

# LES KYSTES DU TRACTUS THYRÉOGLOSSE DE L'ADULTE :

## PARTICULARITÉS CLINIQUES ET THÉRAPEUTIQUES

BOUATAY R (1), BHAR S (1), BOUAZIZ N (1), EL KORBI A (1), FERJAOUI M (1), KOLSI N (1), HARRATHI K (1), KOUBAA J (1)

**RÉSUMÉ :** Les kystes du tractus thyroïdienne (KTT) sont des malformations cervicales congénitales rares chez l'adulte, exposant à deux risques majeurs : l'infection et la dégénérescence maligne. **Objectifs :** Établir les aspects cliniques, thérapeutiques et évolutifs des KTT chez l'adulte. **Patients et méthodes :** étude rétrospective à propos de 61 patients âgés de plus de 18 ans, opérés pour KTT dans notre département. **Résultats :** L'âge moyen était de 33,7 ans avec un sex ratio H/F de 1,10. Les circonstances de découverte étaient dominées par une tuméfaction cervicale médiane chez 53 patients (86,9 %). La tuméfaction était médiane dans 28 cas et siégeant en ad-hyoïdien dans 32 cas. L'échographie cervicale a confirmé le diagnostic de KTT chez tous les patients. Une TDM a été réalisée chez 15 patients. L'exérèse chirurgicale selon la méthode de Sistrunk a été pratiquée chez tous les patients. Trois patients ont présenté un KTT dégénéré nécessitant une thyroïdectomie totale et un curage central, suivis d'une irathérapie. **Conclusion :** La TDM garde des indications devant un KTT chez l'adulte. Le traitement est chirurgical afin d'éviter le risque de dégénérescence, complication spécifique à cette tranche d'âge.

**MOTS-CLÉS :** Kyste du tractus thyroïdienne - Chirurgie - Récidive - Carcinome papillaire - Imagerie

### THYROGLOSSAL DUCT CYSTS IN ADULT : CLINICAL AND THERAPEUTIC FEATURES

**SUMMARY :** Thyroglossal duct cysts (TDCs) are rare congenital cervical malformations in adults, which expose to two major risks: infection and malignant degeneration which remains the most dreaded complication in adults. **Aims of the study :** This study aims to establish the clinical, management of TDC during adulthood, as well as the evolutionary aspects of these malformations in this age group. **Patients et methods:** This is a retrospective study on 61 adults over 18 years old, undergoing TDC surgery in our department. **Results :** The average age was 33.7 years with a sex ratio M/F of 1.10. The circumstances of discovery were dominated by a median cervical swelling in 53 patients (86,9%). The swelling was median in 28 cases and located in ad-hyoid in 32 cases. Cervical ultrasound confirmed the diagnosis of TDC in all patients. CT scans were performed on 15 patients. Surgical excision according to the Sistrunk method was performed on all patients. Three of our patients have experienced a degenerated TDC requiring total thyroidectomy with central neck dissection, followed by radioactive iodine therapy. **Conclusion :** CT scan keeps indications in adults. The treatment is surgical in order to prevent the risks degeneration, which is specific complication in adulthood.

**KEYWORDS :** Thyroglossal duct cyst - Surgery - Recidivism - Papillary carcinoma - Imaging

## INTRODUCTION

Le kyste du tractus thyroïdienne (KTT) est une malformation congénitale résultant d'un défaut de résorption du tractus thyroïdienne pouvant se former n'importe où le long de la voie de migration de la thyroïde, de la base de la langue vers la région cervicale inférieure.

Les cas rapportés chez l'adulte sont rares. Approximativement 0,6 % des KTT ont été diagnostiqués chez des sujets âgés de plus de 60 ans (1). Cette malformation expose à deux complications majeures chez l'adulte : l'infection et le risque de dégénérescence.

L'objectif de ce travail est de décrire les aspects cliniques des KTT chez l'adulte et d'étudier les particularités de prise en charge thérapeutique et les aspects évolutifs de ces malformations

## PATIENTS ET MÉTHODES

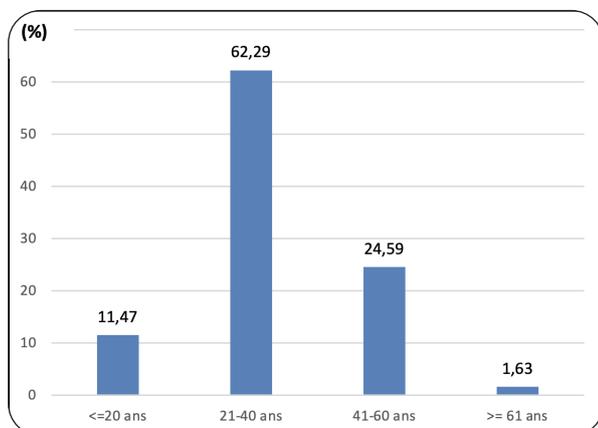
Il s'agit d'une étude rétrospective qui a colligé les patients ayant été opérés d'un KTT dans notre département, sur une période de 14 ans, allant de 2006 jusqu'au 2019. Ont été inclus les patients d'âge supérieur ou égal à 18 ans avec un diagnostic de KTT confirmé à l'histologie définitive et ayant eu au moins un contrôle post-opératoire.

## RÉSULTATS

Soixante et un patients ayant un âge supérieur ou égal à 18 ans ont été opérés d'un KTT sur un total de 192 patients opérés d'un KTT durant la même période, soit une proportion à l'âge adulte de 31,8 %. L'âge moyen des patients était de 33,7 ans, avec des extrêmes allant de 18 à 74 ans. La répartition selon les tranches d'âge (Figure 1) a montré une prédominance de la tranche d'âge comprise entre 21 et 40 ans (soit 62,3 %). L'étude du genre a montré une légère prédominance masculine avec un sex ratio de 1,10.

(1) Service d'ORL et de CCF, CHU Fattouma Bourguiba de Monastir, Tunisie.

**Figure 1.** Répartition des patients selon les tranches d'âge



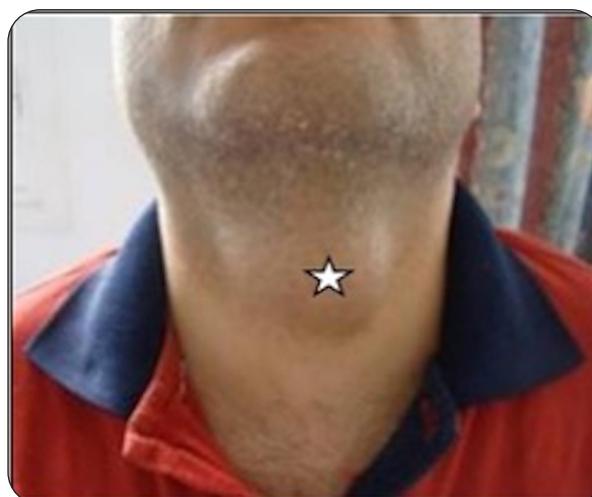
Cinq patients ont été opérés auparavant d'un KTT dans d'autres établissements. Trois patients (soit 4,9 %) avaient des antécédents de dysthyroïdie. Aucun patient n'a présenté un antécédent familial de KTT.

Le délai moyen de consultation était de 19,6 mois. La tuméfaction cervicale antérieure a été la circonstance de découverte du kyste la plus fréquente chez 53 patients (86,8 % des cas). Huit patients présentaient des signes inflammatoires aigus avec fistulisation cutanée du kyste. Quatre patients (6,5 % des cas) ont consulté avec des signes de compression entraînant une dysphonie.

L'examen physique a permis de mettre en évidence une masse cervicale chez 53 patients (86,9 %), et une fistule chez 8 patients (soit 13,1%). La localisation était paramédiane droite dans 20 cas (soit 32,8 %) et paramédiane gauche dans 13 cas (soit 21,3 %). Les kystes étaient majoritairement ad-hyoïdiens (52,5 %) (Figure 2). La taille des kystes était comprise entre 1 et 8,5 cm, avec une taille moyenne de 3,25 cm. Cinq patients présentaient une cicatrice cutanée de chirurgie cervicale antérieure. L'examen des aires ganglionnaires a montré la présence d'adénopathies cervicales chez 3 patients de notre série.

Tous les malades ont eu une échographie cervicale préopératoire, dans le but de confirmer le diagnostic, et de localiser la glande thyroïde afin d'éliminer une ectopie thyroïdienne. Majoritairement, elle a permis de mettre en évidence une image kystique finement échogène (88,5 % des cas) (Figure 3). L'échographie a montré la présence de micro-calcifications au sein des kystes dans 5 cas (soit 8,2 %). Elle a montré aussi la présence d'un canal fistuleux dans 4 cas (soit

**Figure 2.** Tuméfaction cervicale médiane haute ad-hyoïdienne



50 % des patients ayant des fistules). Par ailleurs, l'échographie cervicale a révélé un goitre dans trois cas.

Une tomodensitométrie cervicale a été réalisée chez 15 patients pour les raisons suivantes: la présence à l'échographie de microcalcifications, de cloisons endo-lésionnelles ou d'une paroi épaisse, une taille supérieure à 4 cm chez les patients ayant été opérés auparavant d'un KTT et chez les patients chez qui le diagnostic de KTT dégénéré a été suspecté sur les données échographiques. Chez les trois patients dont le diagnostic de KTT dégénéré a été suspecté, la TDM a montré des lésions tissulaires

**Figure 3.** Échographie cervicale montrant une formation cervicale à contenu liquidien évoquant un KTT



**Figure 4. TDM cervicale**



TDM cervicale en coupe axiale avant (A) et après injection de PDC (B) montrant une formation kystique contenant un nodule pariétal qui est rehaussé après injection de produit de contraste évoquant le diagnostic d'un KTT dégénéré.

mal limitées avec des micro-calcifications au sein de formations qui se rehaussent après injection de Gadolinium (Figure 4).

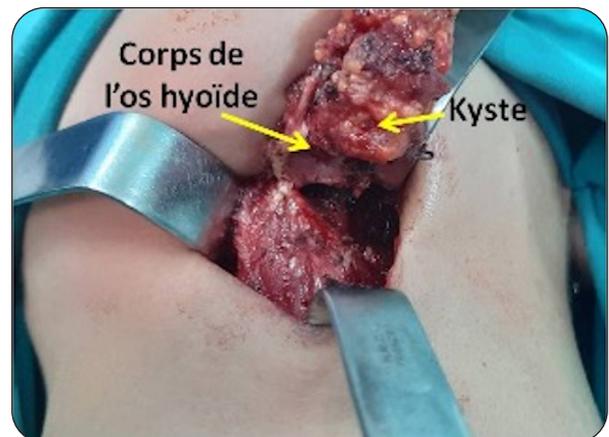
La cytoponction à l'aiguille fine a été pratiquée chez 4 patients. Elle a montré, dans 3 cas, un produit riche en éléments inflammatoires variés cadrant avec le contenu d'un KTT simple et dans un cas, un produit pauci-cellulaire comportant des thyrocytes atypiques chez le patient dont le diagnostic d'un KTT dégénéré a été suspecté.

Les patients ayant un kyste surinfecté (4 cas) et des fistules surinfectées (8 patients) ont reçu un traitement antibiotique à base d'amoxicilline-acide clavulanique pendant une semaine. Le traitement chirurgical a été programmé au moins un mois à distance de l'épisode infectieux.

Tous les patients ont eu une intervention chirurgicale de cervicotomie selon la technique de Sistrunk (Figure 5) comportant la dissection du kyste et/ou du trajet fistuleux ou du cordon, l'exérèse systématique du corps de l'os hyoïde et d'une collerette à la base de la langue et/ou la réalisation d'un point en X à ce niveau. Nous avons procédé à une thyroïdectomie totale chez les trois patients dont le diagnostic anatomopathologique a confirmé une dégénérescence maligne. Un curage ganglionnaire médiastino-récurrentiel bilatéral ainsi qu'un curage jugulo-carotidien fonctionnel bilatéral emportant les groupes II, III, IV, V ont été réalisés chez ces trois patients.

L'examen anatomopathologique extemporané a été demandé chez 6 patients, objectivant un KTT dégénéré chez deux patients. Toutes les pièces opératoires ont fait l'objet d'un examen

**Figure 5. Photo per-opératoire montrant la résection du kyste avec le corps de l'os hyoïde**



histopathologique systématique. Les résultats de cet examen ont confirmé la nature bénigne du kyste dans 58 cas tandis que trois cas de carcinome papillaire ont été observés. Aucun cas de métastase ganglionnaire n'a été noté. Un traitement complémentaire par Iode radioactif et hormonothérapie frénatrice a été entrepris chez les trois patients ayant un KTT dégénéré.

L'évolution a été majoritairement favorable avec, dans un seul cas, une infection du site opératoire qui a bien évolué sous traitement antibiotique et, dans un autre seul cas, un hématome en postopératoire immédiat ayant nécessité un drainage. Aucun patient dans notre série n'a présenté une récurrence. Chez les patients ayant un KTT dégénéré, l'évolution a été marquée par une rémission complète dans les 3 cas.

## DISCUSSION

La fréquence de développement de KTT selon l'âge reste difficile à préciser. Ainsi, certaines études se sont basées sur l'âge d'apparition des symptômes alors que d'autres ont rapporté l'âge au moment du diagnostic initial. Bien que les KTT aient été signalés principalement dans la population pédiatrique, il semble y avoir une distribution bimodale mentionnée dans des études sur toutes les tranches d'âge (enfants et adultes) : 1<sup>ère</sup> et 5<sup>ème</sup> décennies (2). Selon nos résultats, l'âge moyen des participants était de 33,7 ans avec une prédominance de la tranche d'âge entre 21 et 40 ans. La répartition des patients selon le genre est controversée. Dans notre étude, nous avons noté une légère prédominance masculine avec un sex-ratio de 1,1. Ce résultat concorde avec ceux de la littérature (3).

La présence d'un antécédent familial pourrait être un facteur de risque de développement d'un KTT. La formation des kystes du tractus ne semble pas avoir une origine génétique, cependant plusieurs cas de formes familiales ont été décrits. La transmission se fait selon un mode autosomique très probablement à prédominance incomplète (4). Dans notre étude, aucun patient n'a présenté un antécédent familial de KTT.

La tuméfaction cervicale était le signe de découverte de la maladie le plus fréquemment rapporté. Plus exceptionnellement, la surinfection, prélude à une fistulisation, et la tuméfaction fistulisée douloureuse et fébrile pourraient représenter des motifs de consultation du KTT (5). Dans d'autres cas, le KTT peut se manifester par une gêne à la déglutition (6), et/ou parfois, par l'apparition d'une détresse respiratoire aiguë (7). Ceci est l'apanage des localisations de la base de langue.

Le diagnostic des KTT est clinique. En pratique cependant, une confirmation diagnostique s'impose, l'échographie constitue alors l'examen de référence (8). Elle permet, d'une part, de confirmer la nature kystique de la tuméfaction, de vérifier la présence de la glande thyroïde, d'éliminer d'autres diagnostics différentiels tels que le kyste épidermique, une thyroïde ectopique ou une adénopathie. D'autre part, elle permet aussi de rechercher des signes évocateurs de dégénérescence. En effet, pour certains auteurs (9), un kyste qui présente à l'échographie une alternance de zones homogènes et hétérogènes associées à des calcifications, avec des signes d'envahissement de la paroi, signe une dégénérescence. Ceci a été observé dans notre série.

Dans ces différents cas, la tomodensitométrie et l'IRM trouvent leur intérêt. De plus, ces examens d'imagerie peuvent être demandés face à des formes aberrantes de KTT à expression clinique atypique, des localisations inhabituelles à la base de la langue, des formes récidivantes, en cas d'extension endolaryngée et devant des signes de compression (10). Dans notre étude réalisée en Tunisie, seulement quinze patients ont eu une TDM cervicale. Chez trois patients, la TDM a mis en évidence des signes de dégénérescence maligne. Aucun patient de notre série n'a eu une IRM. La place en préopératoire reste controversée. Pour certains auteurs, elle ne semble pas d'un grand intérêt pour la prise en charge thérapeutique des KTT (11). Elle peut être réalisée en préopératoire en cas de suspicion clinique ou radiologique de cancérisation. Outre les limites qui lui sont propres, et qui sont le risque d'infection et de la fistulisation, la cytoponction peut être faussement rassurante en ramenant des cellules épithéliales de revêtement alors que coexistent des cellules thyroïdiennes malignes. Nous avons eu recours à la cytoponction uniquement dans quatre cas.

Le traitement des KTT est chirurgical. Plusieurs techniques ont été décrites, mais la technique décrite par Sistrunk en 1920 reste la technique de référence avec un taux de rechute inférieur à 3 % (12). Dans notre série, tous les patients ont été opérés selon la technique de Sistrunk qui consiste en l'exérèse en monobloc du kyste, du corps de l'os hyoïde et du tractus fibreux jusqu'à son origine linguale. Toutes nos pièces opératoires ont été adressées pour examen anatomopathologique. L'examen anatomopathologique permet de confirmer le diagnostic, de rechercher le type histologique de l'épithélium bordant le KTT et de rechercher des signes de dégénérescence maligne.

Les KTT sont majoritairement bénins, mais 1 % d'entre eux peuvent dégénérer (13). Le carcinome sur KTT touche surtout les sujets appartenant aux intervalles de 30 à 40 ans et de 40 à 50 ans (13, 14) ce qui concorde avec notre série. Le carcinome papillaire constitue la forme la plus fréquemment observée (8, 15), comme dans notre série. Sa prise en charge obéit aux règles de chirurgie carcinologique, pour la plupart des auteurs (16, 17). L'exérèse du kyste dégénéré selon la technique de Sistrunk associée à une thyroïdectomie totale avec curage ganglionnaire du territoire VI sont indiquées, suivies d'une irathérapie.

Dans notre étude, cinq patients (soit 8,1%) ont été opérés précédemment pour KTT. Les récidives sont le véritable problème de la chirurgie des KTT. La récurrence du kyste thyroïdienne

est fréquente et dépend principalement du type de chirurgie et de l'exérèse incomplète du KTT. En effet, en cas d'une simple incision et drainage, les kystes récidivent dans 100 % des cas. Dans une étude rétrospective avec un grand échantillon de 207 patients, le taux de récurrence globale était de 9,7 %. Une différence significative a été notée entre les types d'actes chirurgicaux : l'opération selon la méthode de Sistrunk avait un taux de récurrence de 5,3 %, ce qui était inférieur à celui de l'excision simple associée à un taux de récurrence estimé à 55,6 % (18). Cependant, il existe d'autres facteurs de risque qui pourraient augmenter le risque de récurrence tels que la rupture du kyste, l'infection pré-opératoire, l'expertise du chirurgien, la persistance de vestiges du tractus infra- ou supra-hyoïdien et un diagnostic erroné de KTT (19, 20).

## CONCLUSION

Le KTT est une pathologie rare chez l'adulte. Sa découverte tardive est corrélée à un risque de cancérisation. L'échographie qui reste l'examen diagnostique de choix doit avoir une valeur prédictive en recherchant des signes de cancérisation associés. Le traitement de cette pathologie repose sur l'intervention de Sistrunk qui est la technique chirurgicale de référence. L'examen anatomopathologique doit être systématique chez tous les patients pour écarter l'éventualité d'un carcinome associé ou d'une dégénérescence. Sur le plan histologique, la forme papillaire est la plus répandue. L'attitude de notre équipe devant un KTT cancérisé a été de réaliser un complément par une thyroïdectomie totale avec curage médiastino-récurrentiel bilatéral, suivie d'un complément par iode radioactif et hormonothérapie frénatrice.

## BIBLIOGRAPHIE

- Mondin V, Ferlito A, Muzzi E, et al. Thyroglossal duct cyst: personal experience and literature review. *Auris Nasus Larynx* 2008;**35**:11-25.
- Ren W, Zhi K, Zhao L, Gao L. Presentations and management of thyroglossal duct cyst in children versus adults: a review of 106 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2011;**111**:e1-6.
- Hsieh YY, Hsueh S, Hsueh C, et al. Pathological analysis of congenital cervical cysts in children: 20 years of experience at Chang Gung Memorial Hospital. *Chang Gung Med J* 2003;**26**:107-13.
- Türkyilmaz Z, Sönmez K, Karabulut R, et al. Management of thyroglossal duct cysts in children. *Pediatr Int* 2004;**46**:77-80.
- Purdom E, Robitschek J, Littlefield PD, Cable B. Acute airway obstruction from a thyroglossal duct cyst. *Otolaryngol-Head Neck Surg* 2007;**136**:317-8.
- Belnoue AI, Poupard M, Pignat JC. Intérêt de la thyroïdectomie dans la prise en charge des kystes du tractus thyroïdologique dégénérés. *Ann Chir* 2004;**129**:523-5.
- Blanc F, Blanchet C, Mondain M, Akkari M. Plaie trachéale compliquant une chirurgie d'un kyste du tractus thyroïdologique selon Sistrunk. *EMC* 2020;**137**:129-31.
- Brousseau VJ, Solares CA, Xu M, et al. Thyroglossal duct cysts: presentation and management in children versus adults. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;**67**:1285-90.
- Smiti S, Mahmood NS. Papillary carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst. *Indian J Radiol Imaging* 2009;**19**:120-2.
- Jung HJ, Kim JW, Lee CH, et al. A Thyroglossal duct cyst causing obstructive sleep apnea in adult. *Clin Exp Otorhinolaryngol* 2013;**6**:187-90.
- Lee DH, Yoon TM, Lee JK, Lim SC. Is fine needle aspiration cytology appropriate for preoperatively diagnosing thyroglossal duct cysts in children under the age of 10 years? *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2012;**76**:480-2.
- Righini CA, Hitter A, Rey E, Attalah I. Chirurgie du tractus thyroïdologique. Technique de Sistrunk. *Ann Fr Oto-Rhino-Laryngol Pathol Cerv-Faciale* 2016;**133**:120-3.
- Philip G, Suresh M, Ramiesh BT, Rajiv CM. Management of the thyroid gland in papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst: a case report. *JNMA J Nepal Med Assoc* 2020;**58**:497-500.
- McNamara K, Olaleye O, Smith J, et al. A rare case of a concurrent large thyroglossal duct cyst with a base of tongue haemangioma. *BMJ Case Rep* 2011;**2011**:bcr1020103393.
- El Bakkouri W, Racy E, Vereecke A, et al. Carcinome épidermoïde sur kyste du tractus thyroïdologique. *EMC* 2004;**121**:303-5.
- Patel SG, Escrig M, Shaha AR, et al. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst. *J Surg Oncol* 2002;**79**:134-9.
- Miccoli P, Minuto MN, Galleri D, et al. Extent of surgery in thyroglossal duct carcinoma: reflections on a series of eighteen cases. *Thyroid* 2004;**14**:121-3.
- Zhu YY, Wang CG, Li WY, et al. Papillary thyroglossal duct carcinoma: report of nine cases and review of literature. *Int J Clin Exp Pathol* 2017;**10**:10102-11.
- Lin YH, Hsiao JR. The evolving concepts in treating thyroglossal duct cyst. *Int J Head Neck Sci* 2017;**1**:231-4.
- Taimisto I, Mäkitie A, Arola J, Klockars T. Thyroglossal duct cyst: patient demographics and surgical outcome of 159 primary operations. *Clin Otolaryngol* 2015;**40**:496-9.

Les demandes de tirés à part doivent être adressées au Dr Bouattay R, Service d'ORL et de CCF, CHU Fattouma Bourguiba de Monastir, Tunisie.  
Email : rbouattay@yahoo.fr