

양측성 제2새열 낭종 치험 1예

건국대학교 의과대학 이비인후과학교실

이형준 · 안정윤 · 김영현 · 최정석 · 강성호 · 김보형 · 임대준 · 유명상

= Abstract =

Bilateral Second Branchial Cleft Fistulas

Hyung-Jun Lee, MD, Jeong-Yoon Ahn, MD, Young-Hyun Kim, MD, Jeong-Seok Choi, MD,
Sung-Ho Kang, MD, Bo-Hyeng Kim, MD, Dae-Jun Lim, MD, Myng-Sang Yu, MD

Department of Otolaryngology, College of Medicine Konkuk University, Chungju, Korea

Our case presents unusual case of Bilateral second brachial cleft fistulas. The brachiogenic anomalies usually arise from an incomplete obliteration of branchial apparatus are common congenital cervical anomalies. But Bilateral manifestation are very rare. We treated it with surgical excision and it has not occurred recurrence until now. So we report about its character and treatment of Bilateral second brachial cleft fistulas.

KEY WORDS : Branchial cleft · Bilateral.

서 론

경부에서 발생할 수 있는 선천성 이상 질환으로는 새기형은 비교적 흔한 질환이며, 그 외에도 갑상선관기형, 흉선낭, 유피낭, 림프관종, 후두실낭종, 혈관종 등이 발생할 수 있다. 새기형은 태생 7주말에 제2에서 제4새열과 경부동이 폐쇄되어야 하는데 경부동이 폐쇄 되지 않아, 여러 가지 형태의 새기형을 초래하게 되어 발생하게 되는 것으로 그 중 제2새기형이 가장 빈도가 높게 발생하며 그것은 제2새열이 발생과정에서 가장 깊고, 존재 기간이 가장 길어 발달 이상의 기회가 많기 때문이다. 제2새기형 대부분은 일측성이지만 양측에 발생하는 경우도 드물게 2%에서 있으며, 낭(cyst)의 형태가 누공(fistula)이나 동(sinus)의 형태보다 3배 정도 흔하다.

낭의 경우 주로 발견되는 연령층은 20~30대이고, 누공은 소아기 때부터 증상이 나타나 발견된다. 최근 저자들은 양측에 발생한 제2새기형을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

21세 남자환자 중학교 시절부터 발견된 양측 경부에 목의 종괴감과 누공이 있어 왔으며, 내원 전 목의 종괴가 붓고 누공에서 화농성의 고름이 나오는 것을 주소로 본원 이비인후과 2008년 8월 30일 외래에 내원하였다. 환자분은 과거력에서 잦은 감염이 있었으나 절개 배농의 병력은 없었고, 2006년 3월2일 본원에서 우측의 전이개 낭종으로 누공절제술을 시행 받았었으며 가족 중 어머니가 양측 경부에 종괴와 함께 누공이 있다고 하였다.

내원 당시 이학적 소견에서 양측 외이도 및 고막 이상 관찰 되지 않았으며, 편도와 부위와 이상과 부위내의 누공은 관찰 되지 않았다. 우측 흉쇄 유돌근 중간 부위와 좌측 흉쇄유돌근 상부2/3과 하부1/3 접하는 전방 부위에 누공이 관찰 되었으며(Fig. 1) 양측 흉쇄유돌근에서 약 3×2cm크기의 만져지는 부드러운 종괴가 있었다. 종괴는 발적되어 있었고 압통 및 통증이 있었고 누공으로 화농성의 분비물이 나왔다.

이에 항생제를 투여하여 염증을 치료 한 이후에 수술을 계획하였다.

전산화 단층 촬영검사 시행 시 양측 외측 경부의 갑상연 골 높이에서 우측은 낭의 형태로, 좌측은 위쪽으로 향하는

교신저자 : 강성호, 380-704 충북 충주시 교현2동 620-5
건국대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (043) 840-8280 · 전송 : (043) 843-6165
E-mail : kkdin@kku.ac.kr

관 형태의 구조가 내경동맥과 외경동맥 사이로 지나가는 것이 관찰되었고(Fig. 2) 전체적인 관의 주행을 알아보기 위해 누공조영술(Fistulography)를 하였다(Fig. 3).

누공조영술을 시행한 결과 좌측의 주행은 갑상연골에서

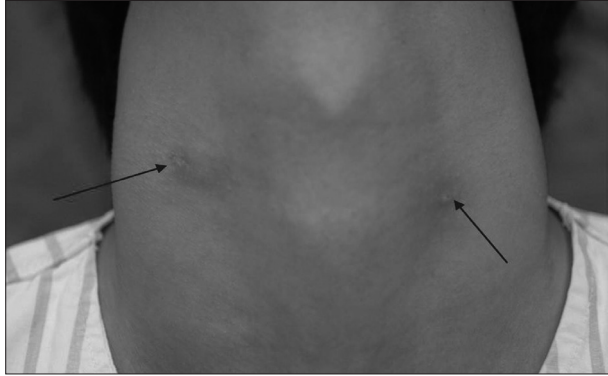


Fig. 1. This photograph shows the fistulas was observed both side of anterior neck. Bilateral external orifices(black arrows) are noted in both mid-portion on the neck.

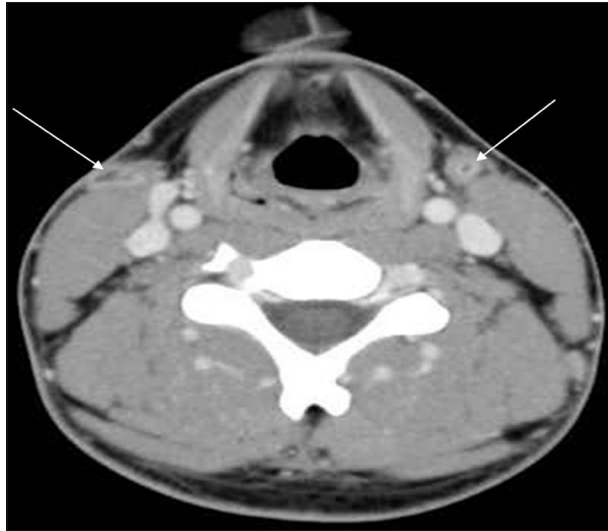


Fig. 2. Axial Neck CT with contrast enhancement. Rt. cystic mass lesion(Rt. white arrow) ant Lt pipheral rim-enhanced mass lesion(Lt white arrow) are located at both anterior mandibular area.

시작하여 편도와 부위의 인두에서 개구 하고 있었으며 우측은 누공의 입구주변에서 시작된 작은 낭으로 관찰 되었다.이에 제2세열 기형 양측 추정 진단하고 2008년 9월 26일 전신 마취하에 좌측 누공 절제술 및 우측 낭종 제거술을 시행하였다. 양측 모두 횡절개를 하였다. 수술 소견에서 좌측의 누공은 경동맥의 외측 상부를 주행하여 내경동맥과 외경동맥 사이에서 내측으로 들어가는 것이 관찰되었고, 주행의 손상을 막기 위하여 주변 연조직과 함께 주의해서 박리하였으며 설하신경 및 설인신경도 확인하며 주의하였다. 우측의 낭종은 비교적 주변과 경계가 잘 이루어지며 낭주위를 주의하여 박리하여 적출하였다(Fig. 4). 양쪽에 배액관을 삽입하였고 압박 드레싱 하였다. 수술 이후 출혈 및 감염 소견 관찰 되지 않았으며 술 후 5일째 배액관 제거 하였으며 봉합사를 일부 제거 하였고 술 후 7일째 병리 조직 검사에서 편평 상피세포로 낭의 내부에서 관찰되었으며 임프구 세포들이 다수 관찰되어 세열 기형에 합당한 소견으로 나왔으며(Fig. 5) 봉합사 모두 제거 하였고 퇴원하였다. 현재 환자 수술 후 2년 4개월 간 특별한 재발 없이 잘 회복한 상태이다.

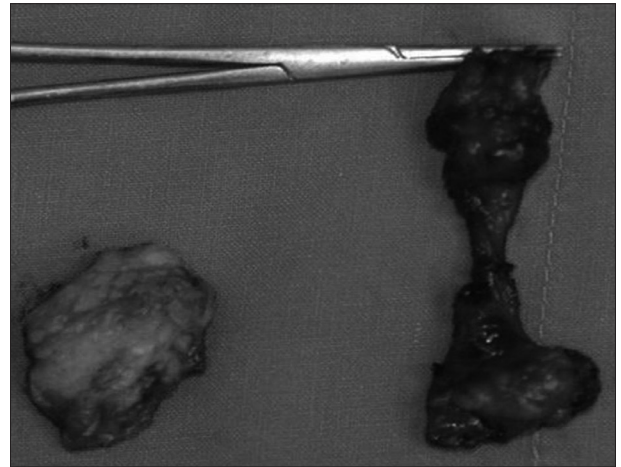


Fig. 4. Operative findings. Rt cystic mas was ovoid shape, measured about 3×4cm. Lt fistular tract from orifice of tonsillar fossa area to thyroid cartilage level was longitudinal cystic mass, measured about 8cm.

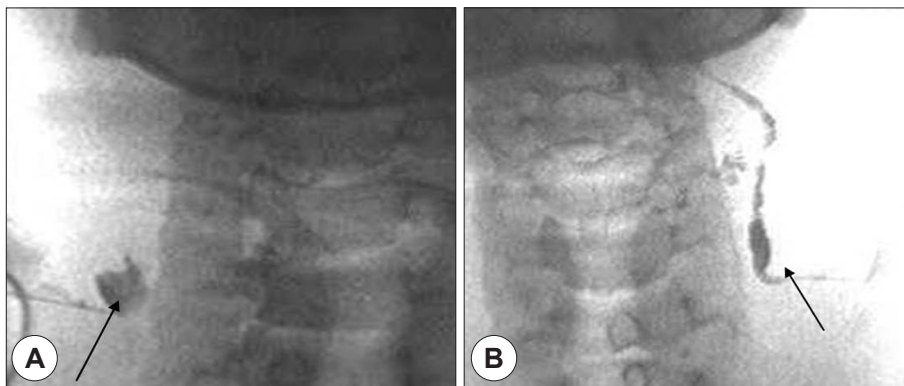


Fig. 3. Fistulogram. A : Rt cystic mass lesion. B : Lt fistular tract from orifice of tonsillar fossa area to thyroid cartilage level was noted.

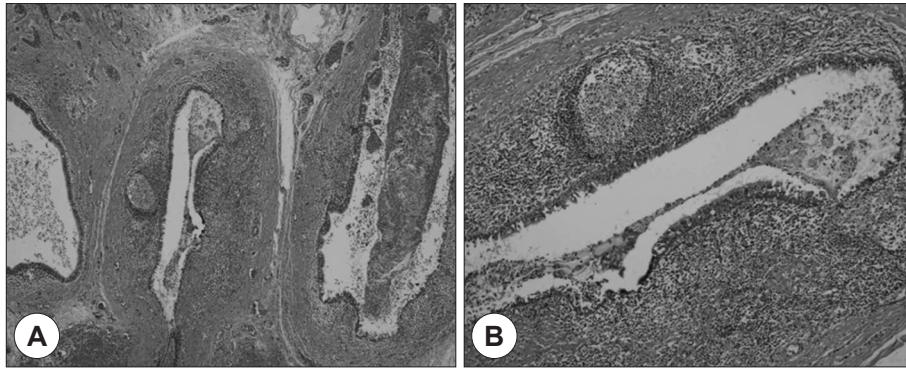


Fig. 5. Histopathologic finding. The wall is composed of the squamouscolumnar epithelium with subepithelial aggregates of lymphoid tissue(H&E, A : $\times 40$. B : $\times 100$).

고 찰

경부의 낭성 종괴가 있을시 병력 청취를 하고 이학적 검사를 하면서 감별해야 할 선천성 질환으로 갑상선 설골 낭종 다음으로 흔한 질환이 새기형이다. 새기형은 측경부에서 가장 많이 발생하며 태생기 발육과정 중 새기관의 발달이상에 기인하게 된다.¹⁾ Work²⁾는 해부학적 구조와 조직학적 특성으로 새기형을 분류하였는데 이중 제2 새기형은 새기형의 95% 이상으로 가장 흔하고 남녀 발생빈도의 차이는 없다. 대부분은 일측성이지만 양측에 발생하는 경우는 2%에서 있다.

본 증례는 양측에서 발생한 제2새열 기형으로 우측의 전이개 낭종이 동반되었으며 환자의 어머니 또한 양측 경부에 누공이 있는 가족력이 있었다. 국내에는 양측성 제2새열 기형 중 동반된 기형과 함께 가족력이 있었던 보고는 없었고, 해외에서 12예 보고된 것이 있었다.³⁻⁷⁾

새기형은 낭(Cyst), 동(Sinus), 누공(Fistula)의 형태로 나뉘게 된다.

낭의 경우는 측경부에 흉쇄유돌근의 전내방에 평탄한 표면의 부드러운 종괴가 만져진다. 주로 발견되는 연령층은 10대이며, 신생아에서 나타나는 것은 드물다. 상기도 감염 후에 병변이 뚜렷해지며 25% 환자에서 감염 이후 낭의 크기 변화가 관찰되며 이중 일부는 농양 또는 누공의 형태로 바뀌게 된다.

누공의 주행은 흉쇄유돌근의 상2/3와 하 1/3에 접하는 전방에 피부와 연결되어 경동맥 외측 상부로 주행하다가 내, 외경동맥 사이에서 내측으로 들어가며 설인신경과 설하신경의 상부를 지나가 편도와 부근 인두 벽에 연결된다.⁸⁾ 제3새기형의 피부 누공의 위치 역시 제2새기형과 유사하지만 누공의 주행이 설하 신경의 상부와 설인 신경의 하부 사이를 지나가 인두와 부근에 연결되는 점이 차이점일 수 있다.

이학적 검사시 이과적 진찰을 포함하게 되며, 메틸렌 블루를 섞은 물을 삼켜 피부로의 유출을 관찰하거나 내시경을

이용하여 인두에서의 누공 유무를 확인 하거나, 바륨 식도 조영술(Barium esophagogram)을 이용하여 이상와에서 시작하는 누공을 확인하기도 한다.

방사선 진단방법 중 가장 좋은 방법은 경부 전산화 단층 촬영으로, 낭의 경우 흉쇄유돌근 전방을 따라 비교적 균등질의 종괴가 관찰되며, 중앙부에는 약간 감소된 음영이 보이고 테두리에는 음영이 증가되는 양상을 확인할 수 있다. 하지만 경부 전산화 단층 촬영으로 누공의 주행을 확인하는 것은 쉽지 않기 때문에, 주행을 확인하기 위해 누공조영술(Fistulography)을 시행할 수 있다.⁹⁾

진단이 명확하지 않을 경우, 세침으로 종괴를 흡입하는 것이 도움이 될 수 있으며, 흡입시 노란 액체이거나 콜레스테롤 산물로 채워져 있을 수 있다. 만약 세침 흡입 검사에서 상피세포가 발견되면 진단에 도움이 될 수 있다.

자기 공명 촬영도 연조직의 해상도가 좋기 때문에 좋은 검사법이 될 수 있다. T1 강조영상에서는 낮은 신호를 T2 강조영상에서는 높은 신호를 보이게 된다.

주로 계속적인 염증반응에 의한 낭 상피하층 림프조직의 비대가 낭벽의 병리조직학적 특징으로, 중층 편평상피이거나 위중층 섬모원주 상피(Pseudostratified ciliated columnar epithelium), 드물게는 섬모 원주상피(ciliated columnar epithelium)이고 상피하에 많은 림프조직이 존재하며 배중심(Germinal center)을 형성하는 경우도 많다.

드물게는 타액선 조직, 피지선(sebaceous gland)또는 콜레스테롤 덩어리가 낭벽에 존재 할 수 있다.

새기형의 치료의 원칙은 완전 적출이다. 잦은 절개 배액의 병력이나 반복되는 감염에 의한 섬유화로 인하여 적출이 어려움을 겪기도 한다. 따라서 잦은 감염시 조기에 수술 해주는 것이 좋다.

수술은 병변을 찾아 흉쇄 유돌근의 전연을 중심으로 피부의 자연적인 주름을 따라 횡절개를 가하거나 누공 부위를 타원형으로 절개한다. 이후 낭의 경우는 낭 주위를 조심스럽게 박리하여 적출하고, 누공로가 존재할 경우 병변이 경

동맥초(carotid sheath)를 따라 올라가서 내경동맥과 외경동맥사이로 들어가서 설하신경과 설인신경의 상부로 주행하여 편도사에서 끝나므로 주변 조직의 손상을 주의하여 상향으로 박리하며 필요한 경우 계단식 절개를 통해 절제하여 적출 하기도 한다.

본 증례는 양측에서 발생한 제2 새열 기형으로 우측의 전이개 낭종이 동반하였고, 환자의 어머니 역시 새열 기형이 있는 가족력이 있었다. 이에 저자들은 동반 기형과 가족력이 있는 양측성 제2새열 기형을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 새열 · 양측.

REFERENCES

- 1) The Korean Society of Head and Neck Surgery. *Head and Neck surgery 1st Ed. Seoul: Hankook Medical Publishing Co;2000.*
- 2) Work WP. *Newer concepts of first branchial cleft defects. Laryngoscope. 1972;82(9):1581-1593.*
- 3) Ford GR, Balakrishnan A, Evans JN, Bailey CM. *Branchial cleft and pouch anomalies. J Laryngol Otol. 1992;106:137-43*
- 4) Clevens RA, Weimert TA. *Familial bilateral branchial cleft cyst. ENT J. 1995;74:419-421.*
- 5) Gatti WM, Zimm J. *Bilateral branchial cleft fistulas: Diagnosis and management of two cases. ENT J. 1988;67:256-264.*
- 6) Har-EL G, Hadar T, Krespi YP. *Multiple branchiogenic anomalies. ENT J. 1991;70:777-782.*
- 7) Gutierrez C, Bardaji C, Bento MA. *Branchil-oto-renal syndrome: Incidence in three generations of a family. J Ped Surg. 1993;28:1527-1529.*
- 8) Tae K, Jeong SW. *A clinical study of branchial anomaly. Korean J Otolaryngol. 2002;45:998-1003.*
- 9) Wang HK, Tiu CM, Chou YH, Chang CY. *Imaging studies of pyriform sinus fistula. J Pediatr Radiol. 2003;33:328-333.*