

Prikaz bolesnika

Tireoglosalna cista sa orofaringealnom propagacijom kod četrdesetogodišnjeg muškarca

**Miroslav Obrenović^{1,2},
Siniša Šolaja^{1,2},
Siniša Kojić^{2,3},
Vekoslav Mitrović^{1,2},
Mirjana Čuk^{1,2},
Borko Davidović¹**

¹Univerzitetska bolnica Foča, Republika Srpska, Bosna i Hercegovina

²Univerzitet u Istočnom Sarajevu, Medicinski fakultet, Foča, Republika Srpska, Bosna i Hercegovina

³Klinika „Varis“, Beograd, Srbija

Primljen – Received: 20/07/2018
Prihvaćen – Accepted: 30/10/2018

Adresa autora:
Viši asist. dr Miroslav Obrenović, Mr sc. med.
Svetosavska 27, 73300 Foča
miroobrenovic@yahoo.com

Copyright: ©2018 Obrenović M, et al. This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution 4.0 International (CC BY 4.0) license.

Kratak sadržaj

Uvod. Tireoglosalna cista predstavlja najčešću kongenitalnu anomaliju vrata i javlja se kod oko 7% ukupne populacije. Nastaje kao posljedica izostanka obliteracije *ductus thyreoglossus*-a za vrijeme tireoidne migracije tokom embrionalnog razvoja. Najčešće se dijagnostikuje u prvoj deceniji života, a dijagnoza se postavlja kliničkim pregledom, ehosonografijom, multislajsnom kompjuterizovanom tomografijom (MSCT) i/ili magnetnom rezonancom (MRI) glave i vrata, finom iglenom aspiracijom (FNA) i citološkom analizom punktata. Terapija je hirurška, operacijom po Sistrunk-u.

Prikaz bolesnika. Četrdesetogodišnji pacijent je hospitalizovan radi dijagnostike i liječenja tumora podvilične i podbradne regije i usne šupljine, sa dislokacijom jezika, otežanim gutanjem, i govorom. Pacijent je u ranom djetinjstvu uočio potkožnu izraslinu ispod brade koja je postepeno rasla. Kliničkim pregledom vidi se potkožna tumorska masa koja zahvata submentalnu i obje submandibularne regije predominantno lijevo uz intraoralnu prezentaciju submukoznog tumora koja u potpunosti ispunjava orofarinks i dislocira jezik udesno. MSCT poda usta i vrata ukazuje na nepravilno ovalni tumor veličine 120 x 95 x 90 mm, koji gornjim polom doseže do tvrdog nepca, zauzima usnu šupljinu te se spušta anterolateralno i više lijevo u regiju vrata do hioidne kosti, udesno dislocirajući jezik, jednak i strukture farinksa i larinksa. Citološka analiza sadržaja ciste dobijenog FNA pokazuje da sadržaj odgovara tireoglosalnoj cisti. U uslovima opšte nazotrahealne anestezije uradi se operacija po Sistrunk-u sa odstranjenjem cističnog tumora i srednjeg dijela hioidne kosti uz repozicioniranje jezika. Postoperativni tok protekao uredno. Funkcije govora i gutanja u potpunosti rehabilitovane. Patohistološki nalaz je potvrdio da se radi o tireoglosalnoj cisti.

Zaključak. Tireoglosalne ciste su najčešće kongenitalne anomalije vrata i uspješno se liječe operativnim zahvatom sa zadovoljavajućim ishodom, niskom stopom komplikacija i malim procentom recidiva.

Ključne riječi: tireoglosalna cista, dijagnostika, operativni zahvat

Uvod

Tireoglosalne ciste (TC) su druge po učestalosti benigne lezije vrata, odmah nakon limfadenitisa. U cilju dijagnostike i liječenja ovih benignih tvorevina, neophodno je razumijevanje embriologije i anatomije štitaste žlijezde [1]. Tokom embrionalnog razvoja, između četvrte i sedme nedjelje intrauterinog života, tkivo štitaste žlijezde započinje svoj razvoj tako što migrira od *foramen caecum*-a jezika (na spoju srednje i stražnje trećine jezika) naniže, prelazeći ispred ili iza (rijetko kroz) hioidne kosti, gdje se dalje ćelije donjeg dijela duktusa diferentuju u tiroidno tkivo stvarajući piramidalni

lobus žlijezde (*lobus pyramidalis*). Nakon što medijalni tireoidni primordijum krajem pete nedjelje zauzme svoje konačno mjesto u vratu dolazi do stvaranja organa sa dva lobusa spojenih između istmusom. U slučaju kada ne dođe do regresije *ductus thyreoglossus-a*, kasnije, u medijalnoj liniji vrata dolazi do formiranja tvorevine koja se može prezentovati kao cista, sinus ili fistula vrata. Tokom navedenog perioda nastaju i histološke promjene koje se manifestuju zamjenom kompleksnog trakastog rasporeda ćelija solidnim epitelnim masama, te se, oko trećeg mjeseca fetalnog života, formira folikul bez sadržaja, koji se kasnije ispunjava koloidom [2].

Klinički se TC ispoljava kao bezbolna poluoptasta potkožna tvorevina iznad laringealne prominencije, a u medijalnoj liniji vrata pa se u većini slučajeva detektuju u prvoj deceniji života [2, 3]. Tokom kliničkog pregleda karakteristična je mobilnost ciste tokom akta gutanja i/ili protruzije jezika. Nerijetko je prvi razlog javljanja ljekaru akutna inflamacija ciste uz pojavu crvenila kože u medijalnoj liniji vrata sa ili bez supuracije i tegobama u vidu disfagije i disfoni-je. Najčešće su TC veličine između 2,0 i 4,0 cm i samo u iznimnim slučajevima mogu dostići veći rast, a opisani su i slučajevi maligne alteracije u papilarni ili planocelularni karcinom.

Dijagnostiku upotpunjuje, pored kliničkog pregleda, i radiološka obrada ehosonografijom, multislajsnom kompjuterizovanom tomografi-

jom (MSCT) i/ili magnetnom rezonancom (MRI) glave i vrata, kao i fina iglena aspiracija (FNA) i citološka analiza punktata [4].

Diferencijalno-dijagnostički, u obzir dolaze dermoidne ciste, ektopična lingvalna štitasta žlijezda, medijalno položena cista submandibularne žlijezde, teratom, limfangiom itd.

Raniji pokušaji liječenja TC prostom incizijom i drenažom sadržaja doveli su do pojave recidiva u oko 50% slučajeva. Tek 1893. godine Schlange predlaže da se uz ekstirpaciju ciste u disekat uključi i središnji dio hoidne kosti, što je smanjilo procenat recidiva na 20%.

Danas, liječenje podrazumijeva hirurško odstranjenje ciste zajedno sa središnjim dijelom hoidne kosti – operativni zahvat čije je postulate postavio sir Walter Sistrunk [5] još 1920. godine, i koja podrazumijeva široku eksciziju tkiva oko ciste u svom suprahoidnom dijelu ka *foramen caecum-u*, obzirom da se u gornjim partijama *ductus thyreoglossus* sastoji od veoma fragilnog zida čime je njegova disekcija značajnije otežana [5]. Takva hirurška intervencija, koja je i danas "zlatni standard" u liječenju TC dovela je do smanjenja procenta recidiva na 4-8% [6].

Prikaz bolesnika

Četrdesetogodišnji muškarac se javlja na pregled u Odjeljenje za otorinolaringologiju i maksilofacijalnu hirurgiju Univerzitetne bolnice Foča sa



Slika 1. Preoperativni izgled pacijenta - ekstraoralna propagacija tireoglosalne ciste



Slika 2. Preoperativni izgled pacijenta - intraoralna propagacija tireoglosalne ciste



Slika 3. Intraoperativni snimak – ekstirpacija tireoglosalne ciste



Slika 4. MSCT glave i vrata preoperativno (transverzalni presjek)

velikom potkožnom tumorskom masom podbradno i podvilično obostrano, predominantno lijevo, kao i sa većom izraslinom u ustima, te otežanim govorom i gutanjem. Anamnestički, od djetinjstva zna za potkožnu “izraslinu iznad grkljana” koja se godinama postepeno uvećavala, a od prije desetak godina uočio je da mu se ispod sluzokože poda usta pojavila izraslina koja je sporo godinama rasla pomijerajući jezik udesno, te od prije nekoliko godina ima problema sa gutanjem i govorom. Prvi put se javlja na pregled. Inspekcijom se uočava deformitet submentalne i obje submandibularne regije predominantno lijevo u vidu potkožne, bezbolne, elastične tumorske mase, koja gornjim polom submukozno zauzima usnu šupljinu dislocirajući jezik udesno, ukupnog prečnika oko 12,0 cm, usljed čega su oro- i hipofarinks nedostupni vizuelizaciji (Slike 1 i 2). MSCT orofarinksa i vrata na aksijalnim i kasnijim rekonstruktivnim presjecima od nivoa tvrdog nepca, kroz usnu šupljinu te spuštajući se anterolateralno i više ulijevo u regiju vrata do nivoa hioidne kosti se uočava nepravilno ovalna promjena veličine 120 x 95 x 90 mm, centralno, denziteta oko 33 HU. Anteriorno uz zid pro-

mjene se uočava i septirana zona denziteta oko 120 HU, sa jasnim nivoom prema likvidnom dijelu promjene. Promjena je jasno ograničena od okolnih struktura i postkontrastno se neznatno opacificira rubno, značajno dislocira jezik, jednjak, kao i strukture farinksa i larinksa (Slike 4, 5 i 6).

Intraoralnim pristupom učinjena je punkcija tumefakta pri čemu je dobijen sivkastožučkast tečan sadržaj koji je analiziran citološki i nalaz je odgovarao sadržaju tireoglosalne ciste. Postavljena je indikacija za operativni zahvat. Preoperativno, a u cilju lakše (nazotrahealne) intubacije, ispunktirano je oko 150 cm³ sadržaja ciste čime je omogućen nesmetan pristup hipofarinksu i larinksu. Urađena je potom tipska operacija po *Sistrunk-u*, kombinovanim ekstra-intraoralnim pristupom uz kasniju rekonstrukciju poda usta i korekciju položaja jezika. Ekstirpovan je cistični tumefakt prečnika oko 12,0 cm koji u potpunosti zauzima submentalnu i submandibularne regije, gornjim polom – submukozno dopire do tvrdog nepca dislocirajući jezik udesno i pomijerajući strukture oro- i hipofarinksa u desnu stranu, a svojim donjim polom je srastao sa tijelom hioidne kosti koji se resekira “*en-bloc*” sa navedenom



Slika 5. Postoperativni izgled pacijenta (dva mjeseca nakon operacije)



Slika 6. Postoperativni izgled pacijenta - intraoralno (dva mjeseca nakon operacije)

cistom (Slika 3). Postoperativni tok protekao uredno, funkcije govora i gutanja u potpunosti rehabilitovane. Definitivni patohistološki nalaz potvrdio dijagnozu tireoglosalne ciste.

Diskusija

Približno tri četvrtine anomalija *ductus thyroglossus*-a se javljaju u obliku TC, dok se u oko 25% slučajeva manifestuju kao drenirajući sinusi na koži podbradne regije. Takav sinus nastaje kao posljedica inflamacije ciste i njene rupture sa fistuloznim otvorom i perzistirajućom drenažom iz ciste. Sem kozmetskog efekta i rane dijagnostike u prvoj deceniji života, TC rijetko narastu u obimu većem od 3,0 cm, te ne daju tegobe, sem ako ne dođe do njihove inflamacije ili pak izostanka hirurškog liječenja, čime mogu da narastu do većih dimenzija potiskujući strukture oro- i hipofarinksa i dovodeći do poremećaja funkcija gutanja i govora [7]. Takve ciste sa intraoralnom propagacijom predstavljaju izazov u smislu izbora vrste anestezije i ekstenzivnosti hirurškog zahvata, s obzirom na to da se strukture hipofarinksa i larinksa ne mogu vizualizovati. Na osnovu našeg iskustva, mišljenja smo da se intraoralnom punkcijom jedne trećine sadržaja ciste omogućava nesmetan pristup hipofarinksu

čime je značajno olakšana intubacija pacijenta, a time se izbjegava traheotomija.

Znatno rjeđe, u TC se može javiti ektopično tireoidno tkivo (manje od 5% slučajeva), a izuzetno rijetko može doći do maligne alteracije u papilarni ili skvamoznoćelijski karcinom [6, 8]. Terapija izbora je ekstirpacija ciste zajedno sa centralnim dijelom hioidne kosti i produženom suprahoidnom ekscizijom ciste sve do *foramen caecum*-a jezika - operativni zahvat koji je Sistrunk detaljno definisao [7, 9]. Procenat recidiva se kreće, u zavisnosti od autora, od 4-10% i u direktnoj vezi sa prethodnim prisustvom inflamacije TC. Na procenat recidiva utiče i izbor hirurške tehnike i veličina same ciste [10, 11]. U slučaju recidiva, savjetuje se reoperativni zahvat sa širom incizijom suprahoidnog tkiva uključujući mukozu *foramen caecum*-a na bazi jezika, jer veći broj studija ukazuje da na rekurenciju TC, pored neadekvatne hirurške ekscizije utiče i prisustvo multiplih akcesornih kanalića koji se bočno odvajaju od tireoglosalnog stabla (tzv. "božićno drveće"). U tom slučaju, većina autora predlaže proširenu Sistrunk-ovu operaciju, "en-block" disekciju vrata, suturno-navođenu transhioidnu faringotomiju ili Koempel-ovu suprahoidnu tehniku [10, 12]. U novije vrijeme izvode se endoskopske cistektomije koje daju bolji kozmetski efekat i znatno

skraćuju vrijeme trajanja operacije, te se smatra da će takva vrsta hirurških intervencija postati nova standardna procedura za tretman ovih lezija. Ipak, broj takvih intervencija još nije toliko veliki da bi se dobio vjerodostojan procenat rekurencije bolesti, te ostaje da se vidi u kojoj mjeri će takva vrsta operativnih zahvata zaživjeti u praksi [12-14].

Zaključak

Tireoglosalne ciste su najčešće razvojne anomalije vrata i uspješno se liječe operativnim zahvatom po Sistrunk-u. S obzirom da se detektuju u prvoj deceniji života, rijetko dostignu veličinu veću od 4,0 cm. Relativno značajan procenat recidiva, koji se u zavisnosti od autora kreće između 4% i 8%, ukazuje na potrebu uvođenja novih hirurških tehnika u tretmanu ovih stanja.

Autori izjavljuju da nemaju sukob interesa.
The authors declare no conflicts of interest.

Literatura

1. Mondin V, Muzzi E, Silver CE, Fagan JJ, Devaney KO, et al. Thyroglossal duct cyst: personal experience and literature review. *Auris Nasus Larynx* 2008;35(1):11-25.
2. Thompson LD, Herrera HB, Lau SK. A clinicopathologic series of 685 thyroglossal duct remnant cysts. *Head Neck Pathol* 2016;10(4):465-74.
3. Karmakar S, Saha AM, Mukherjee D. Thyroglossal cyst: an unusual presentation. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2013;65:185-7.
4. Stern JS, Ginat DT, Nicholas JL, Ryan ME. Imaging of pediatric head and neck masses. *Otolaryngol Clin North Am* 2015;48:225-46.
5. Sistrunk WE. Technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct. *Surg Gynecol Obstet* 1928;46:109-12.
6. Gioacchini FM, Alicandri-Ciufelli M, Kaleci S, Magliulo G, Presutti L, Re M. Clinical presentation and treatment outcomes of thyroglossal duct cysts: a systematic review. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2015;44:119-26.
7. Policeni BA, Smoker WR, Reede DL. Anatomy and embryology of the thyroid and parathyroid glands. *Semin Ultrasound CT MR* 2012;33:104-14.
8. Soni S, Poorey VK, Chouksey S. Thyroglossal duct cyst, variation in presentation, our experience. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2014;66:398-400.
9. Hong P. Management of recurrent thyroglossal duct remnants after Sistrunk procedure: a clinical narrative review of surgical approaches. *The Internet Journal of Otorhinolaryngology* 2012;14(1).
10. Pastore V, Bartoli F. "Extended" Sistrunk procedure in the treatment of recurrent thyroglossal duct cysts: a 10-year experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2014;78:1534-6.
11. Ibrahim FF, Alnoury MK, Varma N, Daniel SJ. Surgical management outcomes of recurrent thyroglossal duct cyst in children--A systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2015;79:863-67.
12. Zhigang H, Wei G, Bing Z, Xiaohong Ch. Minimally invasive endoscopic surgery of thyroglossal duct cysts. *J Laparoendosc Adv Surg Tech* 2015;25:892-6.
13. Burkart CM, Richter GT, Rutter MJ, Myer CM 3rd. Update on endoscopic management of lingual thyroglossal duct cysts. *Laryngoscope* 2009;119:2055-60.

Thyroglossal cyst with oropharyngeal propagation in 40 year-old patient

Miroslav Obrenović^{1,2}, Siniša Šolaja^{1,2}, Siniša Kojić^{2,3},
Vekoslav Mitrović^{1,2}, Mirjana Ćuk^{1,2}, Borko Davidović¹

¹University Hospital Foča, The Republic of Srpska, Bosnia and Herzegovina

²University of East Sarajevo, The Faculty of Medicine, Foča,
The Republic of Srpska, Bosnia and Herzegovina

³Clinic „Varis“, Belgrade, Serbia

Introduction. Thyroglossal cyst represents the most common congenital anomaly of the neck and it occurs in approximately 7% of the overall population. It develops as a consequence of obliteration failure of *ductus thyreoGLOSSUS* during migration of thyroid gland in embryogenesis. It is usually diagnosed during the first decade of life by clinical examination, echosonography, multislice computed tomography (MSCT) and/or magnetic resonance imaging (MRI) of the brain and neck, fine needle aspiration (FNA) and cytological analysis of the FNA content. Treatment is surgical using the Sistrunk procedure.

Case report. The 40 year-old patient was hospitalized for the diagnostics and treatment of the tumor of submental and submandibular region as well as of oral cavity, with right-sided dislocation of the tongue followed by difficulties in swallowing and speech. In his early childhood, the patient detected a subcutaneous formation under the chin that expanded gradually. Clinical examination revealed the subcutaneous tumor mass that affected submental and both submandibular regions, predominantly left-sided with the intraoral presentation of submucosal tumor that completely filled oropharynx and dislocated the tongue to the right side. MSCT of the mouth and neck floor indicated an irregularly oval tumor of 120 x 95 x 90 mm, with its upper pole reaching the hard palate. The tumor filled the oral cavity and descended anterolaterally and more to the left side into the neck region to the hyoid bone, dislocating the tongue, esophagus as well as pharyngeal and laryngeal structures to the right side. Cytological analysis of the FNA content confirmed the presence of thyroglossal cyst. Under nasotracheal intubation, the operation using the Sistrunk procedure was performed, with the removal of cystic tumor, and medial portion of hyoid bone, as well as with the tongue reposition. There were no complications during post-operative period. Speech and swallowing functions were completely rehabilitated. The results of pathohistological analysis confirmed the presence of thyroglossal cyst.

Conclusion. Thyroglossal cysts are the most common congenital anomalies of the neck and the treatment is surgical with satisfying outcome, low complication rates and small percentage of recidives.

Keywords: thyroglossal cyst, diagnostics, surgical procedure