

Two Cases of Marsupialization of Nasopalatine Duct Cyst

Chan Hum Park, Jung Woo Lee, Jun Ho Lee and Seok Min Hong

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

경비강 접근법으로 조대술을 시행한 비구개관낭 2예

박찬흠 · 이정우 · 이준호 · 홍석민

한림대학교 의과대학 춘천성심병원 이비인후-두경부외과학교실

Received November 7, 2011

Revised February 20, 2012

Accepted February 21, 2012

Address for correspondence

Chan Hum Park, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Chuncheon Sacred Heart Hospital,
Hallym University College of
Medicine, 153 Gyo-dong,
Chuncheon 200-704, Korea
Tel +82-33-240-5181
Fax +82-33-241-2909
E-mail hlpch@paran.com

Nasopalatine duct cyst is a common cystic lesion of nonodontogenic origin of the maxilla. Diagnosis was made on the basis of physical examination and radiological findings. Generally, the treatment of choice for nasopalatine duct cyst is the enucleation of the cystic tissue. Recently, we performed marsupialization via trans-nasal approach in two cases. Both patients exhibited no evidence of recurrence and showed good results. Thus, we report two cases of nasopalatine duct cysts with a literature review.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2012;55:239-42

Key Words Nasopalatine duct cyst · Marsupialization.

서 론

비구개관낭(nasopalatine duct cyst)은 구강에 발생하는 가장 흔한 발육성 비치성 낭종으로, 상악의 절치관(incisive canal) 내의 구비관(ornonasal duct)에서 기원하는 것으로 알려져 있다.¹⁾ 상악의 외상, 구강 내 감염, 자발적 증식에 의해 발생하며, 주로 40~60대에 이르는 남성에게서 호발한다.²⁾

임상 양상과 방사선 소견으로 진단하며, 조직 병리결과도 진단에 도움이 될 수 있다. 주로 전적출술을 먼저 고려하며, 필요에 따라서는 조대술을 이용할 수도 있다고 보고되었다.³⁾

그러나 저자들은 비구개관 낭종을 조대술로 치료한 이후 특이 합병증 없이 호전된 2예를 경험하였기에 이를 보고하는 바이다.

비인후과에 외래 방문하였다. 내원 1년 전부터 좌측 비구순 부위 종창이 발생하였고 좌측 비폐색이 동반되었으며, 수일 전부터는 농성 비루를 호소하였다.

신체검사상 좌측 비강저부와 경구개 부위에 무통성의 종물이 관찰되었으며, 이로 인해 좌측 비강이 좁아져 있었으며 농성 비루가 비강 내 관찰되었다. 구강 내 경구개 응기부의 통증, 압통은 없었다(Fig. 1). 외래에서 비강 내로 종창부 절개 및 배농 시행하였으며 담황색의 액체가 배농되었고, 배양검사상 특이균주 없는 양상이었다. 입원하여 시행한 부비동 전산화단층 사진에서는 경구개 중앙으로부터 좌측으로 치우친, 지름 3 cm 정도의 경계가 분명한 저음영의 원형종물이 보였으며, 그 안으로는 배농으로 인한 공기가 관찰되었다(Fig. 1). 비중격이 우측으로 편위되어 있었으며, 종물 아래쪽 절치(incisor)의 치근(apex) 부위의 경미한 힘입소견이 관찰되었다. 임상소견과 전산화단층 사진을 바탕으로 비구개관낭을 진단하였다. 환자가 수술적 치료를 거부하여, 배농 이후 4일간의 항생제 치료 이후 특이 합병증 없이, 종창 및 농성 비루 감소, 배

증례

증례 1

49세 남자가 좌측 비강 내 농성 분비물을 주소로 본원 이

농 부위 상처가 호전되어 퇴원하였다.

4개월 후 좌측 비구순 부위에 종창이 재발하여 내원하였고, 전신마취하 좌측 경비강 내로 조대술을 시행하였다. 우측으로 편위된 비중격 만곡증 소견을 보여 비중격 교정술, 양측 하비갑개 부분 절제술을 동시에 시행하였다. 병리조직 검사상에서도 편평상피와 중증섬모 원주상피가 혼재된 비구개관낭 소견이었다.

조대술은 내시경을 이용하여 다음과 같이 시행하였다. 비강 안에 보스민(Bosmin) 거즈를 패킹해 비강점막을 수축시켜 수술 부위를 확보하였다. 낭종의 상연부에 타원형의 절개를 가지고, microdebrider를 이용하여 절개부를 넓게 확장하였다. 그리고 마지막으로 meroceal 충전으로 마무리 하였다. 수술 시간은 15분 내외였으며, 술 후 2일 뒤 meroceal 충전 제거하였다. 술 후 3개월째, 조대술 부위는 비강저부의 앞부분에 낭종 점막의 비점막화 및 상피화되고 있음을 확인하였고, 1년 후 추적 관찰하였을 때에는 완전 상피화됨을 확인하였다(Fig. 1).

증례 2

16세 남자가 교통사고 이후 발생한 두통 및 두개 열상으로 인해 신경외과에 입원하였고, 이후 두통에 의한 검사진행 중 시행한 뇌-자기공명영상에서 우연히 발견된 비구개부 종물을 주소로 이비인후과에 협진 의뢰되었다.

신체 검사상 구개 부위에 무통성의 부종이 관찰되었으며, 비강저부로부터 흰색의 분비물이 관찰되었으나 증례 1과 같

은 종창은 발견되지 않았고, 3년 전부터 양측 비폐색을 호소하였다. 그러나 종물로 인해 발생하는 증상이 아닌, 양측 하비갑개 비대로 인한 것으로 사료되었다.

자기공명영상에서, 구개 중앙부에 $2.2 \times 2.0 \times 2.7$ cm의 경계가 명확한 원형의 종물이 발견되었으며, 이는 절치관(incisive canal) 내에 위치하여 골벽을 밀어내고 있었고, 치아나 치근 침범소견은 보이지 않았다(Fig. 2).

전신마취하 경비강 접근법으로 조대술 및 양측 하비갑개 부분 절제술을 시행하였으며, 수술은 증례 1과 동일한 방법으로 시행하였다. 조대술에 소요된 시간은 20분 정도였으며, 특이 합병증은 발생하지 않았다. 조직검사상에서는 거짓증증 원주상피로 둘러싸여 있으며, 림프구 침윤이 동반된 소견이었다. 술 후 8일째, 수술 개구부에 점액 저류가 관찰되었으나, 이후 10개월간 추적 관찰한 결과, 조대술 부위의 상피화 및 비점막화를 확인하였다(Fig. 2).

고찰

비구개관낭은 절치관의 잔존상피에서 기원하는 가장 흔한 상악의 발육성 비치성낭종으로, 임상 양상과 방사선 소견으로 진단할 수 있다. 흔히 경구개의 무통성 종창으로 발견되나, 비강저부에도 종창이 나타난다. 급성감염이 동반되었을 시에는 통증이 동반되기도 하며, 비강 내 분비물의 형태로 나타나기도 한다.²⁾

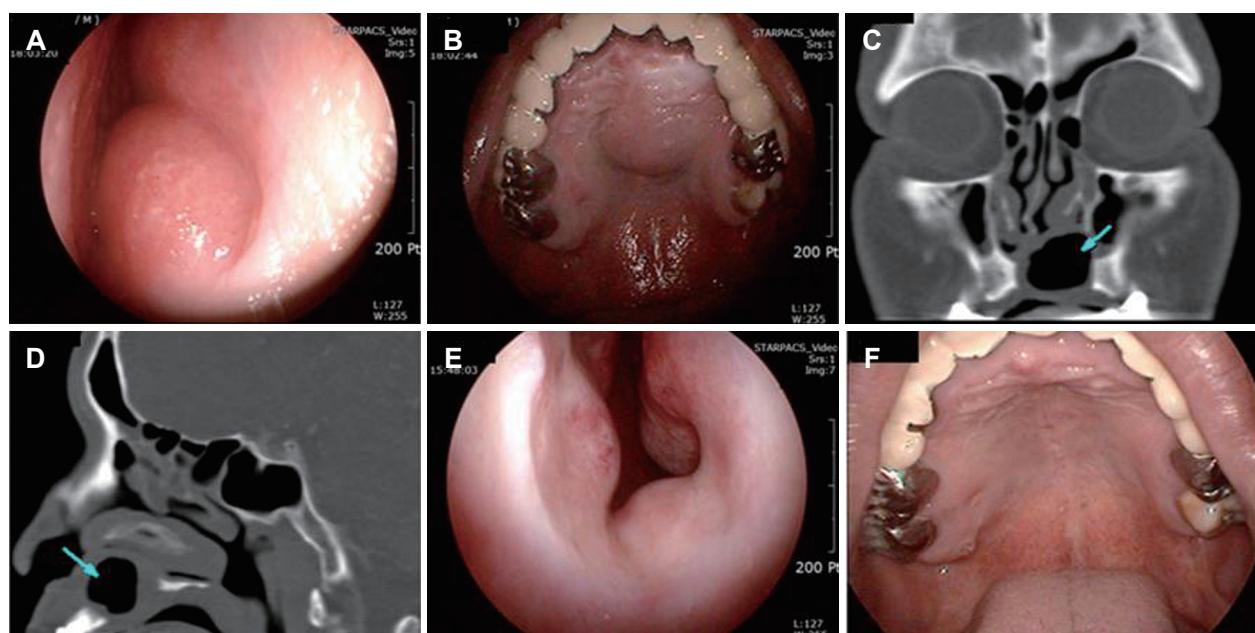


Fig. 1. Pre-operative findings. Photos show the elevated lesion of nasal left nasal cavity floor (A) and hard palate (B). Post-incision and drainage state. Coronal (C) and sagittal (D) view CT show a round cystic lesion of the premaxilla. 3.1 cm diameter round shaped unicocular cyst in hard palate. After post-operation 1 year findings. Photos show the disappeared elevated lesion and complete epithelialization in nasal left nasal cavity floor (E) and the lesion of hard palate (F). CT: computed tomography.

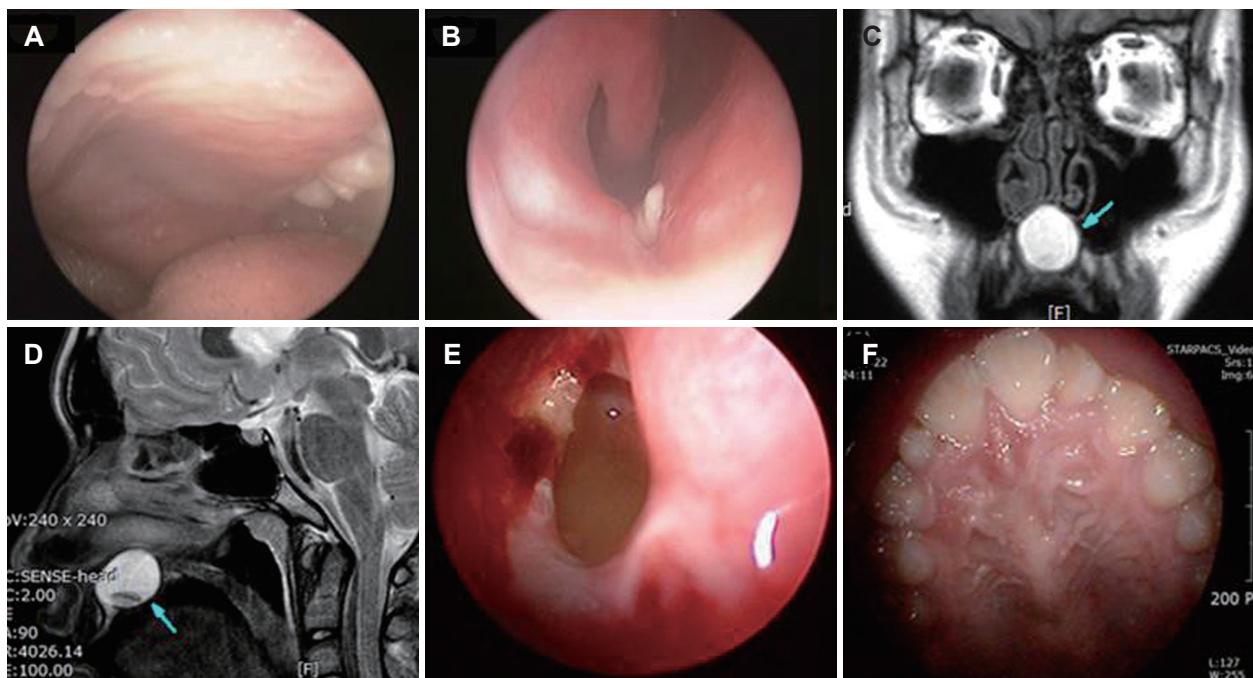


Fig. 2. Pre-operative findings. Photos show the elevated lesion of hard palate (A) and whitish discharge from cyst in right nasal cavity (B). Coronal (C) and sagittal (D) view MRI demonstrating a round cystic lesion of the premaxilla. $2.2 \times 2.0 \times 2.7$ cm sized, space occupying nodule in palatine bone. Post-operation day 8 findings show the created orifice and retention of mucus (E). From operation, 10 months later findings. Photos show that disappeared the elevated lesion of hard palate (F). MRI: magnetic resonance image.

방사선 소견으로는 전산화단층촬영에서 상악의 중앙부에 경계가 명확한 원형, 타원형의 낭종으로 나타난다.⁴⁾ 대부분 양 성이나, 발생부위가 근접하여 혼동될 수 있는 다른 상악 낭종들과의 감별 진단이 필요하다. 그 중 정중구개낭이 비구개관낭과 위치적으로 가장 유사하여 구별하기 힘들 것으로 사료되며, Gingell 등⁵⁾은 정중구개낭을 비구개관낭과 감별 진단하기 위한 5가지 기준을 다음과 같이 발표하였다. 첫째, 경구개의 정중부를 따라 전반적으로 좌우 대칭이어야 하며, 둘째, 구개유두의 후방에 존재하여야 한다. 셋째, 방사선학적으로 계란형이거나 원형이어야 하며, 넷째, 치아와 무관하며 절치관과도 연결되어 있지 않아야 한다. 다섯째, 신경이나 혈관, 유리연골 및 부침샘조직이 낭의 벽에서 발견되지 않아야 한다. 이 5가지 기준에 부합하여야 정중구개낭으로 진단할 수 있다고 하였는데, 증례 1은 조직검사상 특이 조직의 발견 없이 편평상피와 중증섬모 원주상피가 혼재된 소견이었고, 경구개 융기부가 구개유두를 포함하고 있었다. 그리고 낭종이 좌측으로 치우친 소견을 보이고 있었으며, 절치관 내에 낭종이 위치하여 골벽을 밀고 있는 양상이어서 비구개관낭으로 진단하였다. 하지만, 증례 2는 방사선 소견이 비구개관낭으로 보고되어 이를 따르기로 하였으나, 조직검사상 림프구 침윤이 동반된 거짓증증 원주상피로 둘러싸인 소견이었고, 자기공명영상상 원형의 낭종이 구개골의 정중앙부에 위치하였으며, 절치관과의 연결성도 모호하여 감별하기 힘든 경우였다.

또한 정중구개낭의 형성도 비구개낭이나 다른 상악낭이 후방부로 확장된 형태에 지나지 않는다는 생각을 기초로, 상악골에 생기는 낭종의 구분에 있어서, 서로 별개의 병변이 아니라 비구개낭 하나로 통합되어야 한다는 보고가 발표되었고, 실제로도 정확한 감별이 힘든 실정이다.^{6,7)}

비구개관낭은 전 인구의 1%에서 발생하고, 상악에서 발생하는 낭종의 5% 정도를 차지한다.⁸⁾ 하지만 국내에서는 1972년 비구개관낭의 경구개 접근법으로 전적출술을 시행한 증례를 처음 소개한 이래, 2008년 Chung 등³⁾이 감염을 동반한 거대 비구개관낭의 전적출술 1예를 발표하였다.

이처럼 과거 연구들에 의하면 비구개관낭은 경구개 전적출술이 표준 치료법으로 인식되어 왔다. 그러나 이 술식은 술 후 재발이 드물었으나, 합병증이 종종 발생하였다.⁹⁾ 1999년 비구순낭의 경비강 조대술이 Su 등¹⁰⁾에 의해 소개된 이후, 일반적으로는 경구개 접근을 통한 전적출술을 시행하였으나, 비구강 누공이나 치아손실 위험이 있거나 낭종이 너무 커서 전적출술을 시행시 주변 구조물의 손상이 우려되는 경우에 조대술을 고려하였다.³⁾

그러나 낭종의 크기가 너무 작아 내시경으로 비강 내에서 낭종을 찾을 수 없는 경우에는 경구개 전적출술을 시행하는 것이 좋다. 한 연구에서는 낭종의 크기와 비강 내 용기 정도는 서로 비례한다고 보고하였다.¹¹⁾ 그러므로 작은 낭종의 경우 비강 내 용기 정도가 낮아 경비강 접근으로 수술 부위를 찾는 데 어

려움이 크다.

증례 1의 경우 환자가 비강의 종창과 농성 비루의 임상 증상을 나타낸 상태에서 조대술을 시행하였고, 증례 2의 경우도 우연히 영상의학적 소견상 발견되었지만, 비강의 분비물과 구개부 부종이 있어 수술적 치료를 시행하였다. Schott 등^[13]에 의하면 비구개관낭을 제거하지 않을 경우 2차적 감염을 유발할 수 있으며 상악의 천공(perforation) 혹은 누공(fistula)이 생기는 경우도 있다고 하였으며, 드물지만 악성화하는 경우도 보고되었다. 그러므로 비구개관낭은 일단 발견되면 반드시 수술적 치료가 고려되어야 한다.^[14,15]

술 후에는 수술부의 상피화를 확인할 수 있는데, 이는 조대술시 시행한 개구부(stoma)로부터 낭종 안의 점막이 섬모화된 비강 점막(ciliated respiratory epithelium)으로 변하기 때문이다. 그러므로 조대술시 낭종 내 점막을 제거할 필요는 없다. 그리고 수술시 개구부(stoma)를 좁게 열 경우 점막의 섬모운동에 의한 점액의 배출이 원활하지 않아 저류하게 되면 이물감이 발생하기도 하며 재발률도 높아진다.^[11]

최근 술식을 서로 비교한 연구들이 발표되기 시작하였는데, Chao 등^[11]은 비구순낭에 대한 전적출술 23예, 조대술 34예의 결과를 분석하였다. 잇몸피판을 시행하고 낭종을 주변 조직으로부터 박리하여야 하는 경구개 전적출술의 경우 술 후 혈종, 구비루, 술 후 감염, 치통, 수술부의 부종, 감각저하 등의 합병증이 최대 3개월 이상 지속되는 경우도 있다고 보고하였다. 그러나 조대술은 국소 마취로도 시행할 수 있고, 비침습적이며 술기도 더 간단하여 술 중 실혈이 더 적고, 수술 시간도 훨씬 짧았다. 전적출술의 경우 전신마취하에 시행하여야 하는 경우가 대부분이고, 입원 및 추적 기간도 길어, 경제적 비용 면에서도 조대술이 더 효율적이었다. 57예에서 최소 6개월 이상 추적 관찰한 결과 두 술식 모두 재발은 없었다.

Lee 등^[12]도 역시 비구순낭에서 조대술과 전적출술을 각각 10예씩 시행한 후 수술 결과를 비교한 연구를 발표하였다. 이 역시 조대술이 수술 시간, 술 후 합병증(통증, 부종, 감각저하 등), 경제적 비용 등에서 효율적인 것으로 나타났으며 양 그룹 모두 1년 후 특이 재발 소견은 없었다.

한편, 2009년 Cinn 등^[15]이 비구개관낭의 치료로 조대술을 소개한 적이 있으나, 이전의 비구순낭에 대한 연구들처럼, 다량의 증례를 통해 조대술의 시간적, 경제적 효율과 안정성을 전적출술과 비교하여 고찰한 경우는 아니었다. 하지만 앞서 설

명한 바와 같이, 상악골에 생기는 낭종들은 그 기원, 위치에 차이가 있을 뿐이지 서로 별개의 병변이 아니라는 의견을 기초로 하였을 때 그 치료법이 크게 다르지 않다. 이처럼 비강저부의 융기부로 조대술이 시행 가능하다면, 비구개관낭에서도 충분히 만족할 만한 치료성적을 도출해 낼 수 있을 것으로 생각된다.

Acknowledgments

This research was supported by Bio-industry Technology Development Program (111100-03-1-SB010), Ministry for Food, Agriculture, Forestry and Fisheries, Republic of Korea.

REFERENCES

- Elliott KA, Franzese CB, Pitman KT. Diagnosis and surgical management of nasopalatine duct cysts. Laryngoscope 2004;114(8):1336-40.
- Swanson KS, Kaugars GE, Gunsolley JC. Nasopalatine duct cyst: an analysis of 334 cases. J Oral Maxillofac Surg 1991;49(3):268-71.
- Chung JY, Park SY, Son WR, Kim JM. A case of huge nasopalatine duct cyst with infection. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2008;51(1):946-9.
- Roper-Hall HT. Cysts of developmental origin in the premaxillary region, with special reference to their diagnosis. J Br Dent Assoc 1938;65:405-34.
- Gingell JC, Levy BA, DePaola LG. Median palatine cyst. J Oral Maxillofac Surg 1985;43(1):47-51.
- Zachariades N, Papanikolaou S. The median palatal cyst: does it exist? Report of three cases with oro-medical implications. J Oral Med 1984;39(3):173-6.
- Regezi JA, Courtney RM, Batsakis JG. The pathology of head and neck tumors: cysts of the jaws, part 12. Head Neck Surg 1981;4(1):48-57.
- Righini CA, Boubagra K, Bettega G, Verougstreate G, Reyt E. [Nasopalatine canal cyst: 4 cases and a review of the literature]. Ann Otolaryngol Chir Cervicofac 2004;121(2):115-9.
- David VC, O'Connell JE. Nasolabial cyst. Clin Otolaryngol Allied Sci 1986;11(1):5-8.
- Su CY, Chien CY, Hwang CF. A new transnasal approach to endoscopic marsupialization of the nasolabial cyst. Laryngoscope 1999;109(7 Pt 1):1116-8.
- 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.
- Lee JY, Baek BJ, Byun JY, Chang HS, Lee BD, Kim DW. Comparison of conventional excision via a sublabial approach and transnasal marsupialization for the treatment of nasolabial cysts: a prospective randomized study. Clin Exp Otorhinolaryngol 2009;2(2):85-9.
- Schott TR, Correll RW, Wescott WB. Well-defined radiolucent area involving the anterior maxilla. J Am Dent Assoc 1985;110(1):86-8.
- Takagi R, Ohashi Y, Suzuki M. Squamous cell carcinoma in the maxilla probably originating from a nasopalatine duct cyst: report of case. J Oral Maxillofac Surg 1996;54(1):112-5.
- Cinn YG, Park MK, Kang HJ, Lee HM. A case of endoscopic marsupialization of a nasopalatine duct cyst. J Rhinol 2009;16(2):152-4.