대한두경부종양학회지
제 25 권 제 1 호 2009

online©ML Comm

새성기형에 관한 임상적 고찰

고려대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실,[1] 영상의학교실[2]
김무필[1] · 최 환[1] · 박세진[1] · 정은재[1] · 백승국[1]
우정수[1] · 권순영[1] · 이남준[2] · 정광윤[1]

= **Abstract** =

Clinical Analysis of Branchial Anomalies : A Review of 72 Cases

Moo-Pil Kim, MD[1], Hwan Choe, MD[1], Se-Jin Park, MD[1], Eun-Jae Chung, MD[1], Seung-Kuk Baek, MD[1], Jeong-Soo Woo, MD[1], Soon-Young Kwon, MD[1], Nam-Joon Lee, MD[2], Kwang-Yoon Jung, MD, PhD[1]
Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery[1] and Radiology,[2] Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Background and Objectives : Branchial anomaly is a common neck pathology seen by otolaryngologist. Although there is still controversy regarding the origin, almost all surgeon agree that branchial anomalies result from incomplete involution of the branchial apparatus. Depending on its anatomic location, branchial anomalies can be classified into first, second, third and fourth anomaly. The purpose of this study is to evaluate the incidence of different categories of branchial anomalies and to determine proper method of diagnosis and treatment.

Subjects and Method : A retrospective chart review was conducted for 72 patients with branchial anomalies operated on at the Korea University Anam Hospital from 1996 to 2007. The patient's sex, age, presenting symptoms, classification, site of lesion, diagnostic studies, surgical therapy and post-operative surgical complication were reviewed.

Results : Patients were commonly seen in the 3rd decades. Eleven patients (15.3%) were first branchial anomalies, 52 (72.2%) were second, 1 (1.4%) was third, and 8 (11.1%) were fourth. Of the types of anomalies, cyst were most commonly seen. In cases of 3rd and 4th branchial anomalies, barium contrast study can delineate the course of sinus or fistula. All cases was operated on for branchial anomalies, there were no major post-operative complication.

Conclusion : Cervical mass and recurrent cervical infection or abscess are suspect for branchial anomalies. Especially, clinical history of dysphagia, and recurrent painful swelling in the thyroid region in young patients should raise the suspicion of 3rd and 4th branchial anomalies. Careful history, clinical examination and radiographic study were essential parts in diagnosis of branchial anomalies. Although surgical management of branchial anomalies depend on its type, nature and extent, complete excision is the major surgical procedure.

KEY WORDS : Branchial anomalies · Branchial cleft · Sinus · Fistula.

서 론

새성기형은 가장 흔한 선천성 경부질환으로 태생기 발육 과정에서 나타나는 새성기관의 잔유물에 의해 발생한다.[1)] 해부학적 위치 및 기원에 따라 제1, 제2, 제3, 제4기형으로 분류하며, 형태에 따라서 낭(cyst), 동(sinus) 그리고 루(fistula)의 형태로 나뉜다.

제1새성기형은 이개의 하방 및 후방 부위의 종창으로 나타난다. Work의 분류법에 따라서 제1형, 제2형으로 나뉘며, 제1형은 외이도 연골부위의 이상으로 발생하며 제2형

교신저자 : 정광윤, 136-705 서울 성북구 안암동 5가 126-1
고려대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실
전화 : (02) 920-5486 · 전송 : (02) 925-5233
E-mail : kyjung@kumc.or.kr

은 외이도와 이개의 발달이상으로 발생한다. 제2새성기형은 대개 흉쇄유돌근 전방의 경부 상 2/3에 종창형태로 나타나며 전체 새 기형의 약 95%를 차지하며,[2] 남녀 비는 비슷하게 발생하며 약 2%에서 양측 성으로 발생한다.[3] 제3새성기형은 광경근의 하부, 흉쇄유돌근의 전방부, 갑상선의 상극 근처에 종창이나 동의 형태로 나타나며, 이상와의 상부를 통해 개구하여 인두와 연결된다. 제4새성기형은 극히 드문 아형으로 측경부의 낭이나 이상와의 누공의 형태로 나타나며, 개구부가 이상와 첨부에 존재하기 때문에 소아기 때 증상이 발현된다.[4]

새성기형은 형태에 따라서 낭, 동 그리고 루의 형태로 나뉜다. 낭은 인두나 피부로의 연결이 모두 없는 경우이며, 동은 인두나 피부로의 연결이 있어 인두 쪽으로 연결이 있는 것은 새낭동(Branchial pouch sinus)이라 하고, 피부 쪽으로 연결이 있는 경우 새열동(Branchial cleft sinus)이라 하며, 인두와 피부 쪽으로 모두 연결이 있는 것은 새열루(Branchial cleft fistula)라 한다.[5]

새성기형은 기원하는 새성기관에 따라 발생하는 위치가 다르며 임상 양상이 다양하여 진단이 쉽지 않은 경우가 있다. 이에 저자들은 본원에서 새성기형으로 진단받고 수술받은 환자들을 분석하여 새성기형의 임상양상, 진단방법, 치료방향을 제시하고자 한다.

대상 및 방법

1996년 1월부터 2007년 1월까지 최근 11년간 본원에서 새성기형으로 진단받고 수술을 시행 받은 75명의 환자 중 의무기록이 불충분하여 분석이 어려운 2명과 수술 후 추적관찰이 되지 않은 1명을 제외한 72명의 환자를 대상으로 하였다.

환자를 성별, 나이, 기원 및 형태에 따른 분류, 병변의 위치, 외래 초진 시 주소, 과거 감염력, 진단방법, 수술 방법 및 합병증 여부 등에 대해 의무기록을 통하여 후향적으로 분석하였다.

결 과

1. 성별 및 나이

총 72 예 중 남자는 37예, 여자는 35예로 남녀 비는 차이가 없었으며, 평균 나이는 29.7세로 10대 미만이 8예, 10~19세는 9예, 20~29세는 25예, 30~39세는 10예, 40~49세는 8예, 50~59세는 8예, 60세 이상은 4예로 20대가 가장 많았다(Table 1).

Table 1. Age of Branchial anomalies' patients

Age (years)	No. of patient
10 >	8
10 − 19	9
20 − 29	25
30 − 39	10
40 − 49	8
50 − 59	8
60 ≦	4

2. 해부학적 기원 및 형태에 따른 분류

해부학적 기원에 따른 분류상 제1새성기형은 11예(세분하여 제1형은 2예, 제2형은 9예), 제2새성기형은 52예, 제3새성기형은 1예, 제4새성기형은 8예로 제2새성기형이 72.2%로 가장 많았다. 형태에 따른 분류상 낭은 59예로 가장 많았으며, 동은 12예, 루는 1예에서 발견되었다(Table 2).

3. 병변의 좌우 위치

좌측에서 발생한 경우가 38예, 우측에서 발생한 경우는 33예였으며, 제2 새성기형 1예의 경우 양측에서 발생하였다. 제3새성기형 및 제4새성기형의 경우 모두 좌측에 병변이 발견되었다(Table 3).

4. 외래 초진 시 주소 및 과거 감염력

외래 초진 시 주소는 경부 종물이 48예(67%)로 가장 많았으며, 압통 및 통증이 20예(28%), 연하곤란은 3예, 이루는 1예였다. 연하곤란을 호소한 환자의 경우 모두 제4새성기형이었으며, 이루를 호소한 1예의 경우 제1새성기형 환자였다(Table 4).

새성기형의 반복적인 감염력을 알아보기 위하여 이전의 절개 및 배농 횟수를 비교하였는데, 29예에서 절개 및 배

Table 2. Types of branchial anomalies

Type	Cyst	Sinus	Fistula	Total(%)
First Type I	1	1	0	2(2.8)
First Type II	6	3	0	9(12.5)
Second	49	2	1	52(72.2)
Third	1	0	0	1(1.4)
Fourth	2	6	0	8(11.1)
Total	59	12	1	72(100)

Table 3. Sites of branchial anomalies

Type	Left	Right	Both
First Type I	1	1	0
First Type II	6	3	0
Second	22	29	1
Third	1	0	0
Fourth	8	0	0
Total	38	33	1

Table 4. A major Presenting symptom of brachial anomalies

Symptom	No. of patient(%)
Palpable neck mass	48(66.7)
Painful swelling	20(27.8)
Dysphagia	3(4.1)*
Otorrhea	1(1.4)†

*: 4th branchial anomalies, †: 1st branchial anomalies

농을 1회 이상 시행 받았고 이 중 13예는 2회 이상의 절개 및 배농을 시행 받은 환자로 제1새성기형은 3예, 제2새성기형은 4예, 제4새성기형은 6예로 제4새성기형의 경우 반복적인 감염이 많았다(Table 5).

5. 진단방법

영상의학적 검사방법으로는 경부 전산화 단층촬영이 70예에서 실시되었으며, 경부초음파는 2예, 자기공명영상촬영은 2예, 경부 바리움 조영술은 7예에서 실시되었다. 경부 전산화 단층촬영 결과 제1새성낭종의 경우 이개 및 하악각 근처에서(Fig. 1), 제2새성낭종의 경우에는 경동맥 삼각부위에서 주변과 경계가 비교적 분명한 조영 감소된 종물이 관찰되었으며(Fig. 2), 제4새성기형의 경우는 좌측 갑상선 주위에 급성 염증 및 농양을 형성하였다(Fig. 3). 제4새성기형 8예 중에서 7예에서는 경부 바리움 조영술을 시행하였으며 이중 6예에서 좌측 이상와 첨부에서 시작하여 하행하는 누관을 확인할 수 있었다(Fig. 4).

세침흡인세포검사는 42예(58%)에서 시행하였다. 결과는 비적절검체가 28예(67%)였으나 11예(26%)에서 편평상피세포가 관찰되었고, 3예(7%)에서는 림프구 및 호중구와 함께 편평상피세포가 관찰되어 약 33%에서 새성기형을 의심할 만한 소견을 보였다.

Table 5. Numbers of incision and drainage

No. of incision and drainage	No. of patient(%)
0	43(60)
1	16(22)
2 ≦	13(18)*

*: 3 cases were 1st branchial anomalies, 4 cases were 2nd branchial anomalies, 6 cases were 4th branchial anomalies

Fig. 1. The first branchial cleft sinus : Neck CT Scan shows the peripheral rim-enhanced mass lesion at the right parotid gland area(arrow).

6. 치료 및 합병증

수술적 치료는 완전 적출술을 기본으로 하였다. 급성염증이 있었던 경우에는 경험적 항생제를 투여하였으며, 불가피한 경우를 제외하곤 최대한 절개 및 배농술을 피하였다. 약 2개

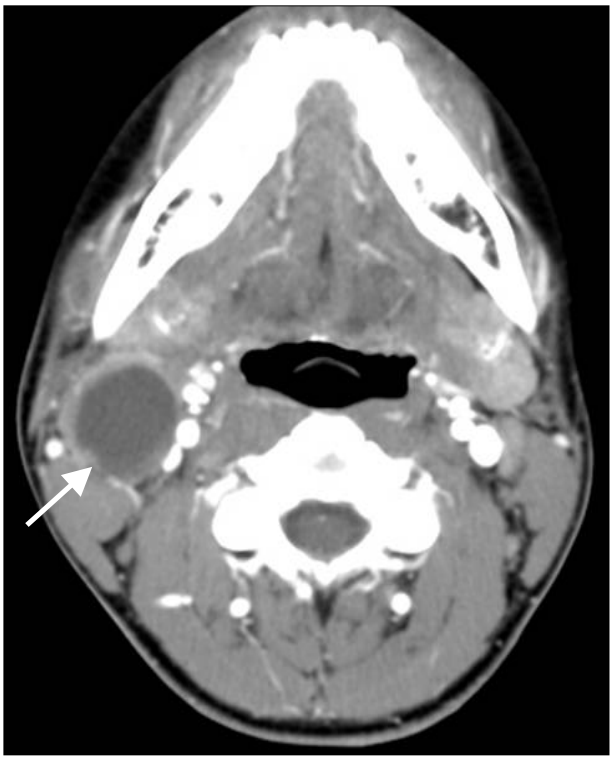

Fig. 2. The second branchial cleft cyst : Neck CT Scan shows a right-sided cystic mass lateral to the carotid artery and jugular vein at the carotid triangle level(arrow).

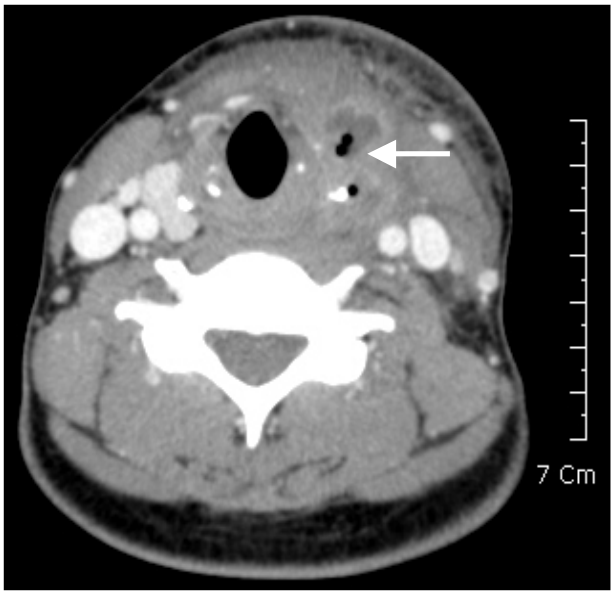

Fig. 3. The fourth branchial pouch sinus : Neck CT Scan shows left-sided inflammatory process and air in sinus tract(arrow).

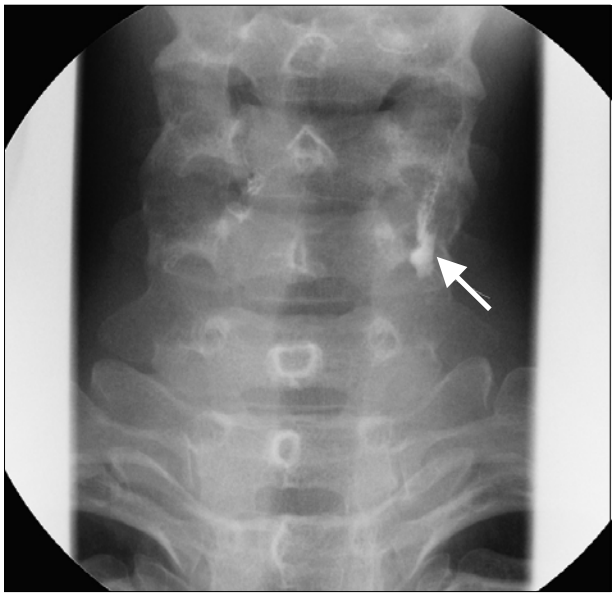

Fig. 4. The fourth branchial pouch sinus : Barium pharyngoesophago-gram shows sinus tract(arrow) extending from left pyriform sinus.

Table 6. Treatments of branchial anomalies

Type	Treatment(No. of patient)
First Type I	CE (2)
First Type II	CE (5)
	CE + SP (4)
Second	CE (52)
Third	CE (1)
Foruth	CE (2)
	TCA (1)
	CE + TCA (5)

CE : Complete excision, SP : Superficial parotidectomy, TCA : Tricholoroacetic acid chemocauterization under suspension laryngoscope

월 후 급성염증이 완전히 소실된 것이 확인되면 수술을 시행하였다. 제1새성기형 Ⅰ형 2예는 완전적출술을 시행하였으며, 제1새성기형 Ⅱ형 9예 중 5예는 완전적출술을, 4예는 이하선천엽절제술과 완전적출술을 동시에 시행하였다. 제2, 제3새성기형의 경우 모든 예에서 완전적출술을 시행하였으며, 제2새성루 1예에서는 계단형 절개를 시행하였다. 제4새성기형의 경우 2예에서 완전적출술을, 1예에서 내시경적 소작술을 시행하였으며, 5예에서는 완전적출술과 내시경적 소작술을 동시에 시행하였다(Table 6).

술 후 합병증은 제2새성기형 환자 1예에서 수술 후 일시적인 변연신경마비가 있었으나 추후 외래추적 관찰상 완전히 회복되었으며, 제4새성기형 환자 1예에서 수술 후 일시적 창상감염 소견이 있었으나 추후 보존적 치료로 회복되었다.

고 찰

새성기형은 형태나 발생위치에 따라 임상양상이 다양하기 때문에 진단시 정확한 병력청취와 철저한 검사를 요한다. 새성낭은 어느 연령에서도 발병가능하나 대부분 10대에서 30대에 발견되며 남녀차이는 없다. 또한 대부분이 부드럽고 둥글며 압통이 없으나, 감염된 낭종은 진행하여 종물의 크기가 커지고 통증이 유발하며 농을 형성하기도 한다. 저자들의 경우에도 새성낭은 20대에서 가장 많이 발병하였고, 남녀 차이도 없었으며, 외래 초진 시 주증상도 경부 종물이 가장 많았다. 새성동 및 루는 낭과 달리 주위로 감염이 쉽게 일어나며 피부개구부의 농성 분비물 등으로 인해 발병 연령이 낮으며 저자들에 따라 보고가 다르나 여성에서 호발하고 1/3에서는 양측 성으로 발생한다.[6] 저자들의 경우 동 및 루의 평균 발병연령은 22.5세로 낭의 평균 발병연령 31.4세보다 낮았으나 남녀 비는 남자 9예, 여자 5예로 오히려 남자가 조금 많았으며, 양측성은 제2새성루 1예가 있었다.

새성기형은 해부학적 기원에 따라 4가지로 분류하며, 그 발생 빈도는 문헌마다 차이가 있으나 제2세성기형이 95%로 가장 흔하며, 나머지가 제1, 제3, 제4새성기형은 지극히 드물다 하였다.[2] 그러나 최근 새로운 진단 기술의 발달로 인해 제3, 제4기형이 적지 않게 보고가 되고 있는데, Choi 등은 제1, 제3, 제4기형의 비율은 각각 25%, 8%, 2%라 하였으며,[5] Yang등은 각각 23%, 2%, 8.5%라 하였다.[7] 저자들의 경우 제2기형이 72.2%로 가장 많았고, 제1기형, 제3기형, 제4기형이 각각 15.3%, 1.4%, 11.1%로 특히 제4기형이 많았다. 경동맥 삼각에 위치한 누관이 없는 새성낭의 경우 제2기형과 제3기형을 명확히 구분하기 힘들며 이런 경우 저자들은 다른 저자들과 같이 모두 제2새성기형으로 분류하였다.[7-8] 저자들의 제3기형 1예의 경우 갑상선주위에 경부 종물 및 압통이 있어 수술적 치료를 시행한 예로 수술 소견상 종물이 설하신경과 설인신경 사이를 통과하며, 갑상설골막을 관통하는 소견을 보였으나 이상와의 상부와의 연결은 없이 맹낭으로 끝나는 경우로 제3새성낭으로 분류하였다.

제4새성기형은 모든 새성기형 중 가장 드문 질환으로 현재까지 약 100예 정도가 보고 되고 있다. 이론적인 복잡한 주행경로와는 달리 임상적인 낭은 경부의 저부에 위치하며 대혈관과는 관련이 없는 경우가 많은데, 이는 발달 과정에서 경부 대혈관을 감고 돌아야 하는 복잡함 때문에 기형적인 주행경로가 대혈관 주위에서 제대로 형성되지 않고 퇴화되기 때문이며, 실제로 완전한 제4새성루는 현재까지 문헌에 보고 된 바가 없다.[9] 제4새성기형은 거의 모든 예에서 좌측에서 발생하며 우측 단독과 양측에서 발생한 증례는 매우 드물게 보고 되고 있다. 좌측에 흔한 이유로는 우측 종새체(utilmobranchial body)의 발달이 미숙하거나 없는 경우가 많고, 제4새궁의 혈관계의 발달이 비대칭적이며,

선천적 흉선 기형도 좌측에 더 많은 것 등이 제시되고 있다.[10] 증상으로는 반복되는 경부감염, 갑상선염, 연하곤란 등이 나타나며 대부분 10세 미만의 소아기에 증상이 나타나며 늦어도 20세 이전에 증상이 발현되는 경우가 대부분이다.[4] 저자들은 8예의 제4새성기형을 발견할 수 있었으며, 8예 모두 좌측이었고, 6예는 동의 형태이었으며, 3예에서 연하곤란, 2예에서 갑상선염의 소견을 보였다.

진단방법으로는 철저한 이학적 검사, 문진 등과 더불어 세침흡인세포검사 및 영상의학적 검사가 사용된다. 새성낭의 상피조직은 90%가 편평세포로 구성되며, 8%는 섬모원주상피세포, 그리고 나머지는 혼합된 형태를 보일 수 있으며 낭종내에는 다량의 콜레스테롤 결정을 포함하는 노란색 점액성 액체가 들어있다. 이러한 이유로 세침흡인세포검사상 노란색 점액성 액체가 보이며 편평세포가 관찰될 경우 새성기형을 진단하는데 도움이 된다. 영상의학적 검사방법으로는 조영증강 경부 전산화 단층 촬영이 주가 되며 가장 좋은 방법이다. 전형적인 낭은 흉쇄유돌근의 전방을 따라 경동맥 바깥쪽으로 비교적 균질의 종괴로 관찰되지만 낭의 중앙부에는 약간 감소된 음영을 보이고 주위의 테두리에는 감염여부에 따라 다양한 조영증강 양상을 확인할 수 있다.[11] 경부 바리움 조영술은 이상와에서 시작하는 동로를 확인할 수 있으나 조영제가 동로로 들어가지 않는 경우에는 확인 할 수 없는 문제가 있다. 따라서 조영제 검사를 실시하기 이전에 감염이 의심되는 경우에는 염증과 부종에 의해 동로가 막혀서 제대로 조영이 안 되는 것을 사전에 방지하기 위해 항생제 투여를 충분히 시행한 후 실시해야 한다.

새성기형의 가장 좋은 치료는 완전적출술이다. 그러나 많은 환자에서 기존의 절개 및 배농의 치료력이 있어 진단 및 치료에 어려움이 있다. 따라서 급성 감염이 발생했을 때는 항생제의 정주로 치료하며, 절개 및 배농은 패혈증, 심경부 감염 및 상기도 폐쇄의 위험이 있을 때와 같이 응급상황에 한해서 제한적으로 행해야 한다는 의견이 지배적이다.[1-2,9] 방사선 치료 및 경화제 주입 등은 완치의 가능성이 적고 재발 가능성이 많으며 악성병변을 배제할 수 없어 추천되지 않으나,[1,8,10] Roh등은 12예의 새성낭종 환자를 OK-432로 치료한 결과를 보고하면서 경화제 주입을 초 치료로 주장하기도 하였다.[12] 제1새성기형의 수술 시에는 안면신경의 확인 및 보존에 유의하여야 하며, 동로가 안면신경보다 내측에 존재하거나 안면신경 분지 사이를 관통하는 경우에는 이하선천엽적출술과 함께 병변을 적출해야 한다. 제 4 새성기형의 경우 절개선은 갑상선 절제술과 같은 피부절개를 가하고 반회후두신경을 보존하면서 새기형이 포함되도록 박리하고 이상와 첨부를 노출시킨 후 최대한 하인두에 가까운 부위에서 이중 결찰을 시행한다.[8] 최근에는 내시경적 소작술이 각광받는 초치료법으로 사용되고 있다. 1998년 Jordan 등이 처음으로 내시경적 소작술을 이용하여 이상와 누공을 치료하였음을 보고하였으며, 2004년엔 Vettet이 10명의 제4새성기형 환자를 재발없이 내시경적 소작술 단독으로 완치하였음을 보고하였다.[4,9] 이러한 치료법의 장점으로는 절제술로 인한 경부 주요 구조물의 손상을 피할 수 있으며, 술 후 합병증이 상대적으로 적으며, 입원기간이 짧아 환자의 부담이 적다는 점을 들 수 있다.

결 론

일측성 경부 종물 및 반복적인 감염을 주소로 내원한 경우 반드시 새성기형을 감별해야 한다. 새성기형의 경우 제2새성기형이 가장 흔하고 영상의학적 진단방법으로는 주로 경부 전산화 단층 촬영을 사용하나 전경부 하방의 종물, 연하장애, 갑상선주위 감염소견 등이 있을 경우 제3, 4새성기형을 의심하여 바리움 조영술 등의 추가적인 검사를 시행해야 하며, 새성기형의 경우 양측에 생기는 경우도 있으므로 주의를 요한다. 이를 위해선 정확한 발생학적, 해부학적 이해가 필요하며, 철저한 문진 및 다양한 진단 검사를 바탕으로 적합한 수술적 치료를 시행하는 것이 필요할 것으로 사료된다.

중심 단어 : 새성기형 · 새열 · 동 · 루.

References

1) Chandler JR, Mitchell B. *Branchial cleft cysts, sinuses and fistulas. Clin North Am. 1981;14:175-186.*
2) Kenealy JF, Torsiglieri AJ, Tom LW. *Branchial cleft anomalies: A five year retrospective reviews. Trans Pa Acad Ophthalmol Otolaryngol. 1990;42:1022-1025.*
3) Tooney JM. *Cysts and tumors of the pharynx. 2nd ed. Philadelphia: Saunders;1980. p.2323-2342.*
4) Jordan JA, Graves JE, Manning SC, McClay JE, Biavati MJ. *Endoscopic cauterization for treatment of fourth branchial cleft sinuses. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1998;124:1021-1024.*
5) Choi SS, Zalzal GH. *Branchial anomalies: A review of 52 cases. Laryngoscope. 1995;105:909-913.*
6) Lee HS, Lee SH, Cho SH, Huh YD. *Fourth Branchial pouch sinus 1 case. Korea J Otolaryngol. 2000;43:785-788.*
7) Yang C, Cohen J, Everts E, Smith J, Caro J, Andersen P. *Fourth branchial arch sinus: Clinical presentation, diagnostic workup and surgical treatment. Laryngoscope. 1999;109:442-446.*
8) Tae K, Jeong SW. *A clinical study of branchial anomaly. Korean J Otolaryngol. 2002;45:175-186.*
9) Verret DJ, McClay J, Murray A, Biavati M, Brown O. *Endoscopic cauterization of fourth branchial cleft sinus tracts. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 2004;130:465-468.*
10) Mandell DL. *Head and neck anomalies related to the branchial*

apparatus. Otolaryngol Clin North Am. 2000;33:1309-1332.

11) Coppens F, Peene P, Lemahieu SF. *Diagnosis and Differential diagnosis of branchial cleft cyst by CT scan. J Belge Radiol. 1990; 73:189-196.*

12) Roh JL, Sung MW, Kim KH, Rark CI. *Treatment of branchial cleft cyst with intracystic injection of OK-432. Acta Otolaryngol. 2006;126:510-514.*