

## Δεύτερο πρωτοπαθές κυστικό ύγρωμα τραχήλου

**Γ. ΤΣΙΡΟΠΟΥΛΟΣ, Δ. ΡΑΧΩΒΙΤΣΑΣ, Ι. ΚΩΝΣΤΑΝΤΙΝΙΔΗΣ, Κ. ΜΑΡΚΟΥ, Σ. ΤΡΙΑΡΙΔΗΣ, Β. ΒΙΤΑΛ**  
**Α' ΩΡΛ Κλινική Α.Π.Θ., Νοσοκομείο ΑΧΕΠΑ, Θεσσαλονίκη**

*Το κυστικό ύγρωμα είναι σπάνια συγγενής διαμαρτία του λεμφικού ιστού, η οποία είτε είναι εμφανής κατά τη γέννηση, είτε εκδηλώνεται κατά τη διάρκεια της ζωής, συννηθέστερα στην τραχηλοπροσωπική χώρα. Η κλινική εικόνα εξαρτάται από το μέγεθος και την εντόπιση. Ανάλογα με τη συμπτωματολογία, δύναται να αντιμετωπισθεί, είτε χειρουργικά, είτε συντηρητικά. Μετά από χειρουργική επέμβαση μπορεί να υποτροπιάσει, ενώ είναι δυνατή η εμφάνιση δεύτερου πρωτοπαθούς, εξαιτίας της μεταβολής της λεμφικής αποχέτευσης. Για το λόγο αυτό απαιτείται παρακολούθηση επί μακρόν μετεγχειρητικά.*

*Ασθενής 3 ετών υπεβλήθη σε χειρουργική αφαίρεση πολυλοβωτού μορφώματος από την αριστερή πλάγια τραχηλική και υπογνάθιο χώρα, η ιστολογική εξέταση του οποίου ανέδειξε κυστικό ύγρωμα. Η επέμβαση ήταν εργώδης, καθώς η μάζα ήταν ευμεγέθης και συμπεφυμένη με δυσπρόσιτες ανατομικές δομές. Παρ' αυτά, η αφαίρεση ήταν πλήρης. Ένα χρόνο μετά, ο ασθενής υπεβλήθη σε νέα χειρουργική επέμβαση για την αφαίρεση τριών μορφωμάτων από την πρόσθια τραχηλική χώρα, η ιστολογική εξέταση των οποίων ανέδειξε επίσης κυστικά υγράματα.*

**Λέξεις κλειδιά:** συγγενείς διαμαρτίες, λεμφικό σύστημα, λεμφαγγείωμα, κυστικό ύγρωμα, διαμαρτίες λεμφικού συστήματος.

### Εισαγωγή

Το λεμφαγγείωμα αποτελεί συνήθως συγγενή διαμαρτία του λεμφικού συστήματος, ενώ περιγράφονται και επίκτητες μορφές. Διακρίνονται τρεις τύποι: το τριχοειδές ή απλό λεμφαγγείωμα, το σπραγγώδες λεμφαγγείωμα και το κυστικό ύγρωμα. Το τελευταίο χαρακτηρίζεται από την ανάπτυξη πολυλοβωτών κυστικών μαζών. Και οι τρεις μορφές θεωρούνται εκδηλώσεις της ίδιας νόσου, αφού μπορούν να συνυπάρχουν στην ίδια μάζα<sup>1</sup>. Η τελική ιστολογική μορφή φαίνεται ότι εξαρτάται από τη φύση των περιβαλλόντων ιστών<sup>1</sup>. Έτσι, τα κυστικά υγράματα αναπτύσσονται κυρίως μέσα σε χαλαρό ιστό όπου υπάρχει η δυνατότητα επέκτασης, όπως συμβαίνει στο οπίσθιο τραχηλικό τρίγωνο<sup>2</sup>. Οι άλλες μορφές λεμφαγγειωμάτων αναπτύσσονται και σε περιβάλλον με πυκνό-

τερο στρώμα<sup>2</sup>. Στην πλειοψηφία τους είναι εμφανή κατά τη γέννηση ή εκδηλώνονται στα πρώτα χρόνια της ζωής. Στους ενήλικες είναι σπάνια. Εντοπίζονται κυρίως στην περιοχή κεφαλής και τραχήλου. Η αντιμετώπιση μπορεί να είναι συντηρητική ή χειρουργική.

### Παρουσίαση περιστατικού

Ασθενής 3 ετών εισήχθη στην Πανεπιστημιακή Ωτορινολαρυγγολογική Κλινική του Νοσοκομείου ΑΧΕΠΑ Θεσσαλονίκης με διόγκωση στην αριστερή τραχηλική και υπογνάθιο χώρα, η οποία, σύμφωνα με το ιστορικό, εμφανίστηκε μετά από λοίμωξη του ανώτερου αναπνευστικού (εικόνα 1). Κατά τη φυσική εξέταση, ο ασθενής είχε άριστη γενική κατάσταση, η δε τραχηλική διόγκωση ήταν μαλακή και ανώδυνη στην ψηλάφηση. Τα αποτελέσματα του γενικού αιματολογικού και

βιοχημικού ελέγχου ήταν φυσιολογικά. Οι δείκτες φλεγμονής και ο ορολογικός έλεγχος με Vidal, Wright, ASTO, Toxoplasma, CMV και EBV ήταν αρνητικοί, όπως επίσης και η δοκιμασία Mantoux. Ο απεικονιστικός έλεγχος με υπερηχογράφημα (U/S) και μαγνητική τομογραφία (MRI) τραχήλου έδειξε ένα πολύχωρο κυστικό μόρφωμα με λοβωτά και σαφή όρια στην αριστερή πλάγια τραχηλική χώρα, το οποίο επεκτεινόταν επί τα εντός της παρωτίδας στο σύστοιχο παραφαρυγγικό χώρο. Προς τα άνω ανερχόταν στο ύψος της υπερώας και προς τα κάτω κατερχόταν σε επίπεδο κάτωθεν του υοειδούς οστού φθάνοντας μπροστά στη μέση γραμμή (εικόνα 2).

Τα μορφολογικά χαρακτηριστικά και το σήμα της MRI ήταν συμβατά με λεμφαγγείωμα. Διογκωμένοι λεμφαδένες ανευρέθηκαν στην υπογνάθιο χώρα, ▶



**Εικόνα 1.** Μαλθακή και ανώδυνη τραχηλική διόγκωση στην αριστερή τραχηλική και υπογνάθιο χώρα σε ασθενή 3 ετών.

στο κεφαλικό τμήμα της έσω σφαγιτίδας και στο οπίσθιο τραχηλικό τρίγωνο. Ο ασθενής υπεβλήθη σε χειρουργική αφαίρεση του μορφώματος υπό γενική αναισθησία. Διεχειρητικά διαπιστώθηκε η στενή σχέση του μορφώματος με τον υπογνάθιο σιελογόνο αδένα, ενώ ο άνω λοβός του, εν τω βάθει και άνω, ερχόταν σε σχέση με την παρωτίδα, πράγμα που κατέστησε αναγκαία την ανεύρεση του προσωπικού νεύρου με τυπική προσπέλαση. Η παρασκευή του μορφώματος ήταν εργώδης και η μάζα αποκολλήθηκε από τη γωνία της κάτω γνάθου με συναφαίρεση τμήματος της παρωτίδας και από τη βάση της γλώσσας. Η αφαίρεση ήταν πλήρης χωρίς ενδείξεις υπολειμματικής νόσου. Δεν υπήρξαν επιπλοκές και η ανάρρωση του ασθενούς ήταν ταχεία. Η ιστολογική εξέταση του μορφώματος πιστοποίησε τη διάγνωση του κυστικού υγρώματος.

Ένα χρόνο αργότερα, ο ασθενής εμφάνισε δύο μικρές διογκώσεις στη μέση γραμμή υπερωοειδικά και στην υπογενειδίο χώρα. Διεχειρητικά διαπιστώθηκε τελικά η ύπαρξη τριών μορφωμάτων, η ιστολογική εξέταση των οποίων ανέδειξε και πάλι λεμφαγγειώματα με χαρακτηριστικές κυστικού υγρώματος.

### Συζήτηση

Το κυστικό υγρωμα αποτελεί το συ-

χνότερο τύπο λεμφαγγειώματος. Πρόκειται για σπάνια συγγενή διαμαρτία του λεμφικού ιστού που οδηγεί σε ανώμαλη λεμφική ανάπτυξη. Χαρακτηρίζεται από την παρουσία διατεταμένων κύστεων, οι οποίες δημιουργούν πολυλοβωτές μάζες. Οι κύστες μπορεί να επικοινωνούν μεταξύ τους ή να είναι ανεξάρτητες<sup>3</sup>. Η επίπτωση του κυστικού υγρώματος στη μελέτη των Filston και συν. κυμαίνεται από 1,2-2,8 ανά 1000 άτομα<sup>4</sup>. Το 80-90% των κυστικών υγρωμάτων διαγιγνώσκονται πριν τη συμπλήρωση των 2 ετών, ενώ 2 στα 3 είναι εμφανή κατά τη γέννηση<sup>3,5</sup>. Δεν υπάρχει υπεροχή ως προς το φύλο. Στα παιδιά ο τράχηλος αποτελεί τη συχνότερη θέση εντόπισης, με δεύτερη συχνότερη τη στοματική κοιλότητα<sup>6</sup>. Στους ενήλικες είναι γενικά σπάνιο και εντοπίζεται κυρίως στην υπογενειδίο, στην υπογνάθιο και στην παρωτιδική χώρα<sup>6</sup>. Άλλες εντοπίσεις αφορούν στη μασχάλη, το μεσοθωράκιο, το θωρακικό και κοιλιακό τοίχωμα, την περιτοναϊκή κοιλότητα, τον οπισθοπεριτοναϊκό χώρο, το όσχεο, το μηρό, ακόμα και το σκελετό<sup>2,6</sup>. Δύο θεωρίες έχουν διατυπωθεί για την ανάπτυξη των κυστικών υγρωμάτων<sup>6</sup>. Σύμφωνα με την πρώτη θεωρία, οφείλονται σε πρόωρη απομόνωση λεμφικού ιστού που προήλθε από τμήματα των αρχέγονων λεμφικών σάκων, ο οποίος διατηρεί την ικανότη-

τα για ταχεία ανάπτυξη, έχοντας όμως χάσει τη συνέχεια με το φυσιολογικό λεμφικό ιστό. Η δεύτερη θεωρία αποδίδει τη δημιουργία του σε αποτυχία του σφαγιτιδικού λεμφικού σάκου να εκβάλει στην έσω σφαγιτίδα, με αποτέλεσμα τη δημιουργία συγγενούς απόφραξης της λεμφικής αποχέτευσης. Στη βιβλιογραφία περιγράφονται και περιπτώσεις ασθενών, στις οποίες πιθανολογούνται επίκτητα αίτια, όπως ιατρογενή, τραύματα, λοιμώξεις και νεοπλασίες<sup>2,7</sup>. Οι περιπτώσεις αυτές ίσως να εξηγούν την εμφάνιση των λεμφαγγειωμάτων στην ενήλικη ζωή. Συσχέτιση υπάρχει με διάφορα σύνδρομα, όπως Turner, Down και άλλες τρισωμίες, ενώ έχει περιγραφεί η σχέση τους με το σύνδρομο Noonan και την αχονδροπλασία<sup>5,8</sup>.

Η κλινική εικόνα εξαρτάται από το μέγεθος και την εντόπιση. Στην πλειονότητά τους τα κυστικά υγρώματα είναι ασυμπτωματικά. Συνήθως εκδηλώνονται ως μαλθακές, ανώδυνες διογκώσεις στην πλάγια τραχηλική και κατώτερη προσωπική χώρα κατά τη γέννηση ή λίγο μετά. Η μάζα δύναται να προσβάλλει την παρειά, την παρωτίδα, τη βάση της γλώσσας, ακόμα και τον έξω ακουστικό πόρο, ενώ μπορεί να επεκτείνεται προς τα άνω στη βάση του κρανίου και προς τα κάτω στη μασχάλη και το θώρακα. Ευμεγέθεις μάζες περνούν τη μέση γραμμή. Η πίεση της τραχείας είναι δυνατό να προκαλέσει δύσπνοια, ενώ η πίεση του φάρυγγα και του οισοφάγου εκδηλώνεται με δυσφαγία<sup>5</sup>.

Πίεση του βραχιονίου πλέγματος προκαλεί άλγος και αισθητικές διαταραχές. Το κυστικό υγρωμα γενικά αυξάνεται αργά σε μέγεθος. Απότομη αύξηση μπορεί να συμβεί εξαιτίας αιμορραγίας, τραύματος ή ιογενούς λοίμωξης. Υποτροπή δύναται να συμβεί στην ενήλικη ζωή μετά από επέμβαση στη βρεφική ηλικία. Οι υποτροπές γενικά συμβαίνουν στην περιφέρεια της περιοχής, στην οποία αναπτύχθηκε ο αρχικός όγκος<sup>3</sup>.

Η κλινική εικόνα, σε συνδυασμό με την κλινική υποψία και τον απεικονιστικό έλεγχο βοηθούν στη διάγνωση, η οποία τεκμηριώνεται ιστολογικά. Απεικονιστικά, το U/S θα αναδείξει πολυλοβώδεις κυστικές μάζες με διαφραγμά-





**Εικόνα 2.** Απεικονιστικός έλεγχος με MRI σε στεφανιαία (α), οβελιαία (β) και αξονική τομή (γ) που δείχνει ένα πολύχρωμο κυστικό μόρφωμα με λοβωτά και σαφή όρια στην αριστερή πλάγια τραχηλική χώρα, το οποίο επεκτείνεται επί τα εντός της παρωτίδας στο σύστοικο παραφαρυγγικό χώρο.

τια ποικίλου πάχους. Υδρο-υδρικά επίπεδα είναι δυνατό να παρατηρηθούν όταν το περιεχόμενο είναι αιμορραγικό. Η αξονική τομογραφία (CT) επίσης θα αναδείξει πολυλοβώδεις μάζες με ομοιογενές περιεχόμενο. Καταλληλότερη εξέταση για τη διερεύνηση της σχέσης με τους γύρω ιστούς είναι η MRI, στην οποία οι μάζες εμφανίζουν χαμηλό σήμα στην T1 ακολουθία και υψηλό σήμα στην T2<sup>6</sup>. Σε περίπτωση αιμορραγίας θα απεικονισθεί υδρο-υδρικό επίπεδο. Υψηλό σήμα στην T1 ακολουθία θα δώσει η παρουσία πήγματος στην κύστη<sup>6</sup>. Διάγνωση είναι δυνατό να γίνει κατά την ενδομήτριο ζωή με διακολπικό υπερηχογράφημα, οπότε η αντιμετώπιση εξαρτάται από την παρουσία ή όχι διαφόρων προγνωστικών παραγόντων, όπως χρωμοσωμικές ανωμαλίες, συγγενείς διαμαρτίες ή εμβρυϊκός ύδρωπας<sup>9</sup>.

Ιστολογικά, οι κυστικές μάζες επαλείφονται από μία στιβάδα αποπλατυσμένου ενδοθηλίου με εμβρυϊκό λίπος και κρυστάλλους χοληστερόλης<sup>3</sup>. Μπορεί να φέρουν λεμφικό ιστό, μυϊκές ίνες, αγγεία ή περιτονία<sup>8</sup>. Περιέχουν ορώδες υγρό, διαυγές έως ερυθρό, στο οποίο μπορεί να υπάρχουν κύτταρα<sup>8</sup>. Η διαφορική διάγνωση περιλαμβάνει: βραγχιακές κύστεις, αιμαγγειώματα, κύστεις θυρεογλωσσικού πόρου, λαρυγγοκήλες, θυρεοειδικές μάζες και λιπώματα<sup>2,7</sup>.

Η κύρια αντιμετώπιση του κυστικού υγρώματος είναι η χειρουργική αφαίρεση και θα πρέπει να πραγματοποιείται, αφού πρώτα έχει προηγηθεί απεικονιστικός έλεγχος για πιθανή επέκταση στο μεσοθωράκιο<sup>3</sup>. Η πλήρης εκτομή μπορεί να είναι δύσκολη έως αδύνατη εάν η μάζα είναι ευμεγέθης και γειτνιάζει με σημαντικές δομές. Η επιτυχία της επέμβασης εξαρτάται κατά κύριο λόγο από την εντόπιση και το μέγεθος της αλλοίωσης<sup>2,10</sup>.

Οι Charabi και συν., το 2000, δημοσίευσαν τα αποτελέσματα

μακράς παρακολούθησης 44 ασθενών, αναδεικνύοντας τη στενή σχέση μεταξύ της έκτασης του κυστικού υγρώματος και α) του αριθμού επεμβάσεων και

β) του ποσοστού υποτροπών ή υπολειμματικής νόσου<sup>10</sup>.

Επίσης, παρατήρησαν ότι οι υποτροπές ή η υπολειμματική νόσος ήταν συχνότερες στις υπερουοειδικές μάζες σε σχέση με τις υποουοειδικές. Παρόμοια αποτελέσματα ανακοίνωσαν και οι Kennedy και συν. το 2001, σε μια αναδρομική μελέτη<sup>2</sup>. Φτωχότερα αποτελέσματα είχαν ασθενείς με αλλοιώσεις που εντοπιζόνταν σε πολλαπλές περιοχές της ανώτερης τραχηλικής χώρας<sup>2</sup>. Οι Riechelmann και συν., το 1999, σε μια αναδρομική μελέτη αξιολόγησαν τα αποτελέσματα των διαφόρων χειρουργικών επεμβάσεων, ως προς τη ριζικότητά τους στην αντιμετώπιση των τραχηλοπροσωπικών λεμφαγγειωμάτων, αναδεικνύοντας την πλήρη αναποτελεσματικότητα της απλής παροχέτευσής τους<sup>11</sup>. Οι συγγραφείς σημειώνουν ότι η παραμονή μικρών τμημάτων κυστικού τοιχώματος πάνω σε δομές ζωτικής σημασίας είναι αποδεκτή και συνδέεται με εξαιρετικά αποτελέσματα. Η ακτινοθεραπεία ως μέθοδος αντιμετώπισης δε συνιστάται, εξαιτίας της ανεπιθύμητης δράσης της στην ανάπτυξη των τοπικών δομών, καθώς και της πιθανότητας ανάπτυξης κακοήθειας<sup>3</sup>.

Πλούσια βιβλιογραφία υποστηρίζει την έγχυση σκληρυντικών ουσιών στις περιπτώσεις ασυμπτωματικών κυστικών υγρωμάτων, κυρίως στη βρεφική και νηπιακή ηλικία, αλλά και στους ενήλικες. Διάφορες ουσίες, όπως τριαμινολόνη, κόλλα ινικής, τετρακυκλίνη, δοξκυκλίνη, μπλομοκίνη, αλκοόλη και πιο πρόσφατα OK-432 (πισιμπανίλη) έχουν χρησιμοποιηθεί<sup>12,13,14,15,16,17</sup>. Η OK-432 έχει χρησιμοποιηθεί και για την ενδομήτρια αντιμετώπιση κυστικών υγρωμάτων σε επιλεγμένα έμβρυα<sup>9,18</sup>. Οι Watarai και συν.,

το 1996, ανακοίνωσαν την πρώτη τέτοια περίπτωση<sup>18</sup>.

Επαναλαμβανόμενες παρακεντήσεις γίνονται σε περίπτωση ταχείας αύξησης της μάζας και ανάπτυξης πειστικών φαινομένων<sup>3</sup>. Ωστόσο, υφίσταται ο κίνδυνος επιμόλυνσης και πιθανά αιμορραγίας. Οι Bureza και συν., το 2006, ανακοίνωσαν την τριαντάχρονη εμπειρία τους στην αντιμετώπιση των κυστικών υγρωμάτων με απλή παρακέντηση<sup>8</sup>. Οι συγγραφείς τονίζουν την ασφάλεια, αποτελεσματικότητα και αξιοπιστία της μεθόδου. Στον αντίποδα βρίσκεται η άποψη ότι η πολυκυστική φύση των κυστικών υγρωμάτων καθιστά την ίαση με παρακεντήσεις δύσκολη. Για τον ίδιο λόγο δέχεται κριτική και η έγχυση σκληρυντικών ουσιών.

Η αυτόματη υποστροφή είναι ένα φαινόμενο που περιγράφεται στη βιβλιογραφία, αν και δεν τυγχάνει γενικής αποδοχής. Η ιδιότητα αυτή των κυστικών υγρωμάτων οδηγεί ορισμένους κλινικούς στο να τηρούν στάση αναμονής στις περιπτώσεις που αυτά είναι ασυμπτωματικά<sup>2</sup>.

Στην περίπτωση του ασθενούς μας, η χειρουργική επέμβαση κατά την πρώτη του εμφάνιση ήταν ριζική χωρίς εμφανή υπολειμματική νόσο. Η επανεμφάνισή του, ένα χρόνο μετά, με ίδια παθολογία στην πρόσθια τραχηλική χώρα εγείρει το ερώτημα εάν αυτή ήταν υποτροπή/υπολειμματική νόσος ή δεύτερη πρωτοπαθής εντόπιση. Είναι γεγονός ότι η θέση στην οποία αναπτύχθηκε η δεύτερη αλλοίωση γεινιάζει με την αρχική. Θα μπορούσε επομένως να θεωρηθεί υποτροπή, αφού αυτή γενικά αναπτύσσεται στην περιφέρεια της αρχικής αλλοίωσης.

Ωστόσο, η ευκολία πρόσβασης, σε συνδυασμό με την απουσία σημαντικών δομών στην πρόσθια τραχηλική χώρα καθιστούν απίθανη την παραμονή υπολειμματικής νόσου στην περιοχή. Αυτή θα ήταν σαφώς πιθανότερη σε περιοχές στις οποίες εντοπίζονται ζωτικές δομές, όταν η αποκόλληση από αυτές είναι δυσχερής, όπως π.χ. τα μεγάλα αγγεία στον ανώτερο τράχηλο και η βάση της γλώσσας ή σε περιοχές οι οποίες είναι δυσπρόσιτες, όπως η βάση κρανίου. Η ιστοπαθολογική δε εξέταση υποστη-

ρίζει την άποψη αυτή, πιστοποιώντας την πλήρη αφαίρεση του όγκου στην πρώτη επέμβαση. Παθοφυσιολογικά, η αφαίρεση του αρχικού όγκου και η προκαλούμενη μεταβολή της λεμφικής αποχέτευσης στην περιοχή θα μπορούσαν να είναι το αίτιο διόγκωσης απομονωμένων λεμφικών σάκων και εκδήλωσης ενός ή περισσότερων κυστικών υγρωμάτων.

## Συμπέρασμα

Το κυστικό ύγρωμα είναι σπάνια συγγενής διαμαρτία του λεμφικού ιστού. Η ολική αφαίρεση ευμεγέθων κυστικών υγρωμάτων είναι δύσκολη, με αποτέλεσμα την εκδήλωση υποτροπών κυρίως στην περιφέρεια της αρχικής αλλοίωσης. Ωστόσο, η μεταγενέστερη εκδήλωση λεμφαγγειώματος στην περιοχή του τραχήλου μπορεί να οφείλεται σε δεύτερη πρωτοπαθή εντόπιση, πιθανά εξαιτίας τροποποίησης της λεμφικής αποχέτευσης της περιοχής. Η αντιμετώπιση απαιτεί μακροχρόνια παρακολούθηση των ασθενών, αφού υποτροπές ή δεύτερες πρωτοπαθείς εστίες μπορεί να εκδηλωθούν σε μακρό χρονικό διάστημα μετεγχειρητικά.

## Summary

### Second primary cystic hygroma of the neck

Tsiropoulos G, Rahovitsas D, Constantinidis J, Markou K, Triaridis S, Vital V. 1st Academic Otorhinolaryngology Department, AHEPA University Hospital, Thessaloniki, Greece

Cystic hygroma constitutes a rare congenital malformation of the lymphatic system which may be evident at birth or may develop later in life. It is usually located in the head and neck area. Clinical manifestations depend on the size and location of the lesion. Management may be surgical or conservative. Following surgery it may recur or second primary may develop due to alterations in lymph drainage. Long term follow-up is essential.

A three year-old boy underwent surgical excision of a multilobular lesion from the left submandibular and lateral neck area which turned out to be

cystic hygroma. The lesion was totally excised. A year later the child underwent second surgery. Three cystic lesions were excised from the anterior neck. Histological examination revealed cystic hygromas.

**Key words:** congenital disorder, lymphatic system, lymphangioma, cystic hygroma, lymphatic abnormalities.

## Βιβλιογραφία-References

1. Bill AH Jr, Summer DS. A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. *Surg Gynecol Obstet.* 1965; 120:79-86.
2. Kennedy TL, Whitaker M, Pellitteri P, Wood WE. Cystic hygroma/lymphangioma: a rational approach to management. *Laryngoscope.* 2001; 111(11 Pt1):1929-1937.
3. Maran AGD (1997) Benign diseases of the neck. In: Scott-Brown's Otolaryngology, vol 5, 6th edn. Butterworth-Heinemann, pp 5/16/11-5/16/13.
4. Filston HC. Hemangiomas, cystic hygromas and teratomas of the head and neck. *Semin Pediatr Surg.* 1994; 3(3):147-59.
5. Sannoh S, Quezada E, Merer DM, Moscatello A, Golombek SG. Cystic hygroma and potential airway obstruction in a newborn: a case report and review of the literature. *Cases J.* 2009; 2(1):48.
6. Koeller KK, Alamo L, Adair CF, Smirniotopoulos JG. Congenital cystic masses of the neck: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics.* 1999; 19(1):121-146.
7. Karkos PD, Spencer MG, Lee M, Hamid BN. Cervical cystic hygroma/lymphangioma: an acquired idiopathic late presentation. *J Laryngol Otol.* 2005; 119(7):561-563.
8. Bureza H, Williams B, Chitte SA. Management of cystic hygroma: 30 years experience. *J Craniofac Surg.* 2006; 17(4):815-818.
9. Ogita K, Suita S, Taguchi T, Yamanouchi T, Masumoto K, Tsukimori K, Nakano H. Outcome of fetal cystic hygroma and experience of intrauterine treatment. *Fetal Diagn Ther.* 2001; 16(2):105-10.
10. Charabi B, Bretlau P, Bille M, Holmelund M. Cystic hygroma of the head and neck—a long-term follow-up of 44 cases. *Acta Otolaryngol Suppl.* 2000; 543:248-50.
11. Riechelmann H, Muehlhaff G, Keck T, Mattfeldt T, Rettinger G. Total, subtotal, and partial surgical removal of cervicofacial lymphangiomas. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999; 125(6):643-648.
12. Farmand M., Kuttnerberger JJ. A new therapeutic concept for the treatment of cystic hygroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1996; 81(4):389-95.
13. Castañón M., Margarit J., Carrasco R., Vancells M., Albert A., Morales L. Long-term follow-up of nineteen cystic lymphangiomas treated with fibrin sealant. *J Pediatr Surg.* 1999; 34(8):1276-9.
14. Burrows PE, Mitri RK, Alomari A, Padua HM, Lord DJ, Sylvia MB, Fishman SJ, Mulliken JB. Percutaneous sclerotherapy of lymphatic malformations with doxycycline. *Lymphat Res Biol.* 2008; 6(3-4):209-216.
15. Knipping S, Goetze G, Neumann K, Bloching M. Sclerotherapy of cervical cysts with Picibanil (OK-432). *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2007; 264(4):423-7.
16. Woolley SL, Smith DR, Quine S. Adult cystic hygroma: successful use of OK-432 (Picibanil). *J Laryngol Otol.* 2008; 122(11):1260-4.
17. Laranne J, Keski-Nisula L, Rautiainen M, Airaksinen M. OK-432 (Picibanil) therapy for lymphangiomas in children. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2002; 259(5):274-78.
18. Watari H, Yamada H, Fujino T, Okuyama K, Sagawa T, Makinoda S, Fujimoto S. A case of intrauterine medical treatment for cystic hygroma. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 1996; 70(2):201-3.