



Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de Cabeza y Cuello

www.revista.acorl.org



Reporte de caso

Estudio de caso de quiste tirogloso lingual: una urgencia en la vía aérea del lactante menor

Lingual thyroglossal cyst case study: an airway emergency in the young infant

Muñoz-Tamayo JF*, Sierra-Jaramillo JA**, Mendoza-Gallego A***, Hurtado- González M***

* Otorrinolaringólogo, Hospital San Vicente Fundación

** Otorrinolaringólogo, Hospital San Vicente Fundación y fellow de laringología, Universidad Militar de Colombia

*** Residente de otorrinolaringología, departamento de otorrinolaringología de la Universidad de Antioquia

Forma de citar: Muñoz-Tamayo JF, Sierra-Jaramillo JA, Mendoza-Gallego A, Hurtado- González M. Estudio de caso de un quiste tirogloso lingual: una urgencia en la vía aérea del lactante menor. medio de la pandemia en Colombia. Acta otorrinolaringol. cir. cabeza cuello. 2020; 48(3):250-255 Doi:10.37076/acorl.v48i3.517

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 17 de mayo de 2020

Evaluado: 14 de agosto de 2020

Aceptado: 22 de agosto de 2020

Palabras clave (DeCS):

quiste tirogloso, lactante, espectroscopía de resonancia magnética.

RESUMEN

El quiste tirogloso es una de las principales causas de tumores congénitos en el cuello, cuyo sitio menos frecuente de presentación es la lengua; no obstante, es importante conocer esta ubicación, principalmente en los lactantes menores, ya que debido a sus características anatómicas presentan disnea —como síntoma principal— con diferentes grados de severidad, que puede llegar a comprometer su vía aérea y su vida. Se presentan dos casos de lactantes que ingresan por estridor y signos de falla ventilatoria: en principio, se les realizó una nasofibrolaringoscopia flexible, que evidenció una lesión de aspecto quístico en la base de la lengua; luego, se complementó con un estudio imagenológico, cuya primera opción diagnóstica fue un quiste tirogloso lingual; por último, se les realizó una microlaringoscopia de suspensión más una marsupialización endoscópica con corte frío y radiofrecuencia, lo que dio como resultado una adecuada evolución posoperatoria. Basados en los casos previos, proponemos un algoritmo de tratamiento que hace énfasis en el uso de imágenes diagnósticos y la técnica quirúrgica.

Correspondencia:

Dra. Alejandra Mendoza

E-mail: alejandra.mendozag@udea.edu.co

Dirección: Calle 79 sur # 55-95, Apartamento 912, Unidad Residencial Romazzino, La Estrella, Antioquia

Teléfono celular: 300 3410549

ABSTRACT

Key words (MeSH):

thyroglossal cyst, infant, magnetic resonance spectroscopy

The thyroglossal cyst is one of the main causes of congenital neck tumors, being the tongue infrequent site of presentation. However, it's relevant to know this location, mainly in young infants, since, due to its anatomical characteristics respiratory distress is a main finding, it could be presented in different degrees of severity, until it completely compromises the airway and the life of the patient. Two cases of infants are admitted due to stridor and signs of ventilatory failure are presented. In both cases, flexible nasofibrolaryngoscopy was performed, showing a cystic appearance lesion on the tongue, and a diagnostic study was subsequently completed with images giving the lingual thyroglossal cyst as the first diagnostic option. Both patients underwent surgical management with suspension microlaryngoscopy plus endoscopic marsupialization with cold cut and radiofrequency with adequate postoperative evolution. Based on the previous cases, we propose a management algorithm emphasizing the use of diagnostic images and surgical technique.

Introducción

Durante el período gestacional, la glándula tiroides inicia su desarrollo como un divertículo anterior del foramen ciego de la base de la lengua, entre el tubérculo impar y la cópula, y posteriormente desciende por la línea media del cuello en desarrollo y anterior al hueso hioides, para posicionarse cerca de la tráquea cervical; como resultado de esta migración, puede permanecer un tracto llamado *conducto tirogloso*, el cual involuciona en la mayoría de los casos, aunque, por razones aún no tan claras, puede persistir y favorecer el desarrollo de un quiste en el cuello denominado *quiste del conducto tirogloso*.

Los quistes del conducto tirogloso son las masas congénitas de la línea media del cuello más comunes, ya que representan el 40 % de estas, y se diagnostican en los primeros 7 años de vida en el 60-70 % de los casos (1). Si bien su principal ubicación es al inferior del hueso hioides, del 0,3-5 % se localizan en la base de la lengua, lo que genera síntomas respiratorios obstructivos que pueden llegar a comprometer la vida del paciente (2, 3). Debido a que son una patología poco frecuente y de difícil diagnóstico, no hay datos sobre su prevalencia a nivel local, ni mundial.

Basados en la experiencia de dos casos en lactantes menores diagnosticados y tratados en el Hospital Universitario San Vicente Fundación, se propone un enfoque diagnóstico y terapéutico para el abordaje de esta enfermedad, la cual tiene un escaso consenso en la literatura.

Descripción de los casos

Caso 1

Paciente femenina de 4 meses de edad, quien ingresa al Hospital de IV nivel por un cuadro de un día de evolución de estridor agudizado, que presentaba desde el nacimiento, así como disnea, rinorrea hialina, tos y cianosis peribucal. Como antecedentes de importancia presenta laringomalacia diagnosticada mediante una nasofibrolaringoscopia, bajo peso al

nacer sin causa clara, ductus arterioso persistente, talla baja y desnutrición global, y se encuentra en seguimiento genético de forma ambulatoria debido a una sospecha de cromosomopatía. Adicionalmente, fue hospitalizada recientemente en la misma institución debido a un cuadro de bronquiolitis moderada por un virus sincitial respiratorio y coinfección bacteriana, la cual se trató en la unidad de cuidados intensivos (UCI) por ocho días, por lo que requiere el uso de una cámara cefálica y una cánula nasal de alto flujo.

La paciente ingresó hemodinámicamente estable, con una saturación de oxígeno ambiente adecuada, una dificultad respiratoria leve a moderada y un murmullo vesicular disminuido bibasal. Se inició el tratamiento con broncodilatadores y un esteroide, al considerar como posible diagnóstico el síndrome posviral. A pesar de que tratamiento inicial no dio como resultado una mejoría y hubo un deterioro progresivo que conllevó una falla ventilatoria, la paciente requirió intubación orotraqueal y traslado a la UCI pediátrica. Por parte del grupo de otorrinolaringología, se definió realizar una nasofibrolaringoscopia, donde se evidenció una lesión de aspecto quístico en la base de la lengua, y se confirmó una laringomalacia tipo I y III. Con base en este resultado, se ordena una resonancia magnética para esclarecer el diagnóstico, lo que confirma la sospecha de un quiste tirogloso lingual (**Figura 1A y B**).

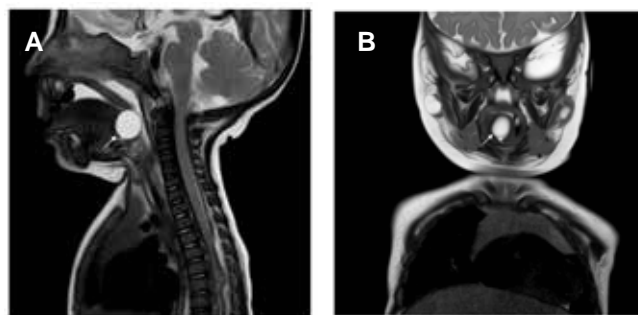


Figura 1. Resonancia magnética nuclear contrastada potenciada en T2, corte sagital y coronal, respectivamente. El quiste tirogloso se señala con una flecha blanca.

En otorrinolaringología, se definió llevar a un procedimiento de marsupialización microendoscópica con radiofrecuencia, en el cual no se presentaron complicaciones. Se traslada a la UCI pediátrica en el posoperatorio inmediato y permanece con intubación orotraqueal por dos días. A los 15 días, se realizó una nasofibrolaringoscopia control postoperatoria sin recurrencia, cuyos hallazgos histopatológicos confirman el diagnóstico de quiste tirogloso lingual. Se realizó un seguimiento posquirúrgico a los 5 meses, en el que se encontró una evolución adecuada, según informa la madre, sin síntomas respiratorios, con recuperación lenta de peso y sin reingresos por el servicio de urgencias.

Caso 2

Paciente femenina de 2 meses de edad, sin antecedentes personales o familiares de importancia, quien ingresa al Hospital de IV nivel por un cuadro de un mes y medio de evolución de episodios de emesis posprandial, que evolucionó hasta una intolerancia a la vía oral, falla en el medro y desnutrición global; se diagnosticó hiperplasia pilórica y, posteriormente, se realizó una pilorotomía abierta.

A los 12 días en el posoperatorio, la paciente presenta una agudización de estridor, que según la madre es de nacimiento, por lo cual se ordena una nasofibrolaringoscopia. Esta evidencia una lesión quística hacia la base de lengua, la región valecular, que genera un colapso posterior de la epiglotis hacia vestíbulo laríngeo, con una sospecha diagnóstica de quiste valecular (**Figura 2**).

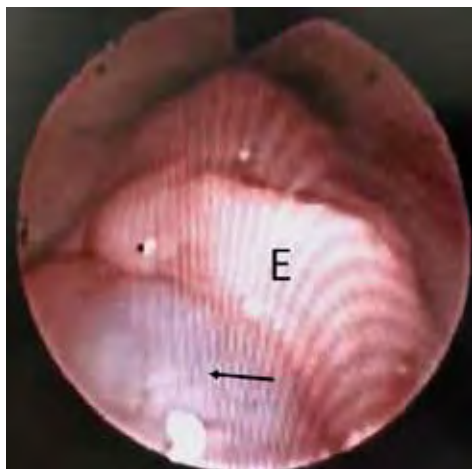


Figura 2. Nasofibrolaringoscopia flexible, en la que se señala con una flecha negra el quiste tirogloso lingual. E: epiglotis.

Se ordena una tomografía contrastada de cuello (**Figura 3A y B**), que sugiere un diagnóstico de quiste tirogloso lingual; con base en este diagnóstico, se programa una intervención quirúrgica. Se realiza una marsupialización microendoscópica con radiofrecuencia en el día 35 después del ingreso. La paciente permanece con intubación orotraqueal en la UCI en el posoperatorio por 3 días, y se da de alta el día 16 del posoperatorio gracias a una buena evolución. Se

ha realizado el seguimiento durante 4 meses, en el que se ha evidenciado una evolución adecuada y sin síntomas respiratorios.

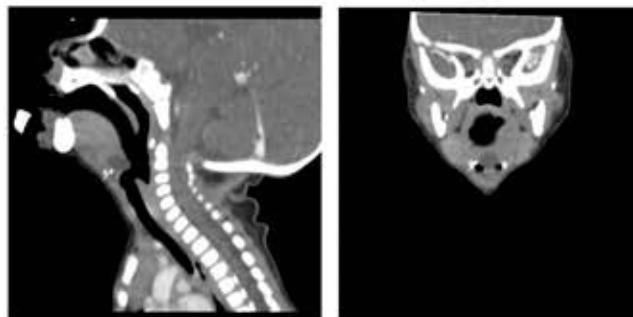


Figura 3. Tomografía computarizada contrastada de corte sagital y coronal, respectivamente, que señala con una flecha blanca un quiste tirogloso lingual.

Marsupialización microendoscópica con radiofrecuencia

Bajo anestesia general e intubación orotraqueal, se realiza una laringoscopia de suspensión a mesa de mayo, se expone el quiste tirogloso lingual, y se realiza una tracción de la lesión de aspecto quístico y una incisión de mucosa con una microtijera angulada. Posteriormente, se identifica el ingreso al quiste y se procede a realizar una resección del saco mucoso con punta de radiofrecuencia Coblation™ Procise™ MLW hasta lograr una marsupialización completa hacia la orofaringe, aspirando continuamente el material mucinoso (**Figura 4**).

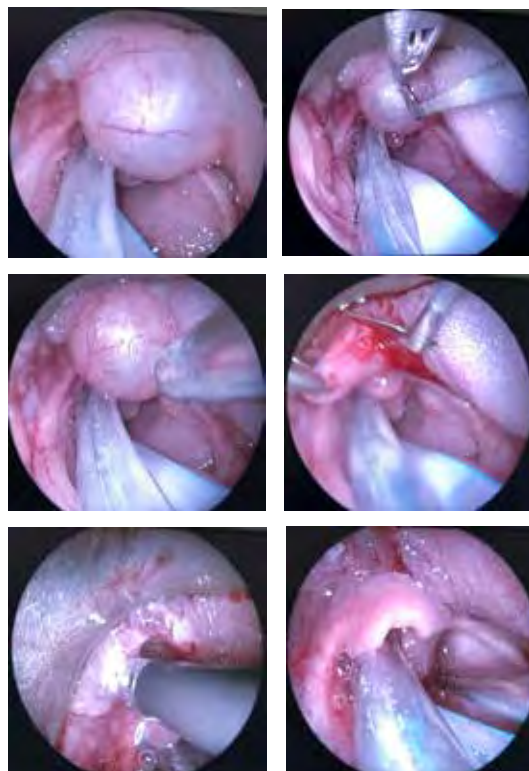


Figura 4. Visualización endoscópica del procedimiento descrito.

Discusión

Los quistes del conducto tirogloso son masas benignas del cuello, ubicadas en la línea media, que surgen de células remanentes anormales en el trayecto del descenso tiroideo durante el desarrollo fetal. Su principal presentación se da a nivel infrahioideo; sin embargo, el 0.5-3 % de estos se presentan en la base de la lengua (2). Aunque es una patología poco común, es importante que el otorrinolaringólogo tenga conocimiento al respecto, debido a que es altamente probable el diagnóstico de patologías erróneas, tales como laringomalacia, genere un retraso en el manejo apropiado y oportuno (4). De igual forma, por la complejidad que puede suponer para el clínico, el abordaje ideal es multidisciplinario, por lo que es necesario que otorrinolaringólogos, pediatras, terapeutas respiratorios y especialistas en deglución estén presentes.

Los síntomas característicos del quiste tirogloso lingual varían desde síntomas respiratorios leves y disfagia hasta estridor persistente y distrés respiratorio secundario (3) a una obstrucción de la vía aérea, que puede poner en peligro la vida del paciente, como se demostró en nuestros pacientes (2, 5-7). Por esta razón, ante un lactante menor con dichos síntomas y luego de su estabilización y aseguramiento de la vía aérea según se requiera, proponemos una primera aproximación diagnóstica con una laringoscopia flexible, debido a su amplia disponibilidad y bajo costo. Gracias a esta ayuda diagnóstica se puede encontrar una lesión con apariencia quística en la base de la lengua, al analizar las características de la vía aérea; además, se pueden descartar otros diagnósticos diferenciales como los nombrados previamente.

Posteriormente, se requiere complementar con estudios imagenológicos que nos permitan distinguir entre las múltiples patologías de apariencia quística (**Tabla 1**), que constituyen diagnósticos alternos, tales como absceso, quiste valecular congénito, quiste dermoide y tiroides ectópico.

Como primera opción, se debe realizar una resonancia magnética de cuello debido a que proporciona información sobre detalles anatómicos precisos de los tejidos blandos, especialmente del cuello suprahioideo; otra de las ventajas de la resonancia magnética es que no expone al paciente a la radiación (8-10). Sin embargo, no se debe desconocer que la resonancia magnética representa un alto costo y no está disponible ampliamente, y que la tomografía computarizada (TC) contrastada de cuello se presenta como una segunda opción adecuada.

Una vez que se tenga una alta sospecha del quiste tirogloso lingual, basados en la clínica y en las ayudas diagnósticas, se debe proceder al planeamiento quirúrgico. En la literatura existe poco consenso con respecto a las técnicas quirúrgicas y al uso de las diferentes herramientas; la mayoría de los casos previamente reportados describen una escisión trans-cervical mediante un procedimiento formal de Sistrunk, en la cual se realiza una resección del quiste y la porción media del hueso hioides en continuidad, así como la escisión del tracto tirogloso, la ligadura de los restos del tracto cerca del agujero ciego (11) y la punción del quiste, en la cual se realiza la aspiración del quiste por laringoscopia directa, utilizado en los casos de obstrucción aguda de las vías respiratorias cuando la intubación traqueal no es posible.

Adicionalmente, se ha descrito la realización de una marsupialización transoral bajo la visión directa o endoscópica para los quistes tiroglosos linguales e intralinguales, la cual ha tenido buenos resultados (2, 6, 8). Respecto a los dispositivos de energía y las técnicas de disección utilizados, se han descrito el uso del láser, electrocauterio, disección en frío, microdebridador y dispositivos activados por ultrasonidos, utilizados de manera individual o combinados (12). La propuesta de manejo utilizada en nuestros casos fue el abordaje laringoscópico bajo anestesia general e intubación orotraqueal, con marsupialización y uso de radiofrecuencia; como se describió previamente, el uso de dicha herramienta permite realizar la

Tabla 1. Hallazgos imagenológicos según el diagnóstico diferencial

Patología	Hallazgos en TC	Hallazgos en RM
Quiste valecular	Lesión hipodensa bien definida sin realce	Lesión T1 señal baja, T2 señal homogénea alta sin realce
Quiste dermoide	Lesión con densidad mixta por componente líquido y graso	Lesión bien delimitada, T1 intensidad mixta alta e intermedia, T1 saturación grasa; se evidencia gran componente graso, señal en T2 alta sin realce o con realce del borde, grasa intralesional que se fusiona entre lóbulos, dado la apariencia de "saco de canicas"
Tiroides ectópico	Lesión hipodensa en relación con el músculo por el contenido de yodo y con una mejoría moderada con contraste	Levemente hiperintensa o isointensa en T1 en relación con músculo y un aumento de realce con contraste
Quiste tirogloso lingual	Lesión hipodensa bien delimitada sin realce	Lesión con señal intermedia en [¿T1?] y en T2 con señal alta. Si el líquido es proteico o hemorrágico, la señal puede ser más intensa en T1. Usualmente, está bien delimitada con borde de realce fino, y se distinguen de otras lesiones al tener un componente estrechamente asociado al hueso hioides (se puede extender por defecto en el músculo milohioideo)

incisión y hemostasia simultáneamente, además permite realizar una manipulación precisa cuando se usa un endoscopio y las zonas de coagulación más estrechas en comparación con otras tecnologías, como el láser CO₂, y se asocia con un mejor control del dolor posoperatorio (12-14).

En cuanto al seguimiento, no hay protocolos ni consenso en la literatura; por ende, nuestra propuesta es observar la evolución del paciente en el posoperatorio inmediato en una unidad de cuidados intensivos (UCI), debido al alto riesgo de edema y obstrucción de la vía aérea. Allí se debe continuar con la intubación orotraqueal por lo menos de 48 a 72 horas, y es posible utilizar la prueba de fuga como guía. Adicional a esto, con el apoyo de fonología, se debe definir la vía de alimentación, que inicialmente suele ser enteral por sonda nasogástrica, puesto que el objetivo principal es el inicio de la vía oral de manera temprana, de forma escalonada y según la tolerancia del paciente (Figura 5).

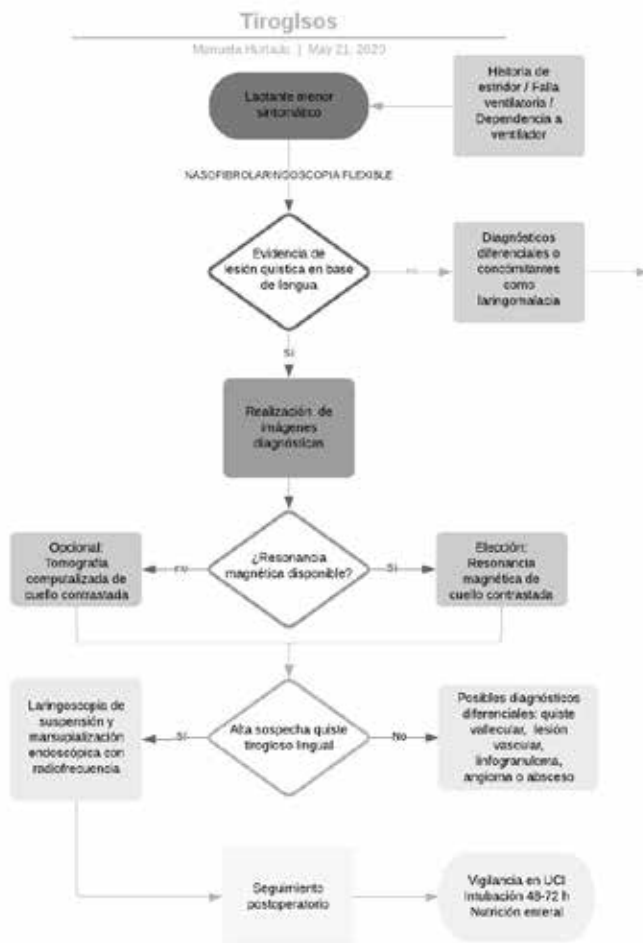


Figura 5. Algoritmo de propuesta diagnóstica, manejo y seguimiento del quiste tirogloso lingual en los lactantes menores.

Dentro de las limitaciones de los casos propuestos está el corto seguimiento a estos, ya que a la fecha ha sido un seguimiento de 8 meses con adecuada evolución; sin embargo, este tiempo limita el análisis de complicaciones a largo pla-

zo, tales como recurrencias. En este sentido, es necesario realizar estudios con una muestra y un seguimiento mayor que permitan extrapolar los hallazgos a la población general, así como tener una mayor validez sobre si la propuesta de manejo es la más apropiada para los pacientes con este tipo de diagnóstico.

Conclusiones

Los pacientes con quiste tirogloso lingual se pueden tratar mediante la realización de una marsupialización endoscópica con radiofrecuencia, lo que permite la resolución del cuadro clínico obstructivo de la vía aérea, con un mínimo riesgo de complicaciones y con un resultado estable en el tiempo.

El enfoque diagnóstico de la enfermedad se basa en una descripción de los hallazgos por nasofibrolaringoscopia flexible, con la participación del otorrinolaringólogo, junto con la resonancia magnética o la tomografía. Cabe destacar que la primera se posiciona como una mejor opción, ya que evita irradiar al paciente y es posible descartar otras patologías.

Declaración de conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses. Este artículo se presentó en el XL Congreso Nacional de Otorrinolaringología, 11 al 14 de marzo del 2020, Centro de Convenciones Neomundo, Bucaramanga, Colombia.

Aspectos éticos

El presente artículo se acoge a la declaración de Helsinki, adoptada por la Decimotava Asamblea Médica Mundial, Finlandia (1964), y la resolución 8430 del Ministerio de Salud de Colombia.

REFERENCIAS

1. Aubin A, Lescanne E, Pondaven S, Merieau-Bakhos E, Bakhos D. Stridor and lingual thyroglossal duct cyst in a newborn. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2011;128(6):321-3.
2. Harumatsu T, Uchida G, Fujimura T, Kato M, Tomita H, Ishioka S, et al. The effectiveness of transoral marsupialization for lingual thyroglossal duct cysts — Twelve successfully treated cases at a single institution. *J Pediatr Surg.* 2019;54(4):766-70.
3. Li W, Ren YP, Shi YY, Zhang L, Bu RF. Presentation, management, and outcome of lingual thyroglossal duct cyst in pediatric and adult populations. *J Craniofac Surg.* 2019;30(5):E442-6.
4. Fu J, Xue X, Chen L, Fan G, Pan L, Mao J. Lingual thyroglossal duct cyst in newborns: Previously misdiagnosed as laryngomalacia. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2008;72(3):327-32.
5. Zimmerman KO, Hupp SR, Bourguet-Vincent A, Bressler EA, Raynor EM, Turner DA, et al. Acute upper-airway obstruction by a lingual thyroglossal duct cyst and implications for advanced airway management. *Respir Care.* 2014;59(7):e98-102.
6. Kayhan FT, Kaya KH, Koc AK, Altintas A, Erdur O. Transoral surgery for an infant thyroglossal duct cyst. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2013;77(9):1620-3.

7. Fong S, Hodge JC, Foreman A, Krishnan S. Transoral robotic excision of a lingual thyroglossal duct cyst. *J Robot Surg.* 2018;12(2):357–60.
8. Drusin MA, Pereira NM, Modi VK. Intralingual Thyroglossal Duct Cyst Excision. *Laryngoscope.* 2020;00:1-4.
9. Fang WS, Wiggins RH, Illner A, Hamilton BE, Hedlund GL, Hunt JP, et al. Primary lesions of the root of the Tongue. *Radiographics.* 2011;31(7):1907–22.
10. Singh A, Thukral CL, Gupta K, Sood AS, Singla H, Singh K. Role of MRI in Evaluation of Malignant Lesions of Tongue and Oral Cavity. *Polish J Radiol.* 2017;82:92–9.
11. Sattar AK, McRae R, Mangray S, Hansen K, Luks FI. Core excision of the foramen cecum for recurrent thyroglossal duct cyst after Sistrunk operation. *J Pediatr Surg.* 2004;39(4):e3-e5.
12. Burkart CM, Richter GT, Rutter MJ, Myer CM. Update on endoscopic management of lingual thyroglossal duct cysts. *Laryngoscope.* 2009;119(10):2055–60.
13. Pu S, Xu H, Li X. Supraglottoplasty in neonates and infants: A radiofrequency ablation approach. *Medicine (Baltimore).* 2018;97(7):e9850.
14. Hofauer B, Knopf A, Strassen U, Wirth M, Mollenhauer M, Edenharter G, et al. Radiofrequency resection in oral and oropharyngeal tumor surgery. *Auris Nasus Larynx.* 2020;47(1):148–53.