
Ognjen Čukić¹, Vladimir Milenković², Andjela Dimkić-Milenković³,
Dejan Moskovljević², Igor Lazić⁴, Marija Milenković⁴,
Stojan Marić⁵, Radomir Vešović^{2,6}

BRANHIJALNA CISTA VRATA: ŠTA JE ZAISTA VAŽNO? – PRIKAZ SLUČAJA

SAŽETAK: **Uvod:** Smatra se da se anomalije branhijalnog rascepa razvijaju iz branhijalnog aparata koji nije u potpunosti obliterisao tokom embriogeneze glave i vrata. Ove anomalije predstavljaju značajan izazov u pogledu hirurškog lečenja, posebno praćene pogrešnim dijagnozama zbog svoje retkosti. Cilj ovog prikaza slučaja je da se predstavi pregled literature i lečenje retke anomalije kao što je cista porekla drugog branhijalnog rascepa, sa posebnim osvrtom na kliničke, kao i histopatološke aspekte.

Prikaz slučaja: Žena, starosne dobi 24 godine, primljena je na naše odeljenje sa nalazom bezbolnog otoka desne strane vrata koji se javio tri meseca pre prijema, a nakon prethodno sanirane infekcije gornjih disajnih puteva. Pacijentkinji je učinjena potpuna ekscizija cistične promene, sa odličnim kozmetičkim rezultatima i bez znakova recidiva nakon jednogodišnjeg praćenja.

Zaključak: Imajući u vidu postignute rezultate, hirurški tretman predstavlja zlatni standard lečenja. Kod pacijenata starijih od 40 godina moraju se uzeti u obzir cistične metastaze iz okultnog primarnog karcinoma glave i vrata.

Ključne reči: cista branhijalnog rascepa, cervikalna cista, branhijalna anomalija, tumefakt na vratu

¹ Ognjen Čukić, Klinika za otorinolaringologiju, VMA, Beograd, Srbija.

² Vladimir Milenković, Klinika za grudnu hirurgiju, Univerzitetski klinički centar Srbije, Beograd, Srbija, email: vlada1309@gmail.com

³ Klinika za opekotine, plastičnu i rekonstruktivnu hirurgiju, Univerzitetski klinički centar Srbije, Beograd, Srbija.

⁴ Centar za anesteziologiju, Univerzitetski klinički centar Srbije, Beograd, Srbija.

⁵ Kliničko bolnički centar Bežanijska kosa, Odeljenje opšte hirurgije, Beograd, Srbija.

⁶ Univerzitet u Beogradu, Medicinski fakultet, Beograd, Srbija.

Uvod

Smatra se da se anomalije branhijalnog rascepa razvijaju iz ostataka branhijalnog aparata koji ima fundamentalnu ulogu u razvoju struktura glave i vrata tokom ranog embrionalnog razvoja. Tokom embriogeneze, drugi škržni luk se spaja sa trećim i četvrtim lukovima i formira cervicalni sinus i nakon toga nestaje. Stoga je duboko razumevanje razvojnih abnormalnosti od suštinskog značaja za prepoznavanje entiteta kao što su ciste, sinusi i fistule, kao i različite kombinacije prethodno navedenih entiteta [1]. Cista drugog branhijalnog rascepa je najčešći tip anomalije branhijalne anomalije i druga najčešća kongenitalna cistična anomalija vrata posle ciste tiroglosalnog kanala. Ašerson je bio prvi koji je opisao branhijalne fistule 1832. godine kao rezultat nepotpune obliteracije branhijalnih kesica (sakulusa) [2, 3]. Tačna godišnja incidencija u opštoj populaciji nije poznata, a većina slučajeva se dijagnostikuje kod pacijenata starosti između 20 i 40 godina [4, 5]. Ne postoje čvrsti dokazi za naslednu predispoziciju, kao ni za pol ili etničku pripadnost, iako su opisani slučajevi porodičnog nasleđivanja [4, 6, 7]. Obično postaju očigledni u mладости kao bezbolna tumefakcija na vratu koja se nalazi duž prednje granice i gornje trećine sternokleidomastoidnog mišića (SCM). Ciste branhijalnog rascepa su histopatološki benigne, ali sa potencijalom za značajan morbiditet u slučajevima infekcije, kompresije okolnih struktura zbog svoje veličine, kozmetičkog izgleda i potencijalnih hirurških komplikacija. Stoga, ove retke anomalije predstavljaju složen klinički izazov u dijagnostici i lečenju, uključujući ispravnu preoperativnu dijagnostiku, lečenje moguće infekcije i potpunu hiruršku eksiciziju. Osnovni vid lečenja uključuje pažljivo uklanjanje ciste i praćenje nakon operacije. Cilj ovog prikaza slučaja bio je da se predstavi slučaj retke anomalije kao što je cista drugog branhijalnog rascepa.

Prikaz slučaja

Pacijentkinja starosne dobi 24 godine primljena je na naše odeljenje sa kliničkim nalazom bezbolnog otoka na desnoj strani vrata koji se javio tri meseca pre prijema, a nakon prethodno sanirane infekcije gornjih disajnih puteva. Njena anamneza je bila neupadljiva, bez podataka o konzumiranju duvana ili alkohola. Kliničkim pregledom otkrivena je meka, jajolika, pokretna i dobro definisana tumefakcija na desnoj strani vrata, neposredno ispred gornje trećine sternokleidomastoidnog mišića, veličine 3,5 cm, sa intaktnom kožom iznad promene (Slika A). Urađena je fiberendoskopija gornjeg aerodigestivnog trakta, koja je bila normalna, i ultrasonografija vrata, koja je pokazala hipoehogenu cističnu masu tankih zidova. Na osnovu ovih nalaza, pacijent je uveden u operacionu salu i cistična masa je potpuno ekscidirana u opštoj anesteziji. Cista je u celosti prikazana i potom odstranjena kroz desnu bočnu cervikotomiju (Slike B i C). Nakon korektne hemostaze, rana je slojevito zatvorena i plasiran je dren spojen

na aktivnu aspiraciju. Histopatološkim pregledom uzorka potvrđena je dijagnoza branhijalne ciste. Mikroskopski, cistična šupljina je bila okružena skvamoznim epitelom sa gustim limfoidnim infiltratom, koji je formirao germinativne centre (Slika D). Postoperativni period je protekao bez komplikacija i nije bilo znakova recidiva nakon jednogodišnjeg praćenja.

Diskusija

Branhijalne ciste su kongenitalne inkapsulirane, epitelno obložene šupljine koje nastaju usled nepotpune obliteracije branhijalnog aparata tokom embriogeneze u bočnom delu vrata [8]. Postoji nekoliko teorija o poreklu branhijalnih cista. Najprihvaćenija je teorija o neuspehu involucije cervikalnog sinusa, koji se formira od drugog, trećeg i četvrtog branhijalnog luka, i perzistiranja ektodermalnih epitelnih ćelija unutar ovih rudimentarnih struktura. Džepovi ovih perzistentnih ektodermalnih ćelija mogu kasnije u životu da formiraju branhijalne ciste [9]. Ciste drugog branhijalnog rascepa najčešće se nalaze duž prednje granice u gornjoj trećini sternokleidomastoidnog mišića, iako su opisane različite atipične lokalizacije na vratu, uključujući parotidnu žlezdu [10]. Prisustvo limfoidnog tkiva u zidu ciste sugerise inkluzionu teoriju, po kojoj branhijalne ciste nastaju kao posledica epitelnih posuvraćanja unutar cervikalnog limfnog čvora [11]. Štaviše, ova teorija objasnjava zašto većina branhijalnih cista nema unutrašnji otvor, skoro su nepoznate kod novorođenčadi, a najviša incidenca javljanja je mnogo kasnije u životu nego kod drugih urođenih lezija vrata. Odgovor limfoidnog tkiva u sluznici ciste može objasniti iznenadno uvećanje tokom epidize infekcije gornjih disajnih puteva.

Tipičan klinički nalaz je mekana, bezbolna i kompresibilna masa na vratu, smerštena na prednjoj ivici sternokleidomastoidnog mišića, između mandibularnog ugla i klavikule. Pacijent može prijaviti progresivno oticanje navedene regije sa periodima smanjenja otoka ili čak nestajanja. Akutno povećanje veličine može se javiti tokom infekcije gornjih disajnih puteva, dok se mogu javiti i infekcija ciste i zapaljenje kože iznad promene [12]. Diferencijalna dijagnoza uključuje limfangiom, cistu tireoglosalnog kanala, dermoidnu cistu, cistični higrom, laringocelu, limfadenitis i razne mezenhimalne tumore. Posebnu pažnju treba posvetiti pacijentima starijim od 40 godina, kod kojih se moraju uzeti u obzir cistične metastaze iz okultnog primarnog karcinoma regije glave i vrata [13, 14].

Dijagnoza se prvenstveno zasniva na anamnezi i kliničkom pregledu. Ultrasonografija kao inicijalna metoda vizualizacije obično će pokazati anehogenu cistu sa tankim zidovima, dok se kompjuterska tomografija može koristiti u ekstenzivnijim lezijama, posebno za procenu odnosa ciste sa glavnim nervnim i vaskularnim strukturama na vratu [15]. Tretman izbora za branjalnu cistu je potpuna hirurška eksicija [16]. Disekcija može biti relativno laka u pravom sloju kod prethodno

neinficiranih cista, a hirurg mora u potpunosti da isprepariše ležište ciste da bi isključio bilo kakvu pridruženu fistulu ili komunikaciju sa okolnim strukturama [17]. Ako se identificuje komunikaciju treba pratiti, preparisati i ekscidirati „en bloc“ zajedno sa cistom [18]. Temeljno poznavanje anatomije vrata je obavezno da bi se izbegle povrede okolnih struktura [9]. Širi rez na koži olakšava uklanjanje ciste i identifikaciju glavnih neurovaskularnih struktura vrata, ali će na kraju ostaviti veći ožiljak. Zbog toga hirurg mora pažljivo razmotriti vizuelno prihvatljiv kozmetički efekat operacije, ali bez ugrožavanja hirurške radikalnosti, pošto su većina pacijentata mlade odrasle osobe.

Stulner i saradnici su primetili da su odgovarajuća ispitivanja i vođenje slučaja od strane tima iskusnih hirurga za glavu i vrat neophodni ako se želi postići zadovoljavajući ishod [19]. Pored toga, cistične metastaze iz okultnih primarnih tumora glave i vrata, posebno karcinom skvamoznih ćelija (SCC) nepčanog krajnika, mogu klinički i radiografski da oponašaju anomalije branhijalnog rascepa [13, 14, 20]. Lekari moraju biti oprezni u prikupljanju podataka o prekomernom konzumiranju duvana ili alkohola, posebno kod muškaraca starije životne dobi, jer su to dobro poznati faktori rizika za malignitete gornjih disajnih puteva. Pored toga, značajan deo cističnih metastaza na vratu su metastaze karcinoma orofaringealne regije povezanih sa humanim papiloma virusom koji se, za razliku od tradicionalnog SCC, javlja kod mlađe populacije koji su uglavnom nepušači i ne konzumiraju velike količine alkohola [21]. Zbog toga svi pacijenti stariji od 40 godina treba da budu detaljno pregledani od strane specijaliste za uho, grlo i nos, uključujući endoskopiju gornjeg aerodigestivnog trakta u opštoj anesteziji. Ako je endoskopski nalaz nejasan preporučuje se bilateralna tonzilektomija [22].

Zaključak

Poznavanje embrionalnog razvoja glave i vrata, rana dijagnoza, kao i odgovarajući hirurški tretman, ključni su koraci za zadovoljavajući ishod u zbrinjavanju branhijalnih cista. Potpuno uklanjanje ciste pažljivom hirurškom disekcijom je zlatni standard u praksi i mora ga izvesti iskusni hirurg za regiju glave i vrata. Kod pacijentata starijih od 40 godina treba isključiti mogućnost cističnih metastaza u limfnim čvorovima vrata iz okultnog primarnog karcinoma glave i vrata.

SLIKE:



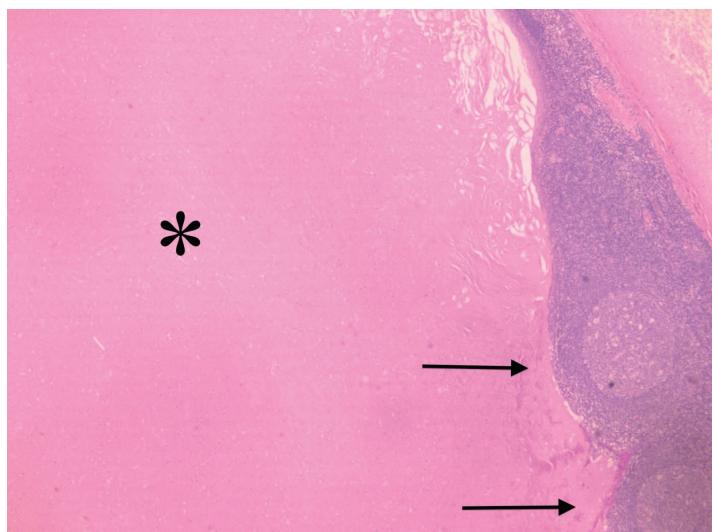
SLIKA A. Kliničkim pregledom uočena je meka, jajolika, pokretna i dobro definisana tumefakcija na vratu neposredno ispred gornje trećine desnog sternokleidomastoidnog mišića, koja je bila veličine 3,5 cm sa intaktnom kožom.



SLIKA B. Cista otkrivena i ispreparisana kroz rez na naboru kože na desnoj strani vrata.



SLIKA C. Makroskopski izgled preparata.



SLIKA D. Histološki, cistična šupljina (zvezdica) je okružena skvamoznim epitelom sa gustim limfoidnim infiltratom, koji formira germinalne centre (strelice; bojenje hematoksilinom i eozinom).

Reference:

1. Papadogeorgakis N., Petsinis V., Parara E., Papaspyrou K., Goutzanis L., Alexandridis C. Branchial cleft cysts in adults. Diagnostic procedures and treatment in a series of 18 cases. *Oral Maxillofac Surg.* 2009 Jun; 13(2): 79–85.
2. Ascherson GM. De fistulis colli congenitis adjecta fissuraru branchialium in mammibus avibusquehistoria succincta. C. H. Jonas, Berolini 1832: 1–21.
3. Golledge J., Ellis H. The aetiology of lateral cervical (branchial) cysts: past and present theories. *J Laryngol Otol.* 1994 Aug; 108(8): 653–9.
4. Coste AH, Lofgren DH, Shermetaro C. Branchial cleft cyst. [Updated 2022 Apr 14]. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2022 Jan. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK499914/>
5. Panchbhai AS, Choudhary MS. Branchial cleft cyst at an unusual location: a rare case with a brief review. *Dentomaxillofac Radiol.* 2012 Dec; 41(8): 696–702.
6. Thomaidis V., Seretis K., Tamiolakis D., Papadopoulos N., Tsamis I. Branchial cysts. A report of 4 cases. *Acta Dermatovenerol Alp Panonica Adriat.* 2006 Jun; 15(2): 85–9.
7. Anand TS, Anand CS, Chaurasia BD. Seven cases of branchial cyst and sinuses in four generations. *Hum Hered.* 1979; 29(4): 213–6.
8. Saussez S., De Maesschalk T., Mahillon V., Filleul O., Louryan S. Second branchia; 1 cyst in the parapharyngeal space: a case report. *Auris Nasus Larynx.* 2009 Jun; 36(3): 376–9.
9. Chavan S., Deshmukh R., Karande P., Ingale Y. Branchial cleft cyst: A case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2014 Jan; 18(1): 150.
10. Nicollas R., Guelfucci B., Roman S., Triglia JM. Congenital cysts and fistulas of the neck. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2000 Sep; 55(2): 117–24.
11. Simo R., Jeannon JP, Ofo E. Benign neck disease. In: Watkinson JC, Clarke RW, editors. Scott-Brown's Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery. 8th ed. Boca Raton: CRC Press; 2019; p. 611–2.
12. Little JW, Rickles NH. The histogenesis of the branchial cyst. *Am J Pathol.* 1967 Mar; 50: 533–47.
13. Micheau C., Klijanienko J., Luboinski B., Richard J. So-called branchiogenic carcinoma is actually cystic metastases in the neck from a tonsillar primary. *Laryngoscope.* 1990 Aug; 100(8): 878–83.
14. Yehuda M., Schechter ME, Abu-Ghanem N., Golan G., Horowitz G., Fliss DM, Abu-Ghanem S. The incidence of malignancy in clinically benign cystic lesions of the lateral neck: our experience and proposed diagnostic algorithm. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2018 Mar; 275(3): 767–73.
15. Janicke S., Kettner R., Kuffner HD. A possible inflammatory reactionin a lateral neck cyst (branchial cyst) because of odontogenic infection. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1994 Dec; 23(6 Pt 1): 369–71.
16. Cunningham M.J. The management of congenital neck masses. *Am J Otolaryngol.* 1992; 13: 78–92.

17. Choi SS, Zalzal GH. Branchial anomalies: a review of 52 cases. *Laryngoscope*. 1995 Sep; 105(9 Pt 1): 909–13.
18. Bellakhdar M., Haouas J., El Abed W., Ghammem M., Kermani W., Abdelkefi M. Second branchial cleft cyst: about 34 cases. *Tunis Med*. 2018 Dec; 96(12): 888–92.
19. Stulner C., Chambers PA, Telfer MR, Corrigan AM. Management of first branchial cleft anomalies: report of two cases. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2001 Feb; 39(1): 30–3.
20. Briggs RD, Pou AM, Schnadig VJ. Cystic metastasis versus branchial cleft carcinoma: a diagnostic challenge. *Laryngoscope*. 2002 Jun; 112(6): 1010–4.
21. Wratten C., Anne S., Tieu MT, Kumar B., Eisenberg R. The dangers of diagnosing cystic neck masses as benign in the era of HPV-associated oropharyngeal cancer. *Med J Aust*. 2015; 203(9): 371–2.
22. McQuone SJ, Eisele DW, Lee DJ, Westra WH, Koch WM. Occult tonsillar carcinoma in the unknown primary. *Laryngoscope*. 1998 Nov; 108(11 Pt 1): 1605–10.