

# Największa torbiel boczna szyi – rzadki przypadek

## The largest reported branchial cleft cyst – a rare case report

Mikołaj Lewandowski<sup>1</sup>, Maciej Krawczyk<sup>2</sup>, Krzysztof Piwowarczyk<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Szpital Kliniczny im. Heliodora Świącickiego, Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

<sup>2</sup>Klinika Otolaryngologii i Onkologii Laryngologicznej, Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

<sup>3</sup>Klinika Foniatrii i Audiologii, Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

### Streszczenie

Torbiel boczna szyi jest jedną z najczęstszych wrodzonych łagodnych patologii w obrębie szyi, która ma swój początek w nieprawidłowościach procesu embriogenezy. Klinicznie anomalie te mogą przyjmować formę torbieli, zatok lub przetok. Ich obecność przeważnie nie daje objawów, jednak po osiągnięciu znacznych rozmiarów mogą stać się symptomatyczne. Opisujemy przypadek pacjentki, u której w wyniku niepodejmowania inicjatywy diagnostycznej rozwinęła się olbrzymia torbiel boczna szyi o wymiarze ponad 12 cm, największa z dotychczas opisanych w piśmiennictwie.

**Słowa kluczowe:** torbiel boczna szyi, łagodny guz szyi, olbrzymia torbiel szyi, wada rozwojowa.

### Abstract

Branchial cleft cyst is one the most common congenital benign neck pathologies, originating from abnormalities during embryogenesis. Clinically these anomalies present as cysts, sinuses or fistulas. Usually their presence is symptomless, however in case of one's significant size they might become symptomatic. We present a case of patient in whom constant delay of seeking medical advice resulted in development of enormous branchial cleft cyst with a diameter of 12 cm, the largest ever reported.

**Key words:** branchial cleft cyst, benign neck tumour, giant neck cyst, congenital abnormality.

(Postępy w Chirurgii Głowy i Szyi 2022; 2: 36–40)

## Wprowadzenie

Zmiany guzowate w obrębie szyi stanowią wyzwanie diagnostyczne i terapeutyczne. Mogą one mieć charakter łagodny lub złośliwy. Przy zmianach łagodnych należy brać pod uwagę procesy zapalne lub wady rozwojowe. Zmiany złośliwe mogą być ogniskiem pierwotnym lub masą przerzutową. Spośród anomalii o charakterze łagodnym najczęstszym rozpoznaniem jest torbiel boczna szyi – około 85% [1]. Obecność tej patologii wynika z zaburzeń w czasie procesu embriogenezy, podczas którego dochodzi do nieprawidłowego zamykania się kieszonek skrzelowych, a także upośledzonego łączenia się łuków skrzelowych. Anomalie te mogą mieć postać torbieli, zatok lub przetok. W przeciwieństwie do zatok oraz przetok, torbiel jest zmianą niekomunikującą się z gardłem ani skórą.

Wielkość torbieli bocznych szyi opisywana w piśmiennictwie waha się między 1 a 10 cm [2, 3]. W większości doniesień są to zmiany niewielkie o średnicy kilku centymetrów. Patologie większe opisywane są ekstremalnie rzadko.

Przedstawiamy opis przypadku pacjentki, która zgłosiła się do Kliniki Laryngologii z powodu olbrzymiego jednostronnego guza na szyi o średnicy około 12 cm i prawie 10-letnim bezobjawowym wzroście.

## Opis przypadku

Kobieta 50-letnia zgłosiła się do poradni laryngologicznej z powodu olbrzymiego guza szyi po stronie lewej, stopniowo powiększającego się od prawie 10 lat.



Guz dotychczas był bezobjawowy, w związku z czym chora nie szukała pomocy lekarskiej. Jediną dolegliwością, która skłoniła ją do rozpoczęcia diagnostyki, była nasilająca się duszność spoczynkowa, pojawiająca się w pozycji leżącej na prawym boku. Pacjentka nie podawała urazu tej okolicy w przeszłości, chorób przewlekłych oraz leków stosowanych na stałe, a wywiad rodzinny był nieobciążony onkologicznie. W badaniu przedmiotowym zwracał uwagę guz lewej strony szyi znacznych rozmiarów, sięgający od poziomu kąta żuchwy do obojczyka; w badaniu palpacyjnym miękki, niebolesny, nieprzesuwalny, z dwoma twardymi ogniskami satelitarnymi w dolnej części guza o owalnym kształcie. Poza tym nie stwierdzono odchyień w badaniu laryngologicznym oraz w ogólnym badaniu przedmiotowym. W warunkach ambulatoryjnych wykonano badanie ultrasonograficzne szyi (USG), w którym opisano na bocznej powierzchni szyi po stronie lewej rozległą, niejednorodną zmianę torbielowatą sięgającą od ślinianki przyusznej do tętnicy podobojczykowej, ostro odgranicozoną od otoczenia, zawierającą gęsty płyn. Zmiana o grubości od 45 do 65 mm o wymiarach co najmniej 130 × 78 mm; ponadto na wysokości tarczycy 2 zmiany satelitarne wielkości do 35 mm. W związku z wątpliwościami ultrasonografisty dotyczącymi charakteru guza zlecono badanie obrazowe szyi metodą tomografii komputerowej (TK) z kontrastem. W opisie TK stwierdzono po lewej stronie szyi rozległą, torbielowatą, wielokomorową zmianę o wymiarach 80 × 78 × 121 mm, o wzmacniającej się torebce z ogniskami tkanki tłuszczowej, sięgającą od kąta żuchwy i dolnego bieguna ślinianki przyusznej do poziomu obojczyka i naczyń podobojczykowych. Masa przemieszczała mięsień mostkowo-obojczykowo-sutkowy (MOS) ku

tyłowi, a śliniankę podżuchwową ku przodowi, modelowała tętnice szyjne bez cech ich naciekania. Żyła szyjna wewnętrzna lewa na poziomie zmiany była niewidoczna z powodu ucisku. Poza tym struktury szyi, gardła i krtani były prawidłowe, bez cech procesu nowotworowego (ryc. 1, 2). Z uwagi na niecharakterystyczny, w opinii radiologa, obraz zmiany w TK, zdecydowano o przeprowadzeniu badania rezonansem magnetycznym (MR) z użyciem środka kontrastowego w celu wykluczenia zmiany w postaci przyzwojaka. W badaniu MR opisano w tkankach miękkich szyi po stronie lewej, od poziomu dołu nadobojczykowego ku górze do poziomu trzonu i kąta żuchwy podskórnie położoną, nieregularnego kształtu, cienkościenną zmianę torbielowatą o wymiarach 90 × 93 × 115 mm, dobrze ograniczoną, rosnącą rozprężająco bez naciekania okolicznych struktur, ale przemieszczającą je jak opisano w TK (ryc. 3). Według interpretującego skany radiologa obraz powyższej zmiany w największym stopniu odpowiadał torbieli limfatycznej lub, mniej prawdopodobnie, torbieli bocznej szyi. Użycie środka kontrastowego pozwoliło wykluczyć obecność przyzwojaka (ryc. 4).

Pacjentkę skierowano do Kliniki Otorinolaryngologii w celu operacyjnego usunięcia guza. Podmiotowo i przedmiotowo przy przyjęciu stan pacjentki się nie zmienił w porównaniu z badaniem ambulatoryjnym. W badaniach laboratoryjnych nie stwierdzono istotnych odchyień. Ze względu na obraz kliniczny oraz wyniki badań obrazowych odstąpiono od biopsji cienkoigłowej zmiany i zdecydowano o chirurgicznym usunięciu guza. Podczas operacji uwidoczniono olbrzymi guz szyi o największym wymiarze 12 cm, w postaci torbieli z komponentem litym, leżący ku przodowi i pod mięśniem MOS (ryc. 5). Guz usunięto w całości z zachowaniem ciągłości torebki. Ponadto usunięto w całości dwa ogniska satelitarne guza: pierwsze o charakterze litym, leżące ku przodowi od głównej masy w regionie IV, połączone z nią twardą szypułką i drugie o charakterze

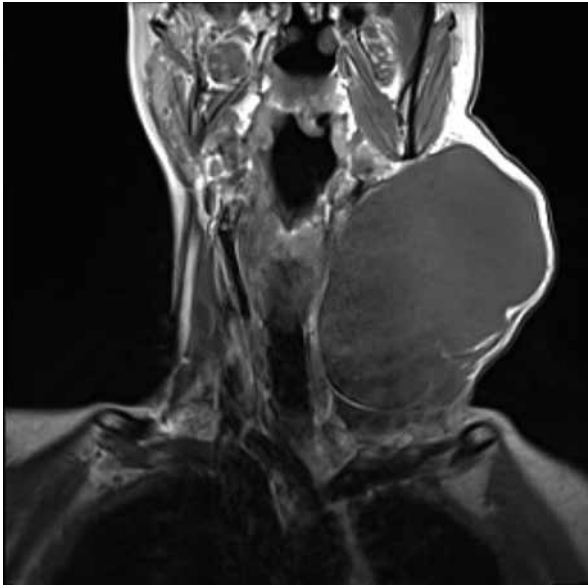


Rycina 1. Badanie TK szyi z kontrastem, projekcja strzałkowa



Rycina 2. Badanie TK szyi z kontrastem, projekcja poprzeczna





Rycina 3. Badanie MR szyi z kontrastem, obraz T1-zależny, projekcja czółowa

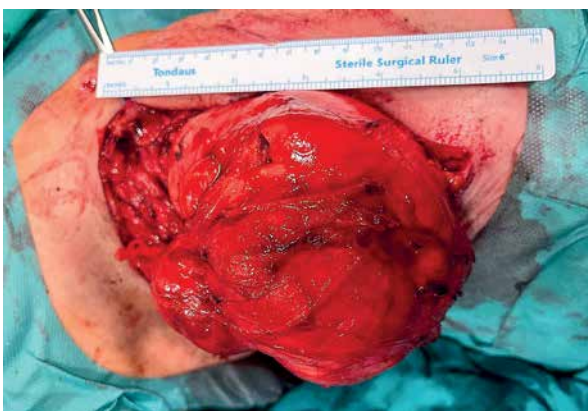


Rycina 4. Badanie angio-MR. Widoczny brak unaczynienia zmiany na szyi, pozwalający wykluczyć przyswojaka

torbielowatym, leżące ku tyłowi od zmiany głównej, w regionie V, za mięśniem MOS, połączone twardym pasmem z tkanką podskórną. Całość pobranego materiału przesłano do oceny histopatologicznej (ryc. 6). Okres pooperacyjny przebiegał bez powikłań, a pacjentkę w 3. dobie po zabiegu wypisano do domu z zaleceniem kontrolnej wizyty w poradni po odebraniu wyniku badania histopatologicznego.

Patomorfolog oceniający materiał pooperacyjny opisał guz o wymiarach  $120 \times 100 \times 75$  mm w formie gładkościennej torbieli wypełnionej płynną, kremową treścią. W pierwszym z guzków satelitarnych o wymiarach  $30 \times 20 \times 7$  mm stwierdzono na przekrojach dwie gładkościenne torbiele wypełnione gęstą, żółtą treścią. Podobną pojedynczą torbiel wykryto na przekroju drugiego guzka satelitarnego o wymiarach

$47 \times 35 \times 19$  mm. Końcowym rozpoznaniem mikroskopowym głównego preparatu była torbiel boczna szyi. Włóknista ściana torbieli, o zachowanej ciągłości, wysłana była nabłonkiem paraepidermoidalnym, nierogowaciejącym, bez cech atypii. W podścielisku



Rycina 5. Olbrzymia torbiel boczna szyi – obraz śródoperacyjny, widok na szyję od strony lewej



Rycina 6. Materiał pooperacyjny. Usunięta w całości torbiel boczna szyi oraz dwa ogniska satelitarne. Linijka przyłożona do krótszego wymiaru głównego preparatu



stwierdzono przewlekły naciek zapalny o małym nasileniu. Badanie guzków satelitarnych również wskazało rozpoznanie torbieli bocznej szyi z fragmentami tkanki łącznej z przewlekłym, resorpcyjnym zapaleniem, z obecnością licznych makrofagów piankowatych. Po około 3 tygodniach od operacji pacjentka zgłosiła się z powyższym wynikiem na wizytę kontrolną w poradni laryngologicznej. Nie skarżyła się na żadne dolegliwości w związku z przebytą operacją, podawała ustąpienie objawów w postaci duszności spoczynkowej. Z ostatecznym rozpoznaniem torbieli bocznej szyi pacjentce zalecone dalsze okresowe kontrole w warunkach ambulatoryjnych.

## Omówienie

Torbiel boczna szyi (inaczej nazywana torbielą skrzepochodną, *branchial cleft cyst*) jest jedną z najczęstszych wrodzonych i łagodnych anomalii w obrębie szyi, wchodzących w skład tzw. anomalii aparatu skrzelowego (*branchial cleft anomalies*). W piśmiennictwie opisywane są różne teorie dotyczące etiologii tych zmian. Wśród nich najpowszechniej przyjmuje się, że są one wynikiem braku lub też niekompletnej involucji jednej z czterech kieszonek skrzelowych w trakcie embriogenezy [1]. Klinicznie anomalie aparatu skrzelowego mogą przyjmować formę torbieli, zatok lub przetok skrzepochodnych, w zależności od połączeń zmiany z sąsiadującymi przestrzeniami. Przetoki stanowią połączenie gardła lub krtani ze skórą, klinicznie widoczne jako punktowate ujście w skórze głowy i szyi. Najczęściej są to zmiany pojedyncze, diagnozowane w wieku dziecięcym, jednak zdarzają się również przypadki mnogich przetok objawiających się w wieku dorosłym [4]. Zatoki są zmianami z pojedynczym ujściem w obrębie skóry, gardła lub krtani. Torbiele z kolei stanowią zmiany niekomunikujące, które z czasem ulegają powiększeniu, stając się widocznymi najczęściej dopiero w wieku dorosłym [1]. Przeważnie są bezobjawowe, jednak procesy zapalne szyi oraz górnych dróg oddechowych mogą skutkować ich powiększeniem, jak również formowaniem ropni, co w skrajnych przypadkach może prowadzić do ropowicy szyi o ciężkim przebiegu [5]. Ostateczne rozpoznanie torbieli skrzepochodnej ustala się na podstawie wyniku histopatologicznego, w związku z czym diagnostyka pojedynczego guza szyi powinna być na tyle sprawnie przeprowadzona, aby już na wczesnym etapie zróżnicować guzy łagodne od potencjalnych zmian o charakterze złośliwym. Franzen i wsp. [1] zebrali grupę 133 pacjentów z pojedynczą, boczną torbielą szyi w celu ustalenia ich etiologii oraz opracowania najlepszej metody leczenia. Średni wymiar torbieli oceniany w badaniu ultrasonograficznym wynosił ok. 3 cm (1,5–8 cm). Zmiany występowały proporcjonalnie po obu stronach szyi, z niewielką przewagą po lewej stronie. W niemal 70% były to zmia-

ny łagodne, a ich etiologia wskazywała w około 85% na torbiele łuków gardłowych. Drugą pod względem częstości występowania patologią były torbiele będące zdeformowanymi węzłami chłonnymi, a najrzadziej torbiele stanowiące ogniska gruzlicze. U około 30% pacjentów zmiany stanowiły przerzuty raka płaskonabłonkowego z regionu głowy i szyi. Grupę zwiększonego ryzyka wystąpienia zmiany złośliwej stanowili mężczyźni powyżej 40. roku życia, wśród których aż 56% badanych rozwinęło zmianę złośliwą. W przypadku pacjentów młodszych częstość ta zmniejszała się do 1,6%. W badaniach Grñlund i wsp. [6] spośród 135 pacjentów z pojedynczą, boczną torbielą szyi u około 15% zdiagnozowano zmianę złośliwą. Autorzy zaobserwowali również znacznie częstsze występowanie raka u pacjentów powyżej 35 lat. W badaniach Siry i Makury [7] 30% zmian ocenianych pierwotnie jako guzy łagodne u pacjentów powyżej 40. roku życia ostatecznie okazało się złośliwymi. W badaniu przeprowadzonym przez Koch i wsp. [8] pojedynczy guz bocznej części szyi ostatecznie okazał się nowotworem złośliwym u około 9% pacjentów, a prawdopodobieństwo rozpoznania nowotworu złośliwego zwiększało się po 40. roku życia. Autorzy badań podkreślają niezwykle ważną rolę przeprowadzenia szybkiej diagnostyki u pacjentów powyżej 40. roku życia w celu wykluczenia lub potwierdzenia jej złośliwości oraz jak najszybszego wdrożenia odpowiedniego leczenia [1, 6–8].

Opisywana przez nas chora zgłaszała występowanie guza od prawie 10 lat z jego stopniowym powiększaniem się, nie podawała objawów ogólnoustrojowych, badania laboratoryjne krwi były prawidłowe, w badaniu przedmiotowym nie występowały inne odchylenia, w szczególności nie stwierdzono powiększenia węzłów chłonnych głowy oraz szyi. Cechy te pozwoliły wstępnie założyć, że prezentowana zmiana nie ma charakteru złośliwego.

Diagnostyka guza w początkowym etapie opiera się na badaniach obrazowych. Główną metodą oceny jest USG. W przypadku wątpliwości w interpretacji obrazu dodatkowo wykonuje się badanie TK lub MR [8]. U naszej pacjentki zdecydowano o wykorzystaniu TK jako badania pierwszego wyboru z uwagi na znaczne rozmiary torbieli w badaniu palpacyjnym oraz komponent lity guza. Badanie to z dużą pewnością potwierdziło łagodny charakter zmiany – jej wzrost miał charakter rozprężający, a nie naciekający okoliczne tkanki, dodatkowo zobrazone węzły chłonne nie przedstawiały radiologicznie cech złośliwości. W badaniu wykazano również brak połączenia między zmianą a gardłem bądź krtanią, co umożliwiło jej zaklasyfikowanie do torbieli, a nie zatoki. Pozwoliło również na wykluczenie przetok wewnętrznych, w szczególności między torbielą a naczyniami szyjnymi, co wymagałoby poszerzenia operacji o wypreparowanie przetoki, dodatkowo zwiększając ryzyko wystąpienia powikłań okołoperacyjnych, w tym krwawienia. Z uwagi na niekonkluzywny obraz



TK zdecydowano o wykonaniu badania MR z kontrastem, które potwierdziło wnioski z wcześniejszego badania i dodatkowo pozwoliło wykluczyć zmianę w postaci przyzwójaka.

Podstawową i skuteczną metodą leczenia torbieli bocznej szyi jest jej opracowanie chirurgiczne [9]. Objawy sugerujące nadkażenie torbieli zobowiązują do zastosowania antybiotykoterapii i odroczenia zabiegu do czasu wygaszenia ostrego stanu zapalnego. Ryzyko wznowy zmiany może wynosić do około 5% [10]. Nawrót objawów jest możliwy w przypadku niedoszczętnego wypreparowania torebki lub pozostawienia jej fragmentu. Ryzyko wzrasta również w przypadku obecności przetoki wewnętrznej, zrostów z okolicznymi tkankami oraz obecności lokalnego stanu zapalnego [7]. W przypadku podejrzenia możliwości występowania zmiany złośliwej leczenie operacyjne powinno zostać poprzedzone wykonaniem biopsji aspiracyjnej cienkoigłowej (BAC). Ze względu na silne kliniczne oraz radiologiczne przesłanki sugerujące torbiel boczną szyi u opisywanej pacjentki podjęto decyzję o wdrożeniu leczenia chirurgicznego, bez wcześniejszego badania BAC [8].

W pooperacyjnym badaniu histopatologicznym stwierdzono, że ściana torbieli wyściełana jest nabłonkiem paraepidermoidalnym nierogowaciejącym bez cech atypii, co w korelacji z obrazem klinicznym potwierdziło ostatecznie rozpoznanie torbieli bocznej szyi. Przedstawiony przypadek jest szczególnie interesujący z uwagi na znaczne rozmiary torbieli – 120 × 100 × 75 mm makroskopowo w badaniu histopatologicznym. Wpłynął na to odroczone przez pacjentkę czas rozpoczęcia diagnostyki, gdyż torbiel nie przeszkadzała jej w codziennym funkcjonowaniu do momentu osiągnięcia na tyle dużych rozmiarów, że spowodowała ucisk na okoliczne tkanki, pogarszając komfort życia poprzez uczucie duszności. Poza wielkością zmiany uwagę przykuwa obecność dwóch ognisk satelitarnych, które również zostały zidentyfikowane jako torbiele boczne. Łączące je z olbrzymią torbielą włókniste pasma mogą sugerować, że ogniska te były w przeszłości uszypułowanymi fragmentami tejże, jednak zachowana w głównej zmianie ciągłość torebki podaje to przypuszczenie w wątpliwość.

W przeprowadzonym przez autorów przeglądzie piśmiennictwa znaleziono zaledwie jedno doniesienie opisujące torbiel boczną szyi o największym wymiarze 12 cm, jednak miała ona inną, podłużną, morfologię i jej pozostałe wymiary wynosiły 4 × 2,5 cm [11]. Nie znaleziono opisu przypadku torbieli o łącznych wymiarach i objętości porównywalnej z obecną u naszej pacjentki, co czyni opisywaną przez nas torbiel największą spośród dotychczasowych doniesień.

Wielu autorów torbiele o maksymalnym wymiarze 8 cm określają jako „olbrzymie” [11–14]. Z chirurgicznego punktu widzenia znaczny rozmiar torbieli skutkuje większym zakresem operacji, utrudnionym gojeniem się rany oraz mniej korzystnym efektem kosmetycznym –

w związku z tym zalecana jest wczesna resekcja takiej zmiany. Grupę ryzyka stanowią pacjenci starsi, u których odłożenie operacji w czasie może potencjalnie zwiększać ryzyko okołoperacyjne ze względu na występowanie ogólnoustrojowych chorób towarzyszących. U opisywanej pacjentki pomimo wieloletniego wzrostu masy udało się uniknąć powikłań okołoperacyjnych oraz późnych, jak również nie doszło do rozwinięcia się procesu złośliwego w obrębie torbieli.

## Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają konfliktu interesów.

## Piśmiennictwo

1. Franzen A, Günzel T, Buchali A, Coordes A. Cystic lateral neck lesions: etiologic and differential diagnostic significance in a series of 133 patients. *Anticancer Res* 2019; 39: 5047-52.
2. Telander RL, Filston HC. Review of head and neck lesions in infancy and childhood. *Surg Clinf North Am* 1992; 72: 1429-47.
3. Ahuja AT, King AD, Metreweli C. Second branchial cleft cysts: variability of sonographic appearances in adult cases. *Am J Neuroradiol* 2000; 21: 315.
4. Brust K, Wierzbicka M. A case of co-occurrence of congenital bilateral pre-auricular fistulas and bilateral lateral neck fistulas in an adult patient. *Postep Chirur Głowy Szyi* 2021; 20: 29-30.
5. Tong F, Liang Y, Khan MF, et al. A fatal case of severe neck abscess due to a third branchial cleft fistula: morphologic and immunohistochemical analyses. *Diagn Pathol* 2016; 11: 87.
6. Grñlund S, Mey K, Andersen E, Rasmussen ER. The true malignancy rate in 135 patients with preoperative diagnosis of a lateral neck cyst. *Laryngoscope Investig Otolaryngol* 2016; 1: 78-82.
7. Sira J, Makura ZGG. Differential diagnosis of cystic neck lesions. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2011; 120: 409-13.
8. Koch EM, Fazel A, Hoffmann M. Cystic masses of the lateral neck – proposition of an algorithm for increased treatment efficiency. *J Craniomaxillofac Surg* 2018; 46: 1664-8.
9. Janiak-Kiszka J, Kaźmierczak W. Diagnostics and treatment of neck cysts. *Otynolaryngologia* 2012; 11: 13-6.
10. Meijers S, Meijers R, van der Veen E, et al. A systematic literature review to compare clinical outcomes of different surgical techniques for second branchial cyst removal. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2022; 131: 435-44.
11. Kumar S, Gupta AK, Singhvi R. A giant lateral cervical cyst. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 1994; 46: 226-8.
12. Morello R, Renzi G, Matarazzo G, et al. Giant benign neoplasm of lateral neck. *J Craniofac Surg* 2013; 24: 652-4.
13. Rapidis AD, Faratzis G, Lagogiannis G, Koutsoubi K. Large swelling of the lateral neck. *J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63: 820-8.
14. Bocchialini G, Bozzola A, Daleffe F, et al. Unusually rapid development of a lateral neck mass: diagnosis and treatment of a branchial cleft cyst. A case report. *Int J Surg Case Rep* 2017; 41: 383-6.

## Adres do korespondencji:

Maciej Krawczyk  
Katedra i Klinika Otolaryngologii  
i Onkologii Laryngologicznej  
Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego  
ul. Przybyszewskiego 49  
60-355 Poznań  
e-mail: maciej.krawczyk7@gmail.com

