



Киста на дуктус тиреоглосус – рецидив

Представяне на клиничен случай

*Thyroglossal Duct Cyst Recurrence
A Case Report*

Консулов С.¹, Марков С.¹, Топалова А.¹, Консулов Ст.²

Катедра по УНГ болести, Медицински факултет, МУ – Пловдив

1. Клиника по уши, носни и гърлени болести, УМБАЛ „Св. Георги“ – Пловдив

2. Клиника по уши, носни и гърлени болести, УМБАЛ „Каспела“ – Пловдив

Konsulov S.¹, Markov S.¹, Topalova A.¹, Konsulov S.²

ENT Department, Faculty of Medicine, Medical University of Plovdiv

1. ENT clinic; UMHAT „St. George“ – Plovdiv

2. ENT clinic; UMHAT „Kaspela“ – Plovdiv

Резюме

Кистата на дуктус тиреоглосус е вродена малформация, появяваща се в резултат на непълното му затваряне. Кистата обикновено се разполага по срединната линия на врата, по вентралната повърхност. Въпреки че е латентен ембриологичен остатък, тя може да се изяви клинично във всяка възраст и често изисква хирургично отстраняване¹. Тя е най-честата вродена шийна туморна маса и се появява при 7% от населението². Тиреоглосната киста може да бъде разположена в интралингвалния, супрахиоидния, тиреохиоидния или супрастерналния регион. Разположението ѝ в подезичната кост е изключително рядко³. Налице са няколко разлики между иззявата на кистите на дуктус тиреоглосус (КДТГ) при деца и възрастни. Най-често патологията се открива при деца, но възрастното население също носи тази аномалия. Разположението ѝ е почти еднакво при двете възрастови групи, при локализация по срединната линия и под хиоидната кост, докато латералното ѝ разположение се наблюдава основно при възрастни. Размерът на кистата е по-голям при възрастни. Процентът на рецидиви и следоперативни усложнения при деца и възрастни обикновено не е много различен. Малигнената трансформация е рядкост и може да се диагностицира само след хистологично изследване на биопсичен материал⁴.

Ние представяме клиничен случай на пациент – 25-годишна жена, претърпяла хирургична интервенция в детството (на 7-годишна възраст) поради киста на дуктус тиреоглосус. Тя постъпи в УНГ клиниката с оплаквания от болезнена туморна формация в средата на шията с големина 3 см. Диагностициран бе рецидив на киста на дуктус тиреоглосус. Пациентката първоначално проведе антибиотично лечение в рамките на 10 дни, като седмица след това се извърши хирургична интервенция като метод за дефинитивно лечение на заболяването.

Ключови думи: киста на дуктус тиреоглосус, хирургично премахване, следоперативно усложнение, рецидив.

Abstract

Thyroglossal duct cyst is a congenital malformation that occurs due to incomplete closure of the thyroglossal duct. The cyst typically appears along the midline of the neck on the ventral surface. Apart from being a quiescent embryological remnant, it presents itself clinically at any age and often requires surgical excision¹. It is the most common congenital tumor neck mass and occurs in 7% of the population². The thyroglossal cyst may be located in the intralingual, suprahyoid, thyrohyoid or suprasternal region. Its position in the hyoid bone is extremely rare³. There are a few differences between thyroglossal duct cysts (TGDCs) expression in children and adults. The lesion mostly found in children but adult population also possesses this anomaly. Position is almost similar in both age groups with midline and infrahyoid location while laterality is seen mostly in adults. Size of Cyst is found to be larger in adults. The recurrence and post-operative complication rates between children and adults usually are not significantly different. Malignant transformation is rare and can be diagnosed only after histologic examination of a biopsy specimen⁴.

We present a clinical case of a 25 year old female patient, with previous surgery in childhood (at the age of 7) due to thyroglossal duct cyst. She came to the ENT clinic complaining of painful tumor mass at the middle of her neck 3 centimeters large. Thyroglossal duct cyst recurrence with inflammation was discovered. The patient underwent antibiotic treatment for 10 days as a start and after a week a surgery was performed as a method of definitive treatment.

Key words: thyroglossal duct cysts, surgical excision, post-operative complication, recurrence.

Въведение

Кистите, водещи началото си от остатъци на дуктус тиреоглосус (КДТГ), са сред най-честите шийни образувания, диагностицирани в детска и млада възраст, въпреки че те нерядко са налице и при възрастни. Дуктус тиреоглосус възниква по време на ембрионалното развитие на щитовидната жлеза. Смята се, че спускайки се каудално по шията, тиреоидният зачатък формира дуктус, който остава свързан със своята начална точка на възникване на нивото на форамен цекум на езика. Обикновено дуктус тиреоглосус търпи обратно развитие и атрофира между 7. и 10. гестационна седмица. Кистата може да възникне навсякъде по протежение на пътя на миграция на дуктус тиреоглосус на развиващата се щитовидна жлеза.

Стената на КДТГ е покрита от респираторен или сквамозен епител, като тъкан от щитовидна жлеза може също да присъства. При липса на тъкан от щитовидна жлеза хистологичното разпознаване на КДТГ може да се обърка с други кистични лезии, които могат да бъдат открити на шията. Ето защо е нужно да се подчертае необходимостта от внимателно изследване на цялото количество отстранена тъкан, за да се идентифицират изключително малките (около 0.45 cm) количества тъкани от щитовидна жлеза.

Изявата на КДТГ е бимодална с пик през 1^{ва} и 5^{та} декади, като обикновено представлява разположена срединно на шията под хиоидната кост лезия, в 10% от случаите придружена от кожна фистула.

За да се постави точна диагноза и особено да се определи точното разположение на кистата, обикновено се използват образни средства – КТ, ЯМР и ехография. Също така за изясняване на диагнозата и особено за диагностика на малигнен процес може да се използва и тънкоиглена аспирационна биопсия (ТАБ). За откриване на ектопична щитовидна тъкан може да се използва радиоизотопно сканиране на щитовидната жлеза.

Класическата клинична изява на КДТГ представлява подвижна, неболезнена формация по срединната линия на шията. Инфекцията на шията също е нерядка изява, често придружена от секретиреща фистула. Дисфагията и обструкцията на дихателните пътища не са характерни за КДТГ, при наличие на възпаление може да се появи известна болезненост.

Introduction

Thyroglossal duct remnant cysts (TGDC) are among the most common cervical lesions encountered in infancy and childhood, although they not infrequently present in adults. The thyroglossal duct originates during embryonic development of the thyroid gland. As the thyroid anlage descends caudally in the neck, it is thought to form a duct that remains connected to its point of origin at the level of the foramen cecum of the tongue. The thyroglossal duct typically involutes and atrophies between 7 and 10 weeks gestation. The cysts may arise anywhere along the migratory pathway of the thyroglossal duct of the developing thyroid gland. The TGDC wall is lined by respiratory and squamous epithelium and of course thyroid gland tissue may present also. In the absence of thyroid gland tissue, the histologic appearance of TGDC can be confused with other cystic lesions which may be encountered in the neck. However, it must first be stated that very careful review of all of the tissue removed may be necessary to identify the very small (mean 0.45 cm) amount of thyroid gland tissue.

TGDC shows a bimodal presentation peak in the 1st and 5th decades, commonly presenting as a midline cervical lesion below the hyoid bone, associated with a skin fistula in 10%.

To put the exact diagnosis, and especially to map the exact location of the cyst, imaging studies are usually used – CT, MRI and ultrasound. Fine needle aspiration (FNA) can also be performed to clarify the diagnosis and especially to diagnose malignancy. To detect ectopic thyroid tissue, radioisotope thyroid scanning can be used.

The classic clinical presentation of TGDC is a mobile painless mass in the midline of the neck. Infection of the cyst is also a common presentation, frequently accompanied by a discharging fistula. TGDC are uncommonly associated with dysphagia or airway obstruction, some pain may occur if an inflammation is present.



КДТГ рядко малигнизира. Докладваните случаи на карцинома, появила се при КДТГ, са от 1% до 3.2% или дори до 7.4% според различни проучвания.

Вместо чрез ексцизия, най-ефикасно КДТГ се лекуват оперативно по метода на Sistrunk, който предизвиква по-малко усложнения (1%) и рецидиви (3%)⁵.

Клиничен случай

Ние представяме клиничен случай на 25-годишна пациентка с предишна операция поради КДТГ на 7-годишна възраст (не бе предоставена медицинска документация в подкрепа на тази анамнеза). Тя постъпи в УНГ клиниката с оплаквания от болка в шията и появата на туморна маса по срединната линия на шията (Картина. № 1).



Картина № 1

Прегледът откри болезнена формация с размер 3 см, разположена по срединната линия на шията, в близост до хирургичния белег, останал от предишната оперативна интервенция. Няколко увеличени лимфни възела, разположени наоколо, без наличие на дисфагия или обструкция на дихателните пътища.

Кръвните тестове показаха средно степенно възпаление. Ехографията (Картина № 2) и КТ (Картина № 3), потвърдиха диагнозата рецидив на КДТГ с възпаление и увеличени лимфни възли в съседство. Образните изследвания също така потвърдиха, че по време на първата операция подезичната кост не е резецирана.

Rare TGDC may harbor malignancy. The reported incidence of carcinoma occurring in TGDC is from 1% up to 3.2% or even 7.4% according different studies.

TGDC are most effectively managed by Sistrunk procedure rather than excision, which carries low rates of complications (1%) and recurrence (3%)⁵.

Case Report

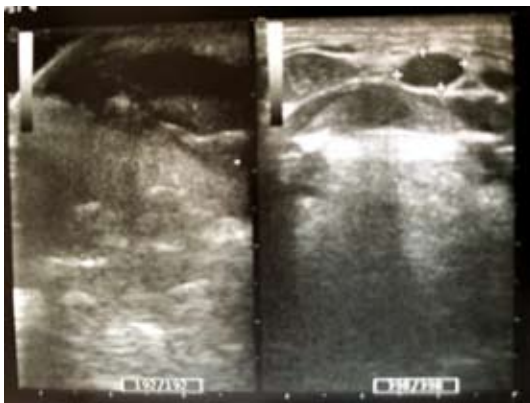
We present a clinical case of a 25 year old female patient, with previous DTGC surgery at the age of 7/no medical data was applied to that anamnesis/. She came to the ENT clinic complaining of neck pain and tumor mass appearance at the midline of the neck (Pic. № 1).



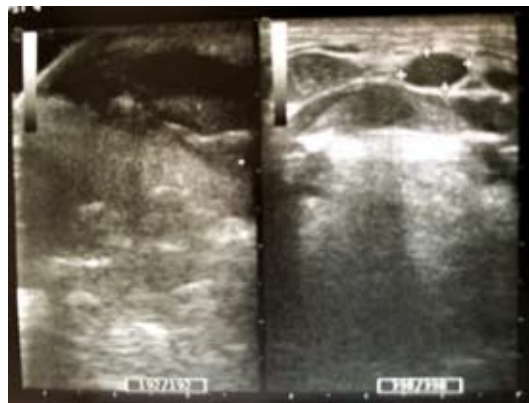
Picture № 1

The exam revealed 3 cm large painful formation situated at the midline of the neck, close to the surgical scar left by the previous surgery. A few enlarged lymph nodes around, no dysphagia or airway obstruction was discovered.

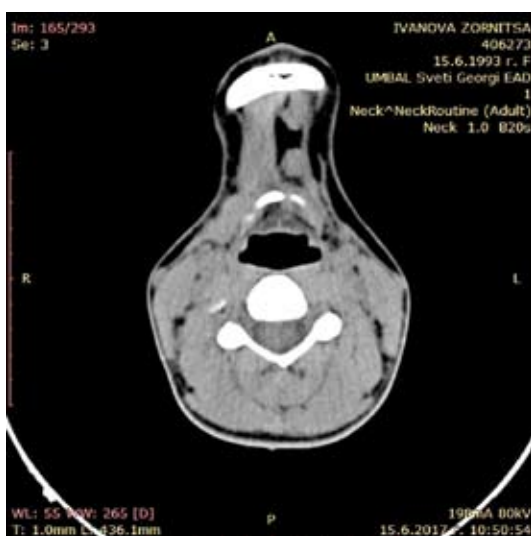
Blood test results showed mild inflammation. The ultrasound (Pic. № 2) and CT-scan (Pic. № 3) confirmed the diagnosis DTGC recurrence with inflammation and enlarged lymph nodes around. The imaging tests also revealed that during the first surgery, the hyoid bone had been left intact.



Картина № 2



Picture № 2



Картина № 3



Picture № 3

Бe взето решение първоначално пациентката да проведе антибиотично лечение, за да се премахне инфекцията, след което да се подготви за операция с цел дефинитивно излекуване. Така тя проведе 10-дневен парентерален антибиотичен курс и седмица след като клинични и кръвни тестове показаха липса на инфекциозен процес, лечението завърши с хирургическа интервенция. Нашият екип извърши класическа за това заболяване оперативна интервенция – след щателно почистване на повърхността на шията се направи 5 см хоризонтален разрез в областта на стария оперативен цикатрикс. Отстраниха се подкожните тъкани, кистата бе локализирана и внимателно отделена от околните структури (Картина № 4). Дуктусът бе проследен нагоре до подезичната кост, където бе лигиран. Хиоидната кост бе оставена цяла, тъй като не се видя дуктус да навлиза в тялото ѝ. Постави се аспирационен дренаж и меките тъкани и мускули се зашиха внимателно. Кожната рана се затвори с интрадермален шев (Картина № 5).

Decision was made the patient to be treated with antibiotics initially in order to deal with the infection, and after that to be prepared for surgery in a way to deal with the disease definitely. So she underwent 10 days parenteral antibiotic treatment, and a week after all clinical and blood tests signs of infection vanished, the treatment was accomplished by surgery.

Our team performed a classical surgical procedure for that kind of pathology – after accurate neck surface cleaning, 5 cm horizontal incision was made in the old scar area. Subcutaneous tissues were moved away, the cyst was localized and separated carefully from the surrounded structures (Pic. № 4). The duct was followed up to the hyoid bone, where it was ligated. The hyoid bone was left intact because no duct was seen to enter its body. Aspiration drainage was placed and the soft tissues and muscles was stitched carefully. The skin incision was closed with intradermal stitches (Pic. № 5).



Картина № 4



Picture № 4



Картина № 5



Picture № 5

Гладък следоперативен период. Пациентката бе изписана в добро здраве, напълно възстановена (Картина № 6).

Smooth post-operative period. The patient was discharged in a good health, fully recovered (Picture № 6).



Картина № 6



Picture № 6

Дискусия

Щитовидната жлеза води началото си от инвагинация на размножаващите се ендометриални клетки на пода на фаринкса по време на четвъртата седмица от ембрионалното развитие. Дуктус тиреоглосус атрофира и изчезва между 7^{та} и 10^{та} гестационна седмици. Запазени останки от дуктус тиреоглосус се считат за източник за развитие на КДТГ⁵.

Заболяването се наблюдава при деца и възрастни и като че ли има бимодално разпределение на неговата изява (1^{ва} и 5^{та} декада).

Discussion

The thyroid gland originates as an invagination of proliferating endodermal cells in the floor of the pharynx during the fourth week of embryonic development. The thyroglossal duct atrophies and disappears between the 7th and 10th weeks of gestation. Persistent remnants of the thyroglossal duct are thought to be the source of TGDC⁵.

The disease can be seen in children and adults and there appears to be a bimodal distribution of its presentation (1st and 5th decades).

Обикновено кистата се появява като неболезнена мекотъкнна формация по срединната линия на шията, без други оплаквания, освен ако е налице възпаление. Не са характерни гълтателни и дихателни проблеми. Хистологично КДТГ са покрити с респираторен и/или сквамозен епител. Понякога в стената на кистата или в околните меки тъкани може да се открие тъкан на щитовидна жлеза.

В повечето случаи след внимателен преглед и с помощта на КТ, ЯМР или ехографско изследване е лесно да се постави правилната диагноза. Класическото оперативно лечение е операцията на Sistrunk, която включва резекция на подлежащата кост. Рецидивите и малигнизацията се срещат рядко. Пациентите обикновено биват изписани от болницата няколко дни след оперативната интервенция в добро състояние и се възстановяват напълно за 1 – 2 седмици.

Заклучение

Кистите на дуктус тиреоглосус са едни от най-честите доброкачествени туморни образувания на шията. Те произлизат от дуктус тиреоглосус в случаите, когато е налице непълната му облитерация.

Обикновено лечението на тази патология е хирургично, като ако то е радикално, не би трябвало да се наблюдават рецидиви. Най-разпространената оперативна интервенция е операцията на Sistrunk, при която се наблюдават по-малко от 1% рецидиви. По наши наблюдения оставянето на хиоидната кост интактна (без резекция на тялото ѝ) не увеличава процента на рецидивите.

References:

1. Narayana Moorthy S, Arcot R. Thyroglossal duct cyst-more than just an embryological remnant. *Indian J Surg.* 2011 Jan;73(1):28-31. doi: 10.1007/s12262-010-0171-8. Epub 2010 Dec 14.
2. Patigaroo SA1, Dar NH1, Jallu AS1, Ahmad R1. Thyroglossal Duct Cysts: A Clinicosurgical Experience. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017 Mar;69(1):102-107. doi: 10.1007/s12070-016-1029-6. Epub 2016 Oct 27.
3. Kovacic M1, Nekić I. Thyroglossal duct cyst in hyoid bone. *Lijec Vjesn.* 2006 Jan-Feb;128(1-2):23-4.
4. Fujii NJ1, Gibson TM2, Satheesh KM3, Cobb CM4. Thyroglossal Duct Cyst: Abbreviated Review and Case Report. *Compend Contin Educ Dent.* 2017 Feb;38(2):97-101; quiz 102.
5. Lester D. R. Thompson,1 Hannah B. Herrera,1 and Sean K. Laucorresponding author2. A Clinicopathologic Series of 685 Thyroglossal Duct Remnant Cysts. *Head Neck Pathol.* 2016 Dec; 10(4): 465–474.

Usually the cyst originates as a painless soft mass at the midline of the neck with no further complains unless inflammation is present. Swallowing and breathing problems are not usual. Histologically, TGDC are characteristically lined by respiratory and/or squamous epithelium. Sometimes thyroid gland tissue can be found into the cyst wall or in the surrounded soft tissues.

In most cases after careful examination, and by using ultrasound, CT-scan or MRI the right diagnosis is easy to be revealed.

Classical surgical treatment is the Sistrunk procedure which includes hyoid bone resection. The recurrences and malignisations are rare. Patients usually are discharged from the hospital a few days after surgery in a good condition and they fully recover for 1-2 weeks.

Conclusion

Thyroglossal duct cysts are one of the most common benign neck tumors. They originate from the thyroglossal duct if it is not fully obliterated.

Surgery is the usual treatment of that pathology and if it is radical, recurrences are not supposed to emerge. Sistrunk procedure is the most common surgery with less than 1% recurrences. According to our data leaving the hyoid bone intact (no resection of its body performed) does not increase the percentage of recurrences.

References:

1. Narayana Moorthy S, Arcot R. Thyroglossal duct cyst-more than just an embryological remnant. *Indian J Surg.* 2011 Jan; 73(1): 28-31. doi: 10.1007/s12262-010-0171-8. Epub 2010 Dec 14.
2. Patigaroo SA, Dar NH1, Jallu AS, Ahmad R1. Thyroglossal Duct Cysts: A Clinicosurgical Experience. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017 Mar; 69(1):102-107. doi: 10.1007/s12070-016-1029-6. Epub 2016 Oct 27.
3. Kovacic M, Nekić I. Thyroglossal duct cyst in hyoid bone. *Lijec Vjesn.* 2006 Jan-Feb; 128(1-2): 23-4.
4. Fujii NJ1, Gibson TM2, Satheesh KM3, Cobb CM4. Thyroglossal Duct Cyst: Abbreviated Review and Case Report. *Compend Contin Educ Dent.* 2017 Feb; 38(2): 97-101; quiz 102.
5. Lester D. R. Thompson, Hannah B. Herrera, and Sean K. Laucorresponding author. A Clinicopathologic Series of 685 Thyroglossal Duct Remnant Cysts. *Head Neck Pathol.* 2016 Dec; 10(4): 465–474.