

Relato de Caso

Cisto branquial da 4ª fenda – relato de caso

Branchial cyst 4th cleft – case report

Ana Maria Esteves Cascabulho¹, Tatiana Vargas Queiroz Verdan², Rebeca dos Santos Veiga do Carmo², Ana Paula Machado Frizzo³, Julia Bino Aguiar da Silva⁴, Lorena de Freitas Gottardi⁵, André Pancrácio Rossi⁶, Fernanda Cardilo Lima⁷

Cascabulho AME, Verdan TVQ, Carmo RSV, Frizzo APM, Silva JBA, Gottardi LF, Rossi AP, Lima FC. Cisto branquial da 4ª fenda – relato de caso / *Branchial cyst 4th cleft – case report*. Rev Med (São Paulo). 2022 maio-jun.;101(3):e-191723.

RESUMO: *Introdução:* Os cistos branquiais são tumores congênitos laterais, resultantes de defeitos de desenvolvimento embrionário que afetam os arcos branquiais.¹ As anomalias congênitas cervicais são mais comumente diagnosticadas nos primeiros anos de vida. *Objetivo:* Informar, discutir e analisar condutas para tratamento desse tipo de cisto congênito. *Método:* Relato de caso e análise de dados, diagnósticos e conduta baseada na literatura referente a Cisto Branquial da 4ª Fenda. *Resultados:* Os cistos podem se manifestar tardiamente, mas as fistulas são, quase sempre, diagnosticadas ao nascimento ou na infância. São extremamente raros, estima-se que 95% das anomalias das fendas branquiais sejam da 2ª fenda; das 5% restantes, quase todas são da 1ª ou 3ª fenda. O diagnóstico é primariamente clínico, mas a ultrassonografia pode auxiliar no diagnóstico diferencial de um cisto branquial. O tratamento das anomalias branquiais é a excisão cirúrgica. Lactente sexo feminino, 9 meses de idade em acompanhamento de cisto branquial com conduta conservadora. O surgimento da massa se deu logo ao nascimento, havendo

drenagem espontânea do cisto para o esôfago alguns dias depois. Após nove meses paciente retorna devido aumento progressivo da lesão que correlacionando com exame físico, exames de imagem levaram ao diagnóstico de cisto de 4ª fenda branquial. Realizada cirurgia para remoção de Cisto juntamente com retirada de lobo esquerdo da tireoide (tireoidectomia parcial). *Conclusão:* Após a exereses da lesão paciente evoluiu satisfatoriamente sendo encaminhado para enfermagem e posteriormente alta com acompanhamento ambulatorial com pediatra geral.

Palavras-chaves: Anomalias branquiais; Cisto branquial; Fendas branquiais; Tumores congênitos; Massa cervical.

ABSTRACT: *Introduction:* Branchial cysts are congenital tumors, resulting from embryonic defects that affect the branchial arches. Congenital cervical abnormalities are usually diagnosed in the first years of life. *Objective:* To inform, discuss and analyze treatment approaches for this type of congenital cyst. *Method:*

Poster Eletrônico: “Cisto Branquial da 4ª fenda - relato de caso”, Congresso Mineiro Online de Pediatria, 4-5 dez. 2020.

1. Médica Residente do 3º ano do Programa de Residência Médica em Pediatria do Serviço de Pediatria do Hospital São José do Avai. <https://orcid.org/0000-0003-2493-7183>. Email: anacascabulho@hotmail.com
2. Médica Residente do 2º ano do Programa de Residência em Pediatria do Serviço de Pediatria do Hospital São José do Avai. ORCID: Verdan TVQ - <https://orcid.org/0000-0001-8484-2771>; Carmo RSV - <https://orcid.org/0000-0002-2223-5340>. Email: tatiannavargas@gmail.com, ebecasveiga@gmail.com
3. Médica, Pediatra, Docente do curso de Graduação em Medicina da Universidade Iguazu, Itaperuna-RJ, Docente do curso de graduação em Medicina da Unifaminas, Muriaé, MG, Brasil. <https://orcid.org/0000-0002-5743-6724>. Email: ana_frizzo@hotmail.com
4. Acadêmica do 6º ano do Curso de Medicina do Centro Universitário Serra dos Órgãos, Teresópolis, RJ. <https://orcid.org/0000-0001-5654-2851>. Email: binojulial1998@gmail.com
5. Médico, Pediatra, Mestre em Biomedicina, Docente do curso de graduação em Medicina da Universidade Iguazu, Itaperuna, RJ, Brasil. <https://orcid.org/0000-0001-9650-8942>. Email: lorenagotti@hotmail.com
6. Médico, Pediatra, Neonatologista, Docente do curso de graduação em Medicina da Universidade Iguazu, Itaperuna, RJ, Brasil. <https://orcid.org/0000-0003-0060-6170x>. Email: andrepancrazio@gmail.com
7. Médico, Cirurgia Geral, Título de especialista em Cirurgia Laparoscópica, Cirurgiã Pediátrica, Mestre em Medicina e Biomedicina, Docente do Curso de Graduação em Medicina da Universidade Iguazu. <https://orcid.org/0000-0003-0446-0322>. Email: fernandacardilo@hotmail.com

Endereço para correspondência: Rua Manoel Joaquim Teixeira Vogas, 312 - Centro, Valão do Barro, São Sebastião do Alto, RJ. Cep: 28555-000

Case report and analysis of data, diagnoses and approaches based on the literature addressing Fourth Branchial Cleft Cysts. *Results:* Cysts can manifest late, but fistulas are almost always diagnosed at birth or in childhood. They are extremely rare: it is estimated that 95% of branchial cleft anomalies involve the second cleft; of the remaining 5%, almost all arise from the first and third clefts. There are about 45 cases of fourth cleft cysts reported in the literature. The diagnosis is primarily clinical, but the ultrasound can be used for the differential diagnosis of a branchial cyst. Computed tomography will show air-fluid level in the anterior portion of the neck, in front of the thyroid and trachea, which may compress the trachea, causing respiratory distress in childhood. The treatment of branchial anomalies is surgical excision. A 9-month old female patient was being followed up after conservative treatment of a

cervical mass (branchial cyst). The cyst appeared immediately after birth, but there was there was spontaneous drainage of the cyst into the esophagus a few days later. After nine months, the patient returned due to a progressive increase of the lesion, which, after physical examination and imaging exams, led to the diagnosis of a fourth branchial cleft cyst. A surgical procedure was performed to remove the cyst along with the left thyroid lobe (partial thyroidectomy). *Conclusion:* After the excision of the lesion, the patient made a good recovery. She was then referred to the infirmary and later discharged with outpatient follow-up by a general pediatrician.

Keywords: Branchial anomalies; Branchioma; Branchial region; Congenital tumors; Neck mass.

INTRODUÇÃO

Os cistos branquiais ou branquiógenos sempre estão localizados na região lateral do pescoço, e por isto, muitos autores os denominam ainda de cistos cervicais laterais. Surgem diante do bordo anterior do músculo esternocleidomastóideo, no seu terço superior. Ao atingirem grandes dimensões ocupam a face anterior do músculo esternocleidomastóideo, invadindo regiões vizinhas como a supra e infra hioídea, parotídea, e regiões profundas como a faríngea lateral, com a qual, não poucas vezes, mantém conexão mais íntima através de pequeno orifício, constante como sabemos nas fistulas branquiais¹.

Mais de 50% das massas cervicais que necessitam de terapia cirúrgica têm origem congênita, e usualmente apresentam-se como lesões císticas. As duas massas cervicais congênicas mais comuns são o cisto branquial e o cisto do ducto tireoglossal².

OBJETIVO

Informar, discutir e analisar condutas para tratamento desse tipo de cisto congênito.

MÉTODO

Relato de caso do Cisto Branquial da 4ª Fenda.

DESCRIÇÃO DO CASO CLÍNICO

Paciente M. J. 12 dias de vida, pesando 3,500 Kg, sexo feminino, foi levada ao hospital por aparecimento, notado pelos pais, de “caroço” em região cervical esquerda. Na anamnese, houve queixa principal de aparecimento de “caroço no pescoço”, de forma súbita. Segundo os pais, a massa cervical, que se localizava em região submandibular esquerda, havia aparecido há 4 dias, indolor, sem sinais flogísticos e de aumento progressivo. Negavam febre ou quaisquer outras queixas. Gestação sem intercorrências. A criança estava em aleitamento materno exclusivo.

Ao exame físico: criança estava acordada, reativa ao manuseio, interagindo com o examinador, tónus preservado, resposta motora presente e simétrica, pupilas medianas, isocóricas e fotorreagentes. À ectoscopia paciente estava hidratada, normacorada, acianótica, anictérica, com boa perfusão periférica, eupnéica, com linfadenomegalia em cadeia submandibular, indolor, fixa à esquerda e sem sinais flogísticos. Exame cardiovascular: ritmo regular, em 2 tempos, sem sopros. Na ausculta respiratória o murmúrio vesicular estava presente, sem ruídos adventícios. O abdome plano, flácido, com peristalse presente, sem visceromegalias. Membros inferiores sem edemas, pulsos palpáveis e amplos. Orofaringe e otoscopia sem alterações.

Após anamnese e exame físico, foi solicitada avaliação do serviço de cirurgia pediátrica do hospital para análise do caso. Após avaliação da cirurgia pediátrica, foi levantada a hipótese diagnóstica de Cisto Branquial. Solicitados exames para confirmação diagnóstica: ultrassonografia cervical, ultrassonografia transfontanela, tomografia computadorizada da região cervical, ressonância nuclear magnética de pescoço, radiografia de tórax e hemograma.

À ultrassonografia cervical demonstrava: glândula submandibular esquerda não individualizada; glândula tireoide: Lobo esquerdo não individualizado, apresentando imagem cística em sua topografia, com cápsula espessa, repleta por conteúdo com nível hídrico, predominantemente ecogênico, móvel a mudança de decúbito, com fluxo periférico ao color Doppler. Istmo = 0,2 cm.

Tomografia de Pescoço: Lesão expansiva hipoatenuante, com densidade cística, bem delimitada, medindo 3,2 cm, localizado na região cervical lateral esquerda, determinando desvio da hipofaringe/traqueia contralateral. Laudo interrogava Cisto de Fenda Branquial.

Ressonância de Pescoço demonstrava lesão expansiva cística, medindo cerca de 3,4 x 2,6 cm ao nível da tireoide à esquerda, desviando a traqueia contralateralmente. O aspecto é compatível com lesão cística congênita. Interrogava Cisto Branquial.

A partir da anamnese, exame físico, e os resultados obtidos através dos exames, foi possível aventar o

diagnóstico de Cisto Branquial. A conduta adotada foi conservadora no momento, pois houve drenagem espontânea do cisto para esôfago. Paciente teve alta e encaminhada para acompanhamento ambulatorial para análise da necessidade de conduta cirúrgica no futuro.

Após nove meses criança retorna ao serviço, agora pesando 8,400 Kg, com queixa de aumento do nódulo cervical à esquerda, com início há alguns dias, associado a choro intenso e irritabilidade. Ao exame físico, paciente apresentava-se com irritabilidade e choro. À ectoscopia, presença de nódulo endurecido, doloroso à palpação, em região cervical esquerda, sem sinais flogísticos. Solicitado hemograma, sedimento urinário e cultura de

urina, ultrassonografia cervical esquerda. Foi realizado posteriormente punção do Cisto Cervical com cultura do material coletado. Cultura positiva para *Klebsiella Pneumoniae*.

O hemograma apresentava leucocitose. A ultrassonografia cervical demonstrava formação cística com conteúdo espesso, homogêneo, de contornos regulares, paredes finas, medindo 2,1 x 2,6 cm, localizada na região cervical anterior esquerda, com aparente comunicação com o lobo esquerdo da tireoide.

A tomografia de pescoço demonstrava o fechamento, naquele momento, total da laringe em sua transição com a traqueia.



Figura 1: TC região cervical demonstrando cisto a esquerda

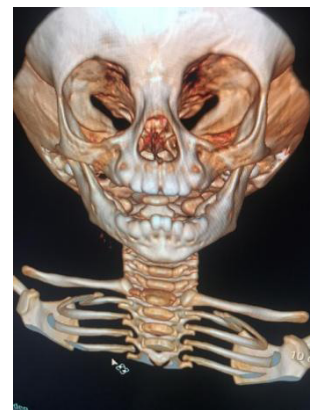


Figura 2: TC Crânio, coluna cervical (reconstrução 3 D)

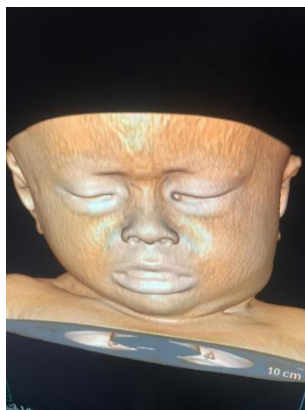


Figura 3: TC de crânio e região cervical demonstrando massa cervical a esquerda.

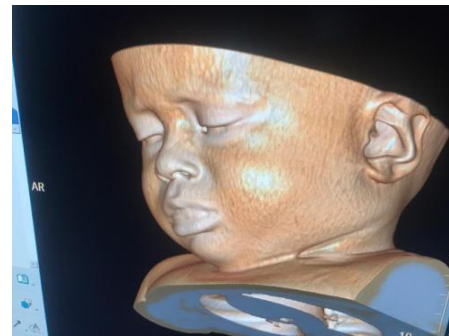


Figura 4: TC de crânio e região cervical.

O conjunto de achados na história clínica, exame físico e exames de imagem corresponderam ao diagnóstico de cisto de 4º fenda branquial.

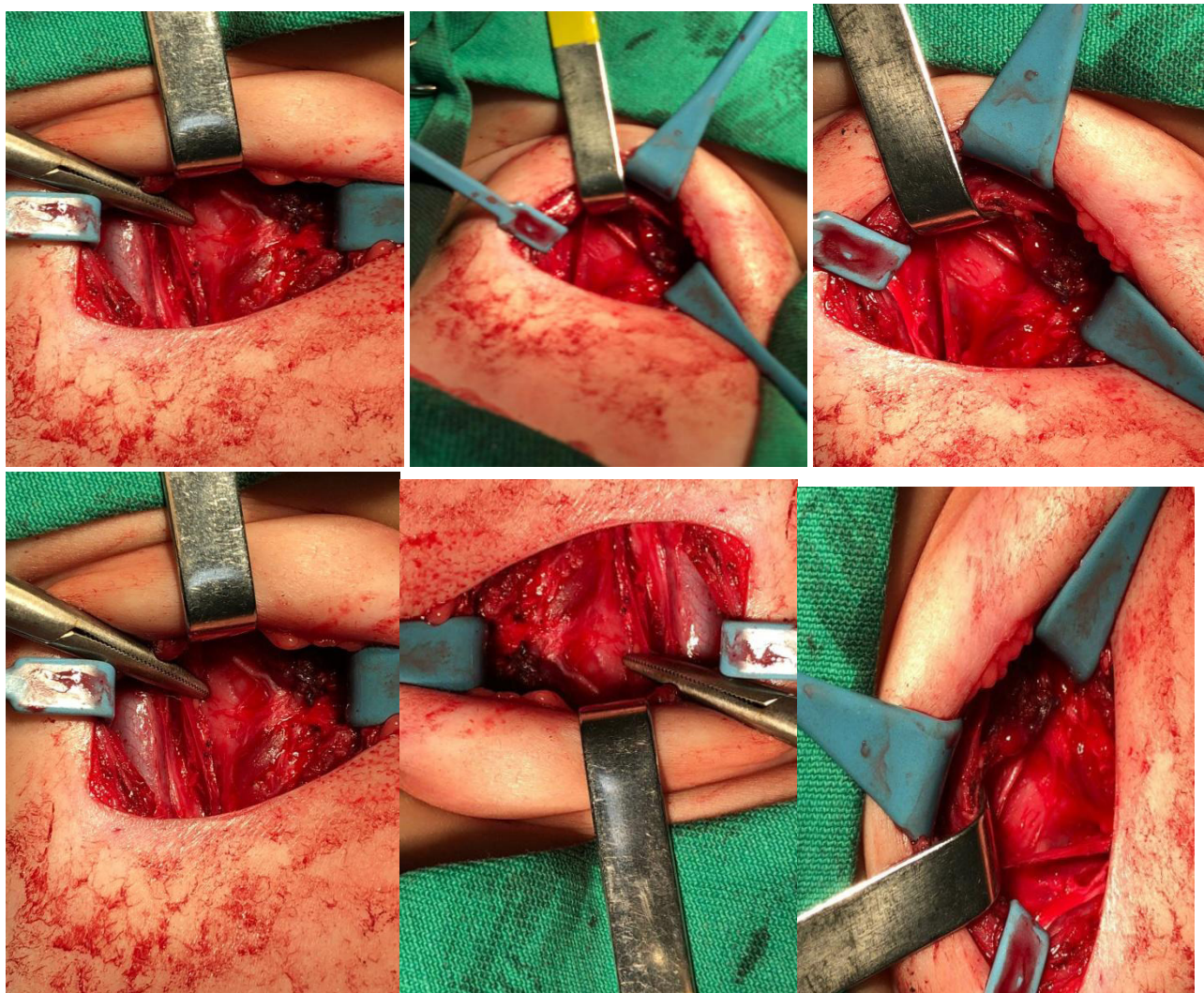
Como conduta foi de realizada cirurgia para remoção de Cisto de quarta fenda branquial junto com retirada de lobo esquerdo da tireoide (tireoidectomia parcial).

O material colhido durante a cirurgia foi mandado para a biópsia, realizando-se análise anatomopatológica do lobo esquerdo da tireoide, e através da mesma, se obteve os seguintes resultados: macroscopia apresentava

fragmento elíptico de pele e tecido subcutâneo medindo 2,0 x 0,5 cm, demonstrando superfície estriada e pardoclaro. Acompanha ainda, formação irregular de tecido acinzentado, de consistência amolecida medindo 3,0 cm. Aos cortes e firme com áreas esbranquiçadas. À microscopia: cisto tireoglossal, apresenta acentuado infiltrado inflamatório crônico, com reação granulomatosa tipo corpo estranho. Parênquima tireoidiano, com fibrose intersticial. Revestimento epidérmico ligeiramente espessado, ao lado de acentuada reação fibrosa da derme.

Paciente após cirurgia foi encaminhada a Unidade de Terapia Intensiva Pediátrica, com boa recuperação, e transferida posteriormente para a enfermaria, com alta

médica alguns dias depois. A conduta pós-operatória foi de observação clínica, com retornos agendados com pediatra para avaliação.



Figuras 5-10: Demonstrando acesso cirúrgico em região cervical.

DISCUSSÃO

A complexidade anatômica do pescoço propicia o surgimento de diversos tipos de anomalias congênitas, que devem ser diferenciadas de doenças inflamatórias e de neoplasias. Como em outras regiões, as anomalias congênitas cervicais são mais comumente diagnosticadas nos primeiros anos de vida¹. São diversas as afecções cervicais de características tumorais que podem se apresentar na região cervical da criança ou do adulto jovem³.

O exame físico deve ser completo para afastar a possibilidade de outras anomalias simultâneas em regiões distintas do corpo¹. A palpação e a ausculta de

tumores cervicais, quando indicada, são importantes para a determinação da mobilidade, da presença de sinais inflamatórios e de fluxo vascular no seu interior. Tais cuidados auxiliam na prevenção de acidentes, como a punção inadvertida de tumores vasculares, que pode levar à formação de hematomas⁴.

Os métodos diagnósticos auxiliares incluem a ultrassonografia, a tomografia computadorizada e a punção aspirativa por agulha fina. A ultrassonografia pode esclarecer o conteúdo da lesão, se sólida ou cística. Sua utilização em conjunto com a punção aspirativa é importante para a seleção dos casos que devem ou não ser puncionados e auxilia na localização do melhor sítio para punção^{4,8,9}.

A tomografia computadorizada é reservada para as situações em que o exame físico e a ultrassonografia não tenham sido conclusivos ou quando as dimensões da lesão indiquem a necessidade de uma melhor avaliação dos planos profundos do pescoço e das relações anatômicas entre a lesão e estruturas importantes⁴.

Os cistos branquiais são tumores congênitos laterais, resultantes de defeitos de desenvolvimento embrionário que afetam os arcos branquiais^{4,8,9}.

Sua apresentação clínica ocorre sob a forma de cistos ou de fistulas, geralmente congênitas, mas que podem se manifestar ao longo da vida. Os cistos podem se manifestar tardiamente, mas as fistulas são, quase sempre, diagnosticadas ao nascimento ou na infância^{4,11,12}.

O diagnóstico é primariamente clínico, mas a ultrassonografia pode auxiliar no diagnóstico diferencial de um cisto branquial^{4,13}.

As anomalias do quarto arco branquial são consideradas como uma possibilidade teórica, embora existam relatos de casos. Seu trajeto seria descendente, em direção ao tórax, recorrendo ao pescoço após passar sob a aorta ou sob a artéria subclávia e tendo o orifício interno no esôfago cervical^{1,9}. São extremamente raros, estima-se que 95% das anomalias das fendas branquiais sejam da 2ª fenda; das 5% restantes, quase todas são da 1ª ou 3ª fenda. Há cerca de 45 casos de cistos da 4ª fenda relatados na literatura^{4,12,13}.

Suas características de apresentação podem ser desde a existência de uma massa cística na parte inferior do pescoço, na fúrcula, até a presença de massa cervical associada a desconforto respiratório agudo na idade

perinatal³.

A tomografia computadorizada que vai mostrar massa de conteúdo aéreo na porção anterior do pescoço, diante da tireoide e traqueia, podendo comprimir esta última, causando dificuldade respiratória na infância^{3,11}.

O tratamento das anomalias branquiais é a excisão cirúrgica. Os cuidados e complicações são inerentes às relações anatômicas de cada um dos tipos¹. A abordagem cirúrgica pode ser feita por via endoscópica para a cauterização do orifício junto ao seio piriforme, quando o seio é pequeno, ou por via externa quando o seio tem maior magnitude^{3,14}.

A origem dos cistos cervicais laterais ainda permanece obscura, sendo propostas quatro teorias para o surgimento, incluindo a obliteração incompleta da mucosa da fenda branquial, que ficara adormecida até um período mais tardio da vida e por algum estímulo externo se expande. Postula-se também que os cistos poderiam representar vestígios do seio pré-cervical ou mesmo que os cistos cervicais laterais se originam do ducto timofaríngeo (3ª bolsa faríngea). Porém a teoria mais aceita e amplamente discutida relaciona a origem dos cistos a degeneração cística do tecido linfóide^{3,9,11,14}.

Como em outras regiões, as anomalias congênitas cervicais são mais comumente diagnosticadas nos primeiros anos de vida¹¹.

CONCLUSÃO

A importância deste relato de caso se dá pela raridade de cistos cervicais de 4ª fenda relatados na literatura¹¹.

Participação dos autores: Ana Paula Machado Frizzo - Aprovação final para publicação. Ana Maria Esteves Cascabulho - Concepção, planejamento. Rebeca dos Santos Veiga do Carmo - Interpretação dos dados. Julia Bino Aguiar da Silva - Redação do artigo. Lorena de Freitas Gottardi - Revisão intelectual crítica. André Pancrácio Rossi - Revisão intelectual crítica. Fernanda Cardilo Lima - Aprovação final para publicação. Tattiana Vargas Queiroz Verdán - Redação do artigo.

REFERÊNCIAS

- Nool V. Cistos branquiais. Anais Fac Med Porto Alegre. 1962;22(2):97-101. Disponível em: <https://www.seer.ufg.br/anaisfamed/article/viewFile/79372/46365>.
- Lubianca Neto JF, Pilch BZ, Eavely RD. Massa cervical atípica em criança. BJORL Braz J Otorinol. 2000;66:167-70. Disponível em: <http://oldfiles.bjorl.org/conteudo/acervo/acervo.asp?id=2441>
- Flaiban LT. Massas cervicais congênitas. Fundação Otorinolaringologia; 2005. Disponível em: https://forl.org.br/Content/pdf/seminarios/seminario_53.pdf
- Lenh CN, Chedid HM, Correia LAC, Magalhães MR, Curioni OA. Tumores congênitos do pescoço. Rev Assoc Med Bras. 2007;53(4):283-92. doi: <https://doi.org/10.1590/S0104-42302007000400007>
- Chagas JFSC, Rapoport A, Pascoal MBN, Aquino JLB, Filho LAB, Magalhães MR, et al. A raridade das afecções congênitas cervicais: anomalia do ducto tireoglosso. Rev Bras Cir Cabeça Pescoço. 2012;41(2):89-92. Disponível em: https://www.researchgate.net/publication/326368781_Relato_de_Caso_A_raridade_das_afeccoes_congenitas_cervicais_anomalias_do_ducto_tireoglosso
- Chagas JFS, Rapoport A, Pascoal MBN, Aquino JLB, Filho LAB, Magalhães MR, et al. Afecções congênitas cervicais. Casos raros: anomalias laterais. Rev Bras Cir Cabeça Pescoço. 2011;40(2). Disponível: <https://pesquisa.bvsalud.org/portal/resource/pt/lil-621058>
- Carvalho CP, Barcellos AN, Teixeira DC, Lacerda MAC, Ribeiro CA. Malignant branchiogenic cyst or primary tumor metastasis? Case report. Int Arch Otorhinolaryngol. 2008;12(3):463-5. Available from: http://www.arquivosdeorl.org.br/conteudo/acervo_eng.

asp?Id=557.

8. Patel S, Bhatt AA. Thyroglossal duct pathology and mimics. *Insights Imaging*. 2019;10:12. doi: 10.1186/s13244-019-0694-x
9. Meng F, Zhu Z, Ord RA, Zhang T. A unique location of branchial cleft cyst: case report and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2019;48(6):712-5. doi: 10.1016/j.ijom.2018.11.014
10. Mittal MK, Malik A, Sureka B, Thukral BB. Cystic masses of neck: a pictorial review. *Indian J Radiol Imaging*. 2012;22(4):334-43. doi: 10.4103/0971-3026.111488
11. Bahakim A, Francois M, Van Den Abbeele T. Congenital midline cervical cleft and w-plasty: our experience. *Int J Otolaryngol*. 2018;2018:5081540. doi: 10.1155/2018/5081540
12. Meng F, Zhu Z, Ord RA, Zhang T. A unique location of branchial cleft cyst: case report and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2019;48(6):712-5. doi: 10.1016/j.ijom.2018.11.014
13. Quintanilla-Dieck L, Penn EB. Congenital neck masses. *Clin Perinatol*. 2018;45(4):769-85. doi: 10.1016/j.clp.2018.07.012
14. Mattioni J, Azari S, Hoover T, Weaver D, Chennupati SK. A cross-sectional evaluation of outcomes of pediatric branchial cleft cyst excision. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2019;119:171-6. doi: 10.1016/j.ijporl.2019.01.030

Recebido: 23.10.2021

Aceito: 10.03.2022