

전이성 선암종을 포함한 경부하마종(Plunging ranula)의 치험례

정해석 · 팽준영* · 명 훈 · 김명진

서울대학교대학원 구강악안면외과, *원광대학교 치과대학 구강악안면외과

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2007;33:543-547)

A CASE REPORT OF PLUNGING RANULA WITH METASTATIC ADENOCARCINOMA

Hae-Seok Jeong, Jun-Young Paeng*, Hoon Myoung, Myung-Jin Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Seoul National University

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Wonkwang University

The plunging ranula is a kind of ranula that goes over the mouth floor to the neck and other adjacent tissue. Sublingual gland is gently accepted as origin of plunging ranula. Plunging ranula develops commonly because of rupture of sublingual gland duct by trauma and extravasation of salivary secretion to the adjacent tissue. It is not true cyst so that there is no epithelium. And it consisted with thin connective tissue, inflammation cell infiltration and salivary secretion. Left without treatment, it can grow into the 10 cm more huge lesion.

This report is a case of 73 years old female who was diagnosed as plunging ranula with review of literature. She presented 5 cm submandibular swelling at first. When surgery was delayed because of patient's condition, the lesion grew into the 12cm huge size. We performed excision of sublingual gland, submandibular gland and plunging ranula and had a good result without recurrence.

Key words: Plunging ranula, Sublingual gland

I. 서 론

구강저에 발생한 점액낭종을 하마종(ranula)이라고 한다. 하마종은 대개 설하선과 관련되어 발생하는데, 외상 등으로 인해 설하선의 도관이 파열되면 점액 등의 분비물들이 인접 연조직으로 흘러 들어가고, 이것이 축적되면서 발생하는 것으로 알려져 있다. 하마종은 진성낭(true cyst)이 아니기 때문에 상피로 이장되어 있지는 않으며, 대식세포 등의 만성염증세포가 침윤된 얇은 결체조직으로 이루어져 있다¹⁾. 십대와 이십 대에서 가장 호발하지만 모든 연령대에서 발생할 수 있으며, 남성에 여성의 발생 비는 1:1.3으로 여성에서 조금 더 호발하는 것으로 보고되고 있다^{2,3)}. 하마종은 구강저를 넘어 악하간극이나 경부로 퍼져나갈 수도 있는데, 이를 경부하마종(cervical ranula, plunging ranula)이라고 한다. 경부 하마종은 설하선이 악설골근 하방 측 악하 간극으로 돌출 되어 있거나, 악설골근에 결함(defect)이 있거나, 설하선의 도관이 악하선의 도관과 연결되어 있는 경우에 발생한 것으로 알려져 있다⁴⁾. 드물지만 경부하마

종은 치료를 지연할 경우 인접 주위 조직을 변위 시키면서 직경이 10cm 이상 증식할 수 있다⁵⁾.

저자들은 상당한 크기로 증식하였으며 특이하게 선암종에 이환되었던 경부 하마종 증례를 치험하였으며, 이를 성공적인 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증례보고

2005년 7월 12일 73세 여환이 좌측 악하부의 종창을 주소로 본원에 내원하였다. 환자는 본원 내원 1년 전, 타 병원에서 방사선 사진 및 임상 검사를 통해 경부 하마종으로 진단 받았다. 전신 마취하에 이를 절제하기로 하였으나, 비조절성 고혈압으로 인한 위험으로 수술을 연기하고 있었다. 환자는 내과에서 투약을 통한 혈압 조절을 권고하였으나 특별한 이유 없이 이를 거부한 상태였다. 하마종의 치료도 지연하고 있는 상태였으나 종창이 급격히 증가하며 연하장애(dysphagia)가 발생하여 본원으로 재내원하게 되었다. 문진 결과, 동통은 없었으나 연하 시 불편을 호소하였으며, 병소는 서서히 증식하였다고 하였다. 임상적으로 좌측 악하부위에 직경 5 cm 정도의 종창이 관찰되었으며 촉진 시 경화감은 있었으나 압통은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 이에 2005년 7월 21일 전신 마취 하에 설하선, 악하선, 그리고 경부 하마종을 적출술을 계획하였으나 수술 당일 비조절성 고혈압(230/98 mmHg)이 재발하여 마취과 의사의 판단 하에 수술을 연기하였다.

김 명 진

110-768 서울시 종로구 연건동 275-1

서울대학교 치과병원 구강악안면외과

Myung-Jin Kim

Dept. of OMFS, School of Dentistry, Seoul National University

275-1, Yeongeong-dong, Jongno-gu, Seoul, 110-768, Korea

Tel: +82-2-2072-3820 Fax: +82-2-766-4948

E-mail: myungkim@plaza.snu.ac.kr

이후 환자는 추적 관찰에 응하지 않았으나 2006년 3월 14일 병소가 직경 10 cm 이상으로 갑작스럽게 증가하고 심한 연하장애가 발생하여 본원에 재내원하였다. 재내원 시 병소는 악하부에 직경 10 cm 종창을 보였으며, 경부 피부는 팽창하여 미란되고 있는 상태였다. 촉진 시 경화감이 있었으나 압통은 관

찰되지 않았다(Fig. 2). 정확한 진단을 위하여 조영증강 컴퓨터 단층촬영을 시행하였다. 영상에서 병소는 중격으로 나누어진 직경 6 cm와 4 cm의 낭성 병소를 보이고 있었다. 내부는 석회화된 양상의 물질이 혼재된 양상을 보였으며 하악지의 후연을 미란(erosion) 시키는 악성 병소의 소견을 보이고 있었다(Fig. 3).

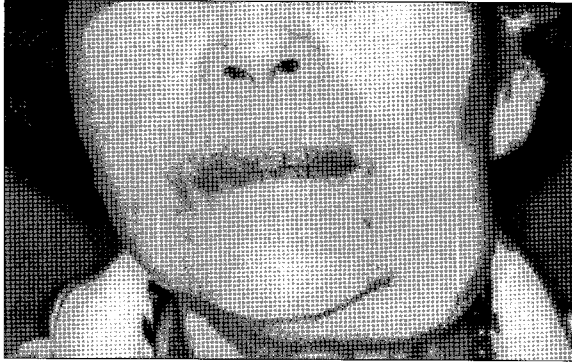


Fig. 1. Clinical photo at July, 2005 showing 5 cm submandibular swelling. There were no pain and tenderness.

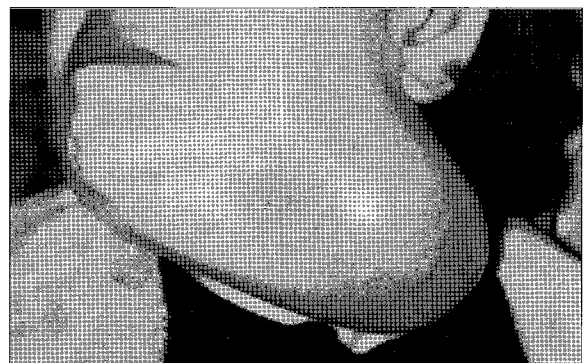


Fig. 2. Clinical photography at March, 2006 showing severe swelling and facial deformity.

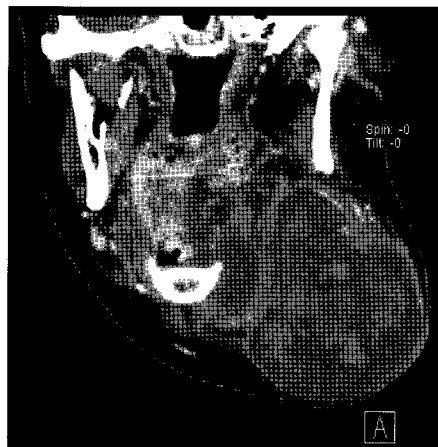
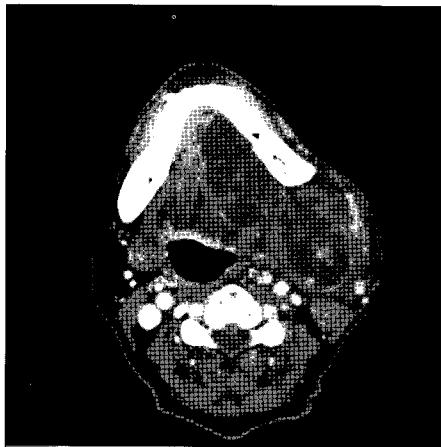


Fig. 3. CT image shows septation of lesion. Small one was 5 cm and large one was 7 cm. And there was solid enhanced portion in the large lesion.

확진을 위하여 절개배농(I&D)과 함께 절개생검을 계획하여 2006년 3월 20일 진정마취(IV sedation)하에 절개 배농 및 절개 생검을 시행하였다. 조직검사의 결과는 단순 경부하마종으로 진단되었다. 절개배농으로 인하여 병소의 크기가 줄어들었으나 병소의 완전한 해소를 위하여 2006년 4월 19일 전신마취하에 경부 하마종 적출 및 설하선, 악하선 적출 및 Suction drain 삽

입을 시행하였다. 낮은 앞치마형 절개선(Apron incision)을 설정하였고 층별 박리를 통하여 경부에 존재하는 병소에 도달하였다. 병소는 투명하게 비치는 암갈색으로(Fig. 4) 악설골근의 후연을 걸쳐 설하 간극에서 악하 간극에 이르는 모습으로 흔히 Tail sign 이라는 부르는 전형적인 형태였다⁶⁾. 두개의 낭성 병소 중 전상방 병소는 대부분의 경부 하마종에서 관찰되는 것처럼

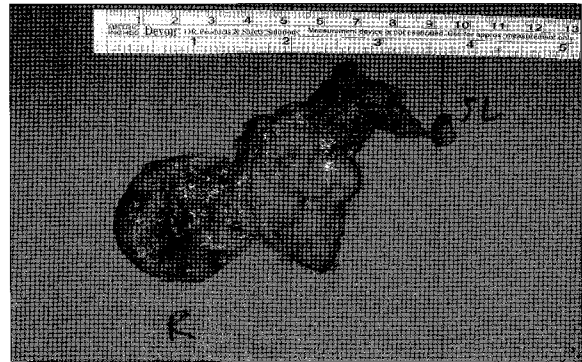
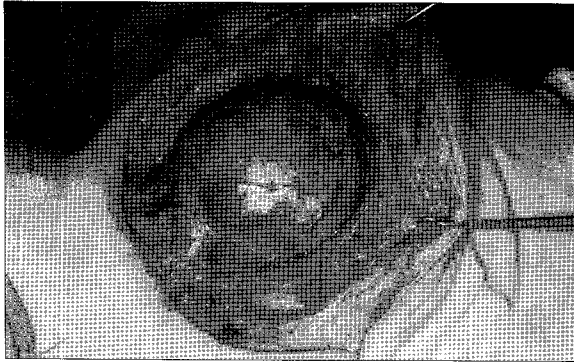


Fig. 4. Intra operation photo graphy. Low apron incision was performed. Plunging ranula was reddish brown color and transparent lesion.

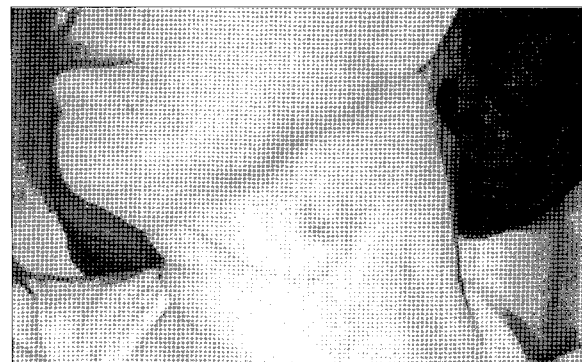
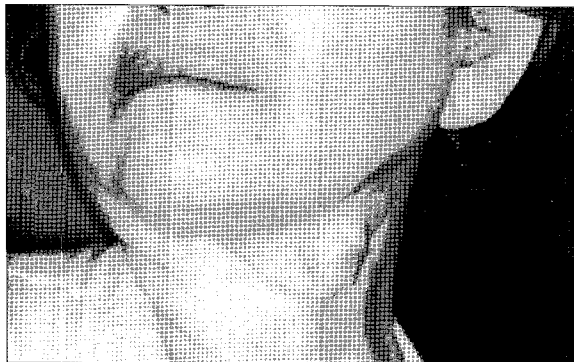


Fig. 5. Post operation photo graphies at October, 2006 showing almost remission of the lesion.

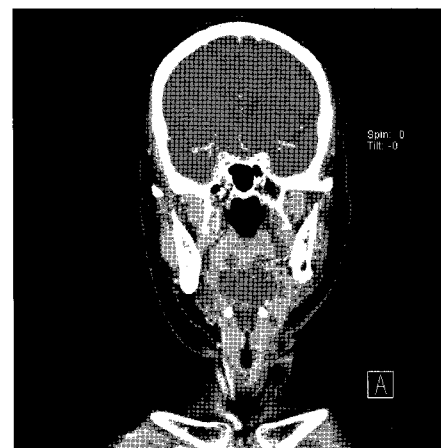
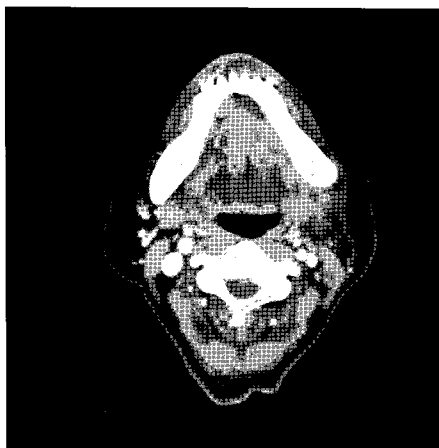


Fig. 6. CT images show almost remission of lthe esion.

후인두벽까지 연장되어 있었으며⁶⁾ 후하방 병소는 흉쇄유돌근과 후방으로 변이시키면서 경부 피부층에 인접하고 있었다. 피부가 천공되지 않도록 조심하면서 위막성 결체조직 낭벽을 제거하였으며, 흉쇄 유돌근과 인두가 손상되지 않도록 조심스럽게 박리하여 병소를 제거하였으며, 악하선과 함께 구내절개를 통하여 설하선을 적출하였다. Suction drain을 삽입하고 층별 봉합하였다.

술 후 적출된 종물로 시행한 조직검사에서는 경부하마종과 더불어 전이성 선암종(adenocarcinoma)이 진단되었다. 그러나 구강 내 선암종의 원발 병소는 발견되지 않았다. 다른 기타 장기에서의 전이를 검사하기 위하여 전신 PET 컴퓨터 단층사진 촬영을 권유하였으나 환자는 고령 및 경제적인 사정을 이유로 검사를 거부하였다. 그러나 술 후 상처는 특별한 감염증 없이 치유 되었으며, 병소의 매우 작은 부분을 제외한 대부분의 병소가 해소되었다. 이후 환자는 2006년 10월까지 외래 정기 검진을 시행하였으며 경부하마종의 재발의 소견을 보이지 않고 있으며, 또한 전이성 선암종도 특별한 종물 증식의 소견을 보이지 않고 있다(Fig. 5, 6).

Ⅲ. 총괄 및 고찰

하마종의 원인이 주로 설하선이라는 많은 증거가 제시되어 왔다. Harrison 등은 고양이⁷⁾의 설하선을 결찰하였을 때 소포체들의 파괴로 인한 하마종이 유발되는 것을 관찰하였다⁸⁾. Roediger 등은 경부하마종의 내용물을 분석하였다. 경부하마종의 내용물은 점액성 물질과 더불어 높은 단백질 농도를 보이는데 이는 설하선의 분비물과 거의 비슷한 양상을 보였다⁹⁾. 또한 설하선을 제거할 때 경부하마종의 재발이 거의 관찰되지 않는다는 것들은 하마종의 원인이 설하선이라는 것을 짐작하게 한다⁹⁾.

설하선은 구강저(설하간극)에 존재한다. 구강저는 전면과 측방면은 하악체, 중격은 이설근(genioglossus muscle), 기저부는 악설골근(mylohyoid muscle)으로 구획된 공간이다. 따라서 하마종은 편측으로 발생하거나 설하간극에 국한되어 발생하는 것이 일반적이다⁹⁾.

그러나 사체 연구에 의하면 27~45%의 사체에서 악설골근에 결함(defect)이 있는 것으로 알려져 있어 이 공간으로 일반 하마



Fig. 7-1. Almost lesion shows typical appearance of ranula that consist of connective tissue and inflammation cell infiltration (x3).

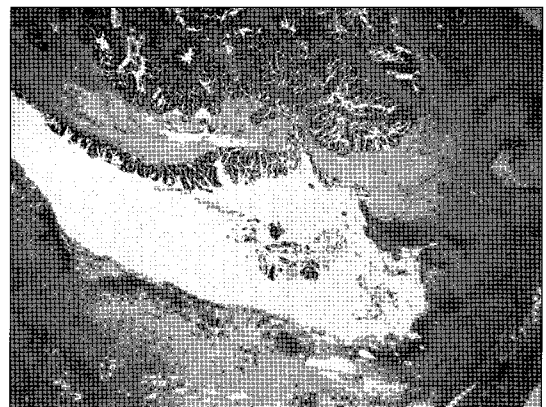


Fig. 7-2. But some portion shows feature of adenocarcinoma (x10).

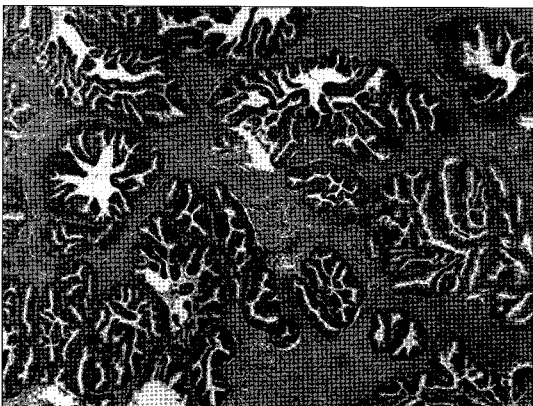


Fig. 7-3. (x40).

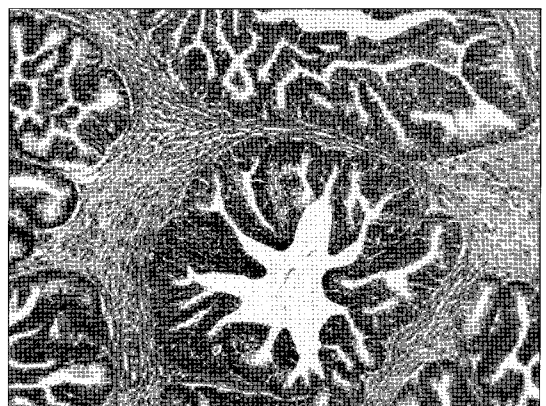


Fig. 7-4. (x100).

종이 경부하마종으로 발전할 수 있다⁷⁾. 또한 경부하마종은 의원성(iatrogenic)으로도 발생할 수 있는데 하마종 제거 중 발생한 악설골근의 결함으로 인해 하마종 재발 시 하마종이 경부하마종으로 발전할 가능성이 있으며 약 40%의 경부하마종이 의원성으로 발생한다고 한다⁸⁾. 악설골근의 결함 이외에 설하선이 악설골근을 넘어 돌출되어 있는 경우에도 경부하마종의 가능성이 높아지게 된다. 또한 설하선의 도관이 악하선의 도관과 연결되는 경우에도 경부하마종의 가능성이 높아지게 되는데 이때는 전형적으로 tail sign 이라는 형태 즉 하마종이 설하간극에서 악하간극으로 이어지며 팽창하는 형상의 경부하마종이 발생하게 된다⁹⁾. 본 증례에서도 경부하마종이 설하간극에서부터 악하간극으로 이어지는 전형적인 tail sign 형태의 증식을 보이고 있었다.

경부하마종의 경우 보통의 하마종과는 달리 구강저의 거상이나 부종 등 설하선의 폐쇄를 짐작하게 하는 소견을 동반하지 않는 경우가 많기 때문에 오진의 가능성이 높다. 오진은 경부하마종 치료 시 재발의 위험성을 높이기 때문에 주의 깊은 진단이 필요하다¹⁰⁾. 경부하마종과 감별진단 해야 할 질병으로는 수활액낭종(Hygroa)이 있다. 경부하마종은 편측으로 발생하여 근막층을 따라 증식하며 인접구조물을 변이시키나 침범은 하지 않는 것으로 알려진 반면, 수활액낭종은 근막층과 상관없이 증식하고 인접 구조물을 침범하는 것으로 알려져 있다. 또한 경부하마종의 내부는 단일 구조이거나 간단한 격막으로 나누어진 단순한 구조인 반면에 수활액낭종은 경계가 불분명하고, 여러 개의 소엽으로 나누어져 있는 형태를 띤다. 또한 흡인 시 경부하마종의 내용물은 점액물과 더불어 단백질 성분이 높은 반면 수활액낭종은 지방성분이 많은 것으로 알려져 있다^{10,11)}. 이 밖에 유표피낭종, 새열낭종, 림프선 비대증, 및 혈관종 등이 경부하마종과 감별진단이 필요한데, 이들은 조직학적으로 하마종과는 확연히 다르며, 방사선 사진상 설하선과의 관계 등을 고려하여 감별할 수 있다. 진단 시 경부하마종을 확진 할 수 있는 방법은 제한되어 있다. 종창에 대한 상세한 병력청취 및 사진, 촉진, 컴퓨터 단층 촬영과 자기공명영상을 통한 진단과 내용물 분석을 통한 사례 깊은 감별진단이 필요하다.

하마종의 치료로는 단순 조대술이나 하마종 절제술이 시행될 수 있다. 그러나 Parekh 등에 의하면 설하선을 적출하지 않은 89증례에서 139번의 시술 중 50%가 재발된 반면 설하선을 제거한 경우에는 2% 미만의 재발만이 관찰되었다¹²⁾. 따라서 하마종 치료에서는 설하선의 적출이 첫 번째 치료 방법으로 고려되어야 한다. 설하선을 적출했을 시 경부하마종의 직접적인 적출 없이도 경부하마종이 자연히 소멸된다는 보고도 있는데 이에 의한다면 경부하마종 제거 시 무리한 박리를 시행하여 인접 구조물에 외상을 주는 것은 가급적 피하고 필요 시 Suction drain 등을 삽입하여 보존적으로 치료하는 것을 추천한다¹³⁾. 다른 치료 방법으로는 OK-432 약물 주입을 통한 경화치료 방법이 많이 보고 되고 있다. Rho 등에 따르면 1회 주입 시

33%만이 재발 소견을 보이지 않았지만, 병소가 소멸되지 않은 환자를 대상으로 몇 차례(평균 1.7회) 추가 주입 시 3%만이 재발하는 결과를 보였다¹⁴⁾. 수술을 기피하는 환자를 대상으로 고려해 볼만한 치료법이라 하겠다.

본 증례에서처럼 하마종 제거 후 종물로 시행한 조직검사에서 경부하마종악성전환이 되었거나 전이성 선암종이 발견되었다는 보고는 찾을 수 없었다. 하마종에서 내에 분비선이 존재하지 않으며 설하선 및 악하선에서 원발 병소가 관찰되지 않은 것으로 미루어 경부하마종에서 발견된 선암종은 경부하마종이 악성전환되었다고 생각되기 보다는 유선 혹은 위장관 혹은 난소에 존재하는 분비선에서 발생한 선암종에서 전이한 것으로 사료된다. 향후 조심스러운 추적관찰이 요구된다 (Fig. 7).

V. 결 론

본 증례에서는 73세 여자환자에서 발생한 경부하마종을 타액선을 포함하여 외과적으로 절제함으로써 경부하마종이 크기가 상당하더라도 타액선 절제술 및 외과적출술이 성공적인 결과를 보임을 알 수 있었다.

참고문헌

1. Sela J, Ulmanky M: Mucous retention cysts of salivary glands. J Oral Surg 1969;27:619.
2. Bridger AG, Carter P, Bridger GP: Plunging ranula : literature review and report of three cases. Aust N Z J Surg 1989;59:946-8.
3. McClathey K, Appelblatt N, Zarbo R: Plunging ranula. Oral surg Oral Med Oral Pathol 1984;57:408-412.
4. Andre J., Macdonald, Karen L, salzman H, Ric harnsberger: Giant Ranula of the neck : Differentiation from cystic hygroma. AJNR 2003;757-761.
5. Michael J. Shelly, Kar H. Yeung: A rare case of an extensive plunging ranula ; discussion of image, diagnosis, and management. Oral surg Oral med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2002;93:743-6.
6. Coit W, Harnsberger H, Osborn A: Ranula and their mimics : CT evaluation. Radiology 1987;163:211-216.
7. Harrison JD, Garrett JR: Experimental salivary mucoceles in cat : A histochemical study. J Oral pathol 1975;4:297.
8. Roediger WEW, Lloudy P, Lawson HH: Mucous extravasation theory as a cause of plunging ranula. Br J Surg 1973;60:720-722.
9. White D, Davidson C, Harnsberger H: Accessory salivary gland tissue in the mylohyoid boutonniere : a clinical and radiologic pseudolesion of the oral cavity. AJNR 2001;22:406-412.
10. Coit W, Harnsberger H, Osborn A: Ranula and their mimics: CT evaluation. Radiology 1987;163:211-216.
11. Koeller Km Alamo L, Adair C, Simiriopoulous J: Congenital cystic masses of the neck ; Radiologic pathologic correlation. Radiographics 1999;19:121-146.
12. David A. Lloyd, Mohamed Elgabr: Plunging ranula. Pediatric surg Int 1995;10:144-145.
13. Parekh D, Stewart M, Joseph C: Plunging ranula : a report of three cases and review of literature. Br J Surg 1987;74:307-309.
14. Rho MH, Kim DW, Kwon JS, et al: OK-432 Sclerotherapy of plunging ranulain 21 patients : It can be a substitute for surgery. AJNR May 2006;27:1090-95.