

# Respiratorna insuficijencija uzrokovana laringokelom: prikaz slučaja

## Respiratory insufficiency caused by a laryngocele: case report

Stjepan Grabovac<sup>1\*</sup>, Đurđica Grabovac<sup>2</sup>, Tamara Salaj<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Služba kirurških djelatnosti, Odjel otorinolaringologije, Opća bolnica Bjelovar, Bjelovar

<sup>2</sup>Visoka tehnička škola Bjelovar – Studij sestrinstva, Bjelovar

**Sažetak. Cilj:** Prikazati postupke liječenja koji su provedeni kod respiratorne insuficijencije uzrokovane miješanom laringokelom. **Prikaz slučaja:** U članku opisujemo dva pacijenta sa simptomima respiratorne insuficijencije uzrokovane miješanom laringokelom, odnosno laringomukokelom. Smetnje disanja u oba pacijenta pokušali smo ublažiti punkcijom, što je u slučaju laringomukokele uspješno. Kod drugog pacijenta učinjena je traheotomija te naknadna operacija laringokele. **Zaključak:** Pacijentu s laringokelom treba pristupiti individualno, ovisno o simptomima. Respiratorne simptome moguće je ublažiti punkcijom i evakuacijom sadržaja. Operacija laringokele vanjskim pristupom omogućuje najbolji prikaz tijela i vrata laringokele, što je uvjet za uspješno izlječenje.

**Ključne riječi:** laringokela

**Abstract. Aim:** To report the treatment procedures we did in respiratory insufficiency caused by a mixed laryngocele. **Case report:** The paper describes two patients with symptoms of respiratory insufficiency caused by a mixed laryngocele, i.e. laryngomucocele. In both patients we tried to relieve the respiratory distress by needle aspiration, which was successful in the case of laryngomucocele. In the second patient, the tracheotomy was performed and the subsequent laryngocele surgery was performed. **Conclusion:** A patient with laryngocele should be approached individually depending on the symptoms. Respiratory symptoms can be alleviated by needle aspiration and the contents extracted. The laryngocele operation with the external access provides the best view of the laryngocele body and neck, which is a condition for successful cure.

**Key words:** laryngocele

**\*Adresa za dopisivanje:**

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

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

## UVOD

Laringokela je proširenje sakusa laringealnog ventrikula koji obično tijekom embrionalnog razvoja regredira. Ako do toga ne dođe, uz pomoć pogodovnih čimbenika nastaje tvorba koja se širi unutar lažne glasiljke. Lumen joj je ispunjen zrakom i komunicira s unutrašnjošću larinksa<sup>1,2</sup>. Ako dođe do opstrukcije vrata laringokele, nakupljanja sluzi u njenoj unutrašnjosti i naknadne infekcije, nastaje mukokela, odnosno piokela. Za nastanak laringokele odgovorno je više kongenitalnih i stečenih čimbenika. Smatra se da češće nastaju kod ljudi s urođenim proširenjem laringealnog sakusa i slabošću periventrikularnog tkiva ili tiroariepiglotične muskulature<sup>1-4</sup>. Ranija podjela klasificirala ih je na vanjske, unutarne i miješane laringokele. Unutrašnja laringokela nalazi se unutar lažne glasiljke medijalno od tireohoidne membrane, dok se miješana širi van kroz membranu. Kako čiste, vanjske laringokele ne postoje, nova klasifikacija dijeli ih na unutarne i miješane. Laringokele ranije imenovane kao vanjske reklasificirane su kao miješane<sup>3</sup>. Incidencija se procjenjuje na 1 : 2 500 000 na godinu. Nešto su češće kod muškaraca u omjeru 5 : 1, a vrh javljanja je oko 60. godine. 87 % svih laringokela je jednostrano<sup>3-5</sup>. Većina laringokela je asimptomatska. Od simptoma najčešći su promuklost, neodređene smetnje u vratu, osjećaj stranog tijela, pojava otekline na jednoj ili obje bočne strane gornjeg dijela vrata koja se pri pokušaju Valsalvinog manevra može povećavati. Otežano disanje kao simptom javlja se rjeđe, uglavnom kod velikih laringokela. Diferencijalno dijagnostički dolaze u obzir paragangilomi, švanomi, odnosno svi tumori koji se nalaze u supraglotičnoj regiji pri čemu osobito treba voditi računa o udruženosti laringokele i karcinoma grkljana<sup>1-4</sup>. Ako je cijela tvorba ispunjena tekućinom teško ju je razlikovati od čista druge etiologije<sup>4</sup>.

## PRIKAZ SLUČAJA

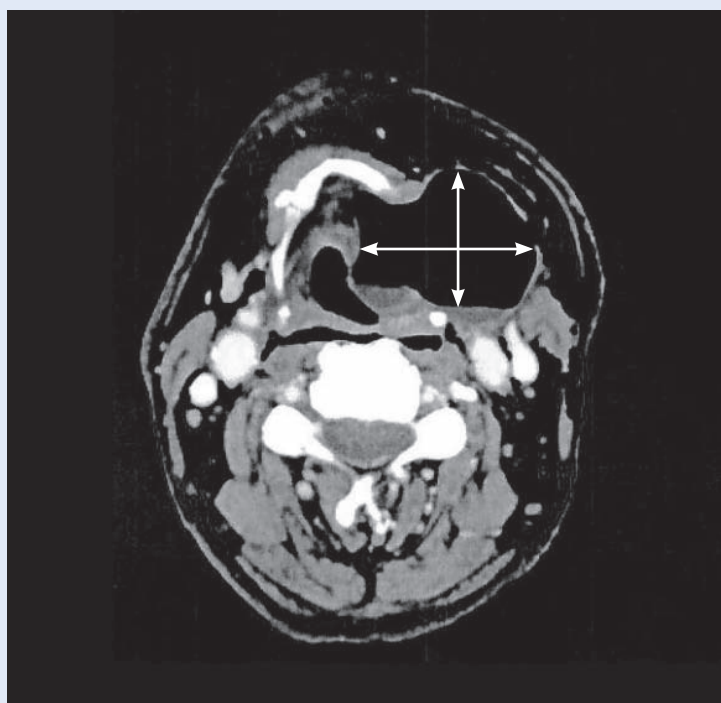
### Prvi slučaj

Muškarac u dobi od 57 godina unatrag 2 do 3 godine teško je disao, pri čemu se čuo neobičan zvučni fenomen. Pušio je oko 40 cigareta dnevno. Klinički se doimalo kao da „lovi zrak“ uz jak inspi-

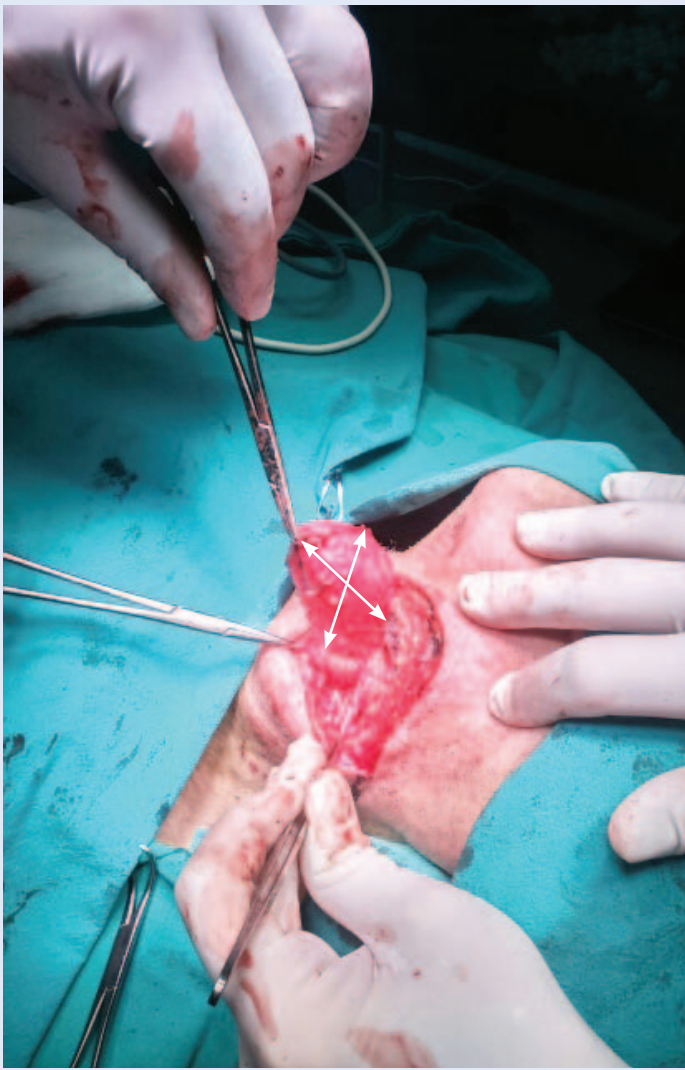
ratorni stridor. Na lijevoj strani vrata u visini grkljana nalazila se mekana, kompresibilna, bezbolna tvorba velika oko 50 mm. Fleksibilnom endoskopijom bilo je vidljivo okruglasto glatko izbočenje lijevog ventrikularnog nabora koje je gotovo u cijelosti zatvaralo dišni put. Na osnovi kliničkog nalaza postavili smo dijagnozu laringokele. Kako bismo olakšali disanje, pod kontrolom ultrazvuka punkturali smo tvorbu na vratu, pri čemu se aspirirao zrak, ali bez poboljšanja disanja. Gotovo odmah po punkciji tvorba se opet

Opisali smo dva pacijenta sa simptomima respiratorne insuficijencije uzrokovane miješanom laringokelom odnosno laringomukokelom.

pojavila. U lokalnoj anesteziji učinili smo traheotomiju. Na kompjutoriziranoj tomografiji vrata u području supraglotičnog dijela larinksa i hipofarinksa u razini hoidne kosti izdvajala se velika laringokela bisakularnog oblika koja se utiskivala u supraglotični dio larinksa, potiskivala lažne glasnice te sužavala lumen. Unutarnji dio mjerio je 54 × 36 × 40 mm, a vanjski, ekstralarin-gealni, koji je tanke stijenke, oko 36 m (slika 1).



Slika 1. Strjelice pokazuju veliku miješanu laringokelu koja sužava dišni put.



Slika 2. Strjelice pokazuju tijelo laringokele.

Vanjskim operacijskim pristupom kroz hiotiroidnu membranu odstranili smo cijelu laringokelu (slika 2). Patohistološki nalaz potvrdio je da se radilo o stijenci ciste. Peti poslijeoperacijski dan pacijent je mirno disao sa začepljenom kaniplom te je dekaniliran. Tri godine nakon operacije nema znaka recidiva.

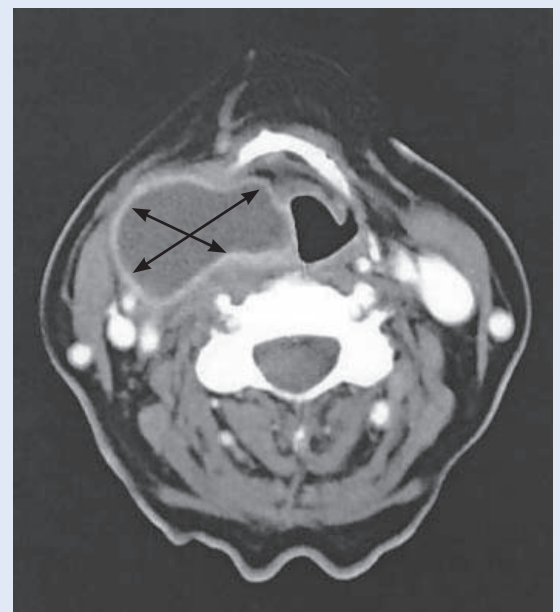
#### Drugi slučaj

Pacijentica u dobi od 68 godina javila se u otorinolaringološku ambulantu zbog otežanog disanja. Tegobe je imala već duže vrijeme, a nakon preboljele upale pluća vrat joj je natekao, disanje se pogoršalo, a javile su se i smetnje s gutanjem. Ambulantno je liječena antibioticima. Klinički cijela desna strana vrata bila je zauzeta tvrdom, na palpaciju bolnom tvorbom oko 50 – 60 mm pro-

mjera (slika 3). Pri pregledu fleksibilnim endoskopom desna vaukula, ariepiglottični i ventrikularni nabor bili su izbočeni, epiglotis pomaknut ulijevo a prostor između glasnica sužen. Na kompjutoriziranoj tomografiji vrata bila je vidljiva velika hipodenzna poput pješčanog sata rubno opacifi-



Slika 3. Strjelice pokazuju velik otok desne strane vrata uzrokovan laringokelom.



Slika 4. Strjelice pokazuju veliku laringomukokelu koja sužava dišni put.

cirana tvorba veličine 45 × 25 mm koja odgovara laringomukokeli (slika 4). Pod kontrolom ultrazvuka punktirali smo tvorbu na vratu, pri čemu smo dobili oko 60 ccm gustog sadržaja. Citološkom analizom potvrđena je supurativna upala, a bakteriološki nalaz bio je sterilan. Nakon punkcije pacijentica je lakše disala, no predloženu je operaciju odbila. Nakon dva mjeseca prvotni simptomi su se opet javili te je ponovljena punkcija. Kroz tri godine koliko smo je pratili, pacijentica je dolazila 4 – 7 puta godišnje zbog istih simptoma, a punkcijom se dobivalo između 20 – 60 ccm gustog sadržaja.

#### RASPRAVA

Pojam laringokela uveo je u medicinsku literaturu Virchow 1867. godine da bi opisao prekomjerno, uglavnom jednostrano proširenje laringealnog ventrikula<sup>5</sup>. Prvi opis obostrane laringokele dao je Napoleonov kirurg Dominique Jean Larrey krajem 18. stoljeća<sup>6-8</sup>. Predisponirajući čimbenici uz sudjelovanje vanjskih utjecaja olakšavaju kod nekih ljudi nastanak laringokela. To su prvenstveno profesije kod kojih dolazi do jakog porasta intralaringealnog tlaka, kao što su trubači, puhači stakla ili dizači utega. Uočena je i češća pojava laringokele kod ljudi sa smetnjama defekacije<sup>1-3</sup>. Tri su glavna faktora njihova nastanka: 1. kongenitalni; 2. povećanje intralaringealnog tlaka; 3. mehanička opstrukcija. Najčešći je miješani tip laringokele oko 70 %, čemu su pribrojene ilaringokele koje su ranije kvalificirane vanjskima. Unutarne laringokele, njih 30 %, ograničene su na unutrašnjost larinksa i šire se u paraglotični prostor, ventrikularne i ariepiglotične nabore. Prolaskom kroz tireohoidnu membranu, najčešće na mjestu prolaska gornjeg laringealnog živca, laringokela postaje vidljiva kao masa na vratu<sup>1-6</sup>. Suženjem ušća laringokele dolazi do nakupljanja sadržaja, pa nastaje laringomukokela, a infekcijom sadržaja laringopiokela. Smatra se da se oko 8 % laringomukokela inficira, a kao uzročnici infekcije najčešći su *Escherichia coli*, *Streptococcus hemolyticus*, *Staphylococcus aureus* i *Pseudomonas aeruginosa*<sup>9-14</sup>. Pojedine bolesti mogu stvarati pritisak u predjelu laringealnog ventrikula i tako pogodovati nastanku laringokele. Prvenstveno treba isključiti udruženost laringokele s karcinomom

grkljana, koja se kreće između 2 – 18 %, o čemu treba voditi računa, pogotovo kod jednostranih laringokela<sup>14-16</sup>. Uočene su i češće pojave laringokela kod pacijenta s reumatoidnim artritisom, bolestima pluća i probavnih organa, kod kojih dolazi do porasta intralaringealnog tlaka<sup>11-19</sup>. Dijagnoza se prvenstveno postavlja kliničkim pregledom uz obaveznu fiberoptičku laringoskopiju, kojom se utvrđuje eventualna kompromitiranost dišnog puta. Ponekad vanjski pritisak može dovesti do trenutnog nestanka laringokele, koja se pri poku-

U dijagnostičkom postupku, uz klinički pregled i fiberlaringoskopiju, neophodna je i kompjutorizirana tomografija vrata. Respiratorne simptome može se ublažiti punkcijom laringokele, a ako to ne uspije, mora se napraviti traheotomija. Za konačno izlječenje najbolja opcija je operacija laringokele vanjskim pristupom.

šaju Valsalvinog manevra ponovno puni zrakom. Mogu se čuti i zvučni fenomeni, poput zviždanja pri prolasku zraka iz vanjskog u unutarnji dio laringokele. Ultrazvučni pregled, kompjutorizirana tomografija i magnetska rezonancija vrata samo potvrđuju dijagnozu i veličinu laringokele<sup>20-24</sup>. Kako je većina laringokela asimptomatska, redovite kontrole pacijenta imaju veliku ulogu. Liječenje laringokela napredovalo je u posljednja dva desetljeća, iako niti do danas ne postoji suglasnost koji bi postupak bio najbolji. Svakom pacijentu pristupa se individualno, ovisno o simptomima. U kirurškom liječenju postoje dva osnovna pristupa, unutarnji i vanjski<sup>25-27</sup>. Endolaringealni pristup koristi se većinom kod unutarnjih laringokela i mnogi ga smatraju alternativom vanjskim operacijama. Može se izvoditi klasičnim, hladnim instrumentima ili, kao u posljednjih dvadesetak godina, uz upotrebu CO2 lasera, čime se smanjuje krvarenje<sup>28,29</sup>. Od 2013. godine rade se operacije laringokele uz pomoć robotske kirurgije koja omogućuje rad bez tremora ruku te bolji pregled bočnih regija grkljana<sup>30,31</sup>. Vanjski pristup uz kompletnu disekciju sakusa koristi se kod većine miješanih laringokela<sup>25-27</sup>. Prednost vanjskog pristupa je u boljem prikazu, preciznijem kirurškom postupku i niskoj stopi recidiva. Nedostaci su uglavnom estetski uz veći morbiditet i produ-



ženu hospitalizaciju, što nosi veće troškove. Postoji nekoliko načina vanjskog pristupa: 1. kroz hiotiroidnu membranu; 2. tirotomija s resekcijom gornje trećine tiroidne hrskavice i 3. „V” oblik tirotomije. Najčešći je pristup kroz tirohioidnu membranu koji ima prednost jer čuva hrskavicu larinksa, ali pruža slabiji pristup paraglotičnom prostoru<sup>25-27</sup>. U prošlosti se radila i laringoskopija s marsupijalizacijom stijenke laringokele, pri čemu su recidivi bili dosta česti<sup>26</sup>. Neki autori kod miješanih simptomatskih laringokela preporučuju prijeoperacijsku intravensku antibiotsku terapiju kroz 14 dana, uz zabranu pušenja, što ima kao rezultat nestajanje vanjskog dijela laringokele, poboljšanje respiratornih simptoma i izbjegavanje potrebe za eventualnom traheotomijom. Traheotomija se primjenjuje kod oko 10 % laringokela i to uglavnom miješanih s velikim unutarnjim dijelom<sup>25-29</sup>. Prema našem iskustvu punkcija laringokele u svrhu smanjenja respiratornih simptoma može pomoći samo ako se radi o mukokeli ili piokeli, dok nakon punkcije čiste laringokele zrak koji je aspiriran odmah bude zamijenjen sa zrakom iz larinksa. Nakon operacije preporučuje se promjena načina života i rada, kako bi se smanjili svi čimbenici koji bi pomogli nastanku recidiva<sup>4-5</sup>.

### ZAKLJUČAK

Respiratorna simptomatologija uzrokovana miješanom laringokelom je rijetka jer je većina laringokela uglavnom asimptomatska. Klinički pregled obavezno uključuje fiberlaringoskopiju, čime se dijagnosticira suženje dišnog puta, a kompjutorizirana tomografija potvrđuje dijagnozu. Kao prvi postupak pri olakšavanju respiratornih simptoma nužno je učiniti punkciju laringokele, po mogućnosti pod kontrolom ultrazvuka i evakuaciju njenog sadržaja, što, ako se radi o laringomukokeli, ima uspjeha. Ako se simptomi ne ublaže, dolazi u obzir traheotomija. Kao trajno izlječenje prednost ima otvoreni operacijski pristup.

**Izjava o sukobu interesa:** autori izjavljuju da ne postoji sukob interesa.

### LITERATURA

- Holinger LD, Barnes DR, Smid LJ, Holinger PH. Laryngocele and saccular cysts. *Annals of Otolaryngology, Rhinology and Laryngology* 1978;87:675-85.

- Amin M, Maran AGD. The aetiology of laryngocele. *Clinical Otolaryngology* 1988;13:267-272.
- Zelenik K, Stanikova L, Smatanova K, Cerny M, Kominek P. Treatment of Laryngocele: What Is the Progress over the Last Two Decades?. *Biomed Res Int [Internet]*. 2014;2014 [cited 2014 Mar 6]. Available from: <http://dx.doi.org/10.1155/2014/819453>.
- Prasad KC, Vijayalakshmi S, Prasad SC. Laryngoceles-presentations and management. *Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery* 2008;60:303-8.
- Prasad N, Singh M, Nagori R, Singh S. Laryngopyocele: Presenting with pressure symptom. *Int J Appl Basic Med Res* 2015;5:228-30.
- Paparella MM, Shumrick DA. *Otolaryngology. Volume 3. Head and Neck, Section 2, Chapter 32.* W.B. Saunders Comp.: Philadelphia-London-Toronto, 1973.
- Suqati AA, Alherabi AZ, Marglani OA, Alaidaraous TO. Bilateral combined laryngocele. *Saudi Med J* 2016;37:902-3.
- Babb MJ, Rasgon Bm, Calif. Quiz case 2: Bilateral laryngocele. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;126:551-4.
- Vasileiadis I, Kapetanakis S, Stavrianiaki A, Fiska A, Karakostas E. Internal laryngopyocele as a cause of acute airway obstruction: an extremely rare case and review of the literature. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2012;32:58-62.
- Cassano H, Lombardo P, Ragona RM, Pastore A. Laryngopyocele: three new clinical cases and review of the literature. *European Archives of Oto Rhina Laryngology* 2000;257:507-11.
- Aksoy EA, Elsurer C, Serin GM, Unal OF. Bilateral internal laryngoceles mimicking asthma. *Journal of Research in Medical Sciences* 2013;18:453-6.
- Erdogmus B, Yazici B, Ozturk O, Ataoglu S, Yazici S. Laryngocele in association with ankylosing spondylitis. *Wiener Klinische Wochenschrift* 2005;117:718-20.
- Marom T, Roth Y, Cinamon U. Laryngocele: long term complication following neck surgery? *Journal of Voice* 2011;25:272-4.
- Celin SE, Johnson J, Delphin E, Straker T, Schiff BA. The association of laryngoceles with squamous cell carcinoma of the larynx. *Laryngoscope* 1991;102:529-36.
- Mitroi M, Capitanescu A, Popescu FC. Laryngocele associated with laryngeal carcinoma. *Romanian Journal of Morphology and Embryology* 2011;52:183-5.
- Harney M, Patil N, Walsch R, Brennan P, Walsch M. Laryngocele and squamous cell carcinoma of the larynx. *Journal of Laryngology and Otology* 2001;115:590-2.
- Papila I, Acioglu E, Karaman E, Akman C. Laryngeal chondroma presenting as laryngopyocele. *European Archives of Otot-Rhino-Laryngology* 2005;262:473-6.
- Park KT, Ahn Y, Kim KH, Kwon TK. Schwannoma mimicking laryngocele. *Clin Exp Otorhinolaryngol* 2010;3:166-71.
- Feinstein AJ, Peng KA, Bhuta SM, Abemayor E, Mendelsohn AH. Laryngeal oncocytic cystadenomas masquerading as laryngoceles. *Am J Otolaryngol* 2016;37:17-21.
- Frederickson KL, D'Angelo AJ. Internal Laryngopyocele presenting as acute airway obstruction 2007;86:104-6.

21. Keles E, Alpay HC, Orhan I, Yildirim H. Combined laryngocele: a cause of stridor and cervical swelling. *Auris Nasus Larynx* 2010;37:117-20.
22. Ozcan C, Vayisoglu Y, Guner N, Turkili S, Gorur K. External laryngopyocele: a rare cause of upper airway obstruction. *Journal of Craniofacial Surgery* 2010;21:2022-4.
23. Pennings RJE, van den Hoogen FJA, Marres HAM. Giant laryngoceles: a cause of upper airway obstruction. *European Archives of Oto Rhino Laryngology* 2001;258:137-40.
24. Nazaroglu H, Ozates M, Uyar A, Deger E, Simsek M. Laryngopyocele: signs on computed tomography. *European Journal of Radiology* 2000;33:63-5.
25. Thome R, Thome DC, De La Cortina RAC. Lateral thyrotomy approach on the paraglottic space for laryngocele resection. *Laryngoscope* 2000;110:447-50.
26. Fraser L, Pittore B, Frampton B, Brennan P, Puxeddu R. Laryngeal debridement: an alternative treatment for a laryngopyocele presenting with severe airway obstruction. *Acta Otorhinolaryngologica Italica* 2011;31:113-7.
27. Aydin S, Demir MG. A new preserved technique for laryngocele: modified lateral thyrotomy approach. *J Craniofac Surg* 2014;25:2178-9.
28. Ettema SL, Carothers DG, Hoffman HT. Laryngocele resection by combined external and endoscopic laser approach. *Annals of Otology Rhinology and Laryngology* 2003;112:361-4.
29. Devesa PM, Ghufloor K, Llojd S, Howard D. Endoscopic CO2 laser management of laryngocele. *Laryngoscope* 2002;112:1426-1430.
30. Ciabatti PG, Burali G, D'Ascanio L. Transoral robotic surgery for large mixed laryngocele. *The Journal of Laryngology and Otology* 2013;127:435-7.
31. Lisan Q, Hoffman C, Jouffroy T, Hans S. Combined laser and robotic approach for the management of mixed laryngomucocele. *J Robot Surg* 2016;10:81-3.