

새 성 기 형

전남대학교 의과대학 외과학교실
정동원 · 김동의 · 윤정한 · 제갈영종

= Abstract =

Branchial Cleft Anomalies

Dong Won Jeoung, M.D., Dong Yi Kim, M.D.,
Jung Han Yoon, M.D., Jegal Young Jong, M.D.

Department of Surgery, Chonnam University Medical School, Kwangju, Korea

A very important and interesting problem occasionally seen in the neck of children and adults is a branchial cleft anomaly. It is a rare congenital neck disease and presents a painless palpable mass of neck in most cases. We have retrospectively reviewed the medical records of 28 patients operated upon for branchial cleft anomaly at Department of Surgery, Chonnam University Hospital between January, 1991 and December, 1995. Three of these lesions were considered to have originated from the first branchial cleft, and 25 from the second branchial cleft.

Females are about twice more common than male patients. Pathological findings showed the cysts were lined squamous epithelium and subepithelial lymphoid follicles in most cases. Five out of 28 patients with branchial cleft anomalies had previous incision procedures. All patients after complete removal of branchial anomalies have no recurrences.

KEY WORDS : Branchial cleft anomaly · Squamous epithelium · Complete removal.

서 론

새성기관(branchial apparatus)은 태생 3주와 4주 때 출현하여 6주 말경 사라진다¹⁾. 경부, 안면을 형성하는 제기관은 5쌍의 새궁과 4쌍의 새열, 새구에서 분화하는데 이러한 새성기관의 이상에서 발생하는 선천적 잔류조직으로 새루(branchial fistula), 동(sinus), 낭종(cyst)과 cartilagenous rest 등이 있는데²⁾. 이를 병변이 단독으로 나타나거나 또는 복합적인 형태로 나타난다. 또한 이들이 어느 새열에서 유래하는가에 따라 개구부 및 병변의 발생부위가 다른데 제 2새열에서 유래된 병변은 주

로 흉쇄유돌근(sternocleidomastoid muscle)의 전연에서 볼 수 있고 제 1새열에서 유래된 병변은 악하 및 전이개 부위에서 볼 수 있다. 발견연령도 낭종은 성인에서 발견되는 빈도가 많은 반면 새루, 동, cartilagenous rest 등은 소아에서 많이 나타난다. 치료는 외과적 적출술로써 좋은 치료성을 얻고 있다. 하지만 불완전한 절제를 한 경우는 다시 재발하는 수가 많아 완전한 절제가 요구되며, 수술시 인접장기나 신경에 손상을 줄 수 있으므로 주의하여야 한다^{3,4)}. 이에 저자들은 branchial cleft anomaly로 진단되어 치료를 받은 환자를 대상으로 그들의 임상 및 병리학적 특성을 후향적으로 분석하여 앞으로의 치료지침을 삼고자 본 연구를 시행하였다.

자료 및 방법

1991년 1월부터 1995년 12월까지 만 5년간 전남대학교 외과학교실에서 branchial cleft anomaly로 진단되어 치료를 받았던 28명의 환자를 대상으로 나이, 성별, 발생위치 및 유래, 증상, 진단방법, 절개배농의 기왕력, 치료 및 재발율 등의 임상적 특성과 조직학적 특성을 후향적으로 분석하였다.

결 과

1. 환자의 특징

첫임상 소견 발현시를 기준으로 보면, 20대에서 11예(39.3%)로 가장 많았고 평균연령은 31.1세였으며 최연소자는 12세 최고령자는 87세였다. 소아환자는 5명, 성인환자는 23명으로 소아환자와 성인환자의 비는 1:4.6이었으며, 남자는 10명, 여자는 18명으로 남여 성비는 1:1.8이었다(Table 1).

2. 위치 및 유래

제 2세열유래가 25예(89.3%)로 대부분이 제 2세열유래였으며, 제 1세열유래의 것은 3예(10.7%) 있었다. 발생위치는 경부의 우측이 19예(67.9%), 좌측이 9예(32.1%)로 우측에서 더 많이 발생하였다. 한편 제 3과 제 4세열유래의 것과 양측성인 경우는 1예도 없었다(Table 2).

Table 1. Patients characteristics

No. of Patients	28
Sex Distribution (M : F)	10 : 18 (1 : 1.8)
Mean Age(Years)	31.1
	(12 - 87)
Pediatrics : Adults	5 : 23 (1 : 4.6)

Table 2. Location and origin

Location Origin	Right	Left	Bilateral	Total
1st	2	1	0	3
2nd	17	8	0	25
3rd and 4th	0	0	0	0
Total	19	9	0	28

3. 임상증상

임상증상은 21예(75%)에서 무통성 종물로써 나타났으며 농 배출 5예, 동통을 동반한 종창 2예등 7예(25%)에서 감염소견을 보였다(Table 3).

4. 진단방법

28명의 환자 전예에서 수술전 정확한 진단이 가능했으며, 초음파 검사가 19예(67.9%)로 가장 많이 사용된 진단방법이었다. 외루공을 가지고있던 2예는 누관조영술(fistulogram)로 누관의 주행을 확인했다(Table 4).

5. 절개배농의 기왕력

남자 3명, 여자 2명의 5명(17.9%)에서 절개배농의 기왕력이 있었으며 제 2세열에서 유래한 1명의 남자는 절개배농을 3차례 시행한 기왕력이 있었다(Table 5).

Table 3. Clinical presentations

Symptom	No.
Painless Palpable Mass	21
Pus Discharge	5
Painfull Swelling	2
Total	28

Table 4. Diagnostic modalities

Method	No.
US	19
CT	7
Fistulogram	2
Total	28

Table 5. History of I and D

Sex	Male	Female	Total
Origin			
1st	1	0	1
2nd	2	2	4
Total	3	2	5

Table 6. Treatment and recurrence

Complete Excision	28
Recurrence Rate(%)	0/28=0

Table 7. Lining epithelium

Epithelium	No.
Strat. Squamous	26
Strat. Cil. Col.	1
Pseudostrat. Cil. Col.	1

6. 수술 및 재발율

28명 전예에서 완전절제가 가능했으며 재발된 경우는 1예도 없었다. 술후 합병증으로는 창상부위 혈종 1예와 창상감염 1예가 있었다(Table 6).

7. 조직학적 소견

조직학적으로 내강은 대부분 편평상피로 구성되어 있었으며, 상피하에 다수의 임파조직을 보였다(Table 7).

고 찰

Branchial cleft anomaly는 드문 질환으로 그의 정확한 발생빈도는 알려져 있지 않다. 발생원인에 대해서도 여러가지 학설이 제안되었는데 그중 Maran과 Buchanan⁵⁾은 cervical sinus의 잔존조직에서 생기거나 또는 새열이나 새낭의 잔존조직에서 발생한다고 하였고 King⁶⁾은 lateral lympho-epithelial cyst란 용어를 사용하였다. 새열유래에 따른 발생빈도는 제2새열유래의 것이 가장많은 빈도를 차지하고 있으며, 제1새열유래의 것은 1%미만을 차지한다고 보고하고 있다⁷⁾. 저자들의 경우도 대개의 보고처럼 28예중 제2새열유래의 것이 25예(89.3%)로 대부분을 차지하였으며 제1새열유래의 것은 3예가 있었고 제3과 제4새열유래의 것은 1예도 없었다.

성별에 따른 발생빈도는 Telander⁸⁾는 제1과 제2새열유래의 것은 남자에서 약간빈도가 높다고 보고하였으며, Work⁹⁾, Belenky와 Medina¹⁰⁾는 제1새열유래의 것은 여자에서 발생빈도가 높다고 보고하였다. 하지만 Maran과 Buchanan⁵⁾은 발생빈도와 성별과는 별다른 관련이 없다고 보고하였으며, Takimoto 등¹¹⁾의 연구도 이를 뒷받침하고 있다. 그러나 저자들의 연구에서는 제2새열유래의 것이 대부분을 차지하고 있었지만 남자 10명, 여자 18명으로 남여 성비는 1 : 1.8로 여자에서 많이 발생하였다. 형태상 1972년에 Work⁹⁾는 제1새열유래의 것을 2가지 type으로 분류하였으며, 1922년에 Bailey¹²⁾는 제2새열낭종을 주위조직과의 관계에 따라 4가지 type으로 분류하였다. Bailey가 분류한 4가지 type중 대부분이 제1 제2 제3형에 속하고 제4형은 매우 드문 것으로 보고되고 있다¹³⁾. 하지만 저자들은 이런 분류가 의의가 없을 것으로 사료되어 형태상으로 분류하지 않았다.

Branchial cleft anomaly의 발생위치는 경부의 우측

과 좌측의 발생빈도의 차이는 없다고 알려져 있지만 Godin¹⁴⁾은 제4새열유래의 것은 좌측에 더많이 발생한다고 보고하였다. Bill과 Vadheim³⁾은 10~15% 환자에서 양측성으로 발생한다고 보고하였지만 저자들의 경우는 우측이 19예(67.9%), 좌측이 9예(32.1%)로 우측에 더많이 발생하였으며 양측성인 경우는 1 예도 없었다.

임상증상은 대부분이 무통성 종물을 호소하며 그외 감염에 의한 발적, 발열종창을 나타내고 때로 놓즙배출을 보이는 수가 있다. 제3새열 성루는 소아에 있어서 급성화농성 갑상선염과 연관이 있으며, 또한 선천성 이상외루가 갑상선염의 원인이 된다. Branchial cleft anomaly는 어느 연령에서나 볼 수 있지만 특히 루는 소아 때부터 증상이 나타날 수있으므로 15세이전의 소아에 많고, 낭종은 서서히 커지므로 젊은 성인층에 많다고 하였다¹⁵⁾. 저자들의 경우는 임상증상으로 28명의 환자중 21예(75%)에서 무통성 종물을 호소하였으며, 나머지 7예(25%)는 놓즙배출, 동통을 동반한 종창 등 감염의 소견을 보였다. 새생기형이 선천적인 질환으로 알려져 있지만 저자들의 연구에서는 28명의 환자중 소아환자는 5명(17.9%)뿐이었고 23명(82.1%)환자는 성인이었다.

진단에 있어서 발생위치는 매우 중요하며, 이용되는 검사방법으로는 연부조직 X-선촬영, 초음파검사, 전산화 단층촬영 등이 있으며, 특히 cross-sectional CT에서는 well-circumscribed low attenuated mass로 나타난다¹⁶⁾. Reynolds와 Wolinski¹⁷⁾ 전선화 단층촬영으로 종물의 성상을 확진할 수 있고 병변의 범위, 주위조직과의 해부학적 관계를 이해하는데 도움이 된다고 하였다.

한편 외루공을 갖는 경우는 누관조형술로 누관의 주행을 확인하는 것이 중요하다. 저자들은 26명(92.9%)의 환자를 초음파 검사와 전산화 단층촬영으로 병변을 확인하였으며, 외루공을 갖는 2명(7.1%)의 환자에서는 누관조형술로 누관의 주행을 확인했다.

낭종내의 악성종양 발생이 보고된바 있어¹⁸⁾¹⁹⁾ 치료는 수술에 의한 전적출술을 원칙으로하며 감염이 동반된 경우는 절개배농, 항생제투여 등으로 감염을 치료한후 수술을 시행하는 것이 원칙이다. 그리고 수술시에는 안면신경, 설하신경, 설인신경이 손상되지 않도록 주의해야 한다³⁴⁾. 불완전한 절제는 재발을 초래하는데, Takimoto¹¹⁾은 42예의 환자에서 재발된 경우는 1예도 없었다고 보고하였으며 Telander와 Deane⁸⁾은 274명의 환자중 추적조사가 가능했던 208명의 환자에서 12명(6%)이 재

발하였다고 보고하였다. 저자들은 28명의 환자를 전부 완전절제하였으며 그중 재발된 환자는 없었다. 단지 술 후합병증으로 창상부위 혈종 1예와 창상감염이 1 예 있었다.

조직학적으로는 낭포 또는 누관의 내강은 편평상피, 원주섬모상피로 구성되며, 상피하에 다수의 임파조직이 있는데⁽¹¹⁾⁽²⁰⁾⁽²¹⁾, Howie와 Crocker⁽²²⁾는 상피세포의 성장과 낭종성 변화 등으로 낭종이 형성된다고 하였다. 낭종 내에 함유된 액체는 전형적으로 cholesterol crystals와 epithelial cell을 함유한다⁽²²⁾. 저자들의 경우도 내강은 대부분 편평상피로 구성되어 있었으며, 상피하에 다수의 임파조직소견을 보였다.

감별해야 할 질환으로는 lymphadenitis, thymic cyst, dermoid cyst와 parathyroid cyst 등이 있는데 저자들은 술전 정확한 시진 및 검사를 병행하므로서 다른 질환과의 감별은 용이했다.

결 론

Branchial cleft anomaly는 하악각이나 이주에서 경부의 하부까지 어느 부위에든지 발생할 수 있는 무통성 경부 종물로써 진단은 이학적 검사가 도움이되며 불완전한 절제는 재발이 우려되므로 완전한 절제가 요구되며 수술 시 주위조직 및 신경이 손상되지 않도록 주의해야 한다.

References

- 1) Proctor B, Proctor C : *Congenital lesions of the head and neck*. Otolaryngol Clin North Am 22:1-248, 1970
- 2) Langman J : *Medical embryology : Human development, Normal and Abnormal*. Baltimore, Williams & Wilkins Co., 1963
- 3) Bill AH Jr, Vadheim JL : *Cysts, sinuses and fistulas of the neck arising from first and second branchial clefts*. Ann Surg 142 : 904-908, 1955
- 4) Rankow RM, Hanford JM : *Congenital anomalies of the first branchial cleft*. Surg Gynecol Obstet 96 : 102-106, 1953
- 5) Maran AGD, Buchanan DR : *Branchial cysts, sinuses and fistulae*. Clin Otolaryngol 3 : 77-92, 1978
- 6) King ESJ : *The lateral lympho-epithelial cyst of the neck*. Aust N Z J Surg 19 : 109-121, 1949
- 7) Aronsohn RS, Batsakis JG, Rice GH, Work WP : *Anomalies of first branchial cleft*. Arch Otolaryngol 102 : 737-740, 1976
- 8) Telander RL, Deane SA : *Branchial cleft cysts and sinuses*. Surg Clin North Am 78:4-791, 1988
- 9) Work WP : *New concepts of first branchial cleft defects*. Laryngoscope 82 : 1581-1593, 1972
- 10) Belenkay WM, Medina JE : *First branchial cleft anomalies*. Laryngoscope 90 : 28-39, 1980
- 11) Takimoto T, Itoh M, Furukawa M, Sakano K, Sakashita H, Iwawaki J, Uie T : *Branchial cleft (pouch) anomalies : A review of 42 cases*. Auris Nasus Larynx 18 : 87-92, 1991
- 12) Bailey H : *The clinical aspects of branchial cysts*. Br J Surg 10 : 565-572, 1922
- 13) Dilkes MG, Chapman J, Stafford ND : *Per-oral excision of a branchial cyst*. J Laryngol Otol 104 : 143-144, 1990
- 14) Godin MS, Kearns DB, Pransky SM, Seid AB, Wilson DB : *Fourth branchial pouch sinus : principles of diagnosis and management*. Laryngoscope 100 : 174-178, 1990
- 15) Ward GE, Handrick JW, Chambers RG : *Branchiogenic anomalies : results of 70 cases observed at Johns Hopkins Hospital between 1926 and 1946*. West J Surg 57 : 536, 1949
- 16) Harnsberger HR, Mancuso AM, Muraki AS, Byrd SE, Dillon WP, Johnson LP : *Branchial cleft anomalies and their mimics : CT evaluation*. Radiology 152 : 739-748, 1984
- 17) Reynolds JH, Wolinski AP : *Sonographic appearance of branchial cysts*. Clin Otolaryngol 48 : 109-110, 1993
- 18) Katubig C, Damjanov I : *Branchial cleft carcinoma*. Arch Otolaryngol 89 : 750-751, 1969
- 19) Randall P, Royster HP : *First branchial cleft anomalies : A not-so rare and potentially dangerous condition*. Plast Reconstr Surg 31 : 497-506, 1963
- 20) 감봉수 · 주종수 · 김상호 · 백낙환 : 새성기형 50예의 임상적 고찰. 대한두경부종양학술지 8 : 6-13, 1992
- 21) 차장일 · 김석천 · 송민 · 조중생 · 안희영 : 새성 낭종의 임상적 고찰. 대한두경부종양학술지 11 : 56-62, 1995
- 22) Howie AJ, Crocker J : *The lining of branchial cysts studied by electron microscopy and enzyme histochemistry*. Pathology 135 : 189-197, 1982