

TEJIDO TIROIDEO ECTÓPICO EN LA GLÁNDULA SUPRARRENAL.

Angela Valencia-West¹, Peter Gericke-Brumm², Eduardo Reyna-Villasmi³.

¹Servicio de Endocrinología, Hospital Príncipe de Asturias, Alcalá de Henares, España. ²Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Príncipe de Asturias, Alcalá de Henares, España. ³Departamento de Investigación y Desarrollo, Hospital Central “Dr. Urquinaona”, Maracaibo, Venezuela.

Rev Venez Endocrinol Metab 2022;20(1): 59-64

RESUMEN

Objetivo: Presentar un caso de tejido tiroideo ectópico en la glándula suprarrenal.

Caso clínico: Se trata de paciente femenina de 39 años quien presentaba tumoración suprarrenal descubierta de forma incidental durante una valoración ecográfica. El examen físico de la paciente estaba dentro de límites normales. El cuello estaba flexible y no se palpaba bocio, ni tumoraciones o ganglios linfáticos aumentados de tamaño. El abdomen estaba blando depresible, no doloroso y no se palpaban tumoraciones. Las imágenes de tomografía computada abdominal mostraban tumoración sólida, con alta atenuación y pequeñas calcificaciones, no adenomatosa, de 18 x 13 x 11 milímetros en la glándula suprarrenal derecha y que comprimía los tejidos blandos a su alrededor. Todas las pruebas endocrinas estaban dentro de límites normales. La paciente fue sometida a adrenalectomía laparoscópica. El examen histopatológico demostró tejido tiroideo ectópico dentro de la glándula suprarrenal.

Conclusión: La localización del parénquima tiroideo fuera de la posición ortotópica de la glándula es descrita como tejido tiroideo ectópico. Por lo general, se encuentra en cualquier lugar, a lo largo de la vía de descenso embrionario de la región medular tiroidea desde la lengua hasta la tráquea. La presencia de este tejido ectópico en lugares fuera de la vía de migración primitiva es excepcional y difícil de entender. Existen informes de casos de lesiones ectópicas en órganos abdominales, incluidas las glándulas suprarrenales. Se debe tener cuidado al distinguirlo del cáncer metastásico de tiroides.

Palabras clave: Tejido tiroideo ectópico; tiroides; glándula suprarrenal.

ECTOPIC THYROID TISSUE IN ADRENAL GLAND

ABSTRACT

Objective: To present a case of ectopic thyroid tissue in the adrenal gland.

Clinical case: This is a 39-year-old female patient who presented with an adrenal tumor discovered incidentally during ultrasound evaluation. Physical examination of the patient was within normal limits. The neck was flexible and there were no palpable goiter, tumors or enlarged lymph nodes. Abdomen was soft, depressible, non-painful and there were no palpable tumors. Abdominal computed tomography images showed a solid, high attenuation, small calcified, non-adenomatous tumor, measuring 18 x 13 x 11 millimeters in the right adrenal gland, and compressing the surrounding soft tissues. All endocrine tests were within normal limits. Patient underwent

Artículo recibido en: julio 2021. Aceptado para publicación en: diciembre 2021.
Dirigir correspondencia a: Eduardo Reyna-Villasmi. Email: sippenbauch@gmail.com

laparoscopic adrenalectomy. Histopathologic examination demonstrated ectopic thyroid tissue within the adrenal gland.

Conclusions: The location of thyroid parenchyma outside the orthotopic position of the gland is described as ectopic thyroid tissue. It is usually found anywhere along the embryonic descending pathway of the thyroid medullary region, from the tongue to the trachea. The presence of this ectopic tissue in locations outside the primitive migration pathway is exceptional and difficult to understand. There are case reports of ectopic lesions in abdominal organs, including the adrenal glands. Caution should be exercised in distinguishing it from metastatic thyroid cancer.

Key words: Ectopic thyroid tissue; thyroid; adrenal gland.

INTRODUCCIÓN

El tejido tiroideo ectópico (TTE) es un término que se refiere a la localización del parénquima tiroideo fuera de la posición ortotópica de la glándula tiroidea. Este se encuentra principalmente en localizaciones de la línea media, alrededor del curso del conducto tirogloso o lateralmente en el cuello, desde la lengua hasta el mediastino y en las estructuras cervicales laterales o área de Wölfler¹. Sin embargo, no se limita a esta área y se ha informado en una variedad notable de lugares fuera del cuello, incluidos sitios intra-torácicos y abdominales². El TTE en la glándula suprarrenal es extremadamente raro y se desconoce la causa. Las posibilidades para la existencia de este tejido en una masa suprarrenal son teratomas, metástasis suprarrenal de carcinoma de tiroides y TTE³. Se presenta un caso de tejido tiroideo ectópico en la glándula suprarrenal.

CASO CLÍNICO

Se trata de paciente femenina de 39 años quien es referida a la consulta para valoración de tumoración suprarrenal que causaba dolor lumbar de moderada intensidad. La tumoración fue descubierta de forma incidental durante la valoración ecográfica por patología biliar. El examen físico de la paciente estaba dentro de límites normales. El cuello estaba flexible y no se palpaba bocio, tumoraciones o ganglios linfáticos aumentados de tamaño. El abdomen estaba blando depresible, no doloroso y no se palpaban tumoraciones. La ecografía abdominal reveló la presencia de tumoración en la glándula suprarrenal derecha. Las imágenes de tomografía

computada abdominal mostraban la presencia de tumoración sólida, con alta atenuación y pequeñas calcificaciones, no adenomatosa de 18 x 13 x 11 milímetros en la glándula suprarrenal derecha y que comprimía los tejidos blandos a su alrededor (figura 1). Las pruebas de laboratorio de rutina estaban normales. Todas las pruebas endocrinas, incluyendo T3 (105 ng/mL; valor normal 60-180 ng/mL), T4 (6,5 picog/dL; valor normal 4-12 picog/dL), TSH (2,0 mUI/L; valor normal 0,4-4,5 mUI/L), cortisol 8 a.m. (17,3 mcg/dL; valor normal 5-25 mcg/dL), aldosterona (8 ng/dL; valor normal 3-16 ng/dL) y hormona adenocorticotropa (57 pg/dL; valor normal 6-76 pg/L), demostraron que el tumor no era funcional.

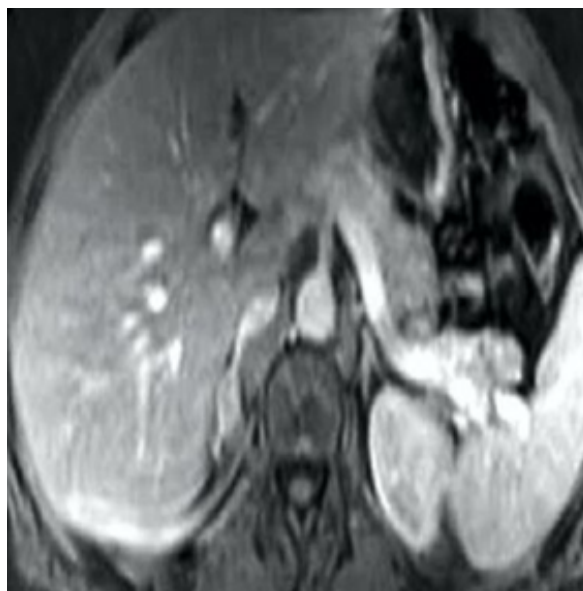


Fig. 1. Imagen de tomografía computada donde se observa tumoración sólida bien delineada en glándula suprarrenal derecha.

La paciente fue sometida a adrenalectomía laparoscópica. La pieza quirúrgica fue la glándula suprarrenal derecha de 40 x 20 milímetros que contenía una tumoración sólida de 15 milímetros. El examen histopatológico demostró folículos tiroideos, con núcleos pequeños y redondos sin pseudo-inclusiones citoplasmáticas, de diferentes tamaños, rodeados por una capa de epitelio cúbico simple, con núcleos redondos, regulares y pequeños nucléolos mezclados con células de la corteza suprarrenal dentro de tejido fibroso. Cada folículo contenía material eosinofílico de tipo coloide y estaban rodeados de infiltrados de células linfoides reactivas (figura 2).

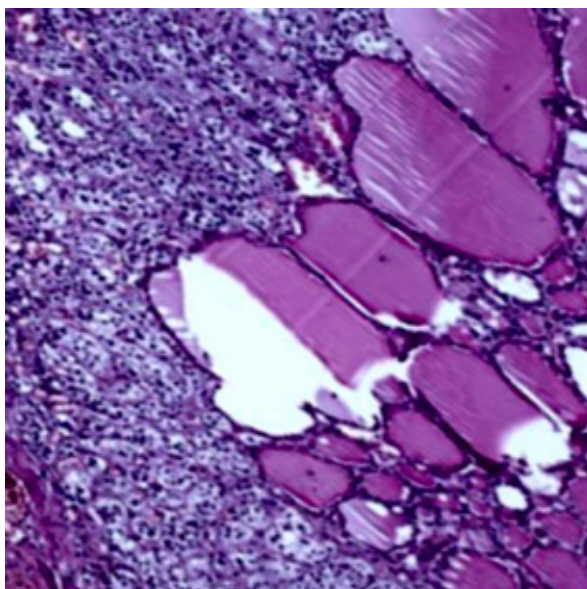


Fig. 2. Microfotografía de TTE dentro de la glándula suprarrenal. Coloración hematoxilina-eosina.

No se observó distribución particular del tejido tiroideo en las partes internas o externas de la glándula suprarrenal, signos de atipia celular, invasión vascular, necrosis y cuerpos de psammoma. La coloración inmunohistoquímica demostró que las células foliculares y epiteliales eran positivas para el factor 1 de transcripción tiroidea (TTF-1) y tiroglobulina (figura 3) y negativa en los folículos para calcitonina, citoqueratina-19, calretinina, HBME-1 y GAL-3.

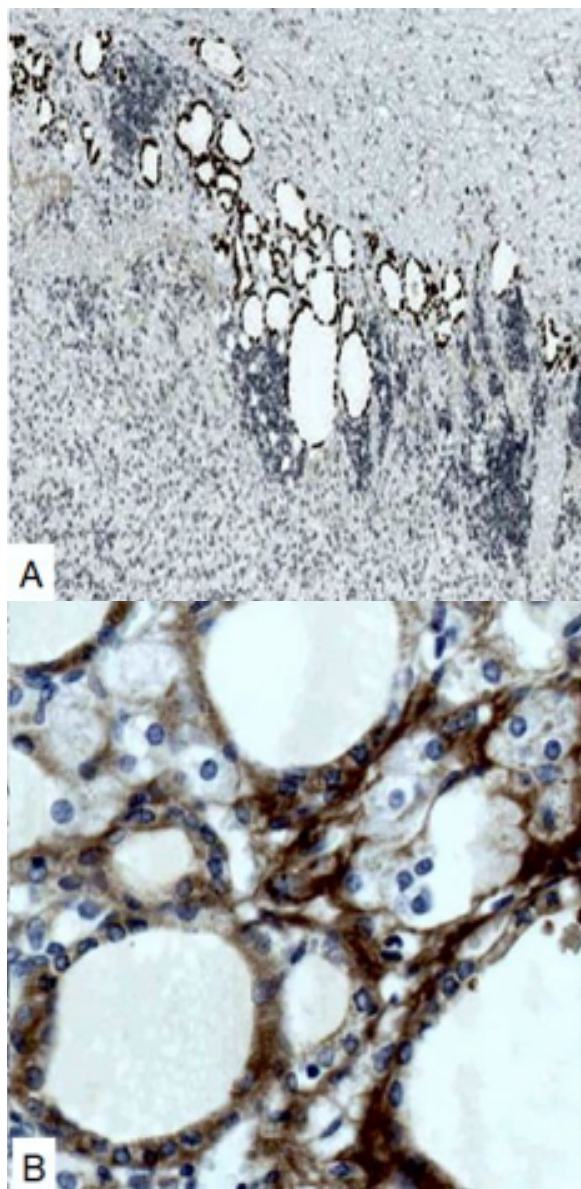


Fig. 3. Coloración inmunohistoquímica que demuestra la presencia de TTE en glándula suprarrenal. A) Positividad a TTF-1 de las células epiteliales en los folículos. B) Positividad a tiroglobulina de los folículos y epitelio folicular.

El postoperatorio de la paciente transcurrió sin complicaciones. Las concentraciones de tiroglobulina estaban dentro de límites normales (12,7 ng/mL; valor normal 1,6-55 ng/mL). El resto de los valores de hormonas tiroideas

y suprarrenales también estaban normales. La evaluación ecográfica del tiroides mostró parénquima de apariencia normal, sin lesiones sugestivas de cáncer tiroideo. Las posibilidades de metástasis de cáncer tiroideo primario fueron excluidas. La ecografía y tomografía computada de la glándula tiroides y los ganglios linfáticos en cuello fueron negativas y el cintilograma con yodo 123 no demostró la presencia de otro TTE. El seguimiento de la paciente por 12 meses no ha demostrado la presencia de otras lesiones.

DISCUSIÓN

El tejido tiroideo comienza a desarrollarse durante la cuarta semana embrionaria. Aparece en la lengua como un crecimiento epitelial. Para la séptima semana embrionaria, la glándula tiroides desciende a la posición adulta, anterior a la tráquea^{1,4}. El TTE es un defecto de desarrollo de la glándula tiroides definido por la presencia de tejido tiroideo en sitios distintos a su ubicación cervical anterior ortotópica normal. Puede desarrollarse en cualquier lugar, a lo largo de esta vía, como la región del cuello, mediastino, faringe, laringe, esófago, tráquea y alrededor de la aorta. A menudo coexiste como una estructura separada en individuos con una glándula tiroides localizada normalmente^{2,5}. Se ha notificado que tiene una prevalencia de 1:100.000 a 1:300.000, pero la prevalencia parece mayor (1:4.000 a 1:8.000) en pacientes con enfermedad tiroidea⁶.

La aparición de TTE es infrecuente en localizaciones sub-diafragmáticas, como duodeno, páncreas, mesenterio del intestino delgado, vesícula biliar y útero^{2,4}. La presencia de TTE en la glándula suprarrenal es muy rara. Solo se han descrito 10 de estos casos con edad promedio de aparición de 50,5 años (rango: 32-67 años) y las mujeres son afectadas con mayor frecuencia (10:1) que los hombres^{1,7}.

Se han sugerido algunas explicaciones para la aparición de TTE. Primero, no se puede excluir la metaplasia o la presencia de tejido coristomatoso o de un teratoma^{8,9}. No obstante, los casos de TTE en

glándula suprarrenal no pueden explicarse desde el punto de vista de transformación metaplásica porque la tiroides tiene origen endodérmico, mientras que la glándula suprarrenal se desarrolla a partir del ectodermo y mesodermo. En segundo lugar, todos los informes demuestran que el TTE está limitado a la parte superior del abdomen. Esto sugiere que los casos reportados en la parte inferior del abdomen pueden ser causados por remanentes de conductos hipoglosos ubicados en esa zona^{5,10}.

El principal síntoma de los pacientes con TTE en glándula suprarrenal es dolor lumbar que podría estar relacionado con la presencia de tumoración suprarrenal. Sin embargo, la mayoría de los casos descritos son descubiertos de forma incidental, como lesiones insospechadas y asintomáticas después de evaluación con imágenes por ultrasonido o tomografía para alguna otra patología no relacionada. La mayoría de los pacientes no tienen anomalías endocrinas, pero se han descrito casos de hiperaldosteronismo debido a adenoma cortical benigno concurrente en la misma glándula suprarrenal³. El hallazgo de TTE en este caso fue accidental y sin sintomatología tiroidea o suprarrenal.

Las características patológicas del TTE en glándula suprarrenal de este caso son similares a otros casos reportados. Las tumoraciones generalmente son quísticas uniloculares y macroscópicas de un tamaño mayor de 3 centímetros que contienen material coloide y aparecen principalmente en la corteza suprarrenal. Aunque el tumor de la paciente del presente caso era de características sólidas y de un tamaño menor. Los folículos tiroideos se mezclan de forma variable con las células suprarrenales y generalmente no existen atipias citológicas significativas en las células ectópicas de la tiroides^{6,10}. El examen histológico reveló células positivas para TTF-1 y tiroglobulina que cubren una capa fibrosa de espesor variable que contiene folículos llenos de coloide bien desarrollados del parénquima tiroideo. La inmunotinción positiva a tiroglobulina y TTF-1 confirman la diferenciación tiroidea, mientras que la galectina-3 y la HBME-1, aunque no son específicas, pueden apoyar la posibilidad de la presencia de carcinoma tiroideo¹¹.

Los diagnósticos diferenciales de TTE en la glándula suprarrenal incluyen quistes suprarrenales, tumores suprarrenales y quistes broncogénicos sub-diafragmáticos. Los quistes suprarrenales se clasifican en cuatro tipos según características histopatológicas: quistes endoteliales, epiteliales, por parásitos y pseudoquistes. Estos quistes endoteliales son quistes linfangiomatosos y hemangiomas. Los pseudoquistes surgen típicamente después de la hemorragia suprarrenal. La mayoría de los quistes suprarrenales son quistes endoteliales o pseudoquistes¹². Los tumores adrenales como adenoma suprarrenal, carcinoma adrenocortical, feocromocitoma y metástasis, pueden asociarse con lesiones quísticas en la glándula suprarrenal, sin embargo, tienen apariencia heterogénea y pared gruesa. Los quistes broncogénicos sub-diafragmáticos son una anomalía congénita rara que ocurre con mayor frecuencia adyacente a la glándula suprarrenal izquierda¹.

El TTE puede verse afectado por cualquier afección de la tiroides ortotópica, incluida tiroiditis de Hashimoto, enfermedad de Graves, así como tumores malignos, tanto papilares como foliculares⁶. La transformación maligna del TTE es rara y siempre debe distinguirse de metástasis originadas por un carcinoma oculto en la glándula tiroides. Estos focos de TTE benigno presentan alta celularidad y pueden incluir áreas con arquitectura microfolicular. Los depósitos metastásicos pueden diferenciarse en gran medida por una arquitectura folicular bien desarrollada, incluso en el caso del carcinoma papilar^{11,13}. Debe señalarse que las metástasis de carcinomas tiroideos a la glándula suprarrenal se desarrollan generalmente en pacientes con carcinoma tiroideo que se han diseminado a los ganglios linfáticos cervicales^{13,14}. En este caso se planteó la posibilidad que el tejido encontrado fuese metástasis de un carcinoma oculto de tiroides. La paciente fue sometida a investigaciones exhaustivas de la glándula tiroides o en los ganglios linfáticos del cuello sin encontrar anomalías, por lo que el TTE suprarrenal se consideró ectópico y benigno.

Como se ha reportado en la mayoría de los informes, la mejor estrategia de tratamiento para el TTE está

relacionada con la edad del paciente, localización, síntomas locales, potencial de malignidad, riesgo quirúrgico y, por último, el estado funcional de la tumoración⁷. Como en el presente caso, la cirugía es el tratamiento recomendado para el manejo de estas lesiones^{15,16}. En pacientes sin síntomas, se puede proponer seguimiento estricto para descubrir lo antes posible la presencia de neoplasias malignas o desarrollo de otras complicaciones (agrandamiento de la masa, desequilibrios hormonales). En algunos casos es recomendable el tratamiento farmacológico con levotiroxina para prevenir la transformación maligna^{17,18}. Aunque el tratamiento con yodo radioactivo podría considerarse como posible tratamiento, este método podría ser una terapia de rescate en pacientes con hipertiroidismo, que rechazan la cirugía o no responden satisfactoriamente al tratamiento médico^{2,18}.

CONCLUSIÓN

El TTE en la glándula suprarrenal es una entidad rara y muestra un perfil histológico e inmunohistoquímico similar al del tejido tiroideo normal. Casi siempre toma la forma de una lesión quística con características que son lo suficientemente distintivas como para ser reconocidas tanto desde el punto de vista macroscópico como histológico. Los clínicos y los patólogos deben ser cuidadosos en diferenciarlo del cáncer tiroideo metastásico y de tumores suprarrenales para evitar intervenciones innecesarias. Los hallazgos de estudios por imágenes son poco concluyentes.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Tada A, Tanaka T, Takamoto A, Yanai H, Sato S, Kanazawa S. Ectopic thyroid tissue in the adrenal gland: CT and MRI findings. *Diagn Interv Imaging* 2016;97:373-375.
2. Guerra G, Cinelli M, Mesoletta M, Tafuri D, Rocca A, Amato B, Rengo S, Testa D. Morphological, diagnostic and surgical features of ectopic thyroid gland: a review of literature. *Int J Surg* 2014;12 Suppl 1:S3-11.
3. Romero-Rojas A, Bella-Cueto MR, Meza-Cabrera IA, Cabezuelo-Hernández A, García-Rojo D, Vargas-Uricoechea H, Cameselle-Teijeiro J. Ectopic thyroid

- tissue in the adrenal gland: a report of two cases with pathogenetic implications. *Thyroid* 2013;23:1644-1650.
4. Paunovic I, Rovcanin B, Jovanovic M, Buzejic M, Dundjerovic D, Zivaljevic V. Ectopic thyroid tissue in adrenal gland, case report and review of literature. *Gland Surg* 2020;9:1573-1578.
 5. Gourmaud J, Bongiovanni M, Triponez F, Pusztaszeri M. Ectopic thyroid tissue in the adrenal gland. *Endocr Pathol* 2014;25:353-355.
 6. Triggiani V, Giagulli VA, Licchelli B, Resta F, Fiore G, De Pergola G, Sabbà C, Guastamacchia E. Ectopic thyroid gland: description of a case and review of the literature. *Endocr Metab Immune Disord Drug Targets* 2013;13:275-281.
 7. Bramhe S, Dhawan S, Dhamija N. An unusual case of ectopic thyroid tissue in an adrenal gland presenting as a cyst. *Indian J Cancer* 2021;58:294-295.
 8. Wang SC, Hung SW, Lee CH, Ho HC, Ou YC, Yang CK. Ectopic thyroid tissue in the adrenal gland mimicking a pheochromocytoma. *J Endourol Case Rep* 2017;3:149-151.
 9. Takahashi T, Ishikura H, Kato H, Tanabe T, Yoshiki T. Ectopic thyroid follicles in the submucosa of the duodenum. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol* 1991;418:547-550.
 10. Rawitzer J, Kapakoglou A, Walz MK, Schmid KW, Reis H. Ectopic thyroid tissue in the adrenal gland: A case report and review of the literature. *Pathologie* 2020;41:177-180
 11. Casadei GP, Bertarelli C, Giorgini E, Cremonini N, de Biase D, Tallini G. Ectopic thyroid tissue in the adrenal gland: report of a case. *Int J Surg Pathol* 2015;23:170-175.
 12. Ricci Z, Chernyak V, Hsu K, Mazzariol FS, Flusberg M, Oh S, Stein M, Rozenblit A. Adrenal cysts: natural history by long-term imaging follow-up. *AJR Am J Roentgenol* 2013;201:1009-1016.
 13. Shuno Y, Kobayashi T, Morita K, Shimizu S, Nishio Y, Ito A, Kobayashi K, Kawahara M, Teruya M. Ectopic thyroid in the adrenal gland presenting as cystic lesion. *Surgery* 2006;139:580-582.
 14. Malhotra G, Upadhye TS, Sridhar E, Asopa RV, Garde PS, Gawde S, Rangarajan V. Unusual case of adrenal and renal metastases from papillary carcinoma of thyroid. *Clin Nucl Med* 2010;35:731-736.
 15. Shiraishi T, Imai H, Fukutome K, Watanabe M, Yatani R. Ectopic thyroid in the adrenal gland. *Hum Pathol*. 1999;30:105-108.
 16. Zhao Z, Huang Y, Zhang X, Zhao H, Yuan X, Zhao Q, Zhang C. Da Vinci robot-assisted resection to treat abdominal ectopic thyroid: a case report and literature review. *Gland Surg* 2021;10:378-385.
 17. Thapa S, Khanal P. Lingual thyroid with subclinical hypothyroidism in a young female. *Case Rep Endocrinol* 2021;2021:6693477. doi: 10.1155/2021/6693477.
 18. 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.