

경부에 발생한 제2새열낭종 2례

박홍주 · 박세찬 · 손영휘 · 윤천주 · 유선열
전남대학교 치과대학 구강악안면학교실, 치의학연구소

Abstract

SECOND BRANCHIAL CLEFT CYST OF THE NECK : REPORT OF TWO CASES

Hong-Ju Park, Se-Chan Park, Young-Whee Son, Cheon-Ju Yun, Sun-Youl Ryu

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Dentistry,

Institute of Dental Research, Chonnam National University

Developmental anomalies arising from the branchial apparatus include cysts, external sinuses, internal sinuses, and complete fistulas. Second branchial cleft cysts are by far the most common among these anomalies. It may occur at any age, being most common in the third decade, and more frequent in the male than in the female. It usually presents a smooth, round, nontender fluctuant mass located between the level of the tragus and the clavicle along the anteromedial border of the sternocleidomastoid muscle. It is lined by respiratory or squamous epithelium unless inflammation is present. The considerable amount of lymphoid tissue may be found beneath the epithelium. The treatment of choice of branchial cleft cyst is surgical excision. If the lesion is acutely infected, however, it is essential to relieve the infection prior to the surgery.

This report deals with two cases of second branchial cleft cyst. In case 1, the cyst had rapidly increased in size over pregnant period. In case 2, the patient presented the swelling in the left neck, and had the history of incision and drainage because of misdiagnosis as submandibular space abscess. The infection was treated by antibiotic therapy in the first place, and then complete surgical excision was made. There was no evidence of any recurrence or complications for these 3~4 years.

Key words : Second branchial cleft cyst, Pregnancy, Infection

I. 서 론

새열낭종(branchial cleft cyst)은 경부 측방에 발생하는 원시 새궁의 선천성 발육장애로서 새열 또는 새궁의 잔사로부터 유래하며 이들의 불완전 폐쇄로 인해 발생된다¹⁻⁶⁾. 새열낭종의 기원에 대하여 Little과 Rickles³⁾는 새열기관에서 유래한다고 하였고, Bhaskar와 Bernier⁴⁾는 경부 림프절 내로 미입된 상피가 변형되어 생긴 것이라고 하여 이 낭종을 양성림프상피성낭종(benign cervical lymphoepithelial cyst)이라고 명명하였다. 새열기형은 낭종형(cyst), 외동형(external sinus), 내동형(internal sinus) 및 누공형(fistula)의 4가지 형태로 분류되며, 이중 낭종형이 가장 많

고 그 중에서도 제2새열낭종(second branchial cleft cyst)이 대부분을 차지한다¹⁻⁶⁾.

임상적으로 새열낭종은 어느 연령층에도 발생할 수 있으나 주로 20대에 호발하며, 여성보다 남성에서 2배 정도 더 많이 발생한다. 또 경부 측방의 흉쇄유돌근 전내측에서 구형의 부드러운 과동성 종물로 촉진되며, 총경동맥이 분지하는 부위에서 내경정맥의 외측에 위치한다^{2,5-9)}. 감염이 존재하지 않는 한 대개 무증상으로 경과하지만, 치성감염 또는 상기도 감염에 이환되면 일시적으로 크기가 증가되고 이때 낭종을 발견하게 된다. 출생 직후에 새동(branchial sinus) 또는 누공을 보이기도 하며, 낭종의 크기가 큰 경우에는 연하곤란, 호흡곤란 및 발음장애 등을 나타낸다⁵⁻⁹⁾.

새열낭종은 조직학적으로 90%에 해당하는 거의 대부분의 경우 중층편평상피에 의해 이장되어 있으며, 상피 하방에서 림프양 조직이 관찰된다. 또한 내부에 점액성 또는 장액성의 노란 내용액을 함유하고 있으며, 낭종액에서 콜레스테롤 결정을 볼 수 있다⁶⁻¹⁰⁾. 감별해야 할 질환으로는 지방종, 낭종성 수종, 혈관종, 전이성 암종, 신경섬유종, 새원성 암종 등이 있다¹¹⁾.

치료는 반드시 외과적 완전절제술을 시행하여야 하며, 낭종이 감염된 경우에는 항생제를 투여하고 가능하면 절개 및 배농은 피해야 한다. 낭종의 절제는 낭종에 감염이나 염증성 변화가 없을 때 시행되어야 한다. 재발은 낭종 절제시 잔사를 남기지 않는 한 드문 것으로 보고되었다^{1,2,5,6,8)}.

본 증례는 경부의 파동성 종창을 주소로 내원한 2례의 제 2새열낭종 환자에서 외과적 완전절제술을 시행하여 양호한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

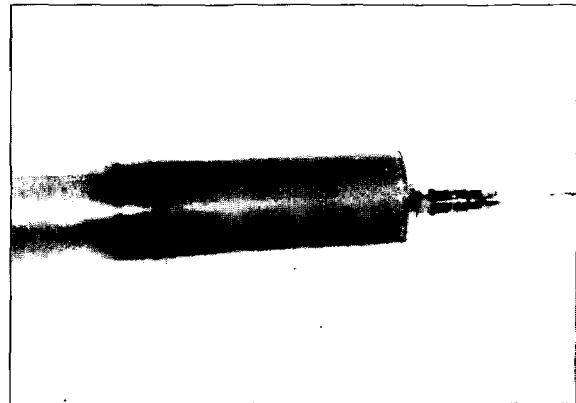
Ⅱ. 증례보고

증례 1

- 환 자 : 박 ○○, 26세, 여자
- 초진 연월일 : 1996년 6월 26일
- 주 소 : 우측 경부의 파동성 종물
- 병 력 : 3년 전 우측 악하부에 무통성 종물이 발생되어 모 개인의원에서 임파선염으로 진단하고 투약하였으나 크기가 서서히 증가되었다. 약 1년 전 크기가 현저히 증가되었으나 환자가 임신 중이어서 치료를 연기하다가, 출산 후 치료를 위해 모종합병원을 거쳐 본과로 전원되었다.
- 기왕력 및 가족력 : 5년 전 모종합병원에서 갑상선부위에 발생한 콩알 크기의 종물을 제거하였다.
- 임상적 소견 : 우측 악하부와 경부의 홍채유돌근 전연

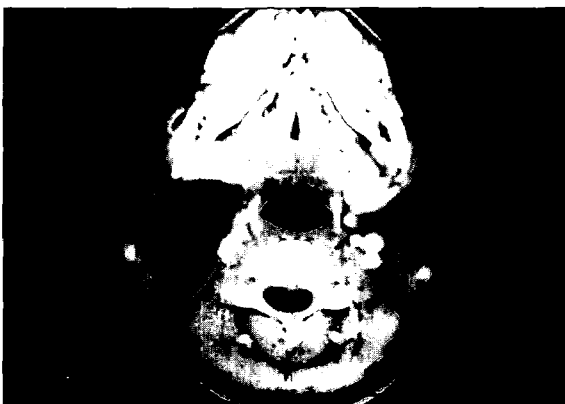


A

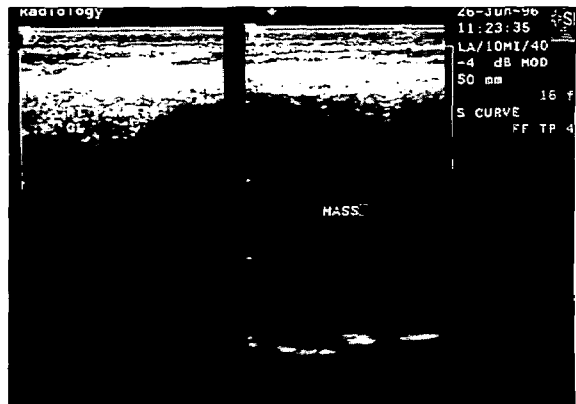


B

Fig. 1. (a) Preoperative frontal view showing soft fluctuant swelling at right submandibular and lateral neck region (b) Yellowish pus-like fluid aspirated from the lateral neck.



A



B

Fig. 2. (a) Preoperative computed tomographic scan showing unilocular cystic mass in the right posterior submandibular space. (b) Ultrasonography showing well defined homogenous anechoic mass in the right upper neck.



Fig. 3. (a) Intraoperative view after the complete surgical excision. (b) Six-months postoperative frontal view showing symmetric appearance without any complications.

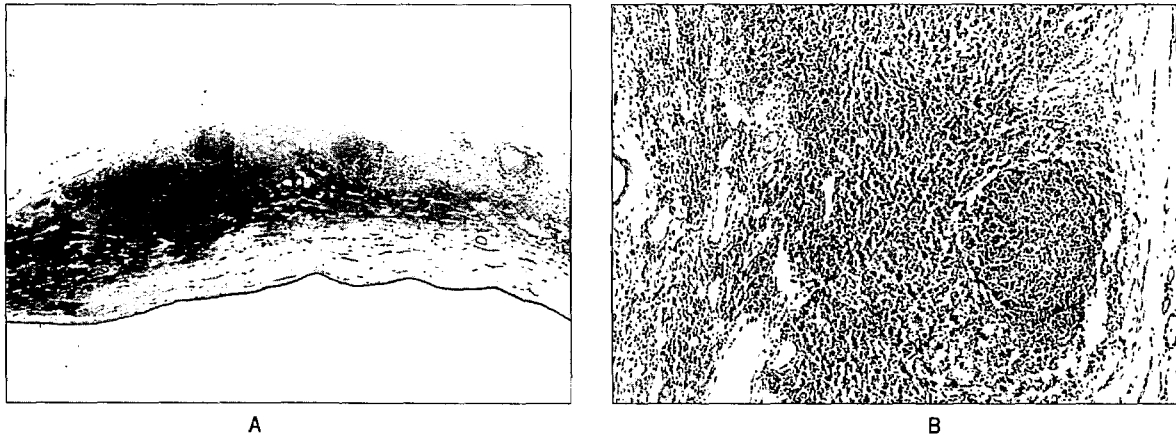


Fig. 4. Photomicrographs of the lesion. (a) The cyst was lined by stratified squamous epithelium, containing abundant subepithelial lymphoid tissue with germinal centers (hematoxylin-eosin stain, X40). (b) High power magnification of the surgical specimen showing the prominent germinal center (hematoxylin-eosin stain, X100).

에 걸쳐 6×4×4cm정도 크기의 난원형의 무통성, 파동성의 종물이 촉진되었다. 흡인검사시 약 20cc 정도의 농과 유사한 내용액이 흡인되었다(Fig. 1). 피부에 누공은 존재하지 않았고, 구강내에도 종창이나 누공 등 특이 소견은 관찰되지 않았다.

• 전산화단층촬영 소견 : 우측 악하간극 후하방부에서 6×5×4cm 크기의 단방성 낭종성 종물이 관찰되었다. 우측 악하선은 종물의 전내방으로, 흉쇄유돌근은 후외방으로 그리고 경동맥초는 후내방으로 변위된 소견을 보였다(Fig. 2).

• 경부 초음파검사 소견 : 우측 경부 상방에 6.4×3.1cm 크기의 경계가 명확하고 균일한 무반향의 종물이 관찰되었으며, 종물 내부에 석회화나 격벽은 보이지 않았다. 또 이 종물은 우측 이하선과 악하선을 압박하고 있었다(Fig. 2).

• 처치 및 경과 : 이상의 소견을 종합하여 제2쇄열낭종으로 진단하였다. 감염 조절을 위해 술전에 amoxicillin을 투여하였다. 1996년 7월 18일 전신마취하에 하악골 하연 5~6cm 하방의 피부주름을 따라 피부에서 광경근까지 절개를 가하였다. 안면신경의 하악지를 보존하면서

둔하게 박리하여 흉쇄유돌근의 전연 및 내측면으로부터 낭종을 분리하였다. 낭종은 잘 피낭화되어 있었으나 내측에 위치한 경동맥 및 내경정맥과는 섬유조직에 의해 부착되어 있어 주의깊은 박리에 의해 이들에 대한 손상 없이 낭종을 완전히 절제하였다(Fig. 3). 절제된 종물의 크기는 7.5×5×4cm 정도였으며, 타원형의 연성 종물 소견을 보였다. 절제 후 흡인배농관을 삽입하고, 층별봉합 후 압박드레싱을 시행하였다. 술후 항생제 및 소염제를 투여하였으며, 2일째에 흡인배농관을 제거하고 6~7일째에 발사하였다. 술후 부종과 종창은 소실되었고 대칭적인 외모를 보였

다. 안면신경 마비나 재발 등의 합병증 없이 양호한 경과를 보이고 있다(Fig. 3).

- 조직병리학적 소견 : 낭종의 내부는 중층편평상피로 이장되어 있고, 상피 하방에 림프양 조직이 존재하고 있어 새열낭종으로 진단되었다(Fig. 4).

증례 2

- 환 자 : 손 ○○, 56세, 남자
- 초진 연월일 : 1995년 6월 29일
- 주 소 : 좌측 약하부 종창



Fig. 5. (a) Preoperative lateral view showing soft fluctuant swelling on left submandibular and lateral neck region. (b) Yellow pus-like fluid aspirated from the lateral neck.

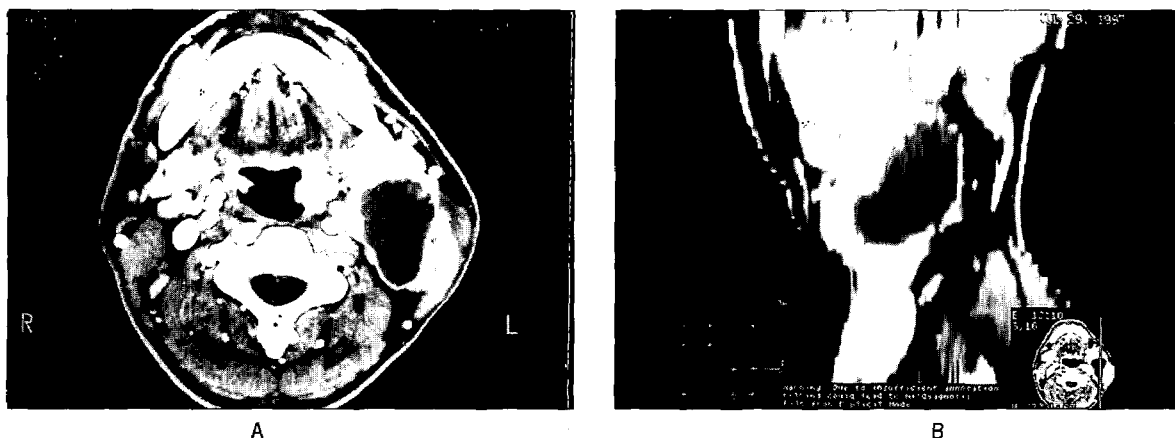


Fig. 6. Preoperative computed tomographic scan showing unilocular cystic mass in the right posterior submandibular space along the sternocleidomastoideus anteromedially.

- 병력 : 1995년 6월 22일 좌측 악하부의 종창으로 모치과의원에서 수진 후, 1995년 6월 29일 본원으로 전원되었다. 내원 당시의 임상검사 소견에 의하면 하악 좌측 구치부의 동통성 종창과 좌측 악하부 종창이 관찰되었다. 흡인검사시 진한 노란색의 농이 흡인되었다. 이상의 결과로 좌측 악하간극 농양으로 진단하고 1995년 6월 29일 악하부에 절개 및 배농을 시행하고, 동년 7월 10일 좌측 하악 지치를 받거하였으며 압통과 종창 등의 증상이 개선되어 퇴원조치하였다. 1997년 7월 29일 환자는 동부위의 종창을 주소로 다시 내원하였다.
- 기왕력과 가족력 : 특이사항 없음.
- 임상적 소견 : 좌측 귀볼(ear lobe)로부터 홍채유돌근 전연을 따라 6×4×3cm 정도 크기의 무통성, 파동성의 부드러운 종물이 관찰되었으며 흡인시 노란색의 액체가 흡인되었다(Fig. 5). 피부에 누공은 보이지 않았으며 구강위생상태는 불량하였다.

- 전산화단층촬영 소견 : 좌측 악하선의 후방, 경동맥과 내경정맥의 외방, 홍채유돌근의 전내방을 따라 5.5×4×3cm 크기의 낭종성 종물이 관찰되었으며, 종물은 주위 홍채유돌근, 경동맥초 및 이하선과 잘 경계를 이루고 있었다(Fig. 6).
- 처치 및 경과 : 이상의 소견을 종합하여 제2쇄열낭종으로 진단하고, 1997년 8월 14일 전신마취하에 외과적 절제술을 시행하였다. 약 5cm의 리스돈 절개를 가하고 광경근을 박리하자 낭종벽을 관찰할 수 있었다. 종물의 외측에 위치한 외경정맥, 안면정맥 및 악하선을 분리하였다. 내측에 부착된 경동맥과 내경정맥도 주의깊게 박리하여 종물로부터 분리시켰으며, 낭종과 연결된 누공은 볼 수 없었다. 절제된 종물은 6.5×4×5cm 정도의 연성 종물의 소견을 보였다(Fig. 7). 절제 후 흡인배농관을 삽입하고, 층별봉합 후 압박드레싱을 시행하였다. 술후 2일째 흡인배농관을 제거하고 6일째 발사하였다.

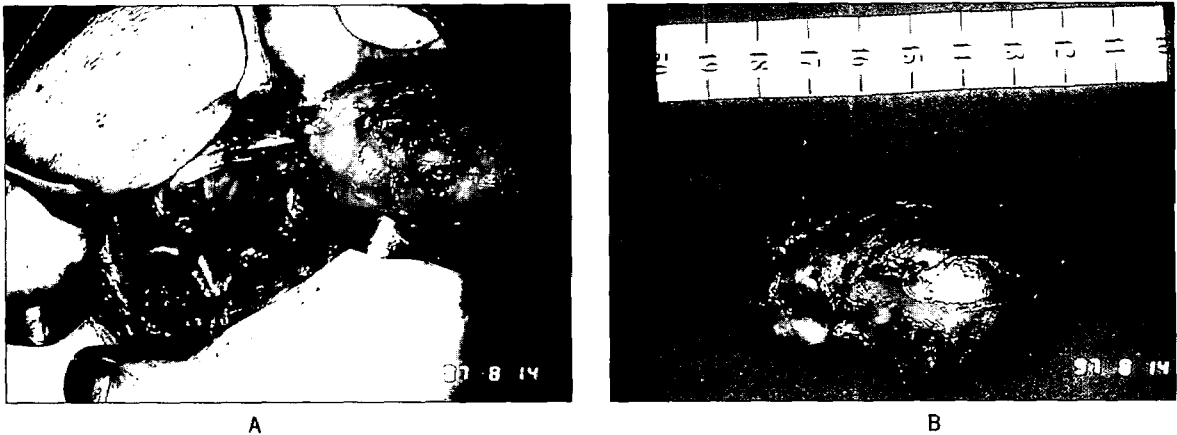


Fig. 7. (a) Intraoperative view after the complete surgical excision. (b) The soft mass was round oval shape, about 6.5 X 4 X 5 cm.

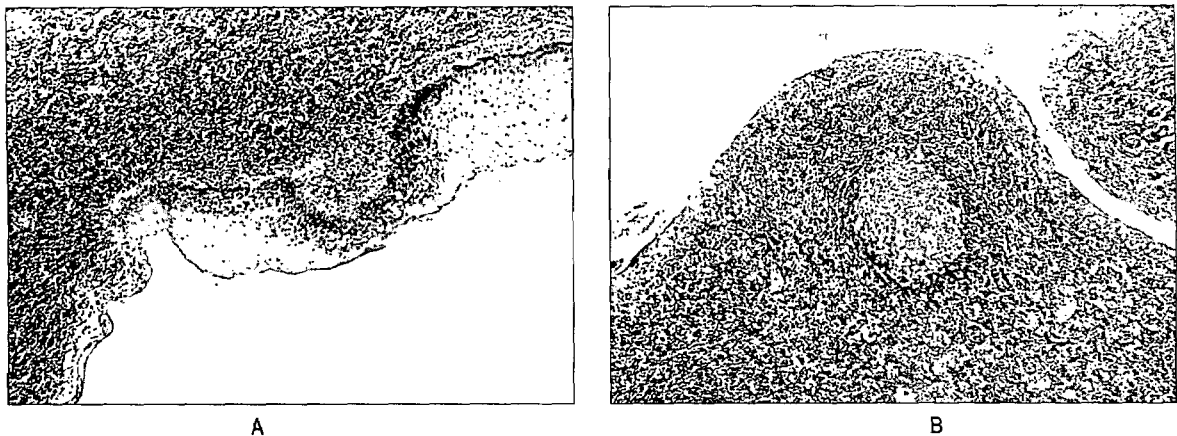


Fig. 8. Photomicrographs of the surgical specimen. (a) The cyst was lined by stratified squamous epithelium and subepithelial lymphoid tissue was observed in the cystic wall (hematoxylin-eosin stain, X40). (b) High power magnification of the surgical specimen showing the typical germinal center (hematoxylin-eosin stain, X100).

술후 부종과 종창은 소실되었으며, 별다른 합병증 없이 잘 치유되었다.

- 조직병리학적 소견 : 낭종의 내부는 중층편평상피로 이장 되고, 상피 하방에서 림프양 조직이 관찰되며, 주변의 림프절은 반응성 림프절염의 소견을 보였다(Fig. 8).

III. 총괄 및 고찰

새열기형은 낭종형, 동형 및 누공형으로 분류된다. 낭종형은 내측이나 외측으로 개통되지 않고 상피조직으로 이장된 구조를 말하고, 동형은 내측 구조나 피부의 어느 한쪽으로 연결된 것이며, 누공형은 내측 구조와 피부 사이에 연결된 조직을 의미한다. 누공이 존재하는 경우 제1새열공은 경부의 전방이나 외이도 하방에 위치하며, 제2새열공은 흉쇄유돌근 전연의 하방 1/3과 중앙 1/3의 경계부에 외누공(external opening)이 존재하고 내측으로는 편도와(tonsillar fossa) 쪽에 위치하게 된다⁴⁶⁾. Gold³⁹⁾에 의하면 낭종은 단독으로 또는 동이나 누공의 주행경로를 따라 어느 곳이라도 나타날 수 있다고 하였다. 본 증례들에서는 내측이나 외측 피부로 개통되지 않은 완전한 낭종형태를 보였다.

새열낭종의 기원에 대해서는 상당한 논란이 있는데, 1923년 Frazer¹²⁾가 제1새열낭종의 가능성을 지적한 이후, Bhaskar와 Bernier⁴⁾는 새기관이 태생 26일 경에 출현해서 32~45일 사이에 사라지고, 경부 림프절은 태생 2개월 후에야 출현하며 이하선은 태생 45일 경부터 발육한다고 하였다. 새기관보다는 이하선의 상피가 경부 림프절에 포획되기 쉽기 때문에 낭종상피가 타액선에서 유래된 것으로 추정하고, 이를 양성림프상피성낭종이라고 명명하였다⁴⁾. Little과 Rickles³⁾은 낭종이 새기관에서 유래될 가능성이 더 큼을 시사하였는데, 이러한 새열낭종이 림프절과 타액선 봉입체(salivary inclusion)가 집중되어 있는 이하선 근처에서는 드물게 발견되고, 오히려 새공잔사가 많이 존재하는 경부의 상부 및 중앙부에서 더 많이 발견된다고 보고하였다. Maran과 Buchanan¹³⁾은 제2새열낭종중 64%가 흉쇄유돌근 전연을 따라 경부의 상방 1/3에 위치하며, 나머지는 경부의 중앙 1/3, 하방 1/3, 이하선, 인두 및 경부의 후방 삼각부에서 발견된다고 하였고, Barnes⁶⁾은 제2새열낭종은 전형적으로 흉쇄유돌근의 전연을 따라 설골에서 상흉골절흔 사이에서 나타난다고 하였다. 본 증례들은 흉쇄유돌근 전연을 따라 내측으로 경부의 상방 1/3부위에 위치하여 제2새열낭종으로 진단하였으며, 낭종에 의해 이하선은 전방으로, 경동맥초의 구조물들은 후방으로 변위되었다.

임상적으로 새열낭종은 어느 시기이나 나타날 수 있으며, 호발연령은 20대이다¹³⁾. 크기는 1~10cm의 범위이며 여성(40%)보다 남성에서(60%) 더 호발한다¹³⁾. 가장 흔한 증상

은 흉쇄유돌근 전연을 따라 존재하는 파동성의 지속적인 팽윤(80%), 동통(30%), 간헐적인 팽윤(20%), 감염(15%), 및 압통(7%) 등이다¹³⁾. 감염이 존재하는 경우 크기가 증가되고 백혈구증다증 및 발열이 나타나게 되며, 낭종의 크기가 큰 경우에는 연하곤란 및 호흡곤란을 야기할 수 있고, 종종 재발성 감염의 소견을 볼 수 있다^{1,2,5-9)}. 감별해야 할 질환으로는 지방종, 낭종성 수종, 혈관종, 전이성 암종, 신경섬유종, 새원성 암종 등이 있다¹¹⁾. 조직학적으로 내부는 중층편평상피나 원주상피로 이장되어 있으며, 상피 하방에서는 림프양 조직이 관찰된다. 또한 낭종의 내강에서는 콜레스테롤 결정을 포함한 낭종액이 관찰된다^{1,2,6-10)}. 본 증례들에서도 흉쇄유돌근의 전내측에 무통성의 파동성 종물을 볼 수 있었다. 증례 2는 초진시 악하간극 농양으로 진단되어 절개 및 배농을 시행하였으나, 2년 후 재발되어 전산화단층촬영 등을 이용한 검사결과 제2새열낭종으로 진단하였다. 두 증례 모두 흡인시에 노란색의 농과 유사한 액체를 볼 수 있었으며, 구강내외로 누공은 보이지 않았다. 이는 감염이 동반되었기 때문인 것으로 생각된다. 조직학적 소견에서는 두 증례 모두 중층편평상피 이장과 상피 하방의 림프양 조직을 관찰할 수 있었다.

새열기형을 진단하는 방법으로는 누관조영법(fistulography), 강조영법(sinography), 전산화단층촬영, 초음파검사, 자기공명영상법 등이 있다. 누관조영법이나 강조영법은 외부로의 개통이 있을 때 그 입구를 따라 조영제를 주입한 후 단순 방사선촬영을 하는 것으로, 새열기형의 위치 및 주행경로를 볼 수 있는 방법이다⁵⁾. 본 증례들은 전산화단층촬영을 시행한 결과 외부로의 개통을 보이지 않는 낭종형으로 진단되었으며, 전산화단층촬영상에서 낭종의 크기와 위치 및 주위 구조물과의 관계 등을 자세히 알 수 있었다. 증례 1에서는 초음파검사를 통해 종물의 크기와 위치 및 주위조직과의 관계를 알 수 있었다. 따라서 새열낭종의 진단을 위해서는 전산화단층촬영술과 초음파검사가 유용하며, 누공이 의심될 경우는 누관조영법이나 강조영법이 필요할 것으로 사료된다.

새열낭종의 처치로는 낭종과 누공 및 누관의 완전절제가 필수적이다. 그러나 급성감염이나 염증의 소견을 보이는 경우에는 술전에 감염의 조절이 필요하며, 가능하면 절개 및 배농은 피해야 한다. 이는 반흔을 초래할 뿐 아니라 후에 낭종의 박리를 더욱 어렵게 만들기 때문이다^{1,2,5,6,8)}. 낭종이나 누강에 경화제(sclerosing solution)를 주입하는 경화요법(sclerotherapy)은 인두에 천공을 유발할 수 있으며, 심한 염증 및 괴사의 위험이 있으므로 현재는 잘 사용되지 않는 방법이다¹⁴⁾. 본 증례 1의 새열낭종은 흉쇄유돌근 전내측에 위치하였고 외측이나 내측으로 누공의 흔적을 갖지 않은 낭종형으로서 주위 신경이나 혈관을 침범하지 않았으며, 임신 중 크기가 현저히 증가하였으나 치료를 연기하다가 출산 후

에야 항생제로 감염조절 후 전신마취하에 완전절제를 시행하였다. 증례 2에서는 악하간극 농양으로 진단하고 절개 및 배농을 시행하였으나, 2년 후 재발되어 전산화단층촬영 등을 통해 제2쇄열낭종으로 진단하고 낭종을 완전절제하였으며, 낭종은 비교적 주위 구조물과의 경계가 명확하였다. 새 열낭종의 완전 절제후 재발은 드문것으로 보고되었으며^{1,2,5,6,8)}, 본 증례들에서도 술 후 3~4년이 경과한 현재까지 재발이나 다른 합병증 없이 양호한 경과를 보이고 있다.

IV. 요약

저자들은 2례의 제2쇄열낭종을 경험하였다. 증례 1은 26세의 여자에서 3년 전부터 서서히 크기가 증가하다가 1년 전 임신과 함께 현저히 크기가 증가한 병력이 있으며, 낭종은 우측 악하부와 흉쇄유돌근 전내측에 위치한 무통성의 파동을 보이는 7.5×5×4cm 크기의 연성 종물로서 내외측으로 누공 형성은 없었다. 증례 2는 56세 남자에서 2년전 악하간극 농양으로 진단하고 절개 및 배농을 시행한 병력이 있으며, 낭종은 좌측 악하부와 흉쇄유돌근 전내측에 위치한 무통성의 파동을 보이는 5.5×4×3cm 크기의 연성 종물로서 역시 내외측으로 누공 형성은 보이지 않았다. 조직학적으로 중층편평상피로 이장되어 있었고 상피 하방에서는 림프양 조직이 관찰되었으며, 완전절제술을 시행한 다음 술후 3~4년이 경과된 현재까지 재발이나 다른 합병증 없이 양호한 경과를 보이고 있다.

참고 문헌

1. Telander RL, Deane SA : Thyroglossal and branchial cleft cysts and sinuses. *Surg Clin of North Am* 57(4):779-791, 1977.
2. Chandler JR, Mitchell B : Branchial cleft cysts, sinuses, and fistulas. *Otolaryngol Clin of North Am* 14(1):175-186, 1981.
3. Little JW, Rickles NH : The histogenesis of the branchial cyst. *Am J Pathol* 50:533-547, 1967.
4. Bhaskar SN, Bernier JL : Histogenesis of branchial cysts : A report of 468 cases. *Am J Pathol* 35:407-423, 1959.
5. Gold BM : Second branchial cleft cyst and fistula. *Am J Radiol* 134:1067-1069, 1980.
6. Barnes L : Surgical pathology of the head and neck. Vol II. New York, Marcel Dekker Inc. pp 1285-1291, 1986.
7. Papay FA, Kalucis C, Eliachar I, Tucker HM : Nasopharyngeal presentation of second branchial cleft cyst. *Otolaryngol Head Neck Surgery* 110:232-234, 1994.
8. 김일규, 이성준, 이수용, 주명채 : 우측 경부에 발생한 제 1 새 열 낭종 (Type I)의 치험례. *대한악안면성형재건외과학회지*. 12(1):180-186, 1990.
9. Som PM : Clinical radiology quiz. *Am J Otolaryngol* 10:430-431, 1989.
10. Shankar L, Josephson R, Hawke M : Imaging case of the month : the branchial cleft cyst. *J Otolaryngol* 20(1):62-64, 1991.
11. Burgess KL, Hartwick RWJ, Bedard YC : Metastatic squamous carcinoma presenting as a neck cyst. *Acta Cytologica* 37(4):494-498, 1993.
12. Frazer JE : The nomenclature of diseased states caused by certain vestigial structure in the neck. *Br J Surg* 11:131-134, 1923.
13. Maran AGD, Buchanan DR : Branchial cysts, sinuses and fistula. *Clin Otolaryngol* 3:77-92, 1978.
14. Simpson RA : Lateral cervical cysts and fistulas. *Laryngoscope* 79:30-59, 1969.

저자연락처

우편번호 501-757
광주광역시 동구 학1동 5번지
전남대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
유 선 열

원고 접수일 1999년 12월 24일
게재 확정일 2000년 05월 09일

Reprint requests

Sun-Youl Ryu
Dept. of OMFS, College of Dentistry, Chonnam National Univ.
5 Hak-Dong, Dong-Gu, KwangJu, 501-757, Korea
Tel. 82-62-220-5436 Fax. 82-62-232-8126

Paper received 24 December 1999
Paper accepted 9 May 2000