

제2열 새열 낭종으로 오인되었던 편도암의 낭성 경부 임파절 전이 1예

순천향대학교 의과대학 천안병원 이비인후과학교실
박승범 · 노민호 · 반원우 · 반명진 · 박재홍

= Abstract =

A Case of Cystic Lymph Node Metastasis of Tonsil Cancer Mimicking 2nd Branchial Cleft Cyst

Seung Bum Park, MD, Minh Ho Noh, MD, Won Woo Ban, MD, Myung Jin Ban, MD,
Jae Hong Park, MD, PhD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

Cystic lymph node metastasis of head and neck squamous cell carcinoma(HNSCC) which presumed to be mainly originated from oropharynx including Waldeyer's ring may present as a benign cystic mass on lateral neck such as branchial cleft cyst. Branchial cleft cyst is one of the most common lateral neck cystic mass which may result in regional infection or lymph adenopathy. Many of previously reported literatures showed the incidence of cystic lymph node metastasis from oropharynx including Waldeyer's ring. Preoperative imaging studies and fine needle aspiration cytology cannot provide the accurate results until excision of cystic mass for the diagnostic or therapeutic purpose. Recently, we experienced the rare case of cystic lymph node metastasis from ipsilateral tonsil, which mimicked infected 2nd branchial cleft cyst. Thus, we reported our experience with presentation of case and review of literatures.

KEY WORDS : Tonsil cancer · Branchial cleft cyst · Cancer of unknown primary.

서 론

새열 낭종(Branchial cleft cyst)은 성인의 외측경부에서 발생하는 낭성 종괴의 가장 흔한 원인 중 하나이다. 하지만 낭성 종괴에 있어서, 처음에 새열낭종으로 진단하였으나, 실제로는 전이성 편평상피세포암이었던 경우도 약 11%에서 21%에 이른다고 보고된 바 있다.¹⁻³⁾

1881년 Von Volkman은 외측경부에서 발생하는 편평상피세포암은 branchial clefts 기원의 잔여조직에서 유래된 것이라고 발표하였으며 당시에는 이러한 종양을 branchio-

genic carcinomas 라고 명명하였고 원발부위에 대한 추가적인 검사 또한 고려되지 않았다.⁴⁾ 1944년에 이르러서야 Hayes Martin은 외측경부에 발생한 편평상피세포암은 거의 대부분 전이성 암종이므로 원발부위를 찾기 위한 검사가 필요하다고 주장하였고 앞서 branchiogenic carcinoma로 명명된 질병군 또한 원발부로부터 전이된 임파절과 구분되어야 한다고 주장하였다.^{5,6)} 그러나, 이후 경부외측에 발생한 낭성 암종에 대한 Gourin과 Johnson의 연구 및 Neel과 Pemberton의 연구에서 전이암종과 구분하여 새열낭종에서 기원한 암종으로 확인된 사례는 보고되지 않았고 모두 낭성임파절 전이에 의한 전이암종으로 확인되었다.^{7,8)}

앞서 보고된 연구들의 결과를 토대로 현재는 branchial cleft carcinoma는 존재하지 않거나 극히 드문 질병으로 보는 시각이 일반적이다.⁹⁾ 따라서, 성인에서 발생한 새열낭종으로 판단되었던 경부외측의 낭성종괴에 대하여 수술

Received : October 12, 2015 / Revised : October 25, 2015

Accepted : November 1, 2015

교신저자 : 박재홍, 충청남도 천안시 동남구 봉명동 23-20
순천향대학교 의과대학 천안병원 이비인후과학교실

전화 : (041) 570-2265 · 전송 : (041) 579-9022

E-mail : entparkong@hanmail.net

전 또는 수술 후 병리검사 상 편평상피세포암으로 확인된다면 반드시 원발부위를 찾는 검사가 시행되어야 한다. 최근 저자들은 제2형 새열낭종으로 오인된 전이성 양성임파절을 경험하였기에 저자들의 원발부위를 찾아 치료하기까지의 과정을 문헌고찰과 더불어 보고하고자 한다.

증 례

51세 남자환자가 내원 수 주전부터 발생한 좌측 상경부(level II)의 통증 및 부종을 주소로 외래로 내원하였다. 환자는 내원 3년 전 같은 증상으로 본원 이비인후과 외래를 방문하여 좌측 경부 level II의 양성종괴에 대한 초음파유도 흡인생검 상 농양과 비특이적 염증 소견 외에 악성종양세포는 보고되지 않았었으며 흡인생검 이후 농양의 천자로 인해 증상은 호전되었었고 이후 같은 부위의 간헐적인 부종이 1년에 2차례정도 있었으나 투약 후 호전되었던 과거력이 있었다. 가족력상 특이사항은 없었으며, 내원 당시 좌측 상경부의 부종과 통증 외에 38도의 발열 및 인후통을 호소하고 있었으며, 외래에서 시행한 이학적 검사상 좌측 경부 Level II에서 압통을 동반한 2.8 cm의 연성 종괴가 촉지 되었으며 그 외 주위 임파절은 촉지되지 않았다. 진찰시 시행한 비인두 및 후두내시경상 구강, 비강, 비인두를 포함한 인두 및 후두의 특이 소견은 없었고, 혈액검사는 백혈구 수치($10900/\mu\text{l}$ 정상: $10000/\mu\text{l}$ 이내)와 C-반응단백(24 mg/L , 정상: 4 mg/L 이내)이 정도의 상승 소견을 보였다. 기타 면역혈청검사상 이상 소견은 없었고, 흉부단순촬영 및 심전도검사서 역시 특이 소견은 보이지 않았다.

내원하여 시행한 경부전산화단층촬영 상 3년전 영상에 비해 크기의 변화가 거의 없는 좌측 경부 Level II의 양성종괴 및 주변의 임파절 종창 소견이 관찰되어 이에 대한 각각의 세침흡인세포검사 및 항산균 염색 및 배양검사(acid fast bacillus stain & culture)를 시행하였고 병리검사상 비특이적 염증 및 임파절의 반응성 증식소견을 보였고 결핵균도말 및 배양검사는 음성이었다(Fig. 1).

수술 전 영상검사 및 조직검사 결과를 근거로 저자들은 제2형 새열낭종의 감염상태로 판단하였고 2세대 세팔로스포린과 소염제를 포함한 2주간의 약물치료를 시행하였다. 이후 좌측 상경부의 통증은 소실되었고 내원 시 정도의 상승 소견을 보였던 CRP도 정상값을 보여 병변에 대한 절제술을 시행하였다. 수술 시 좌측 경부 Level II의 이복근의 후복(posterior belly of digastric muscle)아래의 양성종괴와 함께 술전 영상에서 종창소견을 보였던 좌측 악하선 후방에 접한 임파절을 확인한 후 함께 제거하였다(Fig. 2). 임파절에 대하여는 병리과에 냉동절편검사를 의뢰하여 반응성 증식 소견을 확인 후 수술을 종료하였다. 이후 술후

병리검사상 임파절은 반응성 증식 소견을 보였으나 양성종괴는 편평상피세포암 소견을 보여 원발부위미상암에 준하여 원발부위를 찾기 위한 검사들을 진행하였다. 양성종괴 절제술 후 시행한 양전자 방출단층촬영술(positron emission tomography-computed tomography scan, PET-CT scan)에서 좌측 편도와와 좌측 설기저부에서 비대칭적인 F-deoxyglucose의 섭취 증가 소견을 보였고(Fig. 3), 이 후 촬영한 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI)상에서는 PET-CT scan에서 F-deoxyglucose의 섭취 증가 소견을 보였던 부위에 원발부위로 의심할 만한 이상 소견은 확인할 수 없었다. 기타 상부 소화호흡기 내시경 검사 및 대장 내시경상 비정상적인 점막병변은 관찰되지 않았다.

저자들은 좌측 편도 및 설기저부에 원발부가 존재할 가능성을 염두해 두고 전신마취 하에 범내시경 검사를 통한 이상병변에 대한 조직생검과 동측의 편도절제술 및 설기저부점막 절제술을 시행 후 적출된 좌측 편도내의 0.6 cm의 딱딱한 결절성 종괴가 확인되어 냉동절편검사를 의뢰하였

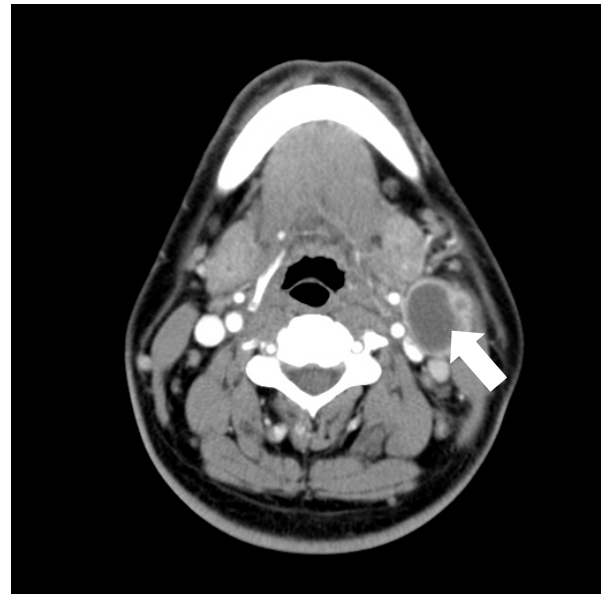


Fig. 1. Preoperative enhanced CT axial view. 2.8 x 2.0cm sized well defined cystic mass is noted. (arrow)

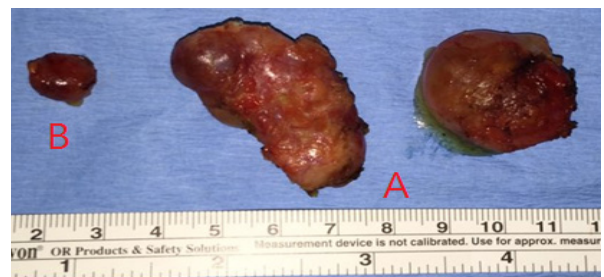


Fig. 2. Specimen from 1st Operation (Excisional biopsy). 2.8 x 2cm sized cystic mass and 2 x 2cm sized lymph node (A) and other enlarged lymph node(B) was retrieved. Result of frozen biopsy of all retrieved lymph nodes except cystic mass were reactive hyperplasia.

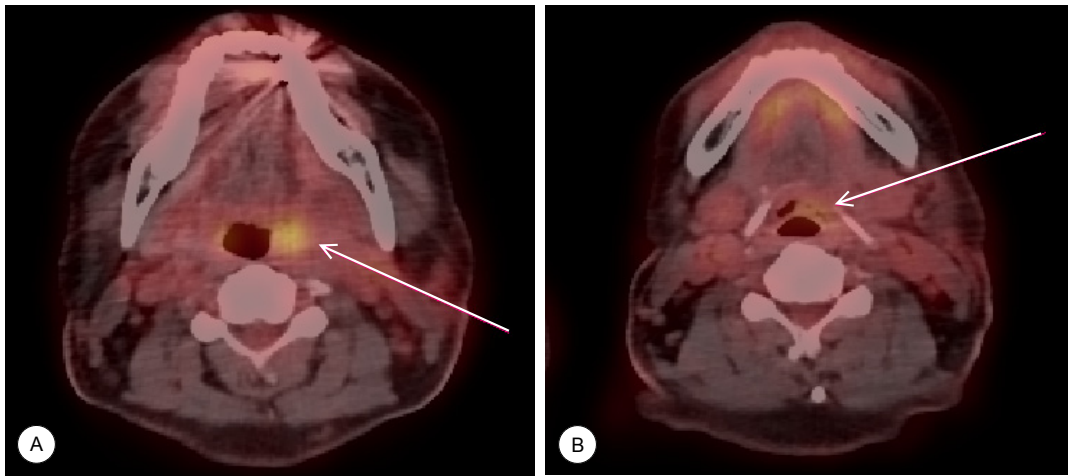


Fig. 3. PET-CT scan image. Asymmetric increased uptake of F-deoxyglucose in left side tonsil fossa(A) and base of tongue(B). (arrowed).

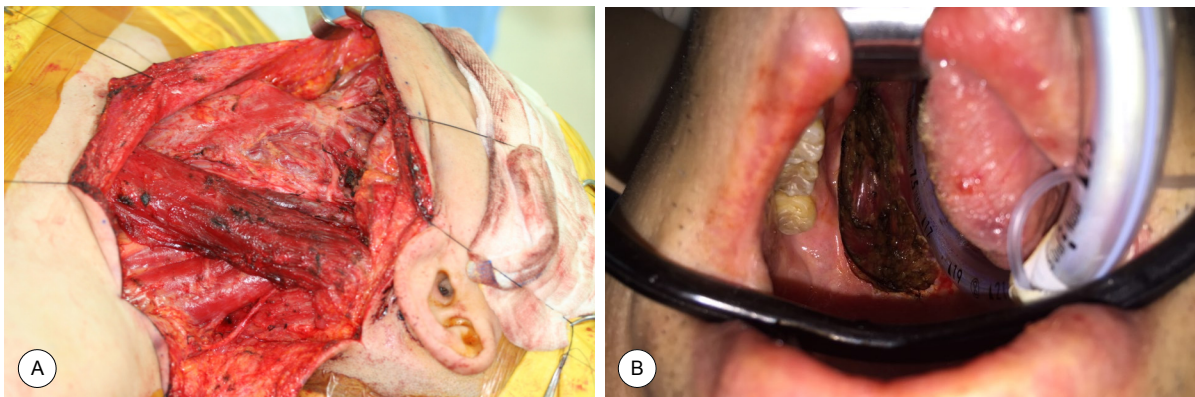


Fig. 4. Fields of 2nd Operation after confirmed diagnosis. (A) operation field of modified radical neck dissection(left neck level I,II,III,IV and V) (B) Field of intraoral wide excision of Tonsil fossa.

으며 편평상피세포암으로 보고되어 원발부위를 좌측 편도로 확정할 수 있었다. 수술실에서 원발부를 확인함과 동시에 이전 수술절개창의 변연부 피부절제, 좌측 경부임파절 청소술(level I-V) 및 원발부인 좌측 편도와에 대한 경구강 광범위 절제술을 시행하였고(Fig. 4), 술 후 병리보고상 원발부 종괴는 직경 0.6 cm×0.5 cm, 침습 깊이는 4 mm이었고 정상편도조직에 둘러싸여 함입된 양상의 종괴였고 절제연의 침습소견은 보이지 않았다. 절제된 임파절에서는 추가적인 임파절 전이소견은 관찰되지 않아 병리학적 병기는 p T1N1M0로 확인되었고 적출된 원발부 종괴에서 시행한 인유두종바이러스(human papilloma virus, HPV)에 대한 분자생물학적 검사 상 음성소견을 보였다.

환자는 수술 후 16일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였고 첫 수술 시 양성종괴의 조작시 경미한 내용물의 유출이 있었던 점과 수술 후 조직검사 상 전이암종으로 판명되어 2차적인 근치수술을 시행한 점을 고려하여 보조적인 방사선 치료를 계획하였고 수술 후 4주째 좌측 경부 대하여 총 28회에 걸쳐 5600 cGy의 방사선 치료를 시행하였다.

환자는 현재 수술 후 4달째 재발 소견 및 특별한 합병증 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

남성 경부 종괴에 대한 가장 흔한 원인은 새열 낭종으로 알려져 있으며 이외에도 감염성 질환, 자가면역질환등의 다양한 원인들이 존재한다. 그 중 남성 경부 종괴가 편평상피세포암의 경부 임파절 전이 병변으로 진단되는 경우는 매우 드문 것으로 보고되었으며, 초 진단에서 새열 낭종으로 진단되었으나 실제로는 전이된 편평상피세포암이었던 경우도 11%에서 21%에 이른다고 알려져있다.¹⁻³⁾

남성 경부 종괴가 편평상피세포암으로 확인되는 경우 두경부암의 경부 전이를 가장 먼저 의심해볼 수 있으며 가장 흔한 원발 부위는 Waldeyer환의 상피에서 기원한다. Waldeyer환은 림프조직의 집합체로 비인두의 아데노이드, 구인두의 편도 그리고 설기저부의 설편도로 구성되어 있다. Waldeyer환이 원발부위로 밝혀지는 비율은 33%~62%

로 보고되었으며 각각의 비율은 구인두 편도가 43~64%, 설 기저부가 37~60% 그리고 비인두에서 1.3~8%로 알려져 있다.¹⁰⁻¹³⁾

편평상피세포암의 낭성(cystic)전이 형태는 고형(solid) 전이 보다 젊은 층에서 빈발하는 것으로 알려져 있으며¹⁴⁾ 흡연이나 음주 등 두경부암의 위험인자와의 연관성은 밝혀져 있지 않다.¹⁵⁾

편평상피세포암의 낭성 전이는 진단하는 과정에 많은 어려움이 따른다. 경부 전이 임파절을 발견할 경우 일반적인 두경부 및 전신 진찰상 원발부위를 발견할 수 있는 확률은 2~3%로 높지 않다.¹⁶⁾

술전 낭성 종괴에 대한 세침흡인세포검사는 고형 전이 임파절의 경우와 달리 위 음성률이 50%에서 67%로 보고되어 있어 술전에 전이 임파절로 진단되지 않는 경우도 적지 않다.^{3,7)} 본 증례에서도 수술 전 낭성 종괴에 서로 다른 시기에 두 차례의 세침흡인세포검사가 시행되었지만 진단적인 검사가 되지 못한 점은 아쉬운 점이라 할 수 있겠다. 낭성병변에 대한 절제술 후 병리검사결과 전이성 임파절로 진단되면 이후의 과정은 원발부위상암과 동일한 과정으로 원발부를 찾아야 한다. 가장 흔히 시행하는 영상학적 검사들에는 CT, MRI 및 PET-CT scan 이 있고 이들 영상검사는 원발부위를 찾는데 실제 많은 도움을 준다. 하지만, 매우 작은 원발부 종괴의 경우 일반적인 CT에서는 보이지 않을 수 있으며 MRI 역시 작은 점막하 종괴를 모두 감별해내지는 못 한다. 또한, PET-CT scan은 기본 대사량이 높은 타액선, 편도 및 염증부위의 FDG 섭취가 증가되어 위양성 소견을 보일 수 있어 민감도는 높으나 특이도는 그리 높지 않다. 반면에 Rusthoven¹⁷⁾ 의 보고에 의하면 PET-CT scan과 범내시경을 조합한 경우 민감도는 88.3%였으며 특이도는 74.9% 정확도는 78.8%로 상승하였다.

일반적으로 원발부 미상암의 경우 편도와, 설기저부, 후두개곡, 로젠몰러와를 포함한 비인두 및 하인두에 원발부가 존재할 가능성이 높다고 한다. 낭성전이성 임파절 역시 이 부위들에 대한 범내시경 검사가 필수적이며 특히 앞서 기술한 바와 같이 Waldeyer환을 포함한 구인두를 보다 철저히 검사해야 할 것이다.

또한, 분자생물학적 검사를 통해 적출된 시료에서 인유두종바이러스(HPV)가 양성소견을 보인다면 인유두종바이러스는 구인두암의 낭성임파절 전이병변의 50% 이상에서 양성 소견을 보이므로 구인두에 원발부위가 존재할 가능성이 높아지게 되며 엡스테인-바 바이러스(Epstein-Barr virus, EBV)의 경우 풍토지역에서는 양성이라면 비인두암의 가능성이 높으나 그 밖의 지역에서는 유의하지 않다.^{18,19)}

편평상피세포암의 낭성 전이의 원발부위로 가장 흔한

부위는 편도와와 설기저부로서 만약 각종 검사를 통해 원발부위를 찾지 못 한다면 진단 목적으로 한쪽 혹은 양쪽 편도와 동측의 설기저부 점막을 절제하여 병리검사를 통해 원발부를 찾는 방법이 추천된다.²⁰⁻²⁵⁾ 원발부위를 발견하면 원발부위 치료 기준에 준해 치료하며, 원발부위가 발견되지 않을 경우, 원발부위 불명암의 치료 기준에 따라 치료하도록 한다.⁹⁾

본 증례에 있어서 특이한 점은 내원 3년전에도 같은 증상으로 세침흡인세포검사 결과 비특이적인 소견을 보였던 과거력과 내원 당시 통증과 임파절 종창이 동반되었으나 2주간 투약 후 호전되었으며 낭성종괴에 대한 첫 절제술 시 함께 적출된 임파절에서는 반응성 증식소견만 보였던 점이라 할 수 있겠다. 문헌 고찰과 저자의 임상기록조사를 통해 추측해보면 환자의 통증은 내원 당시 우연히 동반된 급성임파절염 내지 낭성 전이 임파절의 염증반응으로 인한 것이었을 가능성이 높다. 만약, 내원 3년전에도 환자의 동의하에 절제술을 시행했었다면 병리결과가 어땠을지는 알 수 없지만 당시 투약 후 호전되어 추가적인 검사와 추적관찰의 부재는 아쉬운 점이라 할 수 있겠다.

중심 단어 : 편도암 · 새열 낭종 · 원발부위 불명암.

References

- 1) Flanagan PM, Roland NJ, Jones AS. Cervical node metastases presenting with features of branchial cysts. *J Laryngol Otol.* 1994;108:1068-1071.
- 2) Cinberg JZ, Silver CE, Molnar JJ, Voql SE, et al. Cervical cysts: cancer until proven otherwise? *Laryngoscope.* 1982;92:27-30.
- 3) Granstrom G, Edstrom S. The relationship between cervical cysts and tonsillar carcinoma in adults. *J Oral Maxillofac Surg.* 1989;47:16-20.
- 4) Von Volkman R. Das tiefe branchiogene Halskarzinom. *Zentralbl Chir.* 1882;9:49-63.
- 5) Martin H. Untimely lymph node biopsy. *Am J Surg.* 1961;102:17-18.
- 6) Martin H, Morfit HM, Ehrlich H. The case for branchiogenic cancer (malignant branchioma). *Ann Surg.* 1950;132:867-887.
- 7) Gourin CG, Johnson JT. Incidence of unsuspected metastases in lateral cervical cysts. *Laryngoscope.* 2000;110.
- 8) Neel HB, Pemberton J. Lateral cervical cysts and fistulas. *Surgery.* 1945;18:267-286.
- 9) Goldenberg D, Begum S, Westra WH, Khan Z, Scuibba J, Pai SI, et al. Cystic lymph node metastasis in patients with head and neck cancer: An HPV-associated phenomenon. *Head Neck.* 2008;30:898-903.
- 10) Regauer S, et al. Cystic lymph node metastases of squamous cell carcinoma of Waldeyer's ring origin. *Br J Cancer.* 1999;79:1437-1442.
- 11) Verma K, Mandal S, Kapila K. Cystic change in lymph nodes

- with metastatic squamous cell carcinoma. *Acta Cytol.* 1995;39:478-480.
- 12) Thompson LD, Heffner DK. *The clinical importance of cystic squamous cell carcinomas in the neck: a study of 136 cases.* *Cancer.* 1998;82:944-956.
 - 13) Frierson HF Jr. *Cysts of the head and neck sampled by fine-needle aspiration: sources of diagnostic difficulty.* *Am J Clin Pathol.* 1996;106:559-560.
 - 14) Bath AP, Murty GE, Bradley PJ. *Branchial cyst -- to endoscope or not?* *J Laryngol Otol.* 1992;106:1006-1007.
 - 15) Soh KB. *Branchiogenic carcinomas: do they exist?* *J R Coll Surg Edinb.* 1998;43:1-5.
 - 16) Million RR, Cassisi NJ, Mancuso AA. *The unknown primary.* In: Million RR, Cassisi NJ, editors. *Management of Head and Neck Cancer: A Multidisciplinary Approach.* Philadelphia: Lippincott; 1994. p.311-320.
 - 17) Rusthoven KE, Koshy M, Paulino AC. *The role of fluorodeoxyglucose positron emission tomography in cervical lymph node metastases from an unknown primary tumor.* *Cancer.* 2004;101:2641-2649.
 - 18) Macdonald MR, Freeman JL, Hui MF, Cheung RK, Warde P, Mcivior NP, et al. *Role of Epstein-Barr virus in fine-needle aspirates of metastatic neck nodes in the diagnosis of nasopharyngeal carcinoma.* *Head Neck.* 1995;17:487-493.
 - 19) Lee WY, Hsiao JR, Jin YT, Tsai ST. *Epstein-Barr virus detection in neck metastases by in-situ hybridization in fine-needle aspiration cytologic studies: an aid for differentiating the primary site.* *Head Neck.* 2000;22:336-340.
 - 20) Lapeyre M, Malissard L, Peiffert D, Hoffstetter S, Toussaint B, Renier S, et al. *Cervical lymph node metastasis from an unknown primary: is a tonsillectomy necessary?* *Int J Radiat Oncol Biol Phys.* 1997;39:291-296.
 - 21) Randall DA, Johnstone PA, Foss RD, Martin PJ. *Tonsillectomy in diagnosis of the unknown primary tumor of the head and neck.* *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;122:52-55.
 - 22) Righi PD, Sofferan RA. *Screening unilateral tonsillectomy in the unknown primary.* *Laryngoscope.* 1995;105:548-550.
 - 23) Koch WM, Bhatti N, Williams MF, Eisele DW. *Oncologic rationale for bilateral tonsillectomy in head and neck squamous cell carcinoma of unknown primary source.* *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;124:331-333.
 - 24) Kothari P, Randhawa PS, Farrell R. *Role of tonsillectomy in the search for a squamous cell carcinoma from an unknown primary in the head and neck.* *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2008;46:283-287.
 - 25) McQuone SJ, Eisele DW, Lee DJ, Westra WH, Koch WM. *Occult tonsillar carcinoma in the unknown primary.* *Laryngoscope.* 1998;108:1605-1610.