

이상와 누공 1례

울지외과대학 울지병원 이비인후과학교실

문승일 · 한정욱 · 김희규 · 윤상원

=Abstract=

A Case of Piriform Sinus Fistula

Seung Il Moon, MD, Jung Wook Han, MD, Hee Kyu Kim, MD, Sang Won Yoon, MD

*Department of Otolaryngology-Head & Neck surgery Eulji Hospital,
College of Medicine, Eulji University, Seoul, Korea*

It is commonly believed that the branchial anomalies are remnants of the branchial apparatus. Third and fourth branchial pouch anomaly is an extremely rare disease involving the branchial apparatus. Virtually mostly reported cases have been on the left side and has been identified in recurrent suppurative thyroiditis, retropharyngeal abscess and repeated episodes of cellulitis, neck swelling, lateral neck fistula. Recently the authors have experienced a case of left piriform sinus fistula accompanied with left suppurative thyroiditis, presumably of fourth branchial origin in a 50-years old male patient, which was successfully treated with coagulation, and so report this case with summary of branchial anomaly by the some review of the literatures.

Key words : Piriform sinus fistula · Branchial pouch anomaly

I. 서 론

새성기관(branchial apparatus)은 태생2주에 출현하여 6주에서 7주 사이에 두경부의 여러 구조물을 이루게 되며, 이상와누공(piriform sinus fistula)은 매우 드문 선천성 경부질환으로서 태생기 발육이상에 의한 새성기관의 잔유물로 이중에서 제3 또는 제4새낭(branchial pouch)에서 기인하며 반복되는 경부 염증이나 농양 그리고 급성 화농성 갑상선염으로 나타나는 질환이다¹²⁾. 최근 저자들은 50세 남자환자에서 좌측 갑상선 농양을 동반한 이상와 누공 1례를 치험하였기에 그 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

환 자 : 김 O 호, 남자, 50세

초진일 : 1999년 2월 19일

주 소 : 좌측 경부 전방에 동통성 부종을 호소

현병력 : 상기 환자는 평소 자주 인후통을 앓아왔으며 좌측 전방 경부의 동통성 부종을

주소로 본원 이비인후과 내원하여 좌측 갑상선 농양 진단 하에 좌측 갑상선 분엽술 시행한 후 계속되는 목의 통증과 불편감을 호소하였다.

과거력 및 가족력 : 상기 환자는 어린 시절부터 양측 청각 장애가 있었으며 누나와 남동생도 어린 시절부터 청각 및 시각 장애를 가지고 있었다.

전신소견 및 국소소견 : 간헐적인 목의 통증과 발열, 연하곤란이 있었으며 좌측 갑상선 부위에서 약 3x4cm 크기의 부드러운 종물이 촉진되었고 설골에서 갑상선 연골의 하측방부위까지 압통을 동반한 부종이 관찰되었다. 내원시 시행한 굴곡성 후두경 검사상 특이한 소견은 보이지 않았으나 좌측 갑상선 분엽술을 시행한 후 재 시행한 굴곡성 후두경 검사상 이상와 부위에 누공이 관찰되었다(Fig. 1).

검사소견 및 방사선학적 소견 : 혈액, 소변 및 흉부 X선 검사 등은 정상이었으며 농배양검사상 *Burkholderia pickettii*가 배양되었다. 전산화 단층촬영 소견상 좌측 갑상선의 상부와 중심부에서 약 5x4cm 크기의 농양낭이 관찰되었

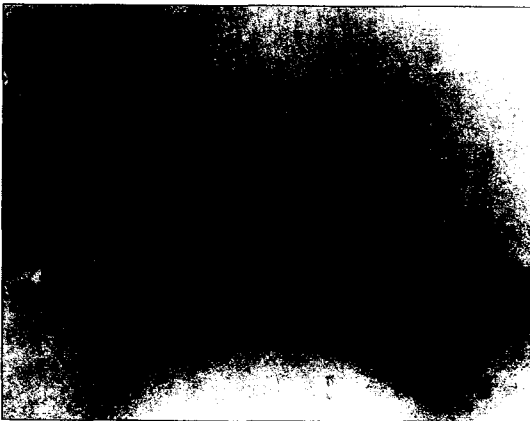


Fig. 1. Fiberoptic laryngoscopic finding after left thyroid lobectomy : Piriform sinus fistula of about 3x3mm size

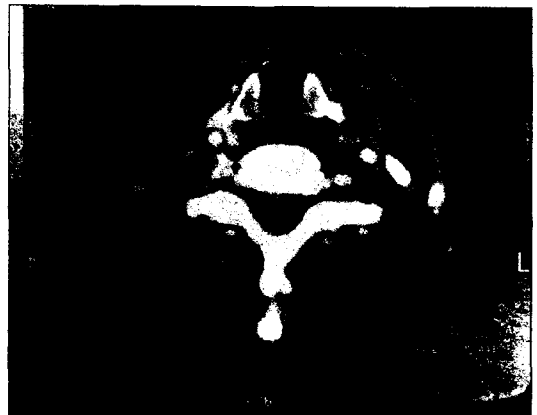


Fig. 2. Neck CT : Low density of abscess cavity and enhanced wall is seen in the superior aspect of left thyroid gland swelling of overlying left sternocleidomastoid muscle is seen

다(Fig. 2). 또한 50cc정도의 수용성 조영제를 이용하여 누관조영술을 시행한 결과 좌측 인두주위간극의 후하방쪽으로 얇게 조영되어지는 원주모양의 누관을 관찰할 수 있었다(Fig. 3).

수술소견 : 99년 2월 22일 좌측 갑상선 절제술 시행한 결과 좌측 갑상선의 상부와 중심부에 괴사 소견 보였으며 흉쇄유돌근 아래쪽과 갑상선 바깥쪽으로 농양 관찰되어 농양 절제술을 시행한 후 좌측 갑상선 분엽술과 괴사조직을 제거하였다. 99년 5월 31일 전신 마취 하에 현수후두경을 후두 입구쪽으로 삽입한 후 0° 비내시경을 현수후두경쪽으로 접근시켜 좌측 이상함요에서 누공 개구부를 발견하고 비내시경 단극성 보비(monopolar bovie)와 후두경 소작검자를 이용하여 전기소작을 시행하였다.

수술경과 : 수술 후 현재 10개월 추적 관찰상 특별한 합병증 없이 양호한 경과를 보이고 있다.

III. 고 찰

태생 2주에서 6주 사이에 나타나는 새성기관(branchial system)은 두경부의 여러 구조로 발달하게 되며, 이 과정의 이상은 새성잔유물로서 새성기형을 남겨 생후 두경부의 반복되는 염증이나 종물로 나타나게 된다¹⁾²⁾.

1825년 Von Rathke는 척추동물의 새관에 대해서 처음으로 정확한 발생학적 서술을 하였다³⁾. 1827년 Von Baer는 인간 배아의 네 구열을 서술하였고 1832년 Von Ascherson은 새관으로부터 경부 누공의 기원을 처음 소개하였으며³⁾⁴⁾⁵⁾ 1864년 Heusinger가 경부 새관의 태생학적 기형에 대하여 "새(branchial)"라는 용어를 기술하였다⁵⁾.

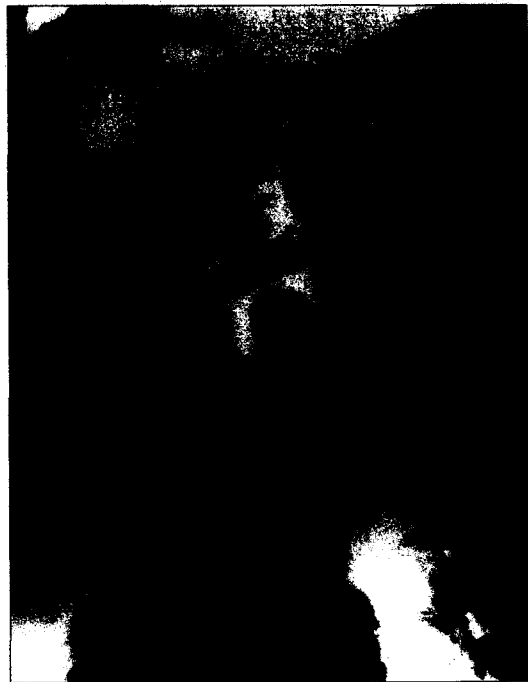


Fig. 3. Fistulogram : Fistulous tract of thin contract column is seen in the posteroinferior aspect of left parapharyngeal space.

새성기관은 5개의 중배엽성 새궁(mesodermal branchial arch), 새궁의 외부로는 4개의 외배엽성인 새열(ectodermal lined cleft) 그리고 내부로는 4개의 내배엽성인 새낭(endodermal lined pouch)로 구성되어 있다. 다섯 개의 새궁은 위에서 아래로 번호를 붙여 부르나 다섯 번째 새궁은 태아의 표면으로 돌출되지 않기 때문에 이를 통상 여섯 번째 새궁으로 부른다. 이들 새궁(branchial arch)이 발달 하면서 이들에는 연골, 근육, 신경, 혈관조직등을 포함하게 된다¹⁾⁶⁾⁷⁾⁸⁾. 그리고 태아 발생과정에서 볼 수 있는 새성기관이 계속 존재하는 선천적 이상으로 대체로 증상 없이 지나게 되며 드물게 이차적 감염으로 인해 증상이 나타나는 새성유물(branchial remnant)은 임상적으로 낭포(cyst), 누공(fistula) 및 동(sinus)으로 존재

하게 된다. 태생기 제 3주에 두부에는 중배엽성의 6개 새궁(branchial arch)이 형성되며 이중 마지막 둘은 퇴화한다. 제 6주가 되면 제 2 새궁이 하방으로 현저히 발육하여 제 2,3,4 새궁을 덮고 외심능(epicardial ridge)와 융합하여 경관(cervical sinus)을 형성하게 되나 정상적인 경우 태생기 8주에 소실된다.

새성유물이 생기는 기전으로는 1) 새성기관 상피세포의 잔류, 2) 새열의 불완전 폐쇄, 3) 새판(branchial plate)의 파열, 4) 새성기관의 기형적인 발달 5) 경관의 잔류 등을 생각할 수 있는데 이들 중 하나 혹은 그 이상이 관련될 수 있으면 새루의 경우 새열의 불완전 폐쇄에 기인한다⁹⁾.

새성유물의 원인으로 Willis(1962)는 환경인자와 유전인자가 복합적으로 관여한다고 보고했으며 환경 인자에는 기계적 요소, 온도의 변화, 방사선, 산소결핍, 화학물질 중독, 감염, 영양 장애 및 태아내 순환 장애 등이 있다고 하였다.

새루는 남자가 여자보다 3배정도 많고 대개는 편측성으로 우측에 호발한다¹⁰⁾. 양측성인 경우도 드물게 있어²⁾¹¹⁾ 비인두에 발생한 양측성 낭종 2례가 보고된 바 있으며 제 4새성인 경우 거의 좌측에 발생하는 것으로 보고되고 있다. 본 증례의 경우, 남자였으며 편측성으로 좌측에서 발생하였고 제 4 새성에서 기인하였다.

새루나 낭포가 계속 존재하는 경우, 이들이 외배엽성인 상피세포로 구성되어 있으면 표피탈락으로 인해 진주종으로 이행하거나, 반복적인 감염, 혹은 악성화 되어¹²⁾ 유표피암으로 될 수 있으므로 조기에 완전 적출 해야 한다.

이러한 누관의 해부학적 관계는 중요하며 각각의 발생과정에 따라 다음 네 가지 형태로

분류된다.

제 1새열에서 기인하는 새루는 매우 희귀한 선천성 기형인데 폐쇄증 (atresia), 불형성증 (maldevelopment), 협착증(stenosis), 또는 중복증 (duplication of cleft)⁷⁾ 등으로 나타난다. Arnot(1972)¹³⁾의 해부학적 분류 및 Work(1972)의 조직학적 분류에 의하면 두 가지 형태가 있어 type I은 중년기에 나타나는 외배엽성으로 외이도와 직접적인 연관 없이 그 주위에서 끝나며 type II는 유아기나 아동초기에 나타나는 외배엽성 및 중배엽성으로 외이도의 골·연골부 접점에 직접 연관되거나 그 주위에서 끝난다.

제 2새열기형은 가장 흔한 형태(90%)로 낭종(cyst), 동(sinus) 또는 새루(fistula)의 형태로 나타난다. 낭종은 다시 네 가지로 분류하기도 하며¹⁰⁾ 누관은 경동맥초(carotid sheath)를 따라 상행하여 내, 외 경동맥의 사이를 지나 설골 상부에서 설하신경에 도달하여 이 신경을 감돌아 중인두수축근 높이에서 인두 벽을 뚫고 구개 편도와에 개구한다²⁾.

제 3새열에서 기인하는 새루는 제 2새열의 경우와 마찬가지로 설하신경을 감도나 표재성으로 있으며 내경동맥 및 부신경의 심부에 위치하여 상후두 신경의 배측지 상부에서 갑상설골막을 뚫고 이상와에 개구한다¹⁴⁾.

제 4 새낭 기형은 대부분 좌측에 발생하며¹⁵⁾ 우측의 경우 외측 개구부가 하경부에서 흉쇄유돌근 전방에 개구하고 쇄골하 동맥을 감돌아 경동맥의 심부로 주행하며 설하신경의 외측 및 상후두 신경의 하부를 지나 이상와의 하부나 후두로 개구하나 좌측의 경우 그 경로가 흉강내를 통해 동맥인대(ligamentum arteriosus)와 대동맥궁의 내측을 지나간다. 제 3 및 제 4 새성기형은 매우 드문 형태로서 지난

20여 년 간 세계적으로 40개 이하의 예가 보고되어지고 있다¹⁶⁾.

새루와 감별해야 할 질환으로서 소아 영역에서 세균성 및 결핵성 림프절염, 림프관종, 유피낭종, 횡문근 육종 등과 성인에서는 림프종, 결핵성 림프절염, 전이암, 지방종, 신경초종과 같은 것들이 있으며¹⁷⁾ 낭종과의 감별진단으로는 낭포성 하이그로마(cystic hygroma), 혈관종, 지방종, 유피낭종, 호지킨씨병 및 결핵성 림프절염 등이 있다.

치료는 가능한 한 조기에 낭종이나 누관을 완전 적출 하는 것이 원칙이며 만일 일부가 남아 있는 경우에는 재발하기 쉬우며 재수술이 인접 장기 등에 손상을 줄 수 있는 데다 악성 변화의 보고가 있으므로¹²⁾ 감염이 있으면 항생제 투여 및 배농 등으로 감염이 치유된 후에 완전 적출을 하는 것이 좋다. 그러나 본 증례에서는 농양절제술과 좌측 갑상선 분엽술을 시행한 후 이상와 누공을 발견하고 비내시경 단극성 보비와 후두경 소작검자를 이용하여 전기소작을 시행하였다.

수술적 처치에 있어서 Baumgartner(1939) 등은 메틸렌블루(methylene blue)를 주입하여 박리를 용이하게 하였으며¹⁸⁾ 제일 좋은 수술 방법은 Bailey (1933) 등에 의해 시작된 단계적절제술(Stempladder incision operation)으로 이 경우 경동맥, 내경동맥, 설하신경 및 미주신경의 박리를 조심해야 하며 하부 절제에 수일간 배농관(drain)을 넣어 둔다¹⁹⁾. 수술 중 인두측 개구부위를 손가락으로 압박하여 술자가 쉽게 종말 부를 찾도록 도와 줄 수 있다¹⁷⁾. 큰 상처를 남기지 않고 쉽게 누관을 제거 할 수 있어, 현재 널리 통용되고 있으며 술 전에 메틸렌블루(methylene blue) 색소를 주입하면 누관의 전 경로를 알기 쉬우므로 색소를 주입하

는 것이 바람직하다고 하였다²⁰⁾.

IV. 결 론

저자들은 최근 50세 의 남자 환자에서 좌측 갑상선 농양수술 후 발견한 좌측 경부에서의 이상와 누공 1례를 치험하였기에 그 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

1. Kim YW, Paek SD, Kim JK, Jeon SH : A Case of Piriform Sinus Fistula. *Korean J Otolarygol.* 1994; 37: 183-7
2. Kim SH, Soh JY, Hwang MS, et al : Bilateral Branchial Fistulae. *Korean J Otolarygol.* 1982; 25: 396-400
3. Hyndman OR, Light G : *The Branchial Apparatus.* *Arch Surg.* 1929; 19: 410
4. Miller JB : Branchial Cleft Cysts, Fistulae and Appendages. *Laryngoscope.* 1957 (Nov.); 67: 1123-1193
5. Work WP, Proctor CA : *The Otologist and First Branchial Cleft Anomalies.* *Ann Otol.* 1963 ; 72 : 548
6. 최 건 : 새성기형의 임상상. *인간과학.* 1989; 13: 609-614
7. Colin SK : *Developmental Anomalies of the Neck.* In *Pediatric Otolaryngology*(ed. Charles D. Bluestone et al), 2nd Ed. Philadelphia, WB, Saunders company, pp 1303-1316, 1990.
8. Donegan JO : *Congenital Neck Masses.* In *Otolaryngology-Head and Neck surgery*(ed. Charles W. Cummings), 2nd Ed. St. Mosby Year-Book, 1554-1565, 1993.
9. Paek SI, Lee YH, Yoon KM, et al : A Case of Branchia Fistula. *Korean J Otolarygol.*

- 1981; 24: 432-5
10. Baily H : *The Clinical Aspects of Branchial Fistulae*. *Brit J Surg*. 1923; 10: 565-572
 11. Shaheen OH : *Two Cases of the Nasopharynx*. *Otolaryngol*. 1961 ; 75 : 182
 12. Rene AK, Robert P, Stanley M : *Primary Branchiogenic Carcinoma*. *Head & Neck*. 1989; 11: 153-169
 13. Arnot RS : *Defect of the First Branchial Cleft*. *A. Afr. J. Surg*. 1971; 9: 93-98
 14. Cho JS, Lee CW : *Complete Branchial Fistulae communicated with Pharynx*. *Korean J Otolaryngol*. 1985; 28: 816-820
 15. Micheal SG, Donald BK, Seth MP, et al : *Fourth branchial pouch sinus*, *Principles of Diagnosis and Management*. *Laryngoscope*. 1990; 100: 174-8
 16. Downey WL. Ward PH : *Branchial Cleft Cyst in Mediastinum*. *Arch Otolaryngol*. 1969; 89: 762-5
 17. 임현준, 노영수 : *새성 기형*. *인간과학*. 1990; 14: 37-43
 18. Baumgartner CJ : *Congenital Lesions of the Neck*. *JAMA*. 1939; 113: 1860-4
 19. Baily H : *The Clinical Aspects of Branchial Fistulae*. *Brit J Surg*. 1933; 21: 173
 20. Kim KH : *A Case of Complete Branchial Fistula*. *Korean J Otolaryngol*. 1980; 23: 125