

## 56세 환자에서 발생한 거대 비순낭종 1례

인제대학교 의과대학 일산백병원 이비인후과학교실

조 용 석 · 최 익 수

### A Case of Huge Nasolabial Cyst in 56 Year-Old Patient

Yong Seok Jo, MD and Ick Soo Choi, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Inje University of College of Medicine, Ilsan Paik Hospital, Goyang, Korea

A nasolabial cyst is a rare, non-odontogenic cyst that develops within the area adjacent to the ala of the nose around the uppermost portion of the nasolabial crease. The origin of such a cyst is unclear but may be due to developmental problems. Clinical characteristic of asymptomatic nasolabial swelling and radiological findings are important for diagnosis. Treatment is usually surgical resection via a sublabial approach but can also involve incision and drainage or marsupialization. Unlike the typical clinical features reported in other cases, we experienced a case of a giant nasolabial cyst of 4.4 cm in a 56-year-old male with elevation of the nasal cavity base, gingival swelling, and perilesional bony destruction. In this case, we discussed the growth potential of a nasolabial cyst and proper timing of treatment.

**KEY WORDS:** Non-odontogenic cyst · Nasolabial fold.

## 서 론

비순낭종(nasolabial cyst)은 악안면 부위의 연부조직에서 드물게 발생하는 비치성(non-odontogenic) 낭성 병변으로 알려져 있으며 1892년 Zuckerkandle에 의해 처음 보고되었다.<sup>1-3)</sup> 발생원인은 명확하게 알려져 있지 않으나 안면부 발생 시 포위된 상피 잔유물에서 기원한다는 가설과, 배아 발생 중 격리된 비루관의 잔유물에 의해 발생한다는 가설이 유력하다.<sup>1)2)</sup> 주로 40~50대에 발생하며 남성보다는 여성에게 호발한다고 알려져 있으며,<sup>1)3)</sup> 보통 비순구의 팽창소견이 가장 흔한 증상이고 낭종이 감염이 되었을 경우에는 통증 및 발적을 유발할 수 있다.<sup>1)2)4)</sup> 조직병리학적으로 중층 혹은 위중층의 입방세포 또는 원주세포로 이루어진 낭벽 소견이 관찰되는 것이 특징적인 것으로 알려져 있다.<sup>5)</sup>

비순낭종은 일반적으로 안면에 뚜렷한 종물 소견이 없거나 일부의 경우 경미한 비순구 팽창 소견만을 동반하는데, 이는 주로 무증상의 종물이 커지거나 감염에 의한 통증으로 내원하여 진단 당시의 크기가 평균  $1.65 \pm 0.72$  cm이기 때문이다.<sup>6)</sup> 저자들은 이러한 비순낭종의 일반적 양상과 달리 56세 남성에서 비강 저부 거상, 잇몸부 종창 및 영상검사 상 주변 골 파괴 소견을 보이는 4.4 cm의 거대 비순낭종의 증례를 경험하였으며, 본 증례를 통하여 비순낭종의 잠재적 성장 가능성과 치료의 적절한 시기에 대해 고찰하고자 한다.

## 증 례

56세 남성이 우측 비순구 주름(nasolabial fold) 부위 팽창을 주소로 내원하였다. 환자는 7년 전부터 우측 비순구 부위

논문접수일: 2019년 1월 25일 / 수정완료일: 2019년 5월 3일 / 심사완료일: 2019년 5월 13일

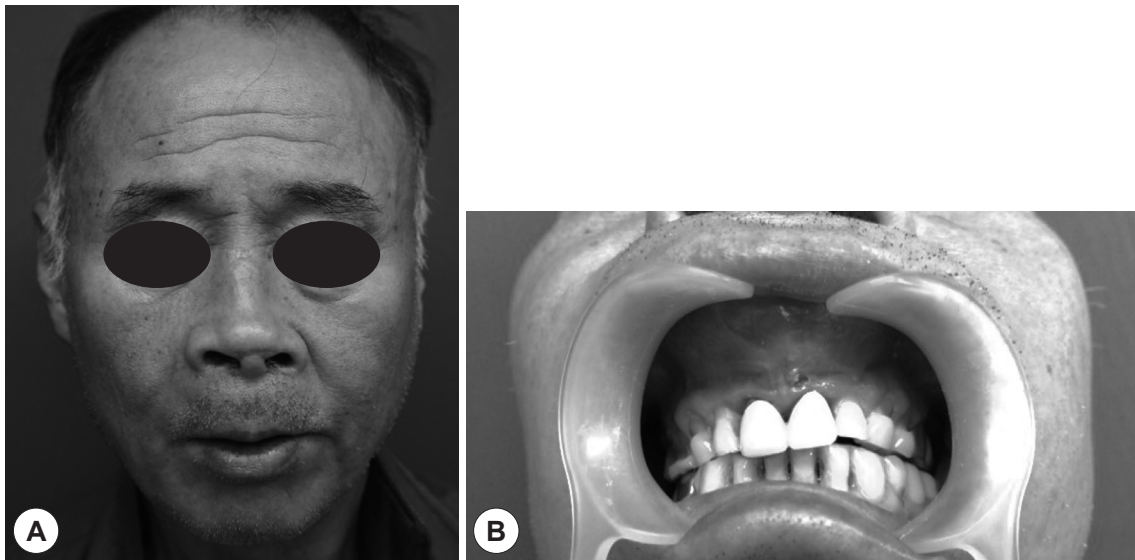
교신저자: 최익수, 10380 경기 고양시 일산서구 주화로 170 인제대학교 의과대학 일산백병원 이비인후과학교실

Tel: +82-31-910-7250, Fax: +82-31-910-7518, E-mail: leochoics@gmail.com

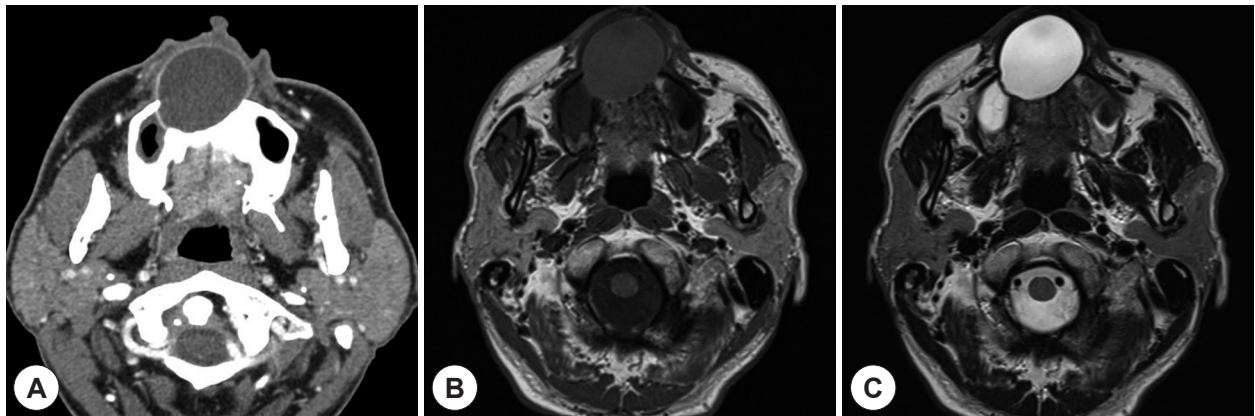
종창이 경미하게 있었으나 통증이나 불편감이 없어 경과 관찰 중, 4년 전 교통사고로 안면부 수상 이후 종창의 정도가 호전과 악화를 반복하며 서서히 증가했다고 하였다. 약 1년 전부터는 평소에도 비순구 주름 부위 팽창을 동반한 안면 외형의 변화가 있었으나 그 외 특이 증상이 없어 특별한 진료를 받지 않고 내원하였다. 환자는 내원 당시 코막힘 및 비과적인 증상은 없었으나 안면부의 종창으로 인한 미용적인 불편을 호소하였으며, 이로 인해 외관상 상구순이 전방으로 돌출된 것처럼 관찰되었다(Fig. 1A). 구강 진찰 시 은협 이행부(muco-buccal fold) 부근에 둥근 모양의 종괴가 관찰되었고(Fig. 1B), 전비경을 통한 비경검사에서 비강의 하부에 약간의 팽윤이 있었으며, 비내시경에서 전반적인 비강 내 점막은 온전하게 관찰되었으나 우측 비점막이 다소 팽윤된 것처럼 관찰

되었다.

조영된 비부비동 전산화 단층 촬영에서 경계가 분명하고 균질한 낭성 병변이 비순부(nasolabial area)의 정중결에 위치하였고,  $4.4 \times 3.5$  cm의 크기의 조영 증강되는 낭벽이 관찰되었다(Fig. 2A). 낭성 병변은 자기공명영상 T1 강조영상에서 균질한 저강도의 신호를 보였고(Fig. 2B), T2 강조영상에서는 균질한 고강도의 신호를 보였고(Fig. 2C). 이에 우측 비순낭종 의심하에 수술을 계획하였으며 전신마취 하 경구상구순 하 절개(sublabial incision)를 통하여 진행되었다. 수술 소견상 주변 조직과 경계가 명확하게 관찰되는 타원형의 낭성종물이 관찰되었고(Fig. 3), 병변 주변으로 직접적인 골침범 소견으로 보이지는 않았으나 미량의 골 미란소견을 관찰할 수 있었다. 또한 정도의 유착소견이 보였으나 박리하는데



**Fig. 1.** Preoperative photographs of the patient. A: The right nasolabial fold has partially disappeared due to the swelling of the alar base of nose. B: The upper gingiva around gingivobuccal sulcus is bulged in oral examination.



**Fig. 2.** Preoperative CT and MRI findings. A: PNS CT: well defined homogenous cystic lesion ( $4.4 \times 3.5$  cm) and perilesional bony destruction are observed. B: T1 weighted MRI: a cystic lesion with homogenous hypointensity. C: T2 weighted MRI: a cystic lesion with homogenous hyperintensity.

큰 어려움없이 성공적으로 낭종의 완전절제를 시행하였다. 수술 후 조직병리검사에서서는 낭성 병변 주변으로 만성 염증과 출혈 소견이 관찰되었다(Fig. 4A). 또한 낭종의 벽은 거짓 중층 원주 상피로 구성되어 있었으며 일부 림프구, 호중구 등의 염증세포도 관찰되었다(Fig. 4B). 수술 후 하구 순 부위의 종창은 사라졌고 수술 후 신경학적 문제 및 외형 변화를 포함한 미용적 문제는 없었으며, 현재 1년 간 재발소견 없이 경과관찰 중이다.



Fig. 3. Intraoperative finding: a large cystic lesion and perilesional bony destruction are observed.

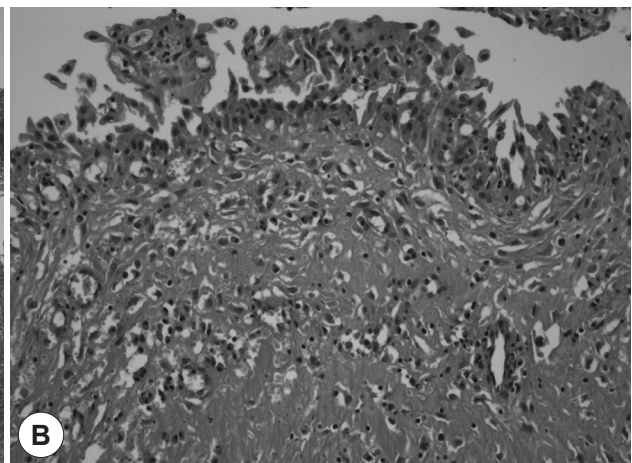
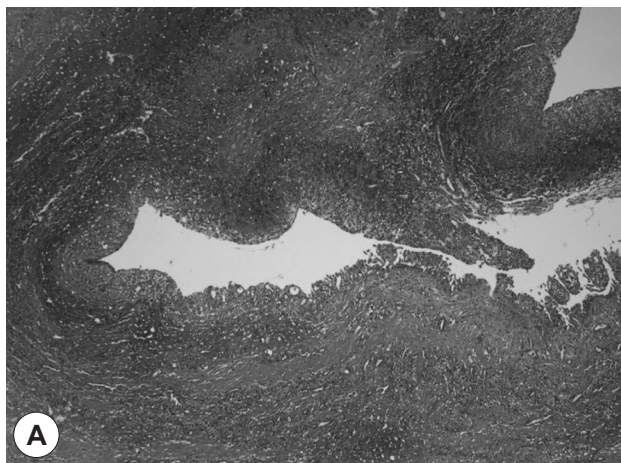


Fig. 4. Histologic finding of the lesion. A: Perilesional inflammation and hemorrhage (H&E, ×100). B: The cystic lining is consist of pseudostratified columnar epithelium (H&E, ×400).

## 고찰

비순낭종은 세계보건기구(WHO) 기준에 따른 악안면 부위 낭성 병변의 분류에서 상피성 낭 중에 발육성(developmental), 비치성 낭에 속하며, 전체 악안면 낭종의 약 0.7%를 차지한다. 이는 주로 콧방울(ala of nose)과 인접한 비순구 주름 상단부에 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>1-3)</sup> 발생학적으로 명확치는 않으나, 발생 중 상악돌기(maxillary process), 측비돌기(lateral nasal process), 중비돌기(medial nasal process)가 융합 될 때 격리된 상피 잔유물에서 기원한다는 가설과 상악돌기와 측비돌기 사이에 남아있는 비루관의 상피 잔유물에서 기원한다는 가설이 유력하다.<sup>1)2)</sup>

발생 연령은 영아부터 70대 까지 광범위하게 보고되었으나 40~50대에 가장 흔하며 남성보다 여성에서 3배 가량 호발한다고 알려져 있다.<sup>1)3)</sup>

무통성의 비순구 팽창이 가장 특징적인 임상 증상이며, 드물게는 통증을 유발 할 수 있다.<sup>2)</sup> 비순낭종의 진단에는 임상 양상과 영상학적 소견, 그리고 조직학적인 소견이 중요하다.<sup>1-4)7)</sup> 드물게는 코막힘을 유발하기도 하는데, 낭종의 크기가 증가함에 따라 비구순구의 소실, 비강 저부 및 하비갑개의 거상을 초래하여 증상을 일으킬 수 있다고 알려져 있다.<sup>4)8)</sup>

이학적 검사에서 치은구순구(labiogingival groove)와 비저부의 축진을 통해 낭종을 촉진할 수 있고, 이때 낭종의 크기를 대략적으로 가늠할 수 있다.<sup>6)</sup> 낭종은 주로 상악골 외측의 점막 하에 위치하며, 내측으로는 이상구, 하방으로는 치은구순구, 측방으로는 안면 연부조직까지 침범 할 수 있다.

대부분의 비순낭종은 이러한 전형적인 임상양상을 보여 평균 16.2개월의 비교적 길지 않은 시일 내에 병원에 방문한



다.<sup>6)</sup> 그러나 본 증례의 경우 환자는 통증 및 압통이 없었다는 이유로 증상 발생 후 4년 가량 아무런 처치를 받지 않았으며 내원 당시 평균적인 크기와 비교하여 직경이 두 배 이상 큰 비순낭종을 가지고 있었다. 또한 환자의 병력 상 교통사고로 악안면부를 수상 당한 후 해당 부위의 종창이 심해졌는데, 다른 문헌들을 참고할 때 감염에 의한 크기 증가는 보고된바 있으나,<sup>9)</sup> 외상으로 인하여 크기가 변한 경우는 찾아보기 힘들다.

비순낭종의 진단에 있어서 영상학적으로는 컴퓨터 전산화 단층 촬영이나 자기공명영상이 도움이 될 수 있다. 컴퓨터 전산화 단층 촬영에서는 비기저부(pyramidal aperture) 바깥쪽에 위치하는 저밀도의 균등한 낭성 병변을 관찰할 수 있다.<sup>8)</sup> 자기공명영상에서는 T1 강조 영상에서 낮은, 혹은 중간 정도 강도의 신호를 보이는 균질한 낭성 병변을 관찰할 수 있으며 T2 강조 영상에서는 높은 강도 신호를 보이는 균질한 낭성 병변을 관찰할 수 있다.<sup>10)11)</sup> 본 증례의 경우 전산화 단층 촬영에서 경계가 분명하고 균질한 낭성 병변이 관찰되었고, 낭벽은 얇게 조영 증강 되었다. 자기공명영상 T1 강조영상에서는 균질한 낮은 강도의 신호를, T2 강조영상에서는 균질한 높은 강도의 신호를 보여 전형적인 비순낭종의 영상학적 소견과 일치하였다.<sup>10)11)</sup>

조직병리학적으로, 비순낭종의 낭벽은 중층 혹은 거짓 중층의 입방세포 혹은 원주세포로 이루어져 있다고 알려져 있다.<sup>9)</sup> 본 증례의 경우에도, 수술 후 조직 병리검사결과에서 이에 합당한 거짓 중층의 원주세포로 이루어진 낭벽을 관찰할 수 있었으며 병변 주변부로는 염증 및 출혈의 소견이 관찰되었다.

감별진단 해야 할 질환으로는 치성 낭종(odontogenic cyst), 코입천장관낭(nasopalatine duct cyst), 유피낭종(dermoid cyst), 유표피 낭종(epidermoid cyst), 치근단 농양, 양성 연조직 종양 등이 있다.<sup>13)</sup>

치료로는 절개 및 배액, 흡인 천자, 경화제 주입 및 수술적 처치가 있으나 수술적 처치 외에는 재발률이 높다.<sup>4)9)12)</sup> 수술적 처치는 구순하 접근(sublabial approach), 경비강 접근(transnasal approach)이 있으며, 본 증례에서 미용적 측면과 낭종의 크기를 고려하여 구순하 절개(sublabial incision)를 통한 외과적 절제를 시행하였다. 병변의 완전 절제를 시행하였으며 주변 조직들과 잘 박리되는 양상으로, 병변 제거 후 주변 골 미란 소견을 관찰할 수 있었다. 이후 추적관찰 상 재발은 없었다.

본 증례에서의 비순낭종은 기존 문헌에 보고되었던 증례들과 비교하여 상대적으로 큰 크기로서, 비순낭종의 성장 잠

재성을 보여주었다. 이러한 거대 비순낭종은 세계적으로도 드물게 보고되는데, 1985년 Cohen MA 등이 보고한 2례(최대 직경 2, 7 cm),<sup>8)</sup> 2013년 Ordones AB 등이 보고한 1례( $4 \times 4.5 \times 5$  cm),<sup>12)</sup> 2014년 Sagioglu SG 등이 보고한 1례( $5 \times 5$  cm)<sup>13)</sup> 등이 대표적이다. 하지만 이전의 거대 비순낭종 증례 보고는 본 증례와 달리 외상과의 연관성이 없어 외상과의 연관성은 본 증례의 특이점이라고 할 수 있겠다. 일반적으로 종양은 수술을 포함한 외상 후에 혈관 신생(angiogenesis)의 증가, 각종 사이토카인(Cytokine) 및 성장 인자(growth factor)의 분비 증가와 연관되어 크기가 증가할 수 있다고 알려져 있는데,<sup>14)</sup> 이와 동일한 기전으로 크기가 증가했을 가능성이 높다고 보여진다.

대부분의 비순낭종은 무증상이거나 단순 비순구 종창만을 보이는 경우가 많다. 현재 권고되는 비순낭종의 수술적 처치의 적응증 또한 증상을 보이는 경우로, 이에 해당되는 사항으로 외형적 변화, 비폐색, 감염으로 인하여 통증을 포함하고 있다.<sup>9)</sup> 하지만 본 증례를 볼 때, 단순히 증상이 없거나 경미함을 이유로 경과관찰 할 경우 거대한 비순낭종으로 발전하여 주변 조직을 손상 시키거나 그로 인해 처치의 범위를 증가시킬 수 있음을 알 수 있다. 때문에 증상이 없거나 경미하더라도 비순낭종의 성장 잠재성을 고려하여 발견 초기에 적극적인 처치를 할 지에 대해서도 생각해 보아야 할 것이다.

현재까지 발표된 연구들에 따르면, 비순낭종의 수술적 치료 방법들에 대해서는 많이 다루고 있으나 처치의 적응증에 대해서 다른 연구도 매우 드물 뿐더러 처치의 시기에 대해서는 연구는 찾아보기 힘들다. 추후 비순낭종의 처치 적응증 및 시기에 대한 연구들이 진행되어 치료에 대한 가이드라인이 만들어 진다면, 임상적으로 큰 도움이 될 것이다.

중심 단어 : 비치성낭 · 비구순구.

## REFERENCES

- 1) Narain S. Nasolabial Cyst: Clinical Presentation and Differential Diagnosis. *J Maxillofac Oral Surg* 2015;14(Suppl 1):7-10. doi: 10.1007/s12663-011-0205-1. Epub 2011 Jul 27.
- 2) Hwang SH, Park BW, Kim MG. A Clinical Study of Nasolabial Cyst. *Korean J Otolaryngol* 1998;41(5):604-7.
- 3) Yanagisawa E, Scher DA. Endoscopic view of a nasoalveolar cyst. *Ear Nose Throat J* 2002;81(3):137-8.
- 4) Tiago RS, Maia MS, Nascimento GM, Correa JP, Salgado DC. Nasolabial cyst: diagnostic and therapeutical aspects. *Braz J Otorhinolaryngol* 2008;74(1):39-43.
- 5) Toribio Y, Roehrl MH. The Nasolabial Cyst; A Nonodontogenic Oral Cyst Related to Nasolacrimal Duct Epithelium. *Arch Pathol Lab Med* 2011;135(11):1499-503. doi: 10.5858/arpa.2010-0338-RS.
- 6) Lee DH, Kim JH, Chung YS, Jang YJ, Lee BJ. Clinical Features and

- Treatment Results of 64 Cases of Nasolabial Cyst. *J Rhinol* 2011;18(1):43-7.
- 7) Yuen HW, Julian CY, Samuel CL. Nasolabial cysts: Clinical features, diagnosis, and treatment. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007;45(4):293-7. Epub 2006 Oct 6.
  - 8) Cohen MA, Hertzanu Y. Huge growth potential of the nasolabial cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1985;59(5):441-5.
  - 9) Chao WC, Huang CC, Chang PH, Chen YL, Chen CW, Lee TJ. Management of Nasolabial Cysts by Transnasal Endoscopic Marsupialization. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;135(9):932-5. doi: 10.1001/archoto.2009.111.
  - 10) Sumer AP, Celenk P, Sumer M, Telcioglu NT, Gunhan O. Nasolabial cyst: case report with CT and MRI findings. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2010;109(2):e92-4. doi: 10.1016/j.tripleo.2009.09.034.
  - 11) Curé JK, Osguthorpe JD, Van Tassel P. MR of nasolabial cysts. *AJNR Am J Neuroradiol* 1996;17(3):585-8.
  - 12) Ordonez AB, Neri L, Oliveira IH, Tepedino MS, Pinna Fde R, Voegels RL. Giant Nasolabial Cyst Treated Using Neumann Incision: Case Report. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2013;17(4):421-3. doi: 10.1055/s-0033-1351674.
  - 13) Sagioglu SG, Guler SA. Giant nasolabial cyst. *J Pak Med Assoc* 2014;64(11):1320-1.
  - 14) El Saghir NS, Elhajj II, Geara FB, Hourani MH. Trauma-associated growth of suspected dormant micrometastasis. *BMC Cancer* 2005;5:94.