

Bocio multinodular ectópico submandibular: a propósito de un caso y revisión de la literatura

Submandibular ectopic multinodular goiter: case report and literature review

Anna Penella P.¹, Alejandro Portillo M.¹, Andrea Álvarez R.², Margarita Mesa M.²

Resumen

El tiroides ectópico es una alteración congénita infrecuente que presenta una prevalencia entre 1/100.000-1/300.000. En el 90% de los casos se encuentra en la línea media cervical, siendo los casos de tiroides ectópico cervical lateral muy infrecuentes. Presentamos el caso de una paciente de 44 años que consultó por presentar una tumoración submandibular izquierda de más de seis meses de evolución. Las pruebas de imagen (ecografía, tomografía computarizada y gammagrafía) sugirieron un bocio ectópico multinodular; la punción aspiración con aguja fina (PAAF) informó de tejido tiroideo sin atipias (Bethesda II) y el estudio sanguíneo de hormonas tiroideas fue normal, orientando finalmente el caso como un bocio multinodular ectópico submandibular eutiroides. Ante la ausencia de síntomas y signos sugerentes de malignidad, en conjunto con una PAAF con características de benignidad, se decidió realizar seguimiento. En el momento que presentó clínica por efecto masa se decidió realizar la exéresis de la lesión, que confirmó el diagnóstico de bocio multinodular ectópico. Los casos descritos en la literatura de bocio multinodular ectópico submandibular como único tejido tiroideo funcional son excepcionales. El tiroides ectópico se debe considerar en el diagnóstico diferencial de una masa submandibular. Aunque actualmente no existe un consenso en relación con el manejo de dicha patología, el crecimiento de la masa puede contribuir a la decisión de una exéresis completa del tiroides ectópico, aun tratándose del único tejido tiroideo funcional.

Palabras clave: tiroides ectópico, glándula tiroides, tiroides submandibular, bocio multinodular, tiroides cervical lateral.

Abstract

Ectopic thyroid is an uncommon congenital disorder with a prevalence between 1/100,000-1/300,000. In 90% of cases, it is placed in cervical midline, being the cases of lateral cervical ectopic thyroid very infrequent. We present the case of a 44-year-old female patient who had a left submandibular mass during more than six months. Imaging tests (ultrasound, computed tomography and scintigraphy) suggested a multinodular ectopic goiter; fine needle aspiration (FNA) reported thyroid tissue without atypia (Bethesda II) and the thyroid hormone blood tests were normal, finally orienting the case as a euthyroid submandibular ectopic multinodular goiter. In the absence of symptoms and signs suggestive of malignancy, together with an FNA with benign characteristics, it was decided to follow up. When the patient presented clinical symptoms due to mass effect, it was decided to perform excision of the lesion, which confirmed the diagnosis of ectopic multinodular goiter. There are very few cases described in the literature of submandibular ectopic multinodular goiter as the only functioning thyroid tissue. Ectopic thyroid should be considered in the differential diagnosis of a submandibular mass. Although there is currently no consensus on the management of this pathology, the growth of the mass may contribute to the decision of a complete excision of the ectopic thyroid, even if it is the only functioning thyroid tissue.

Keywords: ectopic thyroid, thyroid gland, submandibular thyroid, multinodular goiter, lateral cervical thyroid.

¹Servicio de Otorrinolaringología, Hospital Universitario de Bellvitge. I'Hospitalet de Llobregat. Barcelona, España. ²Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Viladecans. Viladecans. Barcelona, España.

Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Recibido el 28 de noviembre de 2020. Aceptado el 2 de mayo de 2021.

Correspondencia:
Anna Penella P.
Servicio de
Otorrinolaringología
Hospital Universitario de
Bellvitge
C/ de la Feixa Llarga s/n
08907 – Hospitalet de
Llobregat
Barcelona, España.
Email: apenella@
bellvitgehospital.cat

CASO CLÍNICO

Introducción

El tiroides ectópico es una alteración congénita infrecuente, debida a una migración anormal durante la formación de la glándula tiroidea, que puede o no coexistir con una glándula tiroidea ortotópica^{1,2}. Presenta una prevalencia entre 1/100.000-1/300.000^{1,2}. En la mayoría de los casos se encuentra en la línea media cervical (90%)^{1,3}, siendo los casos de tiroides ectópico cervical lateral muy poco frecuentes. Presentamos el caso de una paciente adulta con un bocio multinodular eutiroides en un tiroides ectópico submandibular, como único tejido tiroideo. Realizamos la descripción de este caso y revisamos la literatura publicada en relación con el tema.

Caso Clínico

Paciente mujer de 44 años sin antecedentes patológicos, que consultó por presentar una tumoración submandibular de más de seis meses de evolución, de crecimiento lentamente progresivo, sin presentar otra sintomatología. En la exploración física se palpaba una tumoración submandibular izquierda, elástica, móvil y no dolorosa. Se solicitó una tomografía computarizada (TC) de cuello con contraste (Figura 1), que mostró la presencia de una masa sugerente de bocio multinodular en un tiroides ectópico submandibular con extensión hacia suelo de boca, que medía 34 x 26 x 30 milímetros, con ausencia de glándula tiroidea ortotópica. Posteriormente,

dentro de los exámenes a solicitar, el estudio sanguíneo de hormonas tiroideas fue normal; la gammagrafía tiroidea confirmó la ausencia de tiroides ortotópico y la presencia de tejido tiroideo funcional a nivel submandibular izquierdo. La ecografía demostró una masa sólida, polilobulada, en suelo de boca y región submandibular izquierda, y la punción aspiración con aguja fina (PAAF) informó tejido tiroideo sin atipias (Bethesda II); orientándose el caso como un bocio multinodular ectópico submandibular eutiroides. Ante la ausencia de síntomas y signos de malignidad, se decidió en conjunto con el servicio de endocrinología seguir controles periódicos con ecografía. Al año de seguimiento, la paciente presentó un aumento del tamaño de la lesión, con aparición de clínica de disfagia ocasional y dificultad en la movilidad lingual por efecto masa, causando disartria. La ecografía de control mostró un leve aumento del tamaño de la lesión, por lo que se realizó una TC de control que corroboró un leve aumento del tamaño respecto al estudio previo, midiendo 42 x 32 x 33 milímetros. Se revaloró el caso con el servicio de endocrinología y, finalmente, dado el aumento de crecimiento; se decidió resección quirúrgica (Figura 1). Se realizó la resección completa de la lesión sin incidentes. La biopsia confirmó el diagnóstico de bocio multinodular ectópico. Tras la cirugía, la paciente requirió de tratamiento hormonal tiroideo sustitutivo, al tratarse del único tejido tiroideo existente. Presentó una evolución favorable con resolución de la sintomatología que se mantiene tras un año de seguimiento.

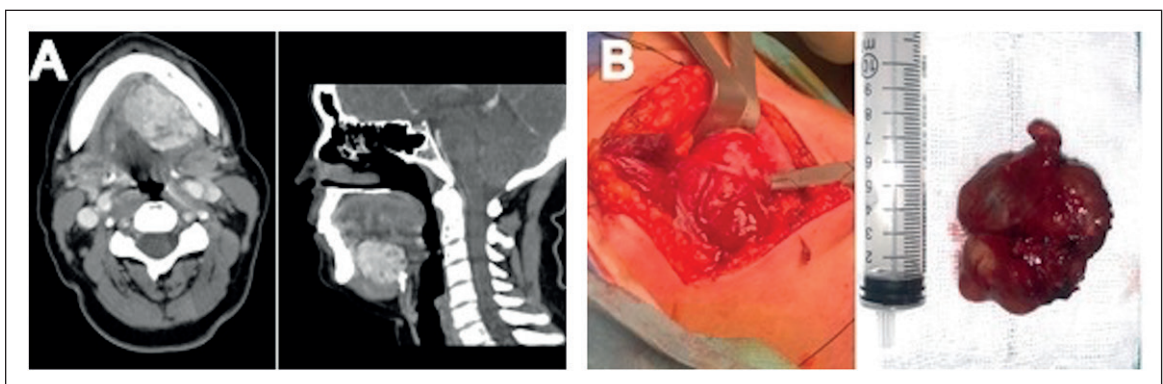


Figura 1. (A) Corte axial y sagital de tomografía computarizada: masa de características heterogéneas a nivel submandibular y sublingual izquierdos sugestiva de bocio multinodular en un tiroides ectópico con unas medidas de 34 x 26 x 30 milímetros. **(B)** Pieza quirúrgica.

Discusión

La presencia de tejido tiroideo ectópico en la región submandibular se puede explicar principalmente de tres formas: alteración de la migración durante el desarrollo embrionario (tiroides ectópico real), metástasis de carcinoma de tiroides o implantación de tejido tiroideo tras procedimientos quirúrgicos^{1,4}.

La glándula tiroidea inicia su desarrollo como un divertículo a nivel de la línea media, entre el primer y segundo arco braquial, durante la tercera o cuarta semana del desarrollo embrionario. El divertículo bilobulado, que es el primordio medial, desciende caudalmente y se fusiona con los primordios laterales que provienen de los cuerpos ultimobranquiales para formar la glándula completa¹. Existe la hipótesis que el tiroides ectópico submandibular, se origina debido a que un componente lateral del tiroides no puede migrar y fusionarse con el primordio medial. En la mayoría de los casos, el tiroides ectópico submandibular coexiste con un tiroides ortotópico y los pacientes son eutiroides. Pocos casos han sido descritos en la literatura como el único tejido tiroideo funcionando en ausencia de una glándula tiroi-

dea ortotópica (Tabla 1), como es el caso de la paciente que presentamos.

Los casos de bocio multinodular ectópico submandibular como único tejido tiroideo son aún más excepcionales. No existe consenso en relación con el manejo de esta patología, sobre todo si tenemos en cuenta que nuestra paciente presentaba una función tiroidea normal.

Ante una masa submandibular debemos considerar el diagnóstico diferencial de tumores de la glándula submandibular, sialodinitis, tumores neurogénicos, paragangliomas, adenopatías y tiroides ectópico¹⁴. La ecografía y la TC son las pruebas iniciales de elección que orientan el diagnóstico¹⁵. En el caso del tiroides ectópico, la TC muestra una masa circunscrita con una atenuación ligeramente incrementada en relación a la musculatura adyacente y una captación homogénea de contraste. La presencia de nódulos con baja atenuación, similares a los nódulos típicos de la glándula tiroides ortotópica, suelen ser clave para el diagnóstico¹⁶. La gammagrafía tiroidea confirma el diagnóstico^{15,17}, permitiendo valorar si el tejido ectópico es funcional y si hay o no otros tejidos tiroideos con función en cualquier otra localización. Su sensibilidad y

Tabla 1. Casos publicados de tiroides ectópico submandibular sin glándula tiroidea ortotópica

Autor, revista y año de publicación	Edad	Sexo	Localización	Histopatología
Paragliola y cols. Clin Nucl Med, 2016 ⁵	61	Mujer	Submandibular izquierdo	PAAF: tejido tiroideo benigno
Guerrisi. J Craneofac Sugr, 2012 ⁶	35	Mujer	Submandibular izquierdo	Variante folicular de carcinoma papilar
Zieren y cols. J Craniofac Surg, 2006 ⁷	81	Mujer	Submandibular derecho	Tejido tiroideo benigno
Kumar y cols. Clin Nuclear Med, 2001 ⁸	12	Hombre	Submandibular izquierdo	PAAF: bocio coloide
Kumar y cols. Thyroid, 2000 ⁹	42	Mujer	Submandibular izquierdo	PAAF: restos hemáticos No se realizó cirugía
Aguirre y cols. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1991 ¹⁰	47	Mujer	Submandibular izquierdo	Bocio coloide
Rubinfeld y cols. Arch Otolaryngol Head Neck Surg, 1988 ¹¹	28	Mujer	Submandibular derecho	Tiroides normal
Alsop y cols. J Oral Pathol, 1986 ¹²	61	Hombre	Submandibular derecho	Adenoma folicular en anillo de sello
Helidonis y cols. J Laringol Otol, 1980 ¹³	30	Mujer	Submandibular izquierdo	Bocio coloide difuso

CASO CLÍNICO

especificidad es de 85,7%-92,3% y el 100% respectivamente, según un estudio publicado por Feng Xu y cols.¹⁸. La PAAF es de utilidad para confirmar la etiología tiroidea de la masa en estudio y, sobre todo, es esencial para descartar metástasis de carcinoma primario de tiroides y otras enfermedades malignas. Por último, el estudio analítico de hormonas tiroideas es imprescindible para evaluar la existencia de alteraciones funcionales¹.

En relación al tratamiento, no existe consenso en la literatura^{1,2}. La resección quirúrgica parece aconsejable en caso de riesgo de malignidad, aparición de síntomas y/o la existencia de otro tejido tiroideo funcional. En caso contrario, la mejor opción parece ser el control evolutivo⁴, tal como se procedió en el caso presentado. Sólo el crecimiento progresivo del bocio, con aparición de sintomatología por efecto masa, en una lesión congénita que había pasado desapercibida durante muchos años, nos indicó la necesidad de resección quirúrgica. La decisión se debe consensuar mediante un equipo multidisciplinar, como se realizó en este caso. La cirugía consiguió la resolución de la clínica compresiva, precisando tratamiento hormonal sustitutivo. Por otro lado, la cirugía parcial del tiroides ectópico es un tema controvertido, sobre todo si ya ha habido un crecimiento durante el seguimiento^{2,4}.

Conclusión

El tiroides ectópico se debe considerar en el diagnóstico diferencial de una masa submandibular. Las pruebas complementarias son esenciales no sólo para el diagnóstico, sino también para una correcta decisión terapéutica. El crecimiento de la masa, en nuestra opinión, puede contribuir a la decisión de una resección completa del tiroides ectópico aun tratándose del único tejido tiroideo funcional.

Bibliografía

- Deshmukh AD, Katna R, Patil A, Chaukar DA, Basu S, D'Cruz AK. Ectopic thyroid masquerading as submandibular tumour: A case report. *Ann R Coll Surg Engl*. 2011; 93:77-80. doi: 10.1308/147870811X590324.
- Noussios G, Anagnostis P, Goulis DG, Lappas D, Natsis K. Ectopic thyroid tissue: Anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity. *Eur J Endocrinol*. 2011;165:375-382. doi: 10.1530/EJE-11-0461.
- Bersaneti JA, Silva RDP, Ramos RRN, de Matsushita MM, Souto LRM. Ectopic Thyroid Presenting as a Submandibular Mass. *Head Neck Pathol*. 2011;5:63-66. doi: 10.1007/s12105-010-0209-z.
- Guerra G, Cinelli M, Mesolella M, et al. Morphological, diagnostic and surgical features of ectopic thyroid gland: A review of literatures. *Int J Surg*. 2014;12:3-11. doi: 10.1016/j.ijssu.2014.05.076.
- Paragliola RM, Papi G, Lovicu RM, Pontecorvi A, Corsello SM. A Rare Case of Lateral Ectopic Thyroid. *Clin Nucl Med*. 2016; 41:936-937. doi: 10.1097/RLU.0000000000001401.
- Guerrissi JO. Follicular Variant of Papillary Carcinoma in Submandibular Ectopic Thyroid With No Orthotopic Thyroid Gland. *J Craniofac Surg*. 2012; 23:138-139. doi: 10.1097/SCS.0b013e3182413d87.
- Zieren J, Paul M, Scharfenberg M, Menenakos C. Submandibular ectopic thyroid gland. *J Craniofac Surg*. 2006; 17(6):1194-1198. doi: 10.1097/01.scs.0000246502.69688.60.
- Kumar R, Sharma S, Marwah A, Moorthy D, Dhanwal D, Malhotra A. Ectopic Goiter Masquerading as Submandibular Gland Swelling. A Case Report and Review of the Literature. *Clin Nucl Med*. 2001;26(4):306-309. doi: 10.1097/00003072-200104000-00005
- Kumar R, Gupta R, Bal CS, Khullar S, Malhotra A. Thyrotoxicosis in a patient with submandibular thyroid. *Thyroid*. 2000;10(4):363-365. doi: 10.1089/thy.2000.10.363.
- Aguirre A, De la Piedra M, Ruiz R, Portilla J. Ectopic thyroid tissue in the submandibular region. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1991;71:73-76. doi: 10.1016/0030-4220(91)90525-h.
- Rubinfeld S, Joseph UA, Schwartz MR, Weber SC, Jhingran SG. Ectopic Thyroid in the Right Carotid Triangle. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1988; 114(8):913-915. doi: 10.1001/archotol.1988.01860200097027.
- Alsop JE, Yerbury PJ, O'Donnell PJ, Heyderman E. Signet-ring cell microfollicular adenoma arising in a nodular ectopic thyroid. A case report. *J Oral Pathol*. 1986;15(10):518-519. doi: 10.1111/j.1600-0714.1986.tb00568.x.
- Helidonis E, Dokianakis G, Papazoglou G, Pantazopoulos P, Thomopoulou H. Ectopic thyroid gland in the submandibular region. *J Laryngol Otol*. 1980;94:219-224. doi: 10.1017/s0022215100088708.
- Bhardwaj AK, Mani V, Dixit R, Garg A. Ectopic goitrous submandibular thyroid with goitrous orthotopic thyroid gland. *Indian J Radiol Imaging*. 2016;26:245-248. doi: 10.4103/0971-3026.184420.

15. Çeliker M, Beyazal Çeliker F, Turan A, Beyazal M, Beyazal Polat H. Submandibular Lateral Ectopic Thyroid Tissue: Ultrasonography, Computed Tomography, and Scintigraphic Findings. *Case Rep Otolaryngol*. 2015;2015:1-4. doi: 10.1155/2015/769604.
16. Zander DA, Smoker WRK. Imaging of ectopic thyroid tissue and thyroglossal duct cysts. *Radiographics*. 2014;34:37-50. doi: 10.1148/rg.341135055.
17. Yıldırım Ş, İkbal Atılgan H, Korkmaz M, Demirel K, Koca G. Radionuclide Imaging of Dual Ectopic Thyroid in a Preadolescent Girl. *Molecular Imaging Radionucl Ther*. 2014;23:101-3. doi: 10.4274/mirt.46220.
18. Xu F, Shao Z, Yang G, et al. The value of scintigraphy, computed tomography, magnetic resonance imaging, and single-photon emission computed tomography/computed tomography for the diagnosis of ectopic thyroid in the head and neck: A STROBE-compliant retrospective study. *Medicine (Baltimore)*. 2018;97(13):e0239. doi: 10.1097/MD.0000000000010239.