

# Tiroiditis bacteriana recurrente secundaria a fístula del seno piriforme. Reporte de un caso

MELINA ACEVEDO-ROJAS\*, MELISSA ANDREA ROA-ORTIZ Y VÍCTOR CLEMENTE MENDOZA-ROJAS

Grupo de Investigación PAIDÓS, Departamento de Pediatría, Escuela de Medicina, Universidad Industrial de Santander, Hospital Universitario de Santander, Bucaramanga, Colombia

## RESUMEN

**Introducción:** La tiroiditis supurativa aguda es una causa poco frecuente de masa cervical en niños y se manifiesta con absceso tiroideo recurrente, signos de respuesta inflamatoria sistémica y dolor local. Cuando se sospecha esta enfermedad deben descartarse anomalías congénitas como remanentes del aparato branquial. **Presentación del caso:** Preescolar femenina de tres años sin antecedentes de enfermedad tiroidea previa que presentó una masa tiroidea recurrente con cambios inflamatorios locales, drenaje supurativo por fístula cutánea, fiebre y odinofagia. La ultrasonografía reportó colección abscedada en el lóbulo izquierdo tiroideo. La histopatología confirmó la infección bacteriana y remanentes de fístula del seno piriforme. Presentó como complicación hipotiroidismo, que requirió suplencia con levotiroxina. **Discusión:** La tiroiditis supurativa aguda es una enfermedad poco frecuente en niños, pero cuando se presenta, deben descartarse remanentes del aparato branquial que predisponen a su presentación, teniendo en cuenta las características anatómicas de la glándula tiroidea que la hacen resistente a las infecciones. Los gérmenes aislados pueden ser cocos grampositivos y, en menor frecuencia, gramnegativos y anaerobios en el contexto de infecciones polimicrobianas. El diagnóstico se realiza por ultrasonografía, y para identificar la fístula del seno piriforme se usa la faringoscopia telescópica. El manejo es antibiótico y

## ABSTRACT

**Introduction:** Acute suppurative thyroiditis is one of the rare causes of neck mass in children and manifests with recurrent thyroid abscess, signs of systemic inflammatory response, and local pain. When this condition is suspected it should be discarded as remnants of branchial congenital anomalies apparatus. **Case presentation:** A three-years-old female with no history of previous thyroid disease that manifested as recurrent thyroid mass with local inflammatory changes, suppurative fistulae drainage, fever, and sore throat. Ultrasonography reported abscessed collection in left thyroid lobe. She received antibiotics and surgical management. Histopathology confirmed bacterial infection and remnants of pyriform sinus fistula. She presented as a complication hypothyroidism requiring levothyroxine substitution. **Discussion:** Acute suppurative thyroiditis is a rare condition in children that, when presented, remnants of brachial apparatus that predispose to its presentation should be discarded, taking into account the anatomical features of the thyroid gland that make it resistant to infections. The germs can be gram-positive and less commonly gram-negative and anaerobes in the context of polymicrobial infections. The diagnosis is made by ultrasonography and to identify the pyriform sinus fistula is used telescopic pharyngoscopy. Treatment is antibiotics and surgery after resolution of the inflammatory process. Long-term monitoring must be done

Dirección para correspondencia:

\*Melissa Andrea Roa-Ortiz

E-mail. meli2979@hotmail.com

Fecha de recepción: 22-10-2016

Fecha de aceptación: 20-04-2017

quirúrgico de forma posterior a la resolución del proceso inflamatorio. Se debe realizar un seguimiento a largo plazo porque puede haber recurrencia, complicaciones quirúrgicas e hipotiroidismo.

**Palabras clave:** Tiroiditis bacteriana. Fístula del seno piriforme. Aparato branquial. Tiroiditis supurativa.

## INTRODUCCIÓN

Las masas en el cuello son un motivo de consulta frecuente en pediatría y hasta el 90% de ellas son benignas<sup>1</sup>. Su etiología puede agruparse en tres categorías: inflamatorias, dentro de las cuales se encuentran las causas infecciosas o reactivas, malformaciones congénitas y neoplasias<sup>2</sup>.

El diagnóstico diferencial de las masas del cuello se establece de acuerdo a su localización, a la edad de aparición de la masa y a la sintomatología concomitante. Típicamente las masas en la línea media del cuello corresponden a remanentes embriológicos como el quiste tirogloso o a tumores tiroideos<sup>1,2</sup>.

La tiroides tiene una alta resistencia a las infecciones por estar recubierta por una cápsula fibrosa, tener una gran irrigación sanguínea y linfática, y por su alto contenido en yodo<sup>3-5</sup>. Las infecciones se manifiestan como masas recurrentes en el cuello o abscesos tiroideos, con o sin fístula cervical, es más frecuente el compromiso del lóbulo izquierdo de la glándula y su presentación acontece en la primera década de la vida<sup>3</sup>. En caso de presentarse una masa tiroidea de origen infeccioso en niños, deben descartarse factores predisponentes como una enfermedad tiroidea previa y malformaciones congénitas, sobre todo en casos de presentación recurrente<sup>4,5</sup>.

Dentro de las malformaciones congénitas, las más frecuentes son las anomalías del aparato branquial, las cuales se pueden presentar como senos, quistes o fístulas y se clasifican de acuerdo a su presentación anatómica. Los senos y las fístulas tienden a diagnosticarse tempranamente debido al drenaje de líquido o a secreciones a través de ellos<sup>6</sup>.

La mayoría de las anomalías branquiales congénitas tienen su origen en el segundo arco branquial

because there may be recurrence, surgical complications, and hypothyroidism. (REV MEX ENDOCRINOL METAB NUTR. 2017;4:102-6)

Corresponding author: Melissa Andrea Roa-Ortiz, meli2979@hotmail.com

**Key words:** Bacterial thyroiditis. Pyriform sinus fistula. Branchial apparatus. Suppurative thyroiditis.

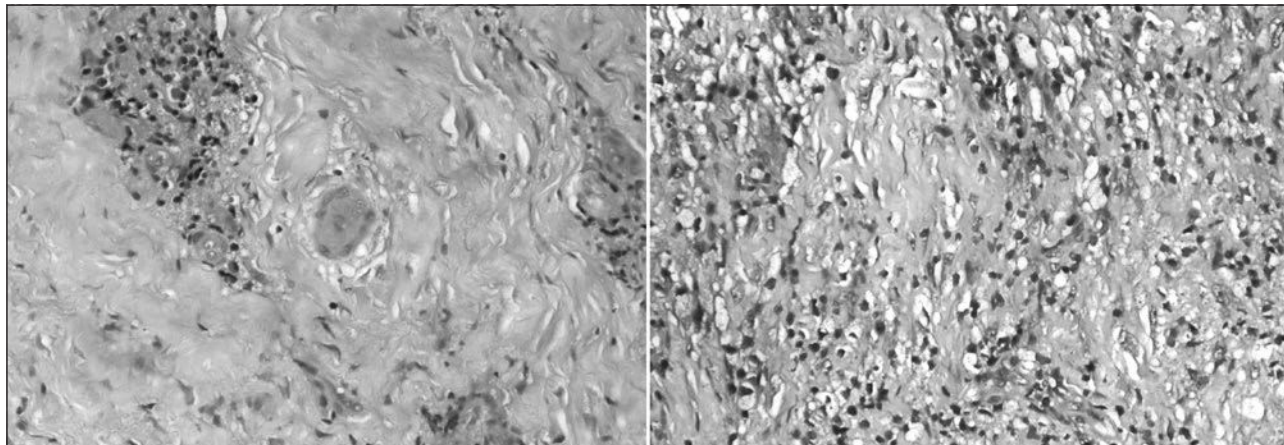
(95% de los casos); las anomalías en el primer y el tercer arcos representan el 5% de los casos y las del cuarto, el 1%<sup>5</sup>. Estos remanentes generalmente se manifiestan al sobreinfectarse y pueden ser causa de infecciones del espacio profundo del cuello hasta en el 2% de los casos<sup>6</sup>.

A continuación, se presenta un caso atendido en el Hospital Universitario de Santander de esta enfermedad poco frecuente en niños, junto con sus características clínicas y de laboratorio, y su tratamiento.

## CASO CLÍNICO

Paciente femenina de tres años, sin antecedentes patológicos, con síntomas de 15 días de evolución caracterizados por la aparición de una masa en el cuello, en la región tiroidea, de predominio izquierdo, con un aumento progresivo de tamaño y supuración espontánea a nivel de la línea media, además de fiebre y odinofagia. En el hospital local se le administra un manejo antibiótico empírico con oxacilina y amikacina. Se realiza una ecografía, que muestra un bocio. Ante la no mejoría después de una semana de recibir el manejo antibiótico, se realiza una segunda ecografía, que reporta una lesión abscedada en la línea media del cuello y adenitis cervical. Además, el hemograma muestra anemia, neutrofilia y trombocitosis (hemoglobina: 10.1 g/dl; hematocrito: 30.5%; leucocitos: 13,650; neutrófilos: 71%; linfocitos: 20%; monocitos: 7%; plaquetas: 526,000) y las pruebas de función tiroidea muestran los siguientes valores: TSH: 2.3 mUI/ml (valor de referencia [VR]: 0.5-4) y T4 libre: 1.03 ng/dl (VR: 0.8-1.9).

La paciente es remitida a nuestra institución. Al ingreso no hay signos de respuesta inflamatoria



**Figura 1.** Imagen de la glándula tiroidea donde se observa un infiltrado inflamatorio linfoplasmocitario con presencia de histiocitos espumosos, formación de pseudogranulomas, en los que se reconocen células epitelioides y escasas células gigantes multinucleadas de tipo cuerpo extraño.

sistémica y se evidencia una masa en el lóbulo tiroideo izquierdo, que se extiende hacia la línea media del cuello, de 4 × 3 cm, con signos de inflamación y drenaje espontáneo de material purulento en la línea media. Se inicia un manejo antibiótico con clindamicina.

La paciente es valorada por endocrinología pediátrica, considerando una tiroiditis bacteriana con compromiso del lóbulo izquierdo tiroideo. Se adiciona al manejo dexametasona 0.6 mg/kg/día por tres días. La ultrasonografía reporta lo siguiente: lóbulo tiroideo izquierdo de 16 × 13 × 36 mm con una colección de 10 × 20 × 8 mm adyacente que comunica con el plano subcutáneo, lóbulo tiroideo derecho de 8 × 9 × 13 mm y conglomerados ganglionares adyacentes. Se adiciona al manejo con ceftriaxona. La paciente es valorada por cirugía de cabeza y cuello, que realiza una microlaringoscopia diagnóstica, que identifica un seno piriforme izquierdo sin identificar la fístula. Se realiza una lobectomía tiroidea superior izquierda, con evidencia de material caseoso sin aislamiento bacteriano en el cultivo. Durante la hospitalización se presenta nuevamente un aumento progresivo de la masa, por lo que se realiza una ecografía, que reporta una nueva colección. Se realiza un procedimiento quirúrgico y se encuentra líquido serohemático. Se envían muestras de tejido para cultivos y tinciones para *Mycobacterium tuberculosis*, que resultan negativos. Además, la radiografía de tórax,

la prueba de tuberculina y la baciloscopia seriada de esputo son negativas para micobacterias. Los estudios para histiocitosis también resultan negativos. A los 29 días se realiza un control de la función tiroidea, que reporta un aumento en TSH y una disminución de T4 libre respecto a los valores previos (TSH: 5.37 mUI/ml [VR: 0.5-4] y T4 libre: 0.93 ng/dl [VR: 0.8-1.9]), por lo que se considera hipotiroidismo subclínico y se inicia la suplencia con levotiroxina (50 µg/m<sup>2</sup>/día). Finalmente, el reporte de patología informa de tejido compatible con remanente del aparato branquial-seno piriforme (Fig. 1).

Se administra un antibiótico por tres semanas, con mejoría completa de los síntomas. El control clínico y los valores de TSH y T4 libre se normalizan, pero no es posible realizar un control de las pruebas tiroideas después de la suspensión de la suplencia hormonal.

## DISCUSIÓN

La tiroiditis supurativa aguda es infrecuente en niños, y aún lo es más la progresión a absceso. Ante la presencia de esta enfermedad, se deben identificar factores predisponentes como enfermedad tiroidea previa, pacientes con inmunosupresión por VIH, neoplasias subyacentes y anomalías

congénitas como fístula del seno piriforme a partir de remanentes del aparato branquial<sup>3</sup>. En su serie de casos, Céspedes, et al., en Colombia, mostraron pacientes previamente sanos que debutaron con un cuadro viral y sólo en uno de los cinco casos se logró identificar como factor predisponente la fístula del seno piriforme<sup>5</sup>.

Las anomalías del segundo arco branquial son las más frecuentes; las del tercer y cuarto arcos son raras, y generalmente se presentan como senos o fístulas incompletas del seno piriforme, que discurren sobre el músculo cricotiroideo y el lóbulo de la glándula tiroidea para terminar en el cuello<sup>7</sup>. Se manifiestan clínicamente como masas cervicales o tiroideas recurrentes durante la primera década de la vida o en la adolescencia; involucran el espacio profundo del cuello o como tiroiditis supurativa aguda, generalmente del lado izquierdo, al ser éste el sitio de desembocadura de la fístula<sup>4,7,8</sup>. Dentro de los síntomas, puede presentarse fiebre, disfagia, dolor cervical y supuración por la presencia de fístula cervical, como reportaron Parida, et al. en una serie de 17 casos donde el 100% se manifestó con absceso tiroideo recurrente y en el 58.8% había fístula, dos de los hallazgos encontrados en nuestro caso<sup>3</sup>. También puede presentarse una alteración en las pruebas de función tiroidea inicialmente mimetizando estados hipertiroideos, como ocurrió en dos de los casos reportados por Céspedes, et al., manejados con propanolol, con resolución de síntomas y mejoría de función tiroidea al resolver la infección. En otros casos se ha descrito la presentación de hipertiroidismo por la inflamación y destrucción de los folículos tiroideos y su liberación a la circulación, o finalmente hipotiroidismo por la inflamación y fibrosis requiriendo suplencia hormonal<sup>5</sup>.

El ultrasonido es el examen de elección. Permite distinguir entre masas sólidas y quísticas, pero está limitado para la evaluación de las estructuras profundas del cuello, y puede haber confusión para hacer un diagnóstico etiológico preciso. Para el diagnóstico de fístula del seno piriforme el estudio con bario, la faringoscopia telescópica y la tomografía computarizada son los estudios más útiles de acuerdo a la experiencia del médico especialista<sup>9</sup>. Parida, et al. lograron confirmar en el 100% de los

casos la presencia de fístula del seno piriforme, en uno de ellos por el estudio con bario y en el resto por faringoscopia asociada al estudio de bario<sup>3</sup>.

Los gérmenes comúnmente aislados son cocos grampositivos como *Staphylococcus aureus*, *epidermidis* y *Streptococcus viridans*, *pyogenes* y *pneumoniae*. También se han reportado, pero en menor frecuencia, infecciones por gramnegativos, anaerobios en el contexto de infecciones polimicrobianas, virus e incluso micobacterias en pacientes inmunocomprometidos<sup>5</sup>. Por lo tanto, el manejo antibiótico de amplio espectro es adecuado hasta la resolución de la inflamación y supuración para continuar con el manejo quirúrgico, el cual consiste en la escisión del tracto fistuloso y la hemitiroidectomía<sup>3</sup>. La dexametasona se usa en casos de tiroiditis en general por su efecto inmunomodulador y para el manejo del dolor y la inflamación. Además, en casos de hipertiroidismo los corticoides son útiles por disminuir la conversión periférica de T4 a T3<sup>10-12</sup>. En los casos de tiroiditis bacteriana su uso puede ser discutible. En nuestro caso se indicaron para el manejo del dolor y la inflamación local, ya que no fue posible su manejo con analgésicos no esteroideos.

El seguimiento posterior al manejo debe realizarse hasta varios años después por la posibilidad de recurrencia. Además, la infección puede producir hipotiroidismo tardío y se deben vigilar además las complicaciones quirúrgicas, como parálisis temporal de las cuerdas vocales y fístula salival. En nuestro caso la paciente presentó un hipotiroidismo subclínico, como reportaron Nicoucar, et al., y requirió suplencia con levotiroxina. Con la normalización de las pruebas fue posible suspender el medicamento. Se solicitó un control clínico y de la función tiroidea para determinar la necesidad de suplencia a largo plazo, pero no fue posible realizar este seguimiento (Fig. 2)<sup>3,12</sup>.

## CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran la no existencia de conflicto de intereses en la realización de la presente publicación.

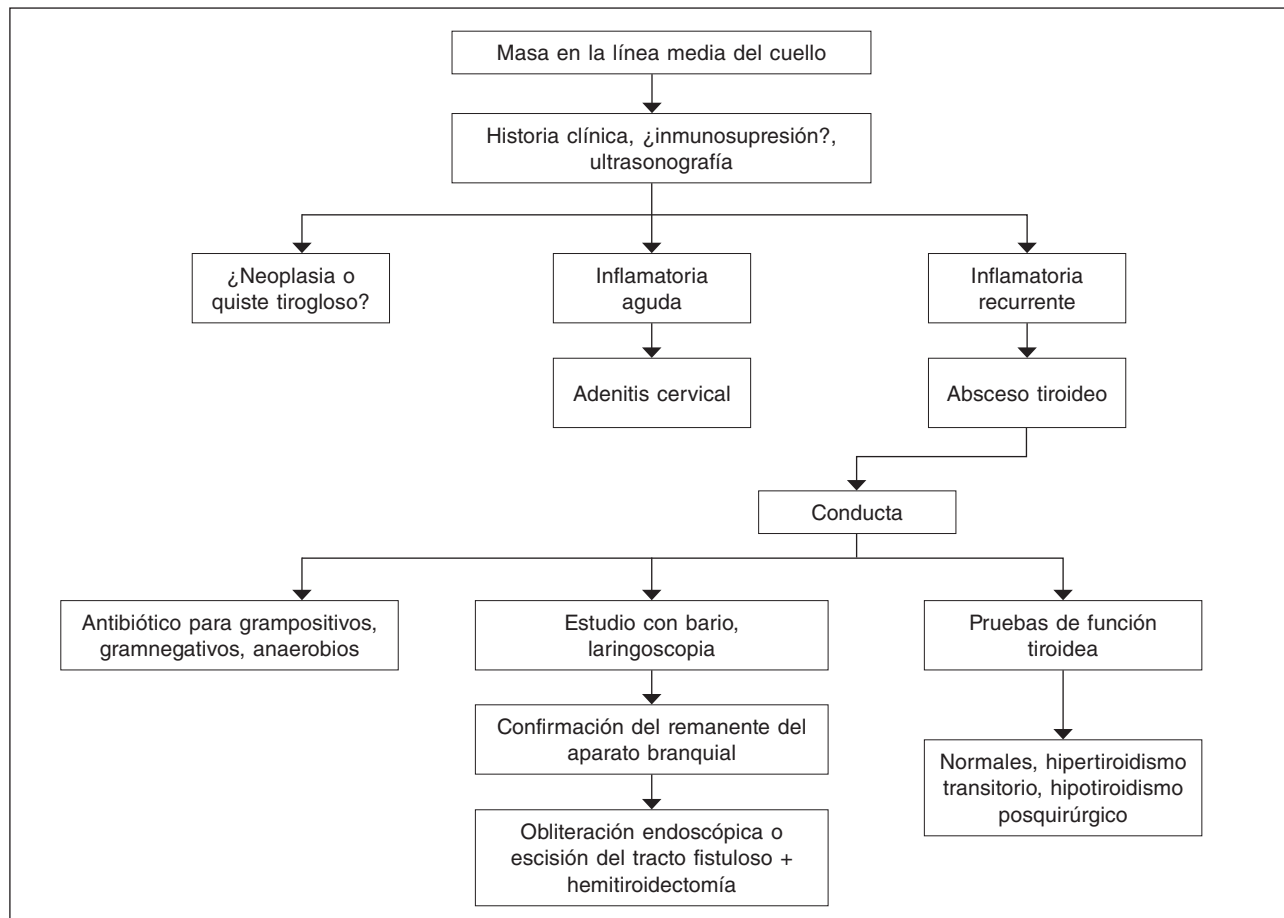


Figura 2. Abordaje de los pacientes con masa en la línea media del cuello y absceso tiroideo.

## BIBLIOGRAFÍA

- Goins MR, Beasley MS. Pediatric Neck Masses. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2012;24(3):457-68.
- Meier J, Grimmer F. Evaluation and management of neck masses in children. *Am Fam Physician.* 2014;89(5):353-8.
- Parida PK, Gopalakrishnan S, Saxena SK. Pediatric recurrent acute suppurative thyroiditis of third branchial arch origin--our experience in 17 cases. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2014;78(11):1953-57.
- Al-Dajani N, Wootton SH. Cervical lymphadenitis, suppurative parotitis, thyroiditis, and infected cysts. *Infect Dis Clin North Am.* 2007;21(2):523-41, viii.
- Céspedes C, Duran P, Uribe C, Chahín S, Lema A, Coll M. Thyroid abscess. A case series and literature review. *Endocrinol Nutr.* 2013;60(4):190-6.
- García B, O'Brien SA, Villanueva AE, Otero J, Parra RR. Anomalías congénitas del aparato branquial: estudio de imágenes. *Rev Chil Radiol.* 2007;13(3):147-53.
- Madana J, Yolmo D, Kalaiarasi R, Gopalakrishnan S, Saxena SK, Krishnapriya S. Recurrent neck infection with branchial arch fistula in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2011;75(9):1181-5.
- Contreras M, Contreras J, Reyes E, Paredes A. Anomalías en el desarrollo del cuarto aparato faríngeo como causa de infecciones profundas del cuello recidivantes. *Rev Otorrinolaringol Cir Cabeza Cuello.* 2006;66(3):199-205.
- Stern JS, Ginat DT, Nicholas JL, Ryan ME. Imaging of pediatric head and neck masses. *Otolaryngol Clin North Am.* 2015;48(1):225-46.
- Carroll R, Matfin G. Endocrine and metabolic emergencies: thyroid storm. *Ther Adv Endocrinol Metab.* 2010;1(3):139-45.
- Okosieme O, Parkes A, Premawardhana L, Thomas A, Evans L, Lazarus J. Peripheral cytokine expression in autoimmune thyroiditis: Effects of in vitro modulation by rosiglitazone and dexamethasone. *Thyroid.* 2006;16(10):953-60.
- Nicoucar K, Giger R, Pope H, Jaecklin T, Dulguerov P. Management of congenital fourth branchial arch anomalies: a review and analysis of published cases. *J Pediatr Surg.* 2009;44(7):1432-9.