

Laryngocele mieszane – opis przypadku i przegląd piśmiennictwa

Mixed laryngocele – a case report and review of the relevant literature

ANNA PAJOR, KATARZYNA MACIASZCZYK, MAGDALENA JÓZEFOWICZ-KORCZYŃSKA

I Katedra Otolaryngologii Uniwersytetu Medycznego w Łodzi, Uniwersytecki Szpital Kliniczny nr 1 im. N. Barlickiego

Laryngocele jest torbielowatym poszerzeniem woreczka krtaniowego. W pracy przedstawiono rzadki przypadek torbieli powietrznej krtani u 51-letniej kobiety, która zgłaszała chrypkę i uczucie powiększania się okresowo obwodu szyi przy kaszlu, bez towarzyszącej duszności ani zaburzeń połykania. W tomografii komputerowej szyi stwierdzono przestrzeń powietrzną typu mieszanego o wymiarach 35 na 22 mm. Laryngocele usunięto z dojścia zewnętrznego, które umożliwiło dobrą wizualizację zmiany, bez potrzeby wykonania tyrotomii.

Słowa kluczowe: krtień, torbiel powietrzna, typ mieszany

Laryngocele is an air-filled abnormal dilatation of laryngeal sacculus. The paper presents the uncommon case of laryngocele in a 51-year old woman who complained of hoarseness and occasional swelling of the neck while coughing, without concomitant symptoms, like: dyspnea and disturbances in swallowing. Computed tomography examination confirmed the presence of a mixed-type 35 x 22 mm airspace. The laryngocele was surgically removed from external approach which allowed good visualization without the need of thyrotomy performance.

Key words: larynx, mixed type laryngocele

© Otolaryngologia 2012, 11(2): 79-82

www.mediton.pl/orl

Adres do korespondencji / Address for correspondence

Dr med. Anna Pajor

I Katedra Otolaryngologii Uniwersytetu Medycznego w Łodzi,

Uniwersytecki Szpital Kliniczny nr 1 im. N. Barlickiego

ul. Kopcińskiego 22, 90-153 Łódź

tel./fax 42-6785-785, e-mail: grappa@csk.umed.lodz.pl

WSTĘP

Torbiele krtani (laryngocele) występują rzadko, ich częstość ocenia się na 1 przypadek na 2,5 mln osób rocznie i stanowią około 4-7% wszystkich guzów niezłośliwych tego narządu [1-4]. Laryngocele jest to torbielowate poszerzenie woreczka krtaniowego będącego wypukleniem przedniej części dna kieszonki krtaniowej. Woreczek krtaniowy rozciąga się ku górze między fałdem rzekomym a wewnętrzną powierzchnią chrząstki tarczowatej i może mieć różną długość [5]. W badaniach autopsyjnych stwierdzono dużą rozpiętość jego najdłuższego wymiaru, do 8 mm w 75%, 10-15 mm w 17% oraz powyżej 15 mm w 8% przypadków [6]. Jako kryterium uznania za laryngocele niektórzy przyjmują poszerzenie woreczka krtaniowego powyżej górnego brzegu chrząstki tarczowatej [5,7].

Najczęściej zawartość torbieli stanowi powietrze (pneumocele), a rzadko śluz (laryngomucocele). W około 8-10% przypadków może ona ulec zakażeniu i powstać laryngopyocele [8,9]. Niektórzy defini-

cję laryngocele ograniczają do torbieli powietrznych krtani, w których ujście woreczka pozostaje otwarte, natomiast mianem torbieli woreczka (saccular cyst) określają torbiele śluzowe, z zamknięciem ujścia woreczka krtaniowego [1,4,10]. Torbiele powietrzne występuje częściej w piątej i szóstej dekadzie życia oraz u mężczyzn (stosunek 5-7:1) [8,11]. Zwykle są one jednostronne, ale w około 23% przypadków stwierdza się zmiany obustronne.

W zależności od stosunku do błony tarczowognykowej wyróżnia się trzy rodzaje laryngocele:

- wewnętrzne – ograniczone do wnętrza krtani, rozciągające się w kierunku tylnogórnym – fałdu rzekomego i fałdu nalewkowo-nagłośniowego; w laryngoskopii widoczne jako wypuklenie okolicy nadgłośni;
- zewnętrzne – rozciągające się w kierunku górnym i przechodzące na zewnątrz przez otwór w błonie tarczowognykowej dla nerwu krtaniowego górnego i naczyń; klinicznie ujawniające się w postaci wypuklenia na szyi na poziomie

kości gnykowej, do przodu od mięśnia mostkowo-obojczyko-sutkowego;

– mieszane, będące połączeniem obu powyższych zmian [1,2,9].

Laryngocele wewnętrzne stanowi 20-40%, a pozostałe rodzaje 60-80% wszystkich torbieli powietrznych [4,8].

Celem pracy jest przedstawienie rzadkiego przypadku mieszanego laryngocele krtani z przeglądem piśmiennictwa.

OPIS PRZYPADKU

Chora ER, lat 51, została przyjęta do Kliniki Laryngologicznej z powodu chrypki i uczucia powiększania się okresowo obwodu szyi przy kaszlu, bez towarzyszącej duszności i zaburzeń połykania. Dolegliwości powyższe trwały od około roku. W badaniu laryngologicznym stwierdzono uwypuklenie okolicy prawej kieszonki krtaniowej i przyśrodkowej części zachyłka gruszkowatego po stronie prawej, w zakresie innych narządów laryngologicznych nie wykazano odchyłeń od stanu prawidłowego. Na szyi po stronie prawej przy kaszlu palpacyjnie wyczuwalne było zgrubienie.

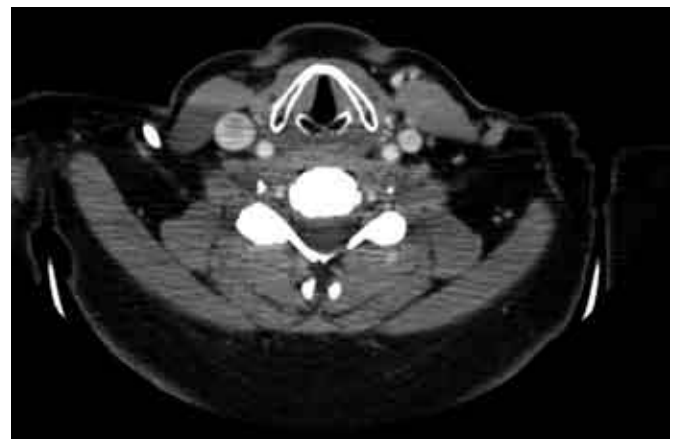
Wykonano laryngoskopię bezpośrednią w znieczuleniu ogólnym i pobrano wycinek z uwypuklenia zachyłka gruszkowatego, wynik badania histopatologicznego (nr 2279) – fragment błony śluzowej pokrytej normotypowym nabłonkiem wielowarstwowym płaskim, w podścielisku skupisko gruczołów oraz torbielowata przestrzeń wysłana nabłonkiem wielowarstwowym płaskim. W badaniu TK szyi (8.04.2010 r.) stwierdzono w tkankach miękkich szyi po stronie prawej, na poziomie kości gnykowej do wysokości szpary głośni, przestrzeń powietrzną o wymiarach 35 na 22 mm, łączącą się z powiększonym dołkiem nagłośniowym prawym, nagłośnia przemieszczona w stronę lewą, węzły chłonne nie powiększone (ryc. 1).

Chora zakwalifikowana została do leczenia chirurgicznego; zmianę usunięto z dojścia zewnętrznego. Z cięcia na szyi po stronie prawej odwarstwiono tkanki miękkie, odsłonięto błonę tarczowo-gnykową, wypreparowano i usunięto róg górny chrząstki tarczowatej i uwidoczniłono nerw krtaniowy górny. Wypreparowano torbiel zlokalizowaną między kością gnykową a górnym brzegiem chrząstki tarczowatej, podwiązując jak najniżej szypułę torbieli wchodzącą do wnętrza krtani. Następnie wykonano laryngoskopię bezpośrednią i uwidoczniłono krtani stwierdzając niewielkie zgrubienie w okolicy prawego fałdu rzekomego. W badaniu histopatologicznym (nr 7535) stwierdzono twór torbielowaty wysłany normotypowym nabłonkiem rzęskowym o średnicy 5 cm.



Ryc. 1. Tomografia komputerowa – na poziomie kości gnykowej do wysokości szpary głośni widoczna przestrzeń powietrzna (o wymiarach 35-22 mm)

Okres pooperacyjny przebiegał bez powikłań. Chora pozostaje w obserwacji ambulatoryjnej, nie zgłasza dolegliwości związanych z połykaniem i innych ze strony narządów laryngologicznych. W laryngoskopii pośredniej stan krtani prawidłowy. Kontrolne badanie TK po roku od leczenia chirurgicznego wykazało na przyśrodkowej powierzchni prawej blaszki chrząstki tarczowatej pasmo tkanki z niewielkim zniekształceniem krtani na tym poziomie, odpowiadające zmianom bliznowatym, poza tym symetria krtani prawidłowa (ryc. 2).



Ryc. 2. Tomografia komputerowa po usunięciu torbieli powietrznej krtani – zmiany bliznowate na przyśrodkowej powierzchni prawej blaszki chrząstki tarczowatej, poza tym symetria krtani prawidłowa

DYSKUSJA

Większość laryngocele przebiega bezobjawowo i jest wykryta przypadkowo w czasie badań obrazowych. Najczęstsze objawy kliniczne to chrypka, guz czy powiększanie się obwodu szyi zwłaszcza w czasie manewru Valsalvy, niekiedy duszność, zaburzenia połykania, kaszel i uczucie ciała obcego [12,13]. W prezentowanym przypadku przebieg choroby był typowy choć początkowo bardziej nasilone były objawy związane z częścią wewnętrzną zmiany. Mimo podejrzenia laryngocele, ponieważ jak wiadomo z literatury może ono współistnieć ze zmianami nowotworowymi krtani [10,11], zdecydowano najpierw wykonać laryngoskopię bezpośrednią i pobrać wycinek do badania histopatologicznego. Ostateczne rozpoznanie postawiono na podstawie badania tomografii komputerowej, które to wraz z badaniem rezonansu magnetycznego uważa się za najbardziej przydatne w diagnostyce [8].

W etiologii laryngocele rozważa się zarówno przyczyny wrodzone (anomalie rozwojowe woreczka krtaniowego) jak i nabyte. Powstawanie torbieli może być związane ze wzrostem ciśnienia wewnątrzkraniowego (przewlekły kaszel; zwiększony wysiłek fizyczny np. w niektórych zawodach jak dmuchacze szkła, muzycy grający na instrumentach dętych, śpiewacy; czy nieprawidłowa fonacja przed-sionkowa), a także z mechanizmem wentylowym spowodowanym zwężeniem i uciskiem okolicy kieszonki krtaniowej przez inne zmiany krtani, jak nowotwór, zmiany swoiste [10,14,15]. Przedstawiono również przypadki laryngocele po operacjach guzów szyi i krtani oraz po tracheotomii [9,16]. Patomechanizm może być też wieloprzyczynowy, jaki opisano w przypadku laryngocele u kulturysty,

którego powstanie miało związek z forsownym treningiem, nadużywaniem sterydów anabolicznych i preparatów hormonu wzrostu o działaniu antynatriuretycznym mogących powodować obrzęk krtani [17], a także laryngocele w wyniku leczenia jodem radioaktywnym wola tarczycy w chorobie Gravesa u trębacza [18]. W przypadku własnym nie stwierdzono jednak żadnego z czynników sprzyjających powstaniu torbieli powietrznej krtani.

W diagnostyce należy uwzględnić fakt, że laryngocele może współistnieć lub maskować inne choroby jak amyloidoza i nowotwory krtani (leiomyosarcoma, chordoma schwannoma), torbiel przewodu wyprowadzającego ślinianki podżuchwowej, flebektazja żyły szyjnej wewnętrznej [19-24]. Szczególnie istotne są obserwacje o współwystępowaniu raka krtani, co stwierdzono u od 4,9% do 28,8% pacjentów [4,11,19]. Birt [7] stwierdził laryngocele w 17,8% preparatów krtani usuniętych z powodu raka płaskonabłonkowego, a ponadto długość i wysokość woreczka krtaniowego była w tych przypadkach istotnie większa niż w preparatach krtani usuniętych z innych przyczyn.

W leczeniu chirurgicznym laryngocele proponuje się różne techniki dostępu, w zależności od rodzaju i rozległości zmiany, takie jak usunięcie drogą endoskopową z zastosowaniem lasera CO₂ lub dojscie zewnętrzne z tyreotomią boczną, przeszzyjne w linii środkowej i skojarzone zewnętrzne i endoskopowe z użyciem lasera [25-28]. W opisywanym przypadku zastosowano również dojscie zewnętrzne, które umożliwiło dobrą wizualizację zmiany i okazało się wystarczające dla jej usunięcia bez potrzeby wykonania tyreotomii.

Piśmiennictwo

1. Dursun G, Ozgursoy OB, Beton S, Batikhan H. Current diagnosis and treatment of laryngocele in adults. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2007; 136:211-5.
2. Pruszevicz A, Obrębowski A, Maciejewska B. Obustronne wewnętrzne laryngocele ze współistniejącym nosowaniem otwartym. *Otolaryngol Pol* 2006; 60:935-8.
3. Nowak K, Waśniewska E, Szyfter W. Laryngocele. *Otolaryngol Pol* 2002; 54:721-5.
4. Gallivan KH, Gallivan GJ. Bilateral mixed laryngoceles: simultaneous stroboscoped laryngoscopy and external video examination. *J Voice* 2002; 16:258-66.
5. Porter PW, Vilensky JA. The laryngeal saccule: Clinical significance. *Clin Anat* 2011 Dec 12. doi: 10.1002/ca.22015.
6. Broyles EN. Anatomical observations concerning the laryngeal appendix. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1959; 68:461-3.
7. Birt D. Observations on the size of the saccule in laryngectomy specimens. *Laryngoscope* 1987; 97: 190-200.
8. Alvi A, Weissman J, Myssiorek D, Narula S, Myers EN. Computed tomographic and magnetic resonance imaging characteristics of laryngocele and its variants. *Am J Otolaryngol* 1998; 19:251-6.
9. Upile T, Jerjes W, Sipaul F, El Maaytah M, Singh S, Howard D i wsp. Laryngocele: a rare complication of surgical tracheostomy. *BMC Surg* 2006; 6:14.
10. Cassano L, Lombardo P, Marchese-Ragona R, Pastore A. Laryngopyocele: three new clinical cases and review of the literature. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2000; 257: 507-11.
11. Akbas Y, Unal M, Pata YS. Asymptomatic bilateral mixed-type laryngocele and laryngeal carcinoma. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2004; 261: 307-9.

12. Keles E, Alpay HC, Orhan I, Yildirim H. Combined laryngocele: a cause of stridor and cervical swelling. *Auris Nasus Larynx* 2010; 37: 117-20.
13. Markowski J, Gierek T, Paluch J, Witkowska M. Laryngocele mieszane – opis przypadku i aspekty foniatryczne. *Otorynolaryngol Pol* 2009; 8: 142-5.
14. Drozd M, Szuber K, Szuber D. Znaczenie mechanizmu wentylowego w powstawaniu laryngocele. *Otolaryngol Pol* 1996; 50: 17-20.
15. Dray TG, Waugh PF, Hillel AD. The association of laryngoceles with ventricular phonation. *J Voice* 2000; 14: 278-81.
16. Marom T, Roth Y, Cinamon U. Laryngocele: a rare long-term complication following neck surgery? *J Voice* 2011; 25: 272-4.
17. Moor JW, Khan MI. Growth hormone abuse and body building as aetiological factors in the development of bilateral internal laryngocele. A case report. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005; 262: 570-2.
18. Stocker DJ, Kelly WF, Fitzpatrick TM, Bernet VJ, Burch HB. Bilateral external laryngoceles following radioiodine ablation for Graves disease. *Arch Intern Med*. 2002; 162: 2007-9.
19. Aydın O, Ustündağ E, Işeri M, Ozkarakas H, Oğuz A. Laryngeal amyloidosis with laryngocele. *J Laryngol Otol* 1999; 113: 361-3.
20. Helmberger RC, Croker BP, Mancuso AA. Leiomyosarcoma of the larynx presenting as a laryngopyocele. *AJNR Am J Neuroradiol* 1996; 17: 1112-4.
21. Park KT, Ahn Y, Kim KH, Kwon TK. Schwannoma mimicking laryngocele. *Clin Exp Otorhinolaryngol*. 2010; 3:166-71.
22. Papila I, Acioglu E, Karaman E, Akman C. Laryngeal chondroma presenting as a laryngopyocele. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005; 262: 473-6.
23. Back GW, Fahmy F, Hosni A. Submandibular salivary duct cyst mimicking an external laryngocele. *J Laryngol Otol* 2000; 114: 305-7.
24. Collins WO, Zalzal GH. Internal jugular vein phlebectasia masquerading as an external laryngocele. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2005; 131: 163-5.
25. Martines Devesa P, Ghufloor K, Lloyd S, Howard D. Endoscopic CO2 laser management of laryngocele. *Laryngoscope* 2002; 112: 1426-30.
26. Thomé R, Thomé DC, De La Cortina RAC. Lateral thyrotomy approach on the paraglottic space for laryngocele resection. *Laryngoscope* 2000; 110: 447-50.
27. Vengerovich G, McCoul ED, Burstein DH, Yao FB, Lim JW. Excision of laryngocele via transcervical midline approach. *Laryngoscope* 2010; 120 Suppl 4: S189.
28. Ettema SL, Carothers DG, Hoffman HT. Laryngocele resection by combined external and endoscopic laser approach. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2003; 112: 361-4.