



# A Case of Bilateral Plunging Ranula

Seong-Eun Hong<sup>1</sup>, Brian Kim<sup>1</sup>, Myung-Chul Lee<sup>1</sup>, and Ik Joon Choi<sup>1</sup>

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Korea Institute of Radiological and Medical Science, Seoul, Korea

## 양측성 몰입형 하마종 1예

홍성은 · 김브라이언 · 이명철 · 최익준

한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과

Received February 28, 2023

Revised March 21, 2023

Accepted March 21, 2023

### Address for correspondence

Ik Joon Choi, MD, PhD  
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Korea Institute of Radiological and Medical Science, 75 Nowon-ro, Nowon-gu, Seoul 01812, Korea  
Tel +82-2-970-1271  
Fax +82-2-970-2450  
E-mail ijchoiorl@gmail.com

A plunging ranula is a pseudocyst in the neck that originates from the sublingual gland in the process of mucus extravasation and herniation. It has been widely suggested that the cause of a plunging ranula is due to a congenital predisposition involving the dehiscence of the mylohyoid muscle, racial predisposition and previous oral trauma. Even though unilateral plunging ranula is rare, and bilateral plunging ranulas are even more rare. We recently experienced a case of bilateral plunging ranula in a 27-year-old male. He presented with a right-sided submandibular swelling and was diagnosed with a plunging ranula and right ranula excision and sublingual gland excision was performed. He visited the outpatient department with contralateral submandibular swelling after 18 months of operation. Under the diagnosis of left plunging ranula, he underwent surgery in the same way as before. We suggest that all patients with a unilateral plunging ranula, although rare, should be considered for the possibility of developing contralateral diseases.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(11):769-72

**Keywords** Ranula; Recurrence; Sublingual gland.

## 서론

하마종의 어원은 라틴어의 개구리를 의미하는 'rana'에서 기원하여 구강저의 푸른빛 투명한 팽대가 개구리의 아랫배와 유사한 점에서 유래하였다.<sup>1)</sup> 하마종은 설하선이나 악하선에서 유출된 점액에 의해 생기는 점액 낭종의 일종으로 주로 구강저에 발생한다.<sup>2)</sup> 발생 위치에 따라 구강저에 국한된 구강하마종과 낭종이 악설골근(mylohyoid muscle) 사이로 탈출된 형태의 몰입형 하마종으로 분류할 수 있다.<sup>3)</sup>

이러한 몰입형 하마종은 악설골근의 벌어짐과 관련된 유전적, 인종적 소인과의 관련성이 있다고 여러 논문에서 제시하고 있고 구강저 및 설하선의 외상, 이전의 구강 수술 이력 또한 관련되어 있을 것으로 보고 있다.<sup>1)</sup>

하마종은 대개 일측성으로 발생하며 양측성 발생은 매우 드문 것으로 알려져 있다.<sup>4)</sup> 또한 양측성 몰입형 하마종의 국내 연구는 거의 드문 실정이다. 최근 저자들은 양측성 몰입형 하마종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증례

27세 남자 환자가 한 달 전부터 발생한 우측 턱밑 부종을 주소로 외래에 방문하였다. 과거력상 외상이나 다른 질환은 없었으며 신체 검진상 우측 턱밑 종창이 부드럽고, 쉽게 눌러지며, 압통이나 열감은 없었다. 진단을 위해 경부 조영 CT를 시행하였으며, 우측 아래 턱밑 공간에 저음영의 약 55×18 mm의 다방성 낭종을 확인할 수 있었다(Fig. 1). 악설골근 사이로 탈출된 형태로 몰입형 하마종으로 의심하고 우측 하마종 절제술 및 설하선 절제술을 계획하였다. 수술 중 낭종성 종괴는 우측 악하선 앞쪽부터 구강저까지 위치되어 있었고 악하선

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

쪽은 박리가 잘 이루어졌으며 하악골 부위는 유착이 있어 박리를 시행하였다. 낭종성 종괴를 쫓아 가면서 설하선을 확인하였고, 결찰 후 종괴와 함께 완전절제를 시행하였고 안면신경의 하악 분지 및 우측 설신경을 확인 및 보존하였다. 조직병리 소견상 몰입형 하마종으로 확진되었다. 술후 타액 저류로 우측 부종이 발생했지만 흡인 및 배액, 압박 드레싱 후 호전되었고 2개월 후까지 추적 관찰하였다.

수술 후 18개월, 좌측 턱밑의 부종을 호소하며 외래에 방문했다. CT 검사를 시행하였으며 이전 수술로 인해 오른쪽 설하선 절제된 상태로 오른쪽 악하선의 위축된 변화를 보였고 왼쪽 아래 턱밑 공간에 저음영의 약 43×18 mm 다방성

낭종을 확인할 수 있었다(Fig. 2). 좌측 몰입형 하마종 의심하에 수술을 권유하였으나 수술을 원하지 않아 우선 추적 관찰하기로 했지만 이후 외래에 방문하지 않았다.

수술 후 42개월, 왼쪽 턱밑 부종 악화 및 열감, 목불편감을 호소하며 응급실을 경유하여 외래 방문하였다. CT상 2020년 1월에 비해 좌측 악하 공간의 다방성 낭종이 43 mm에서 50 mm로 증가한 양상을 보였으며 그 주위로 지방 침윤과 연조직 부종이 관찰되었다. 왼쪽 level 2의 반응성 증식으로 보이는 림프절 종대가 보여 염증이 동반된 몰입형 하마종을 의심하였다(Fig. 3). 이에 좌측 하마종 절제술 및 설하선 절제술을 시행하였다. 수술 중 낭종성 종괴는 이복근에 심한 유

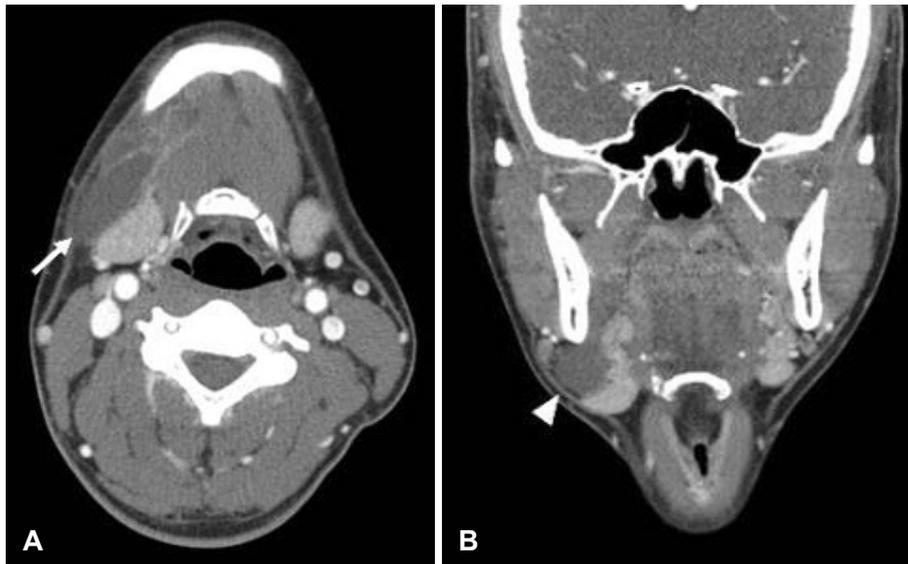


Fig. 1. CT at first visit A: Axial CT shows about 55×18 mm multilocular cystic lesion in right submandibular space (arrow). B: Coronal CT shows cystic lesion in right submandibular space (arrowhead).

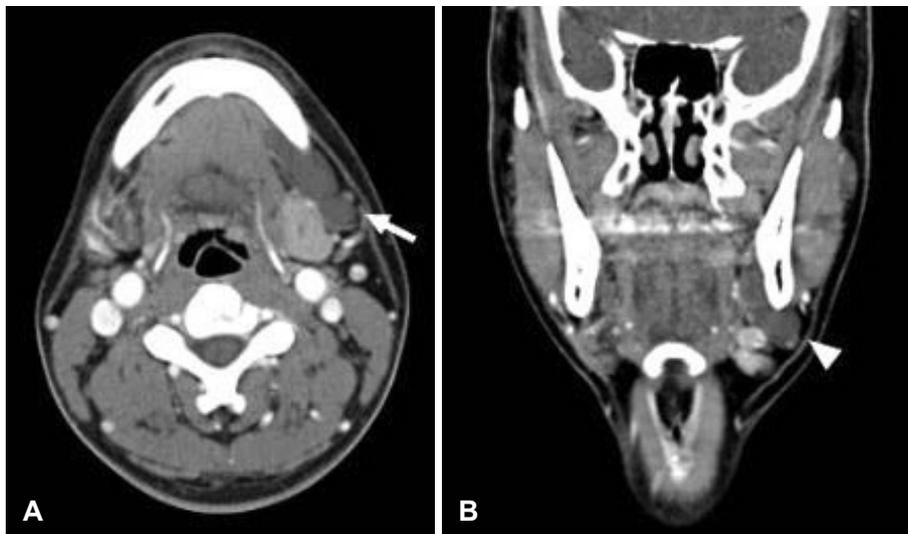
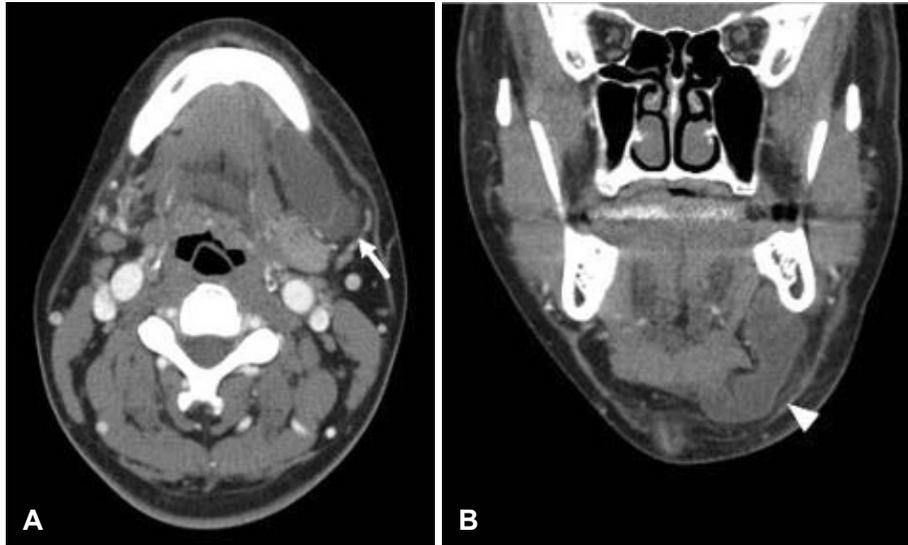


Fig. 2. CT obtained 18 months after the first surgery A: Axial CT shows about 43×18 mm multilocular cystic lesion in left submandibular space (arrow). B: Coronal CT shows cystic lesion in left submandibular space (arrowhead).



**Fig. 3.** CT obtained 42months after the first surgery. A: Axial CT shows about 50×50 mm multilocular cystic lesion with perilesional fat infiltration and soft tissue swelling in left submandibular space (arrow). B: Coronal CT shows cystic lesion in left submandibular space (arrowhead).

착이 있어 박리의 어려움이 있었으나 그 외 특이사항 없이 수술하였고 술후 2개월 후까지 추적 관찰하였다.

## 고 찰

몰입형 하마종은 경부의 종창 형태로 관찰되는데 임상적 특징들이 비슷할 수 있는 양성 또는 악성 병변들과 감별이 필요하다. 감별 진단에는 설하선과 악하선, 림프절의 다양한 염증성 및 신생물성 병변, 육아종성, 지방 조직 질환, 낭성 림프관종, 아가미관 또는 감상설관 낭종, 후두, 유괴 및 표피 낭종이 포함된다.<sup>5)</sup>

본 증례에서는 턱밑 종창에 대해 감별진단을 위해 CT 검사를 진행하였다. CT상 저음영의 다방성 낭종 형태로 악설골근 사이로 탈출된 형태를 띠고 있어 몰입형 하마종으로 의심할 수 있었다.

몰입형 하마종의 단측성 또는 양측성으로 발생한 사례는 드물게 보고되고 있고 이에 대한 국내 연구는 거의 드문 실정이다. 한 연구에 의하면 뉴질랜드 오클랜드 지역의 몰입형 하마종의 유병률은 10만인 년당 2.4명으로 보고하였다.<sup>6)</sup> 또 다른 연구에 의하면 뉴질랜드 오클랜드 지역의 몰입형 하마종의 유병률은 10만인 년당 2.6명이었다.<sup>7)</sup> 이 연구의 187명 중 양측성으로 하마종이 발생한 환자는 17명(9.1%)으로 보고하였다.<sup>7)</sup>

이 연구에 의하면 몰입형 하마종을 세 가지 유형으로 나누었는데, 초기 영상 검사상 반대측에 몰입형 하마종의 증거가 없는 일측성 몰입형 하마종으로 나중에 반대측에 발생하는

후시성 몰입형 하마종(metachronous plunging ranulas), 임상적 증상이 없으나 초기 영상 검사에서 양측성 하마종을 확인할 수 있는 동시성 몰입형 하마종(synchronous plunging ranulas), 임상적 증상이 있으면서 초기 영상 검사에서도 양측성 하마종을 확인할 수 있는 동시성 몰입형 하마종(clinically evident synchronous plunging ranulas)으로 구분하였다.

이 연구에서는 후시성 몰입형 하마종의 경우 최대 58개월 이후 동시성 몰입형 하마종의 경우 최대 56개월 후 반대측에 몰입형 하마종이 발생한 것으로 보고하였다.<sup>7)</sup>

몰입형 하마종은 20-30대에 호발하며 태평양섬 마오리족 및 아시아계 혈통의 환자에게서 흔히 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>6)</sup>

몰입형 하마종의 최적의 치료로는 설하선을 절제하는 방법으로 가장 재발이 적은 것으로 알려졌다. 설하선을 절제하고 하마종을 제거하거나 또는 낭종을 배액해주기만을 하는 방법을 선택할 수 있다.<sup>8)</sup> 구강 접근법과 경부 접근법이 가능한데 구강 접근법은 합병증이 37%로 보고된 반면 경부 접근법을 시행한 경우 4%에서만 합병증이 발생하였다.<sup>9)</sup>

본 증례의 경우 27세 한국인으로, 이미 알려진 대로 20-30대 호발 연령대 및 인종과 일치하는 경향을 확인할 수 있었으며 초기 CT 검사상 반대측에 몰입형 하마종의 증거가 없었던 후시성 몰입형 하마종의 형태로 수술 이후 18개월 뒤 반대측에 몰입형 하마종이 발생한 사례였다. 이전의 구강의 다른 수술적 치료 이력이나 외상 이력은 없었고 수술 시 부악하선도 존재하지 않았다. 이 환자의 경우 양측성으로 발생한 것으로 보아 CT상으로는 명확하게 확인할 수 없었지만 유전

적 인종적 소인과 관련된 악설골근의 벌어짐이나 결함으로 인한 것으로 추정해 볼 수 있었다. 수술은 양측 모두 가장 재발이 적은 경부 접근 설하선 및 하마종을 제거하는 방법을 선택하였고 수술 이후 외래 추적 관찰 기간 동안 재발 및 합병증은 발생하지 않았다.

본 증례는 일측성 몰입형 하마종이 발생한 이후 반대측에 몰입형 하마종이 발생한 드문 사례이다. 문헌 고찰 결과 20-30대에 호발하며 유전적 태평양섬 마오리족 및 아시아계 혈통의 인종적 소인과 연관된 악설골근의 벌어짐 및 결함에 의해 발생하고 연구 결과 최대 58개월 이후에도 반대측에 몰입형 하마종이 발생할 수 있다고 보고되고 있기 때문에 일측성 몰입형 하마종이 발생한 모든 환자들에게서 반대측에서도 몰입형 하마종이 발생할 가능성을 염두에 두고 영상 검사를 통해 반대측에도 악설골근의 벌어짐이나 결함 또는 임상 증상이 없는 하마종이나 부악하선 존재여부 등에 대한 면밀한 검사가 이루어져야 함을 보여주는 증례로 사료된다.

#### Acknowledgments

None

#### Author Contribution

Conceptualization: Ik Joon Choi. Formal analysis: Ik Joon Choi, Seong-Eun Hong. Resources: Seong-Eun Hong. Supervision: Ik Joon Choi. Visualization: Brain Kim, Myung-Chul Lee. Writing—

original draft: Seong-Eun Hong, Myung-Chul Lee. Writing—review & editing: Ik Joon Choi.

#### ORCIDs

Seong-Eun Hong <https://orcid.org/0000-0003-4282-6268>  
Brian Kim <https://orcid.org/0000-0002-0933-079X>  
Myung-Chul Lee <https://orcid.org/0000-0002-2574-4976>  
Ik Joon Choi <https://orcid.org/0000-0002-9680-3873>

#### REFERENCES

- 1) Davison MJ, Morton RP, McIvor NP. Plunging ranula: Clinical observations. *Head Neck* 1998;20(1):63-8.
- 2) Blair VP. Ranula. *Ann Surg* 1923;77(6):681-4.
- 3) Quick CA, Lowell SH. Ranula and the sublingual salivary glands. *Arch Otolaryngol* 1977;103(7):397-400.
- 4) Barker GR. Bilateral ranula. *Int J Oral Surg* 1984;13(4):352-4.
- 5) Engel JD, Harn SD, Cohen DM. Mylohyoid herniation: Gross and histologic evaluation with clinical correlation. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987;63(1):55-9.
- 6) Chin SJ, Zeng IS, Morton RP. The epidemiology of plunging ranula in South Auckland. *Laryngoscope* 2016;126(12):2739-43.
- 7) Yin T, Jain P, Ahmad Z, Harrison JD, Morton RP. Bilateral plunging ranulas in South Auckland: Evidence for a genetic basis. *Laryngoscope* 2021;131(1):73-7.
- 8) Patel MR, Deal AM, Shockley WW. Oral and plunging ranulas: What is the most effective treatment? *Laryngoscope* 2009;119(8):1501-9.
- 9) Kobayashi T, Ochi K, Komatsuzaki Y, Sugiura N, Saito S. Blanket removal of the sublingual gland for treatment of plunging ranula. *Laryngoscope* 2003;113(2):386-8.