

이하선에서 발견된 유표피낭: 증례 보고

이충상¹ · 김형근¹ · 임재형¹ · 전국진² · 허종기¹¹연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실(강남세브란스병원),²연세대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실**Abstract** (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011;37:237-40)

Iatrogenic epidermoid cyst in the parotid gland: A case report

Choong-Sang Lee¹, Hyoung-Keun Kim¹, Jae-Hyung Lim¹, Kug-Jin Jeon², Jong-Ki Huh¹¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Yonsei University (Gangnam Severance Hospital)²Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Yonsei University, Seoul, Korea

Epidermoid cysts presents as a nodular and fluctuant subcutaneous lesion beneath the skin and are most common in acne-prone areas of the head, neck and back. This cyst often arises after localized inflammation of the hair follicle and occasionally after the implantation of epithelium following trauma and surgery including a biopsy procedure. It is often associated with Gardner syndrome, particularly before puberty. The lesion is normally treated by a surgical excision or enucleation, and recurrence is uncommon.

A 27 year old woman complained of a swelling of the left parotid gland when she visited our clinic. A cystic lesion was found in the left parotid gland from the high signal intensity on the MR images. Ultrasonography showed that the cystic lesion was heterogeneous echogenic. Six months earlier, botulinum toxin was injected in her left masseter muscles six months earlier and progressive swelling of the left parotid area was noticed four months after treatment.

The lesion was surgically removed. It was encapsulated by a thin wall and filled mainly with keratin. The final diagnosis was an epidermoid cyst.

Key words: Epidermoid cyst, Parotid gland, Botulinum toxin, Injections

[paper submitted 2010. 12. 19 / revised 2011. 5. 19 / accepted 2011. 5. 31]

I. 서 론

유표피낭은 피하조직 혹은 피부 내에 발생하는 결절성 및 파동성의 병소로, 천천히 성장하며 안면, 경부 및 등 부분과 같이 주로 여드름이 나타나는 부위에 호발한다. 최근에는 골 또는 유방조직 등에도 드물게 발생하는 것으로 보고되고 있다¹. 주로 모낭의 염증 후에 발생하는 것으로 알려져 있으며 때때로 조직 생검을 포함한 외과적 수술 또는 외상으로 인한 상피의 함입으로 인해 발생하기도 한다². 사춘기 이전에 발생하는 병소는 가드너 증후군과 연관되어 있는 경우가 많다. 병소는 외과적 적출 또는 절제를 요하며 재발은 드물다³.

본 교실에서는 매우 드문 증례로서, 27세 여성의 좌측 이하선에 발생한 유표피낭을 치험하였기에 이에 대하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

27세 여자 환자가 좌측 이하선 부위의 부종을 주소로 내원하였다. 내원 6개월 전 좌측 교근 부위에 보톡스 시술을 받았으며, 주사 후 4개월 정도 지나서부터 좌측 안면부 종창이 시작되었다. 초진 임상 검사시, 좌측 이하선 부위의 파동성 종창이 관찰되었다.(Fig. 1) 통증은 없었으며, 개구 제한은 관찰되지 않았다.

자기공명 T2 강조 영상에서 좌측 이하선의 표층엽 내부에 약 1.7×1.1 cm 크기의 고강도 신호의 낭성 병소가 관찰되었으며, 병소는 대부분 고강도 신호를 보이나 내부에 이질성 강도 신호를 보였다. T1 강조영상에서 병소는 대부분 저강도 신호를 보였으며 내부에 더욱 낮은 강도 신호의 병소가 관찰되었다.(Fig. 2) 병소 주변의 임파선 종창 등의 소견은 관찰되지 않았다. 초음파 영상에서는 약 3 cm 크기의

허종기

135-720 서울시 강남구 언주로 712

연세대학교 강남세브란스병원 구강악안면외과

Jong-Ki Huh

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University

712 Eonju-ro, Gangnam-gu, Seoul, 135-720, Korea

TEL: +82-2-2019-3560 FAX: +82-2-3463-4052

E-mail: omshuh@yuhs.ac



Fig. 1. Preoperative photograph. Swelling of the left parotid area (arrow) is seen.

이질성의 높은 신호영상병소가 좌측 이하선에서 관찰되었다.(Fig. 3) 이와 같은 검사 결과를 토대로 좌측 이하선 내부의 낭성 병소 혹은 양성 종양 가진하에 외과적 제거술을 시행하기로 치료계획을 세웠다.

비인두 삼관을 통한 전신마취하에 좌측 이하선 종괴의 적출술이 시행되었다. 종괴 후하방쪽으로 콧바퀴를 따라 절개하여 접근하였으며, 안면신경을 확인하면서 병소 부위를 노출시켰다. 난원형의 낭종성 병소가 관찰되었다. 종괴의 벽은 아주 얇아 주위조직과 조스스럽게 박리하는 중에 터졌으며, 종괴에서 깨끗한 맑은 무색의 액과 죽 같은 하얀 덩어리들이 빠져 나왔다.(Fig. 4) 종괴 내의 물질이 다 빠져 나온 상태에서 남아있는 종괴의 벽을 주위 조직과 분리하여 제거하였으며 제거한 종괴의 내측 후방으로 안면신경의 관골지와 하악지가 관찰되었다. 종괴가 제거된 부위를 깨끗하게 씻어낸 후 이하선 근막을 봉합하고 피부를 봉합하였다.

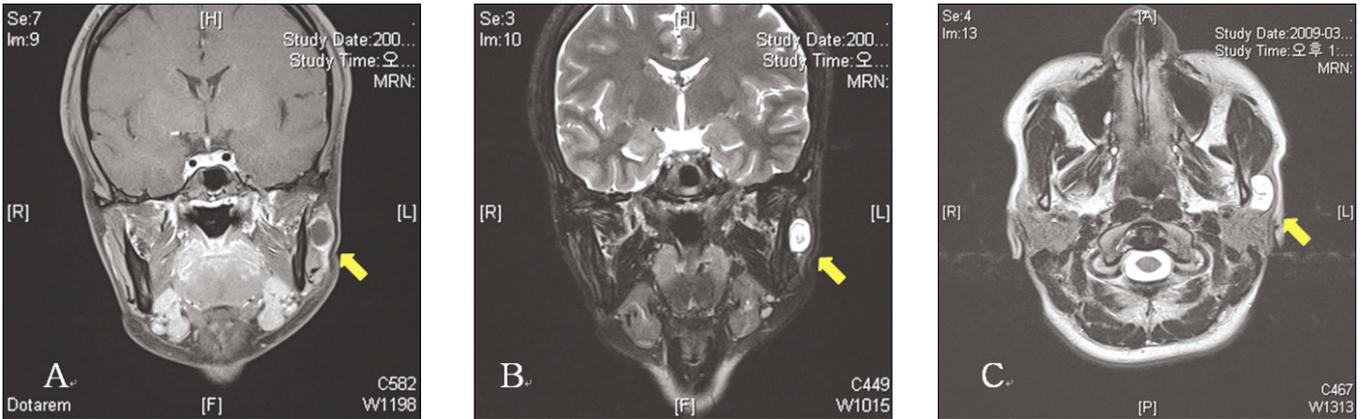


Fig. 2. A. T1-weighted MR image.(coronal view) It shows a low signal intensity lesion in the left parotid gland with 1.7 × 1.1 cm size. B. T2-weighted MR image.(coronal view) It shows a high signal intensity cystic lesion and relatively low signal intensity materials within the lesion in the left parotid gland.(See the arrow) C. T2-weighted MR image.(axial view) The lesion is located in the parotid gland, not masseter muscle.(arrow)

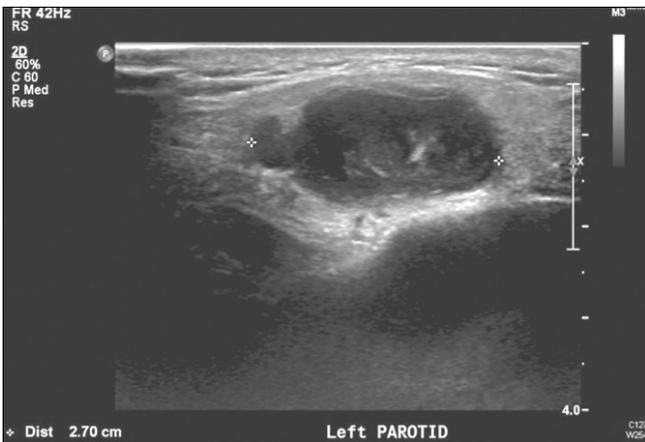


Fig. 3. About 3 cm heterogeneous echogenic cystic lesion in the left parotid gland is observed on ultrasonogram.



Fig. 4. Removed cystic sac and cheese like material (arrow) filled in the sac.

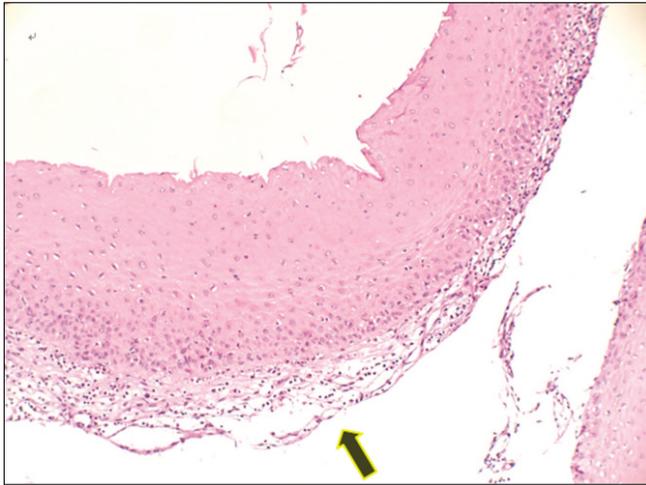


Fig. 5. Histologic findings. (H-E stain, ×100) Squamous epithelial lining with keratin formation (arrow) is observed.

조직학적으로 병소는 편평상피로 구성된 낭벽이 존재하였으며 내부에 케라틴이 관찰되었고(Fig. 5), 유포피낭(epidermoid cyst)으로 최종 진단되었다.

수술 한달 후 환자가 외래로 경과 관찰을 위해 내원하였을 때, 개구량은 50 mm였으며, 부종, 통증 및 신경손상 등의 소견은 관찰되지 않았다.

Ⅲ. 고 찰

유포피낭은 선천적 또는 후천적으로 발생 가능하다. 선천적으로 발생하는 경우에는 배아기에서의 기형이 원인이 된다. 후천적으로 발생하는 경우에는 외상 혹은 수술로 인한 상피의 함입이 주된 원인이 되며^{2,3}, 털피지샘(pilosebaceous unit)의 협착 및 인유두종 바이러스(HPV) 감염도 원인으로 알려져 있다³.

유포피낭은 주로 피부에 발생되며, 유포낭(dermoid cyst)과 매우 유사하나, 유포낭과 달리 진피 부속기관을 나타내지 않는다. 표피와 유사한 상피로 이장되었으며, 종종 모낭의 국소화된 염증 후에 발생한다³. 이는 안면, 경부 및 등 부분과 같이 주로 여드름이 나타나는 부위에 호발하며¹, 드물게 구강내에서도 이와 같은 병변이 발생하기도 한다³. 악안면부에서는 중이 등골 절제술(stapedectomy), 고실 성형술(tympanoplasty) 등의 다양한 이비인후과적인 수술 후와 근치적 유양돌기 개방술(radical mastoidectomy) 시행 후에 유포피낭이 발생하였다는 보고가 있다²⁴. 이외에도 안면신경 감압술 후 측두부에서 발생한 유포피낭의 증례 등 다양한 증례가 보고되고 있다²⁵.

유포피낭은 임상적으로 무통성의 천천히 성장하는 특성을 갖는다. 젊은 연령층에서는 안면부에 호발하는 경향이 있으며 연령이 증가할수록 등에 호발하는 경향이 있다. 여

성보다 남성에게서 더욱 빈번하게 발생한다. 염증이 없다면 병소는 하얀색 혹은 노란색을 띄게 된다. 병소는 주로 천천히 성장하지만, 탈락된 상피의 급격한 증가 또는 주변 연조직의 염증성 반응으로 인해 급격히 성장하기도 한다². 유포피낭은 매우 드물게 악성 변이를 갖는 것으로 보고된다. 나이가 들수록 이러한 악성 변이가 잘 나타나며, 낭종의 양상이 전형적이지 않거나 비정상적으로 큰 경우 혹은 재발 병력이 있을 경우 주의깊게 살펴보아야 한다. 이러한 악성 변이 중 90% 이상이 편평세포암이며, 기저세포암도 드물게 나타나는 것으로 알려져 있다³⁶. 유포피낭의 진단 및 치료계획 수립에 있어서 방사선학적 검사가 유용하다. 전산화단층영상에서는 잘 경계지어진 균일한 종괴로 나타나며, T2 강조 자기공명영상에서는 고강도 신호를 보인다⁷.

감별해야 할 질환들로, 모낭종, 피지낭, 유포낭, 새열낭종, 갑상선관낭 그리고 편평세포암등의 또 다른 상피 함유성 병소들이 있다¹. 피지낭의 경우, 두피에서 호발하고, 세포 흡인 검사시 기름 성분 혹은 얼룩진 케라틴 성분이 관찰되고 상피 성분은 희박하며, 무핵 또는 유핵 각질(squame)의 혼합물이 적고 다수의 콜레스테롤 결정이 관찰된다. 반면에 유포피낭의 경우, 무핵 또는 유핵 각질이 다수 관찰된다. 모낭종의 경우 모낭종양(pilar tumor) 또는 증식성 모낭종 등으로 이환될 수 있으므로 더 넓은 경계를 가지고 완전 절제를 해야 한다¹. 새열낭종의 경우, 세포흡인 검사시 노란색의 농양과 비슷한 액체가 나오며, 성숙한 상피세포, 호중구 등이 나타난다¹. 갑상선관낭의 경우 무신 분비 세포(mucin secreting cells) 또는 섬모상 원주 상피 세포(ciliated columnar epithelial cell) 등이 종종 관찰된다¹. 잘 분화된 편평세포암인 경우에도 세포학적으로 감별이 가능한데, 다형성, 과염색성 핵, 거친 과립성 염색체가 관찰되며 때때로 세포분열 양상을 보인다¹.

이외에도 감별해야 할 질환들로 와르틴 종양, 다형성 선종, 지방종, 림프관종, 림프종 등이 있으며, 병소의 촉진시 경결감이 나타나거나 피부의 궤양, 안면신경의 마비 증상이 나타날 경우 이하선의 악성 종양을 의심해야 한다¹.

또한 가드너 증후군(Gardner's syndrome)과의 연관성도 파악해야 하는데, 가드너 증후군은 상염색체 우성 질환으로 대장용종증(colonic polyposis), 다수의 연조직 종양, 골종의 세가지 전형적인 특징적 소견을 가지며, 연조직 종양으로는 유포피낭, 섬유종, 지방종 등이 포함된다. 유포피낭은 50-60%에서 가드너 증후군과 연관되어 나타나는 것으로 보고되어 있지만⁸⁹ 이번 증례에서는 이하선에서 발생한 단발성의 유포피낭 외에는 특이한 소견이 없었으므로, 가드너 증후군과의 연관성은 낮은 것으로 사료된다.

유포피낭은 조직병리학적으로 진성 각화 편평상피로 이장되어 있으며, 내강은 주로 탈락된 각질로 채워져 있다²¹⁰. 또한 호중구, 림프구, 거대세포 등의 염증 매개 세포들이 관찰되기도 한다. 이는 상피 이장이 파괴되는 경우, 이때 노출된 내부의 각질에 대한 항원 항체 반응으로 보고 있다¹.

유표피낭의 발생 원인으로는 발육성, 의원성 혹은 외상성 원인 등이 있다. 유표피낭은 배아기 때의 신경관 폐쇄(defective closure of neural tube) 과정 중에 남겨진 상피잔사에 의해 발육성으로 발생 가능하지만, 이 경우 다른 선천적 장애가 나타나는 경우가 많다고 보고 되어 있다⁴. 본 증례의 경우, 앞서 언급했듯이 이하선에서 발생한 단발성의 유표피낭 외에는 특이한 소견이 없으며 가드너 증후군과의 연관성도 낮은 것으로 사료되어, 발육성으로 발생했을 가능성은 낮은 것으로 보인다. 본 증례에서 유표피낭 발생의 원인으로 고려해 볼 수 있었던 것은 피부 주사에 의한 상피세포의 의원성 함입이었으며, 이는 병력청취를 통해 확인할 수 있었다.

최근에는 사각턱 교정 등의 미용적 목적 혹은 측두하악장애의 개선을 위해 교근에 대한 보툴리눔 독소(botulinum toxin)를 이용한 시술이 활발히 이루어지고 있다. 본 증례도 이러한 보툴리눔 독소 주사를 좌측 교근부에 시행할 때 상피세포가 주사 바늘에 의해 피부내로 함입되어 유표피낭이 발생한 것으로 추정된다. 다만, 상피세포가 주사 바늘에 의해 교근내로 유입되었다면 병소가 교근 내에 위치할 가능성이 높으나, 자기공명영상(Fig. 2. C)에서 병소는 이하선내에 위치해 있었다. 이는 주사 바늘의 자입과 제거 과정에서 주사바늘에 붙어 있던 피부 상피세포가 주사 바늘이 지나가는 길에 위치한 이하선에서 떨어져 나가서 유표피낭을 발생시켰을 가능성이 있다. 따라서 구강악안면 영역에서 유표피낭이 발생한 경우, 피부에 대한 침습적 시술

후 상피의 의원성 함입에 의한 발생 가능성을 염두에 두어야 하겠다.

References

1. Handa U, Chhabra S, Mohan H. Epidermal inclusion cyst::: cytomorphological features and differential diagnosis. *Diagn Cytopathol* 2008;36:861-3.
2. Thompson AC, Bradley PJ. Iatrogenic epidermoid cyst of the parotid region following ear surgery. *J Laryngol Otol* 1991; 105:227-8.
3. Al-Khateeb TH, Al-Masri NM, Al-Zoubi F. Cutaneous cysts of the head and neck. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;67:52-7.
4. Fliss DM, Puterman M, Tovi F. Iatrogenic cholesteatoma of the neck. *Head Neck* 1989;11:558-61.
5. Tovi F, Bartal N, Zirkin C. Epidermal cysts of temporal fossa: an unusual complication of ear surgery. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1985;94:162-4.
6. Tidmore T, Hirschi S, Chang CW. Floor of the mouth epidermoid cyst enlarging after pregnancy. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;38:E124-6.
7. Nalini G, Nandita K, Satyawati M, Jaimanti B. Squamous cell carcinoma in a mucosal epidermal inclusion cyst. *J Otolaryngol* 2004;33:271-2.
8. Van Epps KJ, Kuszyk BS, Hofmann LV, Fishman EK. Epidermoid inclusion cysts seen on CT of a patient with Gardner's syndrome. *AJR Am J Roentgenol* 1999;173:858-9.
9. Narisawa Y, Kohda H. Cutaneous cysts of Gardner's syndrome are similar to follicular stem cells. *J Cutan Pathol* 1995;22:115-21.
10. Richardson GS, Clairmont AA, Erickson ER. Cystic lesions of the parotid gland. *Plast Reconstr Surg* 1978;61:364-70.