

Wrodzone anomalie szyi u dzieci: torbiele i przetoki szyi

Teresa Ryczer, *Lidia Zawadzka-Głós, Katarzyna Sobczyk

Klinika Otolaryngologii Dziecięcej, Warszawski Uniwersytet Medyczny
Kierownik Kliniki: dr hab. n. med. Lidia Zawadzka-Głós

CONGENITAL ANOMALIES OF THE NECK: NECK CYSTS AND FISTULAS

Summary

Introduction. Branchial cleft cysts, thyroglossal duct cysts and branchial cleft fistulas are congenital anomalies. Differential diagnosis consist of lesions that have congenital, inflammatory or neoplastic etiology.

Material and methods. Retrospective analysis of patients with neck masses that have been hospitalized in the Department of Pediatric Otorhinolaryngology of Medical University of Warsaw in years 2011 to 2013 have been done. The group of 47 children with initial diagnosis of branchial cleft cyst, thyroglossal duct cyst and branchial cleft fistula was selected. Demographic characteristics, localization of the lesion, type of diagnostic imaging, antibiotic therapy and management was evaluated.

Results. There were 47 patients (M:27, F:20). Final diagnosis confirmed initial diagnosis in 39 cases: thyroglossal duct cyst n = 17, branchial cleft cyst n = 13, branchial cleft fistula n = 9. Other results of histopathological examination stated: atheroma, lymphangioma cavernosum, epithelioma calcificans Mahlerbe. Thyroglossal duct cyst was more frequent in boys ($p < 0.05$). Branchial cleft cyst and branchial cleft fistula were more often right-sided ($p < 0.01$). Branchial cleft cysts were more frequent in patients over 15 years old ($p < 0.01$). Diagnostic imaging tests performed were ultrasonography (65%), computed tomography (19%), thyroid scintigraphy (14%).

Conclusions. The most frequent congenital lesion was thyroglossal duct cyst and it was more frequent in males. Branchial cleft cysts manifested more frequently in children over 15 years old. Branchial cleft cyst and fistulas were more often right-sided. Clinical features of thyroglossal duct cyst or branchial cleft cyst may imitate neck masses of different etiology. Ultrasonography should be first-line imaging in a patient with neck mass. A patient with branchial cleft cyst, thyroglossal duct cyst or branchial cleft fistula should undergo surgical treatment.

Key words: thyroglossal duct cyst, branchial cleft cyst, neck fistula, ultrasonography

WSTĘP

Torbiele i przetoki szyi należą do zmian wrodzonych. Powstają na skutek zaburzeń rozwojowych tkanek płodowych: kieszonki gardłowej, łuków skrzelowych i przewodu tarczowo-językowego (1-4). Zarówno torbiele, jak i przetoki mogą mieć charakter wewnętrzny, kiedy uwypuklają się lub otwierają się do gardła lub zewnętrzny, kiedy są widoczne na powierzchni szyi (1).

W większości opracowań naukowych podaje się, iż torbiele boczne szyi w 95% wywodzą się z II łuku skrzelowego (4). Jednakże w ostatnim czasie teoria skrzelopochodna rozwoju torbieli bocznych jest zastępowana przez teorię, która sugeruje, iż torbiele boczne rozwijają się z pozostałości nabłonkowych w obrębie węzłów chłonnych szyi. Wiek pacjentów, u których się one ujawniają, również sugerowałby zmianę nabytą. Dodatkowo może wskazywać na to fakt, iż w czasie operacji torbieli bocznych nie stwierdza się przewodu łączącego torbiel z gardłem lub skórą szyi, co wówczas przemawiałoby za teorią skrzelopochodną (2, 4). Torbiele boczne szyi mogą ujawnić się w każdym wieku, najczęściej jednak klinicznie ujawniają się w dzieciństwie u dzieci kilku- i kilkunastoletnich, według niektórych autorów częściej u płci żeńskiej (1, 4). Zlokalizowane są na bocznej powierzchni

szyi, najczęściej w rzucie mięśnia mostkowo-obojczykowo-sutkowego. Często torbiel boczna szyi ujawnia się po infekcji dróg oddechowych; wówczas może mieć charakter zapalny. Klinicznie jest to guz dobrze ograniczony, o miękkiej konsystencji, w stanie zapalnym staje się bolesny, a skóra nad nim może być zaczerwieniona. Postępowaniem z wyboru jest leczenie operacyjne.

Przetoki boczne szyi tworzą się z łuków i kieszonek skrzelowych. Przetoka może być niecałkowita, wówczas jest to ślepy przewód prowadzący z powierzchni w głąb tkanek, lub całkowita, gdy łączy dwie powierzchnie nabłonkowe. Przetoki boczne szyi, które wywodzą się z II kieszonki skrzelowej, mają ujście zazwyczaj w okolicy przedniego (typ 1) lub tylnego brzegu (typ 2) mięśnia mostkowo-obojczykowo-sutkowego w 1/3 dolnej szyi. Z przetoki może stale bądź okresowo wydostawać się wydzielina śluzowa lub serowata, a przy stanach zapalnych – śluzowo-ropna bądź ropna. Częściej występują przetoki niecałkowite (zachyłki), które kończą się w tkankach miękkich szyi lub gardła. Przetoka całkowita może kończyć się w tkance migdałka podniebiennego. Przetoki zauważane są zazwyczaj po urodzeniu. Przy występowaniu przetok obustronnych lub dodatnim wywiadzie rodzinnym w ich kierunku, wskazane jest kontrolne

badanie słuchu i USG nerek celem wykluczenia zespołu skrzelowo-uszno-nerkowego. Leczenie jest operacyjne, w przypadkach częstych stanów zapalnych przetoki operacja powinna być wykonana wcześniej (1-3).

Torbiele lub przetoki środkowe szyi są pozostałościami przetrwałego przewodu tarczowo-językowego. Torbiel środkowa szyi stanowi 70% wszystkich anomalii rozwojowych szyi. Ujawnia się zazwyczaj w linii pośrodkowej pomiędzy górnym brzegiem chrząstki tarczowatej a trzonem kości gnykowej. Rzadkie lokalizacje to nasada języka, okolica wcięcia mostkowego lub wewnątrz tkanki tarczycy. Zalecane jest wykonanie badania USG celem potwierdzenia charakteru torbieli oraz potwierdzenia obecności prawidłowej tarczycy. Opis USG może sugerować przestrzeń hypoechoiczną (obraz typowy) lub opisywać guz lity lub heterogeny. Zaleca się leczenie operacyjne (1-3).

MATERIAŁ I METODY

Przeprowadzono retrospektywną analizę pacjentów z guzami szyi o różnej etiologii hospitalizowanych w Klinice Otolaryngologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego w latach 2011-2013. Wyodrębniono grupę 47 dzieci ze wstępnym rozpoznaniem torbieli bocznej, torbieli środkowej i przetoki szyi. Ocenie poddano dane demograficzne, lokalizację zmian, rodzaj wykonanych badań obrazowych, zastosowaną antybiotykoterapię oraz leczenie.

WYNIKI

Wśród analizowanej grupy 47 pacjentów było: 27 chłopców, 20 dziewczynek. Średni wiek pacjentów różnił się w zależności od rozpoznania: torbiel środkowa – 5,65 lat, torbiel boczna – 12,77 lat, przetoka szyi – 3,83 lat. Rozpoznanie ostateczne (tab. 1) ustalone na podstawie badania histopatologicznego potwierdziło wstępną diagnozę u 39 pacjentów: torbiel środkowa szyi n = 17; torbiel boczna n = 13; przetoka szyi n = 9. W grupie pacjentów z rozpoznaniem wstępnym torbieli środkowej szyi w badaniu histopatologicznym u 4 dzieci uzyskano wynik

atheroma (kaszak). Natomiast w grupie pacjentów z rozpoznaniem wstępnym torbieli bocznej szyi u 4 dzieci wyniki badania histopatologicznego wykazały: *lymphangioma cavernosum* (naczyniak limfatyczny jamisty, n = 2), *atheroma* (n = 1), *epithelioma calcificans Mahlerbe* (nabłoniak wapniejący Mahlerbe, n = 1). Torbiel środkowa szyi była najczęstszą wrodzoną anomalią w badanej grupie (36%) i częściej występowała w grupie chłopców (p < 0,05). Torbiel boczna szyi i przetoka szyi występowały częściej po stronie prawej (p < 0,01), nie stwierdzono przewagi płci w tej grupie. Torbiele boczne szyi były częściej obserwowane w grupie powyżej 15 roku życia (p < 0,01).

Przetoki szyi u 7 pacjentów (78%) były obserwowane już od urodzenia, z występowaniem objawów pod postacią okresowych wycieków ropnej wydzieliny z przetoki, na ogół w czasie infekcji górnych dróg oddechowych. Dodatkowo w 2 przypadkach przetok bocznych współwystępowały inne wady rozwojowe głowy i szyi (wyrośla przyduszne, wady ucha wewnętrznego). W 5 przypadkach przetoki boczne kierowały się ku górze, do kąta żuchwy kończąc się ślepo na różnych poziomach w obrębie mięśnia mostkowo-obojęczykowo-sutkowego; u 2 pacjentów drażyły aż do migdałka podniebiennego.

W 5 przypadkach (72%) przetok bocznych w badaniu histopatologicznym postawiono rozpoznanie *cystis bronchogenes*. Ten wynik łącznie z wywiadem wcześniejszej infekcji, miejscowego stanu zapalnego, podwyższonej temperatury ciała oraz podwyższonych wykładników stanu zapalnego (57%) mógłby sugerować współistnienie torbieli bocznych szyi, które uległy opróżnieniu przez przetoki skórne przed zakończeniem diagnostyki i postawieniem rozpoznania końcowego.

Najczęstszym wykonywanym badaniem obrazowym było usg szyi (65%, n = 24) (ryc. 1 i 2). Tomografia komputerowa była wykonana u 19% pacjentów (n = 7) pacjentów (ryc. 3 i 4), a scyntygrafia tarczycy u 14% pacjentów (n = 5). W okresie okołoperacyjnym zlecono antybiotykoterapię u 41% (n = 15). Wszyscy zostali poddani leczeniu chirurgicznemu.

Tabela 1. Zestawienie danych.

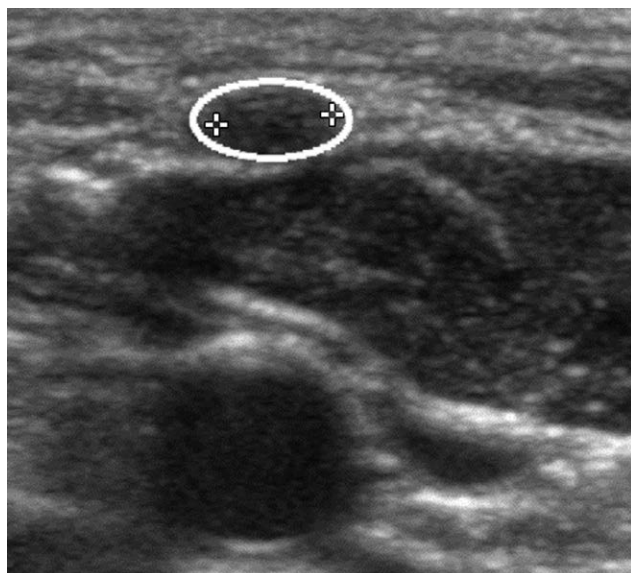
Rodzaj anomalii szyi	Rozpoznanie wstępne	Potwierdzenie w badaniu histopatologicznym	Inne rozpoznania histopatologiczne	PŁEĆ M:K	LOKALIZACJA			Średni wiek (lata)
					Strona prawa	Strona lewa	Pośrodkowa	
Torbiel środkowa	21	17	Atheroma (n = 4)	11:6			21	5,65
Torbiel boczna	17	13	Lymphangioma cavernosum (n = 2) Atheroma (n = 1) Epithelioma calcificans Mahlerbe (n = 1)	7:6	10	3	0	12,77
Przetoka szyi	9	9		5:4	4	3	2 nad wcięciem mostka	3,83



Ryc. 1. Torbiel środkowa szyi w badaniu USG.



Ryc. 3. Torbiel środkowa szyi w obrazie TK.



Ryc. 2. Przetoka boczna szyi w badaniu USG.



Ryc. 4. Torbiel boczna szyi w obrazie TK.

DYSKUSJA

Diagnostyka torbieli szyi wymaga różnicowania z innymi guzami szyi, wśród których mogą być inne zmiany wrodzone, zmiany zapalne, guzy nowotworowe, zmiany pourazowe (3-5). U dzieci większość (90%) guzów szyi ma etiologię wrodzoną lub zapalną. Jednakże u dzieci z litym, spoistym guzem, bez cech odczynu zapalnego, należy na pierwszym miejscu wykluczyć etiologię nowotworową (2, 3). Poza torbielą boczną i środkową szyi wśród innych wrodzonych guzów szyi wyróżniamy: torbiel skórasta, malformacje naczyniowe (naczyniaki), torbiel grasiczą. Guzy zapalne szyi obejmują: zapalenie węzłów chłonnych w przebiegu chorób wirusowych i bakteryjnych, w tym ropnie szyi, ropowice szyi i dna jamy ustnej (rzadkie u dzieci), zapalenie ślinianki podżuchwowej, chorobę kociego pazura, toksoplazmozę, gruźlicę węzłów chłonnych, promienicę, sarkoidozę. Guzy nowotworowe szyi mogą być łagodne, złośliwe lub

ujawniać się jako przerzuty do węzłów chłonnych. Wśród guzów nowotworowych łagodnych szyi wyróżnia się tłuszczaki, kaszaki (torbiel łojowa, torbiel naskórkowa), guzy wywodzące się z tkanki nerwowej – nerwiakolókniak i nerwiak osłonkowy, potworniaki (np. torbiel skórasta). Nowotwory złośliwe, które manifestują się w postaci guza na szyi to ziarnica złośliwa, chłoniaki nieziarnicze, białaczki, *neurofibrosarcoma* lub złośliwy nerwiak osłonkowy, *neuroblastoma*, mięsaki. U dzieci może dojść do przerzutów nowotworowych do węzłów chłonnych szyi w raku nosogardła lub tarczycy. Rzadkie guzy szyi o innym pochodzeniu to np. fibromatoza szyi, torbiel zewnętrzna kieszonki krtaniowej, przepuklina płucna powięzi szyi.

Torbiele środkowe szyi najczęściej występują w pierwszej dekadzie życia (8). W badanej grupie pacjentów średni wiek pacjentów z torbielą środkową szyi w chwili operacji wynosił 5,65 lat. Większość przetok bocznych

szy ujawnia się do 5 roku życia, a torbiele bocznych od drugiej do czwartej dekady życia (9). W naszej pracy średni wiek pacjenta operowanego z powodu przetoki szyi wynosił 3,83 lata, a wiek pacjenta z torbielą boczną szyi – 12,77 lat.

Torbiele środkowej szyi częściej występowały w naszej pracy w grupie chłopców, co znajduje potwierdzenie w pracy Flageole'a i wsp. (10). Niektórzy autorzy podają, iż torbiele boczne szyi i przetoki wywodzące się z drugiego łuku skrzelowego częściej występują u płci żeńskiej (1, 2, 4). W naszej grupie pacjentów nie stwierdzono istotnej przewagi płci u pacjentów z torbielą boczną i przetoką szyi, jednak grupa pacjentów nie była liczna. W grupie poddanych analizie pacjentów torbiel boczna szyi i przetoka szyi częściej występowały po stronie prawej, co potwierdzają niektóre opracowania naukowe (6, 7). W opracowaniu F. C. Agaton-Bonilli i wsp. większość torbieli bocznych i przetok bocznych szyi występowała po stronie lewej, grupa pacjentów była jednak znacznie większa (183 osoby), brane pod uwagę były zarówno dzieci, jak i dorośli (4). Obustronne występowanie anomalii drugiego łuku skrzelowego jest podawane w 1-30% przypadków (4, 6).

Rozpoznanie opiera się głównie na badaniu przedmiotowym i typowych cechach klinicznych zmiany, jaką jest torbiel boczna, torbiel środkowa szyi czy przetoka. Potwierdzenie uzyskuje się na podstawie badania USG. W przypadkach wątpliwych (w szczególności, gdy podejrzewa się malformację naczyniową lub guz nowotworowy) wskazane jest wykonanie tomografii komputerowej z kontrastem lub rezonansu magnetycznego. Wyżej wymienione badania obrazowe oraz scyntygrafia tarczycy mogą również być pomocne w diagnostyce u pacjentów z torbielą środkową szyi w celu ustalenia obecności ektopowej tarczycy, gdy brak jest prawidłowo położonej tarczycy. Usunięcie ektopowej tkanki tarczycy może prowadzić do niedoczynności tarczycy (8), jednakże występowanie ektopowej tarczycy jest bardzo rzadkie (1-2%). Biopsja cienkoigłowa jest przydatna w różnicowaniu zmian o charakterze torbieli od innych guzów, szczególnie przy podejrzeniu zmian złośliwych, jednak z uwagi na ryzyko zranienia nie jest ona często wykonywana u dzieci.

Leczenie torbieli bocznej, torbieli środkowej szyi i przetok szyi jest chirurgiczne. Powinno ono być przeprowadzone w okresie, gdy nie ma stanu zapalnego zmiany. Gdy stwierdza się stan zapalny torbieli lub przetoki szyi, powinno się zastosować antybiotykoterapię. Torbiel środkową szyi, ze względu na duże ryzyko na-

wrotu (50%), usuwa się wraz z trzonem kości gnykowej. Ryzyko nawrotu torbieli środkowej jest znacznie mniejsze w przypadku, gdy operowana torbiel nie jest w stanie zapalnym. W analizowanej grupie pacjentów z torbielą środkową 4 dzieci była reoperowana. Natomiast wśród pacjentów z torbielą boczną jeden pacjent wymagał ponownego leczenia chirurgicznego.

WNIOSKI

Wśród anomalii szyi u dzieci dominują zmiany wrodzone, takie jak: torbiele środkowe szyi, torbiele boczne szyi i przetoki. Najczęstszą wadą wrodzoną w badanej grupie była torbiel środkowa szyi, która częściej występowała u chłopców. Torbiele boczne szyi klinicznie manifestują się częściej u dzieci starszych, powyżej 15 r.ż.; nie stwierdzono przewagi płci w danej grupie. Torbiel boczna szyi i przetoka szyi częściej występowały po stronie prawej. Pomocnym badaniem obrazowym w diagnostyce różnicowej wad wrodzonych jest USG szyi. Cechy kliniczne torbieli bocznej bądź środkowej szyi mogą imitować guzy szyi o innej etiologii. W razie konieczności dodatkowej diagnostyki tomografia komputerowa z kontrastem jest badaniem z wyboru. Antybiotykoterapia jest wskazana w przypadku stanów zapalnych torbieli i przetok szyi oraz w okresie okołoperacyjnym, jeśli zmiana ma cechy stanu zapalnego. Postępowaniem z wyboru u pacjenta z torbielą boczną szyi, torbielą środkową szyi i przetoką szyi jest leczenie chirurgiczne.

Piśmiennictwo

1. Janczewski G, Goździk-Żołnierkiewicz T: Konsultacje otolaryngologiczne. PZWL, Warszawa 1990: 335-336.
2. Gryczyńska D (red.): Otolaryngologia Dziecięca. Alfa-Medica Press, Bielsko Biala 2007: 456-466.
3. Behrbohm H, Kaschke O, Nawka T, Swift A: Choroby ucha, nosa i gardła z chirurgią głowy i szyi. Elsevier Urban & Partner, Wrocław 2009: 393-408.
4. 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: 449-452.
5. Moir Ch R: Neck Cysts, Sinuses, Thyroglossal Duct Cysts, and Branchial Cleft Anomalies. *Operative Techniques in General Surgery* 2004; 4: 281-295.
6. Rattan KN, Rattan S, Parihar D et al.: Second branchial cleft fistula: is fistulogram necessary for complete excision. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006; 70(6): 1027-1030.
7. Simpson RA: Lateral cervical cysts and fistulas. *Laryngoscope* 1969; 30-59.
8. Brousseau VJ, Solares CA, Xu M et al.: Thyroglossal duct cysts: presentation and management in children versus adults. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003; 1285-1290.
9. Ford G, Balakrishnan A, Evans J, Bailey C: Branchial cleft and pouch anomalies. *J Laryngol Otol* 1992; 106(2): 137-43.
10. Flageole H, Laberge JM, Nguyen JT et al.: Reoperation for Cysts of the Thyroglossal Duct. *Can J Surg* 1989; 38:255-259.

nadesłano: 14.07.2014

zaakceptowano do druku: 26.08.2014

Adres do korespondencji:

*Lidia Zawadzka-Głós

Klinika Otolaryngologii Dziecięcej WUM

ul. Marszałkowska 24, 00-576 Warszawa

tel.: +48 (22) 628-05-84

e-mail: laryngologia@litewska.edu.pl