

## GIANT RECURRENT CYSTIC HYGROMA: A CASE REPORT

### L'HYGROTE KYSTIQUE DE GRANDE TAILLE ET PERIODIQUE: UNE ETUDE DE CAS

Kamath BS, \*Chatterjee AS, Chandorkar I, Bhanushali H.

#### Abstract

Cystic hygroma is a benign lymphatic malformation most commonly occurring in the cervico-facial region. It arises from sequestered lymphatic sacs that fail to communicate with the lymphatico-venous system. Although commonly presenting in paediatric age, cystic hygroma can occur at any age. Recurrent cystic hygroma is a known entity and can result from inadequate excision or specific tumour characteristics. We report such a case of giant recurrent cystic hygroma in the neck in a 14 years old female the surgical management of which was challenging due to the large size, previous adhesions and proximity to vital structures.

**Key words:** Recurrent cystic hygroma, Large size, Surgical challenges, India.

#### RESUME

L'hygrote du kyste est une malformation lymphatique bénigne survenant le plus souvent dans la région cervico-faciale. Il découle des sacs lymphatiques séquestrés qui ne parviennent pas à se communiquer avec le système lymphatique-veineux. Bien que communément présente en âge pédiatrique, l'hygrote du kyste peut survenir à tout âge. L'hygrote du kyste récurrent est une entité connue et peut résulter de l'excision insuffisante ou les caractéristiques spécifiques de tumeurs. Nous rapportons un cas énorme de l'hygrote kystique récurrent dans le cou chez une femme âgée de 14 ans, la prise en charge chirurgicale de ce qui était difficile en raison de la grande taille des adhérences précédents et la proximité de structures vitales.

**Mots clés:** Hygrote du kyste récurrent, De grande taille, Les défauts chirurgicaux.

#### Case Report

A 14 years old female presented with swelling in right side of neck since birth. The swelling was gradually growing and painless with no compressive symptoms. Her only complaint of disfigurement made her visit a surgeon at the age of 10 years at a rural hospital, where it was diagnosed as cystic hygroma and subsequently operated. Four months following the surgery, the patient again developed swelling in the same region. The swelling gradually grew to attain the present size causing disfigurement without pain or compressive symptoms.

Kamath BS, \*Chatterjee AS, Chandorkar I, Bhanushali H.  
Seth V.C. Gandhi & M.A. Vora Municipal General Hospital, Rajawadi,  
Ghatkopar (E), Mumbai 400077, Maharashtra, India.  
E-mail: ambarish\_5@yahoo.com

\*Correspondence

Grant support: None  
Subvention: Aucun

Conflict of interest: None  
Conflit d'intérêts: Aucun

#### RAPPORT DE CAS

Une femme de 14 ans s'est présentée avec un gonflement du cou à droite depuis sa naissance. Le gonflement a été en augmentation progressive et indolore sans symptômes de compression. Sa seule plainte était la défiguration lors de sa visite chez un médecin à l'âge de 10 ans dans un hôpital rural, où elle a été diagnostiquée comme un hygrote kystique et exploitée ultérieurement. Quatre mois après la chirurgie, le patient a de nouveau développé un gonflement dans la même région. Le gonflement a progressivement augmenté pour atteindre la taille actuelle et a causé un défigement sans douleur ou des symptômes de compression.

A l'examen diagnostique, il y avait un gonflement kystique d'environ 20 x 15 cm, située dans le côté droit du cou s'étendant à partir de l'apophyse, le long de la branche de la

On examination, there was a cystic swelling of about 20 x 15 cm, situated in the right side of neck extending from mastoid process, along the ramus of mandible superiorly; to supraclavicular region inferiorly; anteriorly from the thyroid cartilage to midline posteriorly. The swelling was ill defined, smooth, cystic, fluctuant and transilluminant. The scar of previous incision and drain site was seen over the swelling. Trachea was deviated to opposite side. There were no signs of neurovascular deficit of the ipsilateral arm.

Routine blood investigations were normal. X-ray neck showed a soft tissue swelling on right side of the neck with tracheal deviation to the left. Contrast Enhanced Computed Tomography (CECT) of neck and chest was suggestive of ill-defined cystic lesion with multiple internal septations measuring 17.5 x 14 x 7.5 cm extending superiorly from level of right mastoid tip; inferiorly into the supraclavicular region; infero-medially small component into the pre-vertebral region from C7 to T2 level; anteriorly it was abutting the right angle of mandible and right submandibular gland; laterally it was extending through the intermuscular plane medial to right sternocleidomastoid muscle (SCM) and lateral to right paraspinal muscles. It was displacing the trachea and oesophagus to the left and indenting the apical pleura on the right. The mass displaced the right carotid artery antero-medially and right internal jugular vein (IJV) laterally causing its compression.

The neck was explored using a reverse 'J' shaped incision extending from right mastoid tip to middle one third of right SCM curving medially to cross the midline at the level of thyroid. After dividing the SCM for attaining wide exposure the cyst was found abutting the IJV and carotid artery which were carefully dissected away. The spinal accessory nerve and

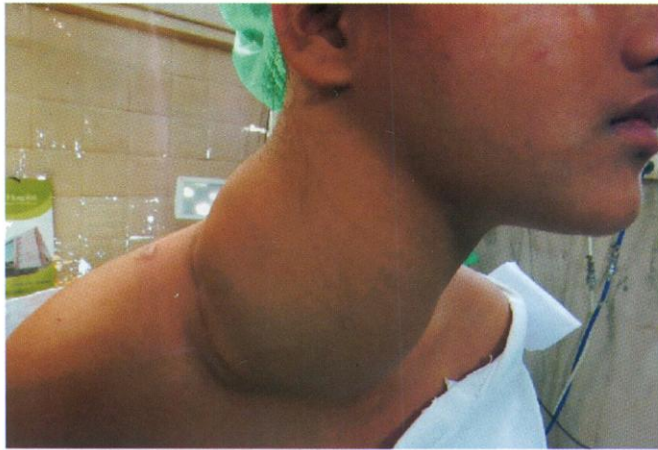
mandibule supérieure ; a la région sous-claviculaire en bas ; en avant du cartilage thyroïde a la ligne médiane postérieure. Le gonflement a été mal défini, lisse, kystique, fluctuant et transilluminant. La cicatrice du précédent site d'incision et le drain ont été vu sur le gonflement. La tranchée a été déviée vers le cote oppose. Il n'y avait pas de signes de déficit neurone-vasculaire du bras ipso-latéral.

Les enquêtes sanguines de routine étaient normales. Les rayons X de cou ont montre' un gonflement des tissus mous sur le cote' droit du cou avec une déviation de la tranchée vers la gauche. Une contraste améliorée tomодensitométrie (CATD) du cou et de la poitrine étaient un évocateur de lésion kystique mal défini avec plusieurs sputations internes de mesures 17,5 x 14 x 7,5 cm s'étendant supérieurement du niveau de la pointe de la mastoïde droite ; en bas dans la région sous-claviculaire ; inféro-médiale petit composant dans région pré-vertébrale de C7 de niveau T2 ; antérieurement c'était attenant a' l'angle droit de la glande sous-maxillaire droit de la mandibule. ; Latéralement il a été étendu a' travers le plan médian intermusculaire a' droite du muscle sterne (DMS) et latérale a' droite des muscles spinaux. C'était le déplacement de la tranchée et l'œsophage vers la gauche et en retrait de la plèvre apicale sur la droite. La masse déplaçait l'artère carotide droite en inter-externe et à droite la veine jugulaire interne (VJI) provoquant latéralement sa compression.

Le cou a été explore' en utilisant un inverse d'incision en forme de 'J' s'étendant de la pointe de la mastoïde droite a un tiers du milieu droit SMC courbant dedans pour traverser la ligne médiane au niveau de la thyroïde. Apres avoir divise' le SMC pour atteindre une large exposition, le kyste se retrouvait attenant à l'IJV et l'artère carotide

**Fig 1: Recurrent Cystic Hygroma on right side of neck**

**Fig 1: Hygrote kystique récurrent sur le cote' droit du cou**

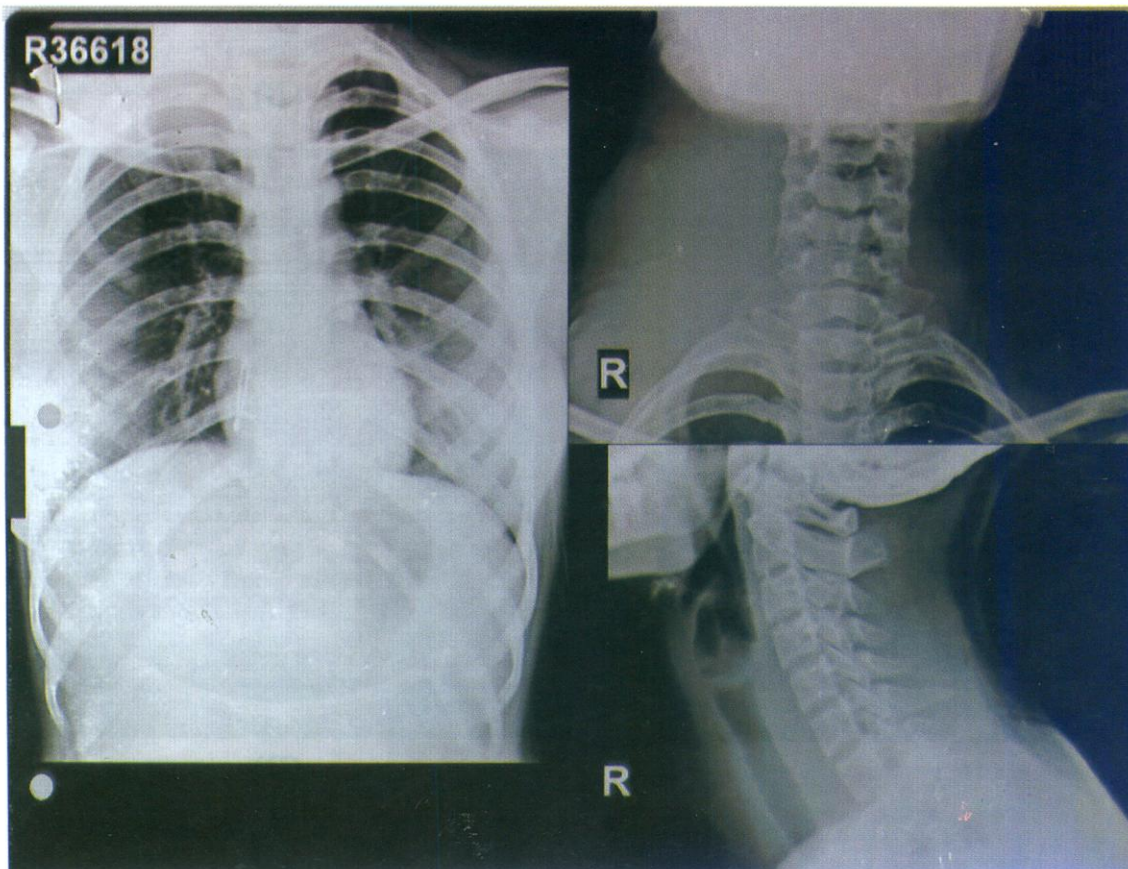


**Recurrent Cystic Hygroma anterior aspect (right side) with scar of previous surgery (above)**



**Fig 2: X-rays of the neck and chest showing soft tissue swelling on right side of neck with tracheal deviation to left side**

**Fig 2: Radiographies du cou et de la poitrine montrant le gonflement des tissus mous sur le cote' droit du cou avec la déviation de la trachée à gauche.**

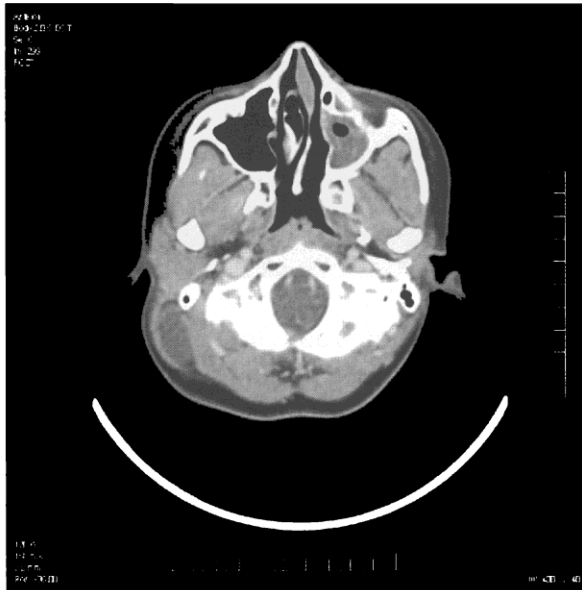


**Fig 3: Contrast Enhanced CT showing recurrent cystic hygroma**

(A) At the level of right mastoid bone; (B) At the level of hyoid bone; (C) Right carotid artery displaced antero-medially and the right IJV laterally; (D) At the level of clavicle

**Fig 3: Contraste CT améliorée relevant un hygrote kystique récurrent**

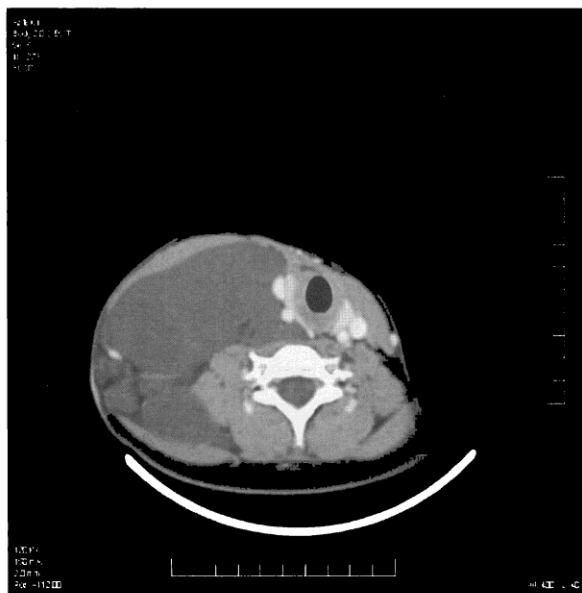
(A) Au niveau de l'os mastoïde droit; (B) Au niveau de l'os hyoïde ;(C) L'artère carotide droite déplacées en antiroi-interne et le IJV droit latéralement; (D) Au niveau de la clavicule



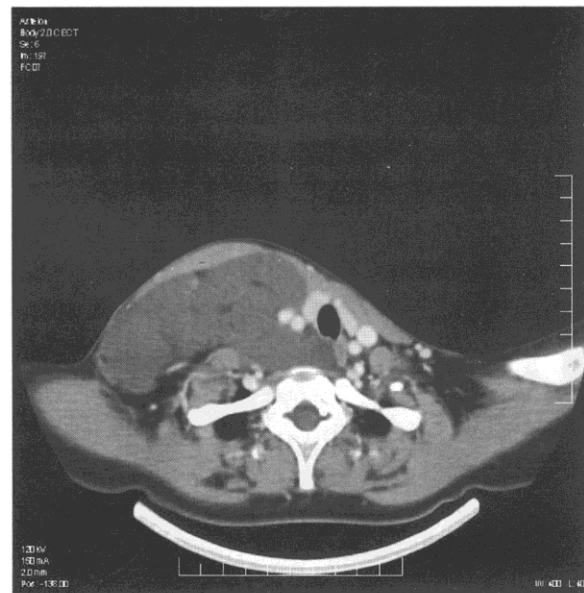
(A)



(B)



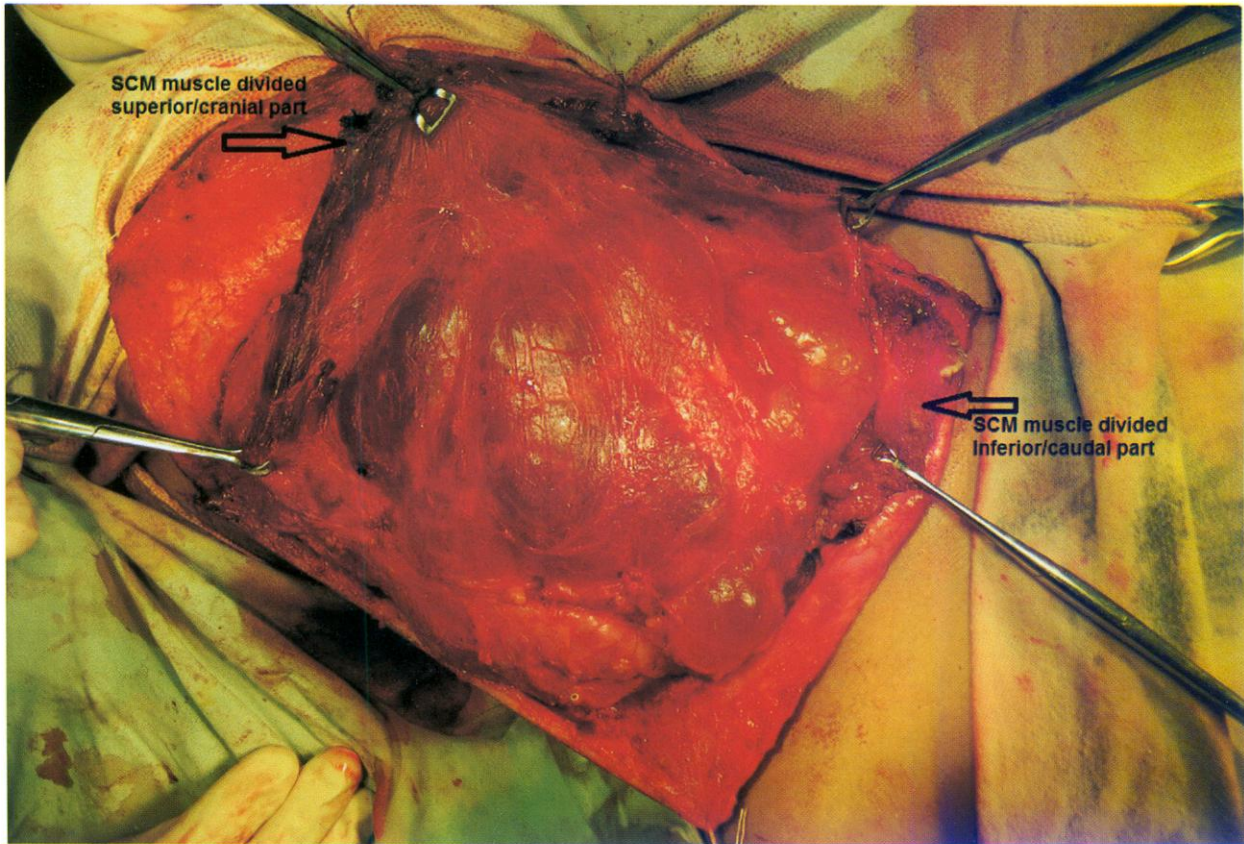
(C)



(D)

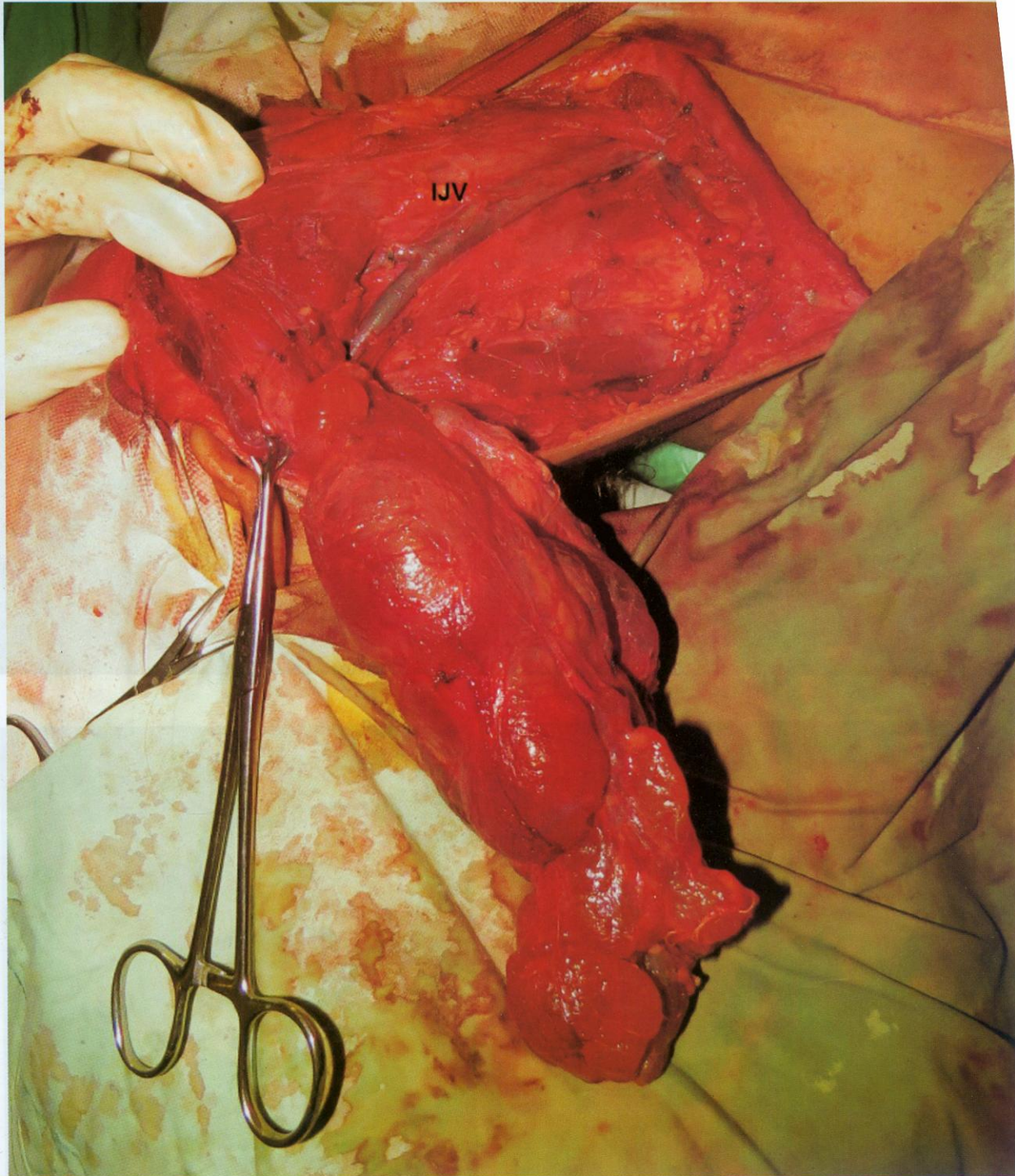
**Fig 4: Intra-operative image showing the cystic hygroma with the cut edges of SCM muscle**

**Fig 4: L'image Intra-opératoire montrant l'hygrote kystique avec les bords de SMC musculaire coupés.**



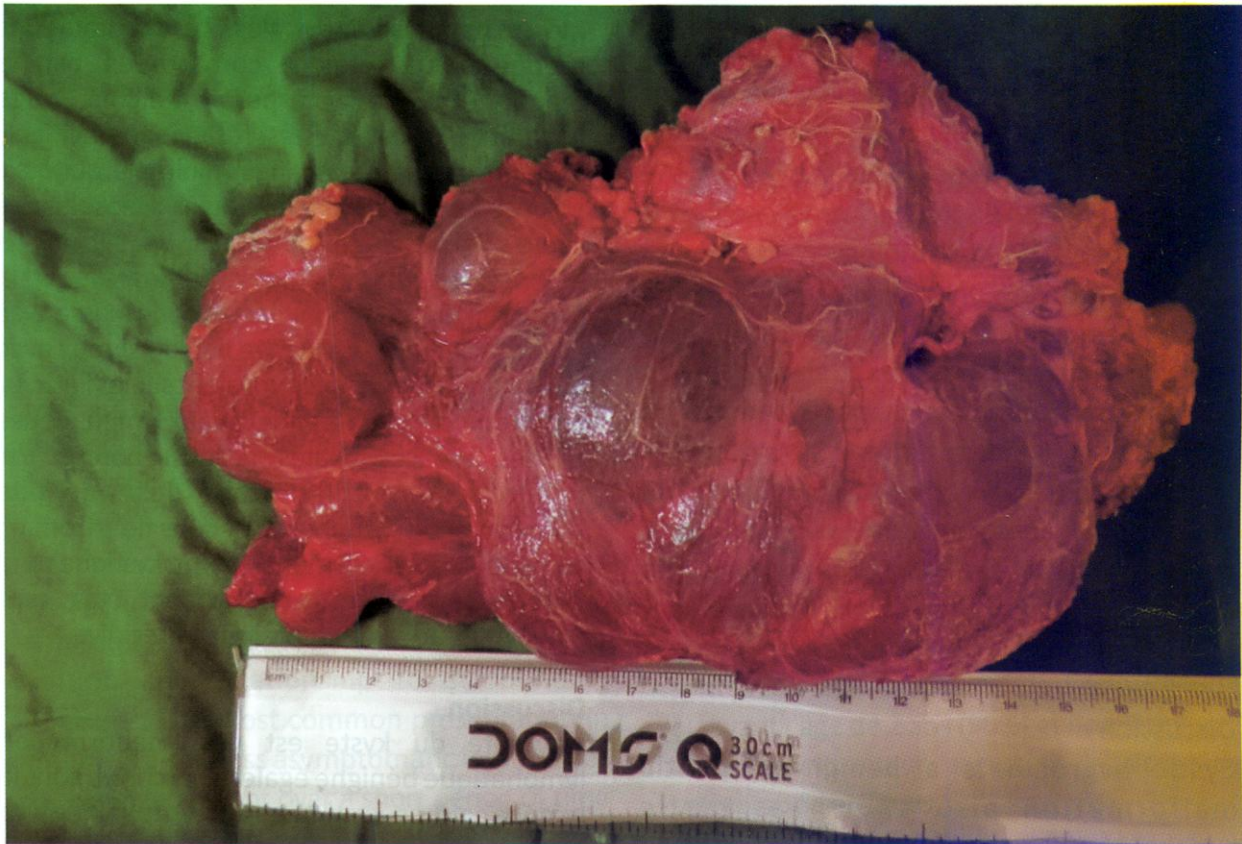
**Fig 5: Intra-operative image showing the cystic hygroma dissected away from IJV**

**Fig 5: L' image Intra-operatoire montrant le hygrote kystique dissequé loin de IJV**



**Fig 6: Specimen of the recurrent cystic hygroma**

**Fig 6: Modele de l'hygrote kystique recurrent**



IJV were preserved. Complete excision of the cyst was done with combination of blunt and sharp dissection, shaving it off from the cervical nerve roots. The intra-operative findings corroborated with the CECT report. The cyst weighed 485gms. Postoperatively the patient recovered uneventfully, with minimal drain output which was removed on the 5<sup>th</sup> day; the patient was later discharged on 7<sup>th</sup> day after suture removal. Histopathology description of the mass is as follows: 18 x 15 cm multiloculated mass with multiple cysts draining serous fluid with gummous material seen at places. Section showed large lymphatic channels and dilated spaces (cysts) lined by flattened endothelium with abundant aggregates of lymphocytes in the stroma; consistent with benign cystic lymphangioma of the mixed type variety. The patient has been followed up for one year without symptoms or recurrence.

### **Discussion**

Cystic hygroma is a benign lymphatic malformation also known as cystic lymphangioma. Lymphangiomas are classified as capillary, cavernous and cystic lymphangiomas of which cystic lymphangiomas are commonest. They are also classified based on the size of the cysts; microcystic measuring less than 2 cm in diameter, macrocystic measuring more than 2 cm, mixed lymphangioma is characterized by cysts of variable sizes. In 8<sup>th</sup> week of embryogenesis; six lymphatic sacs develop. These are two jugular sacs, two iliac, one at the base of root of mesentery and one dorsal to the abdominal aorta known as cisterna chyli. With the development of lymphatico-venous system these lymph sacs communicate with the lymphatic network and in 9<sup>th</sup> week of gestation, these sacs are invaded by connective tissue to form lymph nodes. Cystic hygroma develops from sequestered lymphatic sacs which fail to communicate with the lymphatic or venous system. Dilatation of these sequestered

qui était soigneusement disséquée. Le nerf spinal et IJV ont été conservés. L'exérèse complète du kyste était faite avec la combinaison nette de dissection et raser des racines nerveuses cervicales. Les constatations préopératoires étaient corroborées par le rapport CECT. Le kyste pesait 485gms. Après l'opération, le patient s'est rétabli sans incident, avec une sortie de vidange minimale qui était enlevée le 5<sup>eme</sup> jour; le patient a ensuite été libéré 7 jours après le retrait de suture. La description de l'histopathologie de la masse est la suivante : 18 x 15 cm multiloculaire de masse avec de multiples kystes, vidange liquide séreux avec du matériel gommeux se voyaient sur les lieux. La section montrait de grands canaux lymphatiques et des espaces dilates (kystes) bordés par l'endothélium aplati avec des agrégats abondants de lymphocytes dans le stroma ; compatible avec le lymphangiome kystique de la variété de type mixte. Le patient était suivi pendant un an sans symptômes ou récurrence.

### **Discussion**

L'hygrote du kyste est une malformation lymphatique bénigne également connu sous le lymphangiome kystique. Les lymphangiomes sont classés comme capillaire, cavernuse et les lymphangiomes kystiques dont les lymphangiomes kystiques sont plus fréquentes. Ils sont également classés en fonction de la taille des kystes ; le micro kystique mesurant moins de 2 cm de diamètre, les macros kystiques mesurant plus de 2 cm, le lymphangiome mixte est caractérisé par des kystes de tailles variables. En 8<sup>e</sup> semaine de l'embryogenèse, six sacs lymphatiques se développent. Ce sont deux sacs de jugulaires, deux iliaques, une à la base de la racine du mésentère et une dorsale de l'aorte abdominale connue comme Cystéine Pecquet. Avec le développement du système de lymphatique-veineux ces sacs lymphatique . communiquent avec le réseau lymphatique et en neuvième semaine de gestation, ces sacs envahis par le tissu conjonctif pour former les ganglions lymphatiques. L'hygrote kystique se développe à partir de sacs lymphatiques séquestrés qui ne parviennent pas à



lymphatic tissues results in the cystic morphology of these lesions containing milky, serous, sero-sanguinous or straw-coloured fluid<sup>1</sup>.

Cystic hygroma can occur in any region of the body, the common locations being cervico-facial region (75-80%), axilla, mediastinum and groin. Other regions are oral cavity, omentum, mesentery and rarer regions include limbs, chest wall, cheek, lumbar region, supra-sternal area and deltoid. Due to the infiltrative nature of cystic hygromas, they may extend to the soft tissue of neck, cross midline, reach axilla, mediastinum and cause neural encroachment. Most cystic hygromas present at the time of birth (60%) or before the age of 2 years (90%) and hence most of the literature on management considers paediatric patients<sup>2</sup>. Symptoms of cystic hygroma depend on the position and relationship to surrounding structures. The most common presentation in an adult is a painless asymptomatic lump. Cases of rapid enlargement over a short period of time have been reported frequently<sup>3-6</sup> with compression and incorporation of major structures such as the larynx, trachea, oesophagus, brachial plexus and great vessels<sup>5</sup>, with pain, hoarseness, dysphagia and breathlessness<sup>3,5,6</sup>, causing a restriction of neck movement<sup>7</sup>. Other complications are infection, abscess, haemorrhage and rupture. Cystic hygromas can be staged as proposed by de Serres<sup>8</sup>.

Diagnostic investigations include ultrasonography (USG) and CECT scan. CECT scan can delineate the extent, relation to adjacent structures in a better way and it is recommended when surgery is contemplated.

Treatment options include surgery, sclerotherapy, simple drainage, radiation, laser excision, radio-frequency ablation and

communiquer avec le système lymphatique ou veineux. La dilatation de ces résultats de tissus lymphatiques séquestrés dans la morphologie de ces lésions kystiques contenant une fluide séreuse, laiteuse, sero-sanguine ou de couleur paille<sup>1</sup>.

L'hygrote kystique peut se produire dans n'importe quelle région du corps, les lieux communs étant la région cervico-faciale 75-80 percent, l'aisselle, le médiastin et l'aîne. D'autres régions sont la cavité buccale, l'épiploon, le mésentère et les régions plus rares comprennent des membres, la paroi thoracique, la joue, la région lombaire, la zone de supra-sternale et deltoïde. En raison de la nature de l'infiltration de les hygrotés kystiques peuvent s'étendre aux tissus mous du cou, la ligne médiane transversale, atteindre l'aisselle, le médiastin et provoquer l'empiétement de neurones. La plupart des hygrotés kystiques sont présents au moment de la naissance (60%) ou avant l'âge de 2 ans (90%) et donc la plupart de la littérature sur la gestion considère des patients pédiatriques.<sup>2</sup>

Les symptômes d'hygrote kystique dépendent de la position et la relation avec les structures environnantes. La présentation la plus fréquente chez l'adulte est un morceau asymptomatique indolore. Le cas de l'élargissement rapide sur une courte période de temps ont été fréquemment rapportés 3-6 avec la compression et l'incorporation de grandes structures telles que le larynx, la trachée, l'œsophage, du plexus brachial et grandes vessées, avec la douleur, l'enroulement, et la dysphagie sans essoufflement<sup>3, 4,5</sup>, entraînant une restriction de mouvement du cou.<sup>7</sup> D'autres complications sont l'infection, l'abcès, l'hémorragie et la rupture. Les hygrotés kystiques peuvent être mis en scène comme propose par de Serres.<sup>8</sup>

Les études diagnostiques comprennent l'échographie de balayage et une scanographie. Le scanneur peut délimiter

cauterization<sup>9</sup>. However surgery remains the preferred modality of treatment. Indications for treatment are recurrent infection, respiratory distress, dysphagia, haemorrhage within the cyst, sudden increase in the size, lymph discharging sinus and disfigurement.

The postoperative complications usually observed after surgical excision of cystic hygroma are wound infection, haemorrhage, hypertrophied scar and lymphatic discharge from the wound. Complex cystic hygromas recur in about 10-27% of cases, even after apparent complete excision and 50-100% in partial excision<sup>10</sup>. Recurrence is due to incomplete excision, is more common with the microcystic and mixed type as they have a tendency to interdigitate into tissue planes, enveloping neural and vascular tissues and complete excision is difficult and hazardous<sup>11</sup>. Despite these possible complications, surgical excision of the cystic hygroma is still a preferred option.

Previously, sclerotherapy with boiling water, quinine, sodium morrhuate, urethane, iodine tincture, doxycycline and nitromin were used. However, the success rate with such agents have been low and with frequent associated complications<sup>12</sup>. At present sclerotherapy with bleomycin and OK-432 have shown good response, the latter showing more satisfactory response and lesser complications than bleomycin<sup>13,14</sup>.

Unusual cases have been reported<sup>7, 15-18</sup>. Ramachandran et al reported a recurrent cystic hygroma in a 17 years old female<sup>15</sup> while Saxena and co-worker described a cystic hygroma in a 35 years female who was long treated as a case of tuberculosis<sup>16</sup>. Furthermore, Paladino et al reported a case of recurrent cystic hygroma 3 days after surgery<sup>17</sup>.

l'étendue, le rapport aux structures adjacentes dans une meilleure façon et c'est recommandé lorsque la chirurgie est envisagée.

Les options de traitement comprennent la chirurgie, la sclerotherapie, simple drainage, rayonnement, l'excision au laser, l'ablation par radiofréquence et la cautérisation.<sup>9</sup> Cependant la chirurgie reste la modalité de traitement préférée. Les indications du traitement sont une infection récurrente, une détresse respiratoire, une dysphagie, une hémorragie dans le kyste, une augmentation soudaine de la taille, des sinus lymphatiques, le déchargement et la défiguration.

Les complications postopératoires sont généralement observées après l'exérèse chirurgicale des hygromes kystiques. L'infection, l'hémorragie, la cicatrice hypertrophiée et la décharge lymphatique de la plaie sont enroulées. Les hygromes kystiques complexes reviennent environ dans 10-27% des cas, même après l'exérèse complète et apparente 50-100% en excision partielle. La récurrence est due à une excision incomplète, c'est plus commun avec le micro kystique et le type mixte car ils ont tendance à s'entrecroiser dans des plans de tissu neuronal, enveloppante et les tissus vasculaires et l'excision complète sont difficile et hasardeux.<sup>11</sup> Malgré ces complications possibles, l'excision chirurgicale de l'hygrome kystique est toujours une option préférée.

Auparavant, la sclerotherapie avec de l'eau bouillante, la quinine, le morguât de sodium, de l'uréthane, l'iode de tincture, la doxycycline et la natremie ont été utilisées. Cependant, le taux de réussite avec de tels agents ont été faibles et des complications associées et fréquentes. A l'heure actuelle la sclerotherapie a la bleomycine et OK-432 ont montre une bonne réponse, ce dernier montrant de réponse plus satisfaisante et les complications moindres que la bleomycine.<sup>13,14</sup>

7 cas habituels ont été rapportés.<sup>15-18</sup> Ramachandran et al ont apporté qu'un hygrome kystique récurrent chez une femme de 15 à 17 ans tandis que Saxena et collègues ont décrit un hygrome kystique chez une femme de 35 ans qui a longtemps été considéré comme un cas de tuberculose.<sup>16</sup> En outre, Paladino et Collègues ont rapporté un cas de récurrence d'hygrome kystique de trois jours après la chirurgie.<sup>17</sup>

Cystic hygroma although known in paediatric age group can present at any age and should be considered as a differential diagnosis. Surgery is the best modality of treatment and the first operative intervention offers the best opportunity for complete excision. Surgery of a complex recurrent cystic hygroma, such as this case report, involving deep and vital structures, is challenging. Extreme care needs to be taken to avoid on table complications and incomplete excision in case of infiltration to the surrounding structures. What we found challenging in this patient are the size, weight, extent of the lesion, age at presentation and the operative complexity involved in order to ensure complete excision.

## References

1. Fonkalsrud EW. Lymphatic disorders. In: Grosfeld JL, O'Neill JA Jr, Coran JA, Fonkalsrud EW, Caldamone AA, editors. Pediatric surgery. 6th ed. Chicago: Mosby Elsevier; 2006. pp. 2137–45.
2. Kaur N, Gupta A, Amratash , Singh N. Giant cystic hygroma of the neck with spontaneous rupture. J Indian Assoc Pediatr Surg. 2007;12:154–5.
3. Kraus J, Plzak J, Bruschini R, et al. Cystic lymphangioma of the neck in adults: a report of three cases. Wiener Klin Wochenschr 2008; 120: 242–5. doi:10.1007/s00508-008-0950-4.
4. de Casso Moxo C, Lewis NJ, Rapado F. Lymphangioma presenting as a neck mass in the adult. Int J Clin Pract 2001; 55: 337–8. Pmid:114 52685.
5. Cheng LHH, Wells FC. A multidisciplinary approach to recurrent cervicothoracic cystic hygroma in an adult. Br J Oral Maxillofacial Surg 2004; 42: 66–8. doi:10.1016/S0266-4356(03)00173-6.
6. Vaid L, Gupta M, Gupta N, Singh P. Bleomycin sclerotherapy in a rare case of adult-onset cervical lymphangioma. Ear Nose Throat J 2010; 89: E23–6. Pmid: 20155685.
7. Gow L, Gulati R, Khan A and Mihaimeed F. Adult-onset cystic hygroma: a case report and review of management. Grand Rounds. 2011;11:5–11.

L'hygrote kystique bien connu dans le groupe d'âge pédiatrique peut se présenter a tout âge et doit être considéré comme un diagnostic différentiel. La chirurgie est la meilleure modalité de traitement et la première intervention chirurgicale qui offre la meilleure opportunité pour l'excision complète. La chirurgie d'un hygrote kystique récurrent complexe, comme ce rapport de cas, impliquant des structures profondes et vitales, est difficile. Un soin extrême doit être pris pour éviter les complications de table et l'exérèse incomplète en cas de d'infiltration sur des structures environnantes. Ce que nous avons trouve difficile chez ce patient sont la taille, le poids, l'étendue de la lésion, l'âge lors de la présentation et de la complexité opérationnelle impliqués afin d'assurer l'excision complète.

## References

1. Fonkalsrud EW. Lymphatic disorders. In: Grosfeld JL, O'Neill JA Jr, Coran JA, Fonkalsrud EW, Caldamone AA, éditeurs. Chirurgie pédiatrique. 6e ed. Chicago: Mosby Elsevier; 2006. pp. 2137–45.
2. Kaur N, Gupta A, Amratash, Singh N. Hygrote kystique Grosse du cou avec rupture spontanée. J Association Pédiatrique de Chirurgie Indienne 2007;12:154–5.
3. Kraus J, Plzak J, Bruschini R, et al. Lymphangiome kystique du cou chez les adultes: un rapport de trois cas. Wiener Klin Wochenschr 2008; 120: 242–5. Doi: 10.1007/s00508-008-0950-4.
4. de Casso Moxo C, Lewis NJ, Rapado F. Lymphangiome comme une masse au cou chez l'adulte. Int J Clin Pract 2001; 55: 337–8. Pmid: 11452685.
5. Cheng LHH, Wells FC. Une approche multidisciplinaire pour un hygrote kystique cervical-thoracique chez un adulte. Br J Oral Maxillo-faciale Chirurgie 2004; 42: 66–8. doi:10.1016/S0266-4356(03)00173-6.
6. Vaid L, Gupta M, Gupta N, Singh P. Bleomycine sclerotherapie dans un cas rare de l'adulte lymphangiome col de l'utérus. Oreille Nez Gorge J 2010; 89: E23–6. Pmid: 20155685.
7. Gow L, Gulati R, Khan A and Mihaimeed F. Hygrote a l'âge adulte : un rapport de cas et revue de la direction a case report and review of management. Grand Rounds. 2011;11:5–11.

8. de Casso Moxo C, Lewis NJ, Rapado F. Lymphangioma presenting as a neck mass in the adult. *Int J Clin Pract* 2001; 55: 337–8. Pmid: 11452685.
9. Sheila S, Nazarian-Mobin, Simms K, Urata MM, Tarczy-Hornoch K, Jeffrey A. Misleading presentation of an orbital lymphangioma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2010;109:82–5.
10. Dillon P. Lymphatic and venous disorders. In: Oldham KT, Colombani PM, Foglia RP, editors. *Surgery of Infants and Children: Scientific Principles and Practice.* Philadelphia: Lippincott-Raven; 1997. p. 1727-43.
11. Seashore JH, Gardiner LJ, Ariyan S. Management of giant cystic hygromas in infants. *Am J Surg.* 1985;149:459–65.
12. Ibrahim AH, Kandeel A, Bazeed MF. Successful non surgical management of a huge life threatening cervicomedial cystic hygroma case report and review of the literature. *J Pediatr Surg Specialt.* 2009;3:48–50.
13. Niramis R, Watanatittan S, Rattanasuwan T. Treatment of cystic hygroma by intralesional bleomycin injection: experience in 70 patients. *Eur J Pediatr Surg.* May 2010;20(3):178-82.
14. Peters DA, Courtemanche DJ, Heran MK, et al. Treatment of cystic lymphatic vascular malformations with OK-432 sclerotherapy. *Plast Reconstr Surg.* Nov 2006;118(6):1441-6.
15. V Ramachandran, P Rajan. Recurrent Cystic Hygroma. *The Internet Journal of Surgery.* 2001;3(1).
16. P Saxena, D Chandra. Cystic Hygroma of neck in an adult female: Case report and literature review. *The Internet Journal of Surgery.* 2009;22(2).
17. Paladino NC, Scerrino G, Chianetta D, Di Paola V, Gulotta G, Bonventre S. Recurrent cystic lymphangioma of the neck. Case report. *Ann Ital Chir.* 2014 Jan-Feb;85(1):69-74. PubMed PMID: 24394770.
18. Ameya Bihani, Jaini Lodha, Yogesh Dokhe, Priyanka Hardikar, Arpit Sharma and Jyoti Dabholkar. A Giant Cystic Hygroma in Adult – A Surgical Challenge. *BMR Medicine.* 2014;1(2):1-5.
8. de Casso Moxo C, Lewis NJ, Rapado F. Lymphangiome se présentant comme une masse au cou chez l'adulte. *Int J Clin Pract* 2001; 55: 337–8. Pmid: 11452685.
9. Sheila S, Nazarian-Mobin, Simms K, Urata MM, Tarczy-Hornoch K, Jeffrey A. Presentation trompeuse d'un lymphangiome orbitaire. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2010;109:82–5.
10. Dillon P. Lymphatic and venous disorders. In: Oldham KT, Colombani PM, Foglia RP, editors. *Surgery of Infants and Children: Scientific Principles and Practice.* Philadelphia: Lippincott-Raven; 1997. p. 1727-43.
11. Seashore JH, Gardiner LJ, Ariyan S. Gestion des hygromes kystiques géants chez les nourrissons. *Am J Surg.* 1985; 149:459–65.
12. Ibrahim AH, Kandeel A, Bazeed MF. Prise en charge chirurgicale non réussie d'un grand danger pour la vie, rapport de cas de l'hygrote kystique cervical médiastin et revue de la littérature. *J Chirurgie de Pédiatrie Spécialisée.* 2009;3:48–50.
13. Niramis R, Watanatittan S, Rattanasuwan T. Treatment of cystic hygroma by intralesional bleomycin injection: experience in 70 patients. *Eur J Pediatr Surg.* May 2010;20(3):178-82.
14. Peters DA, Courtemanche DJ, Heran MK, et al. Traitement des malformations vasculaires lymphatiques kystiques avec OK-432 sclerotherapie. *Plast Reconstr Surg.* Nov 2006; 118(6):1441-6.
15. V Ramachandran, P Rajan. Hygrote kystique récurrent. *Le journal Internet de chirurgie.* 2001;3(1).
16. P Saxena, D Chandra. Hygrote kystique de cou chez une femme adulte: Rapport de cas et revue de la littérature. *Le journal Internet de chirurgie.* 2009;22(2).
17. Paladino NC, Scerrino G, Chianetta D, Di Paola V, Gulotta G, Bonventre S. Lymphangiome kystique du cou recurent. Case report. *Ann Ital Chir.* 2014 Jan-Feb;85(1):69-74. PubMed PMID: 24394770.
18. Ameya Bihani, Jaini Lodha, Yogesh Dokhe, Priyanka Hardikar, Arpit Sharma and Jyoti Dabholkar. UN hygrote kystique a l'âge adulte – Un déficit chirurgical. *BMR Medicine.* 2014;1(2):1-5.