

## GRKLJANSKA CISTA U DOJENČETA

MILJENKO RAOS<sup>1</sup>, JELICA MARKOVIĆ<sup>1</sup>, DORIAN TJEŠIĆ-DRINKOVIĆ<sup>2</sup>

*U radu je prikazano šestomjesečno prematurno muško dojenče s grkljanskom cistom na desnom ventrikularnom naboru. Zbog teškog respiratornog distresa provođeno je strojno prodisavanje do 24. dana života. Nakon ekstubacije izražen je inspiracijski stridor, tegobe s hranjenjem, u vidu otežanog i dugotrajnog hranjenja uz gubitak daha. Razlog hospitalizacije bio je pogoršanje dispneje, uzrokovano jakim meteorizmom trbuha, uz sumnju na torziju u području probavnog sustava, što ovaj prikaz čini posebnim. Nakon isključenja moguće torzije u području probavnog sustava, dijagnoza grkljanske ciste postavljena je fiberoptičkom laringoskopijom. Cista u području desnog ventrikularnog nabora endoskopski je ekscidirana u cijelosti.*

Deskriptori: RESPIRATORNI ZVUKOVI; DOJENČAD; ENDOSKOPIJA

## UVOD

Stridor je oštar, prodoran šum disanja uzrokovan vrtložnim protokom zraka kroz suženi dišni put. Inspiracijski stridor posljedica je suženja supraglotičkog ili glotičkog dišnog puta, dok bifazični stridor govori u prilog subglotičkog suženja (1, 2). Prirodne grkljanske ciste rijedak su uzrok stridora u dojenačkom razdoblju. Klasifikacija grkljanskih cista provodi se prema sijelu, veličini i sadržaju ciste te odnosu prema grkljanskoj sluznici. Prema De Santovoj klasifikaciji grkljanske ciste dijele se na sakularne i duktalne, te rijetka cista foramena tireoidne hrskavice (3).

Sakularne ciste su proširenja ventrikula ispunjena sluzju, one su submukozne i pokrivene su normalnom sluznicom i čine 25% svih grkljanskih cista (4). Sakularne ciste u odnosu na laringokele nemaju vezu s grkljanom i ne sadrže zrak. Postoje dva tipa sakularnih cista, postranične i prednje. Postranične se šire prema gore i postranično te izbočuju ventrikularni nabor, ariepiglottički nabor i ventrikul. Mogu

se proširiti i kroz tireohiodnu membranu i očitovati se na vratu. Prednje se šire medijalno i straga te se izbočuju iz ventrikula u prostor između pravih i lažnih glasnica. Prednja sakularna cista se kod pregleda vidi kao manja otekline koja polazi od prednjeg ventrikula i pokriva prednji dio suprotne glasnice. Postranične sakularne ciste vide se kao sluznicom pokrivena otekline lažne glasnice i ariepiglottičkog nabora. Veće ciste mogu iskriviti piriformni sinus i valemulu, a u slučaju proširenja kroz tireohiodnu membranu mogu se pipati u postraničnom dijelu vrata. Duktalne ciste nastaju proširenjem izvodnog kanala žlijezde nakupljenim sekretom, zbog začepljenja izvodnog kanala. To su najčešće grkljanske ciste i one čine 75% svih grkljanskih cista (4).

Duktalne se ciste pojavljuju u bilo kojem dijelu grkljana, osim na slobodnom rubu glasnica. Najčešće su na glasnicama oko 40%, a gotovo u istom postotku pojavljuju se na epiglotisu. Mogu se javiti na valemulama, ventrikulima, ventrikularnom i ariepiglottičkom naboru, piriformnom sinusu te subglotisu. Duktalne ciste su male, obično manje od 1 cm, površne su i nalaze se unutar sluznice. Mogu se javiti i u mukoznim žlijezdama sakula i tada se prikazuju kao sakularne ciste (4). Duktalne ciste mogu uzrokovati promuklost, kašalj, grlobolju, stridor, dispneju,

disfagiju. Arens grkljanske ciste dijeli ovisno o sijelu i histološkom nalazu na prirodne, retencijske i inkluzijske ciste (5).

Forte predlaže podjelu prirodnih grkljanskih cista na: intralaringealne ciste tip I. Isključivo su građene od endodermnih stanica i mogu se u potpunosti ukloniti endoskopski, poštudne su za bolesnike. Ciste tipa II. s ekstralaringealnim širenjem mogu se podijeliti u dvije podskupine. Podskupina II.a isključivo je građena od endodermnih stanica, a podskupina II.b od endodermnih i mezodermnih stanica. Ciste tipa II. nije moguće u potpunosti ukloniti endoskopski, što u konačnici dovodi do recidiva ciste (6). Histološke osobitosti cista ne mogu nam poslužiti u razvrstavanju koje su ciste prirodne. Više od polovice cista obloženo je respiratornim epitelom, a ostale imaju višeredni pločasti epitel. Mogu imati obje vrste epitela ili mogu biti bez njega (3, 5).

U radu je prikazano šestomjesečno dojenče iz blizanačke trudnoće, izvantjelesna oplodnja, s inspiracijskim stridorom od prvog mjeseca života, s tegobama kod hranjenja u vidu otežanog i sporog gutanja. Nakon porođaja, zbog teškog respiratornog distresa, započeto je strojno prodisavanje, koje se provodi do 24. dana života. Razlog prijma u bolnicu uz dispneju, bio je teški meteorizam i sumnja na torziju u području probavnog sustava.

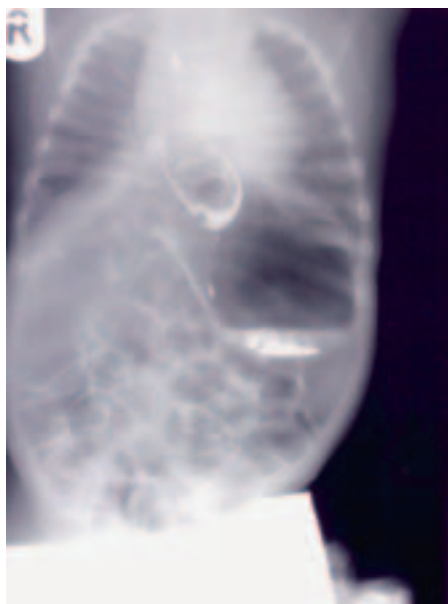
<sup>1</sup> Dječja bolnica Srebrnjak<sup>2</sup> KBC Rebro, Klinika za pedijatriju, Zavod za pulmologiju, alergologiju i kliničku imunologiju

Adresa za dopisivanje:

Prim. dr. sc. Miljenko Raos, Dječja bolnica Srebrnjak, Srebrnjak 100, 10000 Zagreb



Slika 1. Teški meteorizam crijeva i želuca  
Figure 1. Severe gastro-intestinal meteorism



Slika 2. Jaka dilatacija jednjaka (kontrastni prikaz),  
uz meteorizam crijeva i želuca  
Figure 2. Intense oesophageal dilatation (contrast  
presentation) and gastro-intestinal meteorism

#### PRIKAZ BOLESNIKA

Šestomjesečno prematurno muško dojenče primljeno je na liječenje zbog teške dispneje inspiracijskog tipa. Prva majčina trudnoća, izvantjelesna oplodnja, trudnoća blizanačka, porođaj u 26<sup>+5</sup> gestacijskom tjednu, sekcijom, drugi blizanac. RM 1050 grama, RD 0,36 m, Apgar 4/7. Odmah nakon porođaja, zbog razvoja teškog respiratornog distresa, obavila se intuba-

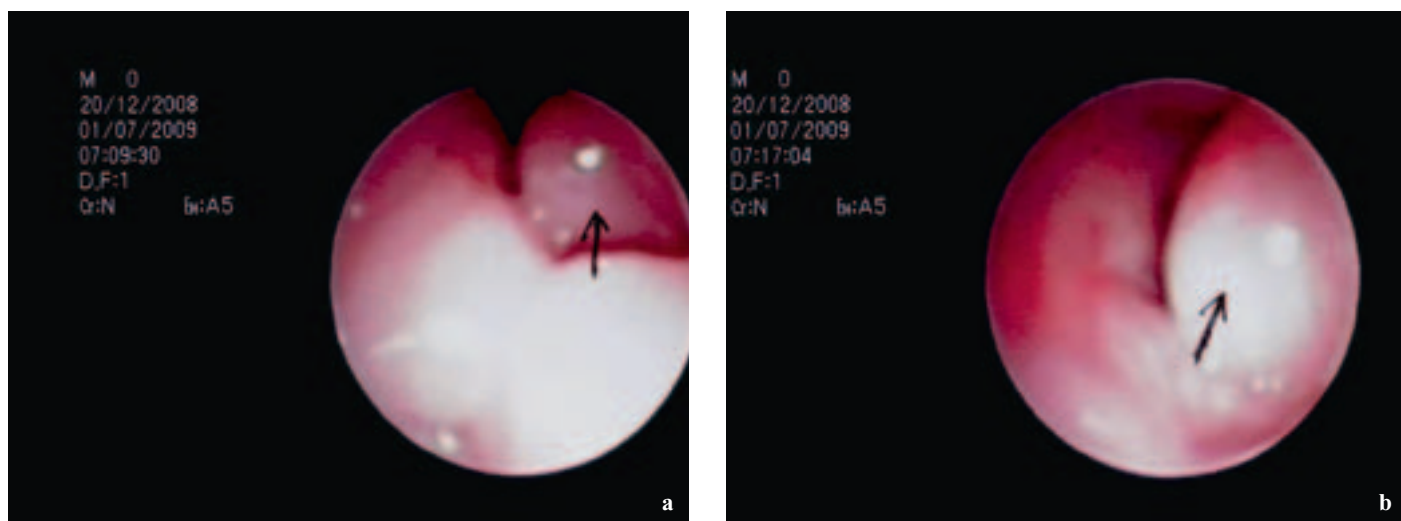
cija i strojno prodisavanje. Strojno prodisavanje provedeno je do 24. dana života, a nakon toga potpora kisikom do 57. dana života. Zbog perzistentnog duktusa arteriozusa primao indometacin, a zbog premturme retinopatije obavljena je laserska koagulacija obostrano. Zbog premturme anemije u četiri navrata dobio transfuziju koncentrata eritrocita. Dojenče od prvog mjeseca života ima inspiracijski stridor, tegobe s hranjenjem, otežano guta, ostaje bez daha i hranjenje dugo traje. Sporno je zašto dijete nije ranije upućeno na obradu zbog stridora. Glavni razlog prijma u bolnicu bila je teška nadutost, koja je značajno pojačavala dispneju, te sumnja na torziju u području probavnog sustava. Kod prijma je čujan inspiracijski stridor, blaža promuklost, jaka nadutost trbuha. Respiracije 50-60/min. Auskultacijski nalaz na srcu i plućima uredan. Trbuh nadut, perkusijski izražen timpanizam. Zbog sumnje na patologiju u području gastrointestinalnog sustava učinjena je nativna snimka trbuha koja je pokazala jaki meteorizam crijeva i želuca, a pregled jednjaka s vodotopivim kontrastom pokazao je jaku dilataciju jednjaka (slike 1 i 2). Dvanaest sati poslije, zbog sumnje na stenozu odnosno torziju probavnog sustava, obavljen je MSCT (višeslojna računalna tomografija) trbuha s vodotopivim kontrastom kojim je isključeno postojanje stenozе ili torzije probavnog sustava. Naknadno je učinjena i ezofagogastroskopija i nalaz je bio uredan. Fiberoptička laringoskopija:

omegaepiglotis, u području desnog ventrikularnog nabora vidi se mekotiivna polukuglasta tvorba, koja lebdi u struji zraka i značajno zatvara ulaz u grkljan, po izgledu najvjerojatnije je riječ o ventrikularnoj grkljanskoj cisti (slike 3a i 3b). Video-bronhoskopski isključene su moguće anomalije u području dušnika i dušnica. Tvorba je endoskopski uklonjena. Riječ je bila o cističnoj tvorbi na desnom ventrikularnom naboru veličine 3x5 mm, koja je u cijelosti ekscidirana. Nakon zahvata dojenče je dobro, nema stridora ni probavnih tegoba. Patohistološki stijenka ciste građena je od veziva i obložena pravilnim cilindričnim epitelom.

#### RASPRAVA

Učestalost grkljanskih cista procjenjuje se na 1:300.000 porođaja, odnosno 1,82 na 100.000 živorođenih (7, 8). Grkljanski prostor možemo razdijeliti u tri dijela. Supraglotički dio, prostor je od laringealnog auditusa (gornji rub epiglotisa i ariepiglotičkih nabora) do ventrikularnih nabora. Između ventrikularnih nabora i glasnica je Morgagnijev ventrikul.

Glitički dio prostor je između glasnica. Subglitički dio prostor je ispod glasnica do donjeg ruba krikoidne hrskavice. Prirodene grkljanske ciste rijedak su uzrok respiratornog distresa, stridora i dispneje u novorođenačkom i dojenačkom razdoblju. U 40% novorođenačadi javlja se teški respiratorni distres u prvim satima života, dispneja, apneja, cijanoza u 55% slučajeva. Ostali simptomi uključuju teškoće s hranjenjem i promjenom glasa, pojava cijanoze tijekom hranjenja, zaoštavanje u razvoju, kašalj. Glasanje može biti nečujno, oslabljeno, prigušeno, kriješavo ili promuklo (9, 10). Inspiracijski stridor osobit je znak u djeteta s grkljanskom cistom i javlja se u 90% slučajeva, no on je i znak grkljanske membrane, subglitičke stenozе, laringomalacije i paralize glasnica (11). Uzrok inspiracijskog stridora može biti i laringotraheobronhitis, žilni prsten, strano tijelo, akutni epiglotitis (12). Inspiracijski stridor uzrokuju supraglotičke i glitičke grkljanske ciste, dok subglitičke ciste uzrokuju bifazični stridor. Grkljanska cista u 40% slučajeva klinički se očituje u prvim satima života i u 95% slučajeva u prvim šest mjeseci života, a 50% grkljanskih cista dijagnosticirano je prigodom autopsije u dojenačadi umrle od ugušenja. Grkljanske ciste mogu biti čvrsto vezane za podlogu, a mogu imati i peteljasti oblik. Subglitičke ciste javljaju se kod djece koja su bila



Slike 3a i 3b. Cista desnog ventrikularnog nabora, sa suženjem ulaza u larinks (stijelica)  
Figure 3a and 3b. Cyst on the right ventricular fold, with stenosis of entrance into larynx (arrow)

podvrgnuta strojnom prodisavanju (13-15), kao što je slučaj kod prikazanog djeteta. Subglotičke ciste stoga možemo podijeliti na prirođene i stečene. Intubacija i strojno prodisavanje, česte sukcije, posebice kod prematurusa male težine, dovodi do oštećenja sluznice i upale, i nedvojbeno potpomaže u razvoju subglotičkih cista. Oštećenje sluznice, ulceracija, nekroza, stvaranje granulacijskog tkiva, fibroza i metaplazija epitela pogoduju razvoju subglotičkih cista (16, 17). U dijagnostičkom pogledu glavna pretraga je fiberoptička laringoskopija, a u obzir dolaze i druge pretrage, postranična snimka vrata i prsnoga koša, CT (računalna tomografija vrata) i MR (magnetska rezonancija vrata) (18).

U liječenju se provode razni postupci, ovisno o veličini i sijelu ciste, od iglene punkcije, marsupijalizacije, endoskopske ekscizije ciste, laringofisure, otvoreni kirurški pristup kod recidivirajućih velikih cista (postranična faringotomija i traheotomija), endoskopsko lasersko liječenje (1, 10, 11, 19-22).

Prikazani bolesnik odmah nakon rođenja razvio je teški respiratorni distres, zbog čega je bio podvrgnut strojnom prodisavanju. Nakon ekstubacije trajno je izražen inspiracijski stridor, koji se tumačio kao posljedica strojnog prodisavanja. Imao je tegobe s hranjenjem, otežano gutanje, gubitak daha. Probavne tegobe, teški meteorizam i sumnja na torziju probavnog sustava, što je dovelo do pogoršanja dispepeje, bili su razlog hospitalizacije, što ovaj prikaz čini posebnim. Kod našeg bolesnika posrijedi je bila prirođena sakularna cista desnog ventrikularnog nabora. Probavne tegobe mogu se objasniti gutanjem velike

količine zraka zbog poremećenog udaha, odnosno zaprečnom opstrukcijom na ulazu u grkljan, te odlazak zraka u jednjak i probavni sustav.

#### ZAKLJUČAK

Zaključno bi trebalo naglasiti da svaki prirođeni ili stečeni stridor zahtijeva neodgodivu dijagnostičku obradu, to više što je uzrok stridora vrlo šarolik, a neki uzroci mogu dovesti i do iznenadne smrti, kao što je, primjerice, grkljanska cista. Stoga se kod svakog djeteta sa stridorom preporuča učiniti anteroposteriornu i profilnu snimku pluća u apikolordotičnom položaju, fiberoptičku laringoskopiju – bronhoskopiju, ezofagogram s kontrastom, prema potrebi u obzir dolazi računalna tomografija (CT) i magnetska rezonancija (MR).

#### LITERATURA

1. Poddar B, Nagarkar N, Bishnoi DS, Dass A. Stridor in an infant - a rare cause. *Indian Pediatr* 2002;39:288-91.
2. Holinger LD. Evaluation of stridor and wheezing. U: Hollinger LD, Lusk RP, Green CG. *Pediatric Laryngology and Bronchoesophagology*. Philadelphia, Lippincott - Raven Press, 1997;41-8.
3. De Santo LW, Devine KD, Weiland LH. Cysts of the larynx: classification. *Laryngoscope* 1970;80:145-76.
4. Kamble VA, Lilly RB, Gross JB. Unanticipated difficult intubation as a result of an asymptomatic vallecular cyst. *Anesthesiology* 1999;91:872-3.
5. Arens C, Glanz H, Kleinsasser O. Clinical and morphological aspects of laryngeal cysts. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 1997;254:430-6.
6. Forte V, Fuoco G, James A. A new classification system for congenital laryngeal cysts. *Laryngoscope* 2004;114:1123-7.
7. Suhonen H, Kero PO, Puhakka H, Vilkki P. Saccular cyst of the larynx in infants. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1984;8:73-8.

8. Pak MW, Woo JKS, Van Hasselt CA. Congenital laryngeal cysts: current approach to management. *J Laryngol Otol* 1996;110:854-6.
9. Righini CA, Kadaoui H, Morel N, Llerna C, Rey E. Stridor in a newborn caused by a congenital laryngeal saccular cyst: report of a case in an infant. *Ear Nose Throat J* 2006;85:49-51.
10. Lee WS, Tsai CSS, Lin CH, Lee CC, Hsu HT. Airway obstruction caused by a congenital epiglottic cyst. *Int J Otorhinolaryngol* 2000;53:229-33.
11. Prasad KC, Ranjan RK, Agarwal S, Prasad SC, Bhat J. Congenital laryngeal saccular cyst: report of a case in an infant. *Ear Nose Throat J* 2006;85:49-51.
12. Shackelford GD, Mc Alister WH. Congenital laryngeal cyst. *Am Roentgenol* 1972;114:289-92.
13. Mitchell DB, Irwin BC, Bailey CM, Evans JNG. Cyst of the infant larynx. *J Laryngol Otol* 1987;101:833-7.
14. Velepić MS, Šaina G, Lah K, Velepić MM, Starčević R, Pedišić D. Congenital laryngeal cyst: one or two cysts. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67:283-5.
15. Rutter MJ, Cotton RT. Airway management in the infant and child. Lusk RP. Congenital anomalies of the larynx. U: Snow JB, Wackym PA, Ballenger JJ. *Ballenger's otorhinolaryngology: head and neck surgery*. 17th ed. Hamilton, Ont.; London: BC Decker 2008;805-28.
16. Agada FO, Bell J, Knight L. Subglottic cysts in children: a 10-year review. *Int J Pediatr otorhinolaryngol* 2006;70:1485-8.
17. Lim J, Hellier W, Harcourt J, Leghton S, Albert D. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67:461-5.
18. Bielicka A, Zawadska-Glos L, Chmielik M. Laryngeal cysts in children. *New Medicine* 2004;3:71-3.
19. Khodaei I, Karkanavatos A, Poullos A, McCormick MS. Airway obstruction in a newborn due to a congenital laryngeal cyst. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007;2:254-6.
20. Marino MY, Chua AH. Congenital saccular cyst of the larynx. *Philippine J Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;23:35-6.
21. Evans DA. Saccular cyst of the larynx. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;128:303-4.
22. Dessardo S, Tomulić KL, Ahel V, Velepić M, Ahel J, Čaće N. Laryngeal cyst and tracheomalacia in neonate: coincidence or complication? *Pediatr Int* 2006;48:641-2.

## *S u m m a r y*

### LARYNGEAL CYST IN INFANT

*M. Raos, J. Marković, D. Tješić-Drinković*

*In this paper we report on the case of a 6 month old premature male infant with a laryngeal cyst on the right ventricular fold. Due to severe respiratory distress mechanical ventilation was performed up to 24 days of life. After extubation, inspiratory stridor, feed problems- i.e. difficult and prolonged feeding accompanied by apnoea developed. The reason for hospitalization was aggravation of dyspnoea, caused by severe abdominal meteorism, and suspected torsion in the area of intestinal system. When diagnosis of intestinal torsion was excluded, the diagnosis of laryngeal cyst was performed using fiberoptic endoscopy. The cyst was completely excised endoscopically.*

Descriptors: RESPIRATORY SOUNDS; INFANT; ENDOSCOPY

*Primljeno/Received: 31. 8. 2009.*

*Prihvaćeno/Accepted: 25. 11. 2009.*