

Brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom (Primer brankiyojenik karsinom)

Squamous cell carcinoma developed on the basis of branchial cyst (Primary branchiogenic carcinoma)

Mehmet Özgür Pınarbaşı*, Nurullah Türe*, Ercan Kaya*, Deniz Arık**, Melek Kezban Gürbüz*

* Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi KBB AD, Eskişehir

** Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji AD, Eskişehir

Özet

Brankiyal anomaliler boyun lateralinde en sık karşılaşılan konjenital boyun patolojileridir. Brankiyal anomaliler en sık kist şeklinde ortaya çıkarlar. En sık görüleni (%95) ikinci Brankiyal kleft kisti'dir. İkinci brankiyal kleft kistleri boyun lateral kısımda sternokleidomastoid kas ön kenarının derininde lokalize olur. BKK genellikle üst solunum yolu enfeksiyonu ataklarını takiben büyüme göstererek ağrısız, fluktuan boyun kitlesi olarak belirgin hale gelir. Genellikle benign lezyonlardır. Brankiyal kist üzerinde enfeksiyon gelişebildiği gibi, karsinom geliştiğine dair yayınlarda literatürde bulunmaktadır. Bizde bu makalemizde brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom olgusunu tartıştık. Bu karsinomun nereden köken aldığı konusunda patoloğlar tarafından kesin tanı konulabilmesi için yeni vaka zeminlerinde araştırılmasına ihtiyaç duyulmaktadır.

Pam Tıp Derg 2014;7(3):240-244

Anahtar sözcükler: Brankiyojenik karsinom, brankiyal kist, skuamöz hücreli karsinom.

Abstract

Branchial anomalies are the most common congenital neck pathologies in the lateral part of the neck. Branchial anomalies frequently appear in the cyst form. The most common type (95%) is the second branchial cleft cysts. Second branchial cleft cysts are localized in the deep anterior border of the sternocleidomastoid muscle in the lateral part of the neck. Branchial cleft cysts become apparent in a painless way, in the form of a fluctuant neck mass which usually grows after an upper respiratory tract infection. They are usually benign lesions. Just as infections may develop, publications can be found in the literature that carcinomas also develop on branchial cysts. In this article we discussed a squamous cell carcinoma case which developed on the basis of a branchial cyst. When investigating new cases, there is need for pathologists to make definitive diagnosis on the basis of where the carcinoma was derived from.

Pam Med J 2014;7(3):240-244

Key words: Branchiogenic carcinoma, branchial cyst, squamous cell carcinoma.

Giriş

Brankiyal anomaliler boyun lateralinde en sık karşılaşılan konjenital boyun patolojileridir [1]. Brankiyal anomaliler embriyonel gelişim sırasında brankiyal yarıkların anormal gelişimine bağlı meydana gelmektedir. Bir insanda iki taraflı beş tane brankiyal yarıklık, beş tane brankiyal kese ve altı tane brankiyal ark bulunur [1,2]. Birinci brankiyal yarıktan dış kulak yolu (DKY) meydana gelir. İkinci brankiyal ark hızla büyüyerek ikinci, üçüncü ve dördüncü

brankiyal yarıkları kapatır. Böylece ikinci, üçüncü ve dördüncü brankiyal yarıklar geçici olarak boşluk halini alırlar. Eğer bu boşluklar tam kapanmaz ise brankiyal anomaliler meydana gelir. Bu brankiyal anomaliler kist, sinüs ve fistül şeklinde olabilir [2]. Brankiyal anomaliler en sık kist şeklinde ortaya çıkarlar. En sık görüleni (%95) ikinci Brankiyal kleft kisti'dir [1].

İkinci brankiyal kleft kistleri boyun lateral kısımda sternokleidomastoid (SKM) kas ön kenarının derininde lokalize olur [1]. BKK

Mehmet Özgür Pınarbaşı

Yazışma Adresi: Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Kbb AD, Eskişehir

e-mail: ozgurpinarbasli@gmail.com

Gönderilme tarihi: 17.01.2014

Kabul tarihi: 19.03.2014

genellikle üst solunum yolu enfeksiyonu (ÜSYE) ataklarını takiben büyüme göstererek ağrısız, fluktuan boyun kitlesi olarak belirgin hale gelir [1,2]. Genellikle benign lezyonlardır. Doğumda var olabileceği gibi en sık olarak ikinci ve üçüncü dekatlarda klinik bulgu verir ve tedavisi total eksizyondur [2,3]. BKK tanısı genellikle bilgisayarlı tomografi (BT), ultrasonografi (USG) ve ince iğne aspirasyon biyopsisi (İİAB) ile konulur [1,2]. Ancak primer brankiojenik karsinom ya da baş boyun kanser metastazları yanlış tanıya neden olabilir [2,3].

Boyun lateral tarafında kitle ile gelen bir hastada, lenfadenit ve malign değişimlerin yanı sıra komplike olmuş veya olmamış brankiyal kist de düşünülmelidir. Brankiyal kist üzerinde enfeksiyon gelişebildiği gibi, karsinom geliştiğine dair yayınlarda literatürde bulunmaktadır [4–7].

Primer brankiojenik karsinomun varlığı tartışmalı olmasına karşın, 1950 yılında Martin ve ark [4]. primer brankiojenik karsinom tanısı için dört kriter belirlemişlerdir. 1989 yılında Khafif ve ark [8]. ilgili literatürü gözden geçirerek yeni değerlendirme kriterleri önermişler ve ek olarak bir kriter daha eklemişlerdir.

Bu kriterler şunları içermektedir:

1. Servikal tümörün Martin ve arkadaşları tarafından tanımlanan brankiyal yarık kisti veya sinüs bölgesinde olması
2. Brankiyal zeminden köken alan tümörün histolojik görünümü, skuamöz hücreli karsinom olması
3. Tanımlanabilen bir epitel kisti içinde karsinom varlığının gösterilmesi
4. Normal skuamöz epitelde kistik karsinoma geçiş alanının tanımlanması
5. Hastanın ayrıntılı değerlendirilmesinden sonra herhangi bir tanımlanabilir malign tümörü olmaması, 5 yıllık takibinde herhangi bir primer tümör gelişmemesi

Olgu Sunumu

64 yaşında erkek hasta yaklaşık 6 aydır olan boyun sağ tarafında şişlik nedeniyle hastanemize başvurdu. Yapılan dosya incelemesinde yaklaşık 7 yıl önce boyun sağından "Brankiyal kleft kisti" ön tanısıyla Genel Cerrahi Bölümü tarafından opere edildiği, postoperatif olarak patoloji raporunun "Brankiyal kist" olarak raporlandığı anlaşıldı. Daha sonraki yıllarda takibinde boyunda patolojisi olmayan hastanın son 6 aydır boyun sağ tarafında yine aynı lokalizasyonda şişlik meydana geldiği,

bu nedenle Genel cerrahi bölümüne tekrar başvurduğu ve kitleden insizyonel biyopsi yapıldığı anlaşıldı. Biyopsi sonucu "Skuamöz hücreli karsinom infiltrasyonu" gelmesi üzerine tarafımıza refere edildi. Tarafımızdan yapılan muayenede primer odak saptanmayan hastaya genel anestezi altında panendoskopi yapıldı. Nazofarenks, larenks ve dil kökünden alınan biyopsilerde histopatolojik olarak malignite gözlenmedi. Yapılan radyolojik incelemelerinde de [(Boyun-Toraks BT ve Pozitron emisyon tomografisi (PET BT))] primer odak saptanmayan hastada daha önceki "brankiyal kist" tanısında göz önüne alınarak "Brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom" olarak düşünüldü ve sağ radikal boyun diseksiyonu yapılmasına karar verildi.

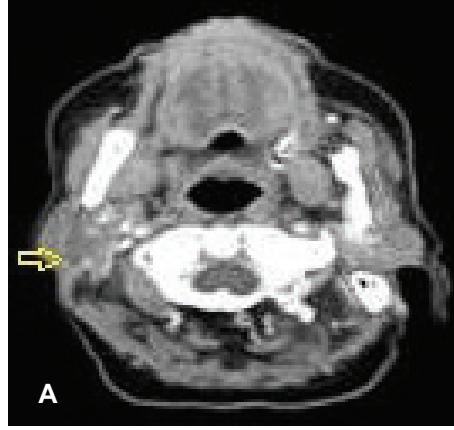
Özgeçmişinde son bir yıldır içmemesine rağmen 30 yıl günde bir paket sigara içimi mevcuttu. Alkol kullanımı olmayan hastada hipertansiyon ve kronik obstrüktif akciğer hastalığı vardı. KBB fizik muayenesinde boyun sağında 2., 3. ve 4. bölgeleri dolduran, yaklaşık 4x4 cm çapında sert, fikse kitlesi mevcuttu. Diğer KBB fizik muayene bulguları normaldi.

Hastanın çekilen preoperatif boyun BT'sinde; sağda sternokleidomastoid kasın süperiorunda posteromedial yerleşim gösteren SKM ile ara sınırlarının seçilemediği, 2.,3. ve 4. bölgelere uzanan, juguler veni basılayan, konglomerasyon gösteren, içerisinde kistik ve nekrotik alanlar bulunan yaklaşık 4x3 cm boyutunda kitlesel oluşum olduğu görüldü. (Şekil 1)

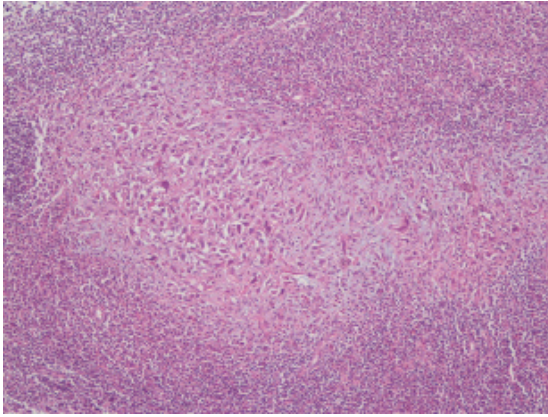
Hastanın primer tümöre yönelik olarak çekilen PET BT'sinde boyun sağında SUV_{Max} değeri 8.14 olan level III seviyesinde 5x3x2.5 cm boyutunda artmış metabolik aktivite gösteren konglomere lenf nodları ile uyumlu bulgular olarak raporlandı. Vücudun diğer bölgelerinde primer tümörü düşündürecek tutulum saptanmadı. Hastaya preoperatif hazırlığın ardından genel anestezi altında sağ radikal boyun diseksiyonu ve total kitle eksizyonu yapıldı.

Postoperatif patoloji sonucu "Fibromuskuler doku içerisinde az differansiye skuamöz hücreli karsinom" olarak raporlandı. (Şekil 2-6)

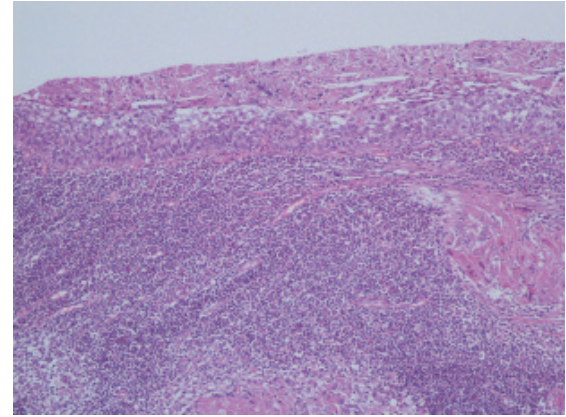
Hasta postoperatif dönemde sorunsuz takip edildi ve radyoterapi alması açısından radyasyon onkolojisine refere edildi.



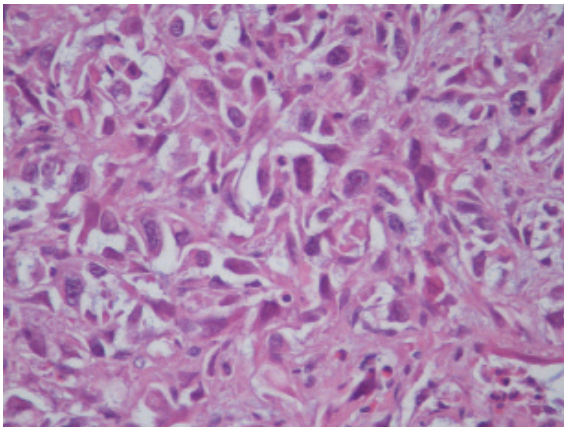
Şekil 1. Kontrastlı aksiyel kesitte boyun tomografisi sağda SKM kasın süperiorunda posteromedial yerleşim gösteren SKM ile ara sınırlarının seçilemediği, 2.,3. ve 4. bölgelere uzanan, juguler veni basılayan, konglomerasyon gösteren, içerisinde kistik ve nekrotik alanlar bulunan yaklaşık 4x3 cm boyutunda kitlesel oluşum (ok).



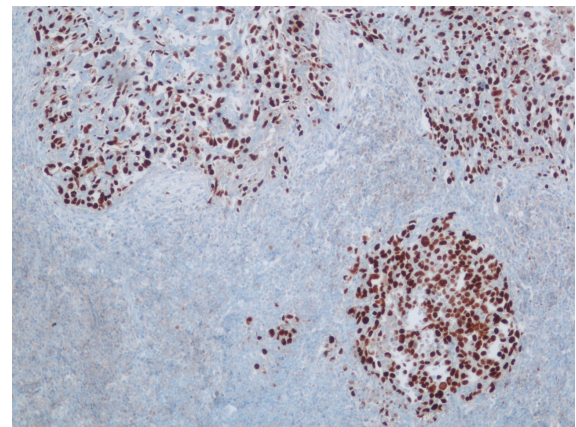
Şekil 2. Lenfoid doku içinde desmoplastik stromada pleomorfik hücrelerden oluşan tümör dokusu (HE x 100)



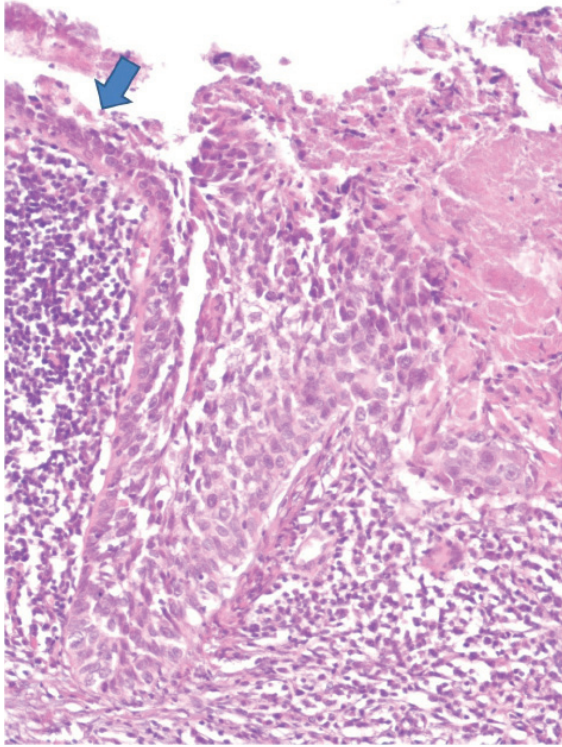
Şekil 3. Kistik yapının epitelinde polarite kaybı ve pleomorfizm (HE x 100)



Şekil 4. İri-hiperkromatik nükleuslu, eozinoflik sitoplazmalı atipik hücreler (HE x 400)



Şekil 5. Tümöral hücrelerde kuvvetli p63 pozitifliği (p63 x 100)



Şekil 6. Solda, kiste ait displazi içermeyen çok katlı yassı epitel (ok) ile şiddetli displazi içeren tümöral epitel (sağ taraf) geçisi izlenmektedir (HE x 200).

Tartışma

Brankiyal anomaliler embriyonel gelişim sırasında brankiyal yarıkların anormal gelişimine bağlı meydana gelmektedir [1,9]. Brankiyal yarıktaki klinik olarak, pürüzsüz, yumuşak, oval, kistik kitleler şeklinde görülür ve mandibula köşesinin altından başlayıp SKM ön kısmına değin uzanırlar [10].

Brankiyal kistlerin yüzeyi genellikle skuamöz epitel ile kaplıdır. Kistin yüzeyini döşeyen skuamöz epitelten karsinom gelişme olasılığı bulunmaktadır [4,5,8]. İlgili literatürler incelendiğinde brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom nadir olmakla birlikte patolojik olarak zor tanı konması ve ekartasyon tanısı nedeni ile klinisyenleri ve patolojileri zorlamaktadır [7,11].

Asıl tartışma, bu karsinomun nereden köken aldığı konusunda ortaya çıkar. Metastatik skuamöz hücreli karsinomun insidansı brankiyojenik karsinoma göre daha yüksek olduğundan servikal boyun kitlelerine yaklaşımda gözden kaçırılmamalıdır [5,6,8,10]. Juguler lenfatikler ve majör brankiyal kistler çoğunlukla aynı lokalizasyonda görülür. Barbara AJ ve arkadaşlarının [12] yayınladıkları literatür karşılaştırılması çalışmasında brankiyojenik

karsinomun varlığına şüpheli yaklaşılmıştır. Bu malignitenin varlığı klinikopatolojik yaklaşımdan ziyade kavramsal ve afakidir, literatürde bildirilen bazı vakalarda primer brankiyojenik karsinomlu vakaların primeri bilinmeyen boyun metastazlarından ayırımı için yeterli kanıt sağlanamadığını belirtmişlerdir. Russell DB ve arkadaşlarının [13] yaptığı çalışmada brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom varlığında, yaklaşım primeri bilinmeyen baş ve boyun malignitelerine benzer nitelikte olmalı, çoğu vakada brankiyojenik karsinomun muhtemel baş ve boyundan kaynaklanan karsinomun kistik metastazı olabileceğini vurgulamıştır.

Histolojik olarak brankiyal yarıktaki kisti karsinomunu metastatik servikal lenf nodundan ayırt etmek zordur. Bu nedenle Martin ve arkadaşları ile Khaffif ve arkadaşları brankiyal yarıktaki kisti karsinomunu tanı için katı kurallar ortaya koymuşlardır [4,8]. Lin YC ve ark. [14]'nin yapmış olduğu çalışmada 1950 yılından itibaren 2003 yılına kadar sadece 20 vakanın Khaffif'in [8] oluşturduğu kriterleri taşıdıklarını belirtmişlerdir. Geçiş zemininde görülmesinin nadirliği brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom tanı güçlüğüne oluşturmada olduğunu söylemişlerdir. Vakamızın spesmeninde kiste ait displazi içermeyen çok katlı yassı epitel ile şiddetli displazi içeren tümöral epitel geçisi izlenmektedir.

Bizim vakamızda da hastanın yaklaşık 7 yıl önce boyun sağ tarafında oluşan şişlik nedeni ile yapılan boyun ultrasonografisinde brankiyal kleft kisti ile uyumlu gelmesi üzerine kist eksizyonu yapılmış olması, hastanın postoperatif patolojisi brankiyal kleft kisti ile uyumlu olarak raporlanması, son 6 aydır tekrar boyun sağ tarafında aynı lokalizasyonda kitlenin oluşması, nazofarenks, larenks ve dil kökünden alınan biyopsilerin sonucu "malignite negatif" olarak raporlanması, yapılan radyolojik incelemelerinde de (Boyun-Toraks BT ve PET BT) diğer bir primer odak saptanmaması hastada daha önceki "brankiyal kist" tanısında göz önüne alındığında "Brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom" olarak düşünmemize yol açtı. Hastamızın bulguları Martin ve ark [4]. yayınlamış oldukları kriterleri karşılamakla beraber sadece 5 yıllık takibi yapılamamıştır.

Girvigian MR ve ark. [15] ile Chauhan A ve ark. [16] yayınladıkları brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom olgularında da bizim vakamızda olduğu gibi

vakalara panendoskopik biyopsi yapılması, PET BT çekilmesi söylenmiş, hastalara geniş cerrahi eksizyon(boyun diseksiyonu) ve postoperatif radyoterapi uygulamışlardır. Devaney KO ve ark. [17] nın yayınladıkları makalede primer brankiyojenik karsinom tanısına aşırı kuşkuyla yaklaşılması gerektiği ve tanı konulmadan önce görüntüleme, panendoskopi ve elektif tonsillektomi yapılması gerektiğini belirtmişlerdir. Katori H ve ark. [18] makalesinde ise brankiyojenik karsinom nedeni ile hastaya kitle eksizyonu ve radikal boyun diseksiyonu yapıldığı, hastanın postoperatif dönemde kemoradyoterapi ile 62 aylık takiplerinde herhangi bir karsinom nüksüne rastlanmadığı, adjuvan RT ile eş zamanlı kombine olarak uygulanan karboplatin ve 5-fluorourasil kemoterapisi güvenli ve iyi tolere edilebilen tedavi seçeneğini oluşturduğunu belirtmişlerdir. Kistik kitlesi olan ve skuamöz hücreli karsinom olasılıkla brankiyojenik kökenli olması durumunda kitlenin total eksizyonu ve postoperatif dönemde radyoterapi alması literatür tarafından desteklenmektedir [7]. Bizde hastamıza sağ radikal boyun diseksiyonu ve postoperatif RT uyguladık. Takiplerinde hastalık nüksü açısından henüz 5 yıllık takibi yapılamamıştır.

Sonuç olarak; incelenen bu literatürler ışığında brankiyal kist zemininde gelişen skuamöz hücreli karsinom tanısına kuşkuyla yaklaşılmalı, primer tümör odağı araştırılmasında görüntüleme yöntemlerinin yanı sıra panendoskopik biyopsilerinde uygulanması gerektiğini düşünmekteyiz. Bu karsinomun nereden köken aldığı konusunda patoloğlar tarafından kesin tanı konulabilmesi için yeni vaka zeminlerinde araştırılmasına ihtiyaç duyulmaktadır.

Çıkar İlişkisi: Yazarlar çıkar ilişkisi olmadığını beyan eder.

Kaynaklar

1. Koç C. Kulak burun boğaz hastalıkları ve baş-boyun cerrahisi. Ankara: Güneş Kitabevi, 2004;891.
2. Hart C, Opperman D, Gulbahce E, Adams G. Branchial cleft cyst: a rare diagnosis in a 91-year-old patient. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;135:955-977
3. Kim MG, Lee NH, Ban JH, Lee KC, Jin SM, Lee SH. Sclerotherapy of branchial cleft cyst using OK-432. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;141:329-334.
4. Martin H, Moffit M, Ehrlich H. The case for branchiogenic cancer (malignant branchioma). *Ann Surg* 1950;132:867-887.
5. Tsuchida Y, Fukuda O, Arai E. A case of primary branchiogenic carcinoma. *Ann Plast Surg* 1997;38:439-440.
6. Micheau C, Klijanienko J, Luboinski B, Richard J. So-called branchiogenic carcinoma is actually cystic metastases in the neck from a tonsillar primary. *Laryngoscope*.1990;100:878-883.
7. Maturo SC, Michaelson PG, Faulkner JA. Primary branchiogenic carcinoma: the confusion continues. *Am J Otolaryngol* 2007;28:25-27.
8. Khafif R, Prichep R, Minkowitz S. Primary branchiogenic carcinoma. *Head&Neck* 1989;11:153-163.
9. Agaton-Bonilla FC, Gay-Esconda C. Diagnosis and treatment of branchial cleft cyst and fistula:a retrospective study of 183 patients. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1996;25:449-452.
10. Bernstein BA, Scardino PT, Tomaszewski MM, Cohen MH. Carcinoma arising in a branchial cleft cyst. *Cancer* 1976;37:2417-2422.
11. Soh KB. Branchiogenic carcinomas: do they exist? *J R Coll Surg Edinb* 1998;43:1-5.
12. Jereczek-Fossa BA, Casadio C, Jassem J et al. Branchiogenic carcinoma-conceptual or true clinicopathological entity? *Cancer Treat Rev* 2005;31:106-114
13. Briggs RD, Pou AM, Schnadig VJ. Cystic metastasis versus branchial cleft carcinoma: a diagnostic challenge. *Laryngoscope* 2002;112:1010-1014.
14. Lin YC, Fang SY, Huang RH. Branchiogenic squamous cell carcinoma: a case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004;33:209-212.
15. Girvigian MR, Rechdouni AK, Zeger GD, Segall H, Rice DH, Petrovich Z. Squamous cell carcinoma arising in a second branchial cleft cyst. *Am J Clin Oncol* 2004;27:96-100.
16. Chauhan A, Tiwari S, Pathak N. Primary branchiogenic carcinoma: report of a case and a review of the literature. *J Cancer Res Ther* 2013;9:135-137.
17. Devaney KO, Rinaldo A, Ferlito A, et al. Squamous carcinoma arising in a branchial cleft cyst: Have you ever treated one? Will you? *J Laryngol Otol* 2008;122: 547-550.
18. Katori H, Nozawa A, Tsukuda M. Post-operative adjuvant chemoradiotherapy with carboplatin and 5-fluorouracil for primary branchiogenic carcinoma. *J Laryngol Otol* 2005;119:467-469.