

## 새열낭종에서 기원한 암종으로 오인된 전이성 편평세포암종 1예

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실,\* 임상병리과학교실\*\*

조광재\* · 박현진\* · 신옥란\*\* · 이동희\*

= Abstract =

### A Case of Metastatic Squamous Cell Carcinoma Misrecognized as Branchiogenic Squamous Cell Carcinoma

Kwang-Jae Cho, M.D.,\* Hyun-Jin Park, M.D.,\* Ok-Ran Shin, M.D.,\*\* Dong-Hee Lee, M.D.\*

Department of Otolaryngology-Head\* and Neck Surgery,\*\* Clinical Pathology, The Catholic University of Korea,  
College of Medicine, Seoul, Korea

The existence of primary branchiogenic carcinoma is controversial. In 1950, Martin et al. established four criteria for the diagnosis of primary branchiogenic carcinoma. In 1989, Khafif et al. proposed new modified criteria, which are currently most recognized in the literature. A 54-year-old woman presented the well-defined, fluctuant, painless mass on her left neck and underwent a complete excision under the clinical diagnosis of the branchial cleft cyst. The initial pathological impression was a branchiogenic squamous cell carcinoma. However, it did not coincide with a true primary branchiogenic carcinoma clinically. After the guided biopsy of suspicious areas found a squamous cell carcinoma of the tongue base, the patient was treated by combination chemotherapy with radiotherapy. Thus, we report this case with a review of the literature.

**KEY WORDS** : Squamous cell carcinoma · Branchioma.

## 서 론

새열낭종에서 기원한 암종은 태생기 발육과정에서 나타나는 새성 기관(branchial apparatus)의 상피성 잔유물에서 기원한 악성 변이이다. 이것이 실제 존재하는 것이냐 아니면 원발병소가 확인되지 않은 전이성 암종이 양성 퇴화한 것이냐 하는 논란은 1882년에 Von Volkmann<sup>1)</sup>에 의해 처음 보고된 이래로 계속 되어오고 있다. 그 뒤 Martin 등<sup>2)</sup>이 그들의 15개 증례를 포함한 250개의 증례를 분석한 결과 단 3개의 증례를 제외하고 거의 항상 상기도나 소화기관에서 숨은 원발 병소가 있었음을 보고하면서 원발부위의 발현 없이 진단 후 5년간 생존할 것을 포함한 엄격한 진단기준을 제시하였다. 그 후 Khafif 등<sup>3)</sup>이 두경부의 내시경 검사, CT

및 조직학적 검사상 원발부위가 발견되지 않으면 낭종의 정상 상피세포에서 침윤성의 편평세포암종으로 이행하는 악성이행대가 조직학적으로 확인되는 것만으로도 새열낭종에서 기원한 암종으로 진단할 수 있다고 주장한 바 있다. 물론 Singh 등<sup>4)</sup>의 반대론도 있었지만 Khafif 등<sup>3)</sup>의 주장이 현재까지 가장 많이 인정되고 있다.

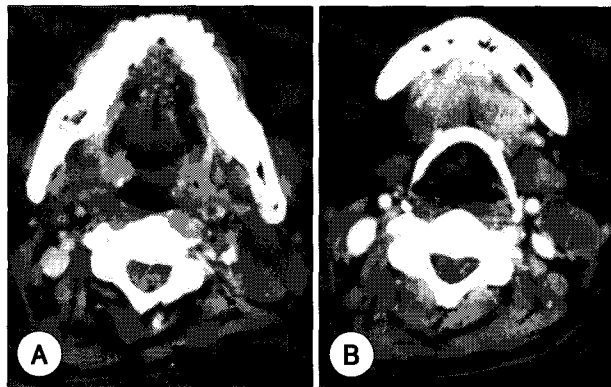
최근 저자들은 좌측 측경부의 양성 새열낭종 적출술 후 원발성 새열낭종암종으로 진단되었으나 병변측의 편도적출술과 범내시경하 유도 조직생검을 시행하여 설기저부에서 같은 형태의 편평세포암종이 확인되어 전이성 암종으로 수정 진단된 1예를 치험하였기에 적출물의 조직병리학적 형태를 분석하여 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

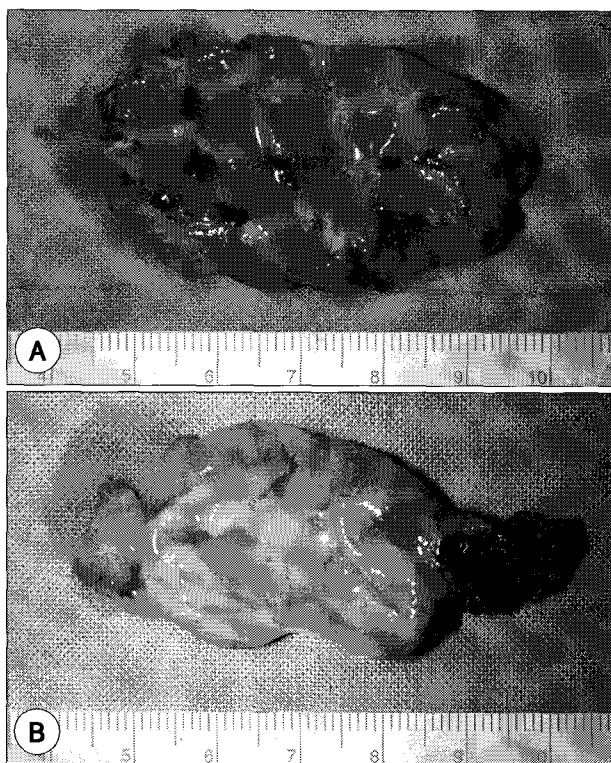
54세 여자환자가 40여일 전에 발견된 좌측 측경부의 종물을 주소로 개인 의원을 경유하여 경부 전산화단층촬영을 시행한 후 수술적 치료를 위하여 전원되었다. 환자의 과거

교신저자 : 이동희, 480-717 경기도 의정부시 금오동 65-1번지  
가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실  
전화 : (031) 820-3564 · 전송 : (031) 847-0038  
E-mail : leedh0814@catholic.ac.kr

력과 가족력 상 특이사항은 없었으며, 음주 및 흡연력도 없었다. 이학적 검사 상 좌측 측경부 상부의 흉쇄유돌근 전연에 5×6cm 크기의 부드럽고, 무통성의 낭성 종괴가 촉지되었다. 개인의원에서 찍은 경부 전산화단층촬영상 좌측 경부 Level II에 각각 4×4cm과 2×1.5cm 크기의 낭성 종괴가 연이어 붙어있는 양상으로 있었으며 내측 후방으로 약간의 고형 음영이 관찰되었으나, 구강 및 인후두부위의 특이소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 그리고 동측의 갑상선에서 1×1cm 크기의 조영 증강되지 않는 종괴 소견이 함

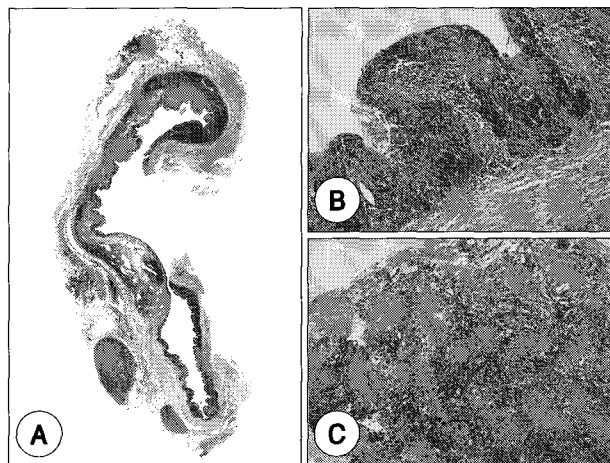


**Fig. 1.** Axial images of the computed tomography scan of neck. A : An ovoid, cystic mass is located anteromedial to the left sternocleidomastoid muscle and posterolateral to the palatine tonsil. B : Another cystic mass is noted inferior to the main mass seen above.



**Fig. 2.** Gross photographs. A : A 5.0×4.0×3.0cm-sized mass is filled with mucoid fluid, and (B) a 3.0×3.0×2.5cm-sized mass is filled with serous fluid.

게 관찰 되었다. 갑상선 기원의 전이암 가능성을 배제하기 위하여 경부 종물의 고형 음영과 갑상선 종물에서 초음파 유도 세침흡인검사를 시행하였으나 각각에서 악성을 시사하는 소견은 관찰되지 않았다. 환자는 새얼낭종 진단 하에 적출술을 시행하였으며 수술 소견상 큰 종물은 5.0×4.0×3.0cm 크기로 내부에 혼탁한 점액성 액체로 채워져 있었고(Fig. 2A) 작은 종물은 3.0×3.0×2.5cm 크기로 내부에 맑은 장액성 액체로 채워져 있었는데(Fig. 2B), 두 종물 모두 주변과 심한 유착없이 쉽게 박리되어 양성 새얼낭종에 합당한 소견을 보였다. 그러나 술 후 조직 검사결과는 중등도 분화성 편평세포암종이었으며 육안 소견상 낭성종괴이고 낭종 내부의 피복된 상피세포가 편평상피이며, 상피세포에서 이형성 상피세포와 부분적으로 퇴행성의 악성이행대가 관찰되어 새얼낭종 기원의 암종으로 생각되었다(Fig. 3A, 3B). 그러나 조직소견 상 낭종 내부의 피복된 상피세포에서 정상 세포가 관찰되지 않고 또한 낭종이 다발성이라 원발불명 낭성 림프절전이의 가능성을 배제하기 위하여 일측 편도적출술과 원발병소 의심부위의 범내시경적 유도 조직생검을 계획하였다. 본 증례에서는 원발부위를 찾기위하여 양전자방출단층촬영(PET ; Positron emission tomography)을 시행하지 않았다. 이는 악성 종양 환자에서 전이병소를 선별하기 위하여 양전자방출단층촬영을 시행한 경우에도 이 결과만으로는 염증과 종양을 구분하기 어려운 경우가 대부분이고, 양전자방출단층촬영은 선별검사로서의 의의만 있기 때문이었다. 또한, 본 증례의 경우 원발부위에 대한 전신의 전이병소를 찾는 것이 아니고 측경부 전이병소에 대한 원발부위를 찾는 것이 목적이었는데, 이러한 경우에는 전신



**Fig. 3.** A : Macroscopic photograph. A narrow band of epithelium is intimately associated with the underlying lymphoid component. Microscopic photographs. B : The lining epithelium of the cyst is diverse from a bland appearance which simulates a dysplastic lesion arising in a branchial cleft cyst, to more atypical lesions with invasion (H & E stain, ×100), and (C) the lingual tonsillar epithelium shows the findings compatible with squamous cell carcinoma (H & E stain, ×100).

보다는 인후두 중심으로의 집중적인 검사가 더 의미있다고 판단하였기 때문이었다.

범내시경적 유도 조직생검 도중 병변측의 설기저부에서 초진당시 이학적 검사 및 전산화단층촬영에서 확인되지 않는 약 1×0.5cm 크기의 종물이 촉지되어 조직검사를 통하여 저분화성 편평세포암종을 확인하였다(Fig. 3C). 수술 창상은 별다른 합병증 없이 회복되었으며 전이검사 상 원격 전이의 소견이 없어 최종 T1N2bM0 병기 진단 하에 추가 항암치료와 방사선치료를 위하여 중앙내과에 전과되었다.

## 고 찰

상경부에서 발견되는 일부 편평세포암종은 간혹 거시적으로 낭성종물의 양상으로 발견되며 이런 종물은 술 전이나 술 중 소견 상 새열낭종으로 오인되기 쉽다. 이런 사례들 중 다른 원발병소가 확인되지 않을 경우에는 새열낭종에서 기원한 암종의 가능성을 고려하게 된다. 하지만 Micheau 등<sup>5)6)</sup>은 71개의 증례를 분석하면서 이들 새열낭종에서 기원한 암종이 사실은 편도에서 기원한 암종의 낭성 전이라고 주장한 바 있고, 많은 다른 저자들<sup>7-10)</sup>에 의하여 새열낭종에서 기원한 암종이 정말 존재하는가에 대한 강한 의문이 제기되어 왔다. 그러나 여전히 새열낭종에서 기원한 암종은 꾸준히 학계에 보고되고 있으며 국내에도 2례가 보고된 바 있다.<sup>1-14)</sup> 이는 새열낭종에서 기원한 암종이 얼마나 희귀하면서도 진단하기 어려운가를 보여주는 것이라 할 수 있고 엄격한 진단기준의 필요성을 시사하고 있다.

새열낭종에서 기원한 편평세포암종은 1882년 Von Volkmann<sup>1)</sup>이 처음 보고한 이후 Martin 등<sup>2)</sup>이 다음과 같은 진단기준을 정하였는데 즉, 1) 종양은 새열낭종이 존재하는 흉쇄유돌근의 전연에 위치해야 하고, 2) 새열낭종에 합당한 조직학적 소견을 보이며, 3) 진단 후 5년간 원발부위의 발현이 없이 생존해야하며, 4) 낭종의 정상 상피세포에서 직접 암종이 발생하는 조직학적 소견이 보여야 한다는 기준이 그것이다. 그러나 5년간의 추적관찰이 어렵고 또한 5년 안에 두경부의 암종과 다른 원인으로 사망한 경우 세 번째 기준은 만족될 수 없으며 대부분의 환자에서 시행되는 술 후 방사선 치료로 원발부위가 치료될 수도 있기 때문에 논란이 되어왔다. 따라서 Khafif 등<sup>3)</sup>은 낭종의 정상 상피세포에서 침윤성의 편평세포암종으로 이행하는 악성이행대가 조직학적으로 확인되고, 두경부의 내시경 검사, CT 및 조직학적 검사 상 원발부위가 발견되지 않을 경우에는 원발성 새열낭종 암종으로 진단할 수 있다고 주장하면서 조직학적 소견의 중요성을 더욱 강조하였고 현재까지 많이 적용되어 왔다. 한편 Thompson 등<sup>10)</sup>은 새열낭종에서 기원한 암종으로 보고된 많은 증례들에서 정상 상피세포로 구성되어 보이는 부위가

실제로는 좀 더 정밀한 검사를 통하여 관찰하여 보면 비정형성을 보이는 분화도가 좋은 비각화성의 편평세포암종이었으며 또한 이들의 대부분에서 원발 편도암이 확인되었다고 주장하였다. 또한 편도암의 낭성 전이의 경우에도 정상으로 보이는 부위가 피복상피에서 관찰될 수 있기 때문에 새열낭종 기원의 암종의 확진은 발생학적으로 새열의 이상을 시사하는 특징적인 도관을 보이는 병변을 확인하여야만 신뢰할 수 있다고 주장하였으며 이러한 증례는 아직 보고된 바가 없으므로 새열낭종에서 기원한 암종의 가능성을 강하게 부정하였다. 이와 같이 새열낭종에서 기원한 암종의 존재 여부에 대해서는 앞으로도 꾸준히 논란이 될 것으로 생각된다. 따라서 중요한 것은 이와 같은 조직학적인 진단의 어려움으로 인하여 전이성 편평세포암종이 새열낭종에서 기원한 암종으로 오인될 가능성과 Waldeyer씨 편도환에서 경부 낭성전이 가 잘 된다는 점을 항상 염두에 두고 진단적 접근을 해야 한다는 것이다. 본 증례의 경우 술 중 소견 상 양성 새열낭종에 합당한 육안소견을 보이고 병리조직소견 상 정상 상피세포는 확인되지 않았으나 이형성 상피세포에서 부분적으로 퇴행성의 악성이행대가 관찰되는 소견을 보여 자칫 새열낭종에서 기원한 암종으로 오인할 소지가 있었으나 범내시경적 유도 조직생검을 통하여 동측 설기저부에서 편평세포암을 확인할 수 있었다.

새열낭종에서 기원한 암종으로 오인된 증례들의 경우 낭성 전이의 원발병소는 편도의 점막 표면을 덮는 상피(surface tonsillar mucosal epithelium)가 아니라 편도와 상피(tonsillar crypt epithelium)이며 이러한 림프상피(lymphoepithelium)는 림프 조직을 에워싸고 있으며 림프구와의 밀접한 관계를 통하여 면역능을 유지함으로써 중앙억제 효과를 보인다. 따라서 원발병소를 찾지 못하거나 원발병소의 크기가 작은 경우가 많고 또한 종양의 진행이 느려 다른 점막 기원의 편평세포암종에 비하여 예후가 좋은 것으로 알려져 있다<sup>10)</sup>. 그리고 분화도가 나쁜 편도암의 경우에는 비인강의 비분화암과 같이 방사선 치료에 매우 반응을 잘하는 것으로 알려져 있다<sup>15)</sup>. 따라서 본 증례의 경우 추가적으로 적극적인 수술적 치료에 앞서 항암치료와 방사선치료가 계획되었다. 그 치료 경과에 대해서는 향후 정기적 추적 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

본 증례에서 한가지 아쉬운 점은 술전 경부 전산화단층촬영에서 2개의 낭종이 있었음에도 새열낭종으로 오인한 점이다. 거의 모든 새열낭종은 단일 낭종을 형성하는데, 이를 감안하였더라면 조금 더 올바른 진단을 내린 후에 치료 방침을 결정할 수 있었을 것으로 저자들은 생각하였다.

**중심 단어 :** 편평세포암종 · 새열낭종.

## References

- 1) Von Volkman R: *Das tiefe branchiogege halskarzinom. Zentralbl Chir.* 1882;9:49-63
- 2) Martin H, Morfit HM, Ehrlich H: *The case of branchiogenic cancer (malignant branchioma).* *Ann Surg.* 1950;132:867-887
- 3) Khafif RA, Prichep R, Minkowitz MM, Cohen MH: *Primary branchiogenic carcinoma.* *Head Neck.* 1989;11:153-163
- 4) Singh B, Balwally AN, Sundaram K, Harel G, Krgin B: *Branchial cleft cyst carcinoma: Myth or reality?* *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1998;107:519-524
- 5) Micheau C, Klijanienko J, Luboinski B, Richard J: *So-called branchiogenic carcinoma is actually cystic metastases in the neck from a tonsillar primary.* *Laryngoscope.* 1990;100:878-883
- 6) Micheau C, Cachin Y, Caillou B: *Cystic metastases in the neck revealing occult carcinoma of the tonsil: A report of six cases.* *Cancer.* 1974;33:228-233
- 7) Compagno J, Hyams VI, Safavian M: *Does branchiogenic carcinoma really exist?* *Arch Pathol Lab Med.* 1976;100:311-514
- 8) Wensel JP, Talbot JM: *Imaging case study of the month: cystic squamous cell carcinoma metastatic to the neck from occult primary.* *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1992;101:1021-1023
- 9) Charlton G, Singh B, Landers G: *Metastatic carcinoma in the neck from an occult primary lesion.* *South Afr J Surg.* 1996;34:37-39
- 10) Thompson LDR, Heffner DK: *The clinical importance of cystic squamous cell carcinomas in the neck.* *Cancer.* 1998;82:944-956
- 11) Lin YC, Fang SY, Huang RH: *Branchiogenic squamous cell carcinoma: a case report.* *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2004;33:209-212
- 12) Girvigian MR, Rechdouni AK, Zeger GD, Segall H, Rice DH, Petrovich Z: *Squamous cell carcinoma arising in a second branchial cleft cyst.* *Am J Clin Oncol.* 2004;27:96-100
- 13) Yang YS, Oh JK, Jeon HS, Hong KH: *A Cases of Primary Branchial Cleft Cyst Carcinoma.* *Korean J Otolaryngol.* 2004;47:1319-1322
- 14) Kim HC, Hwang IK, Kim BS, Nam KS, Hwang WC: *Squamous cell carcinoma arising from second branchial cleft cyst: Case Report.* *J Korean Radiol Soc.* 2003;48:127-129
- 15) Klijanienko J, Micheau C, Azli N, et al: *Undifferentiated carcinoma of nasopharyngeal type of tonsil.* *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1989;115:731-734