

경부에 발생한 새열낭(branchial cleft cyst)의 증례보고

서울대학교 치과대학 구강악안면방사선학 교실

이영미 · 최순철 · 박태원 · 유동수

목 차

- I. 서 론
- II. 증 례
- III. 총괄 및 고안
- IV. 결 론
- 참고문헌
- 영문초록

I. 서 론

새열낭은 흉쇄유돌근의 전연부근인 경부의 측면에 발생하는 낭으로서, 이의 병인에 관하여 명확하게 규명된 바는 없으나, 지금까지 보고된 바에 의하면¹⁾, Bland와 Sutton(1887), Rabl(1907) 등은 새열, 궁, pouch의 불완전한 소실로 인한 조직에서 발생된다고 하였고, Wenglowksi(1913)는 thymopharyngeal duct의 잔존물로부터 생긴다고 하였으며, Bhasker과 Bernier(1959)등²⁾은 경부임파절에 상피가 끼어들어 낭화된다고 하였다. 한편, 최근에 Wild등³⁾은 생화학적으로 분석하여 낭의 내측 상피벽은 상부 소화관의 편평상피와 유사하며 임파절에서 임파-상피 결합을 형성하는 Waldeyer's ring crypt 상피세포에서 유래되는 후천적 병소라고 하였고, Ostefelt도 역시 tonsil의 상피가 retrostyloid compartment 임파절로 이동하여 상피-임파복합체인 낭을 형성한다고 했다.

태생기에 6개의 새궁(branchial arch)은 5개의 외배엽성 열(ectodermal cleft)에 의해 분리되어 있다가 계속 미측으로 성장하여 새궁과 새열이 융합되는 정상적인 발생과정을 거치는데 이런 각각의 새궁과 새열의 불완전한 소실로 각 위치에 따라 낭, 동(sinus), 누공 등을 형성한다. 주로 제 2 새열낭이 대부분이며 출생시에는 잘 생기지 않고 10-30세에 호발한다.

저자들은 좌측 이하선부와 경부에 걸쳐 발생한 종괴를 주소로 내원한 환자에서 임상적, 방사선학적, 병리조직학적 검사를 통해 새열낭으로 진단하였기에 문헌고찰과 더불어 이를 보고하는 바이다.

II. 증 례

환자는 49세된 남자로서 약 8개월전부터 좌측 경부에 약 3×3 cm 크기의 종괴를 인지하였고, 지속적인 종창과 통증을 주소로 내원하였다.

임상적 소견에서는 좌측 이하선부와 경부에 약 10×15cm 의 과동성 종괴가 관찰되었고 통증과 발열이 있었으나 누공형성은 없었다(Fig. 1).

· 타액선조영술 소견(Fig. 2)

이하선조영술에서는 타액관의 확장이나 acina의 ectasia 등은 없었고, 타액선은 외측으로 전위되어 있었다.

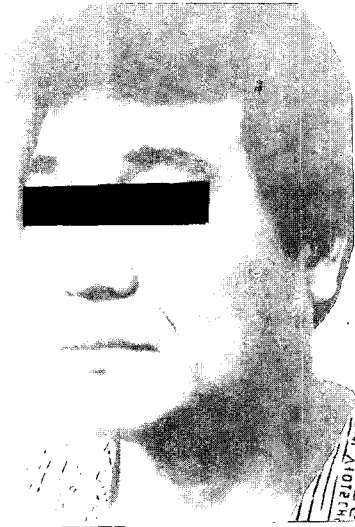


Fig. 1



Fig. 2

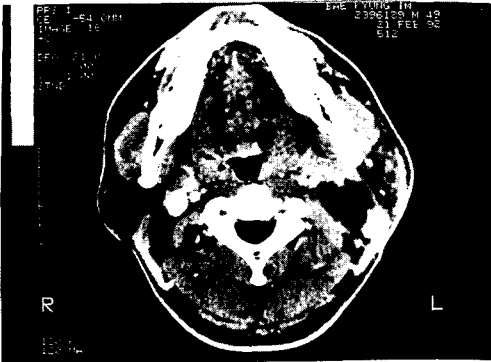


Fig. 3

· 초음파영상 소견

좌측 이하선 하방에서 더 아래쪽으로 잘 경계 지어진 단방성의 low echogenic mass가 있었으

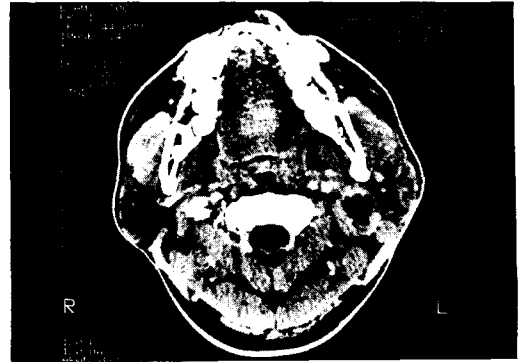


Fig. 4

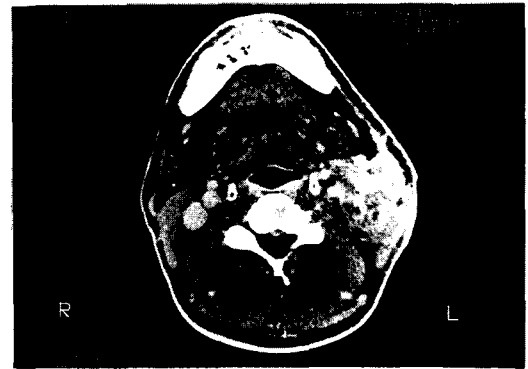


Fig. 5

며 내부에 cystic change를 동반하고 내측으로는 악하선경계부 까지 확장되고 외측으로는 하악우각부의 상방, 흉쇄유돌근의 아래쪽으로 확장되어 있었으며 하방으로는 이 종괴에 의해 jugular vein이 눌러있는 상을 보였다.

· 전산화단층사진 소견

흉쇄유돌근과 이하선의 내측에 약 3×4 cm 크기의 종괴가 관찰되었고(Fig. 3) 이 종괴는 하악우각부에서(Fig. 4) thyroid cartilage의 상연(Fig. 5)까지 분포해 있었다. 상부에는 얇은 벽을 가진 낭부가 있었고(Fig. 4) 하부에는 heterogeneous solid component와 지방층소실이 관찰되었으며(Fig. 5) 흉쇄유돌근과의 경계는 불분명하여 종괴의 침윤이 있는 것으로 보였다(Fig. 9). 좌측 천층 조직면의 소실과 부분적인 비후가 관찰되었다(Fig. 6).

· 자기공명영상 소견

좌측 이하선 후하방의 심부에 약 5×6 cm 크



Fig. 6

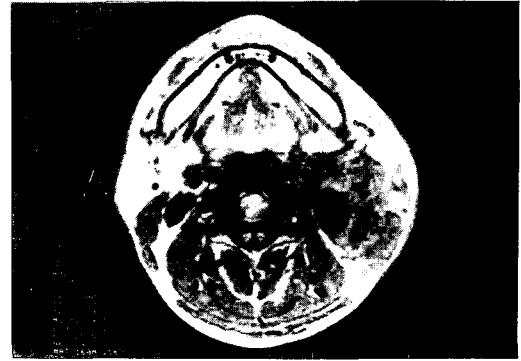


Fig. 9



Fig. 7



Fig. 10

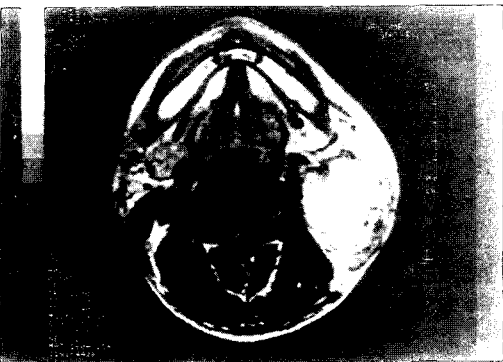


Fig. 8



Fig. 11

기의 잘 경계지어진 여러개로 분리된 종괴가 보였고(Fig. 7), Axial-T2(Fig. 8)와 양자농도(Fig. 7) 강조영상에서 high signal intensity를 보였고, Axial-T1강조영상(Fig. 9)에서 slightly low signal을 보이며, T1, T2 강조영상 모두에서 heterogenous signal intensity를 보였다. 조영증강시(Fig. 10) rim enhancement를 보여 낭성 병소임을 알수 있었고 내부에 피사로 보이는 불규

칙한 low signal area가 있었다(Fig. 9, 11). 이하선은 정상을 유지하고 있었고 다만 이 종괴에 의해 외측으로 전위되어 있었고 좌측 악하선은 전방으로 전위되고, 종괴와 악하선사이의 지방층 소실이 관찰되었다(Fig. 8, 10). 그밖에 다른 병소와 확장된 임파절은 없었다.

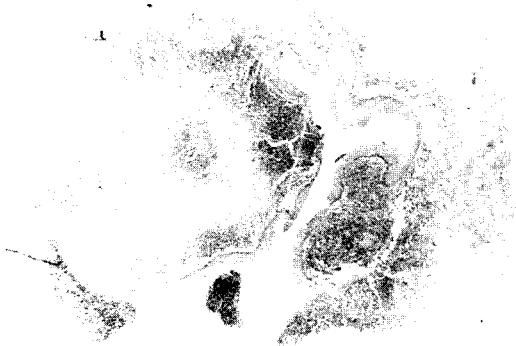


Fig. 12

· 병리조직학적 소견(Fig. 12)

편평상피로 이장된 낭강과 낭벽에 입파조직과 두터워진 내벽에 염증세포들의 침윤을 보였다.

· 치 료

전신마취하에 종괴의 완전한 절제술을 시행하였고 술후소견으로는 경계가 잘지워진 둥근 종괴로 내벽이 두텁고 회갈색의 혼탁한 액체를 함유하고 있었다.

III. 총괄 및 고안

새열낭은 경부낭중 가장 흔히 나타나는 것으로 경부의 전 삼각에 발생하는 선천적인 이상이고 주로 흉쇄유돌근의 전, 내측에 호발하는 것으로 알려져 있다. 이 낭의 병인에 대하여는 여러 이론이 있다.¹⁻¹⁰⁾ 고전적인 이론으로는, 정상적으로 태생기에서는 6개의 새궁(branchial arch)이 5개의 외배엽성 열(ectodermal cleft)에 의해 분리되어 있고 그중 제 2새궁은 미측으로(caudally) 성장하여 제 3, 4 새궁과 열을 덮어서 하방의 조직들과 융합이 된다. 제 3, 4 새궁은 정상적으로 경동(cervical sinus)(Fig. 13)에 묻혀 태생 7주경에 사라지는 데 이 경동의 일부 잔유물, 혹은 제 2 새궁(branchial pouch)가 계속 잔존하여 이 sinus를 이장하고 있는 외배엽성 조직을 가진 낭을 형성한다.^{4,10)} 또한 Wenglowski(1913)¹⁰⁾는, 새열낭은 제 3 새궁의 thymopharyngeal tract에서 유래한다고 했는데 이 구의 유도체가 이동하여 낭을 형성한다고 했다.

이런 발생학적인 가설에 반해, King(1949)⁹⁾은

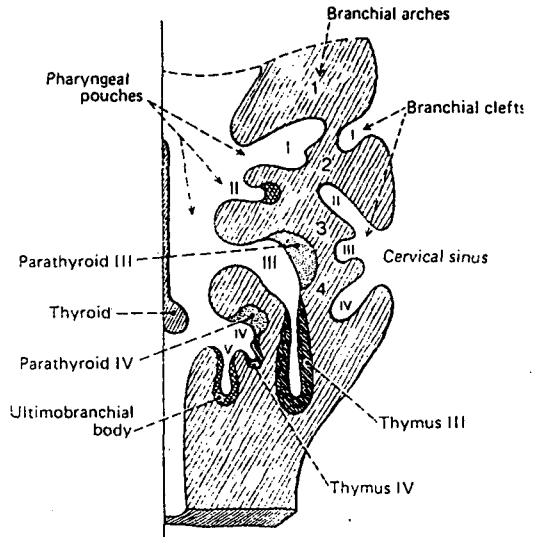


Fig. 13. Section of cervical region of 6-week-old human embryo(left half, ventral view) demonstrating pharyngeal cavity, pharyngeal arches and pouches with organ derivatives.

병인을 처음으로 낭과 입파조직간의 관계로 보아 "lymphoepithelial cyst"의 개념을 주장했고, Bhaskar와 Bernier(1959)²⁾는 486례의 새열낭을 추적조사한 바, 대부분이 경부입파절내에서의 타액선 봉입체(salivary inclusion)에서 낭이 된다고 하였다. 그러나 입파절내에 타액상피가 많은 이하선부에 새열낭은 잘 생기지 않고 봉입체는 하악우각부에서는 입파선종을 형성하고 경부에서는 새열낭을 유도한다. 또한 잘 발달한 입파조직은 소화관과 폐에 걸쳐 있는 상피에 근접하여 존재한다. 그러나 상피와 입파조직은 같은 발생기에 존재하지 않으므로, 현재 가장 근거있는 병인론은 제 3구의 "thymopharyngeal tract"에서 낭이 발생한다는 것이다.

5개의 새열중 제 2새열낭이 가장 많은데 이는 제 2 새궁이 가장 미측으로 오랫동안 존재하기 때문이며^{4,5)} 내측으로 내,외경동맥의 분지부 상방에서 편도와에 걸쳐 존재한다. 제 1 새열낭은 약 1% 이하로 드물게 나타나고¹¹⁾ 주로 외이(external ear)와 이하선 부위에 발생하는데 이때는 이개전낭(preauricular cyst), 입파절, 피지낭(sebaceous cyst) 등과 감별을 요한다. 제 3, 4

새열낭은 역시 드물게 나타나며 양배폴동(pyri-form sinus)과 후두부(larynx)에 위치한다.⁴⁾

임상적으로는 주로 무통성인 종창, 파동적인 종괴로 나타나고 감염시 통증과 압통을 나타내는데^{4,12,13)} 이 증례에서도 파동성의 종괴와 통증을 호소하였다. 특히 일시적인 상기도 감염과 더불어 흉쇄유돌근 전연에 종괴가 있을 때는 새열낭으로 진단하는데 도움을 준다.^{4,5,14)} 대부분 젊은 층(10-30대)에 호발하고 크기는 1-10cm으로 다양하게 나타나고,^{15,16)} 남성과 여성의 호발도는 비슷하며 가족력이 있다는 보고도 있다.¹⁾ 초음파영상소견으로는 distal enhancement를 보이는 부드러운 내벽을 가진 echo free lesion으로 나타나며 wall이 두껍고 구불구불하게 나타난다.¹⁷⁻¹⁹⁾ 이 증례에서는 큰 단방성의 low echogenic mass로 나타났다. 초음파영상소견과 감별을 요하는 낭과 유사한 병소로는, cystic hygroma, true thyroid and parathyroid cysts, dermoids, cervical thymic cyst, cystic neuroma, choristoma가 있다.²⁰⁾

새열낭의 전산화단층사진소견은 잘 경계지어진 단방성의 낭으로 근육보다 낮은 10-18HU CT수치를 갖고 전반적으로 점막성 밀도를 보이며 균일한 rim enhancement를 나타낸다.²¹⁻²⁸⁾ 감염시에는 CT수치가 증가하는데 이는 낭액에 단백질농도가 증가하기 때문이다.^{17,21)} 감별진단으로는 경부에 위치하는 cystic hygroma, thyroglossal duct cyst, 농양, cavernous lymphangioma, dermoid cyst, necrotic lymph node 등이 있는데^{25-29,29)} 농양인 경우 새열낭보다 enhancing wall 이 좀더 두껍고 주위 지방층에 염증성 침윤이 수반된다. 그러나 CT만으로 감별이 어렵고 임상소견(농양의 통증이 더 심하다)을 고려해야한다. Salazar 등⁶⁾에 의하면 CT로 경부의 다른 낭성 종괴와 감별하는 특징적인 소견은 새열낭은 내,외측 경동맥사이로 낭의 파급을 보이는 것이다.

새열낭의 자기공명영상소견은 T1강조영상에서 low signal을 보이고 T2강조영상에서 high signal을 보인다. 전반적으로 부드러운 경계를 가지는데 낭의 감염시 T1강조영상에서 intermediate 또는 high signal 을 보이고, T2강조영

상에서는 그대로 high signal을 보인다.^{4,21, 30,31)} 이 증례에서도 T1강조영상에서 low signal, T2강조영상에서 high signal 을 보였고, 병소내부의 피사로 보이는 불규칙한 low signal area가 있었으며 낭의 특징인 조영증강시 rim enhancement를 보였다.

병리조직학적 소견으로는 편평상피 또는 호흡상피로 이장된 낭강이 결체조직에 의해 지지되는 소견을 보이고 낭강 내벽에 림프구와 림프여포(lymphoid follicle)등이 존재하여 일명 "lymphoepithelial cyst"라고도 한다.^{4,16,32,33,34)} 이 증례에서도 역시 편평상피로 이장되고 낭벽에 임파조직과 감염으로 인해 두터워진 내벽에 염증세포들이 발견되었다. 낭강의 내부에는 cholesterol을 함유하는 혼탁하고 노란색의 액체를 포함하는 특징을 보이기도 한다.^{4,35)}

새열낭의 치료법은 완전한 절제이다. 낭이 감염시 농양으로 발전하거나 누공을 형성하기도 한다.¹⁶⁾ 본 증례의 술후소견에서도 낭의 감염으로 인한 누공을 형성하고 있었다. 1989년 Khafif 등³⁴⁾에 의하면 남성에서 악성암종으로의 전이율이 높은 경우를 보고하였고³⁶⁻³⁸⁾ 재발도 잘 된다고 하였다.³⁹⁻⁴⁴⁾ 이 증례의 경우도 술후 약 2년간 재발의 소견은 보이지 않았으나 정기적인 검진이 필요하리라 생각된다.

IV. 결 론

저자들은 새열낭으로 진단된 49세 남자환자에서 임상적, 방사선학적, 병리조직학적으로 관찰한 바 다음과 같은 결과를 얻었다.

1. 임상적 소견에서 환자는 좌측 이하선부 및 경부에 약 10×15 cm 크기의 파동성 종괴가 관찰되었다.
2. 방사선학적 소견으로는, 초음파영상에서 잘 경계지어진 단방성의 low echogenic mass가 있었고, 전산화단층사진 소견에서 흉쇄유돌근 내측에 약 3×4 cm크기의 낭성 종괴가 관찰되었다. 자기공명영상에서 T1 강조영상에서 low signal, T2 강조영상에서 high signal을 보였고 조영증강시 rim enhancement

를 보였다.

3. 병리조직학적 소견에서 종괴는 편평상피로 이장된 낭강과 낭벽에 임파조직과 두터워진 내벽에 염증세포의 침윤이 보였다.

REFERENCES

1. Lingeman, R.E., Shellhamer, R.H. : Surgical management of tumors of the neck. *Comprehensive management of head and neck tumors* 2:1353-1362, 1987.
2. Bhaskar, S.N., Bernier, J.L. : Histogenesis of branchial cysts. *Am.J.Pathol.* 35:407-411, 1959
3. Wild, G., Mischke, D., Lobeck, H., Kastenbauer, E. : The lateral cyst of the neck:congenital or acquired? *Acta Otolaryngol.*103:546-550, 1987.
4. Som, P.M. : Clinical Radiology quiz. *Am.J. Otolaryngol.* 10:430-431, 1989
5. Silverman, P.M., Korobin, M. and Moore, A.V. : Computed tomography of cystic neck masses. *J.Comput.Assist.Tomogr.*7:498-502, 1983
6. Salazar, J.E., Duke, R.A. and Ellis, J.V.:Second branchial cleft cyst:Unusual location and a new CT diagnostic sign. *AJR*145:965-966, 1985
7. Lyall, D.: Congenital cyst of third branchial cleft. *Arch Otolaryngol.*: 540-542, 1956
8. Gold, B.M. : Second branchial cyst and fistula. *AJR* 134:1067-1069, 1980
9. DeWeese, D.D., Saunders N.H. : Textbook of Otolaryngology. St Louis :438-455, 1982
10. Fahmy, S. : Cervical thymic cysts:their pathogenesis and relationship to branchial cysts. *J. Laryngol.Otol.* 88:47-60, 1974
11. Miglets, A.W. : Parotid branchial cleft cyst with facial paralysis. *Arch.Otolaryngol.* 101:637-638, 1975
12. Whitson, T.C. : Anomaly of the first branchial cleft. *Plast.Reconstr.Surg.* 42:595-599, 1968
13. Roseman, J.M., Goffin, F.B. : Branchial cleft cyst to jugular vein fistula. *Arch.Otolaryngol.* 110:688-689, 1984
14. Zarbo, R.J., Areen, R.G., MaClatchey, K.D. and Baker, S.B. : Thymopharyngeal duct cyst:A form of cervical thymus. *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.*92:284-289, 1983
15. Maran, A.G.D., Buchanan, D.R. : Branchial cysts, sinus and fistulae. *Clin.Otolaryngol.* 3:77-92, 1978
16. Sisson, G.A., Summers, G.W. : Branchogenic cysts within the parotid gland. *Arch.Otolaryngol.* 96:165-167, 1972
17. Loughran, C.F. : Case report:cystic lymph node metastasis from occult thyroid carcinoma:A sonographic mimic of a branchial cleft cyst. *Clin. Radiol.* 43:213-214, 1991
18. Howie, A.J. and Proops, D.W. : The definition of branchial cysts, sinuses and fistulae. *Clin. Otolaryngol.* 7:51-57, 1982
19. Ingoldby, C.J.H. : Unusual presentations of branchial cysts:a trap for the unwary. *Ann. of the Royal College of Surgens of England.* 67:175-176, 1985
20. Som, P.M., Sacher, M., Lanzieri, C.F., Solodnik, P., Cohen, B., Reedew, D.L., et al : Parenchymal cysts of the lower neck. *Radiology* 157:399-406, 1985
21. Kreipke, D.L. and Lingeman, R.E. : Cross-sectional imaging (CT, NMR) of branchial cyst :Report of three cases. *J.Comput. Assist. Tomogr.*8:114-116, 1984
22. Som, P.M., Biller, H.F., Lawson, W., Sacher, M. and Lanzieri, C.F. : Parapharyngeal space mass :An updated protocol based upon 104 cases. *Radiology* 153:149-156, 1984
23. Som, P.M., Biller, H.F., and Lawson, W. : Tumors of the parapharyngeal space:preoperative evaluation, diagnosis and surgical approaches. *Am.Otol. Rhinol.Laryngol.* 90:3-15, 1981
24. Reede, D.L., Whelan, M.A. and Bergeron, R.T. : Computed tomography of the infrahyoid neck. *Radiology* 145:397-402, 1982
25. Silverman, P.M., Korobkin, M., and Moore, A. V. : Computed tomography of cystic neck masses. *J. Comput.Assist.Tomogr.* 7:498-502, 1983
26. Miller, E.M. and Norman, D. : The role of computed tomography in the evaluation of neck masses. *Radiology* 133:145-149, 1979
27. Carter, B.L., Ignatow, S.B. : Neck and mediastinal angiography by computed tomography scan. *Radiology* 22:515-516, 1977
28. Harnsberger, H.R., Mancuso, A.A., Muraki A.S. et al. : Branchial cleft anomalies and their mimics: Computed tomographic evaluation. *Radiology* 152: 739-748, 1984
29. Addante, R.R. and Hanover, N.H. : Congenital cystic dilatation of the submandibular duct. *Oral Surg.* 59:656-658, 1984
30. Mancuso, A.A. and Dillon, W.P. : The neck, in MRI of the head and neck. *Radiol.Clin. North.Am.* 00:407-434, 1989
31. Som, P.M., Bergeron, R.T., Curtin, H.O., and

- Reede, D.L. : Head and Neck Imaging. 2nd ed, St. Louis, Mosby-Year book Inc., pp536-537, 1991
32. Gerber, D. and Hugo, N.E. : Branchial cleft cyst in parotid gland. *Ann.Plast.Surg.* 9:413- 414, 1982
 33. Richardson, G.S., Clairmont, A.A., Erikson, R.E. : Cystic lesions of the parotid gland. *Plast. Reconstr.Surg.* 61:364-370, 1978
 34. Khafif, R.A., Prichep, R. and Minkowits, S. : Primary branchiogenic carcinoma. *Head and Neck* 11:153-163, 1989
 35. Favus, L.H., Kaplan, E.L., Schneider, A.B. and Favus, M.J. : Recurrent parathyroid cystic disease *AFP* 40:119-122, 1989
 36. Jablokow, V.R., Kathuria, S. and Wang, T. : Squamous cell carcinoma arising in branchial cyst Branchial carcinoma. *J.Surg.Oncology* 20: 201-204, 1982
 37. Martin, H., Morfit, H.M. and Ehrich, H. : The case for branchiogenic cancer (Malignant branchioma). *Ann.Surg.* 132:867-887, 1950
 38. Compagno, J., Hyams, V.J. and Saravian, M. : Does branchiogenic carcinoma really exist? *Arch.Pathol.Lab.Med* 100:311-314, 1976
 39. Gatot, A., Tori, F., Flises, D.M. and Ilana, Y.I. : Branchial cleft cyst manifesting as hypo- glossal nerve palsy. *Head and Neck* 13:249-250, 1991
 40. Wolff, M., Ramkow, R. and Fleigel, J. : Branchiogenic carcinoma-fact or fallacy? *J.Maxillofac.Surg.* 7:41-47, 1979
 41. Jones, W.C., Snyder, C.C., Dowlen, L.W. : The controversial branchiogenic malignancy. *Am. Surg.* 22:975-982, 1956
 42. Lane, S.L. : Branchiogenic cyst carcinoma. *Am. Surg.* 96:776-779, 1958
 43. Collns, N.P. and Edgerton, M.T. : Primary branchiogenic carcinoma. *Cancer* 12:235-239, 1959
 44. Black, B. and Moran, A.G.D. : Branchiogenic carcinoma. *Clin.Otolaryngol.* 3:27-36, 1978

- ABSTRACT -

A CASE REPORT OF BRANCHIAL CLEFT CYST IN THE NECK

Young-Mi Lee · Soon-Chul Choi · Tae-Won Park · Dong-Soo You

*Dept. of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry,
Seoul National University*

Branchial cleft cyst is the most common lateral neck cyst ; the vast majority are of the second branchial cleft origin. This presumably reflects the greater depth and longer persistence of the second cleft, compared with the first, third, and fourth clefts.

We experienced a 49-year-old male whose chief complaint was a abnormal mass of the left parotid gland area and neck. As a result of careful analysis of clinical, radiological, and histopathological findings, we diagnosed it as a second branchial cleft cyst in the neck and obtained results as follows :

1. In clinical examination, there was a 10×15cm sized, fluctuant painful mass in the left neck and parotid area.
2. In radiographic examination, a low echogenic mass with internal cystic change in the inferior parotid gland area was noted sonographically. Computed tomograph showed a 3×4cm sized, well-defined cystic mass with heterogenous solid component in the anterior border of sternocleidomastoid muscle. MRI revealed 5×6cm sized, well-marginated multiseperated mass in the same area.
3. In histopathological examination, lining of cyst was stratified squamous epithelium with typical lymph node pattern and inflammatory cell infiltration.

* **Key words** : branchial cleft cyst, sternocleidomastoid muscle