSH (Rocha Ruíz *et al.*).

Los pacientes con síntomas obstructivos, ulceración o hemorragia, así como la sospecha de malignidad usualmente requieren manejo quirúrgico. Se recomienda administrar hormona tiroidea previa a la cirugía con el objetivo de reducir el tamaño tumoral. El abordaje quirúrgico puede realizarse por vía oral. Está descrita también la vía transoral con abordaje translingual mediante una incisión en la línea mediana (Marín-Fernández & Fernández Solís, 2012). Se ha descrito la ligadura bilateral de las arterias linguales a nivel del cuerno del hioides a través de incisiones cervicales separadas previas a la glosotomía media para disminuir el sangrado operatorio. Esto en ocasiones se ha asociado a necrosis masiva lingual (Kamat *et al.*, 1979). Atiyeh *et al.* (1995) introducen la glosotomía mediana solo en los dos tercios posteriores de la lengua minimizando así el riesgo de lesión de estructuras vitales.

El abordaje cervical ofrece una mejor visualización global de la lesión, siendo especialmente útil en casos de gran tamaño y localización posterior. Disminuye el sangrado operatorio y facilita su control en caso de presentarse. Entre sus desventajas figuran la cicatriz cervical y la fístula orocervical postoperatoria. Puede realizarse a través de una faringotomía mediana supra o infrahioides o a través de una faringotomía lateral. Algunos autores, combinan técnicas transorales y transcervicales en el manejo del tiroides lingual (Vairaktaris *et al.*, 1994; Zitsman *et al.*, 1998;). Una variante combina técnica extraoral inicial mediante cervicotomía mediana con posterior descenso lingual (pull-through) con o sin glosotomía media para abordar el tumor permitiendo su exéresis completa con control adecuado de estructuras vitales cervicales sin añadir morbilidad a los procedimientos clásicos. (Zubillaga Rodríguez *et al.*, 2004).

Los centros que disponen de cirugía robótica pueden valerse de esta tecnología y realizar la tiroidectomía transoral. Esta técnica ofrece un acceso relativamente fácil y con pocas complicaciones (O'Malley *et al.*; Terris *et al.* 2010; Teo *et al.*, 2013). El uso de láser también ha mostrado efectividad en el manejo de esta patología (Hafidh *et al.*, 2004; Howard *et al.*, 2014).

Se debe preservar la integridad de las ar-

terias linguales, para evitar la necrosis del órgano. Estas se ubican aproximadamente a 1,1 cm lateral y de 2,2 a 2,7 cm en profundidad al foramen ciego (Lauretano *et al.*, 1997).

El objetivo es la resección completa del tumor. En caso de ser el único tejido tiroideo funcional puede plantearse el reimplante glandular para evitar un estado hipotiroideo. 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 4-5 mm de espesor (Jones, 1961; Al Samarrai *et al.*, 1988). 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 (Kalan & Tariq, 1999). Una alternativa al autotrasplante consiste en la trasposición del tiroides lingual desde la base de la lengua a la región submandibular a través de una faringotomía lateral suprahiodea. Se crea un colgajo pediculado, de musculatura lingual que vehicula el tiroides lingual. Según sus autores, ofrece un mejor resultado en la función tiroidea comparado con la escisión y el autotrasplante. Esta técnica facilitaría una posible exploración en su nueva localización, más accesible en caso de hipertrofia o malignización (Rojananin & Ungkanont, 1999).

En el presente caso no se consideró el reimplante debido a que el tejido glandular presentaba patología nodular.

La ablación con dosis terapéuticas de I131 radiactivo es un método alternativo. Debido a que generalmente estos cuadros son hipofuncionantes requieren dosis altas del radioyodo. En aquellos casos con hiperfunción puede ser una alternativa terapéutica válida. Está contraindicado en mujeres en edad fértil, quedando reservado para pacientes con contraindicación quirúrgica o aquellos que rechazan el tratamiento quirúrgico. Entre sus desventajas se añade la fibrosis y el desarrollo de mixedema tardío (Park *et al.*, 2003; Toso *et al.*, 2009; Jacob & Ravina, 2012).

Un detalle a tener en cuenta es la intubación traqueal en los pacientes. El tumor en la base de lengua puede dificultar la intubación

traqueal. La asistencia con broncoscopía facilita la maniobra. Se pueden presentar además serias complicaciones sobre todo sangrados. Además, el edema postoperatorio puede causar compromiso de la vía aérea, de ahí la necesidad de considerar la traqueostomía como procedimiento quirúrgico inicial. Algunos cirujanos proponen la traqueostomía profiláctica, mientras otros prefieren su realización en aquellos pacientes que muestran compromiso de vía aérea precoz en el postoperatorio inmediato, pudiendo considerarse dejar al paciente con intubación traqueal por 24 a 48 horas hasta que el edema postoperatorio ceda (Toso *et al.*; Fogarty, 1990). En el caso presentado se optó por la primera conducta. La embolectomía selectiva de ambas arterias linguales está descrita como recurso terapéutico en casos de hemorragia severa (Chiu *et al.*, 2002).

La excéresis quirúrgica de una tiroides lingual no se asocia a hipoparatiroidismo postoperatorio, puesto que las glándulas paratiroides presentan un origen embriológico diferente, originándose éstas del ala dorsal de la tercera y cuarta bolsas faríngeas (Zubillaga Rodríguez *et al.*).

CONCLUSIÓN

El manejo de la tiroides lingual requiere de la interpretación de la embriología de la glándula así como de su fisiología y patología. El tratamiento depende en gran medida de la forma de presentación, lo cual está su vez condicionado por el volumen del tejido ectópico y de su funcionalidad. En caso de presentar síntomas, la evaluación semiológica básica de inspección y palpación se complementa con la fibroscopía y la tomografía computada que es un excelente método para delimitar el tumor y evaluar las estructuras comprometidas. Sin embargo la centellografía permite hacer el diagnóstico diferencial en un gran porcentaje de los casos. Este tejido ectópico es pasible de sufrir todas las patologías del tejido normotópico, inclusive el cáncer y requiere de manejo especializado. La cirugía es la opción terapéutica más apropiada en la mayoría de estos casos y la técnica y la vía de abordaje dependen del tamaño y funcionalidad de la glándula, pudiendo ser la

MEDINA, R. B. A.; OSORIO, M.; RODRIGUEZ, I.; ROMERO, B. & OTTONE, N. E. Lingual thyroid gland: clinic, diagnosis and treatment. Case report and literature review. *Int. J. Med. Surg. Sci.*, 3(4):1013-1023, 2016.

SUMMARY: The presence of ectopic thyroid gland is a rare entity. The lingual thyroid is the most frequent ectopy, predominating in women. This glandular tissue is capable of suffering all the pathologies that can affect the normotopic gland, being able to be symptomatic or asymptomatic. We present a case of lingual thyroid in a previously thyroidectomized patient who consulted for dyspnea and dysphagia in the Head and Neck Surgery Unit of the Otolaryngology Service of the Central Hospital of the Institute of Social Prevision, Asuncion, Paraguay. The patient received hormone replacement therapy, showing normal functional examination. Semiology allowed to observe a bulging of the base of the tongue. The fibroscopy showed a tongue-based tumor about 3 cm in diameter, which could be correctly evaluated with computed tomography. Suspicion of a lingual thyroid was performed with a scintigram demonstrating uptake in the oral cavity floor. Tumor excision was performed through a suprahyoid pharyngotomy, following a prophylactic tracheostomy. The Pathologic Anatomy report confirmed the diagnosis of ectopic colloid goitre.

KEY WORDS: Lingual thyroid gland; Ectopy.

misma extirpada o reimplantada.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Abdallah-Matta, M. P.; Dubarry, P. H.; Pessey, J. J. & Caron, P. Lingual thyroid and hyperthyroidism: a new case and review of the literature. *J. Endocrinol. Invest.*, 25(3):264-7, 2002.
- Agrawal, R.; Agrawal, S. R.; Gupta, D. C. & Gupta, A. Ectopic multinodular Goitre—An unusual case. *Indian J. Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 57(4):350-2, 2005.
- Aktolun, C.; Demir, H.; Berk, F. & Metin Kir, K. Diagnosis of complete ectopic lingual thyroid with Tc-99m pertechnetate scintigraphy. *Clin. Nucl. Med.*, 26(11):933-5, 2001.
- Al-Samarrai, A. Y.; Crankson, S. J. & Al-Jobori, A. Autotransplantation of lingual thyroid into the neck. *Br. J. Surg.*, 75(3):287, 1988.
- Alderson, D. J. & Lanningan, F. J. Lingual thyroid presenting after previous thyroglossal cyst excision. *J. Laryngol. Otol.*, 108(4):341-3, 1994.
- Altay, C.; Erdogan, N.; Karasu, S.; Uluç, E.; Sarsilmaz, A.; Mete, B. & Oyar, O. CT and MRI findings of developmental abnormalities and ectopia varieties of the thyroid gland. *Diagn. Interv. Radiol.*, 18(4):335-43, 2012.
- Anand, S. S.; Sood, V.; Kumar, P. G.; Suryanarayana, K. M. & Kotwal, N. Lingual thyroid. *M. J. A. F. I.*, 62:184-5, 2006.
- Arriaga, M. A. & Myers, E. N. Ectopic thyroid in the retroesophageal superior mediastinum. *Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 99(3):338-40, 1988.
- Atiyeh, B. S.; Abdelnour, A.; Haddad, F. F. & Ahmad, H. Lingual thyroid: tongue-splitting incision for transoral excision. *J. Laryngol. Otol.*, 109(6):520-4, 1995.
- Balasubramaniam, G. S.; Stillwell, R. G. & Kennedy, J. T. Papillary carcinoma arising in ectopic thyroid tissue within a branchial cyst. *Pathology*, 24(3):214-6, 1992.
- Banna, M. & Lasjaunias, P. The arteries of the lingual thyroid: angiographic findings and anatomic variations. *AJNR Am. J. Neuroradiol.*, 11(4):730-2, 1990.
- Barnes, T. W.; Olsen, K. D. & Morgenthaler, T. I. Obstructive lingual thyroid causing sleep apnea: a case report and review of the literature. *Sleep Med.*, 5(6):605-7, 2004.
- Bayram, F.; Kùlahli, I.; Yùce, I.; Gökçe, C.; Cagli, S. & Deniz, K. Functional lingual thyroid as unusual cause of progressive Dysphagia. *Thyroid*, 14(4):321-4, 2004.
- Betancourt, A. F.; Bonnet, I. I.; Benedetti-Padrón, I. & Sáenz, J. C. Tiroides lingual, revisión del tema. *Rev. Colomb. Cir.*, 25:231-6, 2010.
- Bianco, M. R.; La Boria, A.; Franco, T.; Ferrise, P. & Allegra, E. Ectopic lingual thyroid with vascular anomalies. *Int. Med. Case Rep. J.*, 6:55-8, 2013.
- Braun, E. M.; Windisch, G.; Wolf, G.; Hausleitner, L. & Anderhuber, F. The pyramidal lobe: clinical

- anatomy and its importance in thyroid surgery. *Surg. Radiol. Anat.*, 29(1):21-7, 2007.
- Callioglou, E. E.; Bozdemir, K.; Ulusoy, B.; Oguzhan, T. & Hakan Korkmaz, M. Lingual thyroid excision with transoral robotic surgery. *Case Rep. Otolaryngol.*, 2015:548582, 2015.
- Cappellani, A.; Di Vita, M.; Zanghì, A.; Di Stefano, B.; La Porta, D.; De Luca, A.; Lanzafame, S. & D'Angelo, A. A case of branchial cyst with an ectopic thyroid papillary carcinoma. *Ann. Ital. Chir.*, 75(3):349-51, 2004.
- Cappelli, C.; Gandossi, E.; Cumetti, D.; Castellano, M.; Pirola, I.; De Martino, E.; Agosti, B.; Micheletti, L.; Cherubini, L.; Mattanza, C. & Agabiti Rosei, E. Ectopic lingual thyroid tissue and acquired hypothyroidism: case report. *Ann. Endocrinol. (Paris)*, 67(3):245-8, 2006.
- Cassola-Santana, J. R. & Gil-Jiménez, I. Embriología y ectopias tiroideas. *Glánd. Tiroid. Paratiroides*, (17):22-7, 2008.
- Chiu, T. T.; Su, C. Y.; Hwang, C. F.; Chien, C. Y. & Eng, H. L. Massive bleeding from an ectopic lingual thyroid follicular adenoma during pregnancy. *Am. J. Otolaryngol.*, 23(3):185-8, 2002.
- Ciccarelli, A.; Valdes-Socin, H.; Parma, J.; Khoo, S. K.; Schoumans, J.; Colao, A.; Hamoir, E. & Beckers, A. Thyrotoxic adenoma followed by atypical hyperthyroidism due to struma ovarii: clinical and genetic studies. *Eur. J. Endocrinol.*, 150(4):431-7, 2004.
- Croce, A.; Pugliese, M.; Laus, M.; De Stefano, A. & Mantini, C. Ectopic thyroid tissue in the head and neck: a case series. *BMC Res. Notes*, 7:790, 2014.
- De Felice, M. & Di Lauro, R. Thyroid development and its disorders: genetics and molecular mechanisms. *Endocr. Rev.*, 25(5):722-46, 2004.
- Di Mari, N.; Barbagli, L.; Mourmouras, V. & Miracco, C. Ectopic thyroid of the lung. An additional case. *Pathologica*, 102(3):102-3, 2010.
- Dolezal, J.; Vizda, J.; Horacek, J. & Spitalnikova, S. Lingual thyroid: diagnosis using a hybrid of single photon emission computed tomography and standard computed tomography. *J. Laryngol. Otol.*, 127(4):432-4, 2013.
- Fiaschetti, V.; Claroni, G.; Scarano, A. L.; Schillaci, O. & Floris, R. Diagnostic evaluation of a case of lingual thyroid ectopia. *Radiol. Case Rep.*, 11(3):165-70, 2016.
- Fogarty, D. Lingual thyroid and difficult intubation. *Anaesthesia*, 45(3):251, 1990.
- Fujioka, S.; Takatsu, Y.; Tankawa, H.; Yamanaka, K. & Ando, F. Intracardiac ectopic thyroid mass. *Chest*, 110(5):1366-8, 1996.
- Gallo, A.; Leonetti, F.; Torri, E.; Manciooco, V.; Simonelli, M. & DeVincentiis, M. Ectopic lingual thyroid as unusual cause of severe dysphagia. *Dysphagia*, 16(3):220-3, 2001.
- Giovagnorio, F.; Cordier, A. & Romeo, R. Lingual thyroid: value of integrated imaging. *Eur. Radiol.*, 6(1):105-7, 1996.
- Goldstein, B.; Westra, W. H. & Califano, J. Multifocal papillary thyroid carcinoma arising in a lingual thyroid: a case report. *Arch. Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 128(10):1198-200, 2002.
- Grossman, A.; Olonovski, D. & Barenboim, E. Hypothyroidism caused by a nonvisible lingual thyroid. *Head Neck*, 26(11):995-8, 2004.
- Guérin, N.; Urtasun, A.; Chauveau, E.; Julián, M.; Lebreton, M. & Dumon, M. Lingual thyroid and intra-lingual thyroglossal cyst. Apropos of 2 cases. *Rev. Laryngol. Otol. Rhinol. (Bord.)*, 118(3):183-8, 1997.
- Guimarães, M. J.; Valente, C. M.; Santos, L. & Baganha, M. F. Ectopic thyroid in the anterior mediastinum. *J. Bras. Pneumol.*, 35(4):383-7, 2009.
- Hafidh, M. A.; Sheahan, P.; Khan, N.A.; Colreavy, M. & Timon, C. Role of CO2 laser in the management of obstructive ectopic lingual thyroids. *J. Laryngol. Otol.*, 118(10):807-9, 2004.
- Hari, C. K.; Kumar, M.; Abo-Khatwa, M. M.; Adams-Williams, J. & Zeitoun, H. Follicular variant of papillary carcinoma arising from lingual thyroid. *Ear Nose Throat J.*, 88(6):E7, 2009.
- Hayes Dorado, J. P.; Montero Justiniano, W.; Achá Vargas, L.; Barbehito Espinoza, K. & Chávez Añez, S. Hipotiroidismo subclínico asociado con tiroides lingual. *Rev. Bol. Pediatr.*, 48(1):16-9, 2009.
- 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)*, 20:160-3, 1869.
- Hirnle, T.; Szymczak, J.; Zió?kowski, P. & Lenartowska, L. Ectopic thyroid malignancy in

- the right ventricle of the heart. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.*, 12(1):147-9, 1997.
- Howard, B. E.; Moore, E. J. & Hinni, M. L. Lingual thyroidectomy: the Mayo Clinic experience with transoral laser microsurgery and transoral robotic surgery. *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.*, 123(3):183-7, 2014.
- Jacob, M. J. & Ravina, M. A rare case of lingual thyroid with hyperthyroidism: A case report and review of the literature. *Indian J. Endocrinol. Metab.*, 16(3):441-3, 2012.
- Jiménez Oliver, V.; Ruiz Rico, R.; Dávila Morillo, A.; Fernández Ruiz, E.; Ruiz del Portal, J. M.; Pérez Arcos, J. A. & Rodríguez Baró, G. Tejido tiroideo ectópico intralaríngeo. presentación de un caso clínico y revisión de la literatura. *Acta Otorrinolaringol. Esp.*, 53(1):54-9, 2002.
- Jones, P. Auto transplantation in lingual ectopia of the thyroid gland. Review of the literature and report of a successful case. *Arch. Dis. Child.*, 36(186):164-70, 1961.
- Kalan, A. & Tariq, M. Lingual thyroid gland: clinical evaluation and comprehensive management. *Ear Nose Throat J.*, 78(5):340-1, 345-9, 1999.
- Kamat, M. R.; Kulkarni, J. N.; Desai, P. B. & Jussawalla, D. J. Lingual thyroid: a review of 12 cases. *Br. J. Surg.*, 66(8):537-9, 1979.
- Kamiko, K. Lingual Thyroid associated with Graves' disease and Grave's ophthalmopathy. *Thyroid*, 15:1407-8, 2005.
- Kotidis, K. N.; Ubhi, C. S. & Duffy, J. P. Benign intratracheal thyroid tissue: a rare cause of upper airway obstruction. *Interact. Cardiovasc. Thorac. Surg.*, 2(4):644-6, 2003.
- Lauretano, A. M.; Li, K. K.; Caradonna, D. S.; Khosta, R. K. & Fried, M. P. Anatomic location of the tongue base neurovascular bundle. *Laryngoscope*, 107(8):1057-9, 1997.
- Lazarus, J. A. & Rosenthal, A. A. Lateral aberrant thyroid glands. *Ann. Surg.*, 98(6):1023-9, 1933.
- Luna-Ortiz, K.; Rascón Ortiz, M.; Tamez-Velarde, M. & Mosqueda-Taylor, A. Disfagia secundaria a tiroides lingual. *Rev. Gastroenterol. Mex.*, 69(3):166-70, 2004.
- Makani, S.; Kim, W. & Gaba, A. R. Struma Ovarii with a focus of papillary thyroid cancer: a case report and review of the literature. *Gynecol. Oncol.*, 94(3):835-9, 2004.
- Marín-Fernández, A. B & Fernández-Solís, J. Tiroides ectópico lingual. Presentación de un caso y revisión del tratamiento. *Rev. Mex. Cir. Bucal Maxilofac.*, 8(1):15-7, 2012.
- Martín-Batista, S.; Álvarez Otero, R.; Coloma Milano, M.; Vallejo Valdezate, L. A. & Carcedo-García, L. M. Plasmocitoma extramedular en base de lengua. *Rev. Soc. Otorrinolaringol. Castilla Leon Cantab. La Rioja*, 3(21):194-7, 2012.
- Matsumoto, K.; Watanabe, Y. & Asano, G. Thyroid papillary carcinoma arising in ectopic thyroid tissue within a branchial cleft cyst. *Pathol. Int.*, 49(5):444-6, 1999.
- Moral-Pascual, J. M.; García-Méndez, P.; Bartolomé-Villar, A.; Barbosa-Rodríguez, J. L. & Pintor-Holguín, E. Tiroides lingual como causa de hipertiroidismo. *MAPFRE Med.*, 18(3):209-211, 2007.
- Nussbaum, M.; Buchwald, R. P.; Ribiover, A.; Mori, K. & Litwings, J. Anaplastic carcinoma arising from median ectopic thyroid (thyroglossal duct remnant). *Cancer*, 48(12):2724-8, 1981.
- Noussios, G.; Anagnostis, P.; Goulis, D. G.; Lappas, D. & Natsis, K. Ectopic thyroid tissue: anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity. *Eur. J. Endocrinol.*, 165(3):375-82, 2011.
- O'Malley, B. W. Jr.; Weinstein, G. S.; Snyder, W. & Hockstein, N. G. Transoral robotic surgery (TORS) for base of tongue neoplasms. *Laryngoscope*, 116(8):1465-72, 2006.
- Ohnishi, H.; Sato, H.; Noda, H.; Inomata, H. & Sasaki, N. Color Doppler ultrasonography: diagnosis of ectopic thyroid gland in patients with congenital hypothyroidism caused by thyroid dysgenesis. *J. Clin. Endocrinol. Metab.*, 88(11):5145-9, 2003.
- Oppenheimer, R. Lingual thyroid associated with chronic cough. *Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 125(4):433-4, 2001.
- Osammor, J. Y.; Bulman, C. H. & Blewitt, R. W. Intralaryngotracheal thyroid. *J. Laryngol. Otol.*, 104(9):733-6, 1990.
- Ozpolat, B.; Dogan, O. V.; Gökaslan, G.; Erekul, S. & Yücel, E. Ectopic thyroid gland on the ascending aorta with a partial pericardial defect: report of a case. *Surg. Today*, 37(6):486-8, 2007.
- Park, H. M.; Gupta, S. & Skierczynski, P. Radioiodine-

- 131 therapy for lingual thyroid. *Thyroid*, 13(6):607, 2003.
- Polo-Tomas, I.; Aleman-López, J. J.; López-Rico, J. & Córdoba, C. Follicular carcinoma arising in a lingual thyroid. A case report. *Acta Otorrinolaringol. Esp.*, 47:407-10, 1996.
- Quarracino, M. C. & Aguas, S. C. Presentación de un caso clínico. Tiroides lingual. *Med. Oral*, 8(1):57-60, 2003.
- Ramesh Rao, T.; Balakrishnan, R.; Prakashchandra, S. & Suresh, R. Ectopic thyroid tissue with a rare vascular variation. *Int. J. Morphol.*, 25(1):121-4, 2007.
- Richmond, I.; Whittaker, J. S.; Deiraniya, A. K. & Hassan, R. Intracardiac ectopic thyroid: a case report and review of published cases. *Thorax*, 45(4):293-4, 1990.
- Rocha-Ruiz, A.; Beltrán, C.; Harris, P. R.; Orellana, P.; García, C. & Martínez-Aguayo, A. Tiroides lingual como causa de disfagia. Caso clínico. *Rev. Méd. Chile*, 136(1):83-7, 2008.
- Rojananin, S. & Ungkanont, K. Transposition of the lingual thyroid: A new alternative technique. *Head Neck*, 21(5):480-3, 1999.
- Sauk, J. J. Jr. Ectopic lingual thyroid. *J. Pathol.*, 102(4):239-43, 1970.
- Shah, B. C.; Ravichand, C. S.; Juluri, S.; Agarwal, A.; Pramesh, C. S. & Mistry, R. C. Ectopic thyroid cancer. *Ann. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 13(2):122-4, 2007.
- Sidhu, S.; Lioe, T. F. & Clements, B. Thyroid papillary carcinoma in lateral neck cyst: missed primary tumour or ectopic thyroid carcinoma within a branchial cyst? *J. Laryngol. Otol.*, 114(9):716-8, 2000.
- Sigua-Rodriguez, E. A.; Rangel-Goulart, D.; Asprino, L. & de Moraes Manzano, A. C. Conservative management for lingual thyroid ectopic. *Case Rep. Otolaryngol.*, 2015:265207, 2015.
- Sturniolo, G.; Bonanno, L.; Gagliano, E.; Tonante, A.; Taranto, F.; Mamo, M.; De Salvo, G. & Sturniolo, G. The thyroid pyramidal lobe: frequency, morphological features and related diseases. *Chir. Ital.*, 60(1):41-6, 2008.
- Takashima, S.; Ueda, M.; Shibata, A.; Takayama, F.; Momose, M. & Yamashita, K. MR imaging of the lingual thyroid. Comparison to other submucosal lesions. *Acta Radiol.*, 42(4):376-82, 2001.
- Teo, E. H.; Toh, S. T.; Tay, H. N.; Han, H. J. Transoral robotic resection of lingual thyroid: case report. *J. Laryngol. Otol.*, 127(10):1034-7, 2013.
- Terris, D. J.; Seybt, M. W. & Vaughters, R. B. 3rd. A new minimally invasive lingual thyroidectomy technique. *Thyroid*, 20(12):1367-9, 2010.
- Toso, A.; Colombani, F.; Averono, G.; Aluffi, P. & Pia, F. Lingual thyroid causing dysphagia and dyspnoea. Case reports and review of the literature. *Acta Otorhinolaryngol. Ital.*, 29(4):213-7, 2009.
- Utsunomiya, D.; Shiraiishi, S.; Kawanaka, K.; Lwakatara, F.; Tomiguchi, S.; Kido, R.; Katabuchi, H.; Okamura, H. & Yamashita, Y. Struma ovarii coexisting with mucinous cystadenoma detected by radioactive iodine. *Clin. Nucl. Med.*, 28(9):725-7, 2003.
- Vairaktaris, E.; Semergidis, T.; Christopoulou, P.; Papadogeorgakis, N. & Martis, C. Lingual thyroid: a new surgical approach--a case report. *J. Craniomaxillofac. Surg.*, 22(5):307-10, 1994.
- Williams, R. J.; Lindop, G. & Butler, J. Ectopic thyroid tissue on the ascending aorta: an operative finding. *Ann. Thorac. Surg.*, 73(5):1642-3, 2002.
- Winslow, C. P. & Weisberger, E. C. Lingual thyroid and neoplastic change: a review of the literature and description of a case. *Otolaryngol. Head Neck Surg.*, 117(6):S100-2, 1997.
- Yangali, R.; Moreno, K. & Santiani, E. Tiroides lingual: A propósito de un caso. *An. Fac. Med. Univ. Nac. Mayor San Marcos*, 64(2):141-4, 2003.
- Yoo, S. C.; Chang, K. H.; Lyu, M. O.; Chang, S. J.; Ryu, H. S. & Kim, H. S. Clinical characteristics of struma ovarii. *J. Gynecol. Oncol.*, 19(2):135-8, 2008.
- Zitsman, J. L.; Lala, V. R. & Rao, P. M. Combined cervical and intraoral approach to lingual thyroid: a case report. *Head Neck*, 20(1):79-82, 1998.
- Zubillaga Rodríguez, I.; Sánchez Aniceto, G.; García Recuero, I. & Montalvo Moreno, J. J. Tiroides lingual: un nuevo abordaje quirúrgico. *Rev. Esp. Cir. Oral Maxilofac.*, 26(5):316-24, 2004.

Dirección para correspondencia:
Dr. Blás Antonio Medina Ruíz
Cátedra de Anatomía Descriptiva y Topográfica
Facultad de Ciencias Médicas
Universidad Nacional de Asunción
PARAGUAY

Email: bamci@hotmail.com

Recibido: 04-10-2016
Aceptado: 26-11-2016¹⁰²³