

신생아 급성 기도폐색을 유발한 후두개곡 낭종 2예

부산대학교 의학전문대학원 양산부산대학교병원 영상의학과학교실,¹ 이비인후과학교실²

김용우¹ · 이윤세²

Vallecular Cyst Inducing Acute Airway Obstruction in Neonate : Two Cases

Yong-Woo Kim, MD¹ and Yun Sae Lee, MD²

¹Department of Radiology; ²Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,

Pusan National University School of Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

— ABSTRACT —

Vallecular cyst is a rare in children. Vallecular cyst consists of a unilocular cystic mass of variable size arising from the lingual surface of the epiglottis and containing clear, non-infected fluid. Vallecular cyst has been reported in the literature under different names and this has led to some confusion. Terms used have included mucous retention cyst, epiglottic cyst, base-of-the-tongue cyst, congenital cyst and more recently ductal cyst. This later name originates from the classification of DeSanto et al, in which they grouped laryngeal cysts according to their location and surface mucosa (Thyroid cartilage foraminal cysts ; Saccular cysts ; Ductal cysts). This classification has become popular but has the limitation that, it was largely based on observation in adults and did not recognize different anatomical sites and variations in clinical presentation. Although these cysts are benign, they may cause serious airway obstruction and even death if not treated appropriately. A mortality rate of about 40% in children with laryngeal cysts was reported¹. Vallecular cyst or pre-epiglottic cyst is a rare but recognized cause of respiratory distress in infancy or immediately after birth. It has been associated with sudden airway obstruction resulting in death. We experienced two cases of vallecular cyst with feeding difficulty and stridor in 2-month old female and dyspnea in 4-month old male who symptom relief by endoscopic laser-assisted resection. With a review of literature, authors report two cases of vallecular cyst with the symptoms of upper airway compromise. (*J Clinical Otolaryngol* 2012;23:321-324)

KEY WORDS : Vallecular cyst · Children · US · CT · MRI.

서 론

후두개곡 낭종(Vallecular cyst)은 소아에서 드물게, 출

논문접수일 : 2012년 9월 27일

논문수정일 : 2012년 10월 11일

심사완료일 : 2012년 11월 8일

교신저자 : 이윤세, 626-870 경남 양산시 물금읍 금오로 20

부산대학교 의학전문대학원 양산부산대학교병원

이비인후과학교실

전화 : (055) 360-2654 · 전송 : (055) 360-2162

E-mail : manseilee@naver.com

생시 소아의 설기저부에 발생하며, 양성 낭종이나 흡기성 천명, 수유 장애, 호흡곤란과 같은 후두연화증과 유사한 증상들을 야기할 수 있다. 그리고 만약 적절히 치료하지 않으면 급작스러운 기도 폐쇄로 사망할 수 있다고 보고되고 있다.^{1,2)} 낭종은 후두개의 설측면에 다양한 크기의 단방성 낭종으로 발생한다.³⁾ 낭종이 소아의 기도 주변에 위치하므로 대부분의 경우 낭종은 증상을 야기할 정도로 충분히 크나, 크기가 아주 작은 경우에는 아이가 커서 연하곤란을 호소할 때까지 진단이 지연될 수도 있다.

저자는 수유장애와 호흡 곤란 증상을 가진 소아에서 영

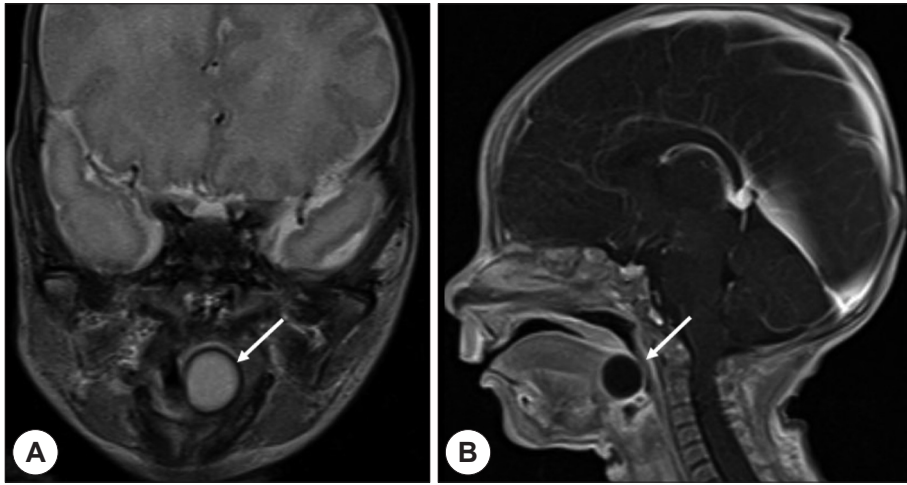


Fig. 1. A : The coronal T2 weighted MRI scan shows a well-defined mass lesion (arrow) with high signal intensity at tongue base. B : Contrast enhanced sagittal T1 weighted MRI scan shows no enhancement of mass at vallecula (arrow).

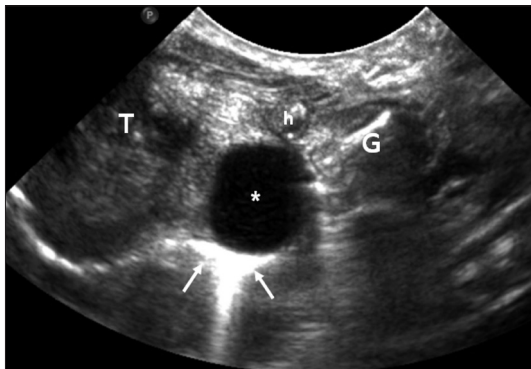


Fig. 2. High-resolution US image of the neck in the longitudinal plane, performed with a convex 8–5 MHz transducer, shows a thin walled anechoic cyst (asterisk) located posterior the hyoid (h), cranial to the glottis (G) and caudal to the tongue base (T) ; the air in the upper airway delineates the dorsal wall of the cyst (arrows).

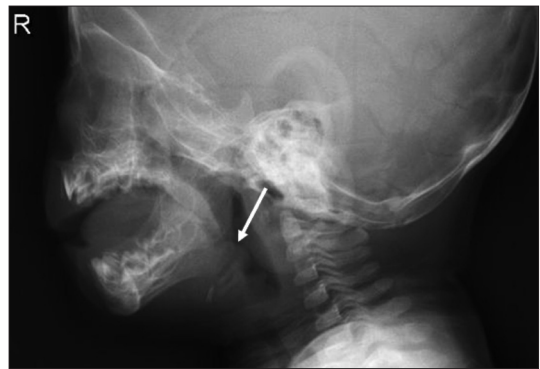


Fig. 3. lateral neck radiograph with an obvious sharply delineated bulging mass in the vallecular space (arrow).

상 검사를 통해 진단되고 수술적으로 치료로 증상이 호전된 2예를 체험 하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1

저체중(1,659 gram)을 가진 35주 미숙아가 입원 치료 중 경구수유 곤란을 보였다. 환아는 출생 56일에 교정 연령 43주, 체중 2,400 gram으로 전신 상태는 호전되었고

재할 치료를 지속하였으나, 계속되는 수유 곤란과 천명을 보였다. 환아는 뇌병변 확인을 위한 뇌 자기공명영상 촬영을 시행하였고, 후두개 앞쪽에 위치한 후두개골 낭종을 발견하였다(Fig. 1). 계곡 낭종이 수유 곤란과 천명의 원인으로 생각되었다. 동반된 설하 갑상선의 유무를 확인하기 위해 경부 초음파를 시행하였다(Fig. 2). 후두경하에 레이저 수술을 시행하였다.

증 례 2

38주, 2,760 gram으로 출생한 환아는 특이병력 없이 지내다가, 출생 2개월부터 반복되는 호흡곤란과 상기도 증상으로 내원하였다. 외래에서 시행한 목 측면 방사선

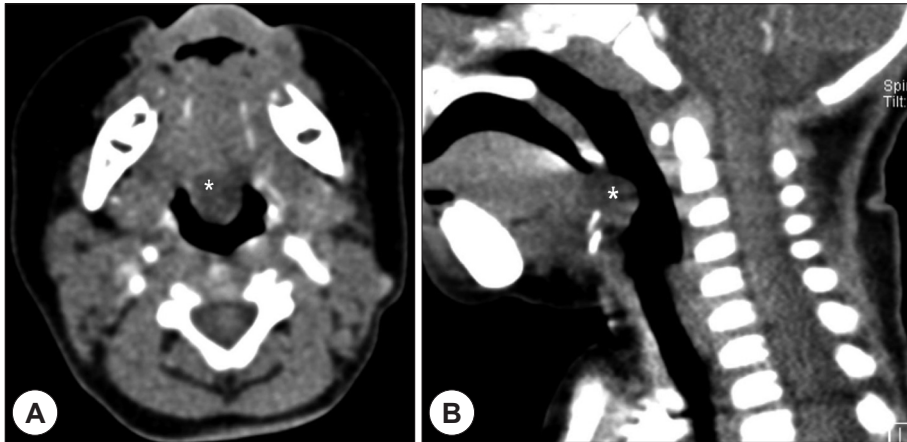


Fig. 4. Axial (A) and sagittal reformatted (B) contrast-enhanced CT images show a hypointense mass (asterix) bulging into the vallecular space.

사진상 후두개 전방에 종괴가 발견되었다(Fig. 3). 종괴를 평가하기 위해 목 전산화단층촬영을 시행하였고, 설저에 위치한 후두개곡 낭종으로 진단하였다(Fig. 4). 동반된 설하 갑상선의 유무를 확인하기 위해 목 초음파를 시행하였다. 후두경하에 레이저 수술을 시행하였다.

두 증례 모두 수술 후 증상은 호전되었고, 외래 경과 관찰하고 있다.

고 찰

후두개곡 낭종(vallecular cyst)은 문헌에 mucous retention cyst, epiglottic cyst, sublingual cyst, ductal cyst 등 여러 다른 이름으로 불려 왔기 때문에 혼동을 주고 있다.^{3,4)} 후두개곡 낭종은 후두개의 설측면에, 투명한 액체를 가지는 다양한 크기의 단발성 낭종으로 발생한다. 후두개곡 낭종의 발병기전으로 몇 가지 이론들이 있다. 첫째 설저의 점액선의 폐쇄에 의해 생긴다. 계곡 낭종은 계속 점액을 분비하는 점액선으로 둘러싸여 있고, 그 크기가 계속 증가하기 때문이다. 둘째 발생학적 기형으로 생긴다. De Santo 분류에 의하면, 후두에서의 위치와 점막에서의 깊이에 따라, ductal cyst와 saccular cyst로 나뉜다. Ductal cyst는 점액 저류 낭종으로 점막하 분비선이 막혀서 생긴다고 생각되고 있고, 계곡에 주로 발생한다. Saccular cyst는 빈도가 상대적으로 적으며 후두신주머니(laryngeal saccule)에 주로 생긴다.⁵⁾

임상적으로 후두개곡 낭종은 양성 낭종이나, 기도 주변에 위치하므로 흡기성 천명, 수유 장애, 그리고 호흡곤란과 같은 다양한 기도 폐쇄 증상들을 야기할 수 있다. 목의 자세 변화가 증상을 변화시킬 수 있다. 또한 드물지만, 신생아와 유아에서 상기도 폐쇄와 사망의 원인으로 알려져 있다.^{6,7)} 후두개곡 낭종은 어른에서 우연히 발견되어지며, 감염되었을 때 낭종이 팽창하여 증상을 야기할 수 있다.

신생아와 유아에서 목의 종괴나 천명 등이 있을 때, 진단을 위한 검사의 순서는 환자의 임상 상태에 따라 결정된다. 특히 심각한 기도 장애 증상이 있으면, 굴절성 섬유 기관지경 검사를 첫 번째로 필요로 한다. 만약 종괴가 의심되면, 단순 방사선촬영과 초음파가 진단에 도움이 된다.

측면 경부 방사선 촬영에서 후두개곡 낭종은 후두개 앞쪽에 돌출된 종괴로 보일 수 있다. 그러나 우는 환아에서 인두후 연부 조직의 이완과 때때로 부적절한 촬영 기법으로 가음성으로 해석될 수도 있다.

초음파는 쉽게 시행할 수 있고, 고해상도 탐촉자를 사용하면 목부위의 연부조직과 근육의 관찰에 유용하다.^{8,9)} 초음파는 낭종의 위치의 확인과 다른 연조직 종괴와 감별을 할 수 있다.¹⁰⁾ 저자의 증례에서도 초음파를 사용하였고, 낭종의 위치와 다른 연조직 종괴 감별을 할 수 있었다. 추가적인 검사로는 환자와 비슷한 증상을 보일 수 있는 혈관륜(vascular ring) 또는 다른 기형 질환을 배제하기 위해 전산화단층촬영이나 자기공명영상에 필요하다.⁶⁾

후두개곡 낭종의 확진은 기관지 내시경이나 후두경 검사로 할 수 있다.¹¹⁾ 감별진단에는 선천성 하마중, 갑상선관낭, 표피양낭, 기형중, 설하 갑상선, 림프관중, 혈관중과 같은 다른 중심선 종괴들을 포함시켜야 한다.¹²⁾ 낭종이 피대근띠근육(strap muscle)내에 위치하고, 연하 또는 혀의 움직임에 따라 움직일 때 이는 갑상선관낭을 시사하는 소견이다.¹⁰⁾ 그리고 초음파에서 정상 위치에 있는 갑상선을 확인하는 것이 감별 진단중 이소성 갑상선 조직에 의한 종괴를 배제할 수 있다.¹²⁾

계곡 낭종의 치료에는 외부 수술적 절제, 내시경적 레이저를 이용한 절제 또는 조대술이 있다. 낭종의 세침흡인은 상부기도 폐쇄를 급속히 완화시켜야 할 경우에만 사용된다.¹³⁾ 저자의 증례에서는 모두 내시경적 레이저 절제술을 시행하였고, 수술 후 출혈이나 다른 합병증은 보이지 않았다.

결론적으로 계곡 낭종은 매우 드물지만, 수유 곤란과 천명과 같은 상기도 폐쇄 증상이 있을 경우 감별 진단에 포함시켜야 된다. 초음파가 계곡 낭종의 진단에 도움이 되며, 병변의 범위와 감별진단과 같은 추가적인 수술전 정보가 필요시에는 전산화단층촬영이나 자기공명영상도 도움이 된다.

중심 단어 : 후두개곡 · 낭종 · 기도폐쇄 · 레이저.

REFERENCES

1) Wong KS, Li HY, Huang TS. *Vallecular cyst synchronous*

with laryngomalacia: presentation of two cases. Otolaryngol Head Neck Surg 1995;113(5):621-4.

2) Ruben RJ, Kucinski SA, Greenstein N. *Cystic lymphangioma of the vallecula. Can J Otol* 1975;4(1):180-4.

3) Gutierrez JP, Berkowitz RG, Robertson CF. *Vallecular cysts in newborns and young infants. Pediatr Pulmonol* 1999;27(4):282-5.

4) Wong KS, Huang YH, Wu CT. *A vanishing tongue-base cyst. Turk J Pediatr* 2007;49(4):451-2.

5) DeSanto LW, Devine KD, Weiland LH. *Cysts of the larynx classification. Laryngoscope* 1970;80(1):145-76.

6) Yao TC, Chiu CY, Wu KC, Wu LJ, Huang JL. *Failure to thrive caused by the coexistence of vallecular cyst, laryngomalacia and gastroesophageal reflux in an infant. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2004;68(11):1459-64.

7) Tibesar RJ, Thompson D. *Apnea spells in an infant with vallecular cyst. Ann Otol Rhinol Laryngol* 2003;112(9Pt1):821-4.

8) Garel C, Legrand I, Elmaleh M, Contencin P, Hassan M. *Laryngeal ultrasonography in infants and children: anatomical correlation with fetal preparations. Pediatr Radiol* 1990;20(4):241-4.

9) Garel C, Hassan M, Legrand I, Elmaleh M, Narcy P. *Laryngeal ultrasonography in infants and children: pathological findings. Pediatr Radiol* 1991;21(3):164-7.

10) Imhof H, Czerny C, Hormann M, Krestan C. *Tumors and tumor-like lesions of the neck: from childhood to adult. Eur Radiol* 2004;14 Suppl:L155-65.

11) Tuncer U, Aydogan LB, Soyulu L. *Vallecular cyst: a cause of failure to thrive in an infant. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2002;65(2):133-5.

12) Koch BL. *Cystic malformations of the neck in children. Pediatr Radiol* 2005;35(5):463-77.

13) Ku AS. *Vallecular cyst: report of four cases-one with co-existing laryngomalacia. J Laryngol Otol* 2000;114(3):224-6.