

## Artículo Original

# *Fístula completa de la 2º hendidura branquial. A propósito de 1 caso y revisión de la literatura*

## *Complete 2<sup>nd</sup> branchial cleft fistula. Case report and review of the literature*

*Poletti Serafini D,<sup>1</sup> Filippini Peña J,<sup>2</sup> Arias Martínez J,<sup>3</sup> Quiroz Cabrera J,<sup>4</sup> Bock A,<sup>5</sup> Roig O JL.<sup>6</sup>*

*1 Auxiliar de la Enseñanza. Jefe de Residentes*

*2 Auxiliar de la Enseñanza*

*3 Auxiliar de la Enseñanza. Medico especialista Cirugía de Cabeza y Cuello.*

*4 Jefe de departamento Cirugía de Cabeza y Cuello*

*5 Residente*

*6 Jefe de Cátedra*

*Cátedra de Otorrinolaringología. Departamento de Cirugía de Cabeza y Cuello. Hospital de Clínicas. Facultad de Ciencias Médicas. Universidad Nacional de Asunción.*

### RESUMEN

Las anomalías de los remanentes branquiales constituyen patologías poco frecuentes siendo las de la 2da hendidura las mas frecuentes. Las fistulas completas son extremadamente raras y comunican la región lateral del cuello a la orofaringe. Se presentan como un orificio en la región lateral del cuello que ocasionalmente drena liquido, pudiendo este ser persistente. El tratamiento de elección es la resección quirúrgica. Presentamos un caso de fistula branquial completa analizando su presentación clínica y su tratamiento así como una revisión de la literatura.

### SUMMARY

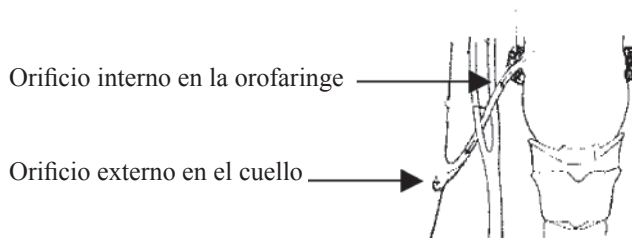
Second branchial cleft anomalies are pathologies quite rare, being the fistula the rarest within, They have two openings, one on the lateral side of the neck and the other in the oropharynx. They often present a continuous discharge through the opening in the neck. The surgical excision is the treatment of choice. We present a case of complete fistula of the second branchial cleft discussing the clinical featurig, the surgical treatment and outcome, and the review of the literature.

Key Words: Complete Branchial Fistula, Congenital Neck Alterations

### INTRODUCCIÓN

Entre las patologías congénitas de cabeza y cuello de tratamiento quirúrgico, las anomalías de los remanentes branquiales son poco frecuentes, siendo la de la 2da hendidura branquial la mas común. Estas pueden ser senos, quistes o fistulas. Entre estas, las fistulas completas (comunicación entre hendidura branquial y bolsa faríngea), son las mas raras, y se producen por el cierre incompleto del arco branquial durante el desarrollo embrionario.<sup>1,2</sup>

Generalmente se manifiestan como un orificio cutáneo puntiforme a nivel del borde anterior del músculo esternocleidomastoideo (ECM) entre el tercio medio e inferior, por donde drena un liquido claro, en edades tempranas, o ya en edad escolar como una tumoración que puede fluctuar con episodios de supuración y signos inflamatorios.<sup>1-4</sup>



**FIGURA 1:** Esquema del trayecto fistuloso y su relación con las arterias carótidas. Adaptado de Moi K. Lesiones cervicales de origen congénito en neonatos

La fistula puede describir un trayecto desde el orificio externo en la piel, transcurrir en la profundidad del cuello en íntima relación con estructuras nobles para finalizar en un orificio a nivel de la fosita supraamigdalina en la orofaringe. (ver Figura 1). Puede haber de 10 a 15 % de bilateralidad.

Los métodos diagnósticos de la misma incluyen la clínica, demostración de la fistula utilizando tinciones con Azul de Metileno o la fistulografía.<sup>1-4</sup> El tratamiento de elección lo constituye la resección quirúrgica completa, de ahí la importancia de conocer la anatomía posible del trayecto.

## PRESENTACIÓN DE CASO

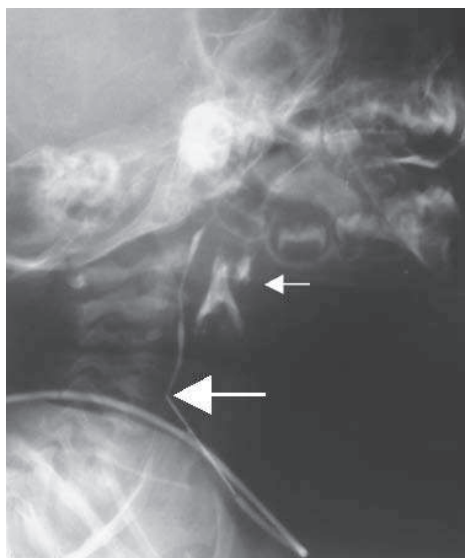
Paciente del sexo femenino de 3 años de edad, procedente del interior del país, con antecedente de tumoración lateral derecha del cuello desde el año de edad, con episodios de infección y supuración en varias oportunidades antes de la consulta a nuestro servicio.

Al examen físico se constató orificio fistuloso con cicatriz retráctil a nivel del tercio superior del músculo ECM derecho sin signos inflamatorios y sin adenopatías cervicales. Los estudios paraclínicos no evidenciaron alteraciones significativas. Se realizó fistulografía constatando extravasación de contraste en orofaringe. Ver Figura 2.

La paciente fue sometida a cirugía con el diagnóstico preoperatorio de fistula completa de la 2da hendidura branquial.

En el acto quirúrgico se realizó instilación por el orificio fistuloso de Azul de Metileno para guiar la disección, describiendo la fistula un trayecto con íntima relación alrededor de las siguientes estructuras del cuello: músculo ECM, carótida externa e interna, nervio hipogloso mayor, nervio glossofaríngeo, tendón intermedio del músculo digástrico, músculo estilofaríngeo y músculo constrictor medio de la faringe. (ver Figura 3)

Se constató la finalización de la fistula a nivel de la faringe, en la fosita supraamigdalina derecha, extrava-



**FIGURA 2.** Fistulografía. Se observa la instilación del contraste a nivel del cuello (flecha grande) y la extravasación del mismo en la orofaringe (flecha pequeña).



**FIGURA 3.** Trans-operatorio, disección del trayecto fistuloso



**FIGURA 4.** Pieza operatoria

sando la tinción, con lo que se confirmó el diagnóstico. En la Figura 3 se observa la pieza operatoria con sus 2 orificios, el cutáneo y el mucoso.

El estudio histopatológico informó trayecto fistuloso completo de piel a mucosa. La paciente con controles seriados tiene buena evolución no recidivando la patología hasta la fecha.

## DISCUSIÓN

Las fistulas completas de la 2da hendidura branquial constituyen anomalías del desarrollo embrionario poco frecuentes. Se manifiestan principalmente en la 1 y 2 décadas de la vida, como un orificio puntiforme en la región lateral del cuello. Según la literatura, la relación entre quistes y fistulas es de aproximadamente 8:1, presentándose reportes aislados de esta última.<sup>1-4</sup> En un estudio llevado a cabo en la clínica Mayo, los autores encontraron 25 % de incidencia de fistulas, mientras que Agaton et al encontraron 19 %.

En estudio retrospectivo sobre pacientes que consultaron por anomalías del 2º arco branquial desde 1948 a 1990 en el Hospital del Niño enfermo de Londres, de entre 106 pacientes, solo 2 casos correspondieron a fistula completa.<sup>2</sup>

Si bien la edad de presentación de nuestra paciente es menor con relación a los demás casos reportados en

la literatura, la clínica fue similar, manifestándose por un orificio puntiforme como un hoyuelo a nivel de la región lateral del cuello con episodios flogísticos.

Se pueden recurrir a métodos diagnósticos pre operatorios como la tinción del trayecto con azul de metileno, o una fistulografía, presentando generalmente falsos negativos por compresión del trayecto por los músculos adyacentes, secreción o tejido de granulación en el interior de la fistula.<sup>2-5</sup> Reportes recientes citan la utilización de ultrasonografía, tomografía computada y resonancia magnética nuclear como métodos auxiliares de diagnóstico.<sup>6-8</sup>

La importancia de identificar el trayecto fistuloso radica en conocer la anatomía posible puesto que el tratamiento de elección lo constituye la resección total del trayecto, mediante accesos combinados de ser necesarios y disección cuidadosa. La recurrencia de la lesión es muy baja, y generalmente relacionada con resecciones incompletas.<sup>1-2</sup>

Este constituye el 1er reporte a nivel nacional sobre una fistula completa de la 2da hendidura branquial, cuya presentación clínica, tratamiento y evolución son similares a los citados en la literatura mundial.

## BIBLIOGRAFÍA

---

1. Agaton-Bonilla FC, Gay-Escoda C. Diagnosis and treatment of branchial cleft cysts and fistulae. A retrospective study. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1996;25:449-52.
2. Hui-Chi Ang A, Pang KP, Kim-Siang Tan L. Complete Branchial Fistula. Case report and review of the literature. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2001;11: 1077-1079.
3. Moi K, Dinerstein NA, Spinelli S, Rittler M. Lesiones cervicales de origen embrionario en neonatos: Diagnósticos diferenciales y presentación de casos clínicos. *Rev Hosp Mat Inf Ramón Sardá.* 1996;15(3): 113-119.
4. Choo MJ, Kim YJ, Jin HP. A Case of Second Branchial Cleft Cyst with Oropharyngeal Presentation. *J Korean Med Sci.* 2002;17:564-566.
5. Jozsa T, Cserni T, Szikszay E, Csizy I, Olah E. Fetal Ex Ore. A Rare Presenting Symptom of a Complete Second Branchial Fistula. *Clin Pediatr.* 2004;43:473-474.
6. Ford GR, Balakrishnan A, Evans JNG, Bailey CM. Branchial cleft and pouch anomalies. *J Laryngol Otol.* 1992; 106:137-43
7. Agustine A, Pai RK, Govindarajan R. Clinics in Diagnostic Imaging. Branchial fistula. *Singapore Med J* 2001 Vol 42(10) : 494-495.
8. Ramirez Camacho R, Garcia-Berrocal J, Borrego P. Radiology Quiz Case 2: Second Branchial Cleft, Cyst and Fistula. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;197:1395-1396