

A Case of Cervical Thoracic Duct Cyst

Ki-Min Hong¹, Hyun-Gon Lim¹, Suk-Jin Choi², and Jeong-Seok Choi¹

¹Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, ²Anatomical Pathology, Inha University School of Medicine, Incheon, Korea

경부에 발생한 흉관낭종 1예

홍기민¹ · 임현곤¹ · 최석진² · 최정석¹

인하대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실,¹ 해부병리학교실²

Received May 26, 2015

Revised August 3, 2015

Accepted August 7, 2015

Address for correspondence

Jeong-Seok Choi, MD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Inha University School of Medicine,
27 Inhang-ro, Jung-gu, Incheon
22332, Korea

Tel +82-32-890-3570

Fax +82-32-890-3580

E-mail jschoi@inha.ac.kr

Thoracic duct cysts are very rare. They are usually asymptomatic but sometimes cause compressive effects on structures near them due to enlarged supraclavicular mass. The etiology of thoracic duct cysts is not fully understood, but the possibility of congenital weakness or atherosclerotic changes of ductal wall, trauma, and inflammatory reactions have been suggested. Although image studies are helpful, the excision of mass and the histological studies are needed for definite diagnosis. We now report this extremely rare case of cervical thoracic duct cyst in the left supraclavicular fossa, including its diagnostic methods and pathogenesis.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2015;58(11):806-9

Key Words Cysts · Neck · Thoracic duct.

서 론

흉관낭종(thoracic duct cyst)은 경부에 발생하는 매우 드문 질환이다. 임상적으로는 대부분 무증상이나, 커진 종괴가 식도나 기관 등 주변 장기를 압박하는 경우 기침, 호흡곤란, 가슴통증 등이 발생할 수 있다.¹⁾

명확하게 밝혀진 병인론은 없으나 흉관벽의 선천적 취약함, 죽상변화(atherosclerotic changes), 외상 및 염증 반응에 의한 변성이 원인으로 밝혀져 있다.¹⁾ 대부분의 경우, 종물에 의한 불쾌감을 없애고 진단을 위해 절제가 필요하나 환자가 호소하는 증세가 없는 경우 경과관찰을 할 수도 있다.²⁾

최근 저자들은 좌측 쇄골상부에 발생한 흉관낭종을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

경부 및 흉부에 외상의 소견이 없고 과거력상 특이소견 없는 40세 남자 환자가 좌측 쇄골상부에 발생한 종물로 내원하였

다. 신체 문진 검사상 좌측 쇄골상 와(supraclavicular fossa)에 직경 약 7 cm 크기의 난형의 가동성 종물이 발견되었다.

환자는 약간의 압통 이외에 특이 증세를 호소하지 않았다. 정기적 혈액 검사나 소변 검사에서 이상소견은 보이지 않았으나 시행한 경부 초음파 검사상, 좌측 쇄골상 와에 난형의 낭성 종물이 관찰되었으며, 진행 경로를 추적한 결과 종물이 좌측 쇄골하 정맥(subclavian vein), 내경 정맥(internal jugular vein)과 교통함을 보였다(Fig. 1). 경부 전산화단층촬영에서는, 좌측 흉쇄유돌근(sternocleidomastoid muscle)의 후측방, 전사각근(anterior scalenus muscle)의 전외측으로 조영 증강이 없는 직경 7.5 cm 크기의 균일 낭성 종물(homogenous cystic mass)이 관찰되었다(Fig. 2).

세침흡인생검상 상피세포 없이 정상 림프구가 발견되었으며 낭종액은 우유 빛 액체 양상을 보이며 성분 분석 검사상, 중성지방(triglyceride) 1761 mg/dL(정상치: 36~130 mg/dL) 소견을 보였다.

좌측 경부에 피부 주름 선을 따라 절개한 후 흉쇄유돌근을 전방으로 견인하자 내경 정맥과 쇄골하 정맥 사이로 가동성

이 있는 단발의 낭성 연성 종물이 노출되었으며 흉관 전방에 위치한 미주신경(vagus nerve)과 후방의 가로막 신경(phrenic nerve) 및 경횡동맥(transverse cervical artery)을 확인한 후 조심스럽게 연조직과 림프관들을 제거 후 종물 적출 후에 상하 흉관을 4-0 vicryl로 결찰하였다.

적출된 종물에 대한 병리조직 검사를 의뢰한 결과(Figs. 3 and 4), 낭종은 단방(unilocular) 양상을 보였으며 낭종의 막은 림프관종의 경우와 마찬가지로 단층의 림프관 내피세포로 구성된 내막으로 피복된 섬유결합조직에 의해 구성되어 있었다(Fig. 5). 병리조직 소견과 종물의 성분 검사 소견을 종합한 결과 경부 흉관낭종으로 진단하였다. 수술 후 환자는 합병증

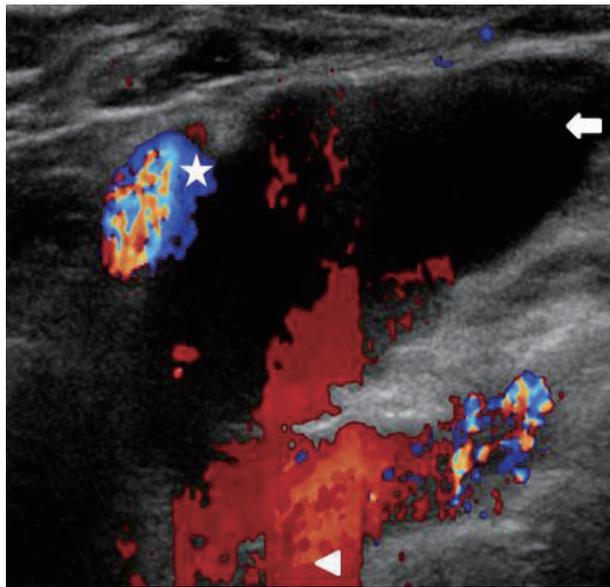


Fig. 1. A cystic mass (white arrow) at left supraclavicular fossa, communicating with the confluence of internal jugular vein (star)-subclavian vein (white arrowhead).



Fig. 2. Axial neck CT scan showing a well-defined homogeneous, non-enhancing cystic mass (white arrow) in the left supraclavicular region.

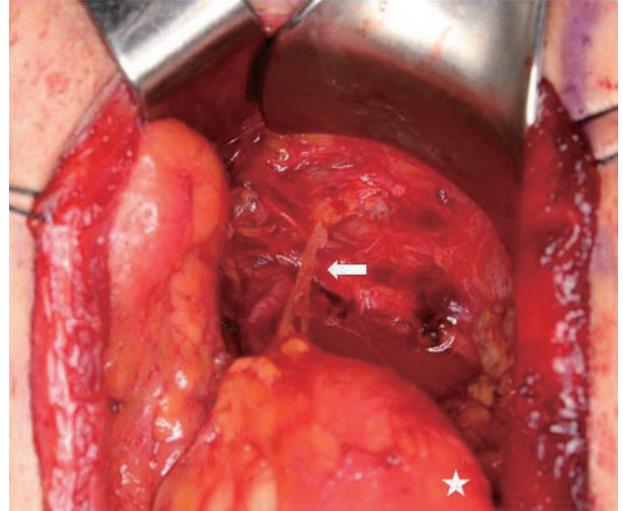


Fig. 3. A cystic mass (star) was detected which was connected to thoracic duct (white arrow).



Fig. 4. Gross finding of excised specimen shows a yellowish ovoid 7.5×4.5×3.5 cm sized cyst that contains milky fluid.

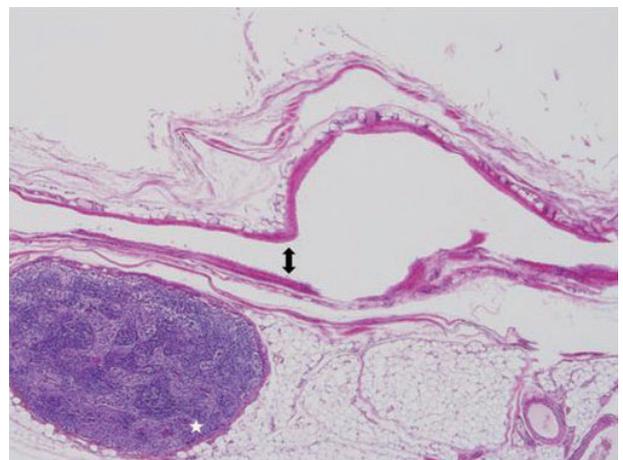


Fig. 5. Microscopic finding shows unilocular fibromuscular walled cystic mass lined by lymphatic endothelium (black arrows) with small lymphocytic aggregate (star) in subendothelial connective tissue (H&E stain, ×100).

없이 퇴원하였으며 수술 후 1년째 재발 없이 추적관찰 중이다.

고 찰

본 증례의 경우와 같이 약간의 통증 이외에 특이 증세를 호소하지 않는 환자가 좌측 쇄골상부의 종물을 주소로 내원한 경우, 경부에 발생할 수 있는 다양한 낭종들을 고려하여 조직학적 분석 및 낭종액의 성분 분석이 필요하며 환자의 수술력, 외상력, 연령 등을 고려하여 질환을 감별해야 한다. 다양한 원인으로 인해 흉관의 폐쇄에 의한 낭종이 발생할 수 있으나 적절한 진단 과정을 통한 낭종의 평가가 필요하다.

초음파 검사는 병변의 세침흡입 검사 시 이용되며 병변의 양성 특징을 밝히는 데도 도움을 준다. 흉관낭종은 CT로 관찰 시 매끄럽고 균일한 양성 종물로 보이며 MRI의 경우, 특히 T2 조영증강영상에서 해부학적 경계를 더욱 상세히 관찰할 수 있다.³⁾ 흉관낭종의 정확한 진단을 위해서는 무엇보다 병리조직 검사와 낭종액의 성분 분석이 필요하다. 병리조직 검사에서 낭종의 막은 단층의 내막과 섬유결합조직에 의해 구성되며 흡입액은 우유빛을 보이고 800~2000 mg/dL 정도의 높은 수치의 중성지방을 함유하고 중성구, 대식세포, 그리고 림프구가 관찰된다. 또한 수용성 조영제를 낭종 내로 주입하여 조영제가 낭종과 흉관을 지나 요추까지 도달하는 것을 확인하는 림프관 조영술이 사용되기도 한다.⁴⁾

흉관낭종과 감별해야 할 경부에 발생할 수 있는 낭종 질환으로는 낭립프관종(cystic hygroma), 갑상혀관낭(thyroglossal duct cyst), 새성낭(branchiogenic cyst) 등이 있다. 낭립프관종의 경우, 90% 이상이 선천적 혹은 2세 이전에 발생하며 낭종이 흉관낭종의 단방낭과는 다르게 다방(multilocular)낭의 양상을 보인다.^{5,6)} 또한 낭립프관종은 세침흡입 시 우유빛의 양상을 띠고 있으나 흡입액 성분 중 중성지방은 거의 없으며 적혈구나 림프구가 포함된 단백성 액을 보유한다. 흉관이 염증이나 외상에 의한 이차적 변화로 낭립프관종이 되는 병적 상태가 발생할 수도 있으나 이번 증례의 경우 경부의 외상이나 염증 소견은 없었으며 수술 시, 낭종이 주변 조직에 유착되거나 염증 세포들의 침윤소견은 보이지 않았기 때문에 배제되었다. 갑상혀관낭의 경우 편평상피와 거짓중층섬모상피로 내막이 형성되어 있고 새성낭의 경우 편평상피세포와 섬모원주상피세포로 내막이 구성되며 낭종액 내에 콜레스테롤 결정이 관찰된다.

발표된 문헌들이 많지 않지만 Brauchle 등⁷⁾이 문헌들을 검색하여 정리한 15명의 경부 흉관낭종 환자들에서 남성이 5명, 여성이 10명이었으며, 연령은 17세에서 63세까지 분포되었다. 15명의 환자들 중 흉관벽의 선천적 취약함에 의해 발생한 경

우가 4명, 염증 반응에 의한 변성에 의한 경우가 4명, 흉관폐쇄에 의한 경우와 외상에 의한 경우가 각각 2명, 그리고 원인 미상인 경우 또한 3명이 보고되었다. 이들 15명 중 대부분인 10명의 환자가 수술로 종물을 제거하였으며 2명은 경과 관찰, 2명은 낭종액 흡인 치료를 받았으나 이 중 1명은 결국 재발하여 수술적 치료를 받았다. 수술을 받지 않은 2명에서 재발이나 유해한 결과는 보고되지 않았다.

수술적 절제술 이외에도 Dool 등²⁾은 수술적 치료를 거부한 환자에게 전신마취 하에 낭종액 흡인 후 96% 에탄올 10 mL를 주입하였으며 1년간 3개월 단위로 경과관찰한 결과, 합병증이나 낭종의 재발 소견은 관찰되지 않았다고 하였다. 또한 Miwa 등⁸⁾은 OK-432(picibanil)를 이용한 경화요법 치료를 시행하였으며 낭종의 크기는 수일 후 감소하였고 수술 부위의 국소적 통증 및 발열을 제외한 특이한 합병증 없이 1년간 2개월마다 경과 관찰한 결과 재발 소견은 보이지 않았다고 하였다. 이렇게 경화요법은 수술 흉터 발생 등을 이유로 수술적 치료를 거부하는 흉관낭종 환자들에게 있어 합병증 없는 효과적인 치료법으로 대두되고 있다.

흉관낭종은 매우 드문 질환이지만 환자가 좌측 쇄골상부에 종물을 호소한다면 반드시 감별해야 하는 질환 중 하나이다. 본 증례와 같이 환자가 종물에 의한 통증이나 압박 증세를 호소하는 경우 외상성 파열이나 염증을 예방하기 위해 절제가 필요하나 증세가 없는 경우 경과관찰을 할 수도 있다.¹⁾

저자들마다 차이는 있으나 대부분 환자들은 수술 후 2, 3개월마다 약 1년간 경과관찰되었으며 항염증제 복용 후 수일 후 완화된 수술 부위 통증과 같은 경미한 초기 합병증 이외에 재발이나 무증세 환자에서 악성화로의 변화는 보고되지 않았다.^{9,10)} 아직까지 재발이나 합병증에 대한 대규모 후향적 연구는 발표되지 않아 이에 대한 대규모, 장기적인 연구가 필요할 것으로 보이는 바이다.

Acknowledgments

This research was supported by an Inha University research grant.

REFERENCES

- 1) Wax MK, Treloar ME. Thoracic duct cyst: an unusual supraclavicular mass. *Head Neck* 1992;14(6):502-5.
- 2) Dool JJ, de Bree R, van den Berg R, Leemans CR. Thoracic duct cyst: sclerotherapy as alternative for surgical treatment. *Head Neck* 2007; 29(3):292-5.
- 3) Lamers RJ, van Belle AF. Thoracic duct cyst in the middle part of the mediastinum. *AJR Am J Roentgenol* 1993;161(3):675.
- 4) Kolbenstvedt A, Aanesen J. Cystic dilatation of the thoracic duct presenting as a supraclavicular mass. *Br J Radiol* 1986;59(708): 1228-9.
- 5) Myers LL, Pena MT, Sudesh R, Toledo R, Wax MK. Unilocular cervical lymphatic cyst in an adult. *Am J Otolaryngol* 2000;21(6): 412-5.

- 6) Willis RA. Pathology of Tumours. 3rd ed. London: Butterworths;1960. p.714-6.
- 7) Brauchle RW, Risin SA, Ghorbani RP, Pereira KD. Cervical thoracic duct cysts: a case report and review of the literature. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2003;129(5):581-3.
- 8) Miwa T, Tatsutomi S, Tsukatani T, Ito M, Furukawa M. OK-432 therapy for a cervical thoracic duct cyst. Otolaryngol Head Neck Surg 2007;136(5):852-3.
- 9) Maruyama M, Kobayashi S, Kasuga Y, Fujimori M, Yokoyama S, Shingu K, et al. Thoracic duct cyst in supraclavicular region. Ulster Med J 1997;66(2):140-3.
- 10) Lecanu JB, Gallas D, Biacabe B, Bonfils P. Lymphocele of the thoracic duct presenting as a left supraclavicular mass: a case report and review of the literature. Auris Nasus Larynx 2001;28(3):275-7.