

Kasno javljanje obostrane branhijalne ciste vrata

Late presentation bilateral branchial cysts of the neck

Stjepan Grabovac^{1*}, Đurđica Grabovac², Goranka Rafaj², Jasna Begić³, Vesna Malčić Dalipi¹

Sažetak. Cilj: Prikazati rijedak klinički entitet kasnog javljanja obostranih branhijalnih cista vrata. Branhijalne ciste najčešće su cistične tvorbe koje se javljaju na vratu. Pitanje njihovog nastanka još je uvijek otvoreno, iako se većina stručnjaka slaže da su branhijalnog podrijetla. Većina ih se dijagnosticira do trećeg desetljeća života. Klinički se javljaju kao bezbolni otok u gornjem dijelu vrata. Češće su kod muškaraca, većinom su jednostrane i češće lokalizirane na lijevoj strani vrata. **Prikaz slučaja:** U radu smo prikazali slučaj relativno kasnog, obostranog javljanja branhijalnih cista vrata kod 55-godišnjeg muškarca. Ciste imponiraju veličinom, a obje su se javile gotovo istovremeno, bez ikakvih ranijih manifestacija. **Zaključak:** Nakon dijagnostičke obrade učinjena je ekscizija lijeve ciste, a mjesec dana kasnije i desne ciste vrata. Patohistološki nalaz potvrdio je da se radilo o branhijalnim cistama.

Ključne riječi: branhijalne ciste

Abstract. Aim: To report a rare entity of late presentation of bilateral branchial cysts of the neck. Branchial cysts are most often cystic masses that are located on the neck. The question of their appearance is still open, although majority of experts agree that they are of branchial origin. Majority of them are diagnosed until the third decade of life. Clinically they appear as painless swelling in the upper part of the neck. They are found more on men, they are mostly one-sided and on the left side of the neck. **Case report:** The paper describes a relatively late, both-sided appearance of branchial cysts of the neck of 55-year old man. The cysts are impressive in their size and both of them appeared almost at the same time without any earlier signs. **Conclusion:** After the diagnostic treatment, one month after the first excision the left side cyst, we performed the excision of the right side cyst. Pathological findings confirmed that they were branchial cysts.

Key words: branchial cysts

¹Služba kirurških djelatnosti, Odjel otorinolaringologije, Opća bolnica Bjelovar, Bjelovar

²Visoka tehnička škola Bjelovar, Studij sestrištva, Bjelovar

³Odjel patologije, Opća bolnica Bjelovar, Bjelovar

***Dopisni autor:**

Prim. dr. sc. Stjepan Grabovac, dr. med.
Služba kirurških djelatnosti, Odjel
otorinolaringologije
Opća bolnica Bjelovar
Mihanovićevo 8, 43 000 Bjelovar
e-mail: stjepan.grabovac@obbj.hr

<http://hrcak.srce.hr/medicina>

UVOD

Branhijalne ciste vrata su zatvorene šupljine ispunjene tekućim ili kašastim sadržajem, proizvodom aktivnog epitela koji oblaže unutrašnjost ciste. Najčešće su jednostrane, oblikom okruglaste do kruškolike. Mogu se sastojati od jedne ili više šupljina. Palpatorno su elastične, bezbolne i pomične prema podlozi, dok je koža koja ih pokriva nepromijenjena. Rastom mogu doseći velike dimenzije. Najčešće se otkriju u ranim godinama

Opisana je pojava obostranih branhijalnih cista vrata Tipa 2 kod muškarca starije životne dobi. Objasnjenju njihova nastanka najbliža je inkluzijska teorija koja uporište ima i u patohistološkoj slici, gdje se uz epitel nalaze i nakupine limfoidnog tkiva. Obostrana pojava branhijalnih cista vrata iznosi 2 – 3 % svih cista. Njihovo javljanje u starijoj dobi je rijetkost. Prvenstveno treba isključiti mogućnost pojave cističnih metastaza planocelularnog karcinoma.

života, pri čemu se stanovita granica za njihovo dijagnosticiranje kreće oko 15. godine života. U rijetkim slučajevima otkriju se i kasnije, tako da su opisani slučajevi lateralnih cista vrata kod ljudi preko 60 pa čak i 80 godina života¹⁻⁸.

Poznato je da se u 3. do 4. tjednu embrionalnog razvoja pojave škržni lukovi, a nepravilno spajanje i odsutnost obliterativnih procesa uzrokuje nastanak cista. Uočeno je da postoji i nasljedno opterećenje u njihovu nastanka, kao i mogućnost istovremenog postojanja i drugih razvojnih anomalija, pri čemu su oba roditelja jednako zastupljena⁹⁻¹³. Branhijalne ciste vrata najčešće se pojavljuju u predjelu angulusa mandibule, bočne strane grla ili u visini sternoklavikularnog zgloba. S obzirom na sijelo, može ih se svrstati u nekoliko skupina:

- Tip 1, površne ciste uz prednji rub sternokleidomastoidnog mišića
- Tip 2, ciste koje se nalaze između velikih krvnih žila vrata
- Tip 3, ciste u dubokom sloju vrata, medijalno od račvišta karotide
- Tip 4, ciste koje su u direktnom dodiru sa ždrijelom.

Najčešće su ciste Tipa 2, koje su u odnosu s velikim krvnim žilama¹⁻⁹. Histološki stijenka ciste građena je od rahlog vezivnog tkiva u koje kao posljedica heterotipije ili metaplazije mogu biti uklopljeni elementi hrskavičnog, koštanog ili žlijezdnog tkiva, što ima veliko diferencijalno dijagnostičko značenje¹⁻⁴.

Dijagnoza je često jasna već na osnovi anamneze i kliničkog pregleda, koju ultrazvuk vrata i citološka punkcija samo potvrđuju. Kod većih cista, pogotovu ako su dublje smještene ili su bile inflamirane, preporučuje se kompjutorizirana tomografija ili magnetska rezonancija kako bi se razjasnio odnos prema drugim vitalnim strukturama u vratu, poglavito velikim krvnim žilama. Liječenje lateralnih cista vrata isključivo je kirurško. Operaciju je najbolje učiniti prije negoli dođe do infekcije ciste jer je tada njeno odstranjenje puno teže zbog tješnjeg kontakta s okolnim tkivom. Ako pri kirurškom zahvatu nije došlo do trganja ciste i stijenka joj je u cijelosti odstranjena, recidiva nema¹⁻⁸.

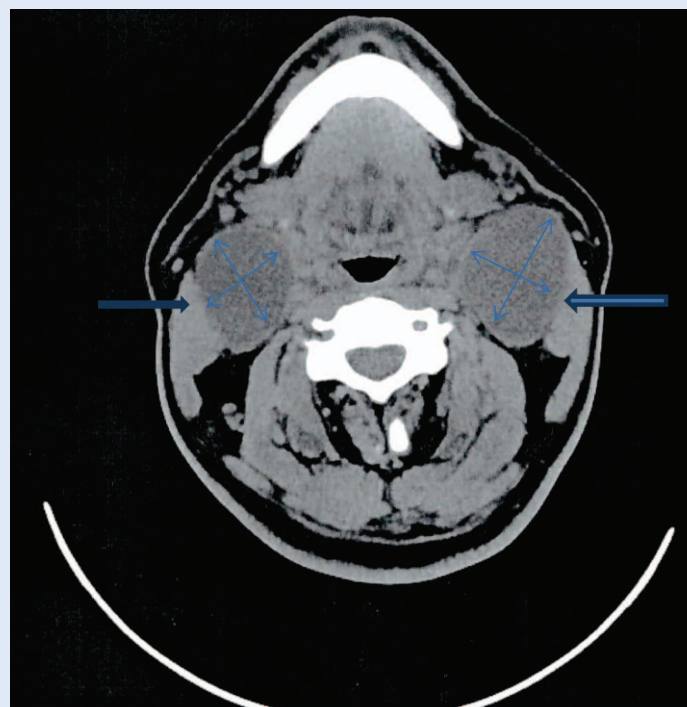
PRIKAZ SLUČAJA

Muškarac star 55 godina javio se u otorinolaringološku ambulantu zbog obostranog bezbolnog otoka gornjeg dijela vrata koji primjećuje unatrag dva mjeseca. Prvo se pojavio otok na desnoj strani vrata a potom i na lijevoj koji je kasnije bio izraženiji. Osim stezanja u vratu, pri gutanju je osjećao kao da nešto ima u ustima. Ne pije i ne puši. Da tada nije teže bolovao, alergije nema. Klinički na lijevoj strani vrata u regiji II-III bila je vidljiva tvorba oko 5 centimetara u dužem promjeru, na opip tvrda, slabije pomična i bezbolna, dok je desno bila tvorba sličnih karakteristika ali nešto manja (slika 1).

Orofaringoskopski obje tonzile bile su kronično promijenjene, a lijeva tonzila i uvula bile su blago pomaknute udesno. Endoskopski u epifarinksu bilo je dosta limfatičnog tkiva oko ušća tuba. Učinjena je kompjutorizirana tomografija vrata, gdje se u orofarinksu nađe dekstroponirana uvula uz voluminozniju lijevu tonzilu, ali bez patološke opacifikacije. U području gornjeg dijela lateralnih regija vrata, gotovo simetrično, vidljive su velike cistične lezije, oštih kontura, tankih stijenki koje se nalaze lateralno od karotidnog prostora ispred sternokleidomastoidnog mišića.



Slika 1. Strjelice pokazuju obostrani otok vrata



Slika 2. Snimka kompjutorizirane tomografije vrata, strjelice pokazuju dobro ograničene, gotovo simetrične cistične tvorbe.

Nakon intravenske aplikacije kontrastnog sredstva nema znakova imbibicije niti eventualnog solidnog tkiva unutar cističnog sadržaja.

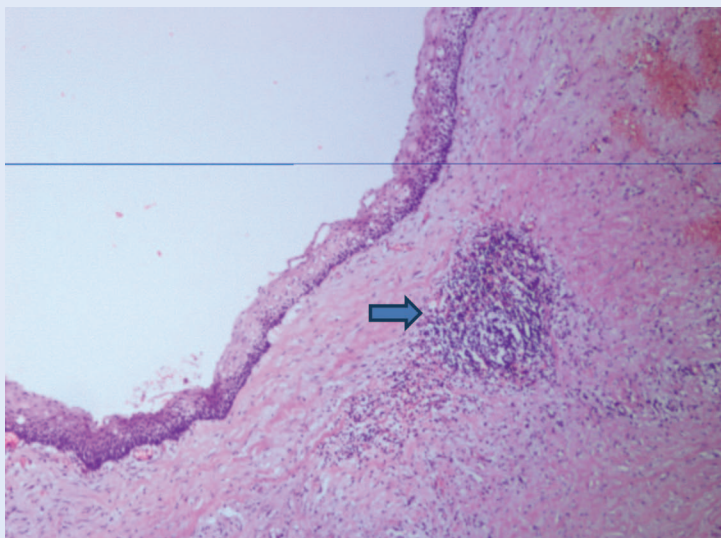
Cistične tvorbe pomiču velike krvne žile vrata, blaže ih imprimiraju, ali ne infiltriraju. Veličina desne ciste je laterolateralno oko 3,3 cm, kranio-kaudalno 4,6 cm, anteroposteriorno 4,5 cm. Lijeva cista laterolateralno 3,6 cm, kranio-kaudalno 5,4 cm, anteroposteriorno 4,5 cm (slika 2). Citološki se u obje lezije uz stanični detritus i upalne stanice nađe obilno stanica pločastog epitela bez jasnih morfoloških atipija te se s obzirom na kliničku prezentaciju i nalaz kompjutorizirane tomografije posumnja na obostrane branhijalne ciste. Nakon prijeoperacijske obrade učinjena je ekstripcija prvo lijeve ciste koja je bila veća, a mjesec dana kasnije i desne. Kako su obje tvorbe bile velike i slabije pomične, da bismo ih mobilizirali punkcijom djelomično smo ispraznili njihov sadržaj.

Poslijeoperacijski tijek protekao je uredno. Patohistološki se nađe stijenka ciste obložena višeslojnim pločastim epitelom ispod kojeg se nalazi limfatično tkivo koje mjestimice stvara limfatične folikule (slika 3). U praćenju pacijenta kroz tri godine nije se pojavio recidiv.

Dijagnozu uz klinički pregled u najvećem broju slučajeva potvrđuje ultrazvuk i citološka punkcija. Liječenje je isključivo operacijsko. Kod operacije velikih cista pomaže intraoperacijsko ispražnjenje dijela cističnog sadržaja punkcijom.

RASPRAVA

Branhijalne ciste najčešće se klinički javljaju kao bezbolan otok u gornjem dijelu vrata. Prema nekim autorima nešto češće se javljaju kod muškog spola i to na lijevoj strani vrata, dok drugi smatraju da ne postoji niti spolna niti dobna pripadnost¹⁻⁸. Podrijetlo njihova nastanka do danas nije potpuno razjašnjeno, iako prevladava nekoliko teorija. Prema embriološkoj teoriji one mogu predstavljati ostatke faringealne vreće i škržnih lukova ili su posljedica spajanja tih dvaju elemenata, što se odvija između drugog do devetog tjedna embriološkog razvoja. Alternativne teorije uključuju ostatke cervikalnog sinusa, gdje drugi škržni luk urasta prema dolje preko trećeg i četvrtog škržnog luka. Timofaringelana teorija govori da je cista ostatak timofaringealnog duktusa, što



Slika 3. Prikaz dijela stijenke ciste, obložen višeslojnopločastim epitelom ispod kojeg se vidi nakupina limfoidnog tkiva (strjelica), HE x40

je manje uvjerljivo. Zagovornici inkluzijske teorije polaze sa stajališta da ciste nastaju urastanjem pločastog epitela u limfni čvor. Većina cista ima stijenku obloženu pločastim epitelom unutar kojeg se nalaze i elementi limfatičnog tkiva, što bi moglo ići u prilog inkluzijskoj teoriji nastanka ciste, prema kojoj epitel urasta u limfni čvor bez vanjskog utjecaja. Patohistološki nalaz kod našeg pacijenta također bi išao u prilog ovoj teoriji (slika 3). Prema sijelu ciste u našem slučaju radilo se o Tipu 2, kada je cista smještena između velikih krvnih žila vrata. Takve ciste javljaju se kasnije nego što bi se očekivalo za kongenitalne lezije, a tome govori u prilog i činjenica da su branhijalne ciste kod novorođenčadi gotovo nepoznate⁹⁻¹⁴. Vrh javljanja branhijalne ciste je u trećem desetljeću života. Tipično se očituju kao otok u prednjem trokutu vrata ispod angulusa mandibule. Diferencijalno dijagnostički treba isključiti tuberkulozne čvorove, moguće primarne tumore tog sijela kao što su lipomi, neurinomi, kemodektomi i limfomi te moguće metastaze karcinoma u limfne čvorove. Također treba isključiti mogućnost postojanja branhiogenog karcinoma koji može nastati iz branhiogene ciste, kao i na postojanje cistične metastaze nekog drugog primarnog tumora¹⁴⁻²¹. U postavljanju dijagnoze uz anamnezu i klinički pregled u najvećem broju slučajeva radi se ultrazvuk vrata te citološka punkcija. Ultrazvuk opisuje cistu kao manje ili više ehogenu, dobro

ograničenu tvorbu ispunjenu gušćim sadržajem, a upotreba doplera u boji pomaže u razgraničavanju odnosa prema velikim krvnim žilama. Branhijalne ciste sadrže tipično žuto-smeđi sadržaj koji sadrži holesterolske kristale i stanice pločastog epitela. Histološki stijenka ciste sadrži limfoidno tkivo s germinativnim centrima, što podupire inkluzijsku teoriju postanka branhiogene ciste⁵⁻⁹. Ponekad je kod većih cista, pogotovo ako su bile inflamirane, potrebna kompjutorizirana tomografija, kako bi se bolje razgraničio odnos prema okolnom tkivu, pogotovo prema velikim krvnim žilama. U rijetkim slučajevima u diferencijalnoj dijagnostici optimalno sredstvo je magnetska rezonancija s Gadolinium – DTPA (engl. *diethylene triaminepentaacetic acid*) kao kontrastom koji se ne nakuplja u stijenci ciste, za razliku od nakupljanja u metastatskim čvorovima. Liječenje branhiogenih cista isključivo je kirurško, pri čemu se cijela tvorba mora odstraniti u cijelosti, kako bi se izbjegao recidiv. Ako su ciste velike, napete i prijete mogućnost rupture, preporučuje se odstranjenje dijela sadržaja punkcijom kako bi se smanjila napetost ciste prema okolnom tkivu¹⁻¹¹.

ZAKLJUČAK

Jednostrane branhijalne ciste najčešće su šuplje tvorbe koje se javljaju na vratu. Obostrana pojava branhijalnih cista vrata je rijetka i iznosi samo 2 – 3 % svih cista. Javljanje obostranih branhijalnih cista vrata kod ljudi srednje i starije životne dobi iznimno je rijetko. Diferencijalno dijagnostički prvenstveno treba isključiti mogućnost pojave cističnih metastaza planocelularnog karcinoma. Kirurškom liječenju treba pristupiti bez odgađanja, kako bi se izbjegle moguće upale koje cistu čine adherentnijom za okolinu, što otežava kirurški postupak.

Izjava o sukobu interesa: Autori izjavljuju da ne postoji sukob interesa.

LITERATURA

1. Gupta AK, Kumar S, Jain A. Bilateral first and second branchial cleft fistulas: a case report. *Ear Nose Throat J* 2008;87:291-3.
2. Harkness MK, Biswas CK. Bilateral neck swelling in an elderly man. *JR Soc Med* 2002;95:503-5.
3. McClure MJ, McKinstry CS, Stewart R, Madden M. Late presentation of branchial cyst. *Ulster Med J* 1998;67:129-31.

4. Golledge J, Ellis H. The aetiology of lateral cervical (branchial) cysts: past and present theories. *J Laryngol Otol* 1994;108:653-9.
5. Agaton-Bonilla FC, Gay Escoda C. Diagnosis and treatment of branchial cleft cysts and fistulae. A retrospective study of 183 patients. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1996;25:449-52.
6. Kotecha V, Muturi A, Ruturi J. Branchial cysts: an unusual cause of a mediastinal mass: case report. *J Med Case Rep* 2015;9:208.
7. Chavan S, Deshmukh R, Karande P, Ingale Y. Branchial cleft cyst: A case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Pathol* 2014;18:150.
8. Vemula R, Greco G. An unusual presentation of presentation of branchial cleft cyst. *J Craniofac Surg* 2012; 23:270-2.
9. Gaszynska E, Gaszynski T, Arkuszewski P. Diagnosis and treatment of cervical branchial cleft cysts based on the material from Departement of Cranio-Maxillofacial Surgery, Medical University in Lodz and literature review. *Pol Przegl Chir* 2012;84:547-50.
10. Guldred LA, Philipsen Bb, Siim C. branchial cleft anomaly: accuracy of pre-operative diagnosis, clinical presentation and manegement. *J Laryngol Otol* 2012; 126:598-604.
11. Leenderes E. Neck cysts and fistulas. Embryological rest structures. *Acta Otorhinolaryngol Belg* 1984;38: 355-64.
12. LaRiviere CA, Waldhausen JH. Congenital cervical cysts, sinuses, and fistulae in pediatric surgery. *Surg Clin North Am* 2012;92:583-97.
13. Thottam PJ, Bathula SS, Poulik JM, Madgy DN. Complete second branchial cleft anomaly presenting as fistula and a tonsillar cyst; an interesting congenital anomaly. *Ear Nose Throat* 2014;93:466-8.
14. Waldhausen JH. Branchial cleft and arch anomalies in children. *Semin Pediatr Surg* 2006;15:64-9.
15. Munoz Fernandez N, Mallea Canizares I, Fernandez Julian E, De La Fuente Arjona L, Marco Algarra J. Double second branchial cleft anomaly. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2011;62:68-70.
16. Burgess KL, Hartwick RW, Bedard YC. Metastatic squamous carcinoma presenting as neck cyst. Differential diagnosis from inflamed branchial cleft cyst in fine needle aspirates. *Acta Cytol* 1993;37:494-8.
17. Girvigian MR, Rechdouni AK, Zeger GD, Segall H, Rice DH, Petrovich Z. Squamous cell carcinoma arising in a second brancial cleft cyst. *Am J Clin Oncol* 2004;27:96-100.
18. Singh B, Balwally AN, Sundaram K, Har-El G, Krgin B. Branchial cleft cyst carcinoma: myth or relity. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1998;107:519-24.
19. Briggs RD, Pou AM, Schnadig VJ. Cystic metastasis versus branchial cleft carcinoma: a diagnostic challenge. *Laryngoscope* 2002;112:1010-4.
20. Bankias V, Kyrgidis A, Koloutsos G, Sakkas L, Antoniadis K. Branchial cyst carcinoma revisited: stem cells, dormancy and malignant transformation. *J Craniofac Surg* 2011;22:918-21.
21. Hu S, Hu CH, Yang L, Xing JM, Chen JH, Ge ZL et al. Atypical imaging observations of branchial cleft cysts. *Oncol Lett* 2014;7:219-22.