

어깨의 피하조직에 발생한 기관지기원낭 - 1예 보고 -

송지선 · 오화은 · 이상엽 · 박노혁¹
김호영²

관동대학교 의과대학 병리학교실
¹영상의학교실
²연세대학교 원주의과대학 내과학교실

접 수 : 2005년 10월 10일
게재승인 : 2005년 12월 19일

책임저자 : 송 지 선
우 420-270 경기도 고양시 덕양구 화정동
697-24
관동의대 명지병원 병리과
전화: 031-810-7102
Fax: 031-810-7109
E-mail: jssong@kwandong.ac.kr

Subcutaneous Bronchogenic Cyst of the Shoulder - A Case Report -

Ji Sun Song, Hwa Eun Oh, Sang Yeop Yi, Noh Hyuck Park¹ and Ho Young Kim²

Departments of Pathology and ¹Radiology, Kwandong University College of Medicine, Goyang;
Department of ²Internal Medicine, Wonju College of Medicine, Yonsei University, Wonju, Korea

Bronchogenic cyst is an uncommon congenital anomaly that arises from maldevelopment of the primitive foregut, and is usually found in the lung and mediastinum. Cutaneous or subcutaneous bronchogenic cysts are rare, and occur especially in the shoulder region. We report here on a 40-year-old woman with a soft, nontender, cystic mass on the upper posterior aspect of the right acromioclavicular joint; this had been recognized about 20 years before. She underwent incision and drainage of the lesion at a local clinic about 1 year ago, but the wound was not healed. MRI showed an irregular-shaped dark signal intensity lesion that measured 2 × 1.5 cm in the subcutaneous fat layer. Microscopically, the cyst was lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium that displayed squamous metaplasia. The cyst wall revealed frequent smooth muscle bundles, occasional seromucous glands and multifocal lymphocytic infiltration. This is the first reported case of subcutaneous bronchogenic cyst of the shoulder in a Korean adult.

Key Words : Bronchogenic cyst; Adipose tissue; Shoulder

기관지기원낭은 원시 앞창자의 발생학적 이상에 의해 형성되는 드문 질환이다.¹ 대부분 폐실질과 종격동에서 발생하고 피부나 피하조직에서는 드물게 발견된다. 피부 또는 피하조직에 발생한 기관지기원낭은 현재까지 영어 문헌에 67예만 보고되었고,^{2,3} 주로 흉골 주변부와 경부에서 발생한다.² 이 중 견갑골 또는 어깨 부위에 발생한 것은 12예에 불과하며,^{2,3} 국내 문헌에는 1예만 보고되어 있다.⁴ 남성은 여성보다 발생빈도가 세 배 정도 높고, 유년기에 쉽게 발견되어 절제한다.² 그러나 저자들은 40세 중년 여성의 우측 어깨 부위에서 20년 이상 지속되었고, 약 1년간 절개배농을 하였으나 치료되지 않는 낭성 종괴로 발견된 기관지기원낭 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례보고

40세 여자 환자가 20여 년 전에 알게 된 우측 견관절 주위의 압통이 없는 약 7 cm 크기의 낭성 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 약 1년 전 개인 의원을 방문하여 시행한 절개배농에서

화농성 액체가 나왔다. 검사실에서 검사한 결과 그람 양성 균주에 양성, 그람 음성 균주에는 음성 반응을 보였으며, B형 간염 보균자인 것 외에 다른 일반적인 혈액 검사는 정상이었다. 항생제를 투여하고 드레싱하였으나 분비물이 계속 나왔고, X-선 촬영에서 관절강과 연결된 통로가 없어 계속 드레싱하면서 경과를 관찰하였다. 그러나 호전이 없어 임상적으로 피하조직 내 결핵을 의심하고 6개월간 항결핵제를 사용하였다. 그러나 분비물이 간헐적으로 흘러나왔고 2개월 전 재차 소파술을 시행한 후 압박드레싱을 하였다. 그러나 별 효과가 없어 본원으로 전원되었다.

내원 당시 환자는 상기 병변 외에 다른 증상은 없었고, MRI 상 우측 봉우리빗장관절의 후상방 피하지방조직 내에 2×1.5 cm 크기의 저신호강도를 보이는 공동성 병변이 있었다. 공동성 병변은 피부조직까지 연장되어 있었으나 이전의 절개배농으로 인해 생긴 배출구일 가능성을 배제할 수 없었다(Fig. 1). 임상적으로 윤활낭염 의진하에 전신마취 후 절제술을 시행하였다. 수술 소견상 우측 어깨의 피하조직 내에 불규칙한 모양의 낭성 종괴가 심부로부터 혈관을 충분히 공급받고 있었으나 심부 조직이나 관절강과 연결되지는 않았고, 주변에 염증성 변화가 관찰되었다.

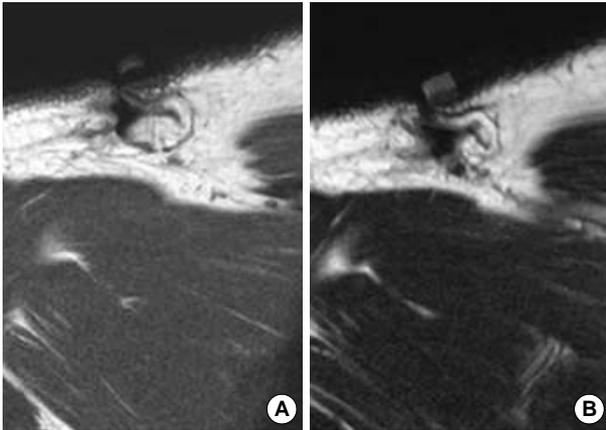


Fig. 1. (A) T1WI coronal image of the right shoulder shows a dark signal intensity lesion with irregular shape in the subcutaneous fat layer. (B) T2WI coronal image at the same level shows a dark signal intensity lesion similar to the finding of T1WI. The lesion extends to the skin.

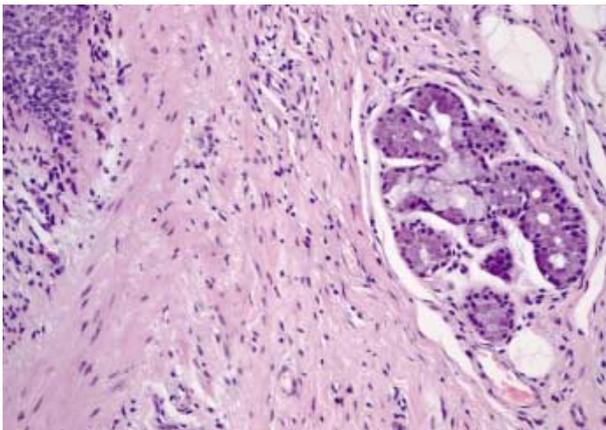


Fig. 3. The cyst wall shows subepithelial smooth muscle bundles (left) and seromucous glands (right) over the subcutaneous fat tissue.

육안 검사 결과, 낭을 포함하여 절제된 검체는 $3.7 \times 2.5 \times 2$ cm 크기로 피하지방조직에 둘러싸여 있었으며, 절단면상 낭의 크기는 장경 2 cm였고 모양이 불규칙했다. 낭의 내피는 거짓중층섬모원주상피로 피복되었고, 많은 부분이 편평세포로 화생되어 있었으나 세포의 이형성이나 악성 변화는 없었다(Fig. 2). 낭 벽에서는 다수의 평활근 다발과 장점액샘 또는 장점액샘이 관찰되어(Fig. 3) 기관지기원낭의 소견에 합당하였고, 여러 군데에 림프구의 침윤이 있었으며 연골 조직은 관찰되지 않았다.

고 찰

발생학적으로 발생 7주경에 원시 앞창자가 등쪽 식도와 배쪽 기관으로 분기된다. 이 시기에 원시 기관에 비정상적인 발아 혹

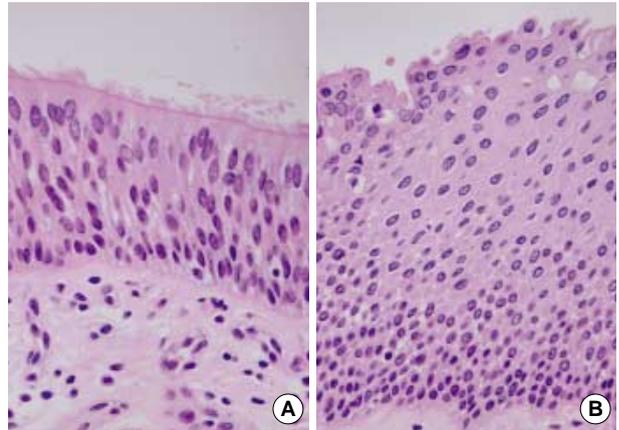


Fig. 2. (A) The cyst is lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium. (B) There is metaplastic stratified squamous epithelium with remained surface ciliated cells.

은 이상 분지로 기관지기원낭이 발생할 수 있다. 이들은 처음에는 발생부위와 연결통로를 가지나, 이는 그 조직에 공급되는 혈액의 양을 초과하여 자라면서 퇴행된다.¹ 이렇게 연결이 끊어진 기관지기원낭은 원위부로 이동이 가능해지며 폐 이외의 부위에서 발견될 수 있다. 발생 3개월경에 양측 연골판의 융합에 의해 흉골이 형성되므로 이 시기에 기관지기원낭이 폐실질로부터 고립될 수 있다. 따라서 피부나 피하조직의 기관지기원낭은 목아래폐임이나 흉골 전벽 등 흉골 주변부에서 가장 흔히 발견되며, 견갑골이나 어깨 부위에 발생하는 기관지기원낭은 견갑골 발생 시기보다 일찍 폐실질에서 분리되어 나온 다음 견갑골이 형성된 후에 고립되었을 것으로 여겨진다.

피부나 피하층의 기관지기원낭은 주로 어린 나이에 발견되어 일찍 절제하는 경우가 많아 현재까지 영어 문헌에 보고된 67예 중 단 1예만이 27세의 성인에게서 발견되었다.⁵ 국내 문헌에 보고된 견갑골의 피하층 기관지기원낭 1예 역시 5세 남아에게서 절제한 것이며, 국내 성인에게서 발견된 견갑골이나 어깨 부위의 피하조직 내 기관지기원낭은 아직 보고된 바 없었다. 이 증례에서 절제 당시 환자의 나이는 40세이었으며 20여 년 전에 종괴를 인식하였고, 약 1년 전부터 종괴 내에서 분비물이 흘러나와 절개 배농을 하였으나 치료되지 않아 절제술을 시행하였다.

현미경으로 살펴보면 기관지기원낭의 벽은 기관이나 기관지에 정상적으로 존재하는 조직을 한 가지 이상 포함하는데, 거짓중층섬모원주상피로 피복되어 있는 것이 특징이고 때때로 술잔세포가 관찰된다. 그 외에 평활근, 장점액샘, 연골 등이 관찰될 수 있다. 정상적인 기관이나 기관지는 말단부로 갈수록 이러한 조직이 감소되거나 사라지므로, 낭의 이러한 성분은 원시 기관지에서 발아되어 나온 곳의 위치에 따라 달라질 수 있다.

본 예에서는 평활근 다발과 장점액샘은 관찰되었으나 연골은 관찰되지 않았다. 본례의 피복상피는 거짓중층섬모원주상피 외에 많은 부분이 편평세포로 대체되어 있었는데, 이는 수십 년간 병변이 지속된 데다 1년 전 절개배농 후에 자극이 가중되어 많

은 부분이 화생되었기 때문인 것으로 생각된다. 더구나 낭 벽과 상피세포 내에 림프구와 같은 만성 염증세포의 침윤이 여러 군데 있는 점은 이러한 상태를 뒷받침하는 소견으로 생각된다.

감별해야 할 진단으로는 피부 섬모 낭종, 아가미틈새낭종, 갑상혀관낭종, 표피낭, 성숙 기형종 등이 있다. 피부 섬모 낭종은 섬모상피세포로 피복되어 있지만 유두상 융기를 보여 난관의 상피와 비슷하고 평활근, 장점액샘을 동반하지 않으며 발생 위치도 하지를 포함하는 하반신에 주로 발생하는 점이 다르다. 아가미틈새낭종은 편평세포 또는 위중층섬모원주상피로 피복되어 있고 림프소절이 동반되어 있는 점은 본례와 유사하나, 역시 평활근, 장점액샘을 동반하지 않으며 주로 경부의 전측부에 자주 발생하므로 감별할 수 있다. 갑상혀관낭종도 호흡상피를 포함할 수 있으나 갑상샘소포가 관찰되는 특징이 있고, 평활근, 장점액샘은 존재하지 않으며 경부의 정중선에서 발생하므로 감별할 수 있다. 표피낭은 피부와 피하층에서 흔히 볼 수 있는 병변으로 각화성 편평세포로 피복되어 있고 쉽게 염증을 동반하나 장점액선은 포함하고 있지 않다. 피하층에 발생하는 성숙 기형종과도 감별해야 한다. 성숙 기형종은 기관지 조직을 포함할 수 있으나 내배엽 기원의 다른 조직 또는 중배엽이나 외배엽 기원의 조직 성분을 동반한다.⁷ 단배엽성 기형종은 주로 생식기관에 국한되므로, 잘 기질화된 정상 기관지 벽을 완전히 닮은 조직학적 특징으로 기관지기원낭을 진단할 수 있다.

기관지기원낭의 치료는 증상이 있는 경우는 물론 없는 경우에도 감염의 위험성 및 드물게는 악성 변화의 가능성도 있으므로 외과적 완전 절제가 원칙이다. 본례에서도 환자는 오랫동안 아무런 증상이 없이 지내왔으나 결국 감염에 노출되어 합병증이 발생하였다. Tanita 등⁶은 견갑골 부위의 피부 기관지기원낭에서 유래한 악성흑색종을 보고하였고, Sullivan 등⁷은 복막뒤공간 기관지기원낭에서 발생한 샘암종을 보고하였다. 또한 피하층 이외의 부위에 발생한 경우 신체 주요기관 등 주위 조직의 압박

가능성도 있어 반드시 절제해야 한다.

기관지기원낭은 비교적 드문 선천성 이상으로 폐와 종격동에서 주로 발생하고, 피하층에 발생한 경우는 매우 드물기 때문에 임상적으로 잘 인식되어 있지 않다. 대부분 출생 당시부터 유년기 사이에 발견할 수 있지만 보통 특별한 증상이 없거나 천천히 자라는 종괴이므로 간과할 수 있다. 따라서 기관지기원낭은 피부나 피하조직의 낭성 종괴의 감별진단에 반드시 포함시켜 완전 절제해야 할 것이다.

참고문헌

1. Park SH, Chi JG. Congenital bronchopulmonary foregut malformation: analysis of the surgical and autopsy cases. *Korean J Pathol* 1993; 27: 459-67.
2. Matsuda K, Hikita H, Ito N, Uehara T, Hosokawa K. Bronchogenic cyst of the shoulder. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg* 2004; 38: 365-9.
3. Das K, Jackson PB, D'Cruz AJ. Periscapular bronchogenic cyst. *Indian J Pediatr* 2003; 70: 181-2.
4. Lee YJ, Ahn DK, Yu HJ, Lee WM, Park YW. A clinical experience of subcutaneous bronchogenic cyst. *J Korean Soc Plast Reconstr Surg* 2001; 28: 175-8.
5. Fraga S, Helwig EB, Rosen SH. Bronchogenic cysts in the skin and subcutaneous tissue. *Am J Clin Pathol* 1971; 56: 230-8.
6. Tanita M, Kikuchi-Numagami K, Ogoshi K, et al. Malignant melanoma arising from cutaneous bronchogenic cyst of the scapular area. *J Am Acad Dermatol* 2002; 46: S19-21.
7. Sullivan SM, Okada S, Kudo M, Ebihara Y. A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. *Pathol Int* 1999; 49: 338-41.