

Suprahoidna lokalizacija upaljene tireoglosalne ciste

Suprahyoid localization of inflamed thyroglossal cyst

Josip Novaković, Marko Perković, Ana Penezić*

Sažetak

Uvod: Tireoglosalne ciste pripadaju najčešćim kongenitalnim malformacijama vrata. Nastaju zbog nepotpuna srašavanja tireoglosalnog kanala. Predočavaju se kao otekline u središnjem dijelu vrata od korijena jezika do prsne kosti. Najčešće se dijagnosticiraju u mlađoj životnoj dobi. Lokalizirane su najčešće oko jezične kosti, a većina ih je smještena infrahoidno (65-80 %).

Prikaz bolesnice: Žena, u dobi od pedeset šest godina javila se u hitnu otorinolaringološku ambulantu radi bolnosti desne strane vrata posljednjih dvanaest dana. Liječnik obiteljske medicine ordinirao je antibiotik kroz sedam dana, bol je regresirala, da bi se ponovno javila nakon nekoliko dana, te je ordiniran drugi antibiotik uz koji su tegobe perzistirale. Žalila se na oteklinu submentalno i bolno gutanje. U kliničkom statusu uočena je suprahoidna bolna oteklina, veličine 3 cm, uz bolno otvaranje usta. Učinjena je višeslojna kompjuterizirana tomografija vrata kojom je prikazana cistična tvorba iznad milohioidnog mišića. Upalni parametri su bili povišeni. Bili su prisutni i znaci okolnog celulitisa subkutanog tkiva submandibularne regije. Bolesnica je hospitalizirana, te je ordinirana parenteralna antibiotska terapija, na što je došlo do pada upalnih parametara i poboljšanja općeg stanja, te je peti dan hospitalizacije operirana. U općoj anesteziji učinjena je ekstirpacija medijalne suprahoidne ciste postupkom po Sistrunku. Bolesnica je nakon dva dana otpuštena na kućno liječenje uz peroralnu terapiju klindamicinom. Patohistološki nalaz upućivao je na upalno promijenjenu tireoglosalnu cistu. Na redovnim kontrolama otorinolaringologa, tri mjeseca nakon operacijskog zahvata, nije bilo znakova recidiva bolesti.

Zaključak: Tireoglosalna cista dna usne šupljine je rijetka, osobito kod odrasle osobe u dobi od pedeset godina. Potrebno je učiniti temeljiti klinički pregled, te diferencijalno dijagnostički razmišljati o tireoglosalnoj cisti kod bolesnika s oteklinom u području dna usne šupljine, a dijagnozu je potrebno potkrijepiti odgovarajućim dijagnostičkim metodama. Liječenje je kirurško uz empirijsku antimikrobnu terapiju. Pojava recidiva je rijetkost ukoliko je operacijski postupak proveden prema pravilima struke.

Cljučne riječi: tireoglosalna cista, suprahoidna lokalizacija, dno usne šupljine

Summary

Introduction: Thyroglossal cysts (TC) are most common congenital neck malformations. They are resulting after incomplete thyroglossal duct obliteration. A TC presents as a neck swelling in medial line which connects the base of the tongue to the thyroid gland. They are most often diagnosed at childhood and are usually located around hyoid bone, mostly in the infrahyoid region (65-80 %).

Case report: A fifty-six-years-old woman comes to the emergency ear nose and throat clinic because of pain on the right side of the neck for the past twelve days. According to the family physician, an antibiotic was prescribed for seven days, the pain regressed and reappeared after a few days, azythromycin was prescribed, with which the complaints persisted. She had submental swelling and painful swallowing. Clinical examination found painful suprahyoid swelling, about 3 cm in size, with painful opening of the

*Služba za kirurgiju Opće bolnice Zabok i bolnice hrvatskih veterana (dr.sc. Josip Novaković, dr.med.); Odjel za otorinolaringologiju Opće bolnice Karlovac (Marko Perković, dr.med.); KBC Sestre milosrdnice, Klinika za otorinolaringologiju i kirurgiju glave i vrata (dr.sc. Ana Penezić, dr.med.)

Autor za dopisivanje /Author for corresponding za dopisivanje: Josip Novaković, Ulica Jože Malekovića 38, 49210 Zabok E-mail: novakovicjosip@gmail.com

Primljeno/Received 2022-12-23; Ispravljeno/Revised 2023-03-16; Prihvaćeno/Accepted 2023-03-17

mouth. An MSCT of the neck was performed which showed a cystic formation located above the mylohyoid muscle, in the medial line, with intense peripheral imbibition, measuring 3.3×1.5 cm. The formation occupies the area of the middle and posterior third of the floor of the oral cavity and reached the hyoid bone at the back. Inflammatory parameters were elevated. There are also signs of surrounding cellulitis of the subcutaneous tissue of the submandibular region. The patient was hospitalized with parenteral antibiotic therapy, after the decrease in inflammatory parameters and improvement of the general condition, she was operated on the fifth day of hospitalization. Extirpation of the medial suprahyoid cyst according to Sistrunk's procedure was performed under general anesthesia. After two days, the patient was discharged to home treatment with oral climecin therapy. The received pathohistological finding indicate an inflammatory TC. There have been no signs of recurrence at postoperatively follow-up.

Conclusion: The TC of the floor of the mouth is a rare condition. It is necessary to take a thorough clinical examination and think about a TC as a differential diagnosis in patients with swelling in the area of the floor of the oral cavity, which need to be proven by appropriate diagnostic methods. Treatment is surgical with empiric antimicrobial therapy. Recurrence is rare if the surgical procedure was performed according to surgical rules.

Keywords: thyroglossal cyst, suprahyoid localization, floor of the oral cavity.

Med Jad 2023;53(1):61-64

Uvod

Štitna žlijezda se razvija iz hipobranhijalne eminencije u području baze jezika, te se tijekom razvoja embrija spušta do svog konačnog odredišta, u pretrahealnoj regiji vrata. Nakon spuštanja štitne žlijezde zaostaje tireoglosalni kanal koji u daljnjem razvoju obliterira (do kraja 11. tjedna gestacijskog života). Ukoliko se to ne dogodi dolazi do razvoja tireoglosalne ciste u postnatalnom životu. Tireoglosalne ciste pripadaju najčešćim kongenitalnim malformacijama vrata.¹ Predočavaju se kao otekline u središnjem dijelu vrata, od korijena jezika do prsne kosti, osobito izražene pri protruziji jezika ili prilikom gutanja.² Najčešće se dijagnosticiraju u mlađoj životnoj dobi kliničkim pregledom potkrijepljenim ultrazvučnim pregledom vrata, eventualnom citopunkcijom i višeslojnom kompjuteriziranom tomografijom (MSCT) vrata.³ Tijekom infekcije, upale ili nakupljanja seroznog sadržaja se povećavaju, te postaju uočljivije.⁴ Lokalizirane su najčešće oko jezične kosti, a većina ih je smještena infrahoidno (65-80 %), mada se mogu pojavljivati i suprahoidno, unutar dna usne šupljine, u jeziku ili intralaringealno. Svjesnost o postojanju suprahoidne lokalizacije je nužna kako bi se valjano dijagnosticirala i izliječila tireoglosalna cista. Prilikom postavljanja diferencijalne dijagnoze potrebno ih je razlučiti od ranule, dermoidne ili epidermoidne ciste, branhijalne ciste, limfangioma, te isključiti limfadenitis i regionalne metastaze tumora u području glave i vrata.^{4,5,6} Kirurški zahvat po Sistrunku je još uvijek metoda izbora prilikom liječenja tireoglosalnih cisti.⁷ Mogućnost recidiviranja je oko 50%, ukoliko je ekstirpirana samo cista, dok pri resekciji središnjeg dijela jezične

kosti stopa recidiva pada na 20%, a još više se umanjuje ekscizijom cističnoga tkiva prema bazi jezika.^{1,8}

Prikaz bolesnice

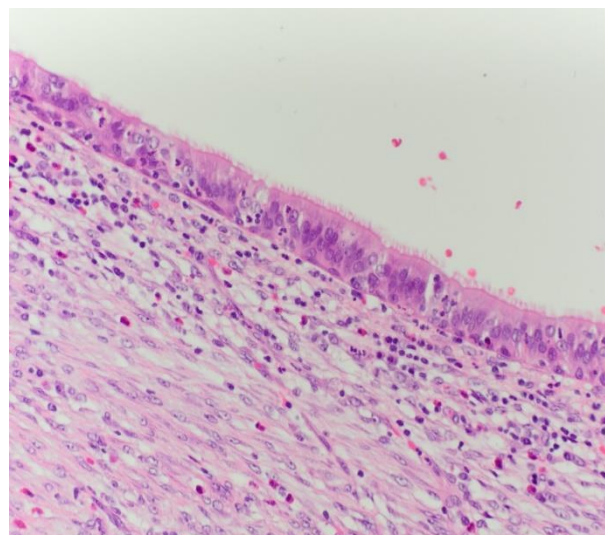
Žena u dobi od pedeset šest godina javila se u hitnu otorinolaringološku ambulantu radi bolnosti desne strane vrata posljednjih dvanaest dana. Prema nadležnom liječniku obiteljske medicine ordiniran je amoksicilin s klavulanskom kiselinom kroz sedam dana. Bol je regredirala, da bi se ponovno javila nakon nekoliko dana, te je ordiniran azitromicin uz koji su tegobe perzistirale. Žalila se na oteklinu submentalno i bolno gutanje, dok drugih tegoba iz područja glave i vrata nije imala. U kliničkom statusu uočena je suprahoidna bolna oteklina veličine 3 cm, ograničena, te bolna pri otvaranju usta. Učinjen je MSCT vrata (Slika 1.) kojim je prikazana cistična tvorba iznad milohoidnog mišića, u medijalnoj liniji, intenzivne periferne imbibicije, veličine $3,3 \times 1,5$ cm. Tvorba je zauzimala područje srednje i posteriorne trećine dna usne šupljine, a straga je dopirala do jezične kosti. Bili su prisutni i znaci okolnog celulitisa subkutanog tkiva submandibularne regije. Ultrazvučni pregled vrata je pokazao kako se radi o cističnoj promjeni dna usne šupljine. Upalni parametri su bili povišeni. Bolesnica je hospitalizirana, te je ordinirana parenteralna antibiotska terapija klindamicinom i ceftriaksonom, na što je došlo do pada upalnih parametara i poboljšanja općeg stanja, te je peti dan hospitalizacije operirana. U općoj anesteziji učinjena je ekstirpacija medijalne suprahoidne ciste postupkom po Sistrunku. Bolesnica je nakon dva dana otpuštena na kućno liječenje uz peroralnu terapiju klindamicinom.

Materijal je poslan na redovitu patohistološku analizu. Patohistološki nalaz upućivao je na upalno promijenjenu tireoglosalnu cistu (Slika 2). Na redovnim kontrolama otorinolaringologa, tri mjeseca nakon operacijskoga zahvata, nije bilo znakova recidiva bolesti.



Slika 1. Višeslojna kompjuterizirana tomografija (MSCT) vrata prikazuje tireoglosalnu cistu u dnu usne šupljine a) aksijalni presjek, b) sagitalni presjek i c) koronarni presjek

Figure 1 Multislice computed tomography (MSCT) of the neck shows a thyroglossal cyst in the floor of the oral cavity a) axial view b) sagittal view c) coronal view



Slika 2. Histološko bojenja preparata, obojan hematoksilin-eozinom: histološki lumen tireoglosalne ciste ispunjavaju granulociti i gnojna tjelešca, stijenka je prožeta akutnim upalnim infiltratom i granulacijama, mjestimice je održan luminalni respiratorni epitel. Histološki upalno promijenjena tireoglosalna cista.

Figure 2 Histological staining of preparations, stained with hematoxylin-eosin: the lumen of the thyroglossal cyst is filled with granulocytes and purulent bodies, the wall is permeated with acute inflammatory infiltrate and granulations, the luminal respiratory epithelium is preserved in places. Histologically – inflammatory thyroglossal cyst.

Rasprava

Štitna žlijezda se spušta od foramen caecuma, u području baze jezika, do svog konačnog odredišta iznad jugularne udubine na prednjoj strani vrata, u razdoblju od 4. do 8. gestacijskog tjedna. Obliteracija tireoglosalnog kanala odvija se od 7. do 11. tjedna gestacije.^{4,9} Izostanak obliteracije tireoglosalnog kanala može rezultirati razvojem tireoglosalne ciste na bilo kojem području od baze jezika do prsne kosti. Lokalizirane su najčešće infrahoidno (65-80 %), iako se mogu pojavljivati i suprahoidno, u dnu usne šupljine, intrahoidno, u korijenu jezika ili intralaringealno.^{9,10} Iako se najčešće javljaju kod djece, mogu se dijagnosticirati i kod odraslih.^{9,10} Liječenje je operacijsko, postupkom po Sistrunku, što uključuje ekstirpaciju tireoglosalne ciste, njenog kanala i središnjeg dijela jezične kosti, kako bi se mogućnost recidiviranja svela na najmanju moguću mjeru.⁷ Tireoglosalna cista lokalizirana u dnu usne šupljine je rijetkost, te je vjerojatnija dijagnoza drugih oboljenja zbog udaljenosti od uobičajenog puta

migriracije kroz tireoglosalni kanal.⁴ Obzirom na to da suprahoidna pojavnost tireoglosalne ciste nije učestala, lako se može dogoditi da bude zaboravljena prilikom razmišljanja o difencijalnoj dijagnozi. Podaci o suprahoidnim cistama u dostupnoj literaturi su oskudni.¹⁰ U ovom radu je prikazana odrasla žena s cistom smještenom u dnu usne šupljine. Operirana je tehnikom po Sistrunku, te je bila bez znakova recidiva u poslijeoperacijskom praćenju.

Klinički pregled ima važnu ulogu u dijagnosticiranju tireoglosalnih cisti vrata, uz korištenje radioloških slikovnih metoda (MSCT vrata) i ultrazvučnog pregleda vrata s citopunkcijom, kako bismo imali potpunu sliku o prirodi bolesti, proširenosti i odnosu sa susjednim strukturama, te u konačnici valjani kirurški plan i operaciju.^{9,11} Ukoliko navedeni dijagnostički postupci nisu dovoljni, moguće je učiniti i magnetsku rezonanciju vrata, kako bi se sa sigurnošću dijagnosticirala cistična promjena, te razlučila od ostalih promjena koje se javljaju u području dna usne šupljine (dermoidna ili epidermoidna cista, branhijalna cista, limfangiom, submandibularni odontogeni apsces, Lemierrov angina).¹² Kod djece je diferencijalno dijagnostički potrebno isključiti limfadenitis, a kod odraslih regionalne metastaze tumora u području glave i vrata.^{1,11}

U našem slučaju kliničkim pregledom smo posumnjali na tireoglosalnu cistu koju smo dijagnostičkim pretragama i dokazali, te adekvatno kirurški zbrinuli. Kirurški zahvat kod tireoglosalne ciste u području dna usne šupljine moguće je izvesti i kroz usta, no ukoliko nije izvediva resekcija jezične kosti transoralno, zahvat treba proširiti i na vrat, kako bi postupak ekstirpacije ciste i resekcije medijalnog dijela jezične kosti bio primjereno obavljen.

Literatura

1. Pupiće-Bakrač J, Pupiće-Bakrač A, Novaković J, Skitarelić N. Congenital neck masses. *J Craniofac Surg* 2021;32:1417-1420.
2. Kerr J, Niermeyer WL, Baker PB, Chiang T. Floor of mouth thyroglossal duct cyst: a rare embryologic course. *J Surg Case Rep* 2019;2019:rjz303.
3. Chou J, Walters A, Hage R, et al. Thyroglossal duct cyst: anatomy, embryology and treatment. *Surg Radiol Anat* 2013;35:875-81.
4. Nakayama S, Kimachi KI, Nakayama K, Ikebe T, Ozeki S. Thyroglossal duct cyst occurring in the floor of the mouth: Report of 2 Cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;67:2690-3.
5. Shengwei H, Zhiyong W, Wei H, Qingang H. The management of pediatric neck masses. *J Craniofac Surg* 2015;26:399-401.

6. Pynnonen MA, Gillespie MB, Roman B, Rosenfeld RM, Tunkel DE, Bontempo L et al. Clinical practice guideline: evaluation of the neck mass in adults. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2017;157:S1-S30.
7. Sistrunk WE: The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract. *Ann Surg* 1920;71:121-122.
8. Pupiće-Bakrač J, Lasić V, Matoc L, Knežević P, Skitarelić N, Novaković J. Two-centre experience in the treatment of thyroglossal duct remnants using the modified muscle-sparing Sistrunk technique. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2023;S0901-5027: 00019-X.
9. Thompson LD, Herrera HB, Lau SK. A clinicopathologic series of 685 thyroglossal duct remnant cysts. *Head Neck Pathol* 2016;10:465-474.
10. Bist SS, Bisht M, Varshney S, Gupta N, Bhatia R. Thyroglossal duct cyst in hyoid bone: Unusual location. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;59:366-8.
11. Patel S, Bhatt AA. Thyroglossal duct pathology and mimics. *Insights Imaging* 2019;10:12.
12. Taha A, Enodien B, Frey DM, Taha-Mehlitz S. Thyroglossal Duct Cyst, a Case Report and Literature Review. *Diseases* 2022;10:7.