

하마종 치료에서 설하선 절제의 필요성 : 예비연구

가천의과대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실
우주현 · 김미주 · 차홍억 · 김동영

Need of Sublingual Gland Excision in Treatment of Ranula : Preliminary Study

Joo-Hyun Woo, MD, Mi-Joo Kim, MD, Heung-Eog Cha, MD, PhD and Dong-Young Kim, MD, PhD
Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Gachon University of Medicine & Science,
Graduate School of Medicine, Incheon, Korea

-ABSTRACT-

Background and Objectives : Most ranulas develop as a result of salivary extravasation from the sublingual gland. Several treatment modalities have been reported, but the optimal is still controversial. We analyzed the effectiveness and potential risks of currently available surgical treatment modalities for ranula to determine one that was optimal. **Materials and Methods** : Sixty-four patients with ranulas underwent surgical procedures which included incision and drainage, marsupialization, ranula excision, and excision of sublingual gland with ranula. Recurrence and related complications were documented. **Results** : The recurrence rates of incision and drainage, marsupialization, ranula excision, excision of the sublingual gland with ranula were 100%, 35.7%, 18.8%, and 3.4%, respectively. The patients who underwent excision of the sublingual gland with ranula had minimal complications and recovered without any problems. There is no significant difference of recurrence rate according to the type of ranula. **Conclusion** : The surgical methods were more important factor than the types of ranula in the recurrence. Excision of sublingual gland with ranula should be considered in choosing the primary surgical treatment modality in any type of ranula. (J Clinical Otolaryngol 2010;21:61-66)

KEY WORDS : Ranula · Sublingual gland · Recurrence.

서 론

하마종은 구강저에서 발생하는 낭종 또는 낭형태의 종물이며 투과성의 푸른빛이 도는 돔모양의 부종으로 관찰된다. 병인에 따라 타액선관의 폐쇄로 인해 발생하

는 실제 낭(true cyst)과 타액관의 손상으로 인해 주위 조직으로 유출된 타액이 축적됨으로써 발생하는 가성낭(pseudocyst)으로 분류할 수 있으며 대부분의 하마종은 가성낭으로 형성된다.¹⁾ 가성낭의 외벽은 상피세포 대신에 치밀한 연결조직에 의해 둘러싸인 육아조직으로 이루어져 있다.²⁾ 하마종의 형태에 따른 분류로는 구강의 설하부에 국한된 경우를 단순 하마종, 설하공간을 지나 경부에 종물이 나타나는 경우를 몰입성 하마종으로 구분한다.³⁾ 하마종의 치료에는 수술적인 방법으로 조대술, 하마종절제, 설하선절제 등이 시행되고 있으며 수술 이외에도 보툴리눔독소 주사, CO2 레이저를 이용한 하마종 낭의 기화법 등이 보고되었으며 최근에는 OK-432를 이용한 경화요법이 시행되고 있다.⁴⁻⁸⁾ 여러 치료방법들

논문접수일 : 2010년 2월 1일
논문수정일 : 2010년 2월 23일
심사완료일 : 2010년 3월 26일
교신저자 : 김동영, 405-760 인천광역시 남동구 구월동 1198 가천의과대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실
전화 : (032) 460-3324 · 전송 : (032) 467-9044
E-mail : woojh@gilhospital.com

중 설하선 절제를 포함한 수술이 가장 효과적인 치료법이며, 특히 재발성 또는 몰입성 하마종에서는 설하선절제가 반드시 필요한 것으로 알려져 있지만 치료자의 선호에 따라 여러 수술법이 다양하게 시행된다.⁹⁻¹²⁾ 이에 저자들은 저자들이 경험한 하마종의 수술 후 치료결과를 분석하여 여러 수술법의 효과를 알아보고자 하였다.

대상 및 방법

2000년 1월부터 2007년 12월까지 하마종으로 진단되어 수술적 치료를 시행한 환자들을 대상으로 의무기록을 조사하여 후향적 분석을 시행하였으며 본원의 임상시험 심사위원회의 승인을 얻었다. 하마종의 진단은 임상양상과 방사선 검사를 통해 이루어졌으며 구강내에 국한된 경우 단순 하마종, 종물이 하악설골근을 넘어서 경부로 나타나는 경우 몰입성 하마종으로 진단하였다. 의무기록을 통해서 하마종의 형태, 수술법, 수술 후 재발율, 수술과 관련된 합병증 등을 분석하였으며 수술법에 따른 재발율과 합병증을 조사하여 각 수술법의 효과를 알아보고자 하였다. 통계적 방법으로 Fisher's exact test [SPSS, Version 11.0 for Windows (SPSS Inc, Chicago, IL)]를 사용하였다.

결 과

64명의 환자가 하마종으로 진단되어 수술적 치료를 받았다. 그 중 단순하마종 47례, 몰입성 하마종 17례였으며 환자의 평균 나이는 단순 하마종 19세(±13.23), 몰입성 하마종 20세(±7.82)였다. 남녀비는 단순 하마종은 남자 16례, 여자 31례로 여자가 많았으며, 몰입성 하마종은 남자 8례, 여자 9례로 비슷하였다. 단순 하마종 1례, 몰입성 하마종 6례에서 이전에 수술한 과거력이 있었으며, 수술의 과거력 이외에 외상의 과거력은 없었다. 과거력의 차이에서 통계적인 유의성은 없었다. 단순 하마종은 47례 중 수술 후 13례에서 재발하여 재발율은 27.7%였으며 몰입성 하마종은 17례 중 1례에서 재발하여 재발율은 5.9%였다. 단순 하마종과 몰입성 하마종의 재발율을 비교해 보았을 때 통계적 유의성은 없었지만 단순 하마종에서 높은 재발율을 보였다(Table 1).

Table 1. Demography of patients with ranula

	Simple	Plunging
Number	47	17
M/F	16/31 (1 : 1.93)	8/9 (1 : 1.12)
Mean age	19.17±13.23	20.24±7.82
Trauma Hx.*	1	6
Recurrence [†]	13 (27.7%)	1 (5.9%)

* : p=0.833, † : p=0.057 calculated by Fisher's exact test

처음 수술에서 단순 하마종의 경우 절개배액(incision and drainage, I&D) 5례, 조대술(marsupialization) 14례, 하마종 절제술(ranula excision) 16례, 하마종 절제를 포함한 설하선 절제술(excision of sublingual gland with ranula, SLGE) 12례가 시행되었다. 몰입성 하마종에서는 17례 모두에서 하마종 절제를 포함한 설하선 절제술이 시행되었다. 수술은 대부분 구강 접근을 통해 시행되었으며 과거 수술력이 있는 몰입성 하마종 1례에서 경부 접근법이 시행되었다. 하마종 절제를 포함한 설하선 절제는 하마종 위의 구강저 점막에 절개를 시행 후 하마종과 점막을 박리한다. 하마종을 박리하면서 설하선과의 연결을 확인하고 계속해서 설하선을 박리한다. 이때 가능하면 악하선관 개구부로 소식자를 삽입하여 박리중 악하선관이 손상되지 않도록 주의한다. 설하선의 박리는 혀측에서 하악측으로 시행하며 악하선관과 설신경을 순차적으로 관찰하고 보존한다(Fig. 1). 몰입성 하마종일 경우 또는 단순 하마종이 너무 커서 박리가 어려울 경우 절개 전 미리 흡인을 시행할 수 있다.

수술방법에 따른 재발율을 살펴보면 절개배액은 시행된 5례에서 모두(100%) 재발하였으며, 조대술은 14례에서 시행되었고 5례(35.7%)에서 재발하였다. 하마종절제술은 16례에서 시행되어 3례(18.8%)에서 재발하였으며 설하선절제술은 단순 하마종 및 몰입성 하마종 합계 29례에서 시행되고 1례에서만 재발하여 재발율은 3.4%였다. 절개배액과 조대술은 설하선절제술에 비해 통계적으로 유의하게 높은 재발율을 보였다(Table 2). 재발은 수술 후 평균 11.8주, 약 3개월에 발생하였으며 절개배액을 시행한 환자는 평균 2.6주에 재발이 나타났다. 재발한 14례 중에서 10례는 설하선 절제술을 시행하여 완치되었으며 3례는 조대술로 완치되었다. 나머지 1례(Table

3의 14번째)는 초기 수술로 설하선 절제술을 시행 받았지만 6개월 후 구강저에 용기가 관찰되었다. 수술적 치료는 시행하지 않았고 1차례 주사기로 흡인 후 증상이 소실되었고 다시 재발하지 않았다. 재발한 증례 1, 2, 3은 1차 재발 후에도 보호자 및 환자의 요구로 각각 절개배액과 조대술을 시행 후 2차 재발하였으며 2차 재발

후 증례 1은 조대술로, 증례 2, 3은 설하선 절제술로 치료 되었다(Table 3).

재발 이외에 수술과 관련된 합병증은 설하선절제술을 시행한 3명의 환자에서 발생하였으며 봉합부위벌어짐 1례, 혈종 2례가 발생하였다. 설하선절제술을 시행하는 중에 2례에서 악하선관의 손상이 발견되었으며 2례 모

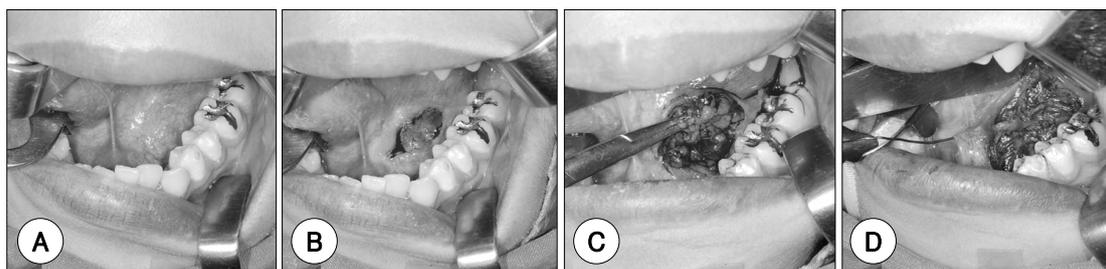


Fig. 1. Transoral ranula and sublingual gland excision. A bluish mass is shown on the left floor of the mouth (A). The ranula is shown after mucosal incision (B). After excision of ranula, the sublingual gland is being dissected (C). After excision of sublingual gland, The Wharton's duct is preserved (D).

Table 2. Surgical treatment modalities and recurrence rates

Operation	Cured	Recurrence (%)	Total	p value
I&D	0	5 (100.0)	5	0.000
Marsupialization	9	5 (35.7)	14	0.010
Ranula excision	13	3 (18.8)	16	0.121
SLGE	28	1 (3.4)	29	

p valuse were the result of comparison between SLGE and the others. I&D : Incision and drainage, SLGE : sublingual gland excision with ranula excision

Table 3. Distributions of recurred cases

Case	Sex/age	Type	Surgery	Recurrence	Revision
1	F/10	Simple	Incision	POD 1m.	Incision→marsup
2	M/5	Simple	Incision	POD 2wk	Incision→SLGE
3	F/38	Simple	Incision	POD 2wk	Marsup→SLGE
4	M/10	Simple	Incision	POD 2wk	Marsup
5	F/30	Simple	Incision	POD 3wk	SLGE
6	F/21	Simple	Marsup	POD 1m	SLGE
7	F/36	Simple	Marsup	POD 1m	SLGE
8	F/38	Simple	Marsup	POD 2m	SLGE
9	F/16	Simple	Marsup	POD 6m	SLGE
10	M/9	Simple	Marsup	POD 6m	SLGE
11	F/14	Simple	Ranula E.	POD 10m	Marsup
12	F/17	Simple	Ranula E.	POD 2m	SLGE
13	F/33	Simple	Ranula E.	POD 4m	SLGE
14	M/18	Plunging	SLGE	POD 6m	Aspiration

Marsup : marsupialization, SLGE : sublingual gland excision with ranula excision, Ranula E : ranula excision

두 각각 3주 전, 4개월 전에 다른 병원에서 하마종 수술을 받은 기왕력이 있는 환자들이었다. 1례는 타액의 유출이 있었으며 1례는 악하선관의 협착이 관찰되었다. 이들에 대해 수술 중에 타액선관성형술(sialodocoplasty)을 시행하였으며 수술 후 악하선관 손상에 의한 문제는 나타나지 않았다.

고 찰

하마종의 치료에는 다양한 수술법들이 시행되고 있으며 저자들은 여러 수술법의 치료 결과와 재발 등의 합병증을 비교하여 하마종에 대한 각 수술적 치료법들의 효과를 알아보려고 하였다. 하마종은 대부분 설하선에서 유출된 타액이 축적되어 발생한 가성낭이므로 원인이 되는 설하선의 치료가 중요하다고 생각할 수 있다.

단순 절개술(incision)은 절개부위가 빨리 폐쇄되어 하마종이 재발하기 때문에 지양되어야 할 치료라는 것이 일반적인 생각이다.^{13,14} 본 연구에서도 100%의 재발율을 보였으며 재발시기도 치료 후 1달 내에 발생하여 치료 목적으로는 사용되기 어렵고 감염이 동반되어 통증을 호소할 때, 혹은 부분마취로는 치료가 곤란한 소아 환자에서 보호자가 전신마취를 거부할 경우 증상호전을 위해 고려할 수 있을 것으로 사료된다.

조대술(Marsupialization)은 한때 하마종에 대한 첫번째 치료방법으로 여겨져 왔으며 현재에도 설하선절제에서 발생할 수 있는 주위 구조물의 손상에 대한 부담감이나 설하선 기능의 보존이라는 측면에서 많이 시행되고 있다. 그러나 하마종의 낭은 대부분 상피세포가 없는 가성낭이기 때문에 조대술을 시행하여 개구부를 크게 형성해 놓더라도 다시 협착이 일어난다. 이런 이유로 흔히 재발을 일으키고 또한 재발시에 단순 하마종에서 몰입성 하마종으로 변환되어 나타날 수 있다.^{15,16} 이러한 개구부의 폐쇄를 막고 치료효과를 높이기 위한 여러 방법의 조대술이 소개되고 있다. Baurmash 등¹⁷은 조대술을 시행한 부위에 거즈 팩킹하는 방법(marsupialization and gauze-packing)을 제안하였으며, Mortelaro 등¹⁸은 변형된 조대술(modified marsupialization)로 하마종의 천장(roof)를 제거하기 전에 가성낭의 경계부위를 주변 구강 점막과 융합함으로써 일반적인 조대술의 재발율(25.81%)

보다 낮은 재발율(12%)을 얻을 수 있었으며 가성낭 벽의 함몰을 막음으로써 수술도 더 쉽게 시행할 수 있었음을 보고하였다. Sandrini 등¹⁹은 가능한 많은 수의 봉합을 시행하고 봉합사를 약 30일정도 유지하여 봉합사들을 따라 상피화가 이루어지도록 하는 미세 조대술(micro-marsupialization technique)을 시행하였다. 하지만 어떠한 방법도 개구부가 함몰되는 조대술의 한계점을 완전히 극복하지 못하였으며 임상적으로 널리 시행되지 않고 있다.

하마종절제술 또한 하마종의 수술적 치료로 널리 시행되고 있는 방법이지만 저자들의 경험에서 미루어 보아 하마종절제시에 많은 경우에서 가성낭이 파열되는 경우가 많다. 비록 하마종절제시에 낭의 파열빈도가 얼마나 되는지 또는 종물이 파열된 경우와 그렇지 않은 경우에 재발율을 어떠한지에 대한 문헌 보고는 없지만 파열된 경우 완전절제가 어려운 경우가 많고 파열되지 않고 하마종을 절제 하였다 하더라도 하마종과 설하선의 분리시에 설하선의 샘파리(acini) 손상을 유발시켜 재발의 원인이 될 수 있다.

이러한 수술적 치료 이외에도 하마종의 보존적 치료법으로 최근 OK-432를 이용한 경화 요법이 많이 시행되고 있다. 수술적 절개나 특별한 합병증 없이 치료가 가능하며 몰입성 하마종에서도 완전관해를 기대할 수 있다. 그러나 Roh 등⁶의 보고에 따르면 OK-432 경화요법을 통한 전체적인 완치율은 77%에 이르지만 단순 하마종 환자의 37%에서 주사 후 하마종 파열이 일어났으며 이런 경우 평균 3.6회 주사가 필요했다. 또한 Lee 등⁷의 보고에 따르면 소아 하마종 환자에서 OK-432 경화치료의 완치율은 69% 이지만 평균 2.6회의 주사가 필요하였다. 몰입성 하마종의 경화요법 효과에 대한 연구에서는 재발율이 47%로 보고하였다.⁸ 물론 OK-432 경화요법이 최근 각광받는 치료이고 특히 수술을 거부하는 환자에서는 유용한 치료 선택사항 일 수 있지만 위의 결과들을 고려해볼 때 하마종의 일차치료로 사용할 지에 대해서는 더 많은 연구가 필요할 것으로 판단된다.

하마종을 포함한 설하선 절제술은 위에서 설명한 보존적인 수술방법들과 OK-432를 이용한 경화요법에 비해 재발율은 낮지만 악하선관 손상, 출혈 또는 혈중, 봉합부위벌어짐, 수술 후 감염, 혀의 감각저하 등의 합병

증이 발생할 가능성은 높은 것으로 알려져 있다.²⁰⁾ 그러나 이번 연구에서 저자들의 경험을 분석한 결과 봉합부 위벌어짐, 혈종 등과 같은 경미한 합병증만 발생하였으며 모두 보존적인 방법으로 치료 되었다. 저자들은 설하선절제시에 악하선관에 소식자를 삽입하여 악하선관을 확인함으로써 수술 중 손상을 막을 수 있었다. 설하선을 제거 후에는 악하선관이 노출되어 직접 관찰이 가능하기 때문에(Fig. 1) 수술 중에 악하선관의 손상이 발생하거나 기존에 손상이 있더라도 이를 확인하여 즉각적인 처치가 이루어질 수 있는 장점이 있다. 설하선 절제술 후에도 Table 3의 14번 증례와 같이 재발하는 경우가 있었다. 설하선 절제술 후의 재발은 설하선이 완전히 제거되지 않아 잔존한 설하선에서 유출된 타액이 모여 발생한 것으로 판단된다. 하지만 설하선 절제시에 설하선을 신경지배하는 설신경가지가 결찰되었기 때문에 시간이 지나면서 이러한 잔존 설하선조직이 퇴축되어 한 차례 흡인 이후에 더 이상 증상이 발생하지 않았다.

하마중에 대한 수술적 치료를 시행할 때, 수술에 의한 합병증을 고려하여 설하선절제를 시행하지 않는 경우가 많으며 이러한 상황은 단순 하마중 치료에서 더욱 두드러질 것으로 생각된다. 저자들도 단순 하마중의 경우 47례 중 35례(74.5%)에서 설하선 절제술 이외의 수술이 시행되었다. 이로인해 모든 례에서 설하선 절제술이 시행된 몰입성하마중 보다 단순하마중의 재발율이 높게 나온 것으로 판단된다. 대부분의 하마중은 설하선에서 비정상적인 타액유출에 의해 발생하는 임상적 징후이다. 따라서 임상들이 하마중에 대한 치료를 계획할 때 절개 배액, 조대술, 하마중절제술과 같은 보존적 수술은 원인이 되는 설하선을 남기고 임상적 징후만을 치료하는 것이므로 재발의 여지를 남기는 것임을 고려할 필요가 있다.

결 론

하마중의 수술적 치료에서 발생할 수 있는 여러 문제점들 중 가장 흔한 것은 재발이다. 저자들의 연구 결과 단순하마중과 몰입성하마중의 형태에 따른 분류는 수술 후 재발율과 유의한 관계가 없었으며, 어떠한 수술적 치료를 했느냐에 따라서 재발율의 차이를 보였다. 하마중을 포함한 설하선 절제술은 수술적 치료법 중 재발율이

가장 낮았으며 재발한 하마중에도 좋은 결과를 보였다. 또한 수술과 관련된 합병증은 모두 보존적 치료로 치료 가능 하였다.

하마중의 수술적 치료 선택에는 재발율, 하마중의 형태, 수술에 따른 합병증 등을 참고해야 하며 초기 수술로 설하선절제를 포함한 하마중 절제술을 고려해 볼 필요가 있다고 생각한다.

중심 단어 : 하마중 · 설하선 · 재발.

REFERENCES

- 1) Zhao YF, Jia Y, Chen XM, Zhang WF. *Clinical review of 580 ranulas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004;98 (3):281-7.
- 2) Crysdale WS, Mendelsohn JD, Conley S. *Ranulas-Mucoceles of the oral cavity: Experience in 26 children. Laryngoscope* 1998;98 (3):126-8.
- 3) Mahadevan M, Vasani N. *Management of pediatric plunging ranula. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006;70 (6):1049-54.
- 4) Chow TL, Chan SWW, Lam SU, Kowloon KT. *Ranula successfully treated by botulinum toxin type A. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008;105 (1):41-2.
- 5) Mintz S, Barak S, Horowitz I. *Carbon dioxide laser excision and vaporization of nonplunging ranulas: a comparison of two treatment protocols. J Oral Maxillofac Surg* 1994;52 (4):370-2.
- 6) Roh JL. *Primary treatment of ranula with intracystic injection of OK-432. Laryngoscope* 2006;116 (2):169-72.
- 7) Lee HM, Lim HW, Kang HJ, Chae SW, Hwang SJ, Jung KY, et al. *Treatment of ranula in pediatric patients with intralesional injection of OK-432. Laryngoscope* 2006;116 (6):966-9.
- 8) Rho MH, Kim DW, Kwon JS, Lee SW, Sung YS, Song YK, et al. *OK-432 sclerotherapy of plunging ranula in 21 patients: it can be a substitute for surgery. Am J Neuroradiol* 2006;27 (5):1090-5.
- 9) Bridger AG, Carter P, Bridger GP. *Plunging ranula: Literature review and report of three cases. Aust N Z J Surg* 1989;59 (12):945-8.
- 10) Catone GA, Merrill RG, Henry FA. *Sublingual gland mucus-escape phenomenon-Treatment by excision of sublingual gland. J Oral Surg* 1969;27 (10):774-86.
- 11) Yoo BY, Yoo JK, Kim DK, Lee EJ, Park JS. *Intraoral approach in plunging ranula. Korean J Otolaryngol* 2005;48 (4):516-9.
- 12) Lee HM, Lee JH, Cho JG, Song JS, Lee SH, Woo JS, et al. *Clinical analysis of the 22 cases of plunging ranula. Korean J Otolaryngol* 2003;46 (9):764-8.
- 13) Baurmash HD. *Mucoceles and ranulas. J Oral Maxillofac Surg* 2003;61 (3):369-78.
- 14) Morita Y, Sato K, Kawana M, Takahashi S, Ikarashi F. *Treatment of ranula-excision of the sublingual gland versus marsupialization. Auris Nasus Larynx* 2003;30 (3):311-4.

- 15) Pandit RT, Park AH. *Management of pediatric ranula. Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;127 (1):115-8.
- 16) de Visscher JG, van der Wal KG, de Vogel PL. *The plunging ranula. Pathogenesis, diagnosis and management. J Cranio-maxillofac Surg* 1989;17 (4):182-5.
- 17) Baumash HD. *Marsupialization for treatment of oral ranula: a second look at the procedure. J Oral Maxillofac Surg* 1992;50 (12):1274-9.
- 18) Mortellaro C, Dall'Oca S, Lucchina AG, Castiglia A, Faronato G, Fenini E, et al. *Sublingual ranula: a closer look to its surgical management. J Craniofac Surg* 2008;19 (1): 286-90.
- 19) Sandrini FAL, Sant'Ana-Filbo M, Rados PV. *Ranula management: suggested modifications in the micro-marsupialization technique. J Oral Maxillofac Surg* 2007;65 (7):1436-8.
- 20) Zhao YF, Jia J, Kia Y. *Complications associated with surgical management of ranulas. J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63 (1):51-4.