Case Report
J Clin Otolaryngol Head Neck Surg 2024;35(4):152-156
https://doi.org/10.35420/jcohns.2024.35.4.152

Journal of Clinical Otolaryngology Head and Neck Surgery
eISSN: 2713-833X pISSN: 1225-0244

구순하 접근접으로 치료한 비구개관낭종 2예

황보창호 · 이승환 · 예미경 · 신승헌

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

Two Cases of Nasopalatine Duct Cyst Treated through Sublabial Approach

Chang-Ho WhangBo, Seung-Hwan Lee, Mi-Kyung Ye, Seung-Heon Shin

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Daegu Catholic University, Daegu, Korea

ABSTRACT

Nasopalatine duct cysts (NPDCs) are common developmental epithelial non-odontogenic cyst of the maxillary sinus. The pathophysiologic mechanism of cyst formation is not completely understood. NPDCs develops slightly more frequently in male between the fourth and sixth decades of life. They are commonly asymptomatic. However, when the cyst expands, it can cause various symptoms due to bony erosion and nerve stimulation. With the advancement of sinus endoscopy technique, endoscopic endonasal marsupialization has become a useful method to treat extensive NPDCs. However, complete surgical excision remains the treatment of choice. We present two cases of huge NPDCs successfully treated through a sublabial approach, along with a review of the literatures.

KEY WORDS: Nasopalatine cyst; Sublabial approach; Marsupialization.

서론

비구개관(nasopalatine duct)은 전치 후방에 위치하는 상악골 정중앙의 비강과 상악골 상부를 연결하는 구조물로 태아의 발생과정 중 점차 좁아지면서 사라지게 된다. 비구개관낭종은 비순낭종(nasolabial cyst)와 함께 상악에서 발생하는 발달성, 상피성, 비치성 낭종으로 40–60대 여성보다 남성에서 좀 더 흔히 발병하며, 낭종이 구개 정중앙 골내에서 성장하여 비강 쪽이나 구개 내에서 확인할 수 있으며, 증상 없이 지내다가 우연히 발견하는 경우가 많다.[1,2]

비구개관낭종은 발병은 비구개관 내 잔존하던 배아 조직의 증식, 의치나 저작 과정에서 발생할 수 있는 외상, 국소 감염, 유전적 혹은 인종적 요인 등이 관여하는 것으로 알려져 있다.[2,3] 염증이 동반되는 경우 통증, 가려움증, 궤양 등의 증상이 나타날 수 있으며, 불필요한 치아 치료나 부적절한 수술 등을 예방하기 위해 상악골 중앙부에서 발생할 수 있는 비구개관 비대, 중심성 거대세포육아종, 상악 중절치의 치근단낭, 치아 모낭 낭종, 원발성 낭종, 비치조 낭포 등과의 감별진단이 필요하다.[4] 비구개관낭종의 경우 수술적 완전 제거로 좋은 예후를 기대할 수 있으나 비구개관에 혈관이 풍부하게 발달되어 있는 경우 다량의 출혈을 유발할 수 있어 조대술을 통한 배액으로 완치를 유도하기도 한다.[5,6] 저자의 경우 구순하 절개를 통해 전적출술을 시행하여 성공적인 치료 결과를 보였던 거대 비구개관낭종 2예를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: July 22, 2024 / Revised: September 10, 2024 / Accepted: October 29, 2024
Corresponding author: Seung-Heon Shin, Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Daegu Catholic University, Daegu 49472, Korea
Tel: +82-53-650-4530, Fax: +82-53-650-4533, E-mail: hsseung@cu.ac.kr

Copyright © 2024. The Busan, Ulsan, Gyeoungnam Branch of Korean Society of Otolaryngology-Head and Neck Surgery.
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례

증례 1

16세 남자가 1개월 전부터 시작된 윗입술 부위의 감각 이상을 주소로 본원 치과를 방문하여 시행한 전산화단층촬영(cone beam CT)을 시행 후 비순낭종으로 본과로 전과하였다. 간헐적인 감각 이상 외에 비과적인 증상은 없었다. 비내시경 검사에서 양측 비강저에 압통을 동반하지 않는 돌출되어 있는 종괴가 확인되었으며 CBCT(cone beam CT)에서 16×31×25 mm의 낭종이 확인되었다(Fig. 1A, B, D, E). 구순하 절개를 통해 비중격과 전비극을 분리하지 않은 상태에서 낭종 전체를 제거하였다(Fig. 1C). 수술 후 4개월에 시행한 전산화 단층촬영에서 수술 부위에 특별한 이상은 보이지 않았으며 수술 후 3년 이상 특별한 문제없이 지내고 있다(Fig. 1F).

증례 2

28세 남자가 1주일 전부터 느껴지는 비익저 부위의 종장과 압통을 주소로 방문하였다. 약간의 코막힘 증상 외에 다른 비과학적 증상은 없었다. 비내시경 검사에서 양측 비강저 종괴와 경구개의 둥근 융기를 확인할 수 있었다(Fig. 2A-C). 부비동 전산화 단층촬영과 자기공명영상촬영에서 T1, T2 영상 모두에서 경계가 명확하며 고신호강도를 보이는 30×50×46 mm의 낭종이 확인되었다(Fig. 2E-G). 구순하 절개를 통해 낭종을 확인할 수 있었으며 비중격과 전비극이 분리되어 있어 전체 낭종을 제거 후 비중격을 4-0 vicryl을 이용하여 전비극, 즉 비강의 중앙 부위에 위치할 수 있도록 하였다(Fig. 2D). 수술 후 1개월째 시행한 전산화 단층촬영에서 수술 부위의 부종은 남아있는 상태였으나 비중격은 비강 중앙 부위에 위치하여 있고 수술 후 합병증은 없었다(Fig. 2H). 5년 이상 경과 후에도 비중격 혹은 외비의 이상은 보이지 않으며 특별한 문제 없이 지내고 있다.

고찰

비구개관낭종은 상악의 절치관에서 기원하는 비치성 낭종으로 1914년 Meyer[7]가 처음 상악 전치 상방에 위치한 과잉 부비동으로 보고하였으며 이후 많은 증례들이 보고되어 왔다.[1,8] 서양의 경우 남성에서 여성에 비해 방별률이 높은 것으로 보고되었으며, 이는 여성의 경우 남성에 비해 상대적으로 치과진료를 일찍 받는 것에 기인할 것으로 추정한

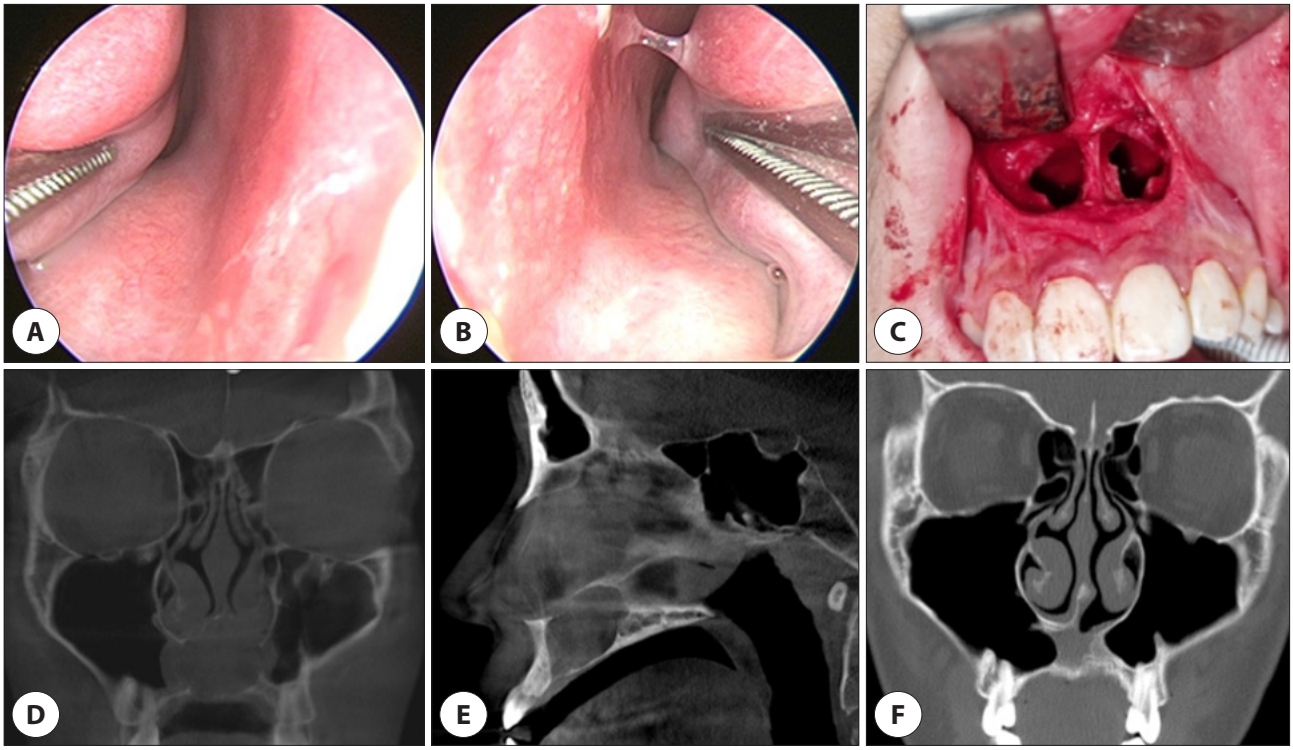

Fig. 1. Pre-operative endoscopic findings show elevation of the right (A) and left (B) nasal cavity floor. Cyst was removed through sublabial approach (C). Pre-operative coronal (D) and sagittal (E) views demonstrating a midline round cystic lesion finding on computed tomography (CT). Post-operative 6 months coronal CT finding (F).

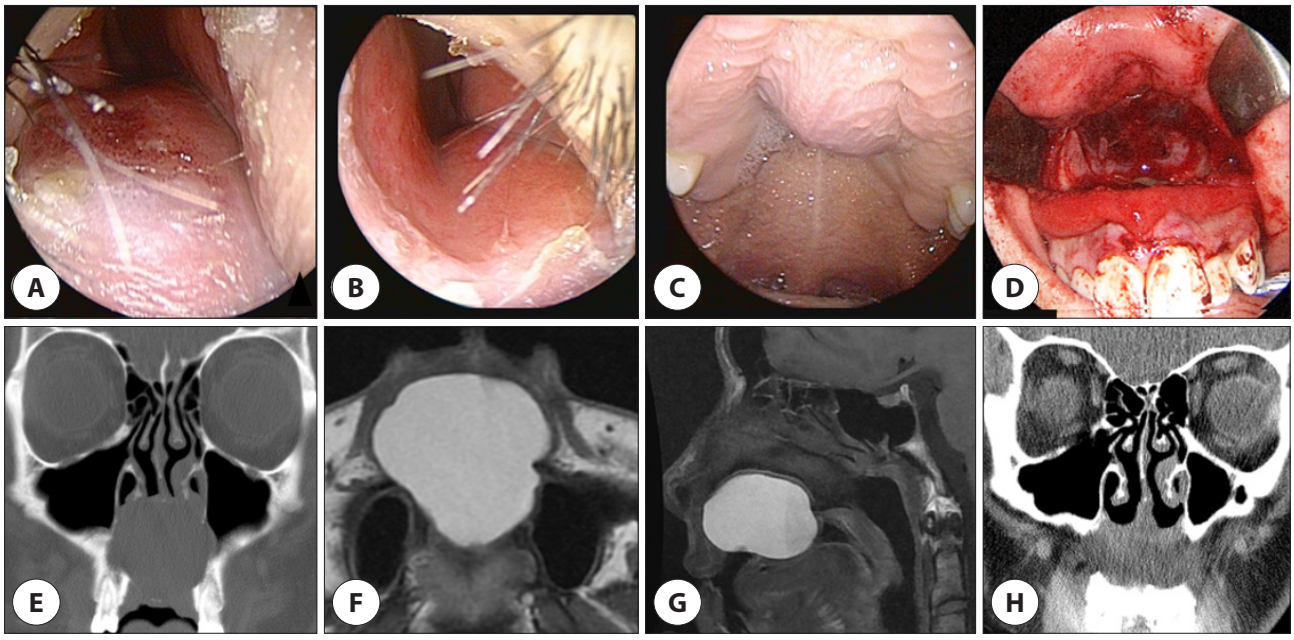

Fig. 2. Pre-operative endoscopic findings show elevation of the right (A) and left (B) nasal cavity floor and swelling of the hard palate (C). Cyst was removed through sublabial approach (D). Pre-operative coronal (E) computed tomography (CT) view and T1 axial (F) and T2 sagittal (G) findings of magnetic resonance imaging. Post-operative 1 months coronal CT finding (H).

다. Swanson 등[8]이 비구개관낭종 334례를 분석하여 남성이 54.2%를 차지하여 남녀 간에 큰 차이를 보이지 않았으며, 평균 나이는 42.5세로 보고하였다. 국내에서는 이비인후과 관련 학회지에 7차례 13명의 환자에 대한 보고가 있었으며, 본 증례를 포함 총 15명의 환자 중 1예가 여성이었고 그 외는 모두 남성(93.3%)이었다. 16세에서 65세까지 다양한 연령대에서 발견되었으며 평균 나이는 35.4세로 서양에 비해 상대적으로 젊은 나이에 발병하였다(Table 1).[5,6,9-12] 비구개관낭종은 나이에 무관하게 다양한 크기로 발견되고 있다. 낭종의 평균 크기는 1.7–1.4 cm 등으로 보고하고 있으며 3.0 cm 이하가 90% 이상을 차지하고 있다.[1,8,13] 본 증례는 최장경이 3.3 cm와 5.0 cm였고, 국내에서 보고된 증례들의 경우 장경이 2.2–6.0 cm, 평균 3.3 cm로 서양과 비교하여 컸다. 발견되는 나이와 낭종의 크기와는 연관성을 보이지 않는 것은 비구개관낭종이 발생 과정에서 형성되는 발달성 낭종이 아닐 가능성이 많으며, 비구개관 내 상피 잔여물이 외상이나 감염 등의 자극에 의해 증식되면서 낭종을 형성하거나, 외부 자극과 무관하게 상피 잔여물의 자발적 증식에 의한 낭성 퇴화에 의해 형성됨을 의미할 것이다.[8,14] 서양의 보고와 비교하면 증례 수가 많지는 않지만 남녀의 비나 발병 연령 등에 차이를 보였다. 기존의 보고에서도 비구개관낭종 환자의 93%는 백인이었고 1%만이 동양인으로 인종 간에 발생학적 병태생리학적 상이함이 있을 것으로 추정된다.[8]

비구개관낭종은 대부분 발생 초기 증상 없이 지내다가 크기가 증가하면서 경구개나 비강저의 종창이 나타나고 이로 인한 신경 증상으로 윗입술 부위의 감각 감퇴, 코막힘, 압통 등이 나타날 수 있으며, 감염을 동반하는 경우 통증을 호소하기도 한다. 낭종이 비강저 쪽으로 성장하는 경우 비강 점막의 신경계를 자극하여 증상을 유발하게 되지만 낭종의 크기와 증상과는 유의한 연관관계를 보이지 않는다.[8,14] 가장 흔한 증상은 통증과 압통이었으며 증상을 동반하지 않는 종창으로 진단되는 경우도 많다. 본 증례를 포함한 국내에서 보고된 15예의 경우 종창이 10예(66.7%)로 가장 많았으며, 코막힘과 압통이 9예(60.0%), 감각저하 2예(13.3%), 화농성 분비물과 전치가 흔들리는 경우 각 1예(6.7%), 특별한 증상 없이 우연히 발견된 경우도 1예 있었다(Table 1).

방사선학적으로 상악골 정중선 부위에 경계가 명확한 병변을 확인할 수 있다. 단순 방사선 촬영(occlusal view, panoramic view 등)은 절개관(incisive canal) 부근에서 피질로 잘 둘러싸여져 있는 둥근 골용해성 병변을 확인할 수 있다. 하지만 단순 방사선 검사의 경우 입체적인 형태를 확인할 수 없어 정확한 모양과 크기를 확인하기 어렵다. 최근 콘빔 혹은 부비동 전산화단층촬영을 통해 낭종의 크기와 모양을 보다 정확하게 측정할 수 있게 되었다.[14] 자기공명영상촬영(magnetic

Table 1. Case series of nasopalatine duct cysts in Korean Otolaryngology Journals

Study	Case	Sex	Age	Symptom duration	Symptoms	Size (cm)	Treatment
Kang et al. (2007)[9]	2	M	29	6 months	Obstruction, swelling	3×4	Sublabial approach
		M	45	Several years	Obstruction	2×3	Transpalatal approach
Chung et al. (2008)[10]	1	M	65	2 years (6 days)	Swelling (tenderness)	6×5	Sublabial approach
Cinn et al. (2009)[11]	1	M	40	1 month	Obstruction	2.7	Marsupialization
Park et al. (2012)[5]	2	M	49	1 year (days)	Swelling, obstruction (purulent discharge)	3	Marsupialization
		M	16	Incidental	No	2.2×2.0×2.7	Marsupialization
Han et al.[15]	1	M	52	2 weeks	Swelling, numbness, tenderness	NA	Marsupialization
Hong et al. (2014)[6]	5	M	39	NA	Swelling, obstruction, tenderness	2.2	Marsupialization
		M	29	NA	Swelling, obstruction, tenderness	2.7	Marsupialization
		M	19	NA	Swelling, tenderness	2.8	Marsupialization
		M	41	NA	Swelling, obstruction, tenderness	3.1	Marsupialization
		M	33	NA	Swelling, tenderness	2.8	Marsupialization
Kang et al. (2007)[9]	1	F	30	3 weeks	Obstruction, tenderness	NA	Marsupialization
Present study	2	M	16	1 month	Numbness, teeth movement	3.3×2.2×2.7	Sublabial approach
		M	28	1 week	Obstruction, swelling, tenderness	5.0×3.0×4.6	Sublabial approach

M: male, F: female, NA: not applicable.

resonance imaging, MRI)의 경우 낭종과 비강 점막의 경계뿐 아니라 낭종의 입체적 구조를 보다 정확하게 확인할 수 있어 수술 후 발생할 수 있는 구비누공 등의 합병증 예방에 도움이 된다.[14] MRI 영상에서 일반적인 낭성 병변의 경우 T1 강조영상에서는 균일한 중간 혹은 저 강도의 신호, T2 강조영상에서는 높은 신호강도를 나타낸다. 하지만 비구개관낭종은 T1 강조영상과 T2 강조영상 모두에서 동질의 높은 신호강도를 보인다. 증례 2의 MRI 촬영에서도 T1과 T2 강조영상 모두 골부식을 동반하는 높은 신호강도를 병변이 확인되었다. 이는 일반적인 낭종보다 비구개관낭종의 경우 단백 혹은 점액 성분을 많이 포함하고 있음에 기인하며, 특히 상피세포에서 유래된 각질의 증가와 연관이 있을 것이다.[14]

비구개관낭종의 치료는 전적출술을 통해 낭종을 완전히 제거하는 것이 치료의 원칙이었다. 하지만 다양한 낭종의 치료에 조대술을 적용하여 전적출술과 유사한 치료 결과를 얻을 수 있다는 보고들이 있었고, 비구개관낭종의 경우 크기가 커서 전적출술을 시행하기 어렵거나, 수술 후 누공이나 치아 등의 주위 구조물의 손상이 우려되는 경우 조대술을 우선 고려해 볼 수 있을 것이다.[6] 전적출술이나 조대술을 선택하는 기준이 되는 낭종의 크기나 특성은 없으며, 환자의 상태나 수술자의 선호도에 따라 결정되고 있다. 특히 최근 비내시경의 사용이 보편화 되면서 비내시경을 이용한 조대술을 활용하는 경우가 증가하고 있는 추세이다. 조대술의 경우 수술 시간과 치료기간 단축 등의 장점을 가지고 있으나 비구개관낭종의 경우 드물게 악성화되는 경우가 있어 필요한 경우 전적출술을 시행하여야 한다. 국내에서 보고된 15예 중 10예는 조대술을 시행하였고 본 증례를 포함하여 5예는 전출술을 시행하였다. 본 증례의 경우 낭종의 크기가 3.3 cm와 5.0 cm로 비교적 큰 경우였지만 낭종이 비강 중앙 부위에 위치하고 있으며 상악동과의 누공 형성을 예방할 수 있어 구순하접근법으로 낭종을 제거하였으며 수술 후 부작용이나 합병증 없이 성공적으로 치료할 수 있었다.

Acknowledgements

Not applicable.

Funding Information

Not applicable.

Conflicts of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

ORCID

Chang-Ho WhangBo, https://orcid.org/0000-0002-9156-6696
Seung-Hwan Lee, https://orcid.org/0009-0008-6022-4045
Mi-Kyung Ye, https://orcid.org/0000-0003-3732-9670
Seung-Heon Shin, https://orcid.org/0000-0002-9118-0590

Author Contribution

Conceptualization: Shin SH.
Data curation: Shin SH.
Formal analysis: WhangBo CH, Ye MK.
Methodology: Lee SH.
Software: WhangBo CH.
Validation: Lee SH, Ye MK.
Investigation: Shin SH, Ye MK.
Writing - original draft: WhangBo CH.
Writing - review & editing: WhangBo CH, Lee SH, Ye MK, Shin SH.

Ethics Approval

Not applicable.

References

1. Escoda-Francolí J, Almendros-Marqués N, Berini-Aytés L, Gay-Escoda C. Nasopalatine duct cyst: report of 22 cases and review of the literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2008;13(7):E438-43.
2. Cecchetti F, Ottria L, Bartuli F, Bramanti NE, Arcuri C. Prevalence, distribution, and differential diagnosis of nasopalatine duct cysts. Oral Implantol 2012;5(2-3):47-53.
3. Shylaja S, Balaji K, Krishna A. Nasopalatine duct cyst: report of a case with review of literature. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg 2011;65(4):385-8.
4. Moss HD, Hellstein JW, Johnson JD. Endodontic considerations of the nasopalatine duct region. J Endod 2000;26(2):107-10.
5. Park CH, Lee JW, Lee JH, Hong SM. Two cases of marsuialization of nasopalatine duct cyst. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2012;55(4):239-42.
6. Hong SD, Kim JH, Choi JE, Chung SK. Endoscopic endonasal marsupialization of extensive nasopalatine duct cysts protruding into the nasal cavity. Korean J Rhinol 2014;21(1):28-30.
7. Meyer AW. A unique supernumerary paranasal sinus directly above the superior incisors. J Anat 1914;48:118-29.
8. Swanson KS, Kaugars GE, Gunsolley JC. Nasopalatine duct cyst: an analysis of 334 cases. J Oral Maxillofac Surg. 1991;49(3):268-71.
9. Kang JM, Kim BG, Park SC, Hyun DJ. Two cases of nasopalatine duct cyst with nasal stuffiness. J Clin Otolaryngol Head Neck Surg 2007;18(2):233-6.
10. Chung J, Park SY, Son WR, Kim JM. A case of huge nasopaltine duct cyst with infecction. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2008;51(10):946-9.
11. Cinn YG, Park MK, Kang HJ, Lee HM. A case of endoscopic marsupialization of a nasopalatine duct cyst. J Rhinol 2009;16(2):152-4.
12. Kang JC, Shin KH, Han EM, Ahn SH. A case of nasopalatine duct cyst with cholesterol granuloma in maxillary sinus. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2020;63(11):528-32.
13. Vasconcelos RF, Ferreira de Aguiar MC, Castro WH, Cavalcanti de Araujo V, Mesquita RA. Retrospcetive analysis of 31 cases of nasopalatine duct cyst. Oral Dis 1999;5(4):325-8.
14. Hisatomi M, Asaumi J, Konouchi H, Matsuzaki H, Kishi K. MR imaging of nasopalatine duct cysts. Eur J Radiol 2001;39(2):73-6.
15. Han J, Kwon J, Kim JY. Endoscopic marsupialization of a large nasopalatine duct cyst. J Clin Otolaryngol Head Neck Surg 2012;13:292-295.