

A Case of Bronchogenic Cyst in the Retropharyngeal Space

Je Yeon Lee, Jung Yup Lee, Sung Min Jin and Sang Hyuk Lee

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kangbuk Samsung Hospital, Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

후인두강에 발생한 기관지 낭종 1예

이제연 · 이정엽 · 진성민 · 이상혁

성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 이비인후과학교실

Received April 18, 2012

Revised July 30, 2012

Accepted August 15, 2012

Address for correspondence

Sang Hyuk Lee, MD
Department of Otolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Kangbuk Samsung Hospital,
Sungkyunkwan University
School of Medicine,
29 Saemunan-ro, Jongno-gu,
Seoul 110-746, Korea
Tel +82-2-2001-1924
Fax +82-2-2001-2273
E-mail entlsh@hanmail.net

The bronchogenic cyst is an uncommon benign congenital anomaly of the primitive ventral foregut. They usually occur in the mediastinum and intrapulmonary regions. Localization in the cervical area is unusual and the majority of cases reported have been found in the pediatric population. Radiologically, it can not be differentiated from other cystic lesions. Therefore, it is pathologically confirmed only when there are bronchial tissues such as pseudostratified ciliated columnar epithelium, smooth muscle, mucous gland or cartilage. Since this cyst has potential for complication, a complete excision is mandatory. We recently experienced a case of retropharyngeal bronchogenic cyst presenting as a lump sensation in 32-year-old male. In this article, we reviewed the etiology, the diagnosis, and the treatment of this case with a review of the literatures.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2013;56:41-4

Key Words Bronchial neoplasm · Bronchogenic cyst · Oropharyngeal neoplasm.

서 론

경부에서 선천성 낭종은 비교적 흔히 발생하며 그 중 대부분은 갑상선관(thyroglossal duct)이나 새열(branchial cleft)에서 기원한 것이다. 기관지 낭종은 선천성 폐성 기형(congenital pulmonary anomalies)으로 기관, 기관지의 발생과정에서의 기관-기관지계의 비정상적인 발아(budding)와 연관이 있는 선천성 이상이다.¹⁻³⁾ 일반적으로 기관지 낭종은 종격동의 중간부분(middle compartment)에 기관과 기관지를 따라 위치하거나, 혹은 종격동 뒤의 식도 근처에서 자주 발생하지만 경부의 종괴로 나타나는 경우는 매우 드물다.³⁾ 기관지 낭종은 대개 젊은 연령층에서 무증상의 병변으로 나타나며 감별 진단해야 할 질환으로 갑상선관 낭종, 부갑상선의 낭종, 새열 낭종, 갑상선 유두상 암종의 낭성 변화, 기형종, 흉선 낭종, 신경성 종양, 표피성 봉입 낭종(epidermal inclusion cyst), 림프관종(cystic hy-

groma) 등이 있다.²⁾ 저자들은 후인두강에 발생한 기관지 낭종 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

32세 남자 환자가 내원 6개월 전 시작되어 지속되는 목의 이물감으로 타병원에서 후인두벽 부위의 종괴가 관찰되어 본원 이비인후과 외래에 방문하였다. 환자는 과거력상 특이병력은 없었으며 외상의 병력이나 호흡곤란, 연하곤란 등의 증상도 호소하지 않았다. 이학적 검사상 후인두로 돌출된 종괴가 관찰되었다. 그 종괴의 표면은 매끄러운 점막으로 덮여있었으며 홍색 유돌근 전방 피부 및 후두 내시경상 인두에 누공이 관찰되지는 않았다(Fig. 1). 신체 징후는 정상적이었으며 혈액검사상 백혈구 수치의 상승 이외 다른 수치들은 정상 범위 내에 있었다. 외래에서 후인두 농양, 석회화성 건초염 등 염증성 병변 의심

하에 경구 항생제 치료를 1주일간 시행하였으나 큰 호전을 보이지 않아서, 중물 내의 내용물을 흡인 후 세균배양 검사를 시행 하였다. 낭성 병변에서 약간 혼탁한 성상의 액체가 약 2 cc

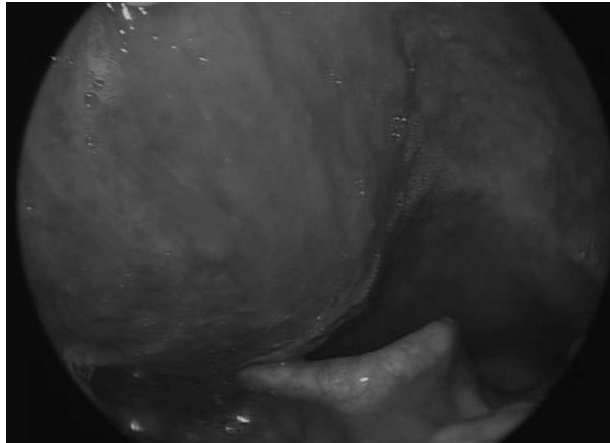


Fig. 1. Diffuse bulging of right posterior oropharyngeal wall in telescopy.

정도 흡인되었으며 세균배양 검사상 폐렴간균(*Klebsiella pneumoniae*)이 관찰되었다. 시행한 경부 전산화단층촬영영상 인두주위 간극이나 척추전 간극으로의 침범 없이 우측 후인두에 한정된 경계가 분명한 낭종성 병변이 관찰되었다(Fig. 2). 환자는 기관지 낭종, 새열 낭종, 기형종, 림프관종 혹은 기관계실(tracheal diverticulum) 의심하에 수술적 치료를 계획하였다.

수술은 전신마취하 경구강 접근법으로 후인두 벽에 수직 절개를 가한 후 낭종성 병변을 제거하였다(Fig. 3A). 비교적 주변구조물과 경계가 잘 지어지는 낭종성 병변으로 낭종 내부에서 혼탁한 액체 분비물이 관찰되었다. 수술 중 주변의 주요 신경이나 혈관 등은 노출되지 않았으며 주위 구조와의 유착이나 출혈 등 특이소견은 관찰되지 않았다. 조직병리검사 결과에서 낭종성 종괴는 호흡상피로 가중층 섬모원주상피로 구성된 만성적인 염증을 동반한 종괴로 기관지 낭종으로 진단되었다(Fig. 4). 환자는 수술 후 약 6개월이 지나는 동안 특별한 합병증 혹은 재발 없이 경과관찰 중에 있다(Fig. 3B).

Fig. 2. Axial CT scan demonstrates an ovoid hypodense cystic mass (arrow) in the right retropharyngeal space. Non-enhanced CT (A). Contrast-enhanced CT (B).

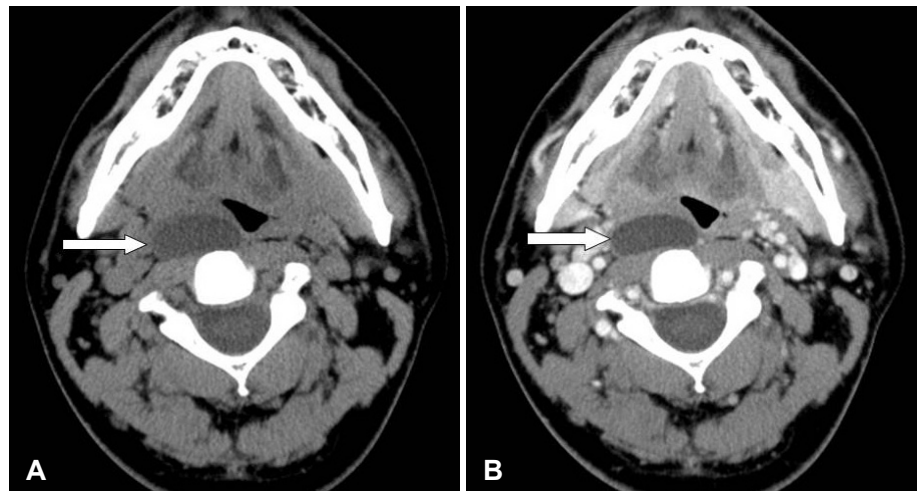
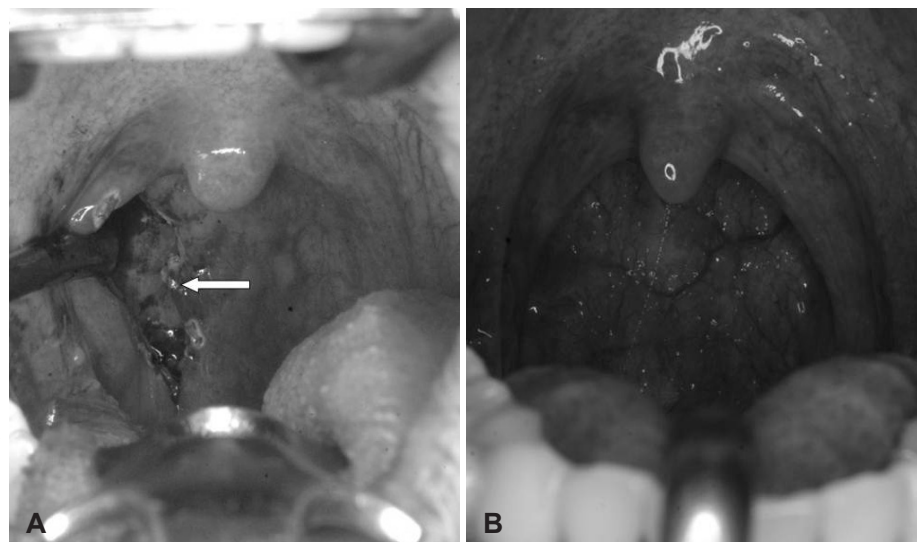


Fig. 3. Gross findings. Intraoperative finding shows surgical defect after mass removal (arrow)(A). Postoperative follow up finding shows well healed mucosa after 6 months postoperatively (B).



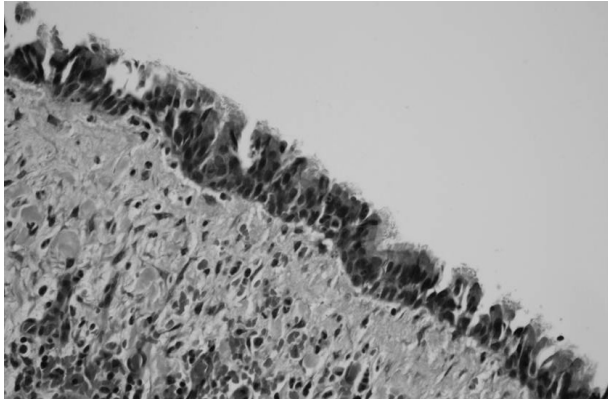


Fig. 4. Histopathological finding shows the epithelial lining composed of pseudo-stratified ciliated columnar respiratory epithelium (H&E, ×400).

고 찰

기관지 낭종은 드문 선천성 낭종성 질환으로 배아기 동안 기관지의 발생 이상으로 발생한다.⁴⁾ 임신 3주경부터 후두기관구(laryngotracheal groove)는 원시전장(primitive foregut)의 복측(ventral) 벽에서 기원하여 호흡기계의 기관형성(organo-genesis)을 한다. 이 시기에 기관지를 따라 발아(budding)하는 과정의 이상으로 기관지로부터 떨어져 나와 기관지 낭종이 발생하는 것으로 알려져 있다.⁵⁾

기관지 낭종은 발생 위치에 따라 흉곽 내 기관지 낭종과 흉곽 외 기관지 낭종으로 분류할 수 있으며, 대부분은 흉곽 내 기관지 낭종으로 나타난다. 흉곽 내 기관지 낭종은 주로 기관 분기부(carina) 주변의 중간종격이나 뒤종격(50%)에 위치하고, 그 외 기관주위(20%), 식도주위(15%), 심장 후방(10%) 등에도 발생할 수 있다. 대부분은 기관 분기부로부터 5 cm 이내의 거리에서 기관지기관지 분지(tracheobronchial tree)에 접하여 생긴다.⁶⁾ 반면에 흉곽 외 기관지 낭종은 흉곽 내 기관지 낭종에 비하여 드물게 관찰되며, 횡격막 하부와 경부에서도 기관지 낭종들이 발견된다. 횡격막 하부에서는 간 주위, 복막 뒤 공간, 복벽 등에서 낭종들이 관찰되었다고 보고된 바 있으며, 경부에서는 빗장뼈위(supraclavicular) 부위, 목혈관 신경집(carotid sheath)과 기관식도 고랑(tracheoesophageal groove) 사이, 목아래 패임(suprasternal notch) 부위, 갑상샘, 후인두 공간 등에서 관찰된다고 보고되었다.^{7,8)} 성인에서 발생한 기관지 낭종으로 국내에서는 인두주위, 갑상선, 부갑상선, 이하부, 전경부에서 발생한 보고가 있으며 후인두강에 발생한 1예가 영상의학과에서 보고되었다.⁹⁻¹³⁾

기관지 낭종은 주로 소아에서 발견되고 특히 성인에서의 기관지 낭종은 매우 드물고 증상이나 발생위치가 비특이적이므로 술 전 진단이 용이하지 않다. 경부에 발생하는 경우 갑상선

관 낭종, 부갑상선의 낭종, 새열 낭종, 갑상선 유두상 암종의 낭성 변화, 기형종, 흉선 낭종, 신경성 종양, 표피성 봉입 낭종, 림프관종 등과 감별해야 한다.²⁾ 영상학적인 검사상 흉곽 내 기관지 낭종의 대부분은 흉부 방사선 검사에서 경계가 명확하고 균일한 음영을 나타내며 일부에서 공기 액체음영을 보이기도 한다. 전산화단층촬영을 시행하면 정확한 병변의 위치확인 가능하지만 다른 낭종성 질환과의 감별은 불가능하다.¹⁴⁾ 기관지 낭종의 경우 다른 감별할 질환들과 달리 표면은 가중층 섬모원주세포(pseudostratified columnar epithelium)로 구성되어 있다. 또한 평활근(smooth muscle), 연골(cartilage), 점액을 분비하는 배상세포(goblet cell), 이영양성석회침착(dystrophic calcification)이 관찰될 수 있다.¹⁵⁾ 하지만 이 모든 조직병리학적 특징들이 진단에 필요한 것은 아니다.²⁾ 본 증례의 경우 그 위치상 새열 낭종의 가능성이 있었으나 최종 조직병리 소견상 가중층 섬모원주세포로 이루어진 호흡상피로 덮여 있는 피막조직이 관찰되었으며 새열 낭종에 특징적인 중층 편평상피, 림프구 및 림프조직이 관찰되지 않아 기관지 낭종으로 진단될 수 있었다.

기관지 낭종의 치료는 반복적인 흡인도 가능하나 재발할 확률이 높으며 드물지만 악성으로 변하는 경우도 있어 발생하는 위치에 따라 접근법은 다르지만 수술적 완전 절제가 원칙으로 알려져 있다. 조기절제는 수술적인 술기의 어려움 및 위험성을 줄이고 조직학적인 확인에 있어서 도움이 된다.¹⁾ 향후 후인두에 발생한 낭성 종양의 접근에 있어 혼하지 않으나 기관지 낭종의 가능성을 염두해야 할 것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) Newkirk KA, Tassler AB, Krowiak EJ, Deeb ZE. Bronchogenic cysts of the neck in adults. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2004;113(9):691-5.
- 2) Shimizu J, Kawaura Y, Tatsuzawa Y, Maeda K, Suzuki S. Cervical bronchogenic cyst that presented as a thyroid cyst. *Eur J Surg* 2000;166(8):659-61.
- 3) Barsotti P, Chatzimichalis A, Massard G, Wihlm JM. Cervical bronchogenic cyst mimicking thyroid adenoma. *Eur J Cardiothorac Surg* 1998;13(5):612-4.
- 4) Mehta RP, Faquin WC, Cunningham MJ. Cervical bronchogenic cysts: a consideration in the differential diagnosis of pediatric cervical cystic masses. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2004;68(5):563-8.
- 5) Al-kasspooles MF, Alberico RA, Douglas WG, Litwin AM, Wiseman SM, Rigual NR, et al. Bronchogenic cyst presenting as a symptomatic neck mass in an adult: case report and review of the literature. *Laryngoscope* 2004;114(12):2214-7.
- 6) Webb WR, Higgins CB. *Thoracic Imaging: Pulmonary and Cardiovascular Radiology*. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2005. p.253-5.
- 7) Rapado F, Bennett JD, Stringfellow JM. Bronchogenic cyst: an unusual cause of lump in the neck. *J Laryngol Otol* 1998;112(9):893-4.
- 8) Jacob JK, George S, Roy BR, Preethi S, Ranjith VT, Pappachan JM. Retropharyngeal bronchogenic cyst. *Otolaryngol Head Neck Surg*

- 2007;136(6):1025-6.
- 9) Chae SW, Choi G, Choi CS, Kim AR. Bronchogenic cyst presenting as an anterior neck mass. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2000;43(12):1372-4.
- 10) Lee JD, Koh YW, Lee SW, Kim HK. A case of cervical bronchogenic cyst presenting as a thyroid tumor. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2006;49(1):98-101.
- 11) Choi HS, Park JH, Kim HS, Lim JY. A bronchogenic cyst presenting as a parathyroidal mass. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2001;44(8):901-3.
- 12) Moon IH, Ko SW, Kim DR, Shin YH. A case of bronchogenic cyst presenting as a submental mass in the adult. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2005;48(4):529-31.
- 13) Kim YI, Ahn KJ, Kim JY, Hahn ST, Lee YS. Retropharyngeal bronchogenic cyst. J Korean Radiol Soc 2008;59(2):83-5.
- 14) Yerman HM, Holinger LD. Bronchogenic cyst with tracheal involvement. Ann Otol Rhinol Laryngol 1990;99(2 Pt 1):89-93.
- 15) Hadi UM, Jammal HN, Hamdan AL, Saad AM, Zaatari GS. Lateral cervical bronchogenic cyst: an unusual cause of a lump in the neck. Head Neck 2001;23(7):590-3.