

Ogromny naczyniak limfatyczny okolicy nadobojczykowej o obrazie klinicznym torbieli bocznej szyi

Giant lymphangioma of supraclavicular region mimicking branchial cleft cyst

Maciej Tokarski, Małgorzata Wierzbicka

Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej Uniwersytetu Medycznego im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

Streszczenie

Autorzy przedstawiają przypadek 61-letniej pacjentki z ogromnym naczyniakiem limfatycznym, początkowo zdiagnozowanym jako torbiel boczna szyi. Zmianę usunięto chirurgicznie. Z okolicy nadobojczykowej lewej i okolicy śródpiersia górnego wypreparowano cienkościenny twór o średnicy ok. 13 cm i poddano weryfikacji histopatologicznej.

Słowa kluczowe: naczyniak limfatyczny, torbiel boczna szyi.

Abstract

The authors present a case of a 61-year-old patient with a giant lymphangioma, previously recognized as a branchial cleft cyst. The patient underwent surgery. The lesion was dissected from the supraclavicular fossa and upper mediastinum, and verified in histology.

Key words: lymphangioma, branchial cleft cyst.

(Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi 2013; 1: 14–17)

Wstęp

Torbiele boczne szyi to wady zarodkowe, będące pozostałością aparatu skrzelowego, które mogą być zlokalizowane w różnych okolicach anatomicznych szyi. Najczęściej, bo w ok. 90%, powstają jako efekt anomalii drugiej kieszonki skrzelowej. Podział torbieli ze względu na lokalizację przedstawia klasyczna klasyfikacja Bailey'a. Typ I stanowią torbiele leżące w bezpośrednim sąsiedztwie mięśnia mostkowo-obojczykowo-sutkowego, do przodu i bocznie od niego, typ II – przyśrodkowo od mięśnia, na dużych naczyniach, często w kontakcie z żyłą szyjną wewnętrzną, typ III – między tętnicą szyjną wewnętrzną a zewnętrzną, a typ IV – w obrębie przestrzeni przygardłowej. Najczęściej spotykany jest typ II, natomiast stosunkowo rzadko obserwuje się torbiele w 1/3 dolnej szyi, w okolicy nadobojczykowej.

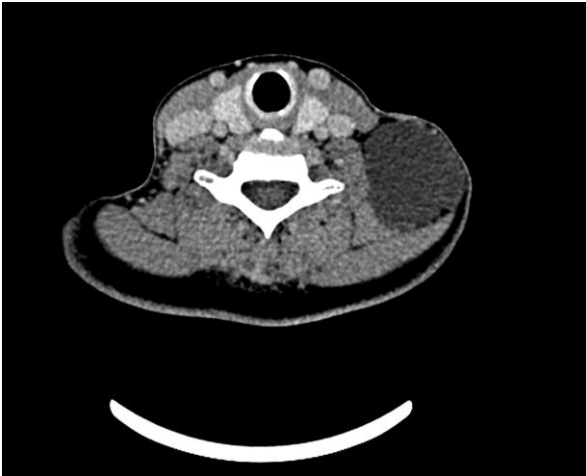
W niniejszej publikacji autorzy przedstawili przypadek ogromnego tworu o charakterze torbielowatym, zlokalizowanego w dolnej części szyi na granicy dołu nad-

obojczykowego i śródpiersia po stronie lewej, cechującego się dużą dynamiką wzrostu.

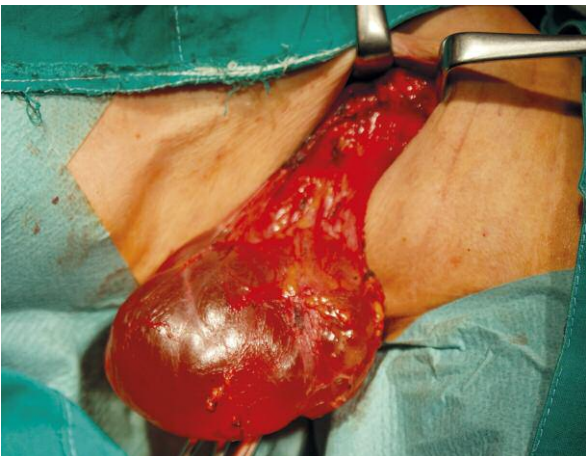
Opis przypadku

Pacjentka 61-letnia została przyjęta do Kliniki z powodu podejrzenia torbieli bocznej szyi po lewej stronie. W wywiadzie podawała pojawienie się przed około 2 lata ruchomej, niebolesnej i niedającej dolegliwości zmiany w okolicy nadobojczykowej lewej o przybliżonych wymiarach 3 cm × 5 cm. Według relacji chorej po około 1,5 roku nastąpił gwałtowny wzrost zmiany w ciągu 2 miesięcy – zmiana osiągnęła średnicę 10 cm, co skłoniło pacjentkę do zgłoszenia się do lekarza. Jedynym faktem z wywiadu ważnym dla diagnostyki różnicowej była patologia tarczycy (wole guzkowe) będąca pod obserwacją endokrynologiczną. W warunkach ambulatoryjnych wykonano badanie ultrasonograficzne szyi, biopsję aspiracyjną cienkoigłową (nie stwierdzono komórek nowotworowych) oraz badanie tomografii komputerowej szyi z kontrastem, w którym wykazano owalną torbiel w oko-





Ryc. 1. Obraz zmiany w tomografii komputerowej szyi



Ryc. 3. Naczyniak limfatyczny okolicy nadobojczykowej – obraz śródoperacyjny

licy nadobojczykowej po lewej stronie o wymiarach 10 cm × 4,5 cm × 5 cm, położoną podskórną, ku tyłowi od mięśnia mostkowo-obończykowo-sutkowego, bocznie od mięśnia pochylego środkowego, tylnego oraz dźwigacza łopatki. Stwierdzono zmianę o gładkich zarysach, odgraniczoną, niewzmocniającą się po podaniu kontrastu, wodnistą zawartość torbieli i brak cech naciekania. Biegun dolny torbieli położony był tuż poniżej lewego obojczyka, na poziomie szczytu klatki piersiowej.

Przy przyjęciu w badaniu przedmiotowym obserwowano zmianę w okolicy nadobojczykowej lewej, penetrującą podobojczykowo, sprężystą, przesuwalną, o wymiarach ok. 13 cm × 8 cm. Skóra nad zmianą była napięta, a węzły chłonne szyi nie były powiększone (ryc. 1., 2 A, B). Podczas leczenia operacyjnego wykonano cięcie na szyi, odpreparowano tkankę podskórną i uwidoczniono ścianę torbieli położoną nisko, od połowy mięśnia mostkowo-obończykowo-sutkowego do pozio-

A



B



Ryc. 2 A, B. Pacjentka przed leczeniem operacyjnym

mu obojczyka i sięgającą dolnym biegunem do śródpiersia. Zmiana była cienkościenna, napięta, przezroczysta, wypełniona bursztynowym płynem – odbarczono 30 ml i wraz z usuniętą w całości torbielą przekazano do badania histopatologicznego (ryc. 3., 4.). Pacjentkę wypisano do domu w trzeciej dobie po zabiegu w stanie ogólnym i miejscowym dobrym. W badaniu histopatologicznym przeprowadzonym w 14. dniu po zabiegu wykazano *lymphangioma cavernosum*.

Omówienie

W ocenie zmian o charakterze torbielowatym szyi w pierwszej kolejności bierze się pod uwagę najczęstsze torbiele skrzelopochodne, ale w diagnostyce różnicowej należy uwzględnić również inne stany przebiegające





Ryc. 4. Naczyniak limfatyczny po usunięciu w całości i odbarzeniu 30 ml płynu

z retencją płynu, takie jak naczyniaki, zwłaszcza makrocystyczne, ektopowe torbiele grasicy oraz torbiele przewodu tarczowo-językowego. Kolejną grupą patologii, którą należy wykluczyć, są przerzuty raka brodawkowego tarczycy czy też przerzuty do okolicy nadobojczykowej z ognisk pierwotnych w dolnych okolicach ciała. Podobny obraz mogą mieć dobrze ograniczone ropnie szyi, ale są one poprzedzone wykładnikami stanu zapalnego i w formie dobrze zdefiniowanej bardzo rzadkie. W badaniu przedmiotowym zmiany torbielowate mają charakter gładkich, jednolitych, sprężystych tworów, a badanie obrazowe – ultrasonografia – potwierdza charakter zmiany. Typowymi cechami sonograficznymi przemawiającymi za rozpoznaniem torbieli bocznej szyi są wyraźne odgraniczenie od otaczających struktur, zwłaszcza gruczołu tarczowego, niska echogeniczność, lokalizacja najczęściej do przodu od mięśnia mostkowo-obojętkowo-sutkowego oraz do przodu i bocznie od tętnicy szyjnej wspólnej. Badanie dopplerowskie nie wykazuje unaczynienia w obrębie zmiany. W badaniach obrazowych, takich jak ultrasonografia, rezonans magnetyczny, w naczyniakach makrocystycznych obserwuje się przestrzenie hipoechogeniczne, poprzedzielane nielicznymi przegrodami tkankowymi, ściany są cienkie i gładkie; badanie dopplerowskie uwidacznia natomiast skąpe przepływy w przegrodach lub ich brak.

Omawiany przypadek, wstępnie rozpoznany jako torbiel, w badaniu histopatologicznym został zwerifikowany jako naczyniak limfatyczny. Naczyniaki limfatyczne są wrodzonymi, rozwojowymi malformacjami układu limfatycznego o łagodnym charakterze. Histopatologicznie można je podzielić na trzy grupy: *lymphangioma capillare*, *lymphangioma cysticum* oraz najrzadsze *lymphangioma cavernosum*. Zwykle występują u dzieci przed ukończeniem 2 lat, w 50% przypadków są obecne już przy narodzinach, natomiast u osób dorosłych należą do rzadkości. Najczęstszą lokalizacją są okolice głowy, szyi oraz dołu pachowego, istnieją jednak przypadki występowania

naczyniaków limfatycznych w obrębie śródpiersia, przestrzeni zaotrzewnowej czy miednicy. Zazwyczaj są to znacznych rozmiarów zbiorniki wypełnione płynem, wyścielane śródbłonkiem o ścianach zbudowanych z mięśniówki gładkiej i tkanki włóknistej. Charakteryzują się powolnym wzrostem, jednak infekcja czy też uraz mechaniczny mogą spowodować bardziej dynamiczne powiększanie się zmiany. Leczenie naczyniaków obejmuje postępowanie zachowawcze, farmakologiczne lub chirurgiczne. Ta ostatnia metoda, choć skuteczna, nie zawsze jest możliwa ze względu na warunki anatomiczne czy też potencjalne ryzyko wystąpienia powikłań. W takich przypadkach warto rozważyć sklerotyzację, ostrzyknięcie malformacji takimi preparatami, jak bleomycyna, doksycyklina czy OK-432 (Picibanil), które nie tylko znacznie redukują, ale niierzadko prowadzą nawet na zaniknięcia zmiany.

Powyższy przypadek ogromnej „torbieli” okolicy nadobojczykowej przedstawiono ze względu na pomyłkę we wstępnej diagnostyce oraz w celu potwierdzenia, że torbiele skrzelopochodne tej okolicy są rzadkie.

Piśmiennictwo

- Papadogeorgakis N, Petsinis V, Parara E, et al. Branchial cleft cysts in adults. Diagnostic procedures and treatment in a series of 18 cases. *Oral Maxillofac Surg* 2009; 13: 79-85.
- Lanham PD, Wushensky C. Second brachial cleft cyst mimic: case report. *Am J Neuroradiol* 2005; 26: 1862-4.
- Piccin O, Cavicchi O, Caliceti U. Branchial cyst of the parapharyngeal space: report of a case and surgical approach considerations. *Oral Maxillofac Surg* 2008; 12: 215-7.
- Bailey H. The clinical aspects of branchial cysts. *Br J Surg* 1933; 10: 173-82.
- Ford GR, Balakrishnan A, Evans JN, et al. Branchial cleft and pouch anomalies. *J Laryngol Otol* 1992; 106: 137-43.
- Gritzmann N, Hollerweger A, Macheiner P, et al. Sonography of soft tissue masses of the neck. *Clin Ultrasound* 2002; 30: 356-73.
- Lev S, Lev MH. Imaging of cystic lesions. *Radiol Clin North Am* 2000; 38: 1013-27.
- Gritzmann N, Hollerweger A, Macheiner P, Rettenbacher T. Sonography of soft tissue masses of the neck. *J Clin Ultrasound* 2002; 30: 356-73.
- Badami JP, Athey PA. Sonography in the diagnosis of branchial cysts. *AJR Am J Roentgenol* 1981; 137: 1245.
- Nowak K, Wierzbicka M, Kordylewska M, Szmaja Z. Ultrasonography in diagnosis of neck tumors. *Otolaryngol Pol* 2002; 56: 339-44.
- Falek A, Grabowski L, Kołodziejczyk A, et al. A giant cystic lymphangioma of the neck. *Otolaryngol Pol* 2007; 61: 211-4.
- Pia F, Aluffi P, Olina M. Cystic lymphangioma in the head and neck region. *Acta Otorhinolaryngologica Ital* 1999; 19: 87-90.
- Lanham P, Wushensky C. Second branchial cleft cyst mimic: case report. *AJNR Am J Neuroradiol* 2005; 26: 1862-4.
- Philippakis GE, Manoloudakis N, Marinakis A. A rare case of a giant cavernous lymphangioma of the chest wall and axilla in an adult patient. *Int J Surg Case Rep* 2013; 4: 164-6.
- Teramoto K, Suzumura Y. Mediastinal cavernous lymphangioma in an adult. *Gen Thorac Cardiovascular Surgery* 2008; 56: 88-90.
- Wierzbicka M, Bartochowska A, Balcerowiak A, Szyfter W. Can sclerotherapy replace the surgery in head and neck lymphangiomas? *Pediatr Pol* 2011; 86: 385-9.
- Ohta N, Fukase S, Suzuki Y, et al. Treatments of various otolaryngological cystic diseases by OK-4321: its indications and limitations. *Laryngoscope* 2010; 120: 2193-6.



18. Martinot V, Descamps S, Février P, et al. Evaluation of the treatment of cystic lymphangioma by percutaneous injection of Ethibloc in 20 patients. *Archives de Pédiatrie* 1997; 4: 8-14.
19. Alqahtani A, Nguyen LT, Flageole H, et al. 25 years' experience with lymphangiomas in children. *J Pediatr Surgery* 1999; 34: 1164-8.
20. Fageeh N, Manoukian J, et al. Management of head and neck lymphatic malformations in children. *J Otolaryngol* 1997; 26: 253-8.
21. Park JG, Aubry MC, Godfrey JA, Midthun DE. Mediastinal lymphangioma: Mayo Clinic experience of 25 cases. *Mayo Clinic Proceedings* 2006; 81: 1197-203.
22. Schloss MD, Sweet RC, Blais C, et al. Lymphangioma in children. *J Otolaryngol* 1984; 13: 95-8.
23. Stringel G. Hemangiomas and lymphangiomas. In: *Pediatric surgery*. Ashcraft KW, Holder TM (eds). PA. Saunders, Philadelphia 1993; 812-22.
24. Cordes BM, Seidel FG, Sulek M, et al. Doxycycline sclerotherapy as the primary treatment for head and neck lymphatic malformations. *Otolaryngol Head Neck Surgery* 2007; 137: 962-4.
25. Orford J, Barker A, Thonell S, et al. Bleomycintherapy for cystic hygroma. *J Pediatr Surgery* 1995; 30: 1282-7.

Adres do korespondencji:

lek. Maciej Tokarski

Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej

Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego

w Poznaniu

ul. Przybyszewskiego 49

60-355 Poznań

tel.: +48 61 869 13 87

faks: +48 61 891 69 0

e-mail: otosk2@ump.edu.pl

