

구강저에 발생한 유피낭종

부산대학교병원 이비인후과,¹ 부산대학교병원 의생명연구원²

윤병우¹ · 박지환¹ · 장전엽¹ · 차원재^{1,2}

Dermoid Cyst in the Floor of the Mouth

Byung-woo Yoon, MD¹, Ji-hwan Park, MD¹, Jeon Yeop Jang, MD, PhD¹ and Wonjae Cha, MD^{1,2}

¹Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University Hospital, Busan; and

²Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, Busan, Korea

— ABSTRACT —

Dermoid cysts in the floor of the mouth are quite rare. The treatment for dermoid cysts in the floor of the mouth is complete resection. It can be performed via intraoral or external approach according to its size and position. Here, we report two cases of dermoid cyst in the floor of the mouth, which were successfully excised via intraoral approach. (J Clinical Otolaryngol 2014;25:281-285)

KEY WORDS : Cyst · Dermoid cyst · Floor of mouth · Congenital mass · Intraoral removal.

서 론

유피낭종(dermoid cyst)은 배아가 발생과정 중 가측 중간엽조직 이 융합되는 과정 중에 발생한 선천적 종양으로서 조성은 외배엽, 중간엽, 내배엽성 조직이 혼합되어 있는 것으로 알려져 있다.¹⁾ 일반적으로 서서히 자라며 선천적으로 발생하였다 하더라도, 20대 혹은 30대에 발견되는 경우가 일반적이다.²⁾ 대개 난소와 천골 부위에서 호발하며, 두경부에서 발생했을 경우 제일 호발하는 부위는 외측눈썹 부위인 것으로 알려져 있다.³⁾ 전체 유피낭종의 1.6%에서 구강저에 발생하며, 구강 내 발생할 수 있는 전체 낭종의 0.01%에 해당하는 매우 드문

낭종으로 알려져 있다.⁴⁾

구강저에 발생한 유피낭종의 치료는 외과적 절제이며, 낭종의 위치와 크기에 따라 구강내접근법, 혹은 구강외접근법으로 절제가 가능하다.⁵⁾ 하악골 아래 부위와 설하 부위의 부종 혹은 종괴감을 주소로 내원한 여성 환자에게서는 먼저 구강내접근법을 시도하는 것이 일반적이며, 구강외 접근법은 호흡곤란 등의 증상으로 응급실에 내원한 환자에게서 시행된다.²⁾

최근 저자들은 구강저에 발생한 유피낭종 2예를 구강내 접근법으로 성공적으로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 레

증 레 1

25세 여자환자가 약 1년 전부터 서서히 크기가 증가하는 구강저의 종물을 주소로 내원하였다. 과거력 상 특이소견은 없었으며 평소 종물이 별다른 증상을 일으키지 않아, 별다른 치료 없이 지내던 중 크기가 커져 치

논문접수일: 2014년 9월 30일
논문수정일: 2014년 10월 10일
심사완료일: 2014년 11월 21일
교신저자: 차원재, 602-739 부산광역시 서구 구덕로 179
부산대학교병원 이비인후과
전화: (051) 240-7336 · 전송: (051) 246-8668
E-mail: cha.wonjae@gmail.com

료를 위해 본원 이비인후과를 내원하였다. 통증이나 호흡곤란 등의 증상은 없었으며 연하곤란도 호소하지 않았다. 종물의 크기는 약 4×3 cm 정도로 종물을 덮고 있는 구강저 점막은 정상소견이었다(Fig. 1A). 종물을 촉진 시 가동성이 있었으며 주위 구조와의 유착은 없는 것으로 확인되었다. 전산화 단층촬영상 구강저의 중심부에 양측 이설근과 이설골근 사이에 자리하는 혈관발달이 두드러지지 않고 주위와 경계가 분명한 4×3 cm 크기의 낭종성 종물이 관찰되었고, 조영증강 시에도 내부는 조영증강이 되지 않는 소견이었다(Fig. 1B). 비강을 통한 기관삽관 하에 전신마취를 시행하고 구강내 접근법을 이용하여 종물을 적출하였다. 양쪽의 악하선관 입구(Wharton's duct orifice)가 손상되지 않도록 유의하면서 정중앙의 설소대에 절개를 가하였다(Fig. 1C). 이후 종물의 파열에 유의하면서 주위 조직을 박리하였다.

종물은 껍질에 잘 싸여져 있는 양상이었으며 크기는 약 4×3 cm 정도로 황갈색의 색깔을 띠고 있었다. 종물의 절제 시 정중앙으로 접근하면서 피막외절제를 하였으므로 양측 악하선관과 설신경을 관찰하지 않고 보존 가능하였으며, 주위 조직과의 유착이 거의 없어 완전절제가 가능하였다. 수술부위는 지혈 후에 Penrose 배액관의 삽입하고 일차 봉합하였으며, 술 후 구강저의 부종이나 혈중에 의한 기도폐쇄의 징후는 관찰되지 않았다. 또한 술 후 악하선의 종창이나 설신경 및 설하신경의 손상도 관찰되지 않았다. 종물은 껍질에 잘 싸여져 있는 양상이었으며 크기는 4×3 cm 정도로 황갈색의 색깔을 띠고 있었다(Fig. 1D). 술 후 조직병리학적 검사상 외배엽 아래의 각질층과 중배엽기원의 피지선구조가 관찰되어 유피낭종에 합당한 소견이었다.

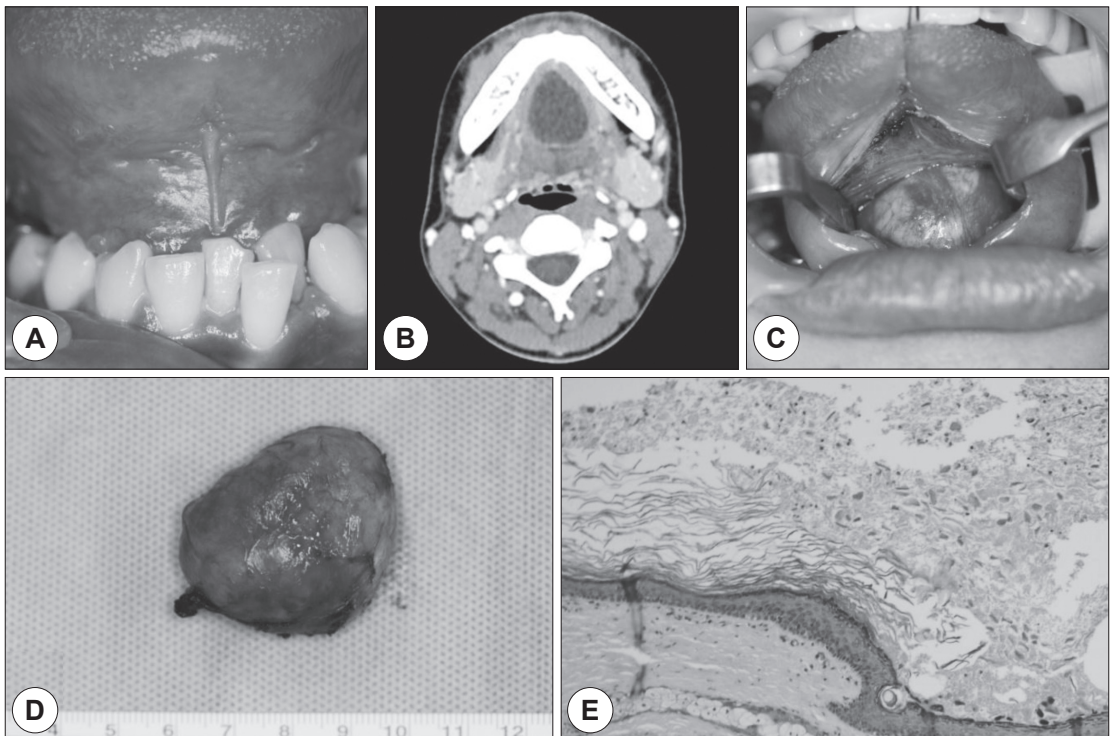


Fig. 1. Case 1. A : Preoperative photograph shows a cystic mass in mouth floor. The tongue is displaced cranially. B : Preoperative CT scan reveals a large cystic mass in mouth floor. C : Intraoperative findings. The yellowish mass was intra-orally exposed via frenulum approach. The orifices of both Wharton's duct and lingual nerves were preserved without identification in the manner of capsular dissection. D : The gross image of the surgical extract showing the cystic formation of our first case (4×3 cm). E : Light microscopy shows keratinized and stratified squamous epithelium presence of sebaceous glands structure from the dermis. It was compatible with dermoid cyst (H&E, ×100).

증례 2(Fig. 2)

35세 여자환자로 약 1년 전부터 서서히 크기가 증가하는 구강저의 종물을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이소견은 없었으며 별 다른 치료 없이 지내던 중 보호자에 의해 구강저 종물이 발견되어 본원 이비인후과를 내원하였다. 증례 1과 마찬가지로 통증이나 호흡곤란 등의 증상은 없었으며 연하곤란도 호소하지 않았다. 구강내 진찰소견도 증례 1과 거의 유사하였으며 종물의 크기는 약 5×4 cm 정도로 종물을 덮고 있는 구강저 점막은 정상소견이었다. 마찬가지로 촉진 시 가동성이 있고 주위 구조와의 유착은 없는 것으로 확인되었다. 전산화 단층촬영 상에서도 증례 1과 거의 유사한 소견이었으나 이 경우에는 종괴가 설골의 상방경계까지 확장되어있었으며 구강림프관종을 감별해야 하는 판독을 얻었다. 수술은 동일한 방법으로 시행하였으며 적출된

낭종의 크기는 약 5×4 cm이었다. 조직병리학적 검사상 위 경우와 같이 피지선이 포함된 유피낭종에 합당한 소견으로 보고되었다.

고찰

유피낭종은 구강 및 상악안면부위(maxillofacial area)에 발생할 수 있는 드문 종양이다. 전체 유피낭종 중 1.6%에서만 구강저에 발생하고, 구강내에 발생하는 낭종 중 0.01%에 해당한다.⁶⁾ 유피낭종은 발생학적 낭종성 기형으로서 신체의 다양한 부위에 발생할 수 있으며 가장 호발하는 부위가 난소와 천골 부위로서 전체 유피낭종의 약 80%가 이 부위에 발생한다고 알려져 있다.³⁾

New와 Erich은 총 1,495예의 유피낭종 중 단지 6.9% (103예)만이 두경부 영역에 발생하였고 구강저에 발생한

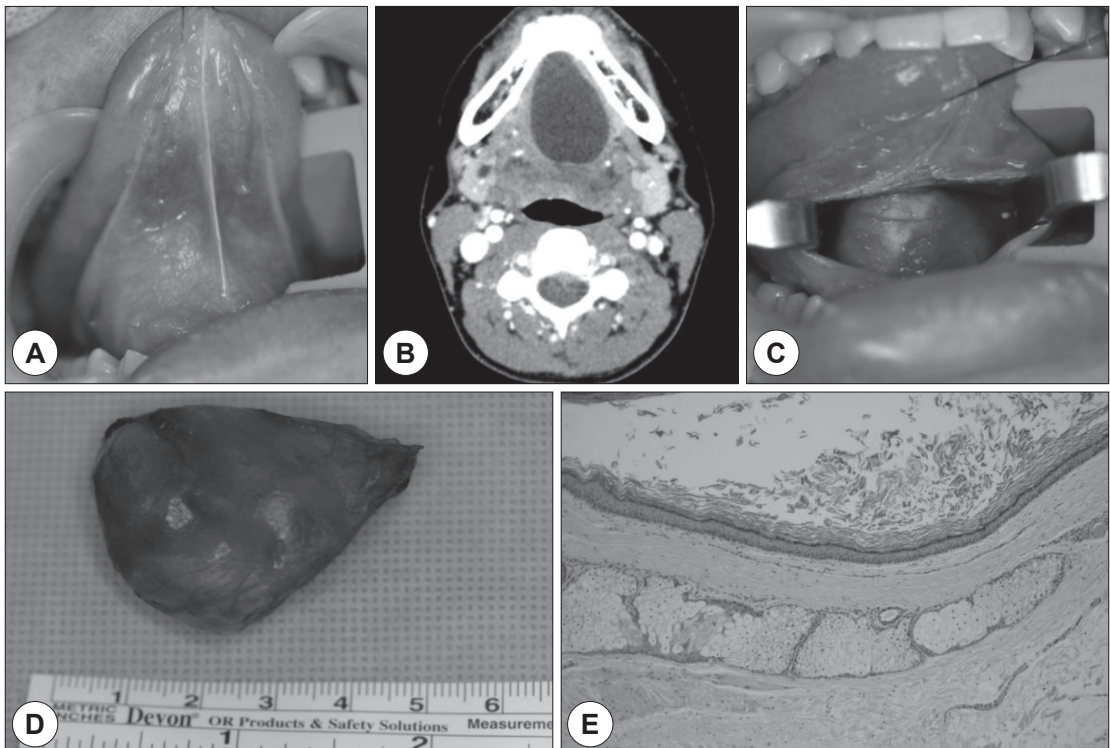


Fig. 2. Case 2. A : Preoperative photograph shows a cystic mass in mouth floor. B : Preoperative CT scan shows a large cystic mass between genial muscles. C : Intraoperative view of removal. D : The gross image of the surgical extract showing the cystic formation of the second case (5 × 4 cm). E : Similar to case 1, Light microscopy shows keratinized and stratified squamous epithelium presence of sebaceous glands structure from the dermis. Foreign body giant cells are seen around the cyst. The diagnosis was confirmed as a dermoid cyst (H&E, × 100).

경우는 1.6%(24예)라고 보고한 바 있다.⁴⁾ 이후 Taylor는 총 541예의 유피낭종 중 6.5%가 구강저에 발생하였으며, 두경부에 발생한 184예 중에서는 약 19%가 구강저에 발생하였다고 보고한 바가 있다.⁷⁾ 두경부에서 가장 호발하는 부위는 눈썹의 외측부 1/3이며 그 다음으로 구강저에 호발하는 것으로 알려져 있다. 구강저에 발생하는 유피낭종은 전체 연령에서 발생할 수 있지만 호발 연령은 15세에서 35세 사이이고 남녀의 발생빈도는 비슷한 것으로 알려져 있다.⁸⁾

유피낭종의 발생기전은 현재까지도 정설은 없으며 Mickulicz가 제안한 두 가지 가설 즉 후천성과 선천성 가설로 설명하고 있다.⁹⁾ 선천성 가설은 임신 3주와 4주 사이에 일어나는 제 1 새열공과 제 2 새열공의 정중융합도중 상피잔유물이 포함되어 발생한다는 이론이며 현재 가장 유력한 이론으로 받아들여지고 있다. 후천성 가설은 외상에 의해 상피세포가 심부조직으로 이식되어 발생한다는 이론이다. 구강저에 발생하는 유피낭종의 경우 발생위치에 따라서 분류를 하기도 한다.^{6,10)} 즉 정중형은 설소대 아래 혹은 이설근 사이에 발생하는 것을 의미하고 외측설하형은 하악근과 악설골근사이에 발생하는 것을 의미하며 전외측형은 내측으로는 이설근과 설골설근 그리고 외측으로는 악설골근 사이에 발생하는 것을 의미한다. 정중형의 경우에는 구강저쪽으로 성장하게 되어 혀가 위쪽으로 상승되고 조음장애, 연하장애 및 호흡곤란 등의 증상이 유발될 수 있다. 본 증례의 경우에는 전산화 단층촬영상 정중형에 해당하는 것으로 호흡곤란 및 조음, 연하장애 등의 증상을 일으키지 않는 경우였다. 임상적으로 유피낭종은 본 증례에서와 같이 천천히 자라고 통증을 동반하지 않은 부종, 조직이 연하고 낭종벽에 잘 쌓여져 있으며, 림프절병증을 동반하지 않는 종괴로 내원한다.⁸⁾ 진단을 위해서는 초음파, 전산화 단층촬영(CT) 및 자기공명영상(MRI)이 도움이 되며, 몇몇 연구에서 낭종을 천자하는 것이 진단을 위한 술기로 시도한 적이 있었으며, 이에 대한 합병증이 보고되기도 했다.^{11,12)}

구강저에 발생한 유피낭종은 외과적 절제를 통해서 재발없이 치료할 수 있으며 크게 구강내로 낭종을 제거하는 접근법과 경부절개를 이용한 접근법으로 나눌 수 있다. 현재 두 접근에 대한 적응증은 명확한 기준은 없으나, 종괴가 이설골근을 침범한 경우에는 구강외 접근

법을 시행이 필요하다고 알려져 있다.¹³⁾ 구강내 접근법의 경우 혀의 배측면을 따라서 정중선에 수직으로 점막 절개를 가하며, 낭종으로 인해 설하 및 악하부종이 관찰되는 여성환자에게서 우선하여 시행되고, 완전적출에 성공했을 경우 재발없이 미용적 효과를 얻을 수 있는 장점이 있다.¹³⁾ 구강 내 접근법의 변형된 술식으로 Lowry 등은 하악치조능선을 따라서 양측절개선을 넣는 방법을 기술했고,¹⁴⁾ Brusati 등은 5 cm 크기의 낭종을 정중선을 따라 혀를 절개하는 방법을 통해 제거한 증례를 보고했으며,¹⁵⁾ Di Francesco 등은 은 낭종을 부분적출하고 혀의 배측면에 연장하여 절개선을 가하는 변형된 수술법을 기술한바 있다.¹⁶⁾ 이 변형된 수술법은 낭종의 정중선에 걸쳐 이설골근 보다 위에 있지만 크기가 큰 경우 구강외 접근법을 하지 않고도 낭종을 제거할 수 있는 효과적인 절개법이 될 수 있다.²⁾ 경피적접근법으로는 하악골 아래부위에서 절개를 가하고 박리를 진행함으로써 낭종을 제거하게 되며, 일반적으로 낭종이 매우 큰 경우 혹은 낭종이 이설골근에 걸쳐있는 경우에 적응증이 될 수 있다.

본 증례의 경우 저자들은 크기가 약 5 cm 이내로 작은 편이었으며, 종괴가 경부로 돌출되지 않았고, 전산화 단층촬영 상 종괴가 모두 구강저 점막 아래의 정중선상에 위치하였으며, 이설골근을 침범하지 않은 것으로 판단하여 구강내접근법을 시행하였다. 수술 시에는 악하선관과 설신경 그리고 설하신경 등의 손상에 유의하여야 하나, 낭종의 위치 및 처음 내원시 병력청취상 신경학적 결손의 증거가 없어 저자들은 가능한 낭종에 가깝게 박리를 시행하려는 시도만으로도 충분하다고 판단하였으며, 수술 후에도 신경학적 결손에 대한 증거는 보이지 않아 합병증없이 성공적으로 치료하였다고 판단하였다.

결 론

구강저에서 발생한 유피낭종은 매우 드물기 때문에 다양한 질환과 감별 진단하여야 하며, 크기가 5 cm 미만이며 낭종이 정중선상에 위치하고 이설골근을 침범하지 않았을 경우, 본 증례처럼 구강내 접근법을 우선적으로 고려하여 치료할 수 있다.

중심 단어 : 낭종 · 유피낭종 · 구강저 · 선천성 종양 · 구강내제거.

본 논문은 2014년도 부산대학교병원 임상연구비 지원에 의해 이루어졌음.

REFERENCES

- 1) Jain H, Singh S, Singh A. *Giant sublingual dermoid cyst in floor of the mouth. J Maxillofac Oral Surg* 2012;11(2):235-7.
- 2) 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(6):1560-5.
- 3) Fuchshuber S, Grevers G, Issing WJ. *Dermoid cyst of the floor of the mouth--a case report. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2002;259(2):60-2.
- 4) Koh Yw, Park JH, Shin JM, Lee JD. *Two cases of dermoid cyst of mouth floor. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck* 2004;47(4):376-9.
- 5) Shaari CM, Ho BT, Shah K, Biller HF. *Lingual dermoid cyst. Otolaryngol Head Neck Surg* 1995;112(3):476-8.
- 6) Mathews J, Lancaster J, O'Sullivan G. *True lateral dermoid cyst of the floor of the mouth. J Laryngol Otol* 2001;115(4):333-5.
- 7) Taylor BW, Erich JB, Dockerty MB. *Dermoids of the head and neck. Minn Med* 1966;49(10):1535-40.
- 8) King RC, Smith BR, Burk JL. *Dermoid cyst in the floor of the mouth. Review of the literature and case reports. Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;78(5):567-76.
- 9) De Ponte FS, Brunelli A, Marchetti E, Bottini DJ. *Sublingual epidermoid cyst. J Craniofac Surg* 2002;13(2):308-10.
- 10) Zeltser R, Milhem I, Azaz B, Hasson O. *Dermoid cysts of floor of the mouth: report of four cases. Am J Otolaryngol* 2000;21(1):55-60.
- 11) Rapidis AD, Angelopoulos AP, Scouteris C. *Dermoid cyst of the floor of the mouth. Report of a case. Br J Oral Surg* 1981;19(1):43-51.
- 12) Tamashiro T, Sanchez J. *Epidermoid cysts of the oral cavity (3 clinical cases). ADM* 1970;27(4):329-43.
- 13) El-Hakim IE, Alyamani A. *Alternative surgical approaches for excision of dermoid cyst of the floor of mouth. Int J Oral Maxillofac Surg* 2008;37(5):497-9.
- 14) Lowry RE, Tempero RM, Davis LF. *Epidermoid cyst of the floor of the mouth. J Oral Surg* 1979;37(4):271-3.
- 15) Brusati R, Galioto S, Tullio A, Moscato G. *The midline sagittal glosotomy for treatment of dermoid cysts of the mouth floor. J Oral Maxillofac Surg* 1991;49(8):875-8.
- 16) Di Francesco A, Chiapasco M, Biglioli F, Ancona D. *Intra-oral approach to large dermoid cysts of the floor of the mouth: a technical note. Int J Oral Maxillofac Surg* 1995;24(3):233-5.