

## 비중격에 발생한 혈관평활근종 1예

경찰병원 이비인후과

박원일 · 심지성 · 주준범 · 조주은

### A Case of Angioleiomyoma of the Nasal Septum

Won Il Park, MD, Ji Sung Shim, MD, Junbum Joo, MD and Ju Eun Cho, MD, PhD

Department of Otolaryngology, National Police Hospital, Seoul, Korea

#### — ABSTRACT —

Leiomyoma is a benign myogenic tumor which can occur wherever smooth muscle is present. It is common in the female genital tract, skin, gastrointestinal tract, but rare in the nasal cavity or paranasal sinus. Angioleiomyoma is a histologic subtype of leiomyoma, which contains capillary, cavernous or venous vascular spaces, with the smooth muscle cells being associated with the vessel walls. We present an unusual case of an angioleiomyoma arising from nasal septum, which was incidentally detected during routine nasal examination. (J Clinical Otolaryngol 2013;24:247-250)

KEY WORDS : Angiomyoma · Nasal septum.

#### 서 론

혈관평활근종(angioleiomyoma, vascular leiomyoma)은 평활근종의 조직학적 분류의 한 형태로 모세혈관성, 해면성 또는 정맥성 혈관공간들을 포함하고, 평활근세포가 혈관벽과 연관성을 보이며 분포한다.<sup>1)</sup> 혈관평활근종은 하지에서 주로 발생하며, 8.5~10% 만이 두경부에서 발생한다.<sup>2)</sup> 비부비강에는 평활근이 혈관벽을 제외하고는 거의 존재하지 않기 때문에 평활근종이 매우 드물게 발생하며, 혈관평활근종의 형태가 가장 흔하다.<sup>1)</sup> 비중격에서 발생한 평활근종은 더욱 드물어, 영문으로 발표된 논문들에서 9예, 국내 문헌에서 3예가 보고되었을 뿐

이다.<sup>2-12)</sup> 최근 저자들은 비중격에 발생한 혈관평활근종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

#### 증 례

48세 남자 환자가 수일간 지속된 인후통, 객담 등의 상기도염 증상을 주소로 내원하였다. 내원 시 시행한 비내시경 검사에서 좌측 비중격의 전단부에 지름이 약 0.3 cm인 무경성 종괴가 발견되었다(Fig. 1). 환자는 코막힘, 비출혈, 통증 등의 증상은 없었다고 하였다. 무증상의 신낭종으로 경과 관찰 중인 것 이외에 과거력, 가족력에 특이사항은 없었다.

비중격에 생긴 용종이나 섬유종으로 추정하였고, 조직학적 확진을 위해 국소마취하 완전 절제술을 시행하였다. 병변이 비중격의 전단부 점막에 위치하고 있어 비경으로 시야확보 후 절제가 가능하였다. 종물은 조직이 연하고 잘 부서지는 양상을 보였고 출혈은 적었다.

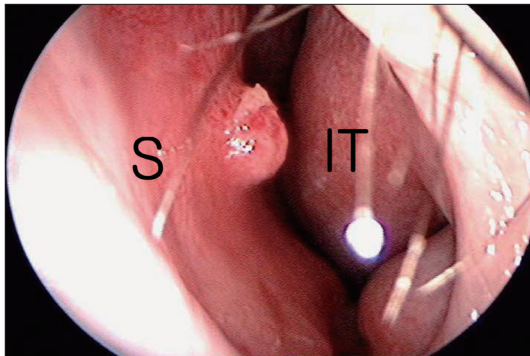
병리조직검사서 종물은 점막하 공간에 위치하였고,

논문접수일 : 2013년 7월 31일  
논문수정일 : 2013년 8월 12일  
심사완료일 : 2013년 9월 16일  
교신저자 : 조주은, 138-708 서울 송파구 가락본동 58  
경찰병원 이비인후과  
전화 : (02) 3400-1274 · 전송 : (02) 400-0287  
E-mail : jechoent@nph.go.kr

피막으로 둘러싸여 있지는 않았으나 주변조직과의 경계가 명확하였다. 비후된 혈관벽을 가진 다양한 직경의 혈관들과 이를 둘러싼 평활근 섬유다발들의 증식이 관찰되었고, 평활근 세포들은 특징적으로 끝이 뭉툰한 여송연 모양의 핵(blunt ended cigar-shaped nuclei)을 가지고 있었다(Fig. 2). 면역조직화학염색에서 평활근 액틴(smooth muscle actin, SMA)에 대해 양성 소견을 보여 혈관평활근종으로 확진하였다(Fig. 3). 추가로 시행한 탄력섬유 염색(elastic staining)에서는 음성 소견을 보여 종양 내의 비후된 혈관들은 정맥인 것으로 추정되었다. 환자는 현재 수술 후 4개월째 재발의 소견 없이 추적관찰 중이다.

### 고 찰

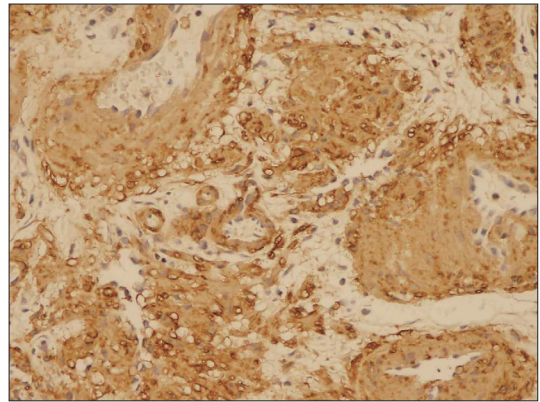
양성 평활근종은 WHO의 조직학적 분류에 의하면 평



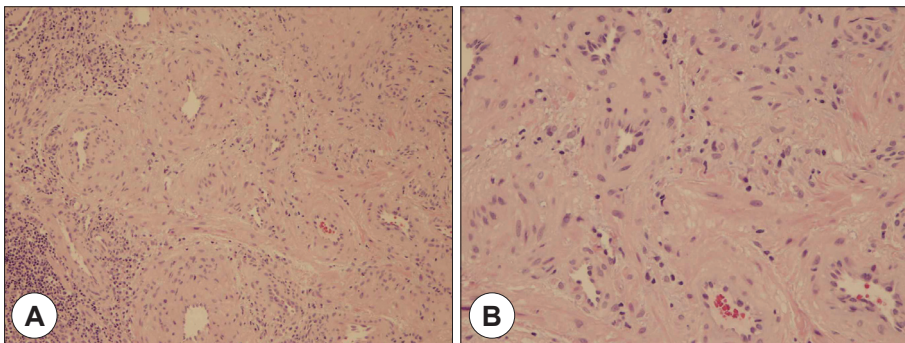
**Fig. 1.** Endoscopic finding of the left nasal cavity. A sessile mass originating from the anterior septum is seen. S : Septum, IT : Inferior turbinate.

활근종(leiomyoma, solid leiomyoma), 혈관평활근종(angioleiomyoma, vascular leiomyoma), 상피양 평활근종(epithelioid leiomyoma)으로 분류할 수 있다.<sup>8)</sup> 평활근종은 평활근이 존재하는 부위이면 신체 어느 곳에서나 발생할 수 있으나 주로 여성 생식기, 피부, 위장관에 발생하고, 두경부 영역에서의 발생율은 1% 미만이라고 알려져 있다.<sup>6)</sup> 그 중 혈관평활근종은 드문 형태로 평활근 세포와 혈관내피세포로 구성되어 있다.<sup>2)</sup>

대부분의 저자들은 혈관평활근종이 혈관벽의 평활근으로부터 기원할 것이라는 데에 동의하고 있으나,<sup>2,13-15)</sup> 발생 기전과 원인은 아직 불명확하다. 일부 저자들은 혈관평활근종의 일부는 과오종(hamartoma)이거나,<sup>13)</sup> 진정한 신생물이 아닌 혈관기형(vascular malformation)일



**Fig. 3.** Immunohistochemical staining for smooth muscle actin (SMA) shows a positive reaction in the perivascular proliferating smooth muscle cells and in the muscular wall of blood vessels (SMA immunostaining,  $\times 200$ ).



**Fig. 2.** Microscopic findings. A : The tumor is composed of thick-walled vessels and bundles of smooth muscle cells. The smooth muscle in the wall of the vessels blend with surrounding smooth muscle cells (H&E,  $\times 100$ ). B : Higher power view shows characteristic smooth muscle cells with blunt-ended "cigar-shaped" nuclei (H&E,  $\times 200$ ).

수 있고,<sup>14)</sup> 혈관종(hemangioma)에서 평활근세포가 점차로 증가하여 고형 평활근종(solid leiomyoma)으로 이행하는 과정의 한 단계라고 주장하기도 하였다.<sup>14)</sup> 비강내 평활근종의 성장과 프로그레스테론 수용체의 연관성이 제기되었으나, 서로 상반된 결과를 보인 보고도 있어 아직 더 많은 연구가 필요할 것으로 생각된다.<sup>5,16)</sup>

비강내 평활근종은 비갑개에서 가장 많이 발생하였고 비중격에서 발생한 예는 매우 드물었는데, 이는 비갑개와 비중격 점막의 조직학적 차이에 기인한다고 생각된다. 비갑개에는 해면 정맥이 분포하고, 평활근 요소를 포함하는 혈관 수축성 조직(vascular contractile tissue)이 풍부하게 분포하여 비점막의 팽창을 조절한다.<sup>11)</sup> 반면, 비중격의 점막에는 이러한 해면조직이 분포하지 않고, 치밀한 혈관망이 분포하는 Kiesselbach 혈관총(Kiesselbach's plexus)이 있다.<sup>17)</sup>

비중격에서 발생한 평활근종은 본 증례와 같은 혈관 평활근종이 더 많았으나, 비혈관성 평활근종도 보고되었다.<sup>11)</sup> 비전정에서도 발생한 예들이 있으나, 비전정은 피부로 덮여있어 혈관벽 이외에 거모근(erector pilae muscle)과 땀샘에도 평활근이 존재하기 때문에 비점막에서 발생한 경우와는 차이가 있다.<sup>12)</sup>

비강내 평활근종의 가장 흔한 증상은 비폐색과 코피이며, 안면통과 두통, 비강내 가피형성 등을 호소하기도 한다.<sup>3,12)</sup> 그러나 본 증례에서는 크기가 0.3 cm 정도로 작아 주관적 증상이 없었다. 따라서 증상이 없는 작은 종괴라 하더라도 종양의 가능성을 염두에 두고 조직학적 확진을 해야 하며, 대부분 크기가 작지만 주변 구조물을 침범하여 수술의 범위가 커진 예들도 보고되었으므로<sup>8,18)</sup> 조기치료를 하는 것이 좋을 것으로 생각된다.

방사선학적 검사에서는 특징적인 소견이 없어 확진에 큰 도움이 되지는 않으나, 종양의 범위와 주위조직 침범 여부를 관찰하고 치료 방침을 정하는데 도움이 될 수 있다.<sup>10)</sup>

이처럼 임상적으로는 혈관평활근종을 의심할 수 있는 특별한 소견이 없어 수술 후 병리 조직학적 소견으로만 진단이 가능하며, 대부분의 술전 추정진단은 유두종, 폴립, 혈관종, 혈관섬유종 등이었다.<sup>18)</sup>

조직학적으로는 여러 방향으로 주행하는 방추형의 평활근 세포들의 증식과 비후된 근육층을 지닌 다양한

크기의 혈관들이 보이며,<sup>13)</sup> 대부분 피막을 갖고 있지만 피막이 없을 수도 있다.<sup>5,9,10,19)</sup> Hematoxylin & Eosin 염색만으로도 진단이 가능하나, 평활근 세포를 확인할 수 있는 Masson's trichome, desmin, actin이나, 혈관내피 세포를 확인할 수 있는 factor VIII, CD31 등에 대한 특수 염색이 혈관종, 혈관섬유종(angiofibroma), 섬유종(fibroma), 혈관근지방종(angiomyolipoma)과 같은 방추형 세포 종양들을 감별하는 데 도움을 줄 수 있다.<sup>2)</sup>

평활근 기원 종양의 악성 감별 기준은 발생 부위마다 차이가 있으나 자궁근종 이외의 다른 평활근 기원 종양에서는 그 기준이 정립되어 있지는 않다. 대개 세포충실성의 증가(high cellularity), 세포다형성(pleomorphism), 이상거대세포(bizarre giant cells), 핵분열상의 증가(high mitotic count)로 악성과 양성을 구분한다.<sup>4)</sup>

치료는 완전 절제이며, 비강내 혈관평활근종은 대부분 크기가 2 cm 이하로 내시경을 이용한 비내접근법으로 쉽게 절제가 가능하나,<sup>5)</sup> 종양의 위치와 크기에 따라 외측비절개술 접근법이 필요할 수 있다.<sup>7)</sup> 혈관 평활근종의 완전 절제 후 재발은 드물며, 악성화는 보고된 바가 없다.<sup>2,13)</sup>

중심 단어 : 혈관평활근종 · 비중격.

## REFERENCES

- 1) Barnes L, Tse LLY, Hunt JL, Bandwein-Gensler M, Curtin HD, Boffetta P. *Tumors of the nasal cavity and paranasal sinuses*. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, editors. *WHO classification of tumors: pathology and genetics of head and neck tumors*. Lyon: IARC Press;2005. p.46.
- 2) Wang CP, Chang YL, Sheen TS. *Vascular leiomyoma of the head and neck*. *Laryngoscope* 2004;114(4):661-5.
- 3) Kim JY, Cho JJ, Kim SM, Cho SC. *A case of leiomyoma of the nasal septum*. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1999;42(8):1051-4.
- 4) Yeo CK, Park JY, Kwon SW, Kim IS. *Leiomyoma of the nasal septum-report of a case*. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2001;44(8):890-2.
- 5) Choi JH, Kim JM, Kim YD. *Angioleiomyoma of the nasal septum: a case report*. *Yeungnam Univ J Med* 2008;25(2):154-9.
- 6) Ardekian L, Samet N, Talmi YP, Roth Y, Bendet E, Kronenberg J. *Vascular leiomyoma of the nasal septum*. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1995;114(6):798-800.
- 7) Purohit GN, Agarwal N, Agarwal R. *Leiomyoma arising from septum of nose*. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*

- 2011;63(Suppl 1):64-7.
- 8) Bloom DC, Finley JC Jr, Broberg TG, Cueva RA. *Leiomyoma of the nasal septum*. *Rhinology* 2001;39(4):233-5.
  - 9) Osaki M, Osaki M, Kodani I, Adachi H, Shibata I, Ito H. *Vascular leiomyoma of the nasal cavity: case report and review of the literature*. *Yonago Acta Med* 2002;45(4):113-6.
  - 10) Singh R, Hazarika P, Balakrishnan R, Gangwar N, Pujary P. *Leiomyoma of the nasal septum*. *Indian J Cancer* 2008;45(4):173-5.
  - 11) Llorente JL, Suárez C, Seco M, Garcia A. *Leiomyoma of the nasal septum: report of a case and review of the literature*. *J Laryngol Otol* 1996;110(1):65-8.
  - 12) Barr GD, More IA, McCallum HM. *Leiomyoma of the nasal septum*. *J Laryngol Otol* 1990;104(11):891-3.
  - 13) Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M. *Angioleiomyoma: a clinicopathologic reappraisal of 562 cases*. *Cancer* 1984;54(1):126-30.
  - 14) Duhig JT, Ayer JP. *Vascular leiomyoma: a study of sixty-one cases*. *Arch Pathol* 1959;68:424-30.
  - 15) Stout AP. *Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma*. *Am J Cancer* 1937;29:435-69.
  - 16) Marioni G, Marchese-Ragona R, Fernandez S, Bruzon J, Marino F, Staffieri A. *Progesterone receptor expression in angioleiomyoma of the nasal cavity*. *Acta Otolaryngol* 2002;122(4):408-12.
  - 17) Wüstenberg EG, Scheibe M, Zahnert T, Hummel T. *Different swelling mechanisms in nasal septum (Kiesselbach area) and inferior turbinate responses to histamine: an optical rhinometric study*. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;132(3):277-81.
  - 18) Jang TY, Park JS, Yun YS, Jung DH, Han JY. *2 cases of leiomyoma of the nasal cavity*. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1999;42(1):110-3.
  - 19) Choi JW, Park HS, Park BS, Koo SK. *A case of angioioma of the inferior turbinate*. *J Clinical Otolaryngol* 2011;22(1):98-101.
  - 20) Lee YM, Byun JY, Koh YW, Kim DW, Kim DW. *A case of leiomyoma of the trachea*. *J Clinical Otolaryngol* 2005;16(1):167-70.