

구강저에 발생한 유피낭종 1예

가톨릭대학교 의과대학 인천성모병원 이비인후과학교실

김남균 · 김동현 · 박용수 · 전은주

A Case of Epidermal Cyst in the Floor of Mouth

Nam-Gyun Kim, MD, Dong-Hyun Kim, MD, Yong-Soo Park, MD and Eun-Ju Jeon, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Incheon St. Mary's Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

Epidermal cyst in the floor of mouth is relatively rare disease. Patients usually present soft and non-tender mass at the midline of mouth floor. Careful history taking and imaging study are needed for the diagnosis and surgical excision is the choice of treatment. We report a case of huge epidermal cyst located in the floor of mouth mimicking plunging ranula, which was successfully removed by transoral surgical excision without any complication. It was diagnosed as an epidermal cyst by pathologic examination. **Korean J Bronchoesophagol 2010;16:55-58**

KEY WORDS Epidermal cyst · Mouth floor.

서 론

일반적으로 구강 내에 발생하는 유피낭종은 드문 질환으로 알려져 있고 가장 처음으로 Jourdain이 그의 저술에서 1778년에 보고한 바가 있으며¹⁾ New와 Erich가 1495명의 전신에 발생한 유피낭종 환자에서 두경부에 발생한 예는 103명, 구강저에 발생한 예는 24명(1.6%)으로 보고한 바가 있다.²⁾ 구강저에 발생하는 유피낭종은 10세 이후 주로 20~30대에 호발하는 것으로 알려져 있으며³⁾ 증상이 없이 서서히 자라는 종물로 발견되며 종물은 점점 크기가 증가하면서 심한 경우 언어 장애, 연하 곤란 등을 초래하게 된다. 이와 같은 종

물의 치료로는 그 위치에 따라서 접근 방법이 달라질 수 있으나 수술적 제거가 최선의 치료로 꼽히고 있다. 저자들은 구강저에 발생한 낭성 종물을 주소로 내원한 환자에서 종물을 경구내 접근법을 통하여 수술적 제거로 완치할 수 있었으며 조직학적으로 유피낭종으로 확진된 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

69세 남자 환자가 크기가 점점 증가하는 무통성의 구강저 종물을 주소로 내원하였다. 종물은 내원 약 1달 전에 환자 본인에 의하여 발견이 되었고 내원 당시 호흡 곤란이나 연하 곤란, 언어 장애와 같은 증상은 보이지 않았으며 특별한 과거력은 병력 청취상 발견되지 않았다. 구강 진찰 시 구강저에 약 3×2 cm²의

논문접수일: 2010년 3월 4일 / 심사완료일: 2010년 6월 9일
교신저자: 전은주, 403-720 인천광역시 부평구 부평동 665
가톨릭대학교 의과대학 인천성모병원 이비인후과학교실
전화: 032-510-5866 · 전송: 032-510-5914
E-mail: ejmercy@catholic.ac.kr

낭종성 종물이 양쪽 구강저 공간을 가득 채우고 혀를 뒤쪽으로 전위시키고 있는 것이 관찰되었다(Fig. 1). 종물은 난원형으로 말랑말랑한 편이었으며 압통 및 움직임의 제한은 보이고 있지 않았다. 경부 컴퓨터 전산화

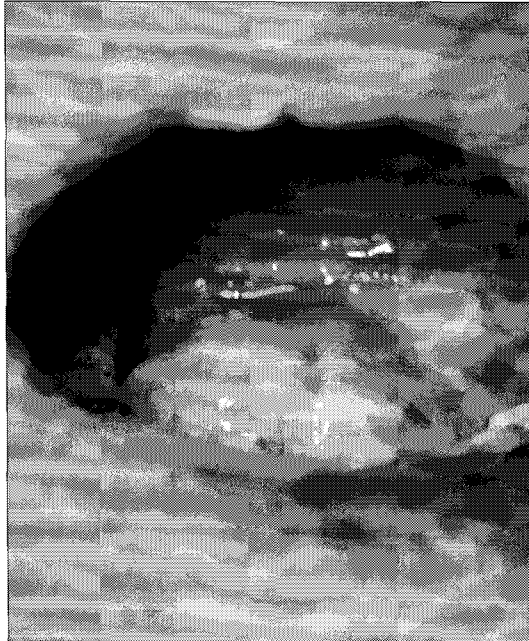


Fig. 1. About 3×2 cm² sized huge cystic mass at floor of mouth was observed. It dislocates tongue posteriorly.

단층 촬영상 3.5×3 cm² 크기의 낭종성 종물이 구강저의 중앙에서 관찰되었고 턱목뿔근(mylohyoid muscle)이나 악하 공간 침범을 의심할만한 소견은 보이지 않았으며 조영 증강이 되지 않는 점으로 미루어 볼 때 하마중과의 감별이 필요할 것으로 생각되었다(Fig. 2). 하마중 의심 하에 picibanil을 이용한 경화요법을 계획하고 10 mL 주사기를 이용하여 흡인하였더니 황갈색의 불투명하고 탁한 액체가 다량 흡인되어 일반적인 하마중의 흡인액과 다른 양상을 보였다. 이와 같은 탁한 내용물로 차 있을 경우 경화제를 주입하여도 낭종벽에 충분히 접촉하기 어려워 경화제 요법의 치료 성공률이 떨어질 것으로 예상되어 수술적 적출술로 치료를 변경하였다.

전신마취 하에 구강내 접근법을 통하여 적출을 시도하였고 낭종의 크기를 줄여서 박리를 용이하게 하고 주변 구조물의 손상을 감소하기 위해 주사기를 이용하여 낭종 내용물을 흡인하였으며 약 16 mL의 황갈색 액체를 배농하게 되었다. 수술 중 악하선관을 보존하기 위하여 양쪽 악하선관에 눈물길 더듬자(lacrimal probe)를 삽입한 상태에서 수술을 진행하였다. 낭종 표면 점막에 횡절개를 시행하고 악하선관의 손상을 피하기 위하여 조심하여 주변 조직에서 박리하였다. 종물은 종물집에 싸여 있어서 경계는 명확하였으나 주위 조직과

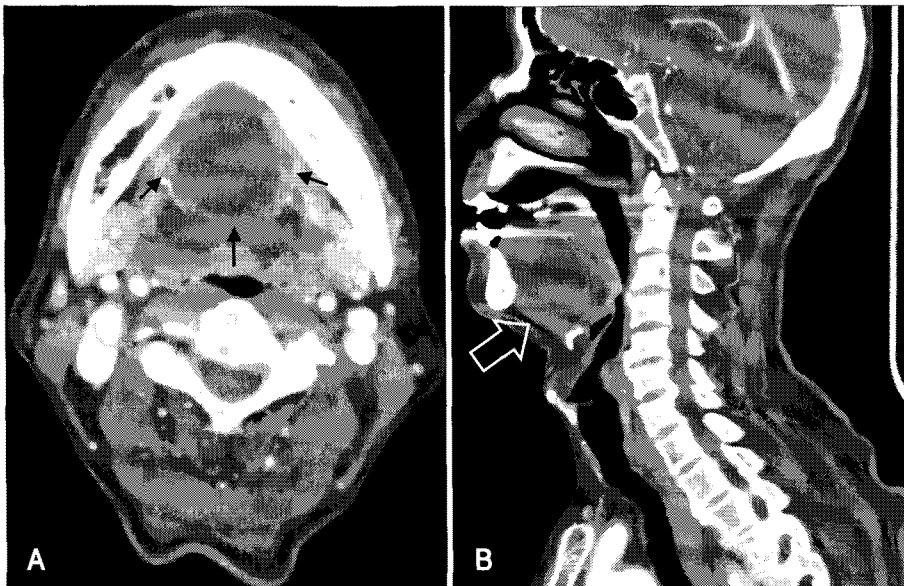


Fig. 2. About 3.5×3 cm² sized well-defined cystic lesion with internal low density is located beneath floor of the mouth. A: The rim (black arrows) is thick and is not enhanced by contrast infusion. B: There is no evidence of invasion to mylohyoid muscle, submental and submandibular region (white arrow).

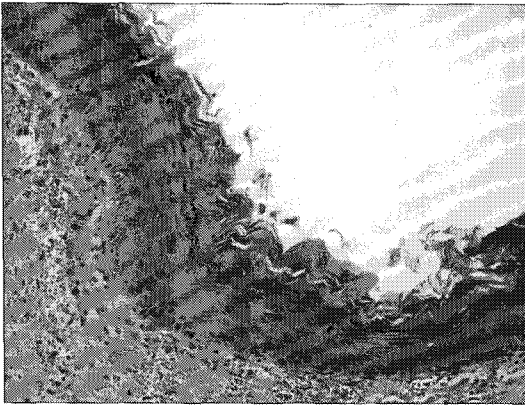


Fig. 3. H-E stain of the cystic mass. The wall of the cyst shows morphologically normal squamous cells with keratins, revealing epidermal cyst ($\times 400$).

유착되어 있었다. 전방으로는 하악골의 내측에 유착되고 하방으로는 턱끝혀근(genioglossus m.)으로 파고 들어가서 턱끝설근(geniohyoid muscle)의 양쪽 힘살(belly) 사이 공간까지 연장되어 있었다. 양측 악하선관을 확인하고 보존하였으며 수술시 설신경, 설하선경은 손상되지 않았다. 적출을 완료한 후 전기소작술로 세심하게 수술 부위를 지혈하고 생리 식염수로 세척한 후 흡수 봉합사를 이용하여 봉합하고 수술을 마쳤다. 적출된 종물의 크기는 약 $3.5 \times 3 \text{ cm}^2$ 였으며 병리학적 검사상 낭종 벽은 케라틴을 포함한 정상 편평상피세포로 구성된 유피낭종으로 확인되었다(Fig. 3). 환자는 수술 후 1일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였으며 수술 후 2달째 외래 방문시 수술 부위는 잘 치유되었고 재발의 소견 없이 지내고 있는 것을 확인할 수 있었다.

고 찰

일반적으로 유피낭종은 전신 어디에서나 발생할 수 있으나 주로 고환과 난소에서 발생하는 것으로 알려져 있으며 두경부에 발생하는 경우는 비교적 드문 것으로 알려져 있으며 그 유병률은 1.6~6.9%로 보고되고 있고 이는 구강내에 발생하는 모든 낭종에서 0.01% 미만을 차지하고 있다.⁷⁾ 두경부에 발생하는 유피낭종의 경우 그 호발 부위를 살펴보면 눈썹의 외측부에서 가장 호발하며 다음으로 구강저의 순으로 호발하게 된다.⁸⁾ 남녀 성비에 따른 발생 빈도를 보면 많은 문헌에서 약 3 : 1의 비율로 남자에서 호발하는 것으로 보고되고 있으나 남녀의 빈도에 차이가 없다는 보고도 있다. 호발 나

이로는 20세에서 30세에 가장 호발하는 것으로 알려져 있다. 유피낭종의 발생 기원에 대해서는 여러 가지 이론이 있으나 발달 과정에서 갇혀버린 첫 번째와 두 번째 상완궁의 외배엽 조직에서 기원한다는 학설이 가장 널리 받아들여지고 있으며¹²⁾ 두 번째로 수술이나 사고에 의한 외상에 의해 표피 세포가 조직 심부로 이식되어 발생한다는 학설이 제기되고 있다.¹³⁾ 세 번째 가설로는 구강 중앙에 위치하는 유피낭종은 갑상선 설관낭종의 다른 형태의 발현으로도 생각되고 있다.¹⁴⁾

Meyer에 따르면¹²⁾ 유피낭종(dermoid cyst)은 조직학적으로 연관성이 있는 유피낭종, 유포피낭종(epidermoid cyst) 그리고 기형종(teratoma) 등의 낭종을 통칭하는 것으로 제 1 새열궁과 제 2 새열궁의 정중융합 과정에서 포함된 상피조직의 증식에 의해 발생하는 선천성 종양으로 알려져 있다. 표피양낭종의 경우 표피층만으로 구성되어 있으며 유피낭종의 경우 타액선, 한선, 모낭 등의 피부 부속기가 존재하게 되며 기형낭종의 경우 표피층 및 피부 부속기와 함께 근육, 뼈의 일부나 호흡기 또는 위장관 점막 등의 조직구조를 포함하게 된다. 세 가지 형태 각각에 대한 유병률에 대한 보고는 없으나 일반적으로 표피양낭종이 가장 많은 빈도를 차지하며 기형낭종이 가장 낮은 빈도를 차지한다고 알려져 있다.³⁾ 유피낭종은 조직학적으로는 양성이지만 악성으로의 변화도 보고되고 있다. 구강저에서 발생한 유피낭종의 경우 5%에서 악성 변화가 보고되고 있으며 이는 조직학적으로 기형낭종의 경우에만 국한된 것으로 알려져 있다.¹¹⁾ 본 증례에서는 낭종의 벽을 따라서 정상적인 편평상피세포가 두터운 케라틴 층과 함께 발견되어 양성 유피낭종으로 확진할 수 있었다.

임상 증상으로는 대개 서서히 자라는 무통성의 종물로 발견이 되며 그 크기에 따라서 연하 장애나 호흡 곤란, 언어장애 등을 유발할 수 있다. 구강저에 발생한 종물에서 감별해야 할 질환으로는 악하선관의 폐색, 하마중, 설하선이나 악하선에 발생한 양성 종양 또는 악성 종양, 그리고 갑상선 설관낭종, 낭포성 림프관종, 급성 감염 등이 있다. 이를 위하여 환자의 자세한 병력 청취와 주의 깊은 두경부 진찰을 포함하여 다양한 영상학적 진단 방법이 필수적으로 꼽을 수 있다.

표피양낭종의 진단을 위한 방법으로 세침흡인검사가 안전하며 값싸고 신뢰할 만한 검사 방법으로 추천되고 있으며 세침 흡인 검사상 케라틴성이나 피지성, 또

는 화농성의 내용물이 흡인되며 이는 타액선의 폐색으로 인한 병변과 구별되는 점으로 꼽을 수 있다.⁴⁾ 영상학적 방법으로는 컴퓨터 단층 촬영 및 자기 공명 영상 촬영이 병변의 정확한 위치 및 수술적 접근 방법에 대해 도움을 줄 수 있으며 그 외 초음파를 이용할 수도 있으나 X선 촬영은 큰 도움을 주지 못하는 것으로 알려져 있다. 몇몇 저자들은 자기 공명 영상 촬영을 컴퓨터 단층 촬영보다 선호하기도 하는데 이는 자기 공명 영상이 연부 조직의 성상 파악에 더 유리한 점에 기인한다. 자기 공명 영상에서 표피양낭종이나 다른 액체를 포함하는 병변의 경우 T1 조영 증강에서 저신호 강도를 보이며 T2 조영 증강에서 고신호의 강도를 보이는 특징을 나타낸다. 유피양낭종의 경우 일반적으로 T1 조영 증강에서 고신호 강도를 나타내나 T2 조영 증강에서 중등도의 신호 강도를 나타내는데 이는 낭종 내의 지질 함유가 더 높은 점에 기인하는 것으로 볼 수 있다. 반대로 신생물의 경우나 염증성 병변의 경우 T1에서 중등도의 신호 강도 및 T2에서 고신호 강도를 보이는 점을 특징으로 나타낸다.⁹⁾

치료로는 외과적 적출을 통해 완전한 제거가 가능하며 낭종의 위치에 따라 수술적 접근 방법이 달라지게 된다. 일반적으로 낭종이 턱목뿔근(mylohyoid muscle) 상부에 위치하거나 크기가 작은 경우 경구를 통한 접근법이 추천되나 턱목뿔근 하부에 위치하거나 크기가 큰 경우는 외부 접근을 통한 절개 방법이 추천된다. 하지만 Francesco는 낭종의 크기가 큰 경우에도 경구를 통한 접근 방법이 미용적이나 기능적인 면에서 유효한 결과를 보이며 턱목뿔근 하부에 낭종이 위치한 경우에만 외부 접근을 통한 절개 방법이 필요한 것으로 보고하고 있다.⁶⁾ 그 외에 크기가 큰 낭종의 경우는 조대술(marsupialization)에 의한 방법도 소개되고 있다.¹⁰⁾ 저자들은 본 예에서 이런 점들을 감안하여 종물이 구강 내 진찰 및 경부 컴퓨터 전산화 단층 촬영상에서 구강저 점막하에 위치해 있으며 턱목뿔근과 악하공간의 침범이 보이지 않는 점과 크기를 고려하여 경구내 접근 방법을 통하여 구강저 점막에 횡절개를 가하는 방법을 채택하였다. 수술과정에서 주위 구조물들의 손상은 관찰되지 않았으며 합병증 발생 없이 완전 절제를 시행하고 단순 일차 봉합으로 수술을 끝마칠 수 있었다.

결론적으로 구강저에 발생하는 유피양낭종은 비교적 드문 질환으로 진단을 위하여 환자의 자세한 병력 청취와 증상, 또한 면밀한 구강내 진찰이 중요하며 아울러 컴퓨터 전산화 단층 촬영이나 자기 공명 영상, 초음파 등과 같은 영상 진단 방법이 진단과 수술 접근 방법에 중요하다고 볼 수 있다. 또한 치료로는 수술을 통하여 재발이나 합병증 없이 완전 절제를 기대할 수 있으며 종물의 위치와 크기, 미용상의 문제를 통하여 접근 방법의 변화를 술전에 모색할 수 있을 것이다. 또한 수술 시 설하신경이나 설신경, 악하선관과 같은 중요 구조물들의 손상에 주의를 기울여야 할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- 1) Akinosi JO. Multiple sublingual dermoid cysts. *Br J Oral Surg* 1974;12:235-9.
- 2) Chung K, Kim HD, Oh WH, Cho JH. A Case of Multiple Dermoid Cyst of the Floor of the Mouth. *Korean J Otolaryngol* 2000;43:447-9.
- 3) Jham BC, Duraes GV, Jham AC, Santos CR. Epidermoid cyst of the floor of the mouth: a case report. *J Can Dent Assoc* 2007;73:525-8.
- 4) Seah TE, Sufyan W, Singh B. Case report of a dermoid cyst at the floor of the mouth. *Ann Acad Med Singapore* 2004; 33:77-9.
- 5) Epivatianos A, Zaraboukas T, Antoniadis D. Coexistence of lymphoepithelial and epidermoid cysts on the floor of the mouth: report of a case. *Oral Dis* 2005;11:330-3.
- 6) Longo F, Maremonti P, Mangone GM, De Maria G, Califano L. Midline (dermoid) cysts of the floor of the mouth: report of 16 cases and review of surgical techniques. *Plast Reconstr Surg* 2003;112:1560-5.
- 7) De Ponte FS, Brunelli A, Marchetti E, Bottini DJ. Sublingual epidermoid cyst. *J Craniofac Surg* 2002;13:308-10.
- 8) Louis PJ, Hudson C, Reddi S. Lesion of floor of the mouth. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60:804-7.
- 9) Walstad WR, Solomon JM, Schow SR, Ochs MW. Midline cystic lesion of the floor of the mouth. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:70-4.
- 10) Yilmaz I, Yilmazer C, Yavuz H, Bal N, Ozluoglu LN. Giant sublingual epidermoid cyst: a report of two cases. *J Laryngol Otol* 2006;120:E19-8.
- 11) Zachariades N, Skoura-Kafoussia C. A life threatening epidermoid cyst of the floor of the mouth: Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48:400-3.
- 12) Meyer I. Dermoid cysts (dermoids) of the floor of the mouth. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1955;8:1149-64.
- 13) King RC, Smith BR, Burk JL. Dermoid cysts of the floor of the mouth. Review of the literature and case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;78:567-76.
- 14) de Mello DE, Lima JA, Liapis H. Midline cervical cysts in children. Thyroglossal anomalies. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1987;113:418-20.