

## 4세 유아에 발생한 몰입성 하마종(plunging ranula); 증례보고

최진호 · 양동환 · 김일규 · 오남식  
인하대학교 의과대학 치과학교실 구강악안면외과

### Abstract

#### PLUNGING RANULA IN A 4-YEAR-OLD CHILD; REPORT OF A CASE

Jin-Ho Choi, Dong-Hwan Yang, Il-Kyu Kim, Nam-Sik Oh  
*Department of Dentistry, College of Medicine, Inha university*

Whereas oral ranula is relatively common and presents as a cyst in the mouth, the plunging ranula is rare and manifests itself as a mass in the neck with or without an associated oral lesion. When there is a soft anterior neck swelling without oral swelling, diagnosis is still difficult. In such a case, clinical suspicion may be low and the pathologist may be misled by the histologic appearance. Recognition of the diagnosis of plunging ranula is essential for the correct treatment of these lesions. We report a case of a 4-year-old girl and review the literatures to discuss the differential diagnosis and treatment modalities.

**Key words :** Plunging Ranula, Neck swelling

### I. 서론

하마종(Ranula)은 주로 설하선에서 기원하는 점액 저류 낭종을 일컫는 용어<sup>1)</sup>로써 전형적인 하마종이란 구강저의 투명하거나 푸른 빛깔을 띤 반구형으로 융기된 형태의 낭종성 종창을 말한다<sup>2)</sup>. 하마종의 원인은 설하선 도관의 폐색(obstruction)이나 파열(disruption)이라고 알려져 있다. 즉, 설하선 분비 도관 하나 혹은 그 이상에 생긴 부분 폐색이나 선천적인 폐쇄증(atresia), 또는 도관 외부 요인(extraluminal causes)에 의한 점액의 분비 장애, 부분적인 파열 혹은 완전한 폐색에 의해 초래된 타액의 삼출에 의해 발생할 수 있다<sup>2)</sup>.

임상적으로 하마종은 2가지 형태로 나타나게 되는데 단순(simple)형 혹은 표재(oral)형 하마종은 구강저에 발생한 점액 저류성 낭종(mucous retention cyst)이나 점액 삼출성 거짓낭(pseudocyst) 모두를 일컫는 말이며, 몰입성(plunging) 혹은 경부(cervical) 하마종은 설하선에서 기원한 점액 삼출성 거짓낭으로써 경부에 종창을 일으키는 형태를 말한다<sup>3)</sup>.

단순 하마종이 상대적으로 흔하고 구강 내에 낭종의 형태로 존재하는데 반해 몰입성 하마종(plunging ranula)은 드문 질환이며 경부의 종괴같은 양상을 보이며 구강 내 증상

이 있을 수도 있고 없을 수도 있다. 만약, 구강 내 증상이 없는 경우, 임상적으로 진단이 매우 어려우며, 병리학적으로도 그 조직학적 양상 때문에 잘못 진단할 수도 있다. 그러나 이 질환을 확실하게 치료하기 위해서는 술 전에 몰입성 하마종을 정확히 진단하는 것이 필수적이라고 할 수 있다.

따라서 저자 등은 4세 유아에 발생한 몰입성 하마종의 증례 보고와 함께 그 감별진단과 치료법에 대해 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

### II. 증례보고

2000년 3월 22일 4세 여아가 우측 하악 하부의 종창을 주소로 인근 종합병원 치과를 경유하여 본원에 내원하였다(Fig. 1). 환아는 약 4일전부터 종창이 시작되었으며 점차 커지는 양상을 보였다고 하였다. 환아의 과거력 상 아토피성 피부염을 앓은 것 이외에는 특이할 만한 것은 없었다. 임상 검사 상, 육안으로 우측 경부의 종창을 관찰할 수 있었으며 촉진 시, 우측 하악지 하방에 3×3cm 정도의 돌출성 종괴가 만져 졌으며, 파동성은 있었으나 압통이나 발적 및 경결감은 없었다(Fig. 2). 또한, 연하근관이나 저작장애, 부정교합 등의 특이 소견은 보이지 않았으며 음식을 먹을 때나 저작운동 혹은 연하 시에도 변화가 없었다. 구강 내 소견도



Fig. 1. Preoperative facial view of patient.

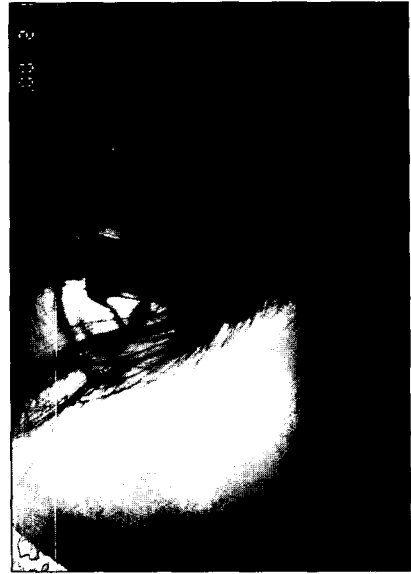


Fig. 2. Plunging ranula causing extraoral cervical swelling.

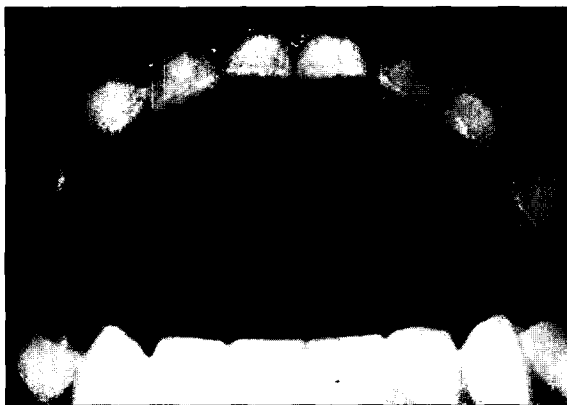


Fig. 3. preoperative intraoral view of patient showing no mouth floor swelling.

중등도의 치아 우식증이 상, 하악 좌측 제2유구치에 존재하는 것을 제외하고는 특이한 소견은 보이지 않았으며 특히 구강저에 종창이나 촉진 시 동통 호소나 만져지는 종괴도 없었다(Fig. 3).

일단, 병소의 위치와 호발 연령, 임상 소견 등을 참고로 하여 새열 낭종(branchial cleft cyst) 혹은 활액낭종수종(cystic hygroma, 림프관종 lymphangioma) 가진 하에 자기 공명 영상(magnetic resonance imaging, MRI) 촬영을 시행하기로 하였다.

자기공명영상 결과, 우측 하악지 하방에 비교적 경계가 잘 지워진 큰 낭종성 종괴가 관찰되고 주로 악하간극 내에 위치하나, 일부가 설하간극으로 끼어 있는 양상으로 대조 후 영상(post-contrast image)에서 비교적 두꺼운 외벽 조영

증강(enhancement) 소견이 관찰되면서 구강저를 따라 조영증강양상을 보이며 다발성 경부 림프절병증(lymphadenopathy)이 관찰된다고 하였다. 자기공명영상의 판독결과는 환자의 나이와 자기공명영상의 양상으로 보아 림프관종의 가능성이 크지만, 몰입성 하마종의 가능성도 배제할 수 없다는 것이었다(Fig. 4, 5).

이에 따라 이 두 가지 질환을 감별하기 위해 초음파 유도 흡인 바늘 생검(sono guided needle aspiration biopsy)을 시행하였다. 그 결과, 악성 소견은 관찰되지 않으며 바른 표본(smear) 상에 점액성(mucoïd) 액체와 함께 다량의 대식세포(macrophage)와 약간의 호중성백혈구(neutrophils)와 호산구(eosinophil)가 검출되어 하마종이라는 진단을 내릴 수 있었다(Fig. 6).

따라서, 낭종의 적출과 함께 설하선과 악하선의 제거를 계획하고 2000년 5월 9일 전신마취 하에 악하접근법(sub-mandibular approach)과 구내접근법(intra-oral approach)을 동시에 시행하여 우측 설하선, 낭종 그리고 우측 악하선을 한 덩어리로 제거하였다(Fig. 7).

수술 후 구내 및 구외 모두 양호한 치유를 보여 술 후 6일째 퇴원하였으며 현재까지 특기할만한 합병증이나 재발 소견은 보이지 않고 있다.

### Ⅲ. 병리조직학적 소견

표본(specimen)은 우측 악하선과 설하선 그리고 부착된 연조직으로 구성되어 있었으며 포르말린에 담겨 전달되었다. 악하선은 크기가 대략 3.3×3.0×2.0cm이었으며 설하

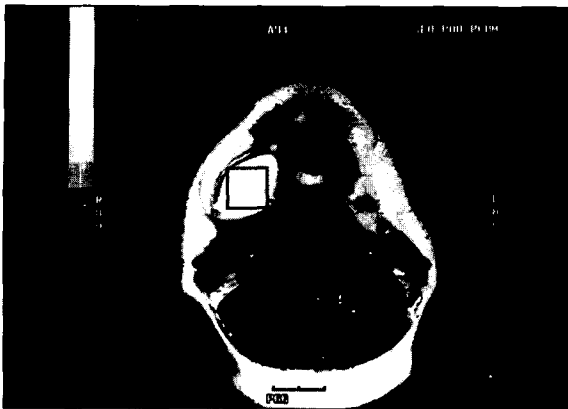


Fig. 4. MRI showing cystic lesion in the neck.(axial MR, T1 image).



Fig. 5. MRI, (coronal MR, T2 image).

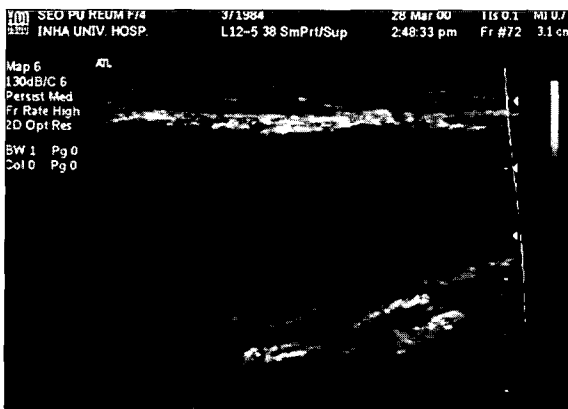


Fig. 6. Sonogram.



Fig. 7. Excised cystic mass; en-bloc excision of sublingual gland, cyst and sublingual gland.

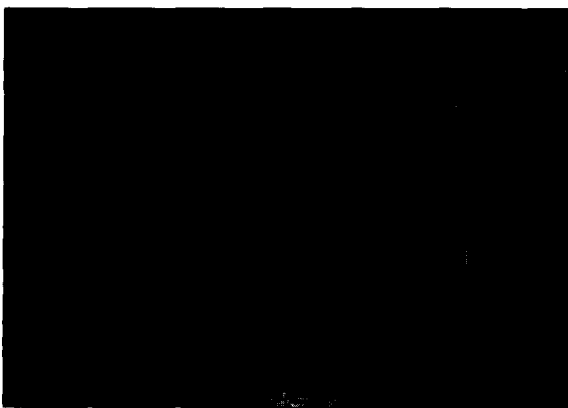


Fig. 8. dense fibrous connective tissue surrounds a pool of mucin(HE stain X40).



Fig. 9. Higher magnification of the connective tissue wall and mucin contents demonstrates vascular channels, fibroblasts, and scant chronic inflammatory infiltrates(HE stain X200).

선은 대략 2.5×2.3×1.0cm으로 측정되었다. 각각의 절단 표본이 제작되었는데, 연조직 소견은 육아조직(granulation tissue)에 둘러싸인 진한 점장액성 액체로써 점액종.

임상적으로는 혀마종의 소견과 일치하였고 각각의 타액선에서는 만성 타액선염의 소견이 관찰되었다(Fig. 8, 9).

#### IV. 총괄 및 고찰

단순형 하마종에 비해 몰입성 하마종은 드문 질환이다. 게다가 본 증례에서와 같이 구강 내의 증상 없이 경부의 종괴의 형태로만 존재하는 경우는 극히 드물다<sup>1)</sup>.

Langlois 등은 몰입성 하마종 환자의 구강 내 소견에 관한 문헌들의 기술을 분석하여 그 중 45%의 임상 증상이 구강 내 종창이었으며, 34%는 구강 내 종괴의 양상이었고 21%에서 단지 경부에 종창만 존재하였다고 보고하였다. 이렇게 구강저의 종창이 존재하지 않는 원인으로 Ichimura 등은 악설골근의 열개를 통해 설하선의 돌기가 존재하는 경우에 나타날 수 있다고 하며 보고에 따르면 인구의 약 10 내지 45%에서 악설골근의 천공을 따라 설하선의 돌기가 탈장되어 존재한다고 하였다<sup>4)</sup>. 또 다른 원인으로 Braun과 Sotereanos는 악설골근 하방에 비정상적으로 존재하는 설하선에 의한 몰입성 하마종의 증례를 보고한 바 있다<sup>5)</sup>.

경부의 종창이 유일한 증상인 경우, 진단이 매우 어렵게 되는데 이 때 감별해야 할 질환으로는 세열 낭종(branchial cyst), 갑상선관 낭종(thyloglossal duct cyst), 갑상선의 낭종(cyst of thyroid gland), 피부상 낭종(dermoid cyst), 표피상 낭종(epidermoid cyst), 이형 낭종(teratoid cyst), 활액낭종수종(cystic hygroma), 후두점막종(laryngocele), 동정맥 기형(arteriovenous malformation), 임파선 질환(lymphadenopathy), 농양(abscess), 종양(tumor) 등을 들 수 있다<sup>2)</sup>.

Osborne 등은 신체검사 단독으로는 감별진단에서 특히 수활액낭종증과 선천성 몰입성 낭종을 구별해내기 불가능하다고 주장하며, 정확한 진단을 얻는 유용한 방법으로 천자액의 분석을 소개하였다. 그들은 하마종에서 얻은 액체는 기원이 타액으로 대개 맑고 점액성이며 sodium, chloride, glucose의 농도가 serum보다 낮고, potassium과 protein의 농도는 더 높다고 하였다<sup>6)</sup>. Ikarashi 등은 진단을 위해서는 시진 뿐 아니라 초음파 촬영, 컴퓨터 단층 촬영, 천자에 의한 세포학적 진단, 또는 이들의 병합 사용 등이 도움이 된다고 보고하면서 그들의 증례에서 컴퓨터 단층 촬영은 낭종성 종괴의 정확한 진단에 충분치 않았으며, 감별을 위해서는 천자에 의해 얻어진 내용물을 분석할 수 있는 천자 후 세포학적 검사가 가장 유용한 방법이라고 하였다<sup>7)</sup>. Davison 등도 몰입성 하마종의 진단이 상당 부분 임상적으로 이루어지고 있지만 미세바늘 천자(fine-needle aspiration)가 진단에 도움을 줄 수 있다고 하였다. 그들은 천자된 내용물이 조직구(histocyte)들이 많은 점액인지 여부와 흡인물의 생화학적 검사를 통해 아밀라아제(amylase)의 농도를 분석하여 이 질환을 감별진단 할 수 있다고 하였다. 그들은 컴퓨터 단층촬영과 자기공명영상에서 이 질환의 기원과 범위를 판단하는데 도움을 줄 수 있지만 타액선

조영술(sialography)과 초음파 검사는 이 경우에 제공할 수 있는 정보가 제한적이라고 하였다<sup>3)</sup>. 또한, Mandel과 Miremadi는 몰입성 하마종에 있어서 정확한 감별진단과 그 해부학적 관계를 규명하는 것은 술 전 계획 수립에 있어 가장 중요한 부분이며 이때 컴퓨터 단층촬영, 초음파 검사, 자기공명영상 같은 영상 진단 술식이 유용한 수단이 될 수 있다고 한 바 있다<sup>8)</sup>.

각각의 질환에 따라 치료법이 다르고 서로 상반되는 점도 있기 때문에 적절한 술 전의 진단은 필수적이라고 할 수 있다. 본 증례에서도 초기의 임상 검사만으로 환자의 연령이나 발생 부위, 임상 소견 등을 고려하여 선천성 낭종이나 림프관종을 의심하였고 자기공명영상 결과는 림프관종의 가능성이 크지만, 몰입성 하마종의 가능성도 배제 할 수 없었기 때문에 이들만으로는 두 질환을 감별해 낼 수가 없었다. 따라서 이 두 질환의 정확한 감별을 위하여 술 전에 미세바늘 천자를 이용하여 낭종 내의 액체를 흡인하여 이를 분석함으로써 이 질환이 몰입성 하마종 이라는 것을 확인 할 수 있었다.

몰입성 하마종의 치료법으로 다양한 방법들이 소개되고 있는데 이는 단순 절제 혹은 조대술 만을 시행 받은 후 몰입성 하마종이 재발되는 경향이 많기 때문이다. Parekh 등<sup>9)</sup>은 그들의 논문에서 단순히 낭종의 절개 및 배농으로만 치료한 경우 70%, 조대술의 경우 53%, 경부내의 낭종만 적출한 경우 85%의 재발율을 보였으며 경부 혹은 구강 내 접근법을 통해 설하선을 함께 적출해낸 경우에는 단지 2%의 재발율을 보였다고 보고하였다. 또 Yoshimura 등도 하마종만 제거한 경우와 조대술, 그리고 병소부위와 설하선을 함께 제거한 경우의 3가지 수술방법의 재발율을 비교하여 각각 25.0%, 36.4%, 그리고 0%의 재발율을 보였다고 보고한 바 있다<sup>10)</sup>. 위의 저자들 모두는 하마종과 함께 설하선을 제거하는 것이 가장 좋은 치료법이라고 주장하였다.

이 낭종의 기원에 근거하여 치료는 하마종을 일으킨 분비조직(secretory tissue)에 초점이 맞춰져야 한다. 따라서, 설하선의 제거가 가장 타당한 치료법이라고 할 수 있다. 1996년 Ichimura 등<sup>4)</sup>은 낭종 전체를 주의 깊게 제거해 내는 것이 성공적인 치료를 위해서는 필수적이며, 낭종을 en-bloc으로 제거하기 위해서 경부 접근법이 선호되는데 그 이유는 경부까지 확장된 하마종이 제한적인 구강 내 접근만으로는 제거해내기 어렵기 때문이라고 하였다. 그들은 또 경부 접근법을 통해 악설골근을 전상방으로 올리게 되면 설하간극을 노출시킬 수 있어 이 간극 내에 위치한 설하선으로 접근도 가능해지며 악설골근의 제거와 낭종의 절개를 통해 이러한 노출이 더 수월해 질 수 있다고 하였다. 따라서 그들은 구강 내 종창이 없는 몰입성 하마종의 경우에 최선의 치료는 경부접근법을 통해서 얻을 수 있다고 하였다. 본 증례의 경우도 구강 내 종창 없이 경부의 종창만 존재하였던 경우

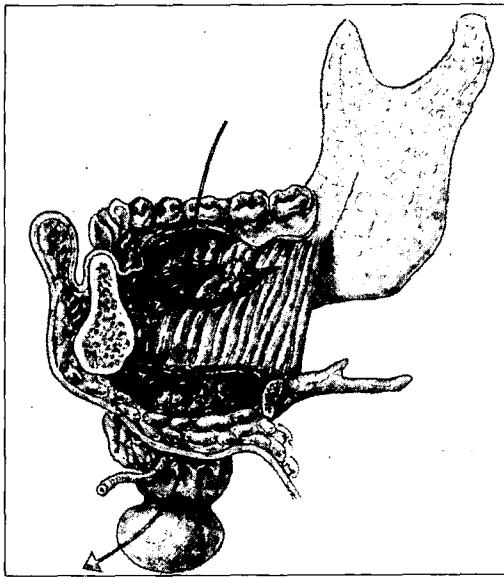


Fig. 10. Graphic representation of the full-through operation described in this report.

로 자기공명영상 등을 통해 그 위치가 주로 악하간극 내에 위치하며 일부가 설하간극으로 확장된 양상을 가지는 것으로 판단되어 경부 접근법을 통해 낭종을 제거하기로 하였으며, 재발을 및 병소로의 접근성 등을 고려하여 경부 접근법과 함께 부가적인 구강 내 절개를 가해 설하선, 하마종 그리고 악하선을 en-bloc으로 제거하기 위한 Full-Through Operation<sup>11)</sup>을 계획하였다(Fig. 10).

### V. 결 론

본 저자 등은 4세 여아의 우측 하악 하부에 발생한 종괴를 병소의 위치와 호발 연령, 특징적 소견 등의 임상검사와 자기공명영상 등의 방사선학적 검사 그리고 초음파를 이용한

천자 생검의 세포학적 검사에 의해 진단한 후 경부 접근법과 함께 부가적인 구강 내 절개를 가해 설하선, 하마종 그리고 악하선을 en-bloc으로 제거하기 위한 Full-Through Operation을 시행하여 낭종을 완전 적출 해 낸 후 조직검사를 통해 확진 하였다. 현재까지 병소의 재발 없이 양호한 결과를 보이고 있으며 향후 재발여부에 대한 지속적인 관찰이 필요하리라 생각된다.

### 참고문헌

- Langlois N, Bchir MB, Kolhe P: Plunging ranula: A case report and a literature review. *Human Pathology* 23(11):1306-1308, 1992.
- de Visscher JG, van der Wal KG, de Vogel PL: The plunging Ranula Pathogenesis, Diagnosis, and Management. *J Craniomaxillofac Surg*. 17(4):182-185, 1989.
- Davison MJ, Morton RP, Mclvor NP: Plunging Ranula: Clinical observations. *Head & Neck* 20(1):63-68, 1998.
- Ichimura K, Ohta Y, Tayama N: Surgical management of the plunging ranula: a review of seven cases. *J Laryngol otol* 110(6):554-556, 1996.
- Braun TW, Sotereanos GC: Cervical ranula due to an ectopic sublingual gland. *J maxillofac Surg* 10(1):56-58, 1982.
- Osborne TE, Haller JA, Levin LS et al: Submandibular cystic hygroma resembling a plunging ranula in a neonate. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 71(1):16-20 1991.
- Ikarashi T, Inamura K, Kimura Y: Cystic lymphangioma and plunging ranula treated by OK-432 Therapy: A case report of two cases. *Acta Otolaryngol suppl* 511:196-199, 1994.
- Mandel L, Miremadi R: Ct scanning of the plunging ranula. *NYSDJ* 63(3):38-42, 1997.
- Parekh D, Stewart M, Joseph C, Lawson HH: Plunging ranula: A report of three cases and review of the literature. *Br J Surg* 74(4):307-309 1987.
- Yoshimura Y, Obara S, Kondoh T, Naitoh SI: A comparison of three methods used for treatment of ranula. *J Oral Maxillofac Surg* 53(3):280-282, 1995.
- Tardy ME Jr, Kastenbauer ER: *Head and Neck Surgery. Face, Nose and Facial skull, PartII*. 2nd ed. New York, Thieme Medical Publishers, Inc. 1995, p.774-777.

### 저자연락처

우편번호 400-103  
인천시 중구 신흥동 3가 7-206  
인하대학교 의과대학 치과학교실  
최진호

원고 접수일 2001년 05월 08일  
게재 확정일 2001년 06월 19일

### Reprint requests

Jin-Ho Choi  
Dept. of Dentistry, College of Medicine, Inha Univ.  
#7-206, 3rd St. Shinheung-Dong, Choong-Gu, Incheon, Korea  
Tel. 82-32-890-2470 Fax. 82-32-890-2475  
E-mail. jinho98@inha.ac.kr

Paper received 8 May 2001  
Paper accepted 19 June 2001