

УНИВЕРЗИТЕТ "СВ. КИРИЛ И МЕТОДИЈ"

СТОМАТОЛОШКИ ФАКУЛТЕТ

КЛИНИКА ЗА ХИРУРГИЈА НА ЛИЦЕ, ВИЛИЦИ И ВРАТ

СКОПЈЕ

НЕДИМ КАСАМИ

ХИРУРШКО-ДИЈАГНОСТИЧКА ЕВАЛУАЦИЈА НА
КОНГЕНИТАЛНИТЕ ЦИСТИ НА ВРАТОТ

Surgical-diagnostic evaluation of congenital cysts of the neck

МАГИСТЕРСКИ ТРУД

Ментор: Проф. др. Владимир Поповски

СКОПЈЕ, 2013

УНИВЕРЗИТЕТ “СВ. КИРИЛ И МЕТОДИЈ“

СТОМАТОЛОШКИ ФАКУЛТЕТ

КЛИНИКА ЗА ХИРУРГИЈА НА ЛИЦЕ, ВИЛИЦИ И ВРАТ

СКОПЈЕ

НЕДИМ КАСАМИ

**ХИРУРШКО-ДИЈАГНОСТИЧКА ЕВАЛУАЦИЈА НА
КОНГЕНИТАЛНИТЕ ЦИСТИ НА ВРАТОТ**

Surgical-diagnostic evaluation of congenital cysts of the neck

МАГИСТЕРСКИ ТРУД

Ментор: Проф. др. Владимир Поповски

СКОПЈЕ, 2013

Недим Касами

Хируршко-дијагностичка евалуација на конгениталните цисти на вратот

Апстракт

Конгениталните вратни цисти, синуси и фистули треба да се земаат во предвид при дијагностицирањето на вратните промени кај децата и возрасните. Во овие промени се вклучени цистите на тиреоглосалниот дуктус, аномалиите на бронхијалните расцепи, дермоидните цисти и средновратните цервикални расцепи. Неопходно е темелно разбирање на ембриолошкиот развој и анатомијата на секоја спомената лезија за да се осигура исправна преоперативна дијагноза и соодветен хируршки третман кои се есенцијални за спречување на рецидивите. Ги опфативме двете најчести конгенитални промени на вратот, бронхиогените и тиреоглосалните цисти, нивната ембриологија, анатомија, клиничка слика како и клучните точки на нивниот хируршки третман.

Цел: Да ги евалуариме конгениталните цисти на вратот, нивната застапеност во однос на пол и возраст, да ја процениме вредноста на компјутеризираната томографија како дијагностичко средство односно да го утврдиме совпаѓањето на почетната дијагноза, наодот од КТ и конечниот патохистолошки наод за да видиме колку сме во можност исправно и навремено да ги препознаеме и исправно третираме конгениталните цисти на вратот.

За реализација на поставената цел беа проследени 82 пациенти од двата пола оперирани на Клиниката за максилофацијална хирургија во периодот од 2007 до 2011 година. Детално се анализирани анамнестичките листови за почетокот и текот на заболувањето. Регистрирани се сите испедувања кои се изведени предоперативно за исправно дијагностицирање на овие промени и направени се посебни колумни за наодите од аспирационата биопсија, ехосонграфскиот наод, магнетната резонанца, компјутеризираната томографија и конечниот патохистолошки наод. Статистичка обработка на податоците.

Резултати: Во период од 2007 до 2011 година се оперирани вкупно 82 пациенти со дијагноза на конгенитални промени на вратот или слични промени суспектни за конгенитално потекло. Во 2007 се оперирани 14 пациенти, 2008 година само 7, во 2009 25 пациенти, во 2010 20 а во 2011 година 16 пациенти.

Во 2009 година среќаваме највисок процент на третирани лица, при што стапката на Морбидитет изнесува 13 на милион жители во Републикава. Стапката на болнички Морбидитет за дејноста во МФХ изнесува 4 на 100.000 жители.

Според полот оперираните пациенти не покажуваат статистички значајна разлика. Со дијагноза на бронхиогена циста се вкупно 20 мажи и 22 жени, со циста коли медиана се 10 мажи и 8 жени. Од аспект на тестирањето на хипотезата за поврзаност на полот и појавата на овие цисти се покажа дека не постои статистичка сигнификантност, т.е. се прифаќа H_0 , дека нема поврзаност со полот (χ^2 тест = 0.32, $ss = 1$, $p > 0.05$).

Според возраста на третираните лица, се покажа дека постои значајна разлика. За бронхиогените цисти возраста од 10 до 29 години е најзастапена (54%), додека ЦЦМ се појавуваат порано, во првата деценија од животот (38.9%).

Просечната возраст на лицата со БЦ изнесува 31.4 години со отстапување 16.9 години. Најмладиот пациент имаше 7 години, додека највозрасниот беше на 71 годишна возраст.

Кај лицата со ЦЦМ средната возраст беше 18.8 години, со отстапување од 14.8 години. Најмладиот пациент имаше 3, а највозрасниот 55 години.

Тестирањето на хипотезата за влијание на возраста врз појавата на овие два вида цисти на вратот не можеше да го користи Pearson-овиот χ^2 тест, заради големиот број рубрики со фреквенции под 5 лица. Заради тоа се употребија други непараметриски тестови, кои покажаа висока статистичка значајност. Имено, со тестот според Ман-Whitney сигнификантноста се покажа дека е на ниво $p < 0.01$, што значи дека нултата хипотеза H_0 се отфрла и се прифаќа мислењето на терапевтот дека цистите на вратот се поврзани со возраста.

Од аспект на поставувањето на точната дијагноза се покажа дека со голема точност се поставени дијагнозите пред оперативниот зафат. За 18 лица предоперативната дијагноза (ЦЦМ) се совпадна со конечната ПХ дијагноза што претставува голема точност во дијагностицирањето на овие промени.

За бранхиогените цисти приемната дијагноза беше точна за 32 лица, односно во 82% случаи оваа дијагноза се потврди и како конечна ПХ дијагноза.

Заклучоци: бранхиогените и тиреоглосалните цисти се најчестите вратни аномалии од конгенитално потекло кои се појавуваат кај децата и младите од втората декада на животот. По дијагностицирањето најдобро е да се третираат хируршки што поскоро поради можноста за малигни алтерации ако се остават да стојат подолго. Хируршкиот третман се состои во нивната потполна екстирпација, но бара претходно да се спроведат сите дијагностички методи кои ќе придонесат исправна дијагноза. Ако се запазат сите протоколарни постапки исправно и навремено, стапката на рецидиви на овие конгенитални промени може да се сведе на најмала разина што претставува и цел на секој хирург што се занимава со оваа проблематика.

Клучни зборови: конгенитални цисти на вратот, бранхијален апарат, Систрунк процедура.

Nedim Kasami

Surgical-diagnostic evaluation of congenital cysts of the neck

Abstract

Congenital cervical cysts, sinuses and fistulae must be considered in the diagnosis of head and neck masses in children and adults. These include thyroglossal duct cysts, branchial cleft anomalies, dermoid cysts and median cervical clefts. A thorough understanding of the embryology and anatomy of each of these lesions is necessary to provide accurate preoperative diagnosis and appropriate surgical therapy, which are essential to prevent recurrence. We present two most common congenital cysts of the neck, thyroglossal and branchial cysts, their embryology, anatomy, clinical presentation, evaluation and the key points in surgical treatment.

The aim of our study was to make a surgical-diagnostic evaluation of the congenital cysts of the neck, their appearance according to age and sex, to establish the role of CT as a diagnostic procedure, respectively to confirm the accordance of the initial diagnosis, CT report and final pathohistologic finding in order to see if we are able to recognize and treat properly the congenital cysts of the neck.

For the realization of our aim were conducted 82 patients, both genders, surgically treated in the Clinic for Maxillofacial surgery at the period from 2007 to 2011. A thorough analysis of their anamnestic formulars for the beginning and the flow of diseases were made. All preoperative diagnostic procedures are registered and constructed especial columns for these results like Fine needle aspiration biopsy, ultrasound, magnetic resonance, computed tomography and final pathohistological result. The results were statistically analyzed with Statistica 7 and SPSS version 12.

Results: 82 patients with diagnose of congenital neck mass or suspected similar diagnose underwent to surgical treatment from the period 2007 to 2011. During 2007 are operated 14 patient, in 2008 only 7, in 2009 25, in 2010 altogether 20 and in 2011 16 patients. In 2009 we meet highest rate of patients and the morbidity is 13 in a million citizens. Rate of hospital morbidity for the MFS clinic is 4 in 100.000 citizens. Our study did not show statistically significant difference between male and female patients. With diagnosis of Branchial cyst are encountered 20 male and 22 female, Thyroglossal cyst appeared in 10 men and 8 women.

From the aspect of testing the hypothesis of association of the sex with prevalence of these cysts, there is no statistical significance between them, so we accept H_0 hypothesis of non existing connection (X^2 test =0,32, ss = 1, $p > 0.05$).

Based on the age of patients it seems to be difference between them. Branchial cysts are more frequent at the age from 10 to 29 years (54%) while thyroglossal cysts seem to appear more earlier, in the first decade of life (38,9 %). The average of patients with Branchial cysts was 31,4 with exception of 16,9 year. The youngest was 7 while the oldest was 71 years old. With thyroglossal cysts the mean age was 18,8 exception of 14,8 years. Youngest was 3 and the oldest was 55 years old. Mann-Whitney test showed that $p < 0.01$ which means that hypothesis H_0 is not available and we accept the attitude of surgeon of existing a connection of neck cysts with the age of patients.

From the aspect of being correct at the diagnosis the study showed that the diagnosis were established very correctly before the surgery. For 18 persons with thyroglossal cysts the preoperative diagnose was correct with the pathohistological postoperative result which presents very high level of exactness. For branchial cysts the preoperative diagnose was correct for 32 persons, respectively 82% of preoperative diagnose was proven as final postoperative pathohistological correct diagnose.

Conclusion: branchiogene and thyroglossal cysts are two most common neck anomalies with congenital origin at children and adolescents of second decade of life. If once are diagnosed the best solution is surgical treatment because of possibility of malignant alteration if they stay longer after appearance. Surgical treatment include their in toto enucleation, but requires previous diagnostic procedures that provide correct diagnose. If all protocolar procedures are performed correctly and in time, the rate of recidives of these congenital anomalies can be decreased at the lowest rate and this presents the goal of every surgeon that deals with this pathology.

Key words: congenital cysts of the neck, branchial apparatus, Sistrunck procedure.

From the aspect of testing the hypothesis of association of the sex with prevalence of these cysts, there is no statistical significance between them, so we accept H_0 hypothesis of non existing connection (X^2 test =0,32, ss = 1, $p > 0.05$).

Based on the age of patients it seems to be difference between them. Branchial cysts are more frequent at the age from 10 to 29 years (54%) while thyroglossal cysts seem to appear more earlier, in the first decade of life (38,9 %). The average of patients with Branchial cysts was 31,4 with exception of 16,9 year. The youngest was 7 while the oldest was 71 years old. With thyroglossal cysts the mean age was 18,8 exception of 14,8 years. Youngest was 3 and the oldest was 55 years old. Mann-Whitney test showed that $p < 0.01$ which means that hypothesis H_0 is not available and we accept the attitude of surgeon of existing a connection of neck cysts with the age of patients.

From the aspect of being correct at the diagnosis the study showed that the diagnosis were established very correctly before the surgery. For 18 persons with thyroglossal cysts the preoperative diagnose was correct with the patohistological postoperative result which presents very high level of exactness. For branchial cysts the preoperative diagnose was correct for 32 persons, respectively 82% of preoperative diagnose was proven as final postoperative patohistological correct diagnose.

Conclusion: branchiogene and thyroglossal cysts are two most common neck anomalies with congenital origin at children and adolescents of second decade of life. If once are diagnosed the best solution is surgical treatment because of possibility of malignant alteration if they stay longer after appearance. Surgical treatment include their in toto enucleation, but requires previous diagnostic procedures that provide correct diagnose. If all protocolar procedures are performed correctly and in time, the rate of recidives of these congenital anomalies can be decreased at the lowest rate and this presents the goal of every surgeon that deals with this pathology.

Key words: congenital cysts of the neck, branchial apparatus, Sistrunck procedure.

СОДРЖИНА

Вовед	1
Литературен преглед	23
Цел на трудот	31
Пациенти и методи	33
Резултати	36
Дискусија	50
Заклучоци	61
Литература	63

Вовед

ВОВЕД

Конгениталните цисти на вратот се проблем со кој се соочуваат разни области од медицината а поготово хируршките гранки како општата хирургија, детската хирургија, оториноларингологија, тораковаскуларната како и максилофацијалната хирургија.

Поголемиот број на отекувањата на вратот кај децата се бенигни воспалителни лезии кои може да се третираат успешно со антибиотска терапија. Сите отоци на вратот кај истите кои имаат потреба од хируршки третман за дијагностицирање и терапевтски цели се конгенитални по потекло ¹.

При прегледувањето на пациентот со вратна отекина, прво би требало да се води сметка за возраста на пациентот – т.е. педиатриска возраст, млад возрасен, или возрасен. За секоја возрасна група треба да се има во предвид релативната инциденција на конгенитални, воспалителни, и неопластични болести бидејќи повеќето вратни отекини се вклопуваат во една од овие категории ^{2,3,4}. За среќа кај педиатриските пациенти почесто се манифестираат воспалителни промени во споредба со конгенитални вратни отекини, додека инциденцата на неопластичните маси е релативно ниска. Ова е слично и кај младата возрасна група. Кај возрасните, посебно кај постарите, прво треба да се мисли на неопластични маси, помалку да се мисли на воспалителни промени, а уште помалку на конгенитални отекини ^{1,5}.

По возраста, многу е битно да се размотри и локализацијата на вратната отекина. Ова е посебно вистинито во случај на конгениталните вратни отекини кои обично се појавуваат во конзистентни локализации. Најчестите конгенитални маси пронајдени во латералниот аспект на вратот вклучуваат цисти од бранхијалниот расцеп

и ларингоцели. Лезиите во средната линија вклучуваат цисти на тироглосалниот дуктус, дермоидна циста, тимична циста и тератоми^{6,7,16}. Хемангиомите и лезиите на васкуларни малформации типично вклучуваат големи подрачја на вратот без вистинска локализација на некое специфично подрачје. Цистата на езофагеална дупликација, една ретка конгенитална маса, исто така заслужува внимание⁸.

Ембриолошки развој на бранхиогениот апарат и тироглосалниот дуктус

За да ја сфатиме проблематиката на конгениталните цисти на вратот, најпрво мора да го разбираме растот и развојот на ова мошне деликатно подрачје, односно ембриолошкиот развој на главата и вратот и промените кои се случуваат во текот на првите неколку недели од развојот на фетусот^{9,10}.

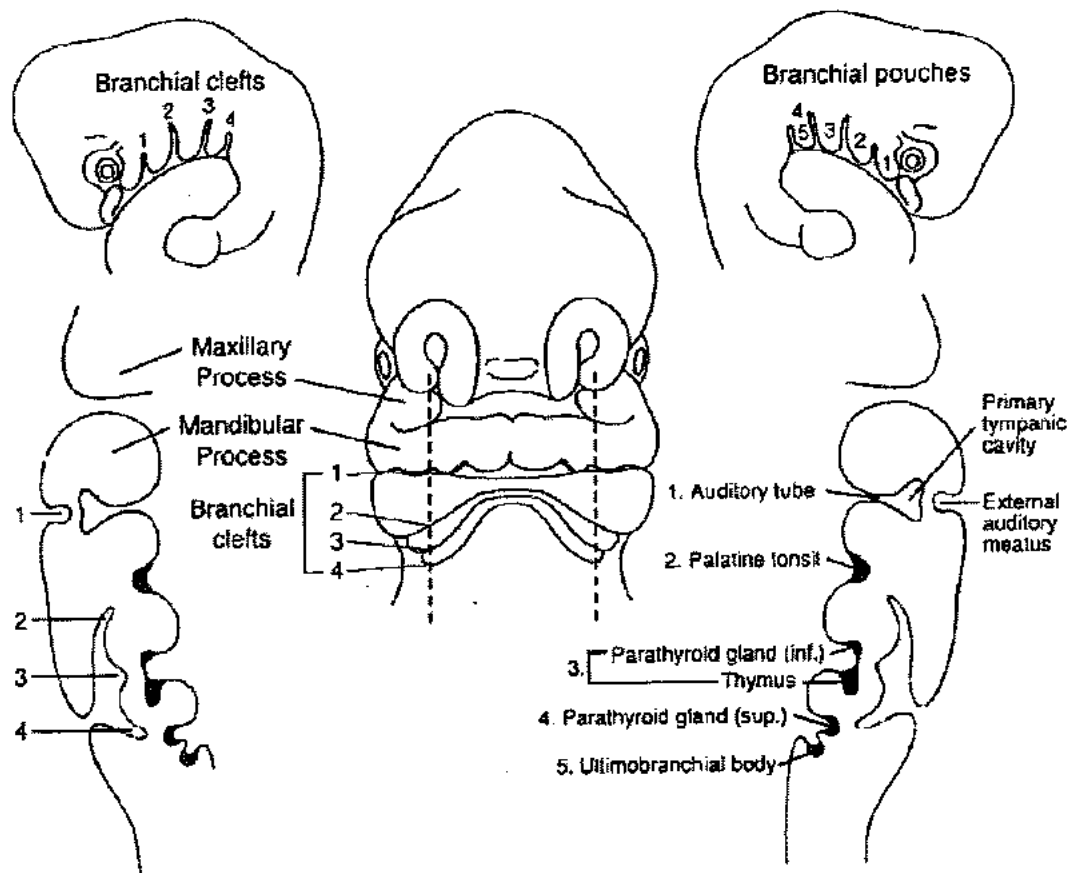
Баер во 1827 година прв го опишува развојот на таканаречениот бранхијален апарат.

Развојот на бранхијалниот апарат започнува за време на втората гестациска недела и се комплетира до 6-7 недела. Апаратот се состои од 5 мезодермални (бранхијални) лакови кои се појавуваат во латералниот ѕид на предниот дел на примитивната пробавна цевка и меѓусебно се поделени надворешно со ектодерм-покриени брахијални расцепи и внатрешно со ендодерм-покриени фарингеални цевови или јамички. Петте лакови, кои се проминентни во латералниот профил, се бројуваат од кранијално према каудално како 1, 2, 3, 4, и 6. Петиот лак, кој не се приметува во оваа фаза и длабоко е закопан, по договор се нарекува шестиот лак¹¹.

Имено во текот на третата развојна недела, рамниот триламинарен ембрион се подвргнува на серии комплексни диплења (folding) што резултира со формирање на

еден цилиндричен ембрион. За ова време се појавуваат латерално поставените расцепи, познати како бранхијални расцепи. Овие расцепи се должат на флексиски диплења на фетусот во амнионската шуплина. Основните развојни ткива во главата и вратот (ектодерм, ендодерм, мезодерм, неуроепителниум) се организираат во фарингеален апарат или исто така познат како бранхијален апарат, кој е предводник на стуктурите на главата и вратот^{12,13}.

Во текот на петтата недела на развојот, првиот лак и кранијалниот дел на вториот лак се задебелуваат и се зголемуваат каудално. Каудалниот дел на вториот лак, како и третиот и четвртиот лак, биваат загнувени во таканаречениот цервикален Хисов синус, една плитка ектодермална јама. Епикардијалниот раб кој се развива од мезодермот латерално од шестиот лак ја зголемува длабочината на јамата. Од ова ткиво се развиваат инфрахиоидните мускули, мускулниот комплекс стерноклеидомастоидеус-трапезиус, мускулите на подот на усната шуплина, и мускулите на јазикот. Исто така содржани во овој раб се спиналната дивизија на акцесорниот и хипоглосаниот нерв. Во понатамошниот развој, Хисовиот синус бива облитериран а, кај возрасните, го претставува аголот помеѓу дорзалната површина на појасните мускули и предниот раб на стерноклеидомастоидеус^{11,13}.



Слика 1. Бранхијална ембриологија во петта гестациска недела. Сагиталните пресеци го прикажуваат анатомскиот однос на надворешните расцени и внатрешните јамички и развојот на важните структури на главата и вратот. (Превземено од Waldhausen JHT. Branchial cleft and arch anomalies in children. Semin Pediatr Surg 2006;15:64-9.)

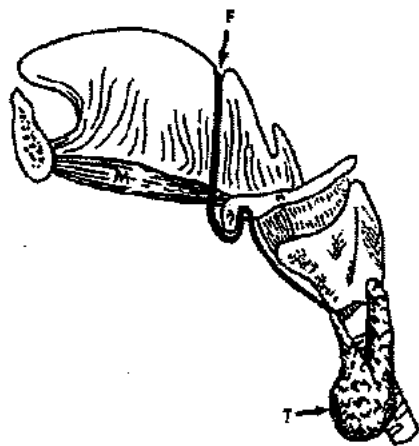
Значи кон крајот на четвртата и почетокот на петтата гестациска недела од феталниот развој, овие 5 гребени, познати како и фарингеални или бранхијални лакови, се веќе формирани на вендролатералната површина на ембрионалната глава. Секој лак како што нагласивме содржи мезодерм од кој се развиваат рскавица, мускул и коска. Секој лак е одвоен од другиот со надворешен расцеп од ектодермално потекло. Тие исто така имаат внатрешен сакус од ендодермално потекло и поврзан кранијален нерв, артерија и рскавица¹⁴

Секој бранхијален лак, расцеп или јамичка има добро дефинирани структури кои се развиваат од нив. Секој лак содржи рскавичен скелет, мускулни ридимент, нерв и артерија. На пример мандибулата се развива од рскавицата на првиот лак, додека вториот и третиот лак ја деривираат хиондната коска. Четвртиот и шестиот лак се предводници на ларингеалниот скелет. Проксималниот аспект на артерија каротис интерна, каротис екстерна, и каротис комунис, се деривирани од третиот бранхијален лак¹⁵. Конечно артеријата од шестиот лак од левата страна перзистира како дуктус артериосус Ботали а од десната страна како пулмонална артерија. Респектирајќи ја единицата нерв/мускул, тригеминалниот нерв и придружната мускулатура како што се мастикаторните мускули, предниот вентер на дијагстрикус, милохиондниот, тензор вели палатини и тензор тимпани, сите се развиваат од првиот бранхијален лак. Вториот лак ги дава седмиот кранијален нерв, фацијалис асоциран со следната мускулатура : мимичната мускулатура, платизма, стапедиус и вентер постериор мускули дијагстрици. Глософарингеус се подржува од третиот бранхијален лак. Конечно четвртиот лак го подржува нервус вагус додека шестиот лак спиналните акцесорни нерви.

Како што продолжува развојот, бранхијалните лакови, расцепи и јамички исто така облитерираат со исклучок на првиот бранхијален расцеп. Фактички, деловите на првиот расцеп се вглабнуваат да би го формирале меатус акустикус екстернус. Накратко структурите деривирани од првиот бранхијален расцеп ги вклучуваат Еустахиевата туба, кавум тимпани, мастоидниот антрум со целула мастоидеа и мембрана тимпани, додека втората бранхијална јамичка ги формира палатиналните тонзили и супратонзиларната фоса. Од третата јамичка доаѓаат долната паратириода, тимусот и фоса пириформис. Заклучно четвртата бранхијална јамичка ја продуцира горната паратириодна жлезда.

Фетусот во овој стадиум од развојот исто така содржи и еден канал кој се вика Тиреоглосален дуктус, кој е привремен канал помеѓу тироидната рскавица во развој и јазикот ^{11,12,17}.

Почнувајќи од седумнаесеттиот гестациски ден, тироидниот примордиум го започнува своето надолно спуштање (десценција) од форамен цекум минувајќи испред, позади или кроз подјазичната коска, по својот пат кон понискиот дел на вратот. При тоа се одржува како стебленце врска со базата на јазикот, која покасно постепено бива ресорбирана. И сосема малку тироидно ткиво кое евентуално останува во должината на ова подрачје, има потенцијал да се развива во циста на тиреоглосалниот дуктус ¹⁸.



Слика 2. Текот на тироглосалниот дуктус кој се протега од форамен цекум (Ф) до штитната жлезда (Т). (Превземено од Som PM, Smoker WRK, Curtin HD, et al. Congenital lesions in head and neck imaging. In: Som PM, Curtin HD, editors. Head and neck surgery. St. Louis: Mosby; 2003. стр. 121-5.)

Кога тироидната жлезда се спушта од базата на јазикот, овој канал нормално се затвара (облитерира) и исчезнува (обично во време околу раѓањето на детето). Некогаш дел од каналот останува (перзистира) и ќе се развива во циста обично во текот на детството или покасно во адолесцентната фаза ^{19,20}.

Класификација на Бранхијалните Аномалии

Конгениталните аномалии на вратот се појавуваат како последица на пореметувањата во сложениот развој на бранхијалниот апарат на фетусот. Тие се класифицирани според потеклото на нивниот бранхијален лак, расцеп или јамичка како И според нивните анатомски односи. Аномалиите на бранхијалните расцепи може да се манифестираат во неколку форми ^{21,22}

Фистула - тракт обложен со епител со два отвора внатрешен и надворешен.

Синус - некомплетна фистула со еден отвор, внатрешен или надворешен.

Циста - шуплина обложена со епител без внатрешен или надворешен отвор.

Фистулите претставуваат перзистенција на расцепот и соодветната јамичка, формирајќи комуникација која е подложена со епител. Фистулата лежи каудално во однос на структурите деривирани од тој лак и ја поврзува кожата со предниот дел на пробавниот систем.

Синусите може да се сметаат како делумни фистули, често отворени екстерно (надворешно), без внатрешно отворање. Тие се обложени со епител. Фистулите и синусите може да бидат обложени со многуслоен сквамозен, слилиндричен, или влакнест, а истотака може да имаат и лимфоидно ткиво.

Цистите немаат ни внатрешни ни надворешни отвори и во повеќето случаи се обложени со многуслоен сквамозен-плочест епител (од ектодермално потекло); но сеедно, може да бидат обложени и со цилиндричен епител (од ендодермално потекло од јамиците) ^{23,24}.

Аномалиите на првиот бранхијален лак

Првите бранхиогени аномалии претставуваат 1% од сите бранхиогени аномалии. Истражувањата укажуваат на следните 2 типа :²⁵

Тип. 1. – е со ектодермално потекло и претставува дупликација на надворешниот ушен канал. Се јавуваат во преаурикуларната регија како цисти, синуси или фистули врзувајќи се на кожата и надворешниот слушен канал. Овие лезии се типично латерално од нервус фаџијалис и затоа може да бидат всадени дури и во паротидното ткиво.

Тип.2. – овие аномалии содржат и ектодерм и мезодерм. Тие се најчести и може да потекнуваат од НУК, средниот ушен расцеп, или назофаринксот. Овој тип често се манифестира со фистула која потекнува од сонча или НУК. Тие може да поминат медиално или латерално од фаџијалниот нерв и да завршат во ниво на предната граница на *musculus sternocleidomasteideus*. Често се наоѓа и само еден отвор во самиот надворешен слушен канал или под долната вилица. Овие аномалии обично не го инволвираат средното уво или тимпаничната мембрана. Пациенти со аномалии на првиот бранхијален лак може да бидат со унилатерална фаџијална парализа. Овие аномалии може да бидат придружени и со хемифаџијална микросомија.^{26,27,28.}

Аномалии на вториот бранхиоген лак

Аномалиите на вториот бранхиоген лак се позастапени и опфаќат 90-95 % од бранхиогените аномалии.²⁹ Тие се класифицираат во 4 категории (1- 4) базирани на анатомската локација. Типовите I и III се најчесто појавувани аномалии на вториот лак, но доста чест е и типот II. Билатералните аномалии на вториот лак не се честа појава.

- Тип I аномалиите се лоцирани долж предниот раб на m. Sternocleidomastoideus, на спојот меѓу средната и долната третина, длабоко во платизмата и цервикалната фасција.
- Тип II аномалиите лежат во контакт со големите крвни садови.
- Тип III аномалиите поминуваат медијално меѓу внатрешните и надворешните каротидни артерии, пирејќи се кон латералниот фарингеален ѕид и лежејќи изнад n. Glossopharyngeus и n. hypoglossus и под стилохионидниот лигамент.
- Тип IV аномалии се многу ретки и се лоцирани веднаш до фарингеалниот ѕид, медијално од големите крвни садови во ниво на fossa tonsillaris.

Цистичните лезии се почести од фистулите. Стремат да се појават како мазни, меки маси во латералниот врат и се лоцирани антериорно и испод m. Sternocleidomastoideus. Фистулите стремат да се појават како рекурентни вратни инфекции, често како последица на инфекции на горните дишни патишта, под нивото на m. Digastricus. Најчестото време на појава на секундарните бранхиогени аномалии е во текот на втората декада на животот.

Посебно вреди да се спомене и Бранхио-ото-реналниот синдром (БОР синдром), или Melnick-Fraser синдром, кој е соединение на аурикуларни малформации, бранхијални фистули, глувост, и ренални аномалии. Околу 2% од потполно глувите деца имаат БОР синдром. Процентата преваленција е 1 во 40.000 луѓе. Надворешните ушни малформации може да вклучат периаурикуларни јамички, белези, режани уши, и/или microtia. Исто така се опишани и аномали на ушните коскички, фаџијалниот нерв, и фалопијевиот канал.

Аномалии на третиот бранхиоген лак

Аномалиите на третиот бранхиоген лак се среќаваат ретко. Многу автори се сложуваат дека клинички разликувањето меѓу третите и четвртите бранхиогени аномалии е тешко.³⁰

Една комплетна фистула има кожно отворање покрај anteriornата граница на *m. Sternocleidomastoideus*. Трактот постериорно лежи покрај *a. Carotis communis* и/или *a. Carotis interna*, изнад *p. hypoglossus*, и под *p. glossopharyngeus*, потоа медијално ја пробива тиреоглосната мембрана во постолатерален аспект и на крајот се отвара во синус пириформис.

Третите бранхиогени аномалии може да се манифестираат со компромитација на горните дишни патишта кај новороденчињата, а истотака може да се манифестираат со парализа на *p. hypoglossus*.

Аномалии на четвртиот бранхиоген лак

Четвртите бранхиогени аномалии се елтен ретки и, за разлика од вторите бранхиогени аномалии, се појавуваат типично во детинство.

Четвртите бранхиогени аномалии потекнуваат од апексот на синус пириформис, патувајќи anteriорно и инфериорно кон *m. Cricothyroideus* и тироидната 'рскавица. Една латерална цервикална циста со внатрешна фистула во синус пириформис е доста честа појава. Патот на трактот потоа оди супериорно над *p. hypoglossus* и се спушта на вратот позади *a. Carotis communis*.

Четвртите бранхиогени аномалии следат различен курс во секоја страна на вратот. Во десната страна, трактот поминува под *a. subclavia* и се движи нагоре кон,

рекурентниот ларингеален нерв и испод горниот ларингеален нерв. Во левата страна трактот поминува антерирно под аортата и се движи нагоре кон вратот, позади а. Carotis communis.

Четвртите бранхиогени аномалии често завршуваат во перитироидниот простор, тироидната жлезда, или цервикалниот езофагус, и може да се манифестираат клинички како абсцеси во овие подрачја. Кожниот отвор е долж предниот раб на m. sternocleidomastoides. Поради нивната реткост не постои стандардна хируршка постапка за нивниот третман.³¹

Други конгенитални аномалии кои се појавуваат на вратот но кои се разликуваат и по потекло и по клиничката слика од бранхиогените конгенитални аномалии се ларингоцела, тератома (тератоидни цисти), дермоидните и епидермоидните цисти, цисти на тимусот и есофагеалните дупликациони цисти. Midline cervical cleft (MCC)- среднолинијски цервикален расцеп,^{11,32,33} е многу редок и посебен ентитет, опишани до сега само околу 100 случаи, за прв пат од страна на Бејли во 1924 година. Не се смета за прав расцеп. Етиологијата не е јасна и се смета дека е абнормална фузија (стапање) на вториот и третиот лак или несојување на ниво на ектодерм.



Слика 3. Конгенитален среднолинијски цервикален расцеп

МЦЦ типично се манифестира при раѓањето со расцеп кој се протега од долниот аспект на ментумот до нивото на супрастерналната јама.

Дермоидните цисти се состојат од мезодерм и ектодерм и може да содржат фоликули на длаки, себацеални жлездички и потни жлездички. Овие лезии се на средната линија, безболни маси типично најдени во субменталната регија. Можеме да ги разликуваме од тиреоглосална циста по тоа што не се подигнуваат со подигањето односно протрузијата или плазењето на јазикот. Иако се скоро униформно лоцирани под милохиоидниот мускул, овие лезии може да бидат доволно големи да протрудираат до предната страна на подод на усната шуплина претставувајќи се како ранули. Исто така вреди да се споменат лимфатичните малформации кои ги вклучуваат лимфангиомите и цистичната хигрома³⁴, следуваат хемангиомите³⁵ и на крајот се васкуларните малформации (артериовенските А-В малформации или таканаречени А-В шантови)^{35,36}.

Хистолошка градба

Повеќето бранхиогени цисти се обложени со многуслоен плочест епител со кератинозен дебрис во внатрешноста на цистата^{1,10,37}. Во помал број цистата може да биде обложена со респираторен епител. Лимфоидно ткиво често е присутно надворешно од епителната обвивка. Герминативен формацијски центар може да постои во лимфоидната компонента но права архитектура на лимфен јазол не е најдена. Во инфицирани или руптурирани лезии, инфламаторните клетки се најдени во цистичната внатрешност или во околната строма. Поради ваквата градба на овие лезии, при хистолошкиот опис на истите при патохистолошкото дијагностицирање патолозите често и со право ги нарекуваат и лимфоепителиелни лезии.

КЛИНИЧКА СЛИКА

Тиреоглосалните цисти и бранхиогените цисти се двата најчести заеднички конгенитални лезии на вратната регија и предмет на проучување на нашиот труд.

Cystis colli lateralis congenita (Branchiogenes) -Бранхиогена циста

Бранхиогените цисти се конгенитални цисти кои растат во латералниот аспект на вратот кога вториот скржен лак не се затвара во текот на ембрионалниот развој. Тие се најчестите конгенитални цисти на вратот. Можат да се појават само од едната страна или билатерално на вратот ^{1,10,37}.

Билатерално се јавуваат ретко само во 2-3 % случаи. Вообичаено не се јавуваат непосредно по раѓањето, но стануваат приметливи многу покасно во животот односно во втората и третата декада. Случајно цистите може да комуницираат со надворешноста преку отвор на кожата или во ретки околности може да се отвараат во фаринксот. Ако се инфламираат може да формираат длабоки апсцеси на вратот или пак фистула која дренира. Неретко се среќаваат и хипертрофични и хиперпластични промени во овие цисти па некои автори предлагаат што побрза хируршка интервенција при дијагностицирање на ваквите промени.

Бранхиогените цисти се манифестираат во друга форма во споредба со бранхијалните синуси и фистули. Една типична бранхиогена циста, кога е без инфекција, се манифестира како нечувствителна, глатка, округла маса локализирана долж предната граница или во длабочина на стерноклеидомастоидеус мускул. Зависно од лакот од кој што потекнува, локализацијата може да биде на било кое место почнувајќи од надворешниот слушен канал се до клавикулата.

Бранхиогените цисти кои се појавуваат рано во детството, обично се јавуваат со акутна и болна зголеменост на цистата поврзана со инфекција на горните дишни патишта. Тие се зголемуваат во присуство на инфекција на горниот респираторен тракт и потоа се смалуваат како што одминува респираторната инфекција^{1,2,6,12}.

Една воспалена бранхиогена циста може да прогредира во абсцес или да руптурира спонтано да би формирала дренажен синус тракт. Неонаталните пациенти и тие со поголеми вакви цисти може да се јават со компромитирачки симптоми на аеродигестивниот тракт и асоцирани симптоми како стридор, диспнеа и дисфагија. Бранхиогените цисти кои потекнуваат од вториот и третиот бранхиоген расцеп може да причинуваат стридор со животна загрозувачка обструкција на дишните патишта кај новороденчињата.

Во спротивност од пациентите со цисти, тие со конгенитални синуси и фистули обично се јавуваат набргу после раѓањето поради тоа што надворешното отварање е видно на кожата. Бранхијалните фистули и синуси може да бидат палпабилни како фиброзна тетива кое се протега долж предниот раб на стерноклеидомастоидеус. Дренажа на слуз може да се појави од надворешниот отвор. Секундарните инфекции од кожните микроорганизми најчесто Стафилококус ауреус (*Staphylococcus aureus*) и бета хемолитички стрептококи причинуваат пурулентна дренажа, еритем и едем^{1,5}.

Мошне интересно е да се нагласи дека според податоците на разни автори 2/3 од конгениталните цисти на вратот се појавуваат од левата страна додека само една третина од десната страна на вратот. На што се должи оваа разлика останува сèште нејасно и предмет на расправа и понатамошни истражувања за расветлување и објаснување на појавата⁶⁰.

Cystis colli mediana congenita (Thyreoglossalis) – Тиреоглосална циста

Цистите на тиреоглосалниот дуктус претставуваат најчести конгенитални аномалии на вратот, броејќи некаде околу 2-4% од сите вратни маси. Најчесто се јавуваат во првата декада на животот но можно е да се појават и кај возрасните. Тие се причинети од перзистирањето на тиреоглосалниот дуктус во текот на спуштањето на тироидната жлезда од форамен цекум до нејзината конечна позиција во предната страна на вратот. Остатоките на овој дуктус може да се развиваат во синуси, фистули или цисти ^{1,5,38}.

Тиреоглосалните цисти се манифестираат во 6 варијанти. **Инфрахиоидниот** тип брои 65% и најмногу е најден во парамедијална позиција додека **супрахиоидниот** тип брои околу 20 % и е позициониран на средната линија. **Јукстахиоидниот** тип чини околу 15 %. **Интралингуална** локализација се јавува во приближно 2% а **супрастерналната** варијанта се јавува во приближно 10 % случаи. **Интраларингеална** тиреоглосална циста е многу ретка и треба да се разликува од интраларингеалните лезии ^{30,32,39}.

Тиреоглосалните цисти се обично нечувствителни и мобилни. Инфицираните цисти може да се манифестираат како чувствителна маса со асопирана дисфагија, дисфонија, дренажни синус, греска или зголемена вратна маса. Често се манифестираат после инфекција на горниот респираторен тракт. Обструкција на дишните патишта е можна посебно ако се работи за интралингуална циста.

Повеќето пациенти со тиреоглосална циста се претставени со асимптоматска маса на средината на вратот. Литературата ни укажува дека повеќето од овие лезии се јавуваат кај пациенти помлади од 30 години. Интересен е фактот дека последните

декади еден број на постари пациенти се јавуваат со тиреоглосална циста, некои од нив се на возраст од 80-90 години. Кога се јавува инфекција цистата обично се зголемува и може да се појави абсцес. Спонтанa руптура со секундарна синус тракт формација исто така е можна појава при присатство на една ваква тиреоглосална циста^{40,41}.

Како што нагласивме, тиреоглосалните цисти се заостатоци на ембрионалниот тиреоглосален канал кои можат да се јават на било кое место од базата на јазикот се до тироидната жлезда. Сепак повеќето од овие цисти се најдени на нивото на тироидната мембрана под длабоката вратна фасција.

Тие се на средната или непосредно до средната линија и се движат горе долу во при актот на голтање. Неретко еден синус тракт е присутен во медијалната линија без видлива циста. Овој среднолинијски синус тракт претставува заостаток на тиреоглосалниот дуктус. Може да се отвара во регионот на хиоидот или подолу изнад стерналната јама (југулум).

ДИЈАГНОЗА

Како и при секоја дијагностичка метода така и кај конгениталните цисти на вратната регија дијагностичката постапка започнува со детален клинички преглед кој подрзбира земање на детална анамнеза, инспекција, палпација и тн. Другите параклинички иследувања како што се радиолошките техники, ни овозможуваат да ја визуелизираме вратната творба и да ги одредиме нејзините карактеристики (на пр. да се диференцира солидна од цистична лезија) како и да се одредат анатомските односи. Ултрасонографијата, магнетната резонанција и компјутеризираната томографија ни овозможуваат увид на патолошкиот субстрат и така ни помагаат да се стеснува диференцијалната дијагноза. Земањето на ткиво за цитолошка или хистолошка анализа

или двете постапки заедно е следниот чекор во дијагностицирањето на конгениталните промени на вратот. Тенкоиглената аспирациона биопсија е мошне корисна за разликувањето на бранхијалните аномалии од малигните творби и заедно со микробиолошката култура помагаат за насочувањето на антибиотската терапија за инфицираните цисти⁴².

Ако е лезијата подлабоко во вратот близу до виталните структури, радиолошки водена биопсија (Ултразвучно или со компјутеризирана томографија) може да се спроведе пред да се одлучиме за отворена биопсија. Ако е лезијата на мукозата на горниот аеродигестивен тракт, се изведува ендоскопска биопсија. Преоперативно изведените иследувања вклучувајќи Високо резолутивна КТ, контрастна фистулографија и бариум проголтана есофагографија, може да ни послужат во селективните случаи. Овие иследувања ни служат за дефинирање на точната локализација, големина и смерот на конгениталните аномалии на вратот. Ако имаме надворешна фистула или синус на вратот, фистулографијата може да ни осигура додатни информации за смерот на трактот. Кај пациент со историја на рекурентен латерален вратен абсцес, кај кого е суспектна бранхијална аномалија со можно внатрешно синусно отварање, бариум проголтаната езофагографија може да ни даде корисни информации^{24,26,42}.

Најчестите дијагностички методи кои се користат како протокол при дијагностицирањето на конгениталните цисти на вратот кои се исто така употребени во оваа студија се:

1. Тенкоиглената аспирационата биопсија (Fine needle aspiration biopsy)
2. Ултразвукот (Ехосонографија)

3. Нуклеарната магнетна резонанца (МРИ)
4. Компјутеризираната Томографија (КТ)
5. Постоперативната Патохистолошка анализа

Посебно внимание заслужува Компјутеризираната Томографија како многу важно дијагностичко средство за дијагностицирањето на конгениталните цисти на вратот. КТ ни дава точна локализација, границите, корелацијата со околните ткива како и евентуалното потискување (displacement) на ткивата и структурите околу промената. КТ скеновите со тродимензионална реконструкција (3D) ни овозможуваат уште попрецизно планирање на оперативниот третман.

На КТ неинфицираните бронхиогени цисти се преставуваат со тенок ѕид, јасно ограничени и со една слаба транспаренција. Ако се воспали цистата тогаш нејзините ѕидови се здебелуваат, стануваат нејасни и се појавуваат воспалителни промени во околните меки ткива. Еден типичен опис на компјутеризираната томографија за една бронхиогена циста гласи: Под аголот на долната вилица латерално од каротидниот простор во предниот раб на мускулус СКМ се приметува цистична лезија. Истата ја компримира и ја потиснува субмандибуларната жлезда кон медијално, а СКМ мускул према постеролатералната страна додека васкуларните структури на каротидниот простор (се мисли на големите крвни садови на овој простор) кон вентрално и медијално односно према парафарингеалниот простор.

Магнетната резонанција се смета за добра дијагностичка метода, но кај децата се случува да не биде соодветен затоа што за разлика од КТ се изведува релативно побавно. Друга предност на КТ во споредба со МРИ е релативно поевтината цена па затоа е поприфатена од страна на пациентите. Единствената негативна страна на КТ во однос на МРИ е јонизирачкото зрачење.

ТРЕТМАН

Како што е нагласено погоре ^{1,4}, поголемиот број на вратине отекувања кај децата се бенигни инфламаторни лезии кои можат да бидат успешно третирани со антибиотици. Сите вратни маси кај истите кои бараат хируршки третман за дијагностички или терапевтски цели се по потекло конгенитални промени ^{4,7}.

Медикаментозна терапија

Ако е цистата инфламираана, антибиотскиот третман е индициран пред планирањето на хируршката ексцизија. Комплетна резолуција на воспалението овозможува полесна и побезбедна дисекција. Соодветна интравенска антибиотска терапија која ги покрива бактериите на горните дишни патишта вклучуваат Ампицилин и Сулбактам, Клиндамицин и многу други лекови. Оралните антибиотици може да бидат користени после подобрувањето на инфекцијата со интравенски антибиотици и за минимално инфицираните лезии. Соодветни орални антибиотици вклучуваат Амоксицилин (Аугментин), Клиндамицин и други агенси. Конечниот избор на антибиотикот се заснива на антибиограмот, па затоа аспирационата биопсија заедно со микробиолошката култура и сензитивноста на антибиограмот може да бидат мошне корисни за раното насочување на антибиотскиот третман ^{4,7,24}.

Хируршки третман

Третманот на конгениталните цисти е хируршка ексцизија со или без претходна фистулографија како додатна дијагностичка метода за локализација на промената.

Комплетна хируршка ексцизија е целта кога се третираат бранхиогените цисти и цистите на тиреоглосалниот дуктус. Доколку не постојат опасни компримитирачки

состојби на аеродигестивниот тракт, треба да се избегнуваат инцизии и дренажни постапки. Овие постапки често го пореметуваат планираното и ја отежнуваат идната хируршка ексцизија ^{4,11,12}.

Хируршкиот третман на бранхијалните аномалии, тиреоглосалните цисти и лимфатичните малформации е оправдан поради следните причини ^{24,26,28}.

1. Отстранувањето на лезијата овозможува патолошка дијагноза.
2. Кога се инфицирани, бранхијалните и тиреоглосалните цисти може да причинат акутна болка и да го компромитираат аеродигестивниот тракт.
3. Можат да причинуваат козметички деформитети.
4. Може да се појави малигнитет (ретко).

Идеално би било да се отстранат цистите без да се влезе во нивната внатрешност. Отстранувањето на овие лезии во помали делови ги зголемува шансите за заостанувањето на епително ткиво и поради тоа се зголемува ризикот од рецидив. Треба исто така да се внимава и за постигнување на педантна интраоперативна хемостаза.

За Тиреоглосалните цисти, третманот како што е нагласено погоре е хируршка ексцизија, именована како Систрунк процедура ⁴³. Ова беше стандарден хируршки пристап од 1920 година кое што го зема во предвид знаењето од ембриологијата и развојната анатомија на цистите на тиреоглосалниот дуктус. Хируршкиот третман вклучува ексцизија на цистата во континуитет со средниот дел на телото на хиоидната коска и блок на мускулите кои теоретски вклучуваат заостатоци од тиреоглосалниот дуктус до форамен цекум на јазикот. Имено при оваа постапка се отстрануваат комплетно заостатоците на тиреоглосалниот дуктус и цистата (и нејзиниот приврзок

за хиоидната коска, на базата на јазикот). Бидејќи ембрионалната хиоидна коска се формира околу тиреоглосалниот дуктус, важно е да се отстрани телото на хиоидот по должината со тиреоглосалниот дуктус и да се следи до форамен цекум на базата на јазикот.

Ако не се отстранат комплетно, постои голема стапка на рецидиви на таквите цисти. Локалната ексцизија не се препорачува поради големата стапка на рецидиви, проценето како голема стапка од 40 % во некои прикази. За споредба, рецидивната стапка кога се спроведува Систрунк процедурата изнесува само 1-4 %.

Како што нагласуваат некои автори хируршкиот третман е индициран веднаш по дијагностичката постапка на овие цисти. Во возрастната фаза на животот, овие цисти можат да алтерираат и да се развијат во канцер⁴⁴.

Контраиндикации и компликации

Акутна инфекција е релативна контраиндикација за хируршки третман. Акутната инфекција ја прави ексцизијата уште потешка и го зголемува ризикот за повреда на околните структури. Ако е можно акутната инфекција треба да се третира со адекватна интравенска антибиотска терапија.

Компликациите при оперирање на бранхиогенит е или аномалиите на тиреоглосалниот дуктус се инфекциите, хематомите и рецидивите.

Транзиторно па дури и перманентно оштетување на личниот нерв може да биде компликација при операции на аномалиите на првиот бранхијален расцеп. Внатрешната и надворешната каротидна артерија, внатрешната југуларна вена и кранијалните нерви IX, X, XI, и XII се сите во опасност кога се оперираат аномалии на

вториот и третиот бронхијален расцеп. Нервус ларингеус рекурентно посебно е загрозен кога се оперира по должината на трактот на третиот бронхијален расцеп.

Исходи и прогноза

Без историја за инфекција или претходен хируршки зафат, стапката на рецидиви после операција на аномалија на бронхијален расцеп изнесува приближно 3%. Рекурентната стапка се зголемува на приближно 20% после претходниот неуспешен обид за хируршко отстранување. Рецидивната стапка поврзана со едноставна ексцизија на тиреоглосална циста е околу 50 %, додека при изведување на формална Систрунк процедура изнесува само околу 5 %.

Литературен преглед

ЛИТЕРАТУРЕН ПРЕГЛЕД

За цистите на вратната регија постои обемна литература. Со цел да се разјаснат и проучат карактеристиките и деталите на хируршкиот третман на овие цисти како и варијациите на клиничката слика и диференцијалната дијагноза со другите вратни отеклини, голем број автори ги изнеле своите сознанија и резултати.

Housseger⁴⁵ и соработниците опишуваат неопластични промени со малигна трансформација на промените ако не се примени адекватна хируршка интервенција.

Charissis⁴⁶ наведува рецидиви на промените како последица на атипичната локализација на фистулите и цистите на вратот и потребата на што поскора хируршка интервенција на конгениталните фистули и цисти од дијагностицирањето. Ushakova⁴⁷ укажува на врската на тиреоглосниот канал со хиондната коска и наведува пример на остеомијелитички процес на хиондната коска како последица на инфламација на конгенитална циста на вратот.

Некои автори како Abramowicz⁴⁸ ја нагласуваат потребата од пренатален кариотип на пациентите кај кои е дијагностицирана во текот на ембрионалниот развој цистична хигрома. Овие информации треба да се корисни при консултација со пациенти кои во текот на бременоста ја носат оваа дијагноза.

Soh⁴⁹ смета дека повеќето случаи на бранхиогени карциноми наведени во литературата, се заправо секундарни метастатски лезии од окултна тонзиларна карцинома. Тој во својот труд дискутира за различниот пристап на цистичните метастази кои се разликуваат од солидните метастази и објаснува зошто орофарингеалните карциноми со цистични вратни метастази треба да се во посебна

категорија од останатите канцери на главата и вратот. И навистина од сите патохистолошки исходи кои ги добивме во текот на нашето истражување а вкупно се 15 дијагнози двајца пациенти имаат наод на маса која потекнува од назофарингеален карцином.

Многу често конгениталните цисти на вратот се верифицираат хируршки а потоа и хистолошки. Така Grasel⁵⁰ на 16 оперативно и хистолошки потврдени бранхиогени цисти врши ултрасонографска евалуација и содржината на некои од нив ги анализира микроскопски и со хемиска анализа. Ехографскиот наод на цистите зависеше од фреквенцијата на ултрасонографската глава (сонда) и беа рангирани како цистични (3.0 МХз) преку семи-солидни (5.0 МХз) до солидни (7,5 МХз). Ова фреквентно поврзана сонографска форма е причинета од големата количина на холестерин во овие цисти и дозволува дијагностицирање на бранхиогена циста.

Како што наведуваат Ковачич и Некич⁵¹ тиреоглосалната циста може да е лоцирана во интралингвалната, супрахиоидната или супрастерналната регија. Нејзината положба во хиоидната коска е екстремно ретка појава. Тие опишуваат 62 годишен пациент со голема тиреоглосална циста сместена во телото на хиоидната коска.

Покрај солидната безболна промена во предната вратна регија, пациентот имал и проблеми при голтањето и дишењето што се неспецифични за тиреоглосалните цисти. Со отстранувањето на хиоидната коска и тиреоглосалната циста исчезнале проблемите на пациентот и во текот на едногодишната обсервација не се забележани рецидиви на симптомите.

Некои автори како Enepekides⁵² и сор. укажуваат на потребата од добро менаџирање на конгениталните аномалии на вратот. Дијагностичките можности на вратините промени се доста широки и конгениталните малформации се сметаат за миноритет во однос на сите други вратни промени. Погрешната дијагноза или неадекватниот третман на вратна маса може да има сериозни последици за пациентот. Затоа овие автори предлагаат еден стандардизиран и комплетен пристап за евалуација на вратните промени. Како што нагласуваат истите, исцрпната историја и деталната клиничка екзаминација ги чинат камен темелниците на една таква евалуација и протокол.

Тиреоглосалните цисти може да бидат најдени во неколку различни локализации иако интра-тироидните случаи се ретки. Perez-Martinez⁵³ презентираат случај на 11 годишен пациент со видлива вратна маса во десниот тироиден лобус. На сонограмот промената претставувала конзистентна унилокуларна циста со пречник од 2 цм. Во текот на гамаграфијата цистата не примала радиоизотопи. Тенкоиглената аспирациона биопсија сугерирала дијагноза на тиреоглосална циста. Дури интраоперационо откриваат дека не постоеле тиреоглосални дуктуси или тракти, па затоа се одлучуваат за едноставна енуклеација на цистата штедејќи однодно спасувајќи го преостанатиот дел од тироидната жлезда. Патохистолошката анализа потврдила дека се работело за интратироидна тиреоглосална циста. Претходно биле опишани само 4 случаи на интратироидна тиреоглосална циста во детската популација.

Иако тиреоглосалната циста е појава која се среќава кај детската популација, не е секогаш исклучена можноста една таква циста да се најде и кај возрасни. Така Mohan⁵⁴ и сор. презентираат случај на 37 годишен пациент кој се јавува со симптоматологија на тиреоглосална циста. Тој се јавил во лекарската амбуланта

поради болка во предниот дел на вратот назначувајќи дека болките се нагласени при голтањето. Се приметувала и палпирала една маса во средниот дел на вратот при клиничкиот преглед. Следната експлорација на вратот открила тиреоглосална циста исполнета со пурулентна содржина. Иако несвојствено за возрасните, тиреоглосалните цисти треба да се дел од хируршката диференцијална дијагноза кога се работи за вратна отеклина. Треба да се запамти дека инфицираната вратна отеклина е заедничка појава на тиреоглосалната циста кај возрасните и соодветни дијагностички студии се потребни за да се одреди точната и исправната дијагноза. Кога еднаш се дијагностицира, тиреоглосалната циста најдобро се третира преку таканаречената Систрунк процедура за да се избегнуваат рецидивите.

Како што е кажано погоре малигната алтерација односно можностите за малигна алтерација на конгениталните вратни цисти се зголемува со времето на перзистирање на овие цисти, односно со се покасното откривање шансите за промени во клеточниот состав на овие промени се поголеми. Но понекогаш тие промени се присатни со самото откривање на таква една циста. Така Peretz⁵⁵ во еден свој труд опишува карцином на тиреоглосалниот дуктус кај децата односно прави приказ на случај на таков карцином во детска возраст. Како што објаснува тој, карциномот во тиреоглосалниот дуктус е редок педијатријски тумор. Референцата презентира случај на едно 15 годишно девојче со карцином на тиреоглосалниот дуктус, ги изнесува претходно објавените педијатријски случаи на овој тумор и овозможува дијагностичка и терапевтска консидерација на овој тумор кај децата. Претставени се 21 случај на ТГДЦа, 12 од нив кај девојчињата. Средната возраст била 13 год за девојките и околу 12 кај момчињата. Времетраењето на средновратната маса пред дијагностицирањето на ТГДЦа варираше од 3 недели до 8 години. Големината на отокот во времето на

пријавувањето се движела од 2 до 4 cm. Сите маси биле асимптоматски и дијагнозата на ТГДЦа била случајна после оперативниот зафат. Сите педијатријски случаи на ТГДЦа биле од папиларниот тип, освен за тројца пациенти кај кои е најден мешовит папиларно-фоликуларен карцином. Капсуларна инвазија била откриена кај 10 односно 45% пациенти. Локална инвазивност е најдена кај 5 (23%), но сите отстранети тироидни жлезди биле слободни од карцином. Еден пациент имал плуќни метастази. Тироидектомија со радиојодинска аблација била изведена кај повеќето од наведените пациенти. Известените прогнози за ТГДЦа кај децата била повољна, со само еден случај на летален исход.

Кога се инфицирани цистите на вратната регија не се препорачува оперативен третман поради можните компликации во текот и после хируршката интервенција. Дали се почести рецидивите после интервенцијата или компликациите после истата, ни прикажува Ostlie ⁵⁶ во својот труд насловен како тиреоглосалните инфекции и хируршките исходи. Овде тие ги претставуваат своите искуства со тиреоглосалните цисти да би одредиле дали преоперативната инфекција е поврзана со постоперативните компликации како што се рецидивите и постоперативните инфекции. Регистирале 99 пациенти кои се подвргнати на операција на тиреоглосална циста од јануари 1991 до јули 2002. Анализирани се факторите за кои се мислело дека се поврзани со рецидив како возраста, историја за инфекција, дренажа, абсцес и оперативната постапка. Присатството на абсцес или целулитис преоперативно (22 од 99 пациенти) не корелирала со рецидив. Постоперативната инфекција се јавила кај 13 од 99 пациенти и исто така била независна од преоперативната инфекција. Сеедно, постоперативната инфекција јасно била поврзана со зголемениот ризик за рецидив на тиреоглосална циста. Овие автори наведуваат заклучок: преоперативната инфекција се јавила во

околу 1 од 5 пациенти и не била одредувач на рецидив. Иако постоперативната инфекција не корелирала со присатноста на предоперативната инфекција, било јасно поврзана со статистички сигнификантна инциденција на рецидивноста на болеста.

Како што е наведено претходно, аномалиите од првиот бранхијален лак се во тесна анатомска врска со фацијалниот нерв и посебно внимание треба да се посвети на ризикот за оштетување на истиот при хируршкиот третман на овие аномалии. Некои автори како Ford⁵⁷ и сур. сугерираат и на потребата од суперфицијална паротидектомија при ваквите хируршки интервенции. Така D' Souza⁵⁸ врши опис на оперираните бранхијални аномалии (синуси и фистули) и нивниот различен однос со фацијалниот нерв. Тој опишува лезии кои лежат длабоко под главното стебло на фацијалис и/или нејзините гранки или помеѓу нив. Анализирани се местоположбата на отворите на бранхијалните лезии во споредба со позицијата на фацијалниот нерв. Исто така се рапортирани компликациите кои се должат на хируршкиот третман на овие лезии. Од вкупно 158 оперирани случаи со фистули или синуси на бранхијалните аномалии, фистулозните трактуси се чинеле дека повеќе стремат да се појават длабоко под фацијалниот нерв во споредба со синус трактовите. Лезиите со отвори во надворешниот слушен ходник се поврзани со трактови кои лежат површно во однос на фацијалниот нерв. Помладите пациенти се чинеа да имаат длабок тракт со консеквентно зголемен ризик за повреда на истиот нерв. Тој заклучува дека идентификацијата на стеблото на нервус фацијалис во раната фаза на дисекција е критична. Посебно внимание и грижа треба да се посвети на помладите пациенти (под 6 месеци) со фистулозни траки и на пациентите со трактови кои се отвараат на друго место од надворешниот слушен ходник.

При хируршкиот третман на првите бранхијални аномалии, некогаш е потребна широка инцизија и изложеност на оперативното поле или стандардна инцизија за паротидектомија која ќе овозможи добра прегледност на аномалијата и презервација на фацијалниот нерв. Комплетното отстранување без компликации зависи од доброто разбирање на регионалната ембриогенеза, знаењето за околностите кои ја окружуваат промената и свесноста за различната анатомска презентација на аномалиите како и готовноста и спремноста на хирургот да го идентифицира и заштити фацијалниот нерв. Triglia⁵⁹ и сор. Опишуваат 39 вакви случаи и прават осврт на хируршкиот третман на бранхијалните аномалии со инволвираност на нервус фацијалис.

Аномалиите на четвртиот бранхијален лак и јама се многу ретки. Nikolas⁶⁰ и сор. репортираат само 6 случаи во период од 12 години третирани со овие аномалии во две детски болници во Париз и Марсеј. Лезиите биле лоцирани од левата страна во сите 6 случаи и инфекцијата била најчеста заедничка манифестација. Клиничката слика рангирала од супуративен тироидитис во најголемиот број, до стридор кај некои новороденчиња. Најкорисната дијагностичка претрага била компјутеризираната томографија на вратот и ендоскопијата на пириформниот синус. Авторите ја нагласуваат потребата на комплетна хируршка ресекција вклучувајќи ја цистата и фистулозниот тракт до пириформниот синус.

Наместо фистулографија како помошно дијагностичко средство, некои автори како Karabulut⁶¹ и сор. при изведувањето на стандардната Систрунк процедура, како помош при визуелизацијата на трактусот или синусот на тиреоглосалната циста користат полипропиленски конец 3/0 и не рапортираат постоперативни компликации или рецидив во текот на фолоу уп периодот од неколку години.

Некои необични и во најмала рака чудни симптоми можат некогаш да бидат предзнаци за постоење на конгенитални цисти на вратот поготово тиреоглосална циста. Зафатеноста и загрозувањето на ларингсот е мошне ретка појава. Во еден таков приказ од страна на Shaari⁶² се опишува голема тиреоглосална циста со ларингеална екстензија и зарипнатоста како водечки симптом за барање на помош од страна на пациентот. Имено промуклоста е несвојствена појава на овие аномалии и нејзината поврзаност може да сугерира на загрозувањето и деструкцијата на ларингсот. Случајот е интересен и вклучува пациент кој е најпрво приметен со промуклост а после тоа со долготрајна отеклина на средината на вратот. Компјутеризираната томографија демонстрирала голема цистична маса која ја еродирала тироидната рскавица и го загрозувала односно посегнувала по пре-епиглотичниот простор и десниот параглотичен простор. Иако клиничкиот впечаток упатувал на ларингеална неоплазма, компјутеризираната томографија покажала циста. При хируршкиот третман тиреоглосалната циста била најдена и успешно отстранета по Систрунк процедура. Поради тоа што тироидната мембрана и тироидниот перихондриум биле внимателно презервирани и заштитени, немало потреба од реконструкција на глотисот односно ларингсот.

Дека сите отекувања на вратната регија се суспектни за малигни неоплазми без обзира на возраста на пациентот и другите околности при појава на една таква отеклина, покажуваат и Cinberg⁴⁴ и сор. во својата студија каде што сугерираат дека секоја отеклина на вратот треба да се смета за суспектна неоплазма и така треба да се опходиме кон тие отекувања се додека не се потврди спротивното односно се додека со патохистолошки наод се потврди дека се работи за друга бенигна промена а не за малигна неопластична промена.

Цел на трудот

ЦЕЛ НА ТРУДОТ

Поаѓајќи од сознанијата за опфатеноста на детската популација со овие промени, важноста на тајмингот на хируршкиот третман како и компликациите при појавата на воспалителни промени на овие цисти како и од самиот хируршки зафат, заедно со можностите и тешкотиите при исправното дијагностицирање на конгениталните цисти на вратот, ги поставивме следните работни цели и хипотези:

- да се одреди процентуалната застапеност (преваленција) на наведените форми на цистите во однос на другите слични промени во вратната регија.
- да се одреди дали полот и возраста(хипотези X1 и X2) имаат влијание на преваленцијата на наведените нозолошки ентитети.
- да се процени дијагностичката вредност на компјутеризираната томографија како постапка при дијагностицирањето на истите како и нејзината точност (хипотеза X3- потврдувањето на работната дијагноза) и нејзиното значење при планирањето на хируршкиот зафат.
- да се одреди колку се совпаѓаат приемната и конечната патохистолошка дијагноза (хипотеза X4) односно колку сме во состојба да ги препознаеме конгениталните вратни промени.

- да се збогатат нашето искуство и сознанијата околу конгениталните промени на вратот и можните компликации при самиот хируршки третман како и постоперативните компликации да се сведат на најмала можна разина.
- преку анализа на добиените резултати да се придонесе за подобро планирање на оперативниот зафат како превентивна мерка за спречувањето на можните малигни промени на конгениталните цисти на вратот

Пациенти и методи

ПАЦИЕНТИ И МЕТОДИ

За реализација на поставената цел и тестирање на поставените хипотези, беа опфатени пациентите оперирани на Клиниката за Максифацијална хирургија во Скопје од периодот 2007 до 2011 година со конгенитални промени на вратот или слични други промени во вратната регија за кои работната односно приемната дијагноза упатуваше на конгенитални вратни промени. Вкупниот број на пациентите изнесуваше 82 од двата пола на возраст од 3 до 71 години. Се обработуваа анамнестичките податоци од анамнестичките листови за почетокот и текот на заболувањето пред оперативниот зафат. Расподелбата на пациентите според возраста беше направена според следната шема:

1. Од 1 до 9 години
2. Од 10 до 19 години
3. Од 20 до 29 години
4. Од 30 до 39 години
5. Од 40 до 49 години
6. Од 50 нагоре

Беа регистрирани податоците дали пациентите се пратени на аспирациона биопсија, за одредувањето на класификационата група, ултрасонографија, компјутеризирана томографија или магнетна резонанца.

За аспирационата биопсија беа рангирани само со 2 белега и тоа дали има аспирациона биопсија или нема, и еден подбелег за класификационата група на добиениот наод од истата.

За ултрасонографскиот наод исто така беа рангирани со има или нема и доколку има тогаш е опишана дијагнозата според мислењето на радиодијагностичарот за дотичната промена и е направена посебна колумна за ЕХО наодот за да може да се спореди со другите дијагностички иследувања и да се компарираат вредностите.

Компјутеризираната томографија беше рангирана со радиолошкиот наод при описот на промената односно можната дијагноза која беше поставена од страна на радиологот и исто така беше направена посебна колумна за наодот од компјутеризираната томографија.

Магнетната резонанција беше помалку примената само во неколку случаи и ја рангиравме со описот на промената и неговата дијагноза.

Конечно од сите пациенти оперирани со дијагноза која сугерираше конгенитална промена на вратот или слични тумефакции во вратната регија, беа земени резултатите од постоперативната патохистолошка дијагноза, детално анализирани и ставени во посебна колумна со соодветен код за понатамошна кростабулација на патохистолошкиот наод со другите варијабли за потребите на нашиот труд.

Статистичка обработка

За статистичката обработка беа користени стандардните дескриптивни постапки (пресметување на просек и стандардна девијација, одредување на пропорции). Податоците беа средени во табели и графикони. Анализата беше направена како со параметриски така и со непараметриските тестови во зависност од варијаблите.

Добиените резултати беа обработени со софтвер Статистика 7, Ексел 5, и СПСС верзија 12. Беа користени во креирањето на базите на податоци и нивна дескриптивна анализа.

Дескриптивно статистичка обработка:

- Обработка на податоците според дефинираните варијабли и нивно табеларно и графичко прикажување.
- Анализа на структурата на нумеричките серии (просек и стандардна девијација).
- Тестирање на значајност на разликите меѓу две аритметички средини со Студент-ов т- тест.
- Анализа на односите меѓу одделни нумерички серии со Пеарсон-овиот коефициент на корелација.
- Сензитивност и специфичност

Резултатите беа прикажани со табели и графикони а при нивната презентација и опис беа употребени непараметријските тестови за повеќе колумни и редови како што е Крускал- Валис тестот, тестот за сигнификантност Ман Витнеј и тестот за значајност на асоцијација според Колмогоров- Смирнов.

Резултати

РЕЗУЛТАТИ

Конгениталните промени на вратот како и другите тумефакти на вратот и субмандибуларната регија имаат големо значење во севкупната казуистика во дејностите на Максилофацијалниот хирург. Од нивниот вид и локализација зависи со какви симптоми и тегоби ќе се пројават овие промени. За нивната застапеност во Република Македонија досега нема податоци. Оваа студија е прва од таков вид и ќе укаже на неколку карактеристики и би требало да има голема важност во јавноздравствената проблематика. Податоците и резултатите прикажани во оваа студија се однесуваат само на Клиниката за максилофацијална хирургија и како што нагласивме погоре дека со оваа проблематика се бават и други хируршки гранки и доколку сакаме да имаме увид во целокупната проблематика на ниво на Република Македонија тогаш треба да ги земеме во предвид и резултатите од другите клиници па да имаме права преваленција на државно ниво.

Во испитуваниот период (5 години) се оперирани 82 тумефакти на вратот со дијагноза за конгенитални вратни промени или постоење на сомнеж за една таква промена. Значи во ова испитување се опфатени пациенти со приемна односно работна дијагноза *Cystis colli mediana*, *Cystis colli branchiogenes* и *Tu colli (branchiogenes suspecta)*.

На табелите и графиконите кои што ги прикажуваме може да се согледа значењето на навремената дијагностика на конгениталните промени на вратот, морбидитетот односно преваленција на одредени нивни форми во последните 5 години како и нивната дистрибуција во однос на пол и возраст. Исто така се кростабулирани

и прикажани резултатите од совпаѓањето на почетната дијагноза со конечниот патохистолошки наод односно наодот сугериран од компјутеризираната томографија. На крајот се прикажани сите 15 конечни патохистолошки наоди и процентуалната застапеност на поедините дијагнози од сите 82 оперирани суспектни конгенитални промени на вратот кои се опфатени во ова испитување.

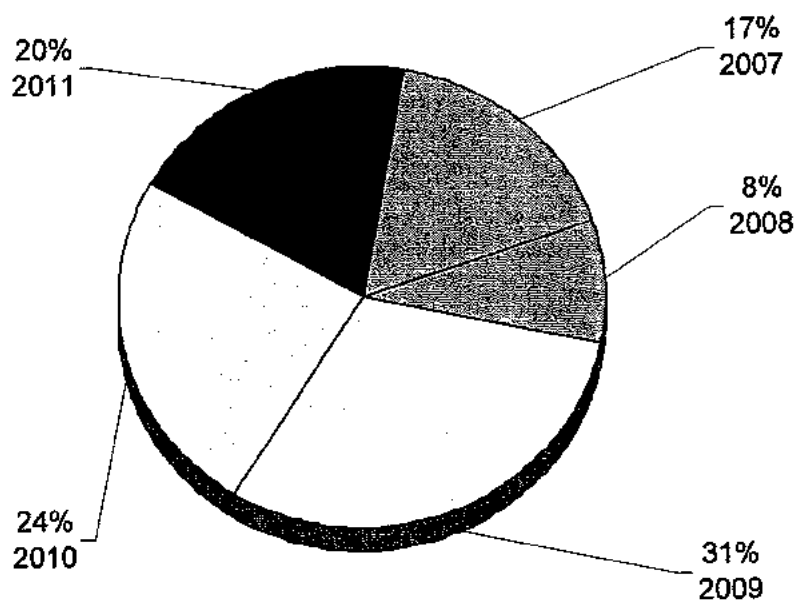
Tabela 1. Табела на хируршки третирани лица од 2007-2011

година	фреквенција	Проценти на структура (%)	Мб (на милион жители)
2007	14	17	7
2008	7	8	4
2009	25	31	13
2010	20	24	10
2011	16	20	8

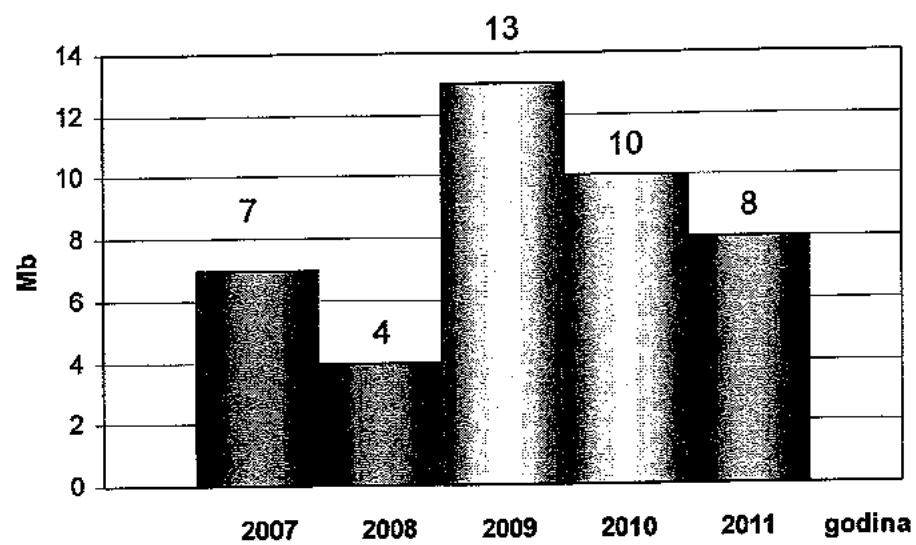
Од табела 1 може да се согледа состојбата на оперирани конгенитални промени на вратот. Во 2009 година среќаваме највисок процент на третирани лица, при што стапката на Морбидитет изнесува 13 на милион жители во Републикава.

Стапката на болнички Морбидитет за дејноста во МФХ изнесува 4 на 100.000 жители.

Графикон 1 а. Дистрибуција на фреквенциите на хируршки третирани лица од тумефакти на вратот (процентуално)



Графикон 1 б. Дистрибуција на морбидитетот на лекувани лица од тумефакти на вратот



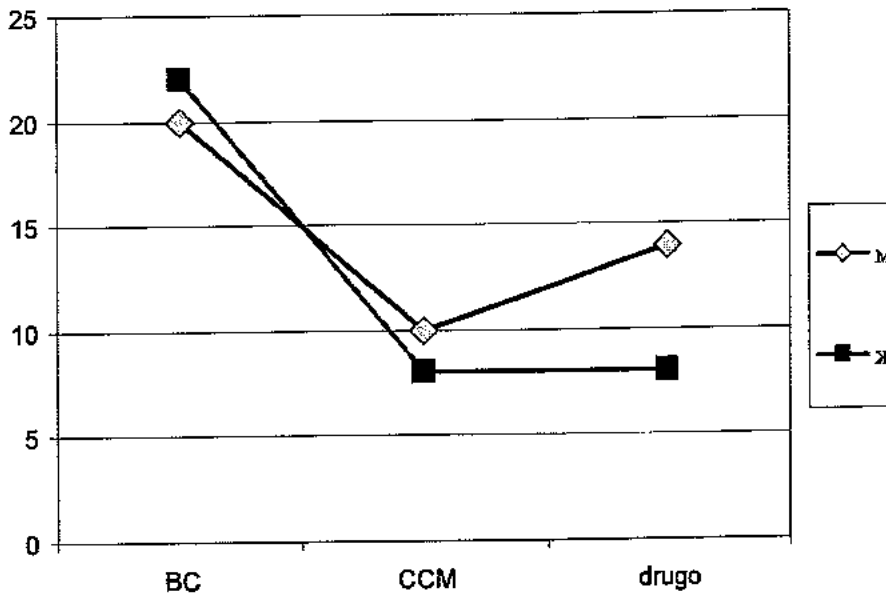
Табела 2 а. Дистрибуција на пациентите според пол и патохистолошки постоперативен наод

Патохистолошки наод	ПОЛ		Вкупно
	Мажи	жени	
Cystis branhiogenes	20	22	42
Cystis colli mediana	10	8	18
Останати	14	8	22
Вкупно	44	38	82

Статистички, овие фреквенции не покажуваат поврзаност со полот

(χ^2 тест = 1.52, ss = 2, p > 0.05).

Графикон 2 а. Линиски дијаграм на фреквенцијата на оперираните цисти по полот

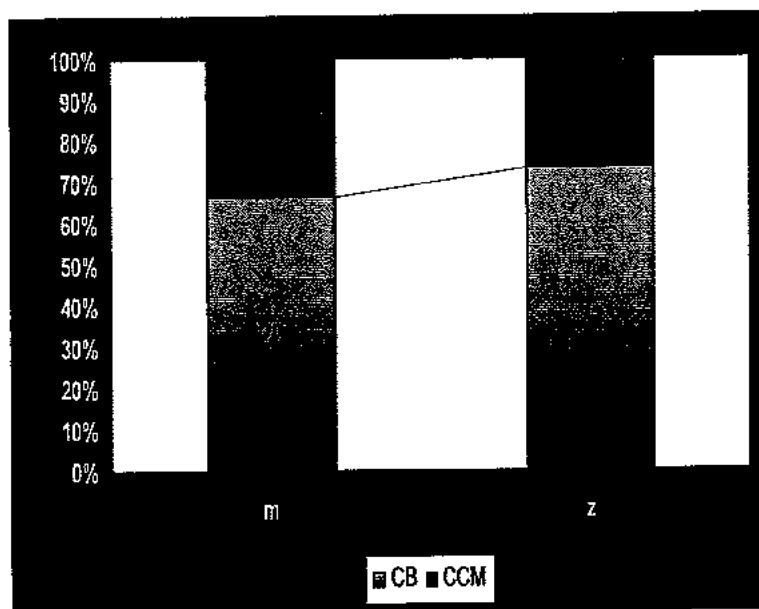


Табела 2 б. Дистрибуција на пациентите според пол и патохистолошкиот постоперативен наод

Патохистолошки наод	ПОЛ		Вкупно
	Мажи	жени	
Cystis branhiogenes	20	22	42
Cystis colli mediana	10	8	18
Вкупно	30	30	60

Од аспект на тестирањето на хипотезата за поврзаност на полот и појавата на овие цисти се покажа дека не постои статистичка сигнификантност, т.е. се прифаќа H_0 дека нема поврзаност со полот (χ^2 тест = 0.32, ss = 1, $p > 0.05$).

Графикон 2 б. Дијаграм на фреквенцијата на оперираните цисти според пол



На графиконот 2б дистрибуцијата на фреквенциите според пол е прикажана во апсолутни бројки и процентуално.

Пациентите со бронхиогени цисти и медијално поставени цисти на вратот се обработена и според возраст.

Табела 3. Дистрибуција на појавата на цистите според возраст

Возрасна група	Dg		Вкупно
	БЦ	ЦЦМ	
1-9	1 / 2.4%	7 / 38.9%	8 / 13.3%
10-19	10 / 23.8%	3 / 16.7%	13 / 21.7%
20-29	13 / 31%	4 / 22.2%	17 / 28.3%
30-39	7 / 16.7%	3 / 16.7%	10 / 16.7%
40-49	4 / 9.5%	0	4 / 6.7%
над 50	7 / 16.7	1 / 5.6%	8 / 13.3%
Вкупно	42 / 100%	18 / 100%	60 / 100%

Од табелата се гледа дека за бранхиогените цисти возраста од 10 до 29 години е најзастапена (54%), додека ЦЦМ се појавуваат порано, во првата деценија од животот (38.9%).

Просечната возраст на лицата со БЦ изнесува 31.4 години со отстапување 16.9 години. Најмладиот пациент имаше 7 години, додека највозрасниот беше на 71 годишна возраст.

Кај лицата со ЦЦМ средната возраст беше 18.8 години, со отстапување од 14.8 години. Најмладиот пациент имаше 3, а највозрасниот 55 години.

Тестирањето на хипотезата за влијание на возраста врз појавата на овие два вида цисти на вратот не можеше да го користи Pearson-овиот χ^2 тест, заради големиот број рубрики со фреквенции под 5 лица.

Заради тоа се употребија други непараметриски тестови, кои покажаа висока статистичка значајност. Имено, со тестот според Mann-Whitney сигнификантноста се покажа дека е на ниво $p < 0.01$, што значи дека нултата хипотеза H_0 се отфрла и се прифаќа мислењето на терапевтот дека цистите на вратот се поврзани со возраста. Според Kolmogorov – Smirnoviот тест значајноста на оваа врска е на ниво 90%, кое значи дека можноста да се згреша во возраста како белег изнесува само 10%.

Компјутеризираната томографија се покажа како многу ефективна дијагностичка постапка при дијагностицирањето на конгениталните вратни аномалии.

Табела 4. Дистрибуција на поставените дијагнози пред оперативно (КТ) и постоперативен патохистолошки наод за 2011 година

	Приемна дијагноза	КТ дијагноза (предоперативно)	Патохистолошка дијагноза
1	Cystis branchiogenes lat. dex.	Cystis branchiogenes lat. dex.	Cystis branchiogenes colli
2	Tu cysticum colli lat. dex.	Cystis branchiogenes	Cystis branchiogenes infl.
3	Cystis branchiogenes lat. dex.	Cystis branchiogenes	Cystis branchiogenes
4	Tu colli lat. dex	/	Cystis lymphoepithelialis
5	Cystis branchiogenes lat. dex.	/	Cystis branchiogenes
6	Cystis branchiogenes lat. sin.	/	Cystis branchiogenes
7	Cysta colli mediana	/	Cystis epidermalis colli
8	Cysta colli lat. sin.	/	Cysta colli branchiogenes
9	Tu colli lat. dex	Warthin tumor	Warthin tumor
10	Cystis branchiogenes lat. dex.	Cystis branchiogenes	Cystis branchiogenes infl.
11	Cysta colli mediana	/	Fistula thyroglossalis
12	Tu cysticum colli	/	Lymphangioma cysticum colli
13	Tu colli retromandibularis	Cystis branchiogenes	Cystis branchiogenes
14	Cystis branchiogenes lat. sin.	Cystis branchiogenes	Cystis colli branchiogenes
15	Cysta colli mediana	/	Cysta colli mediana

Белешка: во случајевите кога не е користена КТ како дијагностичка метода, користени се МР или ултразвукот.

Како што се приметува од горната табела во сите случаи каде што е поставена дијагнозата врз основа на наодот од КТ, точноста со конечната патохистолошка дијагноза е потполна, односно дијагнозите поставени врз наодот од компјутеризираната томографија се потврдија со 100% точност од страна на постоперативната патохистолошка дијагноза.

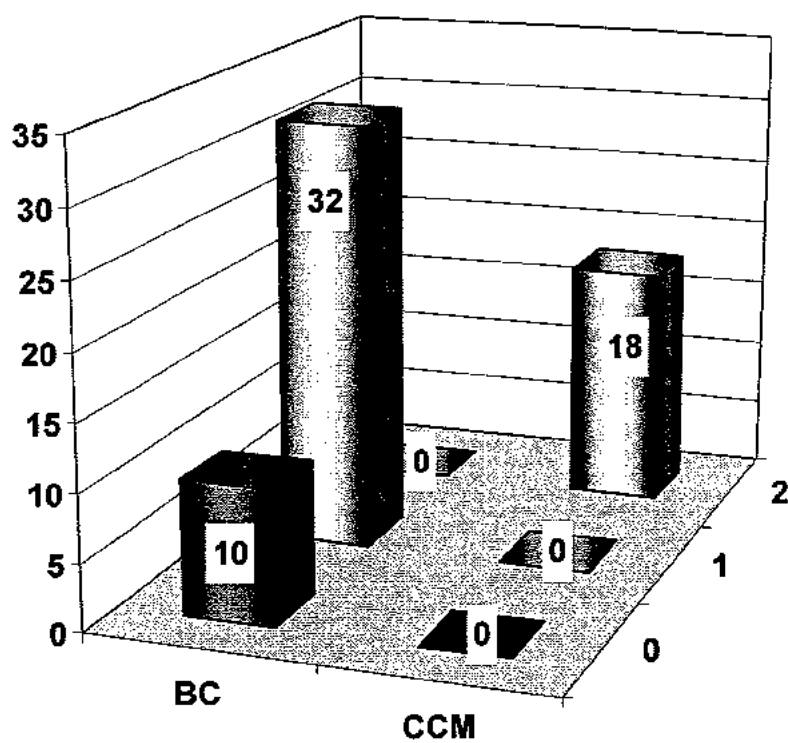
Табела 5. Дистрибуција според предоперативна и постоперативна дијагноза

Дг операција	Патохистолошка Дг		Вкупно
	БЦ	ЦЦМ	
0	10 / 24%	0 / 0.0%	10 / 17%
1	32 / 76%	0 / 0.0%	32 / 53%
2	0 / 0.0%	18 / 100%	18 / 30%
Вкупно	42 / 100%	18 / 100%	60 / 100%

Од табелата во која се вкрстени работните дијагнози со конечната патохистолошка дијагноза се гледа дека во 12 % (10 пациенти од вкупно испитани 82 лица), дијагнозата пред операција е коригирана со постоперативниот наод.

За 18 лица предоперативната дијагноза (ЦЦМ) се совпадна со конечната ПХ дијагноза (ЦЦМ) што претставува голема точност (100 %) во дијагностицирањето на овие промени.

Графикон 3. Расподелба на пациенти според предоперативна и постоперативна дијагноза



Табела 6. Дистрибуција на сите постоперативни патохистолошки наоди

Постоперативна Дг	Приемна Дг			Вкупно
	Друго	БЦ	ЦЦМ	
БЦ	10 / 50%	32 / 82%	∅	42 / 51%
ЦЦМ	∅	∅	18 / 78%	18 / 22%
Епидермална циста	∅	4 / 10%	1 / 4%	5 / 6%
Липома	1 / 5%	∅	∅	1 / 1%
Метастатски Депозит од назофар.	2 / 10%	∅	∅	2 / 2%
Ксантогранулом	∅	∅	1 / 4%	1 / 1%
Атером	∅	∅	1 / 4%	1 / 1%
Грануломагозно воспаление	∅	∅	2 / 8%	2 / 2%
Метастаза	∅	1 / 2%	∅	1 / 1%
Шваном	∅	1 / 2%	∅	1 / 1%
Карцином	1 / 5%	∅	∅	1 / 1%
Хигром	2 / 10%	∅	∅	2 / 2%
Варгин-ов тумор	3 / 15%	∅	∅	3 / 4%
Скрофулодерма	∅	1 / 2%	∅	1 / 1%
Неурофибром	1 / 5%	∅	∅	1 / 1%
Вкупно	20 / 100%	39 / 100%	23 / 100%	82

Во анализата на претходната табела се прикажани сите испитаници, како според приемна, така и според постоперативна дијагноза. Најголема важност за тестирање на XO_3 се покажаа вредностите на БЦ и ЦЦМ. Секако дека во предоперативниот период некои цистични формации ги немаат сите карактеристики на БЦ, така што во нашето испитување само 10 лица (12%) имаа карактеристики на туморозна промена на вратот.

Во послеоперативниот наод овие промени се покажа дека се навистина БЦ.

За ЦЦМ приемната дијагноза се потврди во потполност со постоперативниот наод.

Анализата е направена со користење на непараметриски тест по Kruskal-Wallis.

Податоците од табелата укажуваат на голема точност при дијагностицирањето на конгениталните цисти на вратот (Kruskal -Wallis test, $df = 2: p \leq 0.01$), што со сигурност од 99% се отфрла хипотезата за неповрзаноста на приемната и постоперативната дијагноза.

Имено, за сите 18 пациенти за кои сме мислеле дека се конгенитални медијални цисти на вратот, послеоперативно се докажа исцело дека дијагнозата при прием е точна.

За бранхиогените цисти приемната дијагноза беше точна за 32 лица, односно во 82% случаи оваа дијагноза се потврди и како конечна ПХ дијагноза. Во однос на БЦ се покажа дека кај некои лица овие цисти не е можно точно да се дијагностицираат при прием. Заради тоа се појави еден процент лица (12% - 10 пациенти), кај кои се мислеше дека се тумори на вратната регија. Послеоперативно и пато-хистолошки се востанови дека овие состојби се всушност БЦ.

Дискусија

ДИСКУСИЈА

Неколку теории се предложени за да се објасни потеклото на аномалиите на вранијалниот расцеп. Некомплетно затварање на бронхијалните расцепи и јамички со пропаѓање на облитерацијата на цервикалниот Хисов синус, е предложен како можен механизам. Некомплетно затварање на бронхијалните расцепи и јамички со руптура на бронхијалниот (плате) е уште еден можен механизам.

Аномалиите на бронхијалниот систем можат да се манифестираат како синус, фистула или циста. Синусите на бронхијалниот расцеп со надворешно отварање обично се поврзани со првиот и вториот бронхијален лак. Синусите со внатрешно отварање се обично поврзани со третиот и четвртиот бронхијален лак.

Постојат разни типови на цистични лезии во меките ткива на главата и вратот кои често не може да се диференцираат со клинички преглед. Дијагностичката процедура може обично да се иницира со изведување на ултразвучен преглед. Ова може да ја покаже цистичната природа на лезијата. Меѓутоа, кај поголемите лезии, комплетната визуализација може да е невозможна и идентификацијата на потеклото на лезијата може да е тешка. Ова се случува посебно со лезиите во супрахиоидниот врат. Лезиите кои ги зафаќаат парафарингеалните, длабоките паротидни, мастикаторните и другите длабоки фасцијални простори се посебно проблематични. Поради тоа е неопходно понатамошното иследување со КТ и МРИ со цел да се дојде до дијагнозата и да се разјасни опсегот на лезијата. Цистата се дефинира како затворен кавитет или кеса покриена со епител. Таа е типично исполнета со течност, но може да содржи и воздух, производи на крв, гној или некој друг протеинозен материјал.⁶³

Диференцијалната дијагноза на цистите на вратот вклучуваат конгенитални вратни маси, метастатски сквамозен карцином, стечени ларингоцели, и цистични Шваноми. Конгениталните маси на вратот ги вклучуваат цистите на бранхијалниот расцеп, цистите на тироглосалниот дуктус, ектопични цисти на тимусот, дермоидни и тератоидни цисти, цистични васкуларни абнормалности, и лимфатични малформации како што е цистичниот лимфангиом.⁶⁴

Резултатите на нашиот труд го потврдуваат горе наведеното и се совпаѓаат и со студиите кои укажуваат на сите можни патохистолошки исходи (вкупно 15 во нашиот труд) кои доаѓаат во предвид во диференцијалната дијагноза на конгениталните цисти на вратот. Интересно е да се нагласи, дека нашите резултати го прошируваат диференцијално дијагностичкиот распон наведен погоре со следните дијагнози: Вартинов тумор, скрофулодерма, неурофибром и липом.

Исто така треба да се има на ум дека иако многу ретки, туморите на глобус каротикум, иако се по природа секогаш бенигни и претежно се хемангиоматозни промени, самата нивна локализација претставува ризик за пациентот и хирургот и нивната клиничка слика неретко дава впечаток дека се работи за една бранхиогена циста. Со добра радиодијагностика поготово со вклучувањето на компјутеризирана ангиографија ќе се утврди дека се работи за тумор на глобус каротикум и хирургот посебно ќе се припреми за енуклеација на еден таков тумор.

Повеќето цистични лезии кај новороденчињата и децата се конгенитални или развојни по потекло и ја одразуваат неправилноста во ембриогенезата. Диференцијалната дијагноза најчесто вклучува тироглосални цисти, лимфатични малформации, и бранхиогени цисти. Исправната радиолошка евалуација на овие маси зависи од нивната локализација, опсегот, и претпоставената конзистенција (цистична или солидна). За одредување на конзистенцијата, ултрасонографијата нуди многу

предности: не бара седација, не го изложува пациентот на зрачење, и може лесно да утврдува дали лезијата е солидна или цистична. КТ или МР се поприкладни за поголеми лезии или кога лезијата се простира во повеќе анатомски простори. Тироглосалната циста обично се прикажува како палпабилна, нечувствителна среднолиниска вратна маса која се подигнува со актот на голтањето или протрузијата на јазикот. Ултрасонографијата е метода на избор при дијагностика на овие лезии, кои имаат варијабилен приказ (анехогена, хипоехогена, или хетерогена) без оглед на присатноста на воспаление. На КТ, некомплицираниите тироглосални цисти се добро дефинирани, ниско атенуирани маси и на МР прикажуваат интензивен флуиден сигнал.⁶⁵

Цистите на вториот бранхијален расцеп се далеку најчестите од сите аномалии на бранхијалниот апарат, претставувајќи околу 95 % од аномалиите на бранхијалниот апарат.⁶⁶

Бејли и колегите оригинално ги класифицирале четирите типови на бранхиогените цисти.⁶⁷ Тип 1 е веднаш под платисма и предната латерална површина на стерноклеидомастоидеус. Тип 2 се многу помедијално од типот 1 и се лоцирани долж предната површина на стерноклеидомастоидеус, непосредно латерално од каротидниот простор и постериорно од субмандибуларната жлезда, досегнувајќи ја линијата помеѓу кожата на латералниот врат и ипсилатералната тонзила. Тип 3 бранхиогените цисти се протегаат повеќе медијално помеѓу артерија каротис интерна и артерија каротис екстерна, на самата бифуркација. Визуелизацијата на цистичната екстензија или “опашка“ помеѓу каротидните артерии се сметало за патогномонично за тип 3 бранхијални цисти.⁶⁸ Тип 4 се најмалку застапени и се наоѓаат на самиот

фарингеален мукозен простор непосредно до палатиналната тонзила, често протегајќи се кранијално од тонзилата кон базата на черепот ⁶⁹.

Шваномите на вратот се напротив несвојствени за ова подрачје. Можат да потекнуваат од било кој нерв периферен, кранијален или аутономен. Како и бронхиогените цисти, клинички се претставуваат како инсидиоус, споро растечка, безболна маса, карактеристики кои водат до неточна дијагноза ⁷⁰. Повеќето од овие тумори се бенигни, но ако се појават симптоми, може да бараат хируршка експизија да би се сочувала нервната функција. Дијагностицирањето обично бара комбинирање на радиолошки пристап и хируршка патолошка корелација. Класичната клиничка слика на шваномот на вратот претставува една голема, оштро демаркирана, фусиформно појачана маса во подрачјето на форамен југуларе или во парафарингеалниот простор. Во досегашниот литературен преглед само еднаш е рапортиран случај на шванома која се протега помеѓу внатрешната и надворешната каротидна артерија имитирајќи тип 3 на аномалиите на бронхијалниот расцеп. Иако е редок, сепак шваномот треба да се вклучи во диференцијалната дијагноза кога тип 3 на циста се дијагностицира. Неколку имигинг техники се вредни и можат да помогнат да се диференцира помеѓу шваном на вратот и бронхиогена циста.

Овде се вклучени магнетната спектроскопија ^{71,72,73}, (MR diffusion-weighted imaging) и магнетна дифузиско-измерена имагинг ⁷⁴ или алтернативно колор Доплер ултрасонографија ⁷⁵. Чо и сор ја евалуираат метаболичката карактеристика на шваномот и го демонстрираат (со МР спектроскопија) зголемениот миоинозитол во 11 случаи на солиден тумор кај кои бил сигнификантно помал него кај оние со бенигна цистична лезија. Овој протокол може да помогне во разликувањето на една бенигна или малигна шванома од бронхиогената циста. Ако понатамошни

дијагностички постапки се потребни, тогаш колор Доплер сонографијата може да биде корисна во разлучивањето помеѓу шваном и бранхиогена циста. Гритзман и сор. ја презентираат корисноста на сонографијата во евалуацијата на мекоткивните вратни маси. Нивниот извештај заклучува да бранхиогените цисти имаат варијабилна ехогеност но на колор Доплер имагинг не покажува васкуларност внатре во лезијата ⁷⁶. Напротив кога се евалуира со колор Доплер шваномот покажува внатрешна васкуларност која лесно може да се идентификува.

Бидејќи бранхиогените цисти се ретки и често се побркуваат со другите ентитети, радиолошката дијагноза може да биде тешка. Површната локализација на некои од овие цисти ги чинат повољни за ултразвучен преглед. Како и лимфатичните малформации, бранхиогените цисти се анехоични на преглед, но инфекција или хеморагија ја зголемува ехогеноста. КТ скените и МРИ имагинг се модалитети на избор за проценка на екстензираноста и длабочината на бранхиогените цисти. На КТ преглед тие се појавуваат како течно истечени маси со добро опртани рабови. Соседните структури до цистата се потиснати, но фасцијалните равнини се сочувани доколку не е изведена биопсија или е присатна инфекција. МР имигите покажуваат различна дебелина на цистичниот ѕид и содржај кој може да биде хипоинтензна или ако содржи протеинозен дебрис хиперинтензна на T1- имагинг.

Бранхиогените цисти се хиперинтензни на T2 имиџи. Инфекцијата може да проузрокува задебелување на рабовите (рим енхацемент) имитирајќи абсцес или лимфаденопати. ⁷⁷

Местоположбата може да помогне да се потврди диференцијалната дијагноза. Општо земено, тиреоглосалните цисти се сместени на средната линија додека лимфатичните малформации и бранхиогените цисти се локализирани латерално. Лезија близу до надворешниот слушен канал или паротидната жлезда има повеќе изгледи да

биде бранхиогена циста додека лезија антериорно на стерноклеидомастоидеус и постериорно на субмандибуларната жлезда би требало да сугерира циста на вториот бранхијален процеп. Цистичните маси на постериорниот цервикален простор се или лимфни малформации или аномалии на третиот бранхијален процеп.

Тироидната жлезда е првата ендокрина жлезда која се појавува во ембрионот. Се развива како последица на евагинација на ендодермниот епител на подот на фарингсот. Тиреоглосалниот дуктус се формира долж патот на поминувањето на нормалната каудална миграција на тироидот, поврзувајќи ја за фарингеалниот под. Дуктусот обично се фиброзира а потоа involуира до седмата или осмата недела на интраутериниот развој. Перзистентни заостатоци на тиреоглосалниот дуктус можат да потакнат раст на цисти во било која точка по должината на патот на спуштањето, со 61 % развој на или под нивото на подјазичната коска. Овие цисти се подложени со цилиндричен, кубичен или некератинизиран плочест сквамозен епител . Преку 65% имаат и нормално тироидно ткиво на ѕидовите при изработка на пресеци ⁷⁸. Ова е ткивото од кое потекнуваат повеќето на карциномите на тиреоглосалниот дуктус. Поради тоа 95% од карциномите се тиреогени по потекло, воглавно претставувајќи папиларни карциноми. Ова е радиолошки сигнификантно затоа што присутноста на хистолошки псамом телца и калцификации во овие тумори обезбедува едно својство кое може да се препознае макроскопски преку КТ скеновите. Околу 5 % од карциномите на тиреоглосалниот дуктус се сквамозни по природа и се карактеризираат со најголема агресивност ^{79,80}.

Виртуелно е идентифициран секој тип на тироиден карцином кој се јавува во тиреоглосалниот дуктус , со исклучок на медуларниот карцином. Ова е очекувано затоа што медуларниот карцином потекнува од парафоликуларните клетки кои се развиваат од ултимобранхијалните телца а не од тироидната анлаге. Повеќето на

тиреоглосалните цисти се дијагнозираат пред триесеттата година од животот, додека просечната возраст за развој на карцином е 39 години. Сквамозниот тип на карцином на тиреоглосалниот дуктус настојува да се развие во повозрасната популација, со просечна возраст на инциденција од 54 години. Карциномите се чинат позастапени во женската популација додека бенигните цисти немаат чиста полна предилекција. Не е идентифициран ниту еден предиспонирачки фактор за малигна промена иако радијацијата се смета за фактор на ризик ⁸¹.

Најкарактеристичното својство на цистичните вратни маси која ни помага во диференцијалната дијагноза е среднолинијската локализација, најчесто на ниво или под нивото на подјазичната коска како и односот на цистата према појасните мускули. Сонографската литература ги има истакнато разните сонографски наоди на често комплексната цистична појава ^{82,83}. КТ наодите на тиреоглосалната циста се исто така документирани како добро ограничена, ниско дензична лезија со една тенка, глатка обвивка. Зголемувањето и задебелувањето на цистичниот ѕид, преградувањето и порастот за дензитетот на цистичната содржина сугерира на додатна инфламација или инфекција. Една целосно солидна грутка на средината на вратот може да претставува ектопична или лошо поставена тироида и долниот дел на вратот треба да се провери за исправно-поставена (ортотопична) тироидна жлезда.

Хеморагија во внатрешноста на цистата може допринесува за варијабилноста на КТ дензитетот поготово на МР интензитетот, иако варијабилноста е евидентна и кај случаевите на бенигни тиреоглосални цисти и случаевите на карцинома. Малку е опишано во радиолошката литература карцинома на тиреоглосалните заостатоци.

Неколку прикази на случаи имаат документирано вакви ретки лезии и литературата сугерира дека присатноста на солидни компоненти во тиреоглосална цистата циста ја зголемува сомнителноста за малигнитет. Инфламативните процеси

покажуваат здебелување на цистичната обвивка и присатност на солидни компоненти. Среднолинијската локализација на солиден чвор и односот спрема хиоидната коска упатуваат на нејзино потекло од тиреоглосалниот тракт. На КТ скеновите калцификацијата се идентификува во повеќето случаи на карцином додека не се приметува во бенигните тиреоглосални цисти. Според досегашните сознанија калцификацијата не се поврзува со тиреоглосалните цисти дури и во присуство на хронична инфламација. Се чини дека калцификацијата е специфичен иако не сензитивен индикатор на папиларен карцином, најчестиот тип на тиреоглосален карцином. Како заклучок од горенаведеното може да се каже дека присуството на меко ткиво во близина на тиреоглосална циста сугерира на можност на карцином иако инфламаторните процеси можат да покажат солидна компонента. Присуството на калцификација може да биде специфичен маркер за папиларен карцином, најчестата малигност која е поврзана со тиреоглосалната циста. Калцификацијата и мекоткивните солидни маси се толку битни радиолошки особини за барање кога се врши евалуација на возрасни пациенти со клинички суспектни тиреоглосални цисти.

Цистите на тиреоглосалниот дуктус се најчестите неонтогени цисти кои се појавуваат на вратот. Тие бројат околу 70% на конгениталните аномалии на вратот ⁷⁸. Иако овие лезии обично се јавуваат во детската возрасна група, можат да се сретнат и кај возрасните и може да се лоцирани секаде долж патот на тиреоглосалниот дуктус кој ги вклучува јазичните мускули како и гениохиоидеус и милохиоидеус. Најголемиот број на лезиите се сместени под нивото на хиоидната коска. Клинички пациентите со тиреоглосална циста се појавуваат со асимптоматски вратни маси (доколку нема локални инфламаторни промени) лоцирани во предниот вратен триаголник. Овие маси можат да бидат лоцирани на средната линија или лесно отстапувајќи од средината. Лезиите лоцирани на нивото на тироидната 'рскавица стремат да бидат сместени

латерално. Ова може да биде поврзано со клунестата форма на `рскавицата која настоји да ја отклони големата маса од средината. Чврстината на овие лезии при физикален преглед варира, но лезиите се општо земено мобилни, независно од нивната тврдоћа. Ако спојката перзистира помеѓу базата на јазикот или подјазичната коска, цистата ќе се движи ако јазикот се протрудира. Фистулите се ретки но може да се појават следејќи ја инфекцијата со руптура на цистата или алтернативно како постоперативна појава. Коегзистенција на карцином во циста на тиреоглосалниот дуктус е ретка појава. Се појавува во помалку од 1% пациенти и е речиси секогаш од тироидно потекло. Во 75-80% случаеве се покажани хистолошките карактеристики на папиларниот карцином на тироидното ткиво ⁸⁴. Откривањето на овие карциноми обично се јавува како инцидентен наод во текот на хируршкиот третман. Поверојатно е дека потекнуваат од ектопичното тироидно ткиво долж тироглосалниот дуктус него ли од самото дуктално ткиво. Репортирани инциденти на тироидно ткиво по должината на тироидниот тракт варира од распонот 1,6% до 36,5% ^{79,80}. Ова веројатно се смета за ниска севкупна инциденца на карциномите кои се развиваат во овие цисти ⁸¹. Хируршкиот третман е изборно средство за сите тиреоглосални цисти од кога лезиите можат да бидат инфицирани. Ос статистичка гледна точка овие цисти се доимаат да рецидивираат кога е присатен синус тракт или пациентот е подвргнат на хируршка интервенција за дренажа или ексцизија ⁸⁵.

Возраста на пациентот исто така може да претставува фактор. Што е пациентот помлад во времето на отстранувањето поголема е веројатноста за рецидив ⁸⁶. Во обидот да се спречи рецидивирањето, некаква "радикална" процедура е еволвирана, целиот тракт на дуктусот, средна ресекција на подјазичната коска и елипса на ткивото на базата на јазикот се отстрануваат. Ако е присатен синус тракт исто така се ресецира ⁸³.

Отстранувањето на средниот дел на хиоидната коска и проксималниот дуктус во континуитет со цистата ја намалила стапката на рецидиви од 50% на 20%⁸⁷.

Преоперативна дејност на пациент со претпоставена циста на тиреоглосалниот дуктус, била извор на контроверзиите во литературата. Контроверзноста се однесува на тоа дали постои И која е најдобрата студија за превенција на инадвертентен постоперативен хипотироидизам со отстранувањето на единственото функционално тироидно ткиво. Вреднувано е дека ектопицното тироидно ткиво претставена како циста на тиреоглосалниот дуктус изнесува 1-2 %. Опциите кои се предложени вклучуваат: (1) без преоперативни студии, (2) без преоперативни студии но се бара тироидно ткиво во текот на операцијата, (3) радиоизотопен скен на тироидното ткиво кај сите пациенти пред опаративно, (4) други имагинг модалитети (во САД) И (5) радиоизотопен скрининг кај оние пациенти со историја која сугерира на хипотироидизам, абнормални тестови на тироидната функција и тн. Тункел и сор.¹⁸ се фаќаат во коштец со овој клинички изазов и презентираат еден елегантен алгоритам. Знакови и симптоми на хипотироидизмот се бараат кај пациентите. Ако е нормално тогаш ултразвукот се препорачува да се бара нормалното тироидно ткиво. Интраоперативно авторите сугерираат палпација или визуелизација на тироидната жлезда ако е изводливо. За пациентите со клинички знаци на хипотироидизам, според овие автори индицирано е радиоизотопно скенирање.

Нашите резултати се компатибилни со модерниот концепт на дијагностика и третманот на конгениталните цисти на вратот и се многу значајни за расветлувањето на патологијата, клиничката дијагноза и терапијата на конгениталните цисти на вратот во Република Македонија, затоа што досега не се објавени слични трудови и статистички податоци од другите релевантни институции во РМ. Исправната и

правовремената дијагностичка постапка со запазување на протоколите како на оперативниот така и на постоперативниот фолоу уп доведува до исправна дијагноза, третман и мал број на рецидиви на конгениталните цисти на вратот што истовремено е целта на секоја хируршка институција во чиј делокруг спаѓаат конгениталните вратни цисти. Податоците и резултатите прикажани во оваа студија се однесуваат само на Клиниката за максилофацијална хирургија и како што нагласивме погоре дека со оваа проблематика се бават и други хируршки гранки и доколку сакаме да имаме увид во целокупната проблематика на ниво на Република Македонија тогаш треба да ги земеме во предвид и резултатите од другите клиници па да имаме права преваленција на државно ниво.

Заклучоци

ЗАКЛУЧОЦИ

1. Конгениталните цисти на вратот претставуваат дел од севкупната казуистика на делокругот на максилофацијалниот хирург. Двете најчести дијагнози со кои се претставени конгениталните вратни промени се бранхиогената циста и циста коли медиана односно дуктус тиреоглосус перзистенс.
2. Тиреоглосалните цисти се појавуваат порано, во првата декада од животот додека бранхиогените малку покасно односно во втората или третата декада. Разлика во преваленција по однос на полот не е забележана. Тиреоглосалните цисти се најчестите неодоногени цисти кои се појавуваат во вратната регија. Тие претставуваат околу 70% од сите конгенитални аномалии на вратот.
3. При суспектност на дистична лезија во локалитети на преден и бочен врат неопходно е спроведување на дојагностички процедури по конкретен дијагностички алгоритам за вратна регија.
4. Компјутеризираната томографија покажува високи дисагностички вредности за исправно дијагностицирање на конгениталните вратни промени и е многу важен елемент во планирањето и изведувањето на хируршкиот зафат. Оваа имиџинг дијагностика ни покажува точна локализација, анатомските односи со околните структури и евентуалениот депласман врз околните ткива.
5. Веднаш штом се дијагностицираат неопходно е да се отстранат во целост со хируршки зафат по протокол односно со таканаречена Систрунк процедура за

тиреоглосалните цисти, каде што покрај енуклеација на цистата, се ресецира и дел од подјазичната коска. Со исправната дијагноза и исправен и правовремен хируршки третман ризикот за рецидив на болеста се намалува евидентно.

6. Исправната и навремена дијагноза на конгениталните цисти на вратот ни овозможува добро планирање на тајмингот на хируршкиот зафат затоа што со текот на времето можноста за малигна алтерација на овие промени се зголемува.
7. Искуството на хирургот за исправно препознавање на конгениталните цисти на вратот е многу битен, и како што покажува нашиот труд тиреоглосалните цисти се многу попрепознатливи во однос на бранхиогените цисти.
8. Кумулираните сознанија околу конгенитални промени на вратот како и вештините на максилофацијалниот хирург при оперативниот пристап на овие промени, треба да се збогатуваат континуирано за да имаме конкретна дијагноза, адекватен третман и добра прогноза.
9. Утврдениот низок процент на рецидиви на потврдена покачена инциденца на конгенитални вратни цистични промени се индикатор за сигнификантноста на ваквиот предоперативен пристап и актуелноста на овај дел на максилофацијалната хируршка патологија.

Литература

ЛИТЕРАТУРА

1. Jim C. Grant, Ronald W. Deskin, Francis B. Quinn. The congenital neck Mass. Dept. of Otolaryngology, UTMB, Grand Round Presentation, April 21, 1999
2. Bailey BJ, ed. Head and Neck Surgery - Otolaryngology. J.B. Lippincott. Philadelphia. 1993
3. Telander RL, Deane SA. Thyroglossal and branchial cleft cysts and sinuses. Surg Clin North Am. Aug 1997;57(4):779-91.
4. Cummings, CW, ed. Otolaryngology - Head and Neck Surgery. Second Edition. Mosby Year Book. 1993.
5. Doi O, Hutson JM, Myers NA, McKelvie PA. Branchial remnants: a review of 58 cases. J Pediatr Surg. Sep 1988;23(9):789-92.
6. Rosa PA, Hirsch DL, Dierks EJ. Congenital neck masses. Oral Maxillofac Surg Clin North Am. Aug/2008;20:339-52.
7. Donegan JO. Congenital neck masses. In: Cummings CW, Schuller DE, eds. Otolaryngology - Head and Neck Surgery. 2nd ed. St. Louis, Mo: Mosby; 1993:1554-9.
8. Whitaker, JA, Deffenbaugh LD, Cooke AR. Esophageal Duplication Cyst. Case Report. American Journal of Gastroenterology. 73 (4): 329 - 332. 1989
9. Little JW, Rickles NH. The histogenesis of the branchial cyst. Am J Pathol. Mar 1967; 50(3):533-47.
10. Rickles NH, Little JW. The histogenesis of the branchial cyst. II. A study of the lining epithelium. Am J Pathol. May 1967;50(5):765-77.
11. Daniels E. Embryology of the neck. In: Tewfik TL, Der Kaloustian VM, eds. Congenital Anomalies of The Ear, Nose, and Throat. NY: Oxford University Press; 1997.
12. Acierno SP, Waldhausen JH. Congenital cervical cysts, sinuses and fistulae. Otolaryngol Clin North Am. Feb 2007;40(1):161-76, vii-viii.
13. Work WP. Newer concepts of first branchial cleft defects. Laryngoscope. Sep 1992; 82(9):1581-93.
14. Nicoucar K, Giger R, Jaecklin T, Pope HG Jr, Dulguerov P. Management of congenital third branchial arch anomalies: a systematic review. Otolaryngol Head Neck Surg. Jan 2010;142(1):21-28.e2.
15. Kelly D, Myer C. Congenital anomalies of the neck. In: TL Tewfik, Der Kaloustian VM, eds. Congenital Anomalies of the Ear, Nose, and Throat. NY: Oxford University Press; 1997.

16. Lyons TJ, Dickson JA, Variend S. Cervical thymic cysts. *J Pediatr Surg.* Mar 1989; 24(3):241-3.
17. Reede DL, Bergeron RT, Som PM, et al. CT of thyroglossal duct cysts. *Radiology.* Oct 1985;157(1):121-5.
18. Tunkel DE, Domenach EE. Radioisotope Scanning of the Thyroid Gland Prior to Thyroglossal Duct Cyst Excision. *Archives of Otolaryngology - Head and Neck Surgery.* Vol 124. May 1998.
19. Loh WS, Chong SM, Loh KS. Intralaryngeal thyroglossal duct cyst: implications for the migratory pathway of the thyroglossal duct. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* Feb 2006; 115(2):114-6.
20. Koeller KK, Alamo L, Adair CF and Smirniotopoulos JG. From the Archives of the AFIP: Congenital Cystic Masses of the Neck: Radiologic-Pathologic Correlation. *RadioGraphics.* 1999;19:121-146.
21. Belenky WM, Medina JE. First branchial cleft anomalies. *Laryngoscope.* Jan 1980; 90(1):28-39.
22. Belmont JR, Grundfast KM. First branchial cleft anomalies: a unifying concept. Paper presented at: Eastern Section Meeting of the American Laryngological, Rhinological, and Otological Society. January 29, 1988; New York, NY.
23. Chandler JR, Mitchell B. Branchial cleft cysts, sinuses, and fistulas. *Otolaryngol Clin North Am.* Feb 1981;14(1):175-86.
24. Cunningham MJ. The management of congenital neck masses. *Am J Otolaryngol.* Mar-Apr 1992;13(2):78-92.
25. Martinez Del Pero M, Majumdar S, Bateman N, Bull PD. Presentation of first branchial cleft anomalies: the Sheffield experience. *J Laryngol Otol.* May 2007;121(5):455-9.
26. Rood SR, Johnson JT, Lipman SP. Diagnosis and management of congenital head and neck masses. *SIPC.* 2nd ed. American Academy of Otolaryngology - Head and Neck Surgery; 1988.
27. Rood SR, Johnson JT, Myers EN, Lipman S. Congenital masses of the head and neck. *Postgrad Med.* Nov 1982;72(5):141-5, 148-9.
28. Schroeder JW Jr, Mohyuddin N, Maddalozzo J. Branchial anomalies in the pediatric population. *Otolaryngol Head Neck Surg.* Aug 2007;137(2):289-95.
29. Ahuja AT, King AD, Metreweli C. Second branchial cleft cysts: variability of sonographic appearances in adults. *AJNR.* 2000; 21:315-319.

30. Nicoucar K, Giger R, Jaecklin T, Pope HG Jr, Dulguerov P. Management of congenital third branchial arch anomalies: a systematic review. *Otolaryngol Head Neck Surg.* Jan 2010;142(1):21-28.e2.
31. Sandborn WD, Shafer AD. A branchial cleft cyst of fourth pouch origin. *J Pediatr Surg.* Feb 1972;7(1):82.
32. Mendis D, Moss AL. Case series: variations in the embryology of congenital midline cervical clefts. *Acta Chir Plast.* 2007;49(3):71-4.
33. Fincher SG, Fincher GG. Congenital midline cervical cleft with subcutaneous fibrous cord. *Otolaryngol Head Neck Surg.* Sep 1989;101(3):399-401.
34. Fageeh N, Manoukian J, Tewfik T, et al. Management of head and neck lymphatic malformations in children. *J Otolaryngol.* Aug 1997;26(4):253-8.
35. Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg.* Mar 1982;69(3):412-22.
36. Waner M, Suen JY. Management of congenital vascular lesions of the head and neck. *Oncology (Williston Park).* Oct 1995;9(10):989-94, 997; discussion 998 passim.
37. Tewfik TL, Teebi AS, Der Kaloustian VM. Selected syndromes and conditions. In: Tewfik TL, Der Kaloustian VM, eds. *Congenital Anomalies of The Ear, Nose, and Throat.* NY: Oxford University Press; 1997:450-451.
38. Tunkel DE, Domenach EE. Radioisotope Scanning of the Thyroid Gland Prior to Thyroglossal Duct Cyst Excision. *Archives of Otolaryngology - Head and Neck Surgery.* Vol 124. May 1998.
39. Okstad S, Mair IW, Sundsfjord JA, et al. Ectopic thyroid tissue in the head and neck. *J Otolaryngol.* Feb 1986;15(1):52-5.
40. Allard R. The thyroglossal cyst. *Head Neck Surg.* 1982;5:134-146.
41. Hilger AW, Thompson SD, Smallman LA, Watkinson JC. Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst: a case report and literature review. *J Laryngol Otol.* 1995;109:1124-1127.
42. Benjamin B. *Diagnostic Laryngology.* W.B. Saunders Company. 1990.
43. Sistrunk WE. The Surgical Treatment of Cysts of the Thyroglossal Tract. *Ann Surg.* Feb 1920;71(2):121-122.2.
44. Cinberg JZ, Silver CE, Molnar JJ, Vogl SE. Cervical cysts: cancer until proven otherwise? *Laryngoscope.* Jan 1982;92(1):27-30.

45. Hausseger KW, Sukic J, Stering R. Ultrasonography of cervical cysts and their differential diagnosis. *Ultraschall Med.* 1990 Aug; 188-92.
46. Charisis G, Biewald W, Waldschmidt J. Diagnosis and treatment of congenital cysts and fistulae of the neck. *Zeitschrift fur kinderchirurgie und Grenzgebiete* 1980/ 30(2):102-7.
47. Ushakova N, Troshina E. A congenital cyst of the neck complicated by hyoid bone osteomyelitis in 4-year-old girl. *Vestnik otorinolaringologii* 1996 Sep;(5):38.
48. Abramowicz J, Warsof S, Doyle D, Smith D, Levu D. Congenital cystic hygroma of the neck diagnosed prenatally: outcome with normal and abnormal karyotype. *Prenatal diagnoses* 9(5):321-7.
49. Soh KB. Branchiogenic carcinomas: do they exist? *Journal of the Royal College of Surgeons of Edinburgh* 1998/43(1):1-5.
50. Grasl M C, Hajek P, Lapin A, Schuller M. Ultrasound diagnosis of branchiogenic neck cysts. 1985 Oct/ *Laryngologie, Rhinologie, Otologie* 64(10):513-4.
51. Kovacic Marijan, Nekic Ivica. Thyroglossal duct cyst in hyoid bone. *Lijecnicki Vjesnik* Jan- Feb. 2006/ 128(1-2):23-4.
52. Enepekides DJ. Management of congenital anomalies of the neck. *Facial Plast Surg Clin North Am* 2001;131-45.
53. Perez-Martinez A, Bento-Bravo L, Martinez-Bermejo MA, et al. An intra-thyroid thyroglossal duct cyst. *Eur J Pediatr Surg* 2005;15:428-30.
54. Mohan PS, Chokshi RA, Moser RL, et al. Thyroglossal duct cysts: a consideration in adults. *Am Surg* 2005;71(6):508-11.
55. Peretz A, Lieberman E, Kapelsuhnik J, et al. Thyroglossal duct carcinoma in children: case presentation and review of the literature. *Thyroid* 2004;14:777-85.
56. Ostlie DJ, Burjonrappa SC, Synder CI, et al. Thyroglossal duct infections and surgical outcomes. *J Pediatr Surg* 2004;39:396-9.
57. Ford GR, Balakrishnan A, Evans JN, et al. Branchial cleft and pouch anomalies. *J Laryngol Otol* 1992;106:137-43.
58. D'Souza AR, Uppal HS, De R, et al. Updating concepts of first brachial cleft defects: a literature review. *Int J Pediatr Otolaryngol* 2002;62:103-9.
59. Triglia JM, Nicollas R, Ducroz V, Koltai PJ, Garabedian EN. First branchial cleft anomalies: a study of 39 cases and a review of the literature. *Arch Otolaryngol Head*

Neck Surg. 1998 Mar;124(3):291-5.

60. Nicollas R, Ducroz V, Garabedian EN, et al. Fourth branchial pouch anomalies: a study of six cases and a review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1998;44:5-10.
61. Karabulut R, Sönmez K, Türkyilmaz Z. Second branchial anomalies in children. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec.* 2005;67(3):160-2.
62. Shaari CM, Ho BT, Som PM, Urken ML. Large thyroglossal duct cyst with laryngeal extension. *Head Neck.* 1994 Nov-Dec;16(6):586-8.
63. EK Woo and SEJ Connor: REVIEW Computed tomography and magnetic resonance imaging appearances of cystic lesions in the suprahyoid neck: a pictorial review. *Dentomaxillofacial Radiology* (2007) 36, 451-458.
64. Donegan JO. Congenital neck masses. In: Cummings CW, Schuller DE, eds. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery.* 2nd ed. St. Louis, Mo: Mosby; 1993:1554-9.
65. Koch BL. Cystic malformations of the neck in children. *Pediatr Radiol* 2005; 35:463-77.
66. Gold B. Second brachial cleft cyst and fistula. *AJR Am J Roentgenol* 1980;134:1067-1069
Coppens F, Peene P, Lemahieu SF. Diagnosis and differential diagnosis of branchial cleft cysts by CT scan. *J Belge Radiol* 1990;73:189-196.
67. Bailey H. Branchial cysts and other essays on surgical subjects in the facio-cervical region. London: HK Lewis; 1929.
68. Lev S, Lev MH. Imaging of cystic lesions. *Radiol Clin North Am* 2000;38:1013-1027.
69. Koeller KK, Alamo L, Adair CF, et al. Congenital cystic masses of the neck: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 1999;19:121.
70. Leu Y-S, Chang K-C. Extracranial head and neck schwannomas: a review of 8 years' experience. *Acta Otolaryngol* 2002;122:435-437.
71. 12. Cho YD, Choi GH, Lee SP, et al. (1)H-MRS metabolic patterns for distinguishing between meningiomas and other brain tumors. *Magn Reson Imaging* 2003;21:663-672.
72. Kinoshita Y, Yokota A. Absolute concentrations of metabolites in the human brain tumors using in vitro proton magnetic resonance spectroscopy. *NMR Biomed* 1997; 10:2-12.
73. Gill S, Thomas G, van Bruggen N, et al. Proton MR spectroscopy of intracranial tumors: in vivo and in vitro studies. *J Comput Assist Tomogr* 1990;14:497-504.
74. Wang J, Takashima S, Takayama F, et al. Head and neck lesions: characterization with diffusion-weighted echo-planar MR imaging. *Radiology* 2001;220:621-630.

75. Gritzmann N, Hollerweger A, Macheiner P, et al. Sonography of soft tissue masses of the neck. *Clin Ultrasound* 2002;30:356-373.
76. Choi GH, Cho YD, Lee SP, et al. (1)H-MRS metabolic patterns for distinguishing between meningiomas and other brain tumors. *Magn Reson Imaging* 2003;21:663-672.
77. Miller MB, Rao VM, Tom BM. Cystic masses of the head and neck: pitfalls in CT and MR interpretation. *AJR Am J Roentgenol* 1992;159:601-07.
78. Thomas JR. Thyroglossal-duct cysts. *ENT* 1979; 58: 512-514.
79. Hays LL, Manlow JF Jr. Papillary adenocarcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. *Laryngoscope* 1968; 78:2189-2203.
80. Butler EC, Dickey JR, Shill OS, Shalak E. Carcinoma of the thyroglossal duct remnant.
81. Choy FJ, Ward R, Richardson R. Carcinoma of the thyroglossal duct. *Am J Surg* 1964; 108:361-369.
82. Wand GE, Nendrick JW, Chambers, RG. Thyroglossal tract abnormalities: cysts and fistulas. *Surg Gynecol Obstet* 1949; 89:727.
83. Lee K-J, Klein TR. Surgery of cysts and tumors of the neck. In: Paparella MM, Shumnick DA, eds. *Otolaryngology*. Vol.3, 2d ed. Philadelphia: Saunders, 1980; 2991-2993.
84. Batsakis JG. Tumors of the head and neck: clinical and pathological considerations. 2d ed. Baltimore: Williams & Wilkins, 1979; 233-239.
85. Brown PM, Judd ES. Thyroglossal duct cysts and sinuses: results of radical (sistrunk) operation. *Am J Surg* 1961; 102:494.
86. Wand GE, Nendrick JW, Chambers, RG. Thyroglossal tract abnormalities: cysts and fistulas. *Surg Gynecol Obstet* 1949; 89:727.
87. Noyek AM, Friedberg J. Thyroglossal duct and ectopic thyroid disorders. *Otolaryngol Clin North Am* 1981; 14(1): 187-201.