臨床耳鼻：第20卷 第1號 2009 online©ML Comm
J Clinical Otolaryngol 2009;20:85-89 □증 례□

비중격에 발생한 혈관섬유종 1예

순천향대학교 의과대학 이비인후과학교실,[1] 해부병리학교실[2]
배창희[1] · 김동욱[1] · 장혁순[1] · 이동화[2]

A Case of Angiofibroma Originating from Nasal Septum

Chang Hee Bae, MD[1], Dong Wook Kim, MD[1], Hyuck Soon Chang, MD[1] and Dong Wha Lee, MD[2]
[1]Department of Otorhinolaryngology; [2]Pathology, Soonchunhyang University College of Medicine, Seoul, Korea

－ABSTRACT－

The angiofibroma is a highly vascular and histologically benign neoplasm that arises in the nasopharynx in adolescent male patients. Extra-nasopharyngeal origin of angiofibroma is very rare. The nasal septum is a very rare site of extranasopharyngeal angiofibroma with only four cases reported in medical literatures. We report a case of extra-nasopharyngeal angiofibroma arising from the nasal septum of a 26-years-old woman. The tumor of nasal septum was approached via lateral alotomy approach, and was successfully removed. Histopathology confirmed it to be a case of angiofibroma. In a 3 months follow up, the patient is free from relapse. **(J Clinical Otolaryngol 2009;20:85-89)**

KEY WORDS : Angiofibroma · Nasal septum.

서 론

혈관섬유종은 혈관이 매우 발달된 양성종양이고 주로 사춘기 이전의 남자에서 호발 하는 비교적 드문 질환으로 병리조직학적으로는 양성이지만 병소의 위치, 주위조직의 국소적 파괴, 강한 출혈성 및 술후 높은 재발률 등으로 임상적으로 악성으로 취급되고 있다. 거의 모든 혈관섬유종은 비인두강에서 기원하는 것으로 알려져 있고 발생빈도는 두경부 전 신생물의 0.05~0.5%를 차지하며 드물게 성인이나 여자에서도 발생한다.[1-3)]

논문접수일 : 2008년 11월 20일
논문수정일 : 2008년 12월 18일
심사완료일 : 2009년 1월 28일
교신저자 : 김동욱, 140-743 서울 용산구 한남동 657
순천향대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (02) 709-9361 · 전송 : (02) 794-9628
E-mail : kdw1228@hosp.sch.ac.kr

대부분의 혈관섬유종이 비인강에서 기원하지만, 이 부위에 국한되지 않고 비강, 부비동, 두개까지 진행할 수 있다. 그러나 원발 부위가 비인강이 아닌 경우는 드물며 특히 비중격 기원은 매우 드물다.[4)] 비중격으로부터 원발한 혈관섬유종은 현재까지 국내에 보고된 예가 없고, 국외에 4례가 보고되었다.[5)]

저자들은 비중격으로부터 유래된 혈관섬유종 1예를 경험하였기에 보고하고자 한다.

증 례

26세 여자환자로 내원 1달전부터 시작된 간헐적인 좌측 비출혈과 비폐색을 주소로 시행한 전비경 소견상 좌측 비중격에 종물이 관찰되어 정확한 진단과 치료를 위해 본원 이비인후과로 전원 되었다.

과거력상 자궁외 임신 치료외에 특이소견은 없었다. 비내시경 소견상 좌측 하비갑개 전단부의 맞은편 비중격에

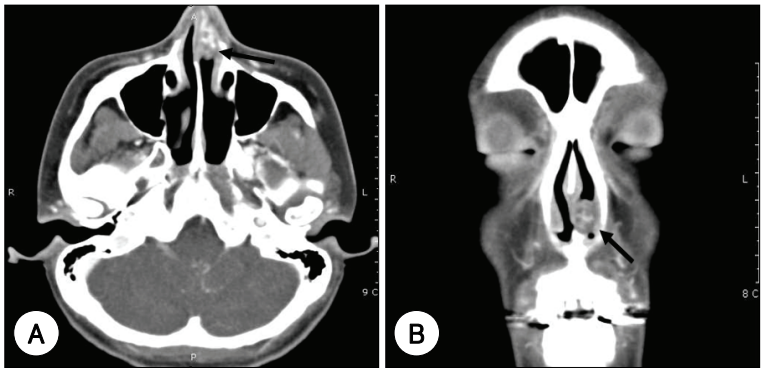

Fig. 1. Preoperative axial (A) and coronal (B) computerized tomographic (CT) scan of paranasal sinus. 2×1.7×0.7 cm size polypoid enhancing nodule in left anterior nasal septum (black arrow).

약 2×1.7×0.7 cm 크기의 보라색 종물이 관찰되었다. 그 외 비강내 소견과 비인강, 인두, 후두는 정상 소견이었으며 경부 림프절에도 병변은 없었다. 조영증강 부비동 전산화 단층촬영상 좌측 비중격에서 기원하는 2×1.7×0.7 cm 크기의 조영증강이 잘되는 종양의 음영이 관찰되었다(Fig. 1). 그 밖에 비인강 및 경부에는 특이소견 없었다.

입원당시 시행한 일반혈액검사 및 흉부방사선 검사, 심전도 등은 정상이었다.

2008년 2월 19일 전신 마취하에 수술을 진행하였고 비내시경상 관찰 되는 좌측 비중격 보라색의 2×1.7×0.7 cm 크기의 종물은 크기는 크지 않았지만 비강을 꽉 채우고 있었고 수술 전 시행한 전산화 단층 촬영상 조영증강이 잘되는 종물로 혈관종이 의심되어 수술 중 출혈가능성 높아 확실하게 종물을 노출시키기 위해 좌측 외측 비익절개(lateral alotomy)하여 좌측 비중격을 노출시켰다. 종물은 비중격에 stalk이 있어 전기 소작기(Bopolar electric coagulator)를 사용하여 stalk주위를 부분적으로 전기소작한 후 겸자를 이용하여 적출하였다. 전기소작 후 종괴를 적출하여 종물 적출부위 출혈은 심하지 않았다. 외측 비익절개부위를 절개면을 맞추어 Dexon 5-0로 봉합한 뒤 피부는 Nylon 6-0로 봉합했고 종물부위에 지혈을 위해 Gelfoam을 부착 시킨 후 Merocel을 이용하여 좌측 전비공 packing을 실시하였다.

육안 소견은 2×1.7×0.7 cm 크기의 비교적 표면이 매끄러운 종괴로서 절단면상 회백색을 띠었다(Fig. 2). 현미경 소견은 비강 점막으로 피복되어 있는 종괴로서 단단한 교원성 기질 내에 다양한 크기의 혈관과 섬유성 결체조직으로 혼합되어 있어 혈관 섬유종에 부합된 소견을 보였다(Fig. 3).

수술 후 2일째에 패킹을 제거하였고, 출혈이나 기타 합병증없이 수술 후 3일째에 퇴원하였다. 현재 수술 후 3개월째 이상 소견 없이 외래 추적 관찰 중이다(Fig. 4, 5).

고 찰

혈관섬유종은 두경부 종양 중 0.5% 미만을 차지하는 비교적 드문 종양으로 주로 사춘기 이전의 남자에서 호발하는 것으로 알려져 있다. 거의 모든 비인강 혈관섬유종은 익돌구개와 주변의 후비공 조직과 접형구개공에서 기원하고 그 크기가 점차 자라남에 따라 비강의 뒤쪽과 비인강을 채우게 된다.[1)]

혈관섬유종의 발생기원 대해 현재까지 정설이 없고 여러설이 거론되고 있는데 Tillaux 등[7)]은 환추(atlas)의 앞부분에서 접형골의 아랫면까지 존재하는 조직에 의해 발생한다고 하였으며 이를 섬유연골막(fibrocartilaginous barrier)이라 불렀다. Brunner 등[12)]은 이 조직이 연골이 없기 때문에 'fascia basalis'라 명명하였고, 비인두 천정에서 서골(vomer), 구개골, 후사골, 내측익상판(medial pterygoid plate)에 이르는 후인두벽에 존재한다고 설명하였다.

비중격에서 기원한 혈관섬유종의 원인으로 Schiff 등[13)]은 사골과 서골의 뒷부분을 제외한 비중격에는 fascia basalis가 존재하지 않기 때문에 비중격 성장과정중 골막의 발달성 기형으로 인한 이소성 조직으로부터 유래한다고 제시하였고, Akbas 등[14)]은 2예 모두에서 비중격의

앞쪽 1/3에서 발생하였고 이부분에 fascia basalis가 존재하지 않기 때문에 이소성 조직으로부터 발생하였다고 설명하였다.

Fig. 2. Surgical specimen. 2×1.7×0.7 cm sized round mass has pinkish color and smooth surface.

혈관섬유종이 비인강에서 기원한 후 비인강을 벗어나서 발견되는 것이 흔히 관찰되지만 비강이나 부비동에서 원발성으로 발생하는 비인강외 혈관섬유종은 매우 드물며 2000년 Huang 등[6]은 이전에 보고된 증례 55예를 분석했는데 비인강 혈관섬유종이 발생한 환자의 평균연령은 17세인데 비해 그 외의 부위에서 발생한 혈관섬유종에서는 22세로 높았으며, 여성의 비율도 55명 중 14명(25.5%)으로 높은 비율을 차지하는 것으로 보고했다. 이전에 보고된 증례를 살펴 봤을때 비인강외 혈관섬유종은 비인강 혈관섬유종 비해 나이와 여성의 비율이 높다. 이를 보면 조직학적으로 크게 차이 없지만 발생기전이나 그 밖에 다른 특징을 가지고 있음을 의심해 볼 수 있다.

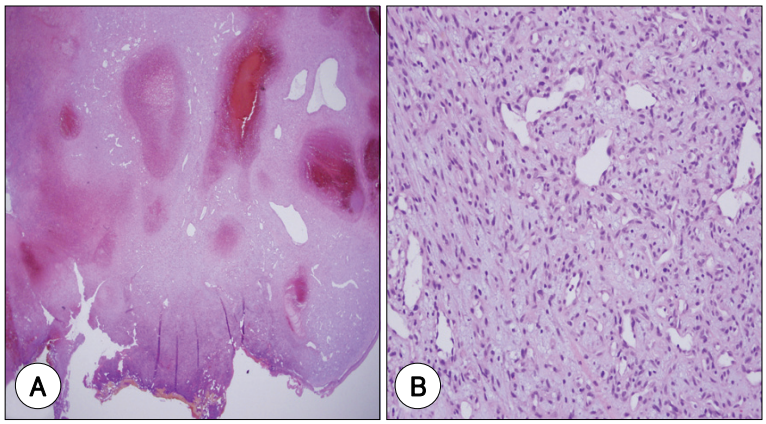

Fig. 3. Histopathology of the tumor showing variable sized blood vessel and fibrous stroma. Vascular channels are lined by flat endothelial cells (H-E stain, A : ×40, B : ×100).

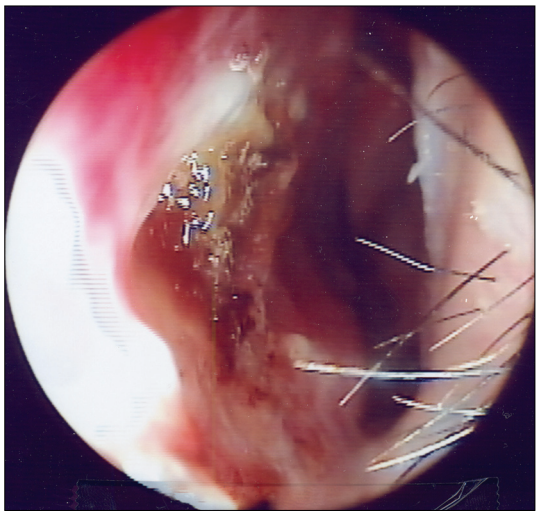

Fig. 4. Endoscopic photograph at postoperative 2nd week reveals no tumor remnant in nasal septum.

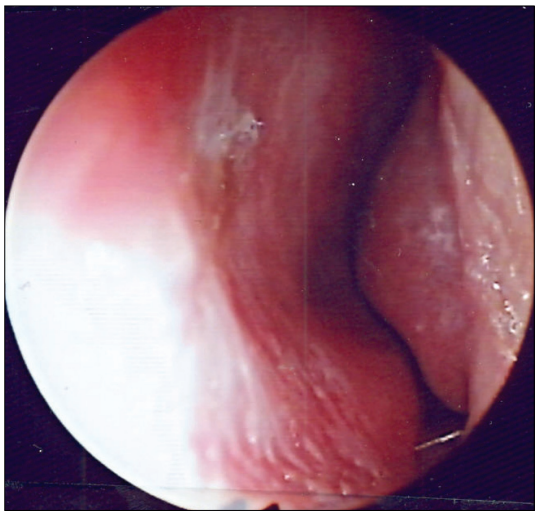

Fig. 5. Endoscopic photograph at postoperative 3rd month reveals no tumor remnant in nasal septum.

발생부위는 2004년 Windfuhr 등[7]은 이전에 보고 된 증례 65예를 분석해 보고하였는데 상악동에서 기원하는 것이 16예(24.6%)로 가장 많고 그 다음으로는 사골동이 8예, 비강 6예, 비중격이 3예 순으로 보고했다.

지금까지 비중격에서 발생한 혈관섬유종은 2005년 Somdas 등[5]은 비중격 1예를 더 발표해 국외에서 4예가 발표되었다. 국내 보고에서는 비인강외 혈관섬유종은 모두 4예가 발표되었고 발생부위는 하비갑개, 중비갑개, 연구개, 부인두강이었다.[8-10]

비인강 혈관섬유종의 주증상은 비폐색과 간헐적 비출혈이며, 종양이 이관구를 폐쇄하면 이통, 전음성 난청을 초래하고 구개 앞쪽으로 압박하여 구개의 운동장애 또는 연하곤란을 초래한다. 비인강외 혈관섬유종은 기원 부위에 따라 다양한 증상을 보일 수 있으나 가장 흔한 증상은 비출혈로 비폐색 혹은 무통성의 안면 부종을 동반하기도 한다. 비내시경 소견, 전산화 단층촬영이나 자기공명 영상촬영 그리고 경동맥 혈관조영술이 비인강외 혈관섬유종의 진단에 도움을 준다.[8,17]

치료로서는 수술, 방사선요법, 성호르몬요법 및 화학요법 등으로 크게 나눌 수 있고, 수술이 치료의 기본을 이루며 풍부한 혈관 분포로 인한 강한 출혈성 때문에 술전색전술을 시행하기도 한다. 비인강외 혈관섬유종의 주된 치료는 완전한 수술절제이다.

비인강 혈관섬유종의 경우 대부분 술전색전술을 시행 후 종괴를 제거했으나 비인강외 혈관섬유종의 경우 보고된 논문을 살펴보면 술전색전술을 시행한 경우도 있고 그렇지 않은 경우도 있었다. 이에 대한 정확한 언급은 없으나 비중격에서 발생한 혈관섬유종은 조영술은 가능하나 색전술이 유의하지 않기 때문에 시행하지 않는 것으로 생각된다.

본 증례에서는 비강내에 국한된 종괴이며 비중격 기원의 혈관섬유종으로 외측비익절제(lateral alotomy)를 하여 좌측 비중격을 노출시킨후 전기 소작기(Bopolar electric coagulator)를 사용하여 기시부 주위를 전기소작한 후 겸자를 이용하여 종괴를 적출하였다.

치료 방법을 살펴 보았을 때 1984년 Hiraide 등[15]은 전비경으로 관찰하여 보이는 종물을 비용교단기(nasal snare)를 이용해 제거한 후 전기 소작기로 지혈하였고, 2001 Handa 등[16]은 비내시경하에서 보이는 종괴를 제거하려했으나 출혈이 많아 외측비익절제(lateral alotomy)후 종괴를 적출하였다.

보고된 논문에 살펴 보았을때 비인강의 혈관섬유종은 제거후 출혈이 많아 안전하게 제거하기 위해 가능할 경우 술전색전술이 필요할 것으로 사료되고 비중격에 발생한 혈관섬유종은 술전색전술을 하지 못할 경우 수술 중 출혈이 많이 발생할수 있으므로 수술 부위 노출을 위해 외측비익 절제술도 고려해 보는 것이 좋을 것으로 생각된다. 저자들은 문헌상 희귀한 비중격에 발생한 혈관섬유종을 수술적으로 제거하고, 3개월간 재발하지 않았기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 혈관섬유종 · 비중격.

REFERENCES

1) Rho YS, Park IS, Kim JH, Kim SD. *A case of angiofibroma arising in parapharyngeal space. Korean J Otolaryngol 2002;45 (11):1105-9.*
2) Sarpa JR, Novelly NJ. *Extranasopharyngeal angiofibroma. Otolaryngol Head Neck Surg 1989;101 (6):693-7.*
3) Alvi A, Mussiorek D, Fuchs A. *Extranasopharyngeal angiofibroma. J Otolaryngol 1996;25 (5):346-8.*
4) Gaffney R, Hui Y, Vojvodich S, Forte V. *Extranasopharyngeal angiofibroma of the inferior turbinate. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 1997;40 (2-3):177-80.*
5) Somdas MA, Ketenci I, Unlu Y, Canoz O, Guney E. *Extranasopharyngeal angiofibroma originating from the nasal septum. Otolaryngology Head and Neck Surg 2005;133 (4):647.*
6) Huang RY, Damrose EJ, Blackwell KE, Cohen AN, Calcaterra TC. *Extranasopharyngeal angiofibroma. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2000;56 (1):59-64.*
7) Windfuhr JP, Remmert S. *Extranasopharyngeal angiofibroma: etiology, incidence and management. Acta Otolaryngol 2004;124 (8):880-9.*
8) Park YJ, Hwang SJ, Hong JH, Lee BH. *A case of extranasopharyngeal angiofibroma of the inferior turbinate. Korean J Otolaryngol 2005;48 (4):523-5.*
9) Chung YS, Kim JK, Kweon HW, Lee WS. *Angiofibroma: an unusual presentation in soft palate. Korean J Otolaryngol 1995;38(5):779-85.*
10) Lim DJ, Kang SH, Jung MS, Kim HG. *A case of angiofibroma from the middle turbinate of an adult woman. Korean J Otolaryngol 2005;48 (4):543-6.*
11) Harrison DF. *The natural history, pathogenesis and treatment of juvenile angiofiroma. personal experience with 44 patients. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1987;113 (9):936-42.*
12) Brunner H. *Nasopharyngeal fibroma. Ann Otol 1942;51:30-65.*
13) Schiff M. *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: a theory*

of pathologenesis. Laryngoscope 1959;69:981-1016.
14) Akbas Y, Anadolu Y. *Extranasopharyngeal angiofibroma of the head and neck in women. Am J Otolaryngol 2003;24 (16):413-6.*
15) Hirade F, Matsubara H. *Juvenile nasal angiofibroma Arch Otorhinolaryngol 1984;239 (3):235-41.*
16) Handa KK, Kumar A, Singh MK, Chhabra AH. *Extranasopharyngeal angiofibroma arising from the nasal septum. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2001;58 (2):163-6.*
17) Cho JH, Kim CS, Ihn YK, Park YJ. *A Case of Extranasopharyngeal angiofibroma of the ethmoid sinus in a 72-year-old man space. Korean J Otolaryngol 2007;50 (3):268-71.*