



A Case of Fourth Branchial Cleft Cyst Occurred on the Right Side

Ju Ho Han^{ID} and Il-Seok Park^{ID}

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Hallym University Dontan Sacred Heart Hospital, Hallym University College of Medicine, Hwaseong, Korea

오른쪽에 발생한 제4 새열 낭종 1예

한주호 · 박일석

한림대학교 의과대학 한림대학교 동탄성심병원 이비인후-두경부외과학교실

Received December 9, 2019

Revised March 3, 2020

Accepted March 26, 2020

Address for correspondence

Il-Seok Park, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Hallym University

Dontan Sacred Heart Hospital,

Hallym University

College of Medicine,

7 Keunjaebong-gil,

Hwaseong 18450, Korea

Tel +82-31-8086-2670

Fax +82-31-8086-2709

E-mail ispark@hallym.or.kr

Branchial cleft cyst (BCC) is a relatively common congenital malformation in the neck. However, the fourth BCC is very rare and frequently unknown to clinicians. Failure to appropriately recognize this anomaly may result in misdiagnosis, insufficient treatment, and continued recurrence. Even though its rarity, it usually occurs on the left side. Here, we present an unusual case of fourth branchial cleft cyst that occurred on the right side.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2021;64(1):30-3

Key Words Branchial cleft cyst.

서 론

새열 낭종은 경부에 발생하는 두 번째로 흔한 선천성 병변으로 태생 2개월에 폐쇄되는 새열 기관(branchial organ)의 발생학적 이상으로 낭, 루 그리고 동 등의 기형이 형성되는 것을 지칭한다.^{1,2)} 새열 낭종의 95%는 제2 새열 낭종이 차지하며, 제4 새열 낭종은 매우 드물다.³⁾

특히, Godin 등⁴⁾과 Yang 등⁵⁾은 제4 새열 낭종의 80~93%는 좌측에 발생함을 보고하였다. 그 이유에 대해서는 아직 불명확하나, 우측 최종 새체의 성장 결여나 제4공으로부터 혈관 구조의 비대칭적 발달 즉 대동맥과 무명 동맥의 비대칭

적 유도와의 연관성이 제기되고 있다.^{6,7)}

이제까지 제4 새열 낭종은 발생학적, 해부학적 주행 경로의 추적에 통한 증명이 시도되었으나, 모든 경로의 수술적 증명은 불가능하여 논란의 여지로 남아있다.⁴⁾

저자들은 전경부 재발성 종창을 주소로 내원한 6세 남아에서 경부 전산화단층촬영과 후두 내시경으로 확인된 우측 제4 새열 낭종을 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

6세 남아는 5년 전부터 있어 온 전경부 재발성 종창(Fig. 1)을 주소로 내원하였다. 환아는 5년 동안 재발성 종창, 발적 등의 염증 소견이 있었고, 처음 초진 당시(당시 만 1세) 시행한

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://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.

경부 컴퓨터단층촬영 소견상(Fig. 2) 전경부에 2.4×1.4 cm 크기의 낭종 소견을 보여서, 감염된 갑상선관 낭종 의심하에 입원하여 항생제 치료를 시행하였다. 당시 촬영한 경부 컴퓨터단층촬영상

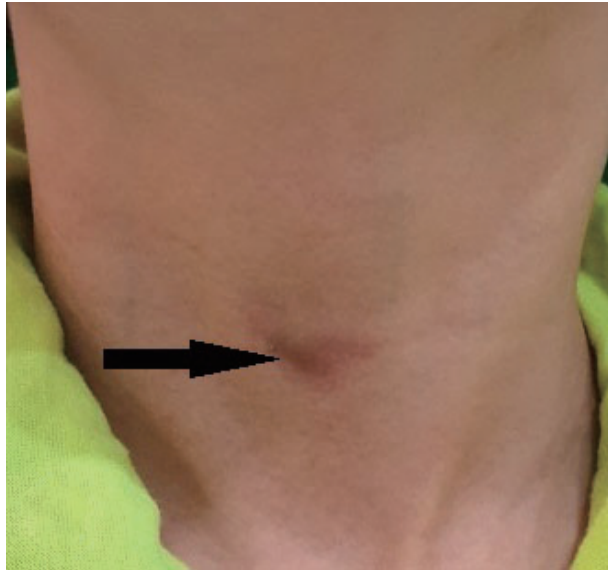


Fig. 1. Anterior midline redness on neck external photo when he was 6 years old (arrow).

터단층촬영상 오른쪽 이상와에는 반대쪽과 비교하여, 누공 모양의 공기 음영 소견이 있었으나, 당시 정중앙에 있는 낭종으로 발병률을 고려하여 갑상선관 낭종 이외에는 다른 병을 의심하지 못하였다. 환자 나이 및 보호자의 선호도를 고려하여, 수술은 추후 계획하기로 하고, 경과 관찰하기로 하였다.

이후 6~18개월 간격으로 5번 재발하였고, 그때마다 경구 항생제 치료를 시행하였다. 5번째 재발 소견 보여서 내원하였을 때, 수술을 계획하였고, 경부 컴퓨터단층촬영(Fig. 3)을 다시 시행하였다. 시행한 경부 컴퓨터단층촬영상 전경부 낭종 소견은 갑상선 앞쪽 피부 표면에만 남아있었으나, 낭종이 갑상선과 전방으로 연결되어 있고, 갑상연골과 운상 갑상근의 하방 그리고 운상 연골의 상방에 있었고, 오른쪽 이상와에 확인한 누공 소견을 보이고 있었다. 이 소견을 종합하여, 제4새열 낭종을 의심하였고, 환자 나이 및 보호자 선호도를 고려하여, 낭 절제술은 보류하고 전신 마취하 후두 미세 수술을 통한 누공 차단술을 계획하기로 하였다.

수술실 내에서, 내시경을 통하여 오른쪽 이상와에 누공이 실제로 형성되어 있음을 발견하였다. Stylet을 삽입하여 누공 안에 경로가 형성되어 있음을 확인하였고, AcuPulse 40

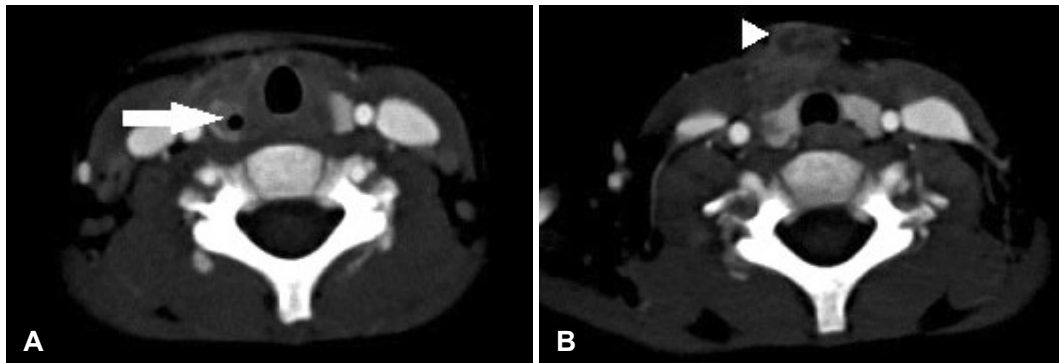


Fig. 2. CT scan of neck when he was 1 years old. Visible fistula in the right pyriform sinus (arrow) (A). Visible anterior neck cyst (arrowhead) (B).

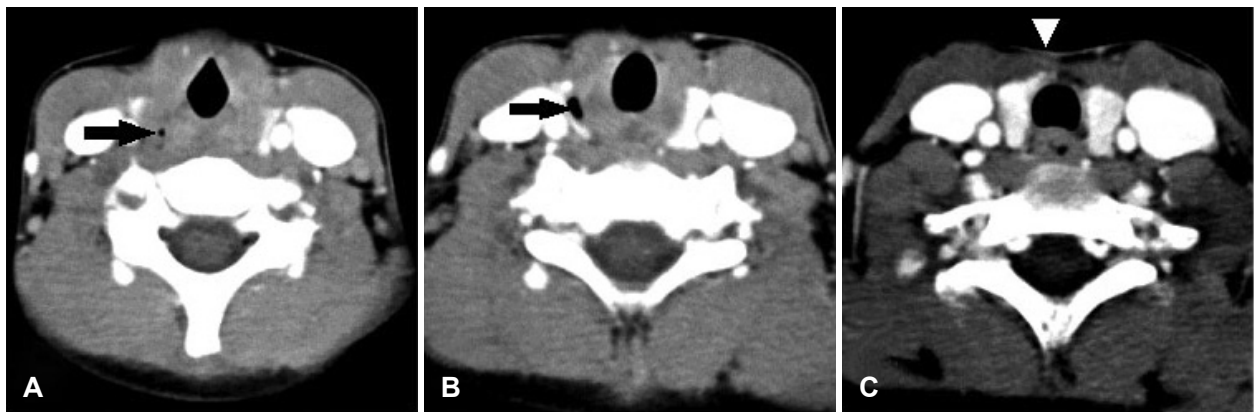


Fig. 3. CT scan of neck when he was 6 years old. Visible fistula in the right pyriform sinus (arrow) (A, B). Improved previous cystic lesion in midline of anterior neck with superficial change (arrowhead) (C).

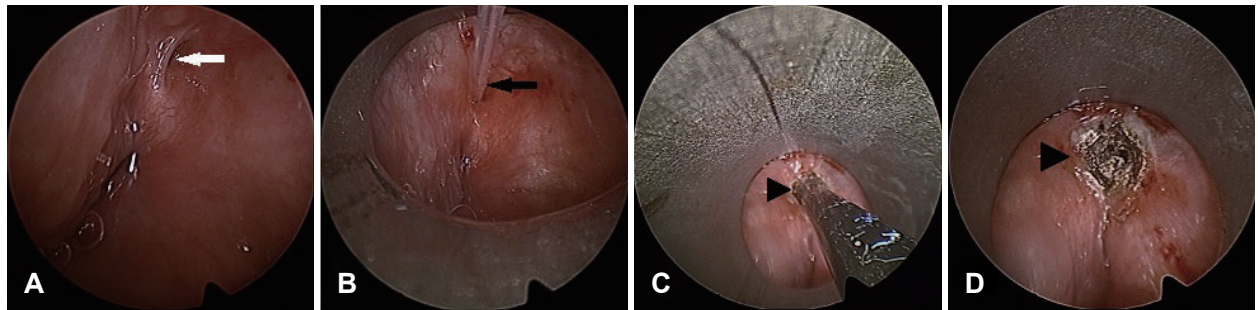


Fig. 4. Endoscopic images. Visible fistula in the right pyriform sinus (arrow) (A). The FiberLase flexible waveguide was inserted into fistula (arrow) (B). Fistula was obstructed with suction-bovie (arrowhead) (C, D).

WG CO₂ laser의 FiberLase flexible waveguide(Lumenis, Santa Clara, CA, USA)을 이용하여 누관 안쪽을 소작하여, 협착을 유발하였다(Fig. 4). 그 후 흡입 소작기(suction-bovie)를 이용하여, 입구부를 폐쇄하였다. 수술 후 특이사항 없이 당일 퇴원 시행하였고, 한 달 후 시행한 바륨 식도 조영술상 이상와에 누출 소견이 없었고, 현재 6개월째 합병증 및 재발 소견 없이 추적 관찰 중에 있다.

고 찰

발생학적으로 제1 인두공은 이관, 중이, 유양돌기, 제2 인두공은 편도상와(supratonsillar fossa), 제3 인두공은 동측의 흉선, 하부 부갑상선,⁷⁾ 제4 인두공은 갑상선, 상부 부갑상선, 최종새체(ultimobranchial body)를 형성한다.⁸⁾

제4 새열 낭종은 1973년 Tucker와 Skolnick³⁾이 재발되는 좌측 경부 농양 환자 1예를 임상적으로 진단하여 보고하기 이전까지는 그 존재가 의문시되어 왔으며, 1981년 Liston⁹⁾이 발표한 이론적 경로가 인정되고 있다. 그에 따르면 좌측 이상와 침부에서 시작하여 제4 인두공의 유도체인 상후두신경, 윤상 갑상근, 갑상연골 아래에서 인두를 빠져나와 기관과 반회 후두신경의 외측으로 하강한다. 이후 총경동맥과 대동맥의 후방으로 진행하여 좌측은 대동맥을, 우측은 쇄골하동맥을 감고 올라가 다시 총경동맥과 내경동맥의 후방을 통해 경부의 상방으로 진행한 후 상부에서 설하 신경을 감고 내려와 하부 경부의 흉쇄유돌근 전방 피부에 개구한다고 했다.

그러나 지금까지 보고된 어떤 증례에서도 정확한 해부학적 박리에 의해 제4 새열 낭종으로 증명된 것은 없고, 완전한 제4 새열 낭종의 수술적 증명은 절대 불가능하다고 일부 학자들은 주장하였다.^{4-6,8,9)} Ostfeld 등⁶⁾은 제4 새열 낭종을 보고하면서, 내공이 이상와에 있고, 낭종이 제4 새열 기형 기원인 상후두신경과 갑상연골과 윤상 갑상근의 하방에, 제5 새열 기형 기원인 윤상 연골의 상방에 위치하고 있으며, 술중 반회신경을 확인하지 않았는데도 술후 손상이 없었던 점으로 반

회 신경이 낭종보다는 내측에 위치하고 있을 것이라는 점을 근거로 들었다.

저자들은 반복되는 전경부의 종창을 가진 6세 남아에서 Ostfeld 등⁶⁾의 임상적 진단 기준에 따라, 내공이 이상와에 있고, 낭종이 갑상선과 전방으로 연결되어 있고, 상후두신경과 갑상연골과 윤상 갑상근의 하방에 있는 소견을 토대로 제4 새열 낭종으로 추정 진단하였다.

일반적으로 새성 기형의 경우 문헌에 따라 다르지만 54~57%는 우측에서 발생한다.^{10,11)} 하지만 Godin 등⁴⁾과 Yang 등⁵⁾은 제4 새열 낭종의 80~93%는 좌측에서 발생함을 보고하였다. 그 이유에 대해서는 아직 불명확하나, 우측 최종 새체의 성장 결여나 제4 공으로부터 혈관 구조의 비대칭적 발달 즉, 대동맥과 무명 동맥의 비대칭적 유도와의 연관성이 제기되고 있다.^{6,7)} Link 등¹²⁾과 Miller 등¹³⁾의 연구에 따르면, 소아에서 반복되는 좌측 경부의 농양이 보이는 경우 제4 새열 낭종을 의심해야 한다고 하였으며, 진단을 위해서는 기형적인 누공의 존재를 보기 위해 효과적인 방법인 바륨 식도 조영술,^{14,15)} 농양의 공동을 볼 수 있는 전산화단층촬영이 유용하다고 하였고, 또 내시경을 통하여 이상와의 침부에서 누공을 확인하고, 카테터를 이용한 누관의 확인은 완전한 수술적 제거에 유용하다고 하였다.

제4 새열 낭종의 치료는 감염이 올 경우 우선 적절한 항생제나 필요시 절개 및 배농을 통하여 급성 염증을 완화한 후, 수술적으로 새실동을 완전히 절제해야 한다. 연결 통로가 갑상선에서 끝나거나, 침범한 경우에는 갑상선 절제술이나 부분 절제술을 동시에 시행하여야 하며, 이상와의 침부를 노출시켜 연결 통로를 박리 및 결찰 후 절제한다.¹⁶⁾ 다른 치료법으로 국내외로 새열 낭종의 이상와 누공을 트리클로로아세트산(trichloroacetic acid, TCA)을 사용한 화학 소작술로 성공적으로 치료한 보고들이 있다.¹⁷⁻²⁰⁾ 위 치료의 장점은 완전 절제가 어려운 경우에 유용하며, 짧은 마취 시간과 입원 기간, 그리고 심각한 합병증이 없어서 보전적인 치료를 생각할 수 있는 환자에서 적용될 수 있다.²¹⁾

본 증례는 우측에 발생한 제4 새열 낭종을 TCA를 이용한 화학 소작술 없이 전기 소작과 laser 소작을 이용하여 성공적으로 치험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이며, 처음 갑상선관 낭종으로 생각을 하였으나, 전경부 종물일 때 반드시 경부 컴퓨터단층촬영 또는 내시경을 시행하여 누공 관찰시 새열 낭종을 고려를 해야 하겠다.

Acknowledgments

None.

Author Contribution

Conceptualization: Il-Seok Park. Data curation: Ju Ho Han. Supervision: Il-Seok Park. Visualization: Il-Seok Park. Writing—original draft: Ju Ho Han. Writing—review & editing: Il-Seok Park.

ORCIDs

Il-Seok Park <https://orcid.org/0000-0001-8143-8968>

Ju Ho Han <https://orcid.org/0000-0001-5670-3125>

REFERENCES

- 1) Panchbhavi AS, Choudhary MS. Branchial cleft cyst at an unusual location: A rare case with a brief review. *Dentomaxillofac Radiol* 2012;41(8):696-702.
- 2) Zaifullah S, Yunus MR, See GB. Diagnosis and treatment of branchial cleft anomalies in UKMMC: A 10-year retrospective study. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013;270(4):1501-6.
- 3) Tucker HM, Skolnick ML. Fourth branchial cleft (pharyngeal pouch) remnant. *Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol* 1973;77(5):ORL368-71.
- 4) Godin MS, Kearns DB, Pransky SM, Seid AB, Wilson DB. Fourth branchial pouch sinus: Principles of diagnosis and management. *Laryngoscope* 1990;100(2 Pt 1):174-8.
- 5) Yang C, Cohen J, Everts E, Smith J, Caro J, Andersen P. Fourth branchial arch sinus: Clinical presentation, diagnostic workup, and surgical treatment. *Laryngoscope* 1999;109(3):442-6.
- 6) Ostfeld E, Segal J, Auslander L, Rabinson S. Fourth pharyngeal pouch sinus. *Laryngoscope* 1985;95(9 Pt 1):1114-7.
- 7) Cha CI, Jung PG, Lee MJ, Cho JS, Ahn HY. A clinical study of branchial cleft cyst. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1991;34(3):605-15.
- 8) Burge D, Middleton A. Persistent pharyngeal pouch derivatives in the neonate. *J Pediatr Surg* 1983;18(3):230-4.
- 9) Liston SL. Fourth branchial fistula. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1981;89(4):520-2.
- 10) Prasad SC, Azeez A, Thada ND, Rao P, Bacciu A, Prasad KC. Branchial anomalies: Diagnosis and management. *Int J Otolaryngol* 2014;2014:237015.
- 11) Tae K, Jeong SW, Lee EJ, Lee SH, Kim KR, Park CW, et al. A clinical study of branchial anomaly. *Korean J Otolaryngol* 2002;45(10):998-1003.
- 12) Link TD, Bite U, Kasperbauer JL, Harner SG. Fourth branchial pouch sinus: A diagnostic challenge. *Plast Reconstr Surg* 2001;108(3):695-701.
- 13) Miller D, Hill JL, Sun CC, O'Brien DS, Haller JA Jr. The diagnosis and management of pyriform sinus fistulae in infants and young children. *J Pediatr Surg* 1983;18(4):377-81.
- 14) Lai G, Clark OH. Thyroiditis. In: Clark OH, Duh QY, Kebebew E, Gosnell JE, Shen WT, editors. *Textbook of Endocrine Surgery*. 3rd ed. New Delhi: Jaypee Brothers Medical Publishers Ltd; 2016. p.69-82.
- 15) Yang HD, Liu LX, Chen FL, Wang ST. Recurrent acute suppurative thyroiditis secondary to pyriform sinus fistula: Report of two cases and literature review. *Int J Clin Exp Med* 2017;10(3):5233-7.
- 16) Cote DN, Gianoli GJ. Fourth branchial cleft cysts. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;114(1):95-7.
- 17) Pereira KD, Smith SL. Endoscopic chemical cautery of pyriform sinus tracts: A safe new technique. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2008;72(2):185-8.
- 18) Miyauchi A, Inoue H, Tomoda C, Amino N. Evaluation of chemocauterization treatment for obliteration of pyriform sinus fistula as a route of infection causing acute suppurative thyroiditis. *Thyroid* 2009;19(7):789-93.
- 19) Lee G, Ahn D, Sohn JH. The combination therapy of chemocauterization and electrocauterization on fourth branchial cleft cyst. *J Korean Soc Laryngol Phoniatr Logoped* 2018;29(2):94-7.
- 20) Cain RB, Kasznica P, Brundage WJ. Right-sided pyriform sinus fistula: A case report and review of the literature. *Case Rep Otolaryngol* 2012;2012:934968.
- 21) Kim KH, Sung MW, Lee KJ, Roh JL, Kwon TK, Kim IS, et al. Management of pyriform sinus fistula with chemocauterization. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2002;45(9):906-10.