

악하선에 발생한 점액낭종 1례

메리놀병원 이비인후과
김영훈 · 강준형 · 김기철 · 조중환

A Case of Extravasation Mucocele of the Submandibular Gland

Young Hoon Kim, M.D., Jun Hyeong Kang, M.D.,
Gi Chule Kim, M.D., Joong Hwan Cho, M.D.

Department of Otolaryngology, Maryknoll General Hospital, Pusan

= Abstract =

Cysts of the salivary glands are very rare and non-neoplastic, localized lesions of the duct system. There are three types, namely, dysgenetic cyst, secondary acquired cyst lined by epithelium(duct cyst, lymphoepithelial cyst, and retention mucocele), and pseudocyst without an epithelial lining(extravasation mucocele). The non-neoplastic cysts and pseudocysts form about 6% of lesions of the salivary glands.

Among the limited number of cystic submandibular gland neoplasms reported in the literatures, there have been few reports, to our knowledge, of a similar cystic lesion.

Recently the authors experienced an unusual case of huge extravasation mucocele arising from the submandibular gland. The mucocele was completely removed surgically, which was confirmed by histochemically.

KEY WORDS : Extravasation Mucocele · Submandibular Gland.

서 론

타액선에 발생하는 비종양성 낭종 및 가성 낭종은 타액선 질환의 약 6%에 해당한다^{10,15}.

악하선에 발생하는 점액낭종은 매우 희귀한 질환이며, 저자들의 국내문헌 열람상 보고된 예가 드물었다. 타액선 점액낭종은 저류성 점액낭종(retention mucocele)과 침윤성 점액낭종(extravasation mucocele)으로 분류된다^{5,10,15}. 점액낭종의 80% 이상이 침윤성 점액낭종이고, 점액성 육아종(mucous granuloma)이라고도 부른다¹⁰. 현재, 반복되는 외상으로 인한 타

액선관의 파열과 점액의 침윤이 이러한 점액낭종의 주요 원인으로 고려되고 있으며, 병인론에서 분비 자극의 강도에 의한 침윤된 점액의 양과, 점액이 육아조직에 의해 탐식되는 속도가 주요 인자로 작용한다^{5,6,10,15}.

최근 저자들은 악하선에서 발생한 거대한 침윤성 점액낭종 1례를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자: 김○화, 29세, 여자.

초진: 1992. 5. 27.

주소: 좌측 악하선 부위의 무통성 종물.

기능력 및 가족력: 특이 사항 없음.

현병력: 환자는 약 3개월 전부터 좌측 악하선 부위의 무통성 종물을 발견하여 개인 의원에서 흡인 천자술상 황갈색의 점액성 액체가 흡인되었으며, 그후 다시 커져 내원하였으나 한의원에서 수지침으로 약 1개월 간 피를 뽑은 관계로 빈혈이 심하여 수술 및 약물치료로써 빈혈 교정후 입원하였다.

이학적 소견: 좌측 악하선 부위에 6×3cm 크기의, 무통성이며 파동성이 있는 종물이 촉지되었다. 설하부위가 약간 융기되어 있었으며, 악하선관 개구부의 타액 분비는 정상적이었다.

임상검사 소견: 일반 혈액학적 검사상 빈혈은 교정되었으며, 일반적인 임상병리 검사, 심전도 및 간기능 검사에서 특이 소견은 없었다.

방사선 소견: 흉부 단순촬영에서는 특이 소견이 없었고, 악하선의 타액선 조영술상 타액선관에는 만곡, 변위, 협착, 확장, 타석 등의 소견은 보이지 않으나, 정상적인 선조직을 외측으로 돌출시키는 소견인 새 부리 모양(bird-beak appearance)의 음영이 관찰되었고, 전산화단층촬영상 좌측 악하선에 정상 선조직과 유사한 음영의 낭종성 병변이 관찰되었으며, 악하선 내의 낭종을 나타내는 새 부리모양의 음영이 관찰되었다(Fig. 1).



Fig. 1. Axial computed tomography demonstrating nonenhancing, homogeneous mass had a radiodensity intermediate between muscle and fat.

수술 소견 및 경과: 전신 마취하에서 악하부에 약 5cm 정도의 횡절개를 가한 후 광경근(platysma muscle)을 박리하였으며, 악하선의 내측부에 거대한 낭종이 관찰되었는데, 악설골근(mylohyoid muscle)과 설골설근(hyoglossus muscle) 사이에서 설하선과 다소 유착되어 있었고, 주위 조직, 설하선경 및 설신경과 낭종벽 사이에도 다소 유착이 있었으나 낭종과 악하선을 완전히 적출해 내었다. 술후 10일만에 퇴원하였으며 경과는 양호하였다.

병리조직학적 소견: 육안적으로 약 2.5×2.0×4.5cm 크기의 낭종이었고, 그 내용물은 황갈색의 점액성액체로 충만되어 있었으며, 용적은 약 20cc였다. 조직학적으로 낭종벽은 섬유조직으로 구성되어 있었고 혈관과 신경섬유가 포함되어 있었으며, 낭종벽 내면에는 상피조직이 없었다. 악하선은 정상 조직 소견을 보였으며(Fig. 2), 병리조직학적 진단은 가성낭종인 침윤성 점액낭종이었다.

내용물의 생화학적 검사소견: 비중은 1.032, 산도(pH)는 8.0, 단백질은 3.0g/dl, 지질은 386 mg/dl, 요산은 3.1mg/dl, IgA는 54mg/dl 이하였으며, amylase는 370U/L, lysozyme은 50μg/ml 이상으로 아주 높았다.

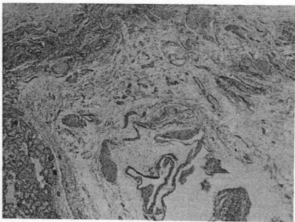


Fig. 2. Histopathologic finding of nonepithelial-lined cyst wall and submandibular gland(H & E stain, ×100).

고찰

타액선 낭종은 타액선 수술관의 비종양성, 국한성 병변이며, 타액선 질환의 약 6%를 차

지한다.

타액선 낭종은 세가지 유형으로 분류된다. 즉, dysgenetic cyst, 상피조직이 있는 속발성 후천성낭종(duct cyst, lymphoepithelial cyst, retention mucocele), 상피조직이 없는 가성낭종(extravasation mucocele)으로 분류되며, 타액선 낭종의 약 75%가 소타액선에서 발생한 점액낭종이고, 약 10%가 parotid duct cyst, 약 6%가 lymphoepithelial cyst, 약 5%가 하마종(ranula)이다¹⁰⁾.

악하선에 발생하는 점액낭종은 희귀한 질환이며, Surkin 등¹⁵⁾은 이미 보고된 악하선 종양의 재검토 상에서 504례 중 3례에서만 낭종성 병변을 발견하였다고 보고하였으며, Ross와 Jankowski¹⁶⁾는 10세에서 48세 사이의 연령층에서 발생한 악하선 낭종 6례를 보고하였다. 그리고, Fein과 Mohnac¹⁷⁾는 14세 소녀에서 악하선의 국소 외상 후 발생한 침윤성 점액낭종 1례를 보고하였다.

타액선 점액낭종은 저류성 점액낭종과 침윤성 점액낭종으로 분류된다^{5,10,15)}. 점액낭종의 80% 이상이 침윤성 점액낭종이고, 점액성 육아종이라고도 부른다¹⁰⁾. 육안적 소견으로 침윤성 점액낭종은 구형의 낭종이며, 직경이 1.0~1.5 cm이다. 약 80%가 하구순의 소타액선에서 발생하며, 약 15%가 혀부 혹은 구강저에, 약 5%가 구개, 혀, 상구순의 소타액선에서 발생한다^{10,15)}.

조직학적으로 침윤성 점액낭종의 발생에는 세 단계가 있다. 초기(initial stage)에는 중성

과 산성의 점액 다당류로 구성된 점액이 타액선의 수출관(duct system)과 실질(parenchyma)에서 간질(interstitium)로 투과해 나오며, 재흡수 단계(resorption phase)에서 조직구와 대식세포가 점액을 흡수하여 점액성 육아종을 형성한다. 종종 다핵거대세포도 나타난다. 말기(end stage)에는 결체조직의 피낭이 발생하여 점액으로 채워진 가성낭종을 형성하게 된다¹⁰⁾.

반복되는 외상으로 인한 타액선관의 파열과 점액의 침윤이 이러한 침윤성 점액낭종의 주요 원인으로 고려되고 있으며, 병인론에서 분비 자극의 강도에 의한 침윤된 점액의 양과 점액이 육아조직에 의해 탐식되는 속도가 주요 인자로 작용한다^{5,6,10,15)}.

10대~20대 사이의 젊은층에서 빈발하며, 50세 이후에는 점점 드물게 발생하고, 약 60%가 남자에서 발생한다.

저류성 점액낭종은 침윤성 점액낭종보다 더 희귀한 질환이며, 70대에서 호발한다. Southam¹⁴⁾은 점액낭종 236례를 조직학적 소견으로서 12례의 저류성 낭종과 224례의 침윤성 낭종으로 세분화 하였다. 각 부위의 소타액선에서 비슷한 비율로 발생하며, 하구순과 혀부에 각각 20%씩 발생하고, 상구순, 구개, 구강저, 혀에 각각 15%씩 발생한다¹⁰⁾.

조직학적으로 저류성 점액낭종의 특징은 결체조직의 피낭, 점액 덩어리 및 상피로 구성되어 있으며, 상피세포는 입방형 혹은 정방형 세포로 구성되어 있으나 종종 편평상피로의 이

Table 1. Classification of Salivary Gland Cysts¹⁰⁾.

Cyst Type	Main Site	Percent
Mucocele	Minor salivary gland	77
Extravasation mucocele	Lower lip	65
Retention mucocele	Lip, cheek, palate, floor of mouth	12
Duct cyst	Parotid	10.5
Lymphoepithelial cyst	Parotid, floor of mouth	6
Ranula	Sublingual	5
Congenital sialectasis	Parotid	1
Dysgenetic cystic parotid	Parotid	0.5

형성(metaplasia)이 나타난다.^{5,10,15)}

저류성 점액낭종의 발생기전은 미세한 타석¹¹⁾ 혹은 점액 충전물^{3,11)} 등에 의한 타액선 수출관의 부분적 폐쇄와 만곡이 주요한 원인으로 고려되고 있다.^{5,6,10,15)}

점액낭종의 증상으로는 무통성의 종창 혹은 종물이 가장 많으며, 크기가 서서히 증가하거나 변동되기도 한다. 부위별로나 크기에 따라 차이가 많으나 특징적인 증상은 없는 것으로 보고되고 있다.

진단방법으로 유용한 특이 검사는 없으나, 낭종의 발생 위치, 색, 경도, 내용물의 천자 흡인 등으로 진단 가능하며 병력, 악하선의 타액선 조영술, 단순촬영 혹은 건조촬영(xeroradiography) 등도 진단에 도움을 준다. Surkin 등¹⁵⁾은 전산화단층촬영이 악하선의 낭종성 병변을 감별하는 데 유용하다고 보고하였다. 그러나 확진하는 방법은 병리조직학적 검사이다.

악하선의 점액낭종과 감별을 요하는 질환은 sialoceles, pneumatocele, ranula, developmental and hydatid cyst 등이 있으며, 만성 타액선염에서 발생하는 낭종성 변화, 즉 chronic sialectatic parotitis, Sjogren's syndrome과 낭종성 종양, 즉 cystadenolymphoma, cystic mucoepidermoid tumor, cystic duct adenoma, cystic adenocarcinoma, cystic pleomorphic adenoma 등과 감별하여야 한다.^{10,15)} Sialoceles은 이하선의 외상으로 주로 발생하며 악하선에서 발생한 보고는 없다. 이는 경피적 천자술에 의한 타액의 흡인으로 감별되며 타액선 조영술상 타액선관의 손상과 조영제의 피하 누출이 나타난다. Pneumatocele은 직업상 구강내압의 증가가 필요한 경우에 많으며 이하선에 호발한다. Ranula는 구강저에 발생하는 낭종성 병변으로 simple ranula와 plunging ranula로 분류되며^{7,8)} 주로 설하선에서 발생하는 저류성 낭종을 말한다.^{8,15)} 선천적 낭종은 주로 이하선에서 발생하며, 특히 branchial cyst와 dermoid cyst는 악하선에서 발생하지 않는 것으로 보고되고 있다. Hydatid cyst¹⁰⁾와 cystic hygroma¹²⁾는 악하선에서 발생한 보고가 있다. 악하선 신생물의 낭종성 퇴행변화는 보고되지 않았다.

타액선 점액낭종의 치료는 외과적으로 완전히 절제하는 것이다. 구강저에 발생하는 경우에는 낭종의 절제 혹은 조대술(marsupialization)이 일차적으로 시행되어지며, 경부 근막 사이나 구강저로 깊이 물입된 경우에는 재발하는 경향이 있기 때문에 Carabba 등¹⁾은 비소와 방사선 치료의 병용을 보고했다. 이의 이론적 근거는 낭종내로 주입된 비소가 방사선에너지를 흡수하여 이온화 되면서 저에너지 전자들을 방출하여 낭종내부의 상피를 파괴한다는 것이다. Ward 등¹⁶⁾은 투열요법(endothermy)을 제안했으며, Crile 등²⁾은 원발한 타액선만을 절제하는 방법을 제안하였다. 현재 수용되는 방법은 낭종의 심세한 박리와 원발한 타액선의 절제이다.

예후는 완전히 제거한 경우에 재발이 없으며, 매우 좋은 편이다.

요 약

최근 본원에서는 국내 문헌상 보고된 예가 드문, 악하선에 발생한 거대한 침윤성 점액 낭종 1례를 주위 조직의 손상없이 외과적으로 원발 타액선인 악하선과 더불어 완전히 적출하였고, 병리조직학적으로 확진되었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) Carabba V : Sclerosing injections in surgery. Ann Surg 99 : 668~675, 1934.
- 2) Crile G : Ranulas with extension into the neck. Surgery 42 : 819~821, 1957.
- 3) Eversole LR, Sabes WR : Minor salivary gland duct changes due to obstruction. Arch Otolaryngol 94 : 19~24, 1971.
- 4) Fein S, Mohnac AM : Submandibular gland extravasation cyst ; Report of an unusual case. J Oral Surg 31 : 551~552, 1973.

- 5) Harrison JD : Salivary mucoceles. Oral Surg 39 : 268~278, 1975.
- 6) Harrison JD, Garrett JR : Mucocele formation in cats by glandular duct ligation. Archs oral Biol 17 : 1403~1414, 1972.
- 7) Parekh D, Stewart M, Joseph C, et al : Plunging ranula : A report of three cases and review of the literature. Br J Surg 74 : 307~309, 1987.
- 8) Quick CA, Lowell SH : Ranula and the sublingual salivary glands. Arch Otolaryngol 103 : 397~400, 1977.
- 9) Ross B, Jankowski M : Cystes des glandes salivaires sousmaxillaires. Rev Stomatol 66 : 467~476, 1965.
- 10) Seifert G, Miehke A, Haubrich J, et al : Diseases of the salivary glands, German Ed. Stuttgart, George Thieme Verlag, pp. 91~100, 1984.
- 11) Sela J, Ulmanky M : Mucous retention cyst of salivary glands. J Oral Surg 27 : 619~623, 1969.
- 12) Simons JN, Beahrs OH, Woolner LB : Tumors of the submaxillary gland. Am J Surg 108 : 485~494, 1964.
- 13) Singh S : Submandibular hydatid cyst. J Laryngol Otol 86 : 647~650, 1972.
- 14) Southam JC : Retention mucoceles of the oral mucosa. J Oral Pathol 3 : 197~202, 1974.
- 15) Surkin M, Remsen K, Lawson W, et al : A mucocele of the submandibular gland. Arch Otolaryngol 111 : 623~625, 1985.
- 16) Ward GE : Conservative operation for cure of ranula by endothermy. Med Rev NY 31 : 587~589, 1925.