

견갑부에 발생한 기관지기원낭종 - 1예 보고 -

인하대학교 의과대학 정형외과학교실

이동주 · 문경호 · 정재호 · 오인석

기관지기원낭종은 primitive foregut의 발생학적 이상에 의해 형성되는 드문 질환이며, 주로 폐실질과 종격동에 발생한다. 피부나 피하조직에서 발생한 기관지기원낭종은 흔하지 않으며, 이 중 견갑부에 발생한 것은 매우 드문 것으로 알려져 있다. 저자들은 20개월 된 남아의 좌측 견갑부에 발생한 기관지기원 낭종 1예를 보고하고자 한다. 환아는 피부과에서 절개 생검 및 소파술을 시행 받았고, 표피 낭종으로 진단되었다. 하지만 상흔 치유 도중 추가적인 낭성 종괴가 촉진되었다. MRI상 피하조직에 경계가 분명한 낭성 종괴가 관찰되었다. 절제된 낭종은 점액세포를 동반하는 pseudostratified ciliated columnar epithelium로 피복되어 있었으며, 기관지기원낭종으로 진단되었다.

색인 단어: 기관지기원낭종, 피하 조직, 견갑부

기관지기원낭종은 primitive foregut의 발생학적 이상으로 형성된다³⁾. 대부분 폐실질이나 종격동에서 주로 발생하며 피부나 피하조직에서는 드물다. 피부나 피하조직에서 발생한 기관지기원낭종은 약 반수 정도가 흉골 주위와 경부에서 발견되었고, 견갑부에 발생한 것은 현재까지 매우 드물며, 전 세계적으로 13예^{1,2)}, 국내 문헌에서는 2예가 보고 되어 있다⁵⁾. 저자들은 20개월 된 남아의 좌측 견갑부에서 표피 낭종을 동반한 낭성 종괴로 발견된 기관지기원낭종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례 보고

20개월 된 남자 환아가 출생 2주째 발견된 좌측 견갑부 낭성 종괴를 주소로 내원하였다. 낭성 종괴는 출생 2주째 피하 결절형 병변으로 0.5×0.3 cm 크기로 발견되었으며 압통과 홍반은 관찰되지 않았다. 내원 한 달 전부터 크기가 2.0×1.0 cm로 증가하였으며 압통과 홍반이 관찰되었다. 본원 피부과에서 시행한 혈액 검사상 정상 소견이었고 종물 주위로 압통, 국소열감 및 홍반 등의 소견으로 표피낭종 의심하에 절개 생검을 시행하였다. 조직 검사상 염증 소견을 동반한 표피낭종으로 진단되었다(Fig. 1). 술 후 관찰을 하던 중 피하 조직으로 2.0×1.0

※통신저자: 오 인 석

인천광역시 중구 신흥동 3가 7-206

인하대학교 의과대학 정형외과학 교실

Tel: (032) 890-3043, Fax: (032) 890-3047, E-mail: orthooh@inha.ac.kr

*이 논문은 인하대학교의 지원에 의하여 연구되었음.

cm 크기의 종괴가 촉지되었고, 상흔 치유가 되지 않아 본과(정형외과)로 의뢰되었다.

당시 환아는 상기 병변 외에 다른 증상을 호소하지 않았으며, 시행한 MRI상 좌측 견갑골극의 후상방 피하지방조직 내에 1.2×1.5×1.3 cm 정도로 측정되는 경계가 분명한 낭성 병변이 관찰되었다. 낭성 병변은 T2 강조영상에서 고강도, T1 강조영상에서 저강도의 음영을 나타냈고, 조영증강 시 가장자리는 조영증강이 되었고 내부는 조영증강이 되지 않았다. 낭성 종괴 주변으로 T2 강조영상에서 고강도 음영과 조영증강 소견이 피부조직까지 연장되어 있

었으나, 이것은 이전의 절개 생검으로 생긴 배출구인 것으로 판단되었다(Fig. 2, 3).

표피낭염, 림프관종 의심 하에 전신마취 후 절제술을 시행하였다. 수술 소견상 좌측 견갑부의 피하조직 내에 불규칙한 모양의 낭성 종괴가 관찰되었다. 낭성 종괴는 심부로부터 혈관을 충분히 공급받고 있었으나 심부 조직이나 관절강과 연결은 없었고, 종괴 주변에는 염증성 변화가 관찰되었다. 육안 검사상, 낭을 포함하여 절제된 검체는 2.3×2.0×1.5 cm 크기로 피하지방조직에 둘러싸여 있었고, 낭의 내부는 회색 점액을 포함하고 있었다. 조직검

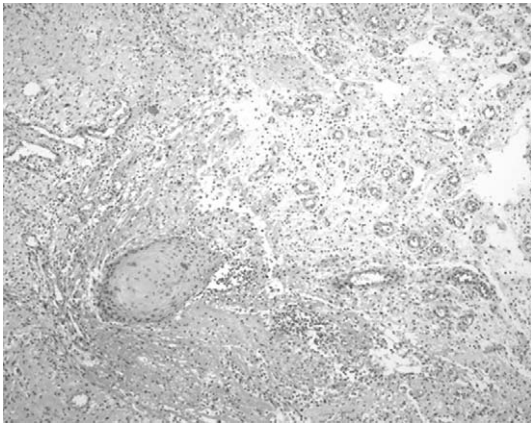


Fig. 1. This is a ruptured epidermal inclusion cyst with inflammatory reaction.



Fig. 2. T1 weighted coronal image of left shoulder shows a low signal intensity lesion with well-defined margin in the subcutaneous fat.

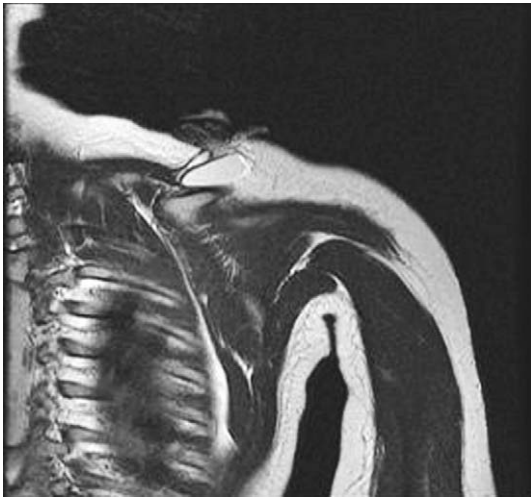


Fig. 3. T2 weighted coronal image of same level shows a high signal intensity lesion similar to the finding of T1WI. The lesion extends to the skin.

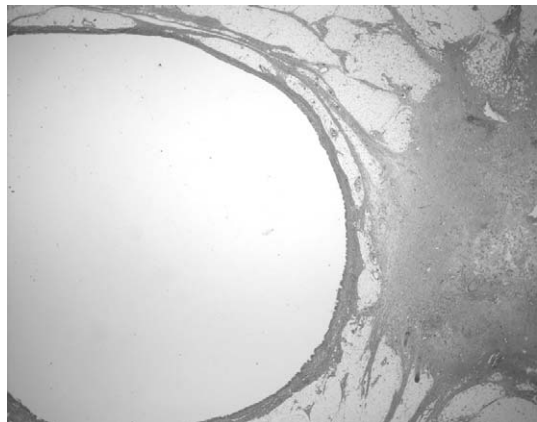


Fig. 4. The cyst wall shows smooth muscle bundles over the subcutaneous fat tissue.

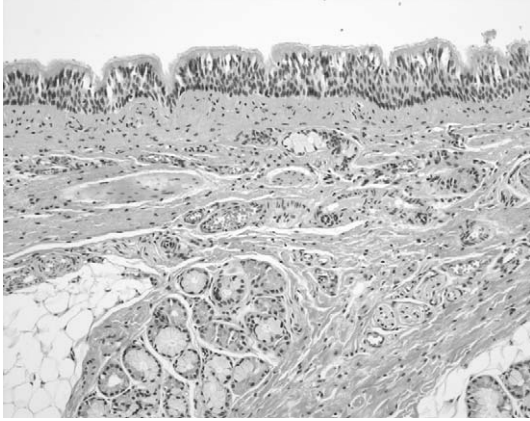


Fig. 5. The cyst is lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium.

사상 낭의 내피는 pseudostratified ciliated columnar epithelium로 피복되었고, 세포의 이형성이나 악성 변화는 없었으며, 낭 벽에서는 다수의 평활근 다발과 장점액샘 또는 장점액샘이 관찰되었다 (Fig. 4, 5). 이상의 결과는 기관지기원낭종의 소견에 해당하였고, 환아는 수술 후 회복과정상 특이 소견은 없었다.

고 찰

기관지기원낭종은 발생 7주경에 원시 전장의 비정상적인 발아(budding) 또는 이상 분지로 발생할 수 있다⁴⁾. 기관지기원낭종은 처음에는 발생부위와 연결 통로를 가지나, 그 조직에 공급되는 혈액의 양을 초과하여 자라게 되면 퇴행한다. 발생부위와 연결이 끊어진 기관지기원낭종은 이동이 가능해지며 폐 이외의 부위에서 관찰될 수 있다. 피부나 피하조직의 기관지기원낭종은 흉골하 절흔이나 흉골 주변부에서 가장 흔히 발견되며, 견갑부나 아래턱, 복벽에서 드물게 발견된다¹⁾.

피부나 피하조직의 기관지기원낭종은 출생 시나 출생 직후 낭성 종괴나 배농누로 발견되는 경우가 흔하며 남자에서 3배 정도 많은 것으로 보고 되었다¹⁾. 견갑부의 피부나 피하조직에서 발견된 기관지기원낭종은 영문 문헌에 13예가 보고 되었고, 국내의 보고에서는 성인 1예, 소아 1예의 2예만 보고 되었다^{2,5)}. 주로 증상이 없으며 서서히 크기가 증가하는 종괴로 가끔 점액성 분비물을 동반한다. 조직

학적으로 기관지기원낭종의 벽은 기관이나 기관지에 정상으로 존재하는 조직을 한 가지 이상 포함하는데, pseudostratified ciliated columnar epithelium로 피복되어 있는 것이 특징이며 때때로 goblet cell가 관찰되기도 한다. 그 외에 평활근세포, 장점액샘, 초자연골, 섬유조직 등이 관찰될 수 있는데, 정상적인 기관지는 말단부로 갈수록 이러한 조직이 감소되므로 낭의 이러한 성분은 원시 기관지에서 발아(budding)되어 나온 위치에 따라 달라질 수 있다.

감별할 질환으로 림프관종, 표피낭종, 피지낭종, 동맥류성골낭 등이 있으며⁷⁾, 이 중 표피낭종은 피부나 피하층에서 흔히 볼 수 있는 병변으로 각화성 편평세포로 피복되어 있고 쉽게 염증을 동반하나 장점액선은 포함하고 있지 않다. 저자들의 증례에서는 기관지기원낭종의 표면으로 표피낭종이 동반된 경우로 초기 치료의 혼선을 초래하였다.

기관지기원낭종의 치료는 증상에 관계없이 염증성 변화, 감염의 위험성, 그리고 드물게는 악성 변화의 가능성이 있으므로 외과적 완전 절제가 원칙이다^{6,8)}. 또한 피하층 이외의 부위에 발생한 경우 신체 주요 기관의 압박 가능성도 있어 반드시 절제해야 한다. 본 증례에서도 출생 후 증상이 없었으나 염증성 변화가 동반되었다. 절제를 하기 전에 초음파 검사, 자기 공명검사, 누공조영술 등을 시행하여 주위 조직과의 관계 및 연속성을 알아보는 것이 완전한 절제를 위해 필요할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- 1) **Matsuda K, Hikita H, Ito N, Uehara T, Hosokawa K:** Bronchogenic cyst of the shoulder. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg*, 38: 365-359, 2004.
- 2) **Ozel SK, Kazez A, Koseogullari AA, Akpolat N:** Scapular bronchogenic cysts in children: case report and review of the literature. *Pediatr Surg Int*, 21: 843-845, 2005.
- 3) **Park SH, Chi JG:** Congenital bronchopulmonary foregut malformation: analysis of the surgical and autopsy cases. *Korean J Pathol*, 27: 459-467, 1993.
- 4) **Rodgers BM, Harman PK, Johnson AM:** Bronchopulmonary foregut malformation: the spectrum of anomalies. *Ann Surg*, 203: 517-524, 1986.

- 5) **Song JS, Oh HE, Yi SY, Park NH, Kim HY:** Subcutaneous Bronchogenic Cyst of the Shoulder: A Case Report. *Korean J Pathol*, 40: 73-75, 2006.
- 6) **Sullivan SM, Okada S, Kudo M, Ebihara Y:** A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. *Pathol Int*, 49: 338-341, 1999.
- 7) **Tandogan R, Hucumenoglu S, Benli T, Aydin E, Yuceturk A:** Unusual causes of scapular clicking. lymphangioma of the thoracic wall and aneurysmal bone cyst of the scapula. *Arch Orthop Trauma Surg*, 116: 516-518, 1997.
- 8) **Tanita M, Kikuchi-Numagami K, Ogoshi K, et al:** Malignant melanoma arising from cutaneous bronchogenic cyst of the scapular area. *J Am Acad Dermatol*, 46: S19-21, 2002.

Abstract

Bronchogenic Cyst of the Shoulder - A Case Report -

**Tong Joo Lee, M.D., Kyoung Ho Moon, M.D.,
Jae-Ho Jung, M.D., In Suk Oh, M.D.**

Department of Orthopaedic Surgery, Inha University College of Medicine

Bronchogenic cyst is rare lesion that arises from maldevelopment of the primitive foregut, and is usually found in the lung and mediastinum. Cutaneous or subcutaneous bronchogenic cyst is rare and occur unusually in the shoulder region. We report here a case of 20-month-old boy with a bronchogenic cyst on his left shoulder region. He underwent incisional biopsy and curettage for a tender cystic mass at a department of dermatology, diagnosed as an epidermal inclusion cyst. But, additional cystic mass was palpated during wound care. MRI showed a well-defined subcutaneous cystic mass. The excised cyst was lined with pseudostratified ciliated columnar epithelium with occasional goblet cells and diagnosed as a bronchogenic cyst.

Key Words: Bronchogenic cyst, Subcutaneous tissue, Shoulder

Address reprint requests to

In Suk Oh, M.D.
Department of Orthopaedic Surgery, Inha University College of Medicine
7-206 3-Ga, Sinheung-dong, Jung-gu, Incheon 400-711, Korea
TEL: 82-32-890-3043, FAX: 82-32-890-3047, E-mail: Orthooh@inha.ac.kr