

## 구강저에 발생한 거대 표피양낭종 1례

국군 수도병원 이비인후과  
정필상 · 조원철 · 서정혁 · 심찬호

### A Case of Large Epidermoid Cyst of the Floor of the Mouth

Pil Sang Chung, M. D., Won Cheol Cho, M. D.,  
Jung Hyuck Suh, M. D., Chang Ho Shim, M. D  
*Department of Otolaryngology, Capital Armed Forces General Hospital*

= Abstract =

Dermoid cyst in the oral cavity is uncommon. It represents an abnormal cystic development in the midline as a result of displaced or enclaved embryonic epithelium during the midline closure of the bilateral first and second branchial arches.

Although epidermoid and teratoid cyst is more common in infant, dermoid cyst is more common in adult in the second or third decades. There is no sexual predilection.

The treatment of choice is complete surgical excision and the prognosis is excellent.

Recently the authors experienced a large epidermoid cyst on the floor of the mouth above the mylohyoid muscle which is excised by intraoral approach.

KEY WORDS : Epidermoid cyst · Above the mylohyoid muscle.

#### 서 론

유피양낭종은 약 6.9%가 두경부에 발생하며 이 중 약 24%가 구강저에 발생한다. 조직학적으로 표피양낭종, 유피양낭종, 기형종으로 분류하며 15세에서 35세사이에 주로 나타난다.

최근 저자들은 악설골근 상부에 발생한 거대한 표피양낭종 1례를 구강을 통해 적출하고 양호한 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

#### 증 례

환 자 : 전 ○ 철, 24세, 남자.

초 진 : 1991년 11월 22일.

주 소 : 구강저 및 턱 아래의 무통성 종물 및 고도의 언어장애.

과거력 및 가족력 : 1989년 4월에 양측 Caldwell-Luc 수술을 시행함.

현병력 : 약 10년전부터 구강저에 서서히 자라나는 작은 무통성 종물이 인지되었고, 그 후 계속 커져 고도의 구음장애와 수면시 코골음 및 경도의 호흡곤란이 발생하여 내원함.

전신소견 : 양호함.

국소소견 : 구강저에서 무통성의 유연하면서 주위 점막과 색조가 비슷한 난원형의 7×6cm

크기의 종물이 관찰되었고(Fig. 1), 외전상 약 하부의 돌출로 이중턱을 볼 수 있었다.

방사선학적 소견: 흉부단순촬영 및 임상병리검사, 심전도 모두에서 특이 소견 없었으며, 전산화단층촬영에서 구강저 거의 전체에 걸친 7×6×5cm 크기의 난원형 종물이 발견되었다(Fig. 2).

수술소견: 기관절개술을 시행후 기관내 삽관을 통한 전신마취하에서 설하부의 양측 Wharton관 아래 5cm 정도의 횡절개를 가하여 낭포벽을 찾은 후, 낭포변연을 따라 박리하였다. 박리시 주위 조직과의 유착은 심하지 않았다. 낭종을 적출하고 배농관을 삽입한 후 설하 부위를 봉합하였다.

치료결과: 수술후 3일째 배농관을 제거하고 기관절개창을 봉합하였으며, 수술 후 구음장애 등의 합병증은 없었다.

병리학적 소견: 암적색의 난원형 종물로 육안적으로 7×6×5cm 크기였고, 내부에 백색의

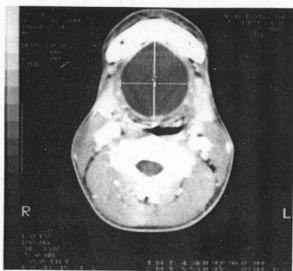


Fig. 2. Axial view of the floor of the mouth shows large ovoid cystic mass.

치즈양 함유물이 있었고, 피막이 잘 형성되어 있었다(Fig. 3). 병리조직학적 소견으로 낭포벽은 각화된 중층 편평상피로 구성되어 있었으며(Fig. 4), 낭종 내부는 각질(keratin material)로 차 있었다.

## 고 찰

구강저의 유피양낭종은 두경부에서 발생하는 드문 선천성 질환으로, Mayer<sup>9)</sup>는 조직학적으로 표피양낭종, 유피낭종, 기형종으로 구분하였다. 생성기전은 발생학적으로 양측 제1, 제

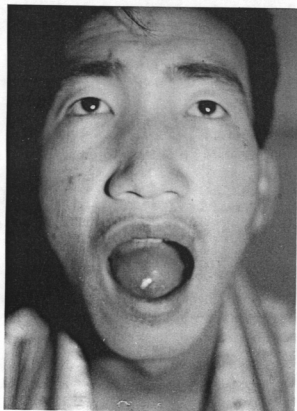


Fig. 1. Photograph shows large epidermoid cyst in the floor of the mouth.

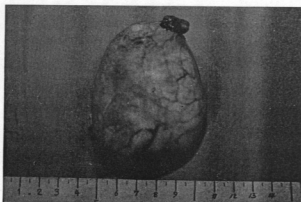


Fig. 3. Photograph of excised surgical specimen.

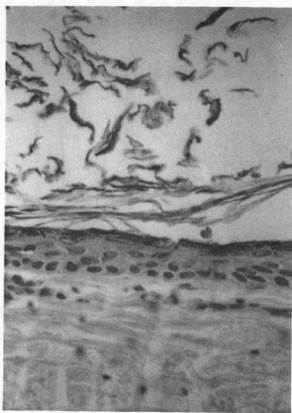


Fig. 4. Photomicrograph of cyst wall showing the stratified squamous epithelium and keratin material.(X400)

2세군이 중심선에서 닫힐 때 둘러싸이게 되는 상피 잔유물에서 형성되거나, 혀와 구강저를 형성하는 tuberculum impar의 상피층으로부터 발생한다고 한다<sup>4,5,8,11</sup>). Erich<sup>10</sup>)는 피부 외상후에 피부의 일부가 심부 구조로 들어가면서 급속한 성장과 낭종성 변성으로 후천성 함몰낭종(acquired implantation cyst)이 생성되어 발생한다고도 기술하였다. 많은 저자들이 낭종의 발생이 상피조직이 증가되는 시기에 발생한다고 믿고 있으며, 이는 낭종발생이 주로 15세에서 35세까지 생기는 것과 일치하고 있고<sup>9</sup>), 성별 발생빈도의 차이는 없다<sup>10</sup>). 구강저에서 발생하는 유피양낭종은 거의 구강저 중심선에서 발견되고<sup>9</sup>), 본 예에서와 같이 악설골근의 상하에서 각각 발생할 수 있으며 악설골근(mylohyoid muscle) 상부에 위치할 경우 크기가 커짐에 따라 구강저의 돌출이 심하고 혀가 거상되며 언어, 호흡, 연하장애가 올 수 있다<sup>6</sup>). 감별

진단해야 할 질환으로는 지방종, 하마종(ranula), 섬유종, 혈관종, 타액관 폐쇄, 갑상선관 낭종, cystic hygroma, 새열낭종, 구강저의 급성염증 또는 붕와직염, 타액선염, 구강저와 타액선의 양성 및 악성종양 등이 있다<sup>1-4,9,12</sup>). 구강저 유피양낭종의 치료는 완전한 외과적 적출이 가장 좋으며<sup>7</sup>) 예후는 비교적 양호하다. 낭종의 위치가 이설골근(genioglossus muscle)과 구강점막 사이에 있을 경우 구강내 적출술로, 이설골근과 악설골근(mylohyoid muscle) 사이에 위치한 낭종은 구강외로 수술하는 것이 좋다<sup>13</sup>).

구강내 수술시 중심 종절개(midline vertical incision)가 주위조직에 대한 손상과 출혈이 적고<sup>13</sup>) 구강의 수술을 시행할 경우는 슬후 흉터를 고려하여 피부선을 따라 횡절개를 한다. 본 예의 경우에는 낭종의 낭포가 점막 바로 아래 위치하고 종물의 크기가 매우 커서 시야를 좋게하기 위하여 횡절개를 가하여 낭종을 완전히 제거하였다.

## 결 론

최근 저자들은 구강저에 발생한 거대한 표피양낭종 1례를 구강내 적출로 제거하여 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## References

- 1) 백기학 · 이정창 : 구강저에 발생한 유피양낭포의 1례. 한이인지 22 : 75~78, 1979
- 2) 유찬 · 홍민기 · 윤동빈 등 : 구강저에 발생한 표피양낭종. 한이인지 32 : 355~359, 1989
- 3) 윤희영 · 엄찬섭 · 장보성 등 : 구강저에 발생한 거대표피양낭종 1례. 한이인지 32 : 727~729, 1989
- 4) Gold BD, Sheinkipf DE, Levy B : Der-

- moid, epidermoid and teratomatous cysts of the mouth. J Oral Surg 32 : 107~111, 1974
- 5) Johnston WH : Cysts of Floor of Mouth. Ann Otol 51 : 917~930, 1942
- 6) Lowry RE, Tempero RM, Davis LF : Epidermoid cyst of the floor of the mouth. J OralSurg 37 : 271~273, 1979
- 7) Marshall LR : Sublingual Epidermoid Cysts. Arch Otolaryng 33 : 639~662, 1941
- 8) Masuda BJ : Dermoid cysts in the floor of the mouth. Am J Orthodontics and Surgery 32 : 252~256, 1946
- 9) Meyer I : Dermoid cysts(dermoids) of the mouth. Oral Surg 8 : 1149~1164, 1955
- 10) New GB, Erich JB : Dermoid cysts of head and neck. Surg Gynecol Obstet 65 : 48~55, 1937
- 11) Pear BL : Epidermoid and dermoid sequestration cysts. Am J Roentgenol 110 : 148~155, 1970
- 12) Quinn JH, Robinson WC : Multiple congenital cysts of the mouth in a new born infant. Oral Surg 20 : 1~5, 1965
- 13) Stewart S, Glogoff M, Sherman P : Michael, Glogoff, and Peter Sherman : Large sublingual dermoid cyst. J Oral Surg 31 : 620~624, 1973

## 증례 2

환 자: 최 ○ 범, 54 세, 남자

초진일: 1988년 2월 7일

주 소: 심한 호흡 곤란 및 애성

현병력: 4개월전에 인후통이 있었고, 2개월 전부터 애성이 발생하여 약국에서 치료하다 약 1개월전부터 호흡곤란이 발생하여 개인 이비인후과에서 치료중 심한 호흡곤란으로 본원 응급실을 통해 입원하였다.

과거력: 34년간 하루에 담배 1갑정도 피웠고, 술은 약 10년전부터 하루에 소주 1병 정도 마시며 지내음.

가족력: 특기 사항 없음.

전신소견: 극히 쇠약한 상태였음.

국소소견: 간접후두경소견상 우측 성대에 거대하고, 불규칙한 표면을 가진 종괴가 관찰되었고, 동측의 성대고정이 있었음.

임상검사소견: 혈액검사, 소변검사, 간기능검사 및 심전도검사상 정상 소견이었음.

흉부X-선검사: 특기 사항 없음.

수술 및 술후 경과: 1988년 2월 10일 전신마취하에 후두전적출술을 실시하였고, 3월 8일부터 5580rad의 술후 방사선치료를 시행했으며, 현재 재발없이 관찰중에 있다.

조직 소견: 육안적 소견상 우측 성대에 불규칙한 표면을 가진 용상형의 2×2×4cm의 종괴가 인지되었다(Fig.2-A). 조직학적 소견상 다핵성 거대세포 및 방추세포가 관찰되었고, 이

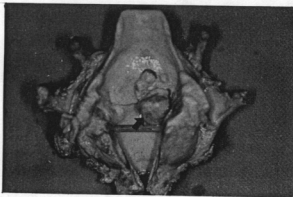


Fig.2-A. Laryngectomized specimen showing the polypoid exophytic tumor (arrow).

행대는 전형적인 소견이 관찰되지 않았다(Fig. 2-B).

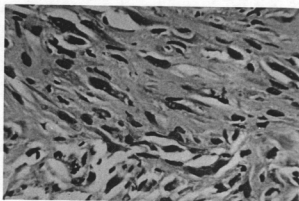


Fig.2-B. Microscopic finding of the spindle cell component. H & E, × 400.

## 증례 3

환 자: 김 ○ 태, 48세, 남자

초진일: 1989년 10월 17일

주 소: 애성 및 호흡곤란

현병력: 3개월 전부터 애성과 함께 호흡곤란이 점점 심해져서 개인병원에 내원시 후두종괴가 발견되어 본원에 내원하였다.

과거력: 9년전에 충수돌기제거술을 받았음.

가족력: 특기 사항 없음

전신소견: 양호한 편이었음.

국소소견: 후두경소견상 좌측 성대에 은회색(gray-white)의 거대하고, 표면이 윤활한 폴립양 종괴가 관찰되었다(Fig.3-A).

임상검사소견: 혈액검사, 소변검사, 간기능검사 및 심전도상 정상 소견이었음.

흉부X-선검사: 특기 사항 없었음.

수술 및 술후 경과: 1989년 11월 7일 전신마취하에 현수후두경하에 종괴만 제거하였고, 11월 28일부터 보조적 치료로 5940rad의 방사선 치료를 했으며, 현재 재발없이 관찰중에 있음.

조직 소견: HE 염색상 편평상피세포는 다형핵(pleomorphic nuclei)과 원형질내 각화(keratinization)가 있고, 세포간 교(bridges)가 나타나고, 다핵성 거대세포의 출현 및 세포분열상이 나타나며, 이행대(transition zone)가 관찰되었음(Fig.3-B, C).

## 고찰

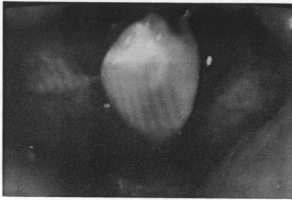


Fig. 3-A. The videotelelaryngoscopic finding of a laryngeal mass. Note the gray-white colored polypoid exophytic tumor with smooth surface.

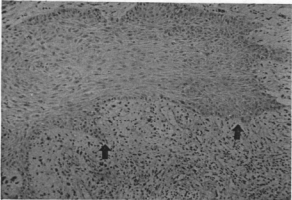


Fig. 3-B. Microscopic finding of the squamous and spindle cell components. This 'transition zone' is seen in spindle cell carcinoma (arrows). H & E,  $\times 100$

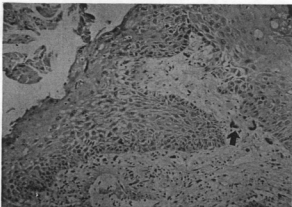


Fig. 3-C. Microscopic finding of the spindle cell component. Note the multinucleated giant cell (arrow). H & E,  $\times 100$ .

방추세포암(spindle cell carcinoma)은 상기도에 매우 드물게 발생하는 종양으로 병리조직학적으로만 진단이 가능한 질환이며 1957년에 Lane<sup>15)</sup>이 구강, 인두 및 후두에 발생한 10례의 용상형 종양을 보고하면서 병리조직상 간질성 육종양(interstitial sarcoma-like pattern)이 원발성 편평상피세포암의 이차적인 반응 때문이라 하여 "pseudosarcoma"라 최초 명명했으며, 1963년에 Sherwin 등<sup>20)</sup>은 "junctional epithelial activity"와 "transitional zone"이 있음을 증명하여 "spindle cell carcinoma"라 명명했고, 그의 carcinoma with pseudosarcoma, carcinosarcoma, squamous cell carcinoma with sarcoma-like stroma, sarcomatoid carcinoma, pleomorphic carcinoma 등으로 명명되었다<sup>4,8,14,16,17)</sup>.

빈도는 모든 후두암의 약 1%를 차지하며<sup>11, 21)</sup>, 호발연령은 주로 50~60대의 남자에 많고<sup>1-3,8,13-15)</sup>, 발생장소는 구강, 상기도 및 식도에 많으며, 특히 후두의 진성대에 가장 많이 호발한다<sup>1-3,8,13,16,19)</sup>.

흡연과 방사선조사 등이 유발인자로 추정되며<sup>4,8,19)</sup>, 발생기전은 아직 완전한 규명은 되어 있지 않으나 그림 4와 같이 6가지의 이론이 거론되고 있다<sup>8)</sup>. 첫째는 "collision tumor type of carcinosarcoma"로 동일한 발암물질에 의해 상피세포와 간질세포가 각각 편평상피세포암과 육종을 만든다는 설이고, 둘째로는 "blastoma theory"로서 미분화된 다능성세포에서 이상분화(biphasic differentiation)되어 상피세포암과 육종이 발생한다는 설이며<sup>21)</sup>, 세째로는 상피세포암이 분화하여 편평상피세포암과 육종양암 즉, 방추세포암이 된다는 설로서 이경우에는 이행대가 나타나는 경우에만 설명이 가능하며<sup>16)</sup>, 현재로서 가장 널리 인정받고 있는 설이다. 네번째는 간질의 육종성 양상이 편평상피세포암의 이차적 반응현상이라는 설<sup>14,16)</sup>과 다섯째는 악성상피세포가 역분화하여 항원성

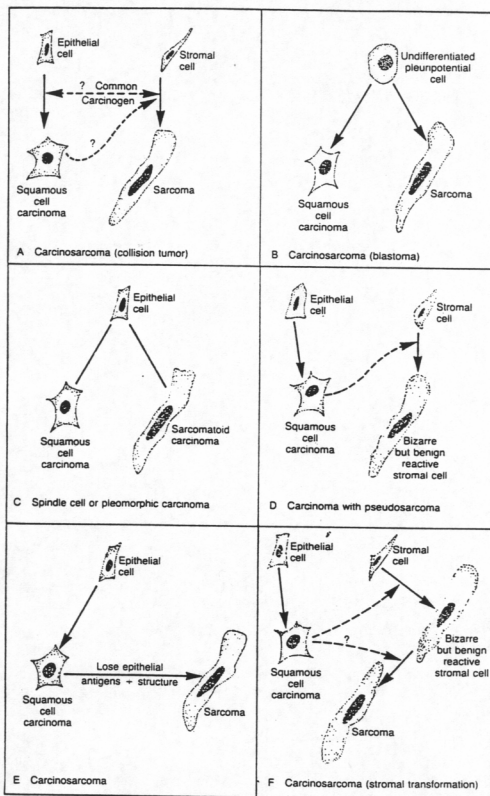


Fig.4 Graphic summary of six hypothetical histogenetic schemes for spindle cell carcinoma from Ref. 8.

을 상실하여 육종으로 된다는 설이고, 마지막으로는 "stromal transformation"설은 기질이 육종성 변형을 하여 carcinosarcoma를 형성한다는 설이다.

임상증상은 애성이 가장 흔하고, 성문폐쇄로 인한 호흡곤란도 흔히 나타나며, 그외 연하장애, 인후통, 발성장애, 기침, 천명등이 나타난다  
1-3, 4, 8, 13, 15, 16, 19).

육안적으로는 융상형 혹은 돌출형과 침윤형 혹은 정착형으로 나타나며, 융상형이 더 많이 보고되어 있다.<sup>1-8, 10-21).</sup>

현미경학적 소견으로는 편평상피세포암과 육종양 방추세포종식이 혼재해 있으며, 세포충실성(cellularity)이 많고, 세포질이 적은 방추세포, 다핵성거대세포 및 비전형세포가 관찰되며, 환자의 50%에서 이행대가 관찰된다.<sup>14).</sup>

전자현미경상으로는 keratohyaline 과립과 tonofilament 관속이 종양세포에서 관찰되고, 세포질에서는 premelanosomes이 관찰되기도 하며, 그외 desmosomes과 desmosome-tonofilament complex가 나타나기도 한다.<sup>16).</sup>

진단은 임상소견과 육안적 양상으로는 확신이 어렵고, 병리조직학적검사에 의해서만 가능하며, 한정된 조직표본만으로 진단하기가 매우 어렵다. 최근 immunoperoxidase법이 Woods등<sup>22)</sup>에 의해 개발되어 상피암과 비상피암의 구별이 용이하게 되었으며, 상피세포암은 keratin proteins에 양성반응을 보이고, 비상피세포암은 음성반응을 나타낸다.

감별진단을 요하는 질환으로는 종양의 표현에 제약을 동반하는 편평상피암과의 육안적 감별이 힘들고, 성대에 생긴 융상형의 경우는 후두폴립과 감별이 힘들다. 그외 횡문근육종, 섬유성육종 및 평활근육종과 감별을 요한다.<sup>8, 10, 18).</sup>

치료로는 보존적 수술요법과 광범위한 근치적 수술요법 및 보조적 방사선 치료와 있으며, 보존적 수술요법이나 방사선 치료만으로는 재발이 많으므로, 근치적 수술요법이 가장 좋은 치료법으로 보고되고 있다.<sup>8, 13, 15, 18).</sup> 그러나 본 증

례 3에서는 보존적 수술과 방사선 치료후 약 2년 5개월간 관찰 중이나 재발의 증후없이 지내고 있다.

예후는 매우 불량하여, Appelman과 Oberman<sup>4)</sup> 및 Hyams<sup>14)</sup>는 진단후 2년내 사망한다고 보고하였다. 예후에 관여하는 인자로는 Appelman과 Oberman<sup>4)</sup> 및 Goellner등<sup>13)</sup>은 융상형이 침윤형보다 예후가 좋다고 하였고, Randall등<sup>18)</sup>은 육안적 소견과 예후는 관계가 없으며, 그 크기가 크고 성문 상부에 발생한 종양은 예후가 나쁘다고 주장했으며, Lane<sup>15)</sup>는 편평상피세포 성상의 침윤정도가 가장 중요한 인자라고 하였고, Hyams<sup>14)</sup>는 임상진단시 병기가 가장 중요하며 후두의 상기도로 전이된 종양이 예후가 좋지 않다고 보고하였다.

## 결 론

저자들은 최근 후두에 생긴 방추세포암(spindle cell carcinoma) 3례 중 중례 1은 후두전적출술, 중례 2는 후두전적출술 및 방사선 치료, 중례 3은 보존적 제거 및 방사선 치료로 1년 4개월에서 4년 2개월간 관찰한 결과 재발의 증후없이 경과 중인 중례들을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) 송계원 · 서장수 · 최병훈 등 : 후두에서 발생한 가성육종 1례. 한이인지 28 : 503~507, 1985
- 2) 이효성 · 강영천 · 이강혁 등 : 하인두에 생긴 가성육종 1례. 한이인지 32 : 1200~1204, 1989
- 3) Andrews P, Oliver B : Pseudosarcoma of the larynx. Laryngoscope 82 : 665~672, 1972
- 4) Appelman HD, Oberman HA : Squamous



- cell carcinoma of the larynx with sarcoma-like stroma: a clinicopathologic assessment of spindle cell carcinoma & pseudosarcoma. *Am J Clinical Pathol* 44: 135~145, 1965
- 5) Atkins JP, Friedel W, Chambers RG: Pseudosarcomas of the pharynx and larynx. *Arch Otolaryngol* 102: 286~290, 1976
- 6) Battifora H: Spindle cell carcinoma: ultrastructural evidence of squamous origin & collagen production by the tumor cells. *Cancer* 37: 2275~2282, 1976
- 7) Bretlau P, Katholm M, Hainau B et al: Spindle cell carcinoma of the larynx. *Acta Otolaryngol (Stockh)* 98: 163~166, 1984
- 8) Brodsky G: Carcino(pseudo)sarcoma of the larynx: The controversy continues. *Otolaryngol clin North Am* 17: 185~197, 1984
- 9) Czernobilsky B, Ophir D, Marshak G: Distinctive immunohistochemical labeling of epithelial & mesenchymal elements in laryngeal pseudosarcoma. *Laryngoscope* 97: 490~494, 1987 (abstract)
- 10) Davies DG: Fibrosarcoma and pseudosarcoma of the larynx. *J Laryngol* 83: 423~434, 1969
- 11) Ferlito A: Malignant epithelial tumors of the larynx. In *Cancer of the Larynx* (ed. Ferlito A), Florida, CRC, pp120~125, 1985
- 12) Garcia ME, Tirado ZI, Ortiz PA et al: Pseudosarcoma of the larynx. *Acta-Otorhinolaryngol Esp* 41: 173~174, 1990 (abstract)
- 13) Goellner JR, Devine KD, Weiland LH: Pseudosarcoma of the larynx. *Am J Clin Pathol* 59: 312~326, 1973
- 14) Hyams VJ: Spindle cell carcinoma of the larynx. *Canad J Otolaryngol* 4: 307~313, 1975
- 15) Lane N: Pseudosarcoma(polypoid sarcoma-like masses) associated with squamous cell carcinoma of the mouth, fauces and larynx: report of ten cases. *Cancer* 10: 19~41, 1957
- 16) Minckler DS, Meligro CH, Norris HT: Carcinosarcoma of the larynx: a case report with metastasis of epidermoid and sarcomatous elements. *Cancer* 26: 195~200, 1970
- 17) Pettigrew NM, Garcia AA, Alonso A: Sarcomatoid carcinoma(so-called pseudosarcoma) of the larynx stimulating malignant giant cell tumor of soft parts. *Am J Clin Pathol* 82: 340~343, 1984
- 18) Randall G, Alonso WA, Ogura JH: Spindle cell carcinoma(pseudosarcoma) of the larynx. *Arch Otolaryngol* 101: 63~66, 1975
- 19) Staley CJ, Ujiki GT, Yokoo H: Pseudocarcinoma of the larynx: independent metastasis of carcinomatous & sarcomatous elements. *Arch Otolaryngol* 94: 458~465, 1971
- 20) Sherwin RP, Strong MS, Vaughn CW: Polypoid and junctional squamous cell carcinoma of the tongue and larynx with spindle cell carcinoma(pseudosarcoma). *Cancer* 16: 51~60, 1963
- 21) Srinivasan U, Talvalkar GV: True carcinosarcoma of the larynx: a case report. *J Laryngol Otol* 93: 1031~1035, 1976
- 22) Woods GL, Espinoza CG, Azar HA: Carcinomas with spindle cell(sarcomatoid) component: an immunohistochemical & electron microscopic study. *Lab invest* 46: 91A, 1982