

조대술을 시행한 하마종의 치료

나혜진¹ · 이제호² · 김성오² · 송제선² · 김승혜² · 최형준² · 최병재²

연세대학교 치과대학 ¹소아치과학교실, ²소아치과학교실 및 구강과학연구소

국문초록

하마종은 구강저에 발생하는 점액 낭종으로 타액선 분비도관의 파열로 인하여 점액이 연조직 내에 저류되어 생기는 가성 낭종이다. 구강저의 설소대를 중심으로 편측으로 발생하며 무통성이고, 병소의 크기가 증가함에 따라 피막이 얇아져서 청색의 투명한 종창이 되는 것이 특징이다. 병소의 크기가 큰 경우에는 연하 및 발음, 저작시 문제를 야기할 수 있지만 외부로 종창이 생기거나 감염되는 것은 드물다.

하마종의 치료법으로는 자발적으로 치유되는 것을 관찰하는 방법, 단순 절개 배농, 조대술, 절제술 등이 있다. 치료법 중 하나인 조대술은 낭벽의 일부분을 제거하여 구강 점막과 연결시켜주는 술식으로 보존적이며 소아에서 추천되는 방법으로 구강 내 조직의 외형을 원형대로 유지할 수 있고, 해부학적 구조물을 손상시킬 위험성이 적은 장점을 가진다. 치료 후에 자주 재발될 수 있으며, 술 후 4개월 이내에 일어난다.

이 증례는 하마종을 주소로 내원한 8세 여아에서 조대술을 시행하고 관찰하였으며 재발소견 없이 정상적인 소견을 보인바 보고하는 바이다.

주요어: 하마종, 재발, 조대술

I. 서 론

하마종은 구강저에 발생하는 점액 낭종으로 타액선 분비도관의 파열로 인하여 점액이 연조직 내에 저류되어 생기는 가성 낭종이다. 보통 설하선에서 발생하며, 악하선이나 구강저의 소타액선에서는 드물다¹⁾. 하마종은 라틴어 ranula pipiens에서 유래되었으며, 액체로 채워진 가성 낭종에 의해 혀가 거상되면 개구리의 혀와 구강저의 모습과 비슷하다²⁾.

하마종은 임상적으로 둥근 지붕 형태의 투명한 종창을 보이고, 주로 구강저의 설소대를 중심으로 편측으로 발생한다. 병소의 크기가 증가하면 피막이 얇아져 청색의 투명한 종창이 되는 것이 특징이다. 크기는 1-4 cm까지 다양하게 나타나고 병소의 크기가 큰 경우에는 혀를 거상시키며 연하 및 발음, 저작시 문제를 야기할 수 있다. 외부로 종창이 생기거나 감염되는 것은 드물고 저절로 파열되면 점액을 분비하기도 하지만 재형성될 수 있다^{1,3-6)}.

하마종은 이환 범위에 따라 단순 하마종(simple ranula)과 물입성 하마종(plunging ranula)으로, 발생학적으로는 삼출형(mucous extravasation cyst)과 잔류 낭종형(mucous retention cyst)으로 분류된다.

단순 하마종은 구강 내에 국한되어 구강저에서 발생하고 표재성, 돌출형의 특징을 보이며 대부분 이에 해당된다. 물입성 하마종은 설하선 도관에서 유래한 점액 삼출형으로 악설골근을 통해 경부까지 확산된 것으로 다수의 경우에 이전에 치료되었던 하마종이 재발되어서 물입성 하마종으로 이환되는 것으로 보고되었다^{3,6,7)}. 이렇게 경부로 확산되는 이유는 악설골근 높이에서 측인두간극에 설하간극과 악하간극을 분리해주는 근막이 존재하지 않기 때문이다. 물입성 하마종이 구강내 병소 없이 경부의 부종만 보인 증례도 보고된 바 있다⁸⁾.

삼출형은 타액선 분비도관이 천공되어 점액이 주위 연조직에 저류됨으로써 발생하며, 조직학적으로 병소의 내벽이 압축된 결합조직으로 이장되어 있는 가성 낭종을 관찰할 수 있다. 잔류

교신저자 : 최 병 재

서울특별시 서대문구 신촌동 134 / 연세대학교 치과대학 소아치과학교실 및 구강과학연구소 / 02-2228-8800 / bjchoi@yuhs.ac

원고접수일: 2010년 11월 20일 / 원고최종수정일: 2011년 01월 05일 / 원고채택일: 2011년 01월 10일

낭종형은 타액선 분비도관이 폐색되어 타액도관이 확장됨으로써 발생한다. 도관 폐색에 의한 진성 낭종인 경우 조직학적으로 병소의 내벽은 상피세포의 이장이 나타나며 그 빈도는 매우 낮은 것으로 보고된다^{3,9)}.

병리조직학적 소견으로는 결합조직 내 와동이 형성되지만, 대부분 낭벽은 상피세포로 피복되어 있지 않고 압축된 결합조직과 육아조직으로 구성된 가성 낭종을 보인다. 도관폐색에 의한 진성 낭종인 경우에는 상피세포로 피복되어 있고 점액종과 비슷하게 점액이 흘러져 있다^{3,5)}.

하마종은 다양한 방법으로 치료할 수 있으나 가장 적합한 치료법은 확립되지 않았다⁷⁾. 하마종은 자발적으로 치유되는 것을 관찰하거나 단순 절개 배농, 조대술, 절제술 등의 다양한 방법으로 치료할 수 있으나 치료 후에도 다수의 환자에서 재발되며 때때로 병소가 더 커질 수 있다^{3,9-11)}.

이 증례는 하마종으로 진단된 환자의 임상적 양상 및 처치에 대한 보고로 양호한 결과를 얻었기에 이를 보고하는 바이다.

II. 증례 보고

8세 여아가 하악 우측 구강저의 종창을 주소로 치과대학병원 소아치과에 내원하였다. 종창을 인지한 것은 5일 전이었으며, 1.2 cm 크기로 푸른색을 띄고, 무통성이었다(Fig. 1). 방사선

사진상 특이한 소견은 보이지 않았고 특이한 치과 병력이나 의과 병력은 없었다(Fig. 2).

구강저에 편측으로 발생하였고 무통성이며 청색의 투명한 종창을 보이는 등 하마종의 특징적인 양상을 보였고, 방사선 사진상 특이한 소견이 발견되지 않았으며, 음식 섭취시 동통이 없는 점으로 다른 낭종이나 타액선염의 가능성은 배제할 수 있었다. 하마종으로 임상적 진단 후 조대술을 시행하기로 계획하였다. 병소 주변을 침윤마취 한 후 수술용 표지 마커로 피개 점막의 경계를 표시하고(Fig. 3) 절개를 시행하여 지붕을 제거하였으며 병소를 최대한 크게 개방시켰다(Fig. 4). 절개를 가할 때 병소 내의 낭종액이 유출되면 경계가 불분명해지므로 수술용 표지 마커를 사용하였다. 낭종 내부를 세척하고 구강저 점막과 낭종 내벽을 흡수성 봉합사인 4-0 Vicryl(Johnson & Johnson intl)를 사용하여 봉합하였다(Fig. 5). 술 후 1주일에 발사하였고(Fig. 6) 재발 가능성 및 정기 검진의 필요성에 대해 설명하였다.

병리조직학적 검사에서 낭벽 상피세포의 부재와 점액을 확인할 수 있었으며, 하마종임을 확진하였다(Fig. 7). 4개월까지의 정기 검진에서 수술 부위에 약간의 반흔만 형성되어 있었고 재발되지 않았으며(Fig. 8), 22개월 정기 검진까지 재발 소견은 보이지 않고 있다.



Fig. 1. Intraoral view of first visit.



Fig. 2. Radiographic view of first visit.

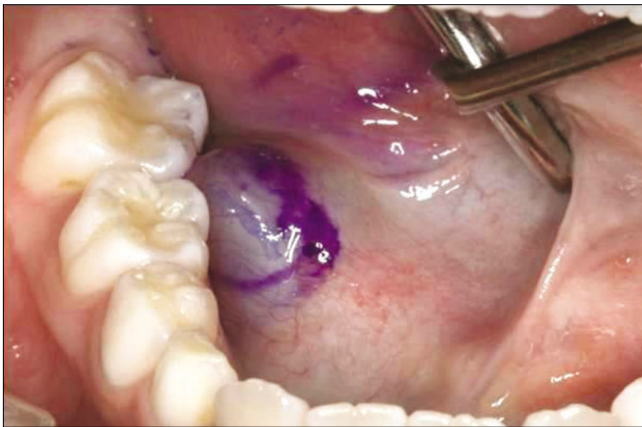


Fig. 3. Marsupialization procedure : marking overlying mucosa with a surgical marker.

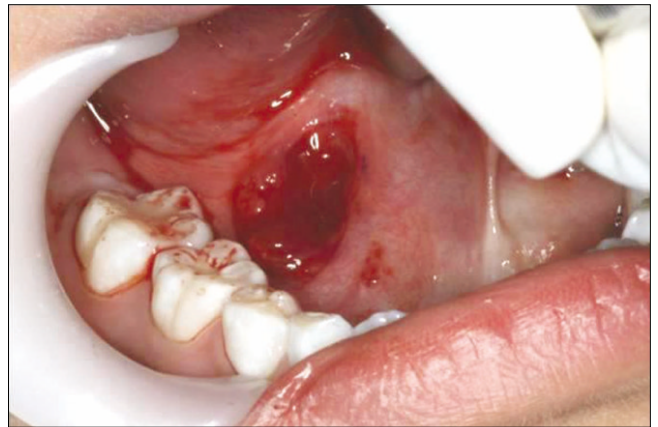


Fig. 4. Marsupialization procedure : removal of roof.



Fig. 5. Marsupialization procedure : suture with vicryl.



Fig. 6. Intraoral view of 1week after marsupialization. a. before stitch-out, b. after stitch-out.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

하마중은 설하선 도관의 파열이나 폐쇄에 의해 발생한다. 유아에서 보이는 하마중은 선천적이며, 구강저의 설하선 또는 악하선의 폐쇄와 연관된 경우가 많고, 좀 더 연령이 높은 어린이

나 10대에 나타나는 것은 대부분 외상에 의한 것이다^{2,12)}. 유병률은 10,000명 당 2명의 비율로 발생하며⁹⁾, 어린 나이에 더 자주 발생한다. Chidzonga와 Mahomva¹⁰⁾는 하마중의 73.5%가 0세에서 10세 사이에, 12%가 11세에서 20세 사이에 발생함을 보고하였다.

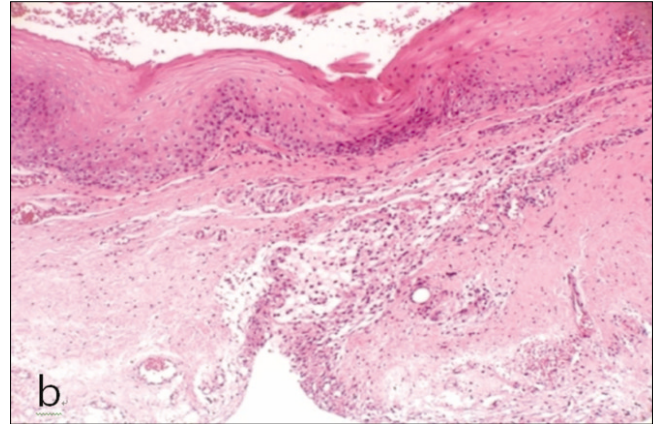
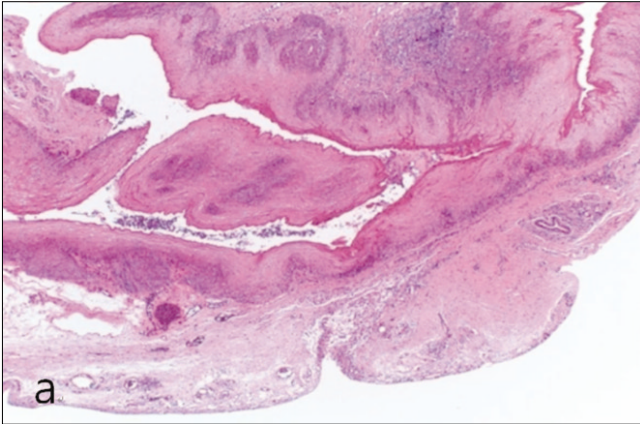


Fig. 7. Histologic features. a. H&E. × 100, b. H&E. × 200.



Fig. 8. Intraoral view of 4 months after marsupialization.

하마종은 발생한 위치와 임상적 형태를 바탕으로 쉽게 진단 내릴 수 있으나 구강내 병소 없이 경부 종창을 보일 시에는 갑상선관 낭종이나 유피 낭종, 낭포성 히그로마, 양성 기형종 등과 감별진단이 필요하다⁹⁾. 진단이 의심스러울 때에는, 병소에서 점액을 흡인하는 것이 도움이 될 수 있다^{6,9)}. 구강내 병소의 경우는 혈관종이나 악하선관의 폐쇄로 야기된 타액선염 등의 병소와 감별진단이 필요하다. 혈관종은 맥박을 보이며 단단하지 않고 지압에 의해 팽창되는 특징을 보이며 악하선관의 폐쇄로 인한 타액선염이나 도관확장은 음식 섭취 등의 타액분비 자극 시 진행성의 동통이 나타난다.

하마종의 치료 방법으로는 비외과적 또는 외과적 방법이 있으며 외과적 방법이 더 선호된다. 비외과적 방법으로 자발적으로 치유되는 것을 위해 5-6개월 관찰하는 방법이 추천되기도 한다. Steelman 등¹³⁾은 외과 술식 없이 5주 후 자연 소실된 선천성 하마종의 증례를 보고하였다. Zhi 등¹⁴⁾은 특히 영아의 하마종에서 6개월간의 관찰 기간을 가질 것을 추천하였다. 하지만 Seo 등⁷⁾에 의하면 3-14개월(평균 6개월)의 관찰 기간 동안 자발적으로 치유된 것은 없었으며, 오히려 크기가 증가한 증례

또한 보고되었다. 자발적으로 치유되는 것을 위한 관찰은 환자의 재내원이 제대로 이루어지지 않는 상황에서는 추천되지 않고 외과적 방법 중, 단순 절개와 배농은 거의 모든 증례에서 재발이 발생되어서 추천되지 않는다^{3,6,11)}.

조대술은 낭벽의 일부분을 제거하여 구강 점막과 연결시켜주는 술식으로 보존적이며 소아에서 추천되는 방법으로 구강내 조직의 외형을 원형대로 유지하고, 해부학적 구조물을 손상시킬 위험성이 적은 장점을 가진다. 반면, 혀가 기능하는 동안의 움직임으로 인해 구강점막과 연결시켜 놓은 와동을 유지하기 어렵다는 단점이 있으며 재발될 수 있다^{2,4,15-19)}. 이는 구강저의 좁은 공간에서 혀의 움직임으로 인해 병소의 경계 부위가 서로 접촉하게 되면서 병소가 재형성되기 때문이다²⁰⁾. 재발은 보통 6-8주 이내, 대부분의 경우 4개월 이내에 발생한다¹⁵⁾. 따라서 하마종의 재발을 줄이기 위해 조대술시 가능한 병적 소견을 나타내는 병소의 내벽을 많이 절제하여 설하선까지의 접근로를 확보하는 것이 중요하며, 변형된 조대술을 시행할 수도 있다³⁾. 변형된 조대술로는 gauze-packing을 동반하는 방법과 un-roofing 전에 가성냥의 끝을 4-0 silk로 봉합하는 방법 등이 있고, Patel 등¹⁷⁾에 의하면 단순 조대술이나 변형된 조대술 후 재발률은 20%였다.

하마종의 치료 중 재발률이 가장 낮은 치료법은 설하선 등을 포함한 절제술이다^{15-18,21,22)}. 하지만 절제술은 설신경에 손상을 주어 감각이상을 가져올 수 있으며, Wharton's duct에 손상을 줄 수 있다^{15,22)}. 또한 물입성 하마종의 경우 경부로 접근했을 때 목에 흉터가 남는 심미적인 합병증도 발생할 수 있다²³⁾. 특히 소아는 성인과 비교하여 수술이 더 어려운데 이는 크기가 더 작으며, 벽이 얇고 잘 파손될 수 있기 때문이며, 대개 전신마취를 필요로 한다²³⁾. 그러나 절제술은 재발률이 낮아서 신뢰할만한 치료로 특히 병소의 크기가 크거나 물입성 하마종의 경우 고려할 수 있다²⁰⁾.

Morita 등¹⁶⁾은 2 cm보다 작은 크기의 단순 표재성 하마종의 경우 조대술이 가장 유용한 것으로 보고하였다. 또한 Yuca 등²⁴⁾은 2 cm보다 작은 표재성 조대술의 경우 packing을 동반한 조

대술을, 2 cm보다 큰 경우 조대술과 더불어 설하선 절제술을 시행할 것을 추천하였다.

최근에는 수술에서 오는 합병증을 줄이기 위해서 수술시 carbon dioxide (CO₂) laser를 사용하는 방법²²⁾이나 sclerotherapy(OK-432) 같은 비수술적 방법을 시도한다^{7,17,23)}. Carbon dioxide (CO₂) laser를 사용할 때의 장점은 인접 조직의 손상을 최소화하며, 술후 환자의 부종과 통증, 반흔이 최소화된다는 것이다²⁵⁾. Roh와 Kim²³⁾은 9명의 하마중 환자에서 OK-432 주입을 통한 치료로 심각한 합병증 없이 1명의 환아에서만 재발을 보인 결과를 보고하였다. 이러한 양호한 치료 결과와 반흔을 남기지 않는 심미성, 경제적인 이유를 바탕으로 수술적 방법에 앞서 하마중의 주된 치료로 OK-432를 이용한 sclerotherapy를 사용할 것을 주장하였다. 하지만 이 연구는 개체 수가 너무 적고, 다른 치료법을 사용한 대조군이 없는 단점이 있다. 따라서 이러한 치료법을 임상에 도입하기 전 더 많은 연구 결과가 필요할 것으로 생각된다.

하마중의 치료에 있어서 또 하나 논란이 되는 것은 술식 중에 하마중이 파열되면 재발 되는지에 대한 것이다. Haberal 등²⁶⁾은 하마중을 조대술과 절제술로 치료한 환아에서 술식 중 하마중의 파열과 재발과의 관련성이 없다는 결과를 보고하였고, Yuca 등²⁴⁾도 하마중의 파열과 재발 사이의 관련성을 찾지 못하였다.

이 증례에서는 조대술을 시행한 후 22개월 동안 주기적으로 관찰하였으나 재발되지 않고 후유증이 발생하지 않았다. 조대술을 시행할시 가능한 병적 소견을 나타내는 병소의 내벽을 많이 절제하여 주는 것이 재발률을 낮춰주는데 이 증례에서는 수술용 표지 마커를 사용하여 경계를 분명히 표시하여 준 것이 도움이 되었으며, 병소의 크기 등을 고려할 때 적절한 치료법을 선택한 것으로 생각된다. 향후 지속적인 임상적 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

IV. 요약

이 증례는 구강저에 발생한 편측성 종창을 주술로 내원한 8세 여아에 대한 것으로 환아는 우측 구강저에 1.2 cm 크기의 청색의 투명한 종창을 보였으나, 통증을 호소하지 않았고 방사선학적 검사에서 특이한 소견은 보이지 않았다. 이러한 특징적인 임상적 소견을 바탕으로 하마중으로 가진단 한 후에 보존적인 술식으로 소아에서 추천되는 방법인 조대술을 시행하였다. 조대술은 구강내 조직의 외형을 원형대로 유지시킬 수 있고, 해부학적 구조물을 손상시킬 위험성이 적은 장점을 가지며, 이 병소는 크기가 2 cm 미만으로 조대술을 시행하기 적합할 것으로 생각하였다. 병리조직학적 검사에서 낭벽 상피세포의 부재와 점액을 확인할 수 있었으며 하마중을 확진하였다. 22개월간의 정기적인 검사에서 양호한 결과를 보였으나 재발이 흔하게 일어나기 때문에 주기적인 관찰이 필요하다.

참고문헌

1. Laskaris G : Color atlas of oral diseases in children and adolescents. Thieme, New York. 88-91, 2000.
2. Kaban LB, Troulis ML : Pediatric Oral and Maxillofacial Surgery. 군자출판사, 서울. 174-176, 2006.
3. 강동균, 황경문, 김은정 등 : 조대술에 의한 하마중의 치료. 대한소아치과학회지, 33:139-145, 2006.
4. 김영관, 김수관 : Atlas of Dental Minor Surgery. 나래출판사, 서울. 137-139, 2001.
5. Brad W. Neville, Douglas D. Damm, Carl M. Allen, et al. : Oral & Maxillofacial pathology. 2th ed. Saunders, Philadelphia. 391-392, 2002.
6. Zola M, Rosenberg D, Anakwa K : Treatment of a Ranula Using an Er,Cr:YSGG Laser. J Oral Maxillofac Surg, 64:823-827, 2006.
7. Seo JH, Park JJ, Kim HY, et al. : Surgical management of intraoral ranulas in children: An analysis of 17 pediatric cases. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 74:202-205, 2010.
8. Michael JS, Kar HY, Nicolas BB, et al. : A rare case of an extensive plunging ranula: Discussion of imaging, diagnosis, and management. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 93:743-746, 2002.
9. Zhao YF, Jia Y, Chen XM, et al. : Clinical review of 580 ranulas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 98:281-287, 2004.
10. Chidzonga MM, Mahomva L : Ranula: Experience With 83 Cases in Zimbabwe. J Oral Maxillofac Surg, 65:79-82, 2007.
11. Yoshimura Y, Obara S, Kondoh T, et al. : A comparison of three method used for treatment of ranula. J Oral Maxillofac Surg, 53:864-865, 1995.
12. Crysedale WS, Mendelsohn JD, Conley S : Ranulas - mucoceles of the oral cavity: experience in 26 children. Laryngoscope, 98:296-298, 1988.
13. Steelman R, Weisse M, Ranadam H : Congenital ranula. Clin Pediatr, 37:205-206, 1998.
14. Zhi K, Wen Y, Ren W, et al. : Management of infant ranula. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 72:823-826, 2008.
15. Baumash HD : Marsupialization for treatment of oral ranula: a second look at the procedure. J Oral Maxillofac Surg, 50:1274-1279, 1992.
16. Morita Y, Sato K, Kawana M, et al. : Treatment of ranula-excision of the sublingual gland versus marsupialization. Auris Nasus Larynx, 30:311-314,

- 2003.
17. Patel MR, Deal AM, Shockley WW : Oral and plunging ranulas: What is the most effective treatment? *Laryngoscope*, 119:1501-1509, 2009.
 18. Baurmash HD : A case against sublingual gland removal as primary treatment of ranulas. *J Oral Maxillofac Surg*, 65:117-121, 2007.
 19. 전은민, 김태완, 김현정 등 : 조대술을 이용한 합치성 낭종의 치험례. *대한소아치과학회지*, 34:473-479, 2007.
 20. Yoshimura Y, Obara S, Kondoh T et al. : A comparison of three methods used for treatment of ranula. *J Oral Maxillofac Surg*, 53:280-282, 1995.
 21. Zhi K, Wen Y, Zhou H : Management of the pediatric plunging ranula: results of 15 years' clinical experience. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 107:499-502, 2009.
 22. Zhao YF, Jia J, Jia Y : Complications associated with surgical management of ranulas. *J Oral Maxillofac Surg*, 63:51-54, 2005.
 23. Roh JL, Kim HS : Primary treatment of pediatric plunging ranula with nonsurgical sclerotherapy using OK-432 (Picibanil). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 72:1405-1410, 2008.
 24. Yuca K, Bayram I, Cankaya H, et al. : Pediatric intraoral ranulas: an analysis of nine cases. *Tohoku J Exp Med*, 205:151-155, 2005.
 25. Lay JB, Poon CY : Treatment of ranula using carbon dioxide laser - Caseseries report. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 38:1107-1111, 2009.
 26. Haberal I, Göçmen H, Samim E : Surgical management of pediatric ranula. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 68:161-163, 2004.

Abstract

MARSUPIALIZATION OF RANULA

Hye Jin Na¹, Jae-Ho Lee², Seong-Oh Kim², Je Seon Song², Seung-Hye Kim², Hyung-Jun Choi², Byung-Jai Choi²

¹Department of Pediatric Dentistry, ²Department of Pediatric Dentistry and Oral Science Research Center, College of Dentistry, Yonsei University

Ranula is a mucosal cyst that occurs in the mouth floor. This is a pseudo cyst caused by mucous retention within the tissue due to the rupture of catheter in the salivary gland. Ranula occurs mainly in a unilateral form and is characterized by painless bluish transparent swelling, with a increasing mass size. If the size is large, it can cause discomfort during swallowing, pronunciation, and mastication, but external swelling and infection is rare.

Treatments include observation for spontaneous resolution, simple incision and drainage, marsupialization and excision. Marsupialization done by removing parts of the cyst wall and connecting it to the oral mucosa. It is a conservative procedure and recommended for children. It has advantages such as maintaining outline of oral tissue and less risk of damaging anatomic structure.

Recurrence is common, mostly occurring within 4 months after surgery.

This case is about a eight-year-old girl with ranula on the right mouth floor. This patient was treated with marsupialization that is one of treatment for ranula, and recurrence was not observed.

Key words : Ranula, Recurrence, Marsupialization