

완전 경부 새루(鰓瘻)의 1례

마산고려병원

이영희·손재일·곽창호·박해수

A Case of Complete Branchial fistula

Young Hee Lee, M. D., Je Il Son, M. D.,
Chang Ho Kwack, M. D., Hae Soo Pack, M. D.
Department of Otolaryngology, Masan Koryo General Hospital

= Abstract =

Branchial anomalies are observed any time from birth to old age. Sinuses, cysts, fistulae and cartilaginous nest are their most common manifestation, the sinuses and fistulae are usually noted during infant and young childhood. In contrast, cysts require more time to produce palpable masses, and often are not diagnosed until later childhood.

Authors report a case of complete branchial fistula with an outer and inner opening in a nine-year-old boy. External examination revealed a very small and inconspicuous opening situating on the anterior border of the right sternocleidomastoid muscle at the level of lower one third of the neck, and small amount of mucous discharge from the opening was noticed. Fistulogram using contrast media through the opening demonstrates a distinct fistulous tract extending all the way up to the region of the supratonsillar fossa.

The fistula was extirpated completely by stapler technique, and the diagnosis was confirmed by histopathological study.

KEY WORDS : Branchial remnants. Branchial anomalies. Congenital anomalies.

서 론

새성기관(鰓性器官)의 기형은 그 복잡성과 발생에 대한 불완전한 이해 및 태생기 동안 발생하는 해부학적 관계의 변화때문에 아직 논란이 많다. 태생기적 새성기관의 기형은 동(sinus), 낭종(cyst), 누(fistula) 또는 연골소(cartilageous nest) 등으로 나타난다. 제1새열(鰓裂)의 기형은 제1새궁(鰓弓)과 제2새궁의 불완전한 융합에 의해 발생하며 그 발생률은 모든 새열기형의 1% 이하로 매우 낮다. 제2새

열부터 제4새열의 기형은 제2새궁과 epipericardial ridge 사이에 있는 cervical sinus의 불완전한 융합에 의해 발생한 것이며 제2새열기형은 새성기관기형의 대부분을 차지하며 제3새열기형은 아주 드물고 제4새열기형은 이론적으로 존재하지만 아직 보고된 바 없다. 우리나라에서 제2새성기형은 흔히 보고된 바 있으나 완전 새성루(鰓性瘻)는 김¹⁾, 김²⁾, 김³⁾, 백⁴⁾ 등 드물게 보고된 바 있다. 최근 저자들도 9세 남아에 있어서 제2완전 새성루를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 박○○, 남자, 9세

초진일 : 1989년 3월 21일

과거력 및 가족력 : 특기사항 없음.

주소 : 우측하경부에 생긴 소공으로부터 점액성 액체가 나옴.

현병력 및 국소소견 : 출생후 한달부터 우측 하경부에 위치한 소공으로부터 간헐적인 점액성 분비물이 누출된다고 하며 국소소견은 우측 흉쇄유돌근(胸鎖乳突筋) 전연(前緣)의 하1/3 높이에 한개의 누공(瘻孔)이 발생되었으며 연하운동시 무색 점액성 분비물이 누출되고 있었다. 경부에 축진되는 종물은 없었으며 인두 내 또는 기타 두경부에서는 이상소견을 찾아 볼 수 없었다.

전신상태 : 영양상태는 양호하였으며 그 밖의 전신소견도 정상이었다.

검사소견 : 혈액, 뇨검사 및 흉부X-선 검사 등은 정상이었으나 누공을 통해 조영제(lipiodol)를 주입해서 누관조영술(瘻管造影術)을 시행한 결과 상내방으로 뻗어 동측 편도상와(supratonsillar fossa) 근처에 까지 누관(fistulous tract)이 있음이 판단되었다(Fig. 1).

수술소견 : 전신마취하에 stepladder technique으로 완전히 적출했다. 즉, 누공을 내포(內



Fig. 1. A distinct fistulous tract was demonstrated on the lateral view of the neck (with lipiodol injection)

포)한 타원형 절개를 가진 하부(下部) 피부절개를 수평으로 넣어서(Fig. 4) 먼저 누관을 분리하고 상내방으로 박리해 올라가면서 주위에 있는 상후두신경, 설하신경, 내·외경동맥, 미주신경 등을 손상하지 않도록 주의하고 다음으로 상부에 또 하나의 피부절개를 하부절개와 평행하게 넣어서 이를 통해 구개편도와까지 누관전장을 완전 적출하였다(Fig. 2).

병리조직학적소견 : 적출된 누관은 회갈색으로 전장이 9cm이었고(Fig. 2) 현미경적소견상 누관의 내벽은 중층편평상피로 덮였고(Fig. 3) 상피하에서는 임파구가 여러곳에서 lymphoid follicle을 형성하고 있으며 섬유조직으로 된 두터운 벽을 볼 수 있었다.

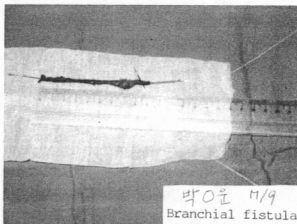


Fig. 2. Completely removed fistulous tract (approximately 9cm in length)

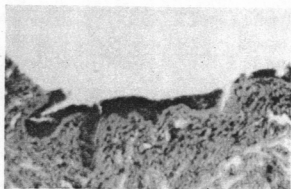


Fig. 3. Microscopic picture showing the tract lined with stratified squamous epithelium.



Fig. 4. Two parallel skin incisions in step-ladder technique. The first incision (①) shows an elliptical incision line containing external ostium

경과 : 수술후 특이한 합병증없었고 술후 7 일째 수술창이 완전히 치유되어 퇴원하였으며 술후 약 2년이 지난 현재까지 재발은 없었다.

고 안

경부 새성기관의 태생기적 기형은 약 150년 전부터 알려져 왔다. 새성기관의 기형은 1832년 Ascherson이 최초로 기술하였고 1864년

Heusinger가 새루(branchial fistula)란 용어를 처음으로 사용하였다¹⁷⁾. 태생기 약 3주경 새성기관이 형성되며 5개의 새궁(branchial arch)으로 구성되는데 외측에 4개의 외배엽성(外胚葉性) 새열(branchial cleft)과 내측에 4개의 내배엽성 새낭(branchial pouch)에 의해 분리된다. 약 6주경 제2새궁이 epipericardial ridge로 향해 발달해서 융합을 일으켜 cervical sinus of His를 형성하는데 이는 정상적으로 태생기 2개월말에 완전 유착되어 폐쇄되는 것이나 이 sinus의 불완전 유착으로 여러가지 새성기형이 발생하는 것이다(Fig. 5). 새성기관의 해부학적 관계는 매우 중요하며 각각 발생과정에 따라 다음 네가지 형태로 분류된다. 제1 새성기형의 새루는 그 누관의 개구부가 하악골의 수평지(mandibular ramus) 하부에서 흉쇄유돌근의 전연과 경부 정중선의 중간지점에 위치한다. Arnot와 Work에 의해 두가지 형태로 구분되는데 Type I은 외배엽성으로 외이도를 전내측으로 진행후 이개후방에 존재하는 낭성종말로 정의하였고 안면신경의 외측에 존재하며 고막근처 cul-de-sac에서 끝난다. Type II는 외배엽 및 중배엽으로 갑개(concha)나 외이도에 새루로 존재하며 안면신경의 내측 혹은 외측을 지나 이복근(digastric muscle)과

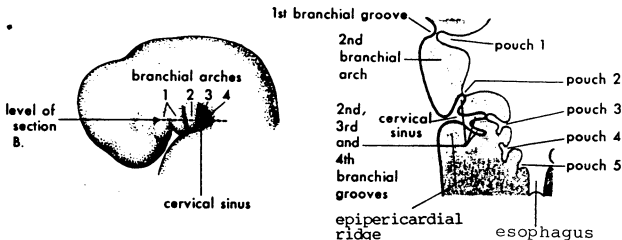


Fig. 5. A : Drawing of the head and neck region of a 5 week embryo
B : Horizontal section through the embryo, illustrating the relationship of the cervical sinus to the branchial arches and pharyngeal pouches

같은 방향으로 가면서 흉쇄유돌근 앞에 이른다. 제2생성기형의 새루는 가장 흔한 형태로 (90%) 제2, 제3새궁사이에서 발생한다. 이는 carotid sheath를 따라 상행하여 내·외경동맥 사이로 지나 설하신경, 설인신경 위로 해서 stylohyoid ligament 아래에 구개관도와의 개구한다. 제3생성기형의 새루는 carotid sheath를 따라 common carotid artery의 내측으로 상행하여 내경동맥후방에서 내측으로 진행후 설하신경을 감돌아 하행해서 상후두신경의 내분지상방에서 갑상선골막(thyroid membrane)을 뚫고 개구한다. 제4생성기형의 새루는 극히 드물어 아직 보고된 바 없으며 이론적으로는 하악부에 외공이 있고 누관은 흉쇄유돌근 아래로 우측의 쇄골동맥이나 좌측의 대동맥궁을 돌아 상행, 설하신경의 외측 및 상후두신경의 하부를 지나 하행하여 경부식도로 연결될 것이다.

생성기관기형의 원인으로는 환경인자와 유전인자를 들 수 있는데 환경인자는 radiation, hypoxia, chemical poison, CO poison, mechanical effect 등과 teratogenic effect가 있는 의약품 즉 ethyl urathan, P-A minazobenzene, thalamide sodium salicylate 등을 들 수 있고 산모의 영양상태, 비타민결핍, 내분비장애, 태아의 순환장애와 납, 수은, 카드뮴 등의 중금속과 식품첨가물, 살충제 등도 원인이라 할 수 있다¹⁵⁾.

새루는 형태에 따라 내외개구부가 있는 완전새루, 피부쪽에서만 개구하는 불완전새루와 인두쪽에서만 개구하는 불완전새루로 나눌 수 있으며 이중 피부개구부만 있는 불완전 새루가 가장 많다.

연령별로는 어느 연령에서나 볼 수 있으나 새루의 경우 신생아때 부터 증상이 나타날 수 있어 비교적 초기에 발견되며 낭종은 자라서 종양이 만져질 때까지 상당한 시간이 걸리므로 비교적 발달이 늦은 것이 보통이다. 본 증례는 9세로 비교적 조기발견된 예이다.

병리조직학적 검사에서는 새루나 새낭의 내벽을 구성하는 상피는 주로 중층편평상피로

되어 있고 간혹 원주상피세포도 볼 수 있다⁷⁾. 김¹⁾, 김³⁾, 노⁸⁾의 증례에서는 중층편평상피만 보이고 있으며 김²⁾, 백⁹⁾의 증례에서는 원주상피세포와 중층편평상피세포가 함께 보이고 있는데 본 증례에서는 중층편평상피로만 보였다 (Fig. 3).

진단은 생성기관의 태생학적 및 해부학적 개념만 있으면 쉽게 진단할 수 있는데 대부분 흉쇄유돌근 앞을 따라 점액성 물질이 있는 누공이 있으며 이 누공을 통해 소식자를 삽입하거나 조영제를 주입하여 누관조영술을 시행하면 도움이 된다. 한편 새낭의 경우 흡입술(aspiration)은 일반적 진단에 도움이 되지 않을 뿐더러 감염을 조장하므로 하지 않는 것이 좋다.

생성기형의 감별진단은 제1생성기형의 경우는 결핵성루, sebaceous cyst, parotid tumor, 제1새궁과 제2새궁의 6개 hillocks에서의 발생 이상으로 형성된 preauricular fistula 등과 감별해야 하며 제2, 3, 4생성기형의 경우는 cystic hygroma, hemangioma, lipoma, dermoid cyst, neuroblastoma, Hodgkin's disease, cat-scratch disease, muscular torticollis와 각종 malignant tumor 등과 감별해야 한다.

치료는 수술로서 누관을 완전적출 하는 것이며 만약 일부가 남아 있게 되면 재발 및 악성종양으로의 발전이 염려되므로 특히 주의를 해야 한다. 한편 수술은 active infection이 있을 시는 피해야 한다. 수술방법으로는 형태에 따라 다르다. 제1생성기형은 S-shaped parotidectomy incision을 넣어 필요시 표재성이하선적출술을 시행하며 incision은 superficial musculoponeurotic system위에 되도록 해서(특히, 소아에서) 안면신경의 손상을 피해야 한다. 제2, 3, 4생성기형에서 새낭의 경우는 horizontal incision을 하악골의 수평지 5~6cm 아래에서 넣어 중요기관의 손상을 피하여 박리제거한다. 새루의 경우 stepladder incision(Fig. 4)을 넣어 설하신경, 미주신경, 경동맥 등 중요기관을 주의깊게 박리하여 제거후 수일간 drain을 넣어둔다.

결 론

저자들은 9세 남아에 있어서 우측경부에 발생한 완전 새루를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) 김광현 : 완전측경부새루의 1증례. 한이인지 23(1) : 125~129, 1980
- 2) 김세훈, 소장영, 황명순 : 양측경부새루. 한이인지 25(2) : 369~400, 1982
- 3) 김춘홍 : 완전측경생성루의 1증례. 한이인지 13 : 207~212, 1970
- 4) 노관택, 김대성, 조일균 : 세성낭종. 한이인지 16 : 119~122, 1973
- 5) 백석인, 이영호, 윤강욱 : 경부새루1례. 한이인지 24(3) : 432~435, 1981
- 6) Carrick DG, et al : Branchiogenic carcinoma or cystic lymph node metastasis. J Laryngol 100(9) : 1089~1090, 1986
- 7) Charles W. Cumings : Otolaryngology-head and neck surgery, Vol. 2, 1st Ed : 1579~1602, 1986
- 8) Finn DG, et al : First branchial cleft cysts. clinical up date, Laryngoscope 97(2) : 136~140, 1987
- 9) Holder and Aschcraft : Pediatric surgery. head and neck sinuses and masses : 1062~1065, 1980
- 10) John G. Raffensperger : Swenson's pediatric surgery. Fifth Ed : 183~187
- 11) Lore' : An atlas of head and neck surgery, 3rd Ed : 686~693, 1988
- 12) May M, et al : The facial nerve and branchial cleft. surgical challenge, Laryngoscope 99(5) : 564~565, 1989
- 13) Slack JE, et al : familial mixed deafness with branchial arch defect. Clin Otolaryngol 10(5) : 271~277, 1985
- 14) Smith JE, et al : Branchial cyst anomaly in a newborn. Otolaryngol-head and neck surgery 100(2) : 163~165, 1989
- 15) Soper RT : Cyst and sinuses of the neck. Pediatric surgery, Vol. 1. : 374~380, 1979
- 16) Walliam W. Montgomery : Surgery of the upper respiratory system, Vol. I, 2nd Ed : 163~167
- 17) Work WP and Proctor CA : The Otolological and first branchial cleft anomalies. Ann Otol 72 : 584~561, 1963