

하악 구치부 설측면에 발생한 혈관평활근종의 치험 1례

최문경 · 윤규호 · 박관수 · 정정권 · 신재명 · 백지선 · 박지현
인제대학교 상계백병원 구강악안면외과학교실

Abstract

ANGIOMYOMA OF THE LINGUAL ASPECT OF THE MANDIBULAR SECOND MOLAR: A CASE REPORT

Mun-Kyung Choi, Kyu-Ho Yoon, Kwan-Soo Park, Jeong-Kwon Cheong,
Jae-Myung Shin, Jee-Sun Baik, Ji-Hyun Park

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Inje University Sanggye Paik Hospital

Angiomyoma is the vascular type of leiomyoma that the tumor cells are originated from vascular smooth muscle cells. It's frequently found in the subcutaneous tissues of the lower extremities. Such case of an angiomyoma within the oral cavity is rarely found. From a series of 7748 smooth muscle tumors of all types, only 0.06% were found in the oral cavity. This is a rare case of a young woman appeared with oral angiomyoma located in the left mandibular posterior region with plain radiograph, CT and histologic review.

Key words: Angiomyoma, Angioleiomyoma, Vascular leiomyoma

I. 서 론

평활근종(leiomyoma)은 평활근에서 유래된 양성 종양으로 평활근이 있는 곳이라면 어디에서나 발생할 수 있으며, 조직학적 특성에 따라 고형성 평활근종(solid leiomyoma), 혈관평활근종(angiomyoma), 유상피 평활근종(epitheloid leiomyoma)으로 나눌 수 있다^{1,2)}. 이 중 혈관평활근종은 혈관벽의 평활근에서 발생하며 많은 혈관을 보이는 것이 특징이다. 1937년 Stout³⁾는 혀의 기저부에 발생한 2개의 혈관평활근종 증례에서 병소는 임상적으로 표층에 존재하며 동통이 없고 서서히 자라며 잘 경계 지워진 수 mm에서 3cm에 이르는 작은 혹(nodule)으로 관찰된다고 하였다^{4,5)}. 또한 질감은 다양하며 일반적으로 작은 크기에서는 단단하고, 좀 더 큰 크기의 병소에서는 부드러운 질감을 갖는다고 하였다. 색은 병소의 깊이나 혈관의 양에 따라 다양하며 조직학적으로는 혈관, 평활근 세포, 결합 조직을 포함한다⁶⁾. 혈관평활근종은 하지의 피하조직에서 주로 발견되며 구강 내

발생은 드문 편이다. 7748개의 보고된 모든 종류의 평활근신생물 중 5개(0.06%)만이 구강 내에서 발견되었으며 이 중 64~66.2%가 혈관평활근종인 것으로 조사되었다⁷⁾. 구강 내에서도 입술이 48.6%로 발생 빈도가 가장 높았고 다음으로 구개(21.1%), 협측 전정 및 혀(9.2%) 순으로 발생했다⁸⁾.

본 교실에서는 젊은 여성의 하악 좌측 대구치부의 설측 점막에 발생한 혈관평활근종의 매우 드문 증례를 경험하여 이를 보고하고자 한다.

II. 증례보고

22세 여자 환자가 좌측 구치부에 종물과 이로 인한 동통을 주소로 내원하였다. 환자는 병소의 초기 발생 시기를 모르는 상태였으며 병소 부위의 통증으로 우연히 발견하게 되었고 최근 들어 그 크기가 점차 증가하는 양상을 보여 내원하게 되었다. 구강악안면 임상검사 결과 약 2.5 cm 직경의

부드럽고 탄성이 있으며 표면은 대부분 정상 점막으로 덮여 있었지만 부분적으로 약간의 궤양이 있는 병소가 하악 좌측 구치부 설측 치은에 부착되어 있었다(Fig. 1).

파노라마 상에서 좌측 하악 제2대구치 치근 주위로 약간의 미만성의 치조골 침윤이 관찰되었으며, CT 상에서 좌측 치은에 2.4 × 2.0 cm 크기의 난원형의 종물이 관찰되었고 이 종물에 인접한 하악골 내면에 약간의 골침윤이 동반되어 있었다. 병소 주변은 비교적 조영이 잘 되고 중심부는 조영이 잘 되지 않아, 농양과 유사하게 나타났으며 그 외 육아종이나 종양 등과의 감별이 필요했다(Fig. 2 A, B).

국소마취 하에서 절개 생검을 시행한 결과 급성 및 만성 염증을 동반한 육아 조직으로 가진단되어 전신 마취 하에서 절제 생검 및 하악 좌측 제 2대구치와 제 3대구치의 발치를 계획하였다.

환자는 특이할 만한 내과적 병력은 없었고, 모든 술전 검사 결과들은 정상 범주 내에 있었다. 전신 마취 하에서 병소의 외과적 적출 및 하악 좌측 제 2, 3 대구치 발치를 시행하

고 조직검사를 의뢰하였다. 그러나 수술 전 임상검사에서만 달 전보다 병소의 크기가 상당히 증가된 소견을 보였다(Fig. 3).

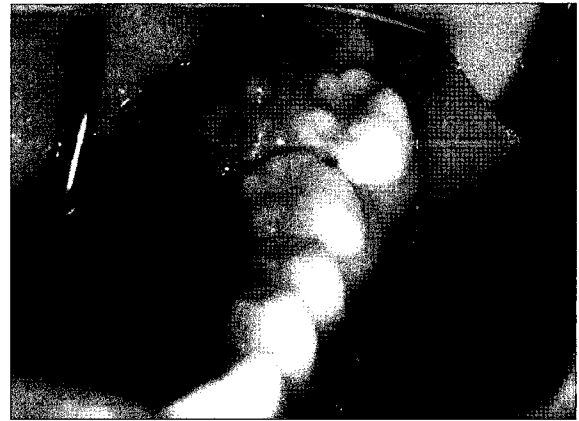


Fig. 1. Intraoral photograph showing a tumor of the lingual aspect of the mandibular second molar.

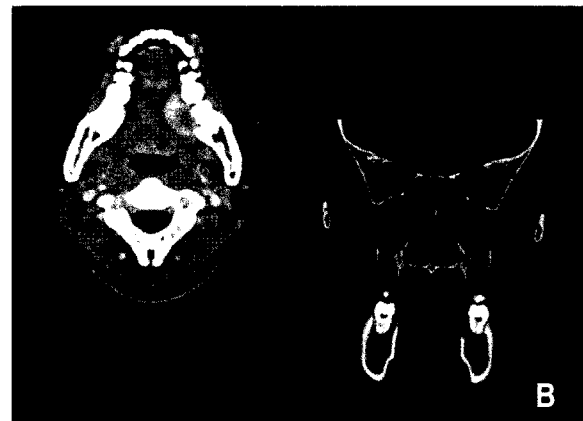
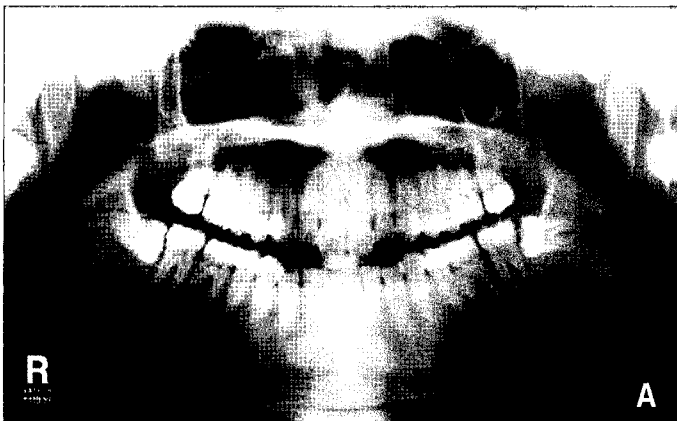


Fig. 2. Preoperative panorama and CT scans. A. Panorama showing slight alveolar bone resorption of left mandibular second molar, B. CT scans show a well-demarcated mass of the left mandibular second molar.



Fig. 3. Intraoral photograph showing rapidly growing mass.

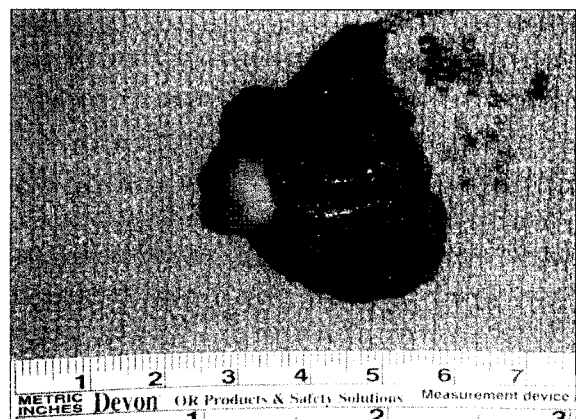


Fig. 4. Specimen with the left mandibular second molar.

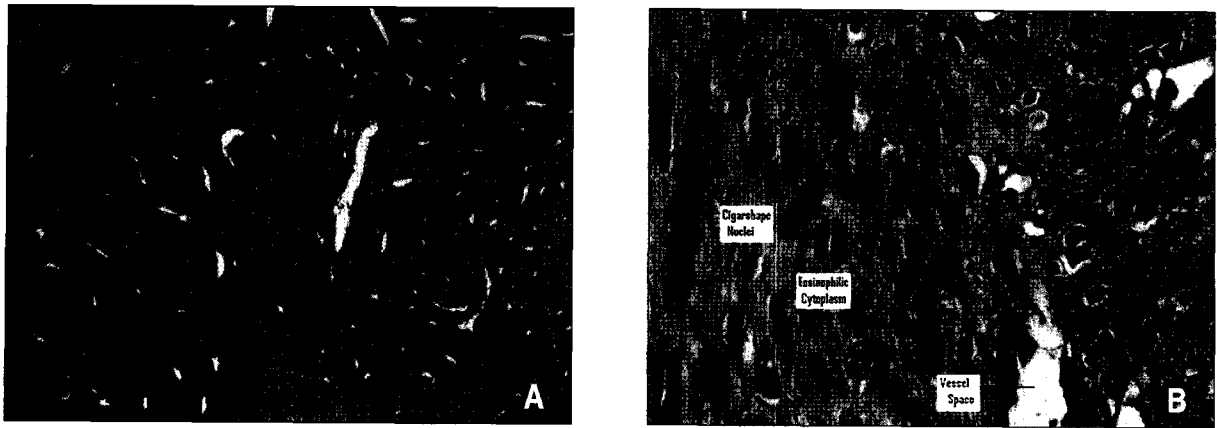


Fig. 5. Microphotographs of angiomyoma. A. H&E \times 100, B. H&E \times 400.

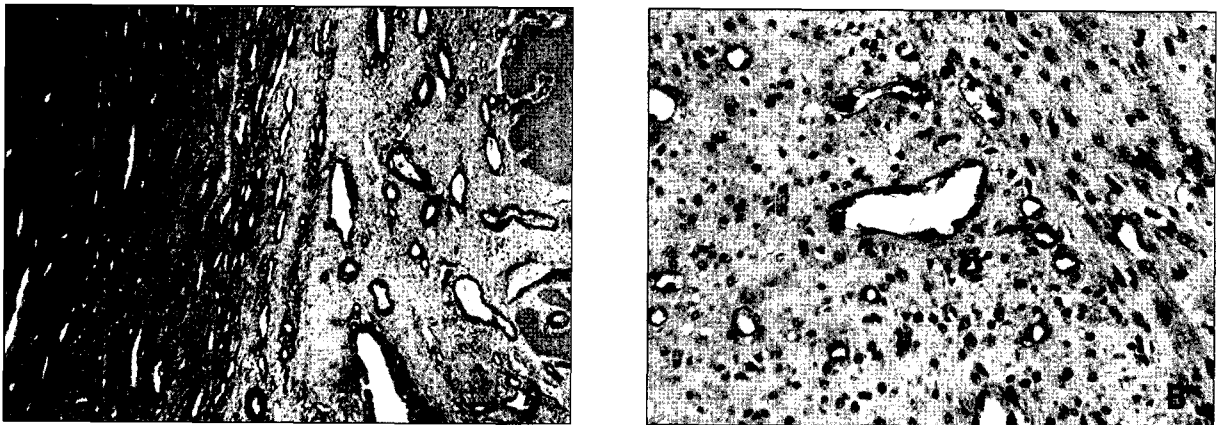


Fig. 6. Microphotographs of angiomyoma. A. positive reaction to SMA B. negative reaction to CD34.



Fig. 7. Postoperative panorama (15 months after surgical excision).

시편은 대구치에 부착된 $4 \times 2.5 \times 2.3$ cm의 점막으로 덮힌 작은 흑 같은 종물이었으며 단면은 회백색이고 출혈이나 괴사는 없었다(Fig. 4).

H&E 염색에서 평활근 다발이 교원질 섬유들 사이에 산재되어 있었고, 방추형의 평활근 세포 내에는 길고 뭉툭한 끝을 가진 cigar형태의 핵과 호산성의 세포질이 관찰되었다(Fig. 5 A, B).

또한 면역조직화학염색에서 SMA(smooth muscle actin)는 양성 반응을 CD34는 음성 반응을 보여 표면에 미란이 발생한 혈관평활근종으로 확진되었다(Fig. 6).

술후 15개월까지 재발 및 별다른 특이사항은 없는 상태로 좋은 경과를 보이고 있다(Fig. 7).

Ⅲ. 고 찰

혈관평활근종은 혈관의 평활근에서 발생하는 병소로 혈관 평활근종(angioleiomyoma), 혈관종(angioma), 혈관성 평활근종(vascular leiomyoma), 혈관성 근종(vascular myoma) 등과 같은 여러 가지 명칭으로 알려져 왔다. 그러나 World Health Organization에서 제정한 International Histological Classification of Tumors에 따르면 angioleiomyoma라는 명칭을 선호하고 있다⁴⁾.

대부분의 학자들은 혈관평활근종을 혈관벽의 평활근에서 발생한 것으로 보고하였으나 어떤 학자들은 혈관평활근종을 과오종, 혈관의 기형(vascular malformation) 또는 혈관중에서 고형성 평활근종으로 변해가는 단계 중 평활근이 지속적으로 증식하는 과정이라고 보고하였다^{5,9-11)}. 임상적으로 혈관평활근종은 하지의 피부에서 주로 발생하며 고형성의 작고 동통이 있는 종물이 단독적으로 나타난다. 두경부에서는 혈관평활근종의 8.5~10%만이 발생하며 보통 무통성의 혈관성 또는 해면성 형태로 발생한다^{9,10)}.

Esguep과 Solar¹²⁾에 따르면 구강 내에서 가장 호발하는 부위는 구개이며 다음이 뺨, 하순의 순이다. 구강 혈관평활근종은 대부분 중년의 성인에서 발견되고 남자에서 더 호발하며 어린이에서는 매우 드물다. 동통은 사지나 몸통에 발생한 혈관평활근종에서는 일반적인 증세이지만 구강에서 발생한 증례에서는 매우 드물다¹³⁾. Duhig와 Ayer¹⁰⁾는 동통의 발생 원인을 병소 내 혈관의 수축에 따른 허혈 때문이라고 보고하였다. Morimoto¹⁴⁾는 혈관평활근종을 조직학적 특징에 따라 고형성(solid type), 해면성(cavernous type), 정맥성(venous type)의 3가지로 나누었고 이 중 고형성에서 가장 허혈이 발생하기 쉬우며 이는 몸통과 사지에서 흔히 생긴다고 보고하였다. 그러나 두부에서는 보통 정맥성으로 발생하므로 통증이 드물다.

대부분의 증례에서 구강에서 발생한 혈관평활근종은 다른 연조직 증식성 병소와 쉽게 혼동될 수 있다. 즉 육아종, 다른 종류의 섬유성 또는 신경성 종양, 특이한 감염성 질환, 타액선 종양, 평활근육종 등과 감별 진단이 필요하다. 또한 조직학적으로는 방추형 세포가 발견되는 신경초종과 같은 질환과의 감별이 어려우므로 SMA의 면역조직화학적 검출이 감별진단에 유용하다^{15,16)}. 또한 CD34 표지를 이용한 면역조직화학적 소견으로써 정확한 진단에 접근할 수 있다. CD34 양성간질세포(CD34 positive stromal cell)는 혈관 외벽에서 검출된다¹⁷⁾. 그러나 혈관평활근종에서의 두꺼워진 혈관벽은 CD34 양성간질세포로 둘러싸여 있지 않으므로 CD34 표지에 음성을 반응을 보이게 된다.

이 환자에서 파노라마 및 CT에서 약간의 골 침윤이 관찰되고 절개 생검 후 1개월 동안 약 1.5cm의 크기 증가가 있었지만 임상적 양상과 일차적으로 시행한 절개 생검을 통해 악성종양의 가능성은 배제하였다. 또한 절제 생검으로 얻은 조직 시편을 이용한 현미경 관찰 및 면역조직화학검사서 SMA에 양성, CD34에 음성을 보여 혈관평활근종으로 확진되었다^{17,18)}. 따라서 절개 생검 후 1개월 동안 일어난 병소의 빠른 성장은 생검으로 인한 자극 때문이었을 것이라 추측된다.

구강 혈관평활근종의 일차적 치료법은 외과적 절제이다. 병소 내에 혈관이 풍부하지만 제거 동안 심한 출혈은 드물다. 또한 구강 병소에 있어서 재발은 매우 드물다^{19,20)}.

결론적으로 구강 내에 발생한 과증식성 연조직 종물이 발견 되었을 때 매우 드물기는 하지만 혈관평활근종의 가능성도 고려해 볼 수 있다.

References

1. Shafer WG, Hine NK, Levy BN : Text of oral pathology, 4th Ed. Philadelphia & London, Saunders, 1983. p.182.
2. Enzinger FM, Latters R, Torloni H : Histological typing of soft tissue tumours, Geneva, 1969, World Health Organization, pp.30.
3. Stout AP : Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. Am J Cancer 29:435-69, 1937.
4. Gutmann J, Cifuentes C, Angelica M *et al* : Angioleiomyoma of the oral cavity. Oral surg 38:269, 1974.
5. Wang CP, Chang YL, Sheen TS : Vascular leiomyoma of the head and neck. Laryngoscope 114:661, 2004.
6. Neville BW, Damm DD, Allen CM *et al* : Oral and Maxillofacial Pathology, ed. Philadelphia, WB Saunders, 1995, p.397.
7. Farman AG : Benign smooth muscles. S Afr Med J 49:1333, 1975.
8. Akizawa S : Angioleiomyoma: an analysis of 124 cases. Jikeikai Med J 27:71, 1980.
9. Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M : Angioleiomyoma. a clinicopathologic reappraisal of 562 cases. Cancer 54:126, 1984.
10. Duhig JT, Ayer JP : Vascular leiomyoma : a study of sixty-one cases. Arch Pathol 68:424, 1959.
11. Giles AD, Gosney MBE : Oral Angioleiomyoma : a Case Report. British J of Oral Surg 20:142, 1982.
12. Esguep A, Solar M : Oral vascular leiomyoma : Report of 5 cases and review of the literature. J Oral Med 41:126, 1986.
13. Toida M, Koizumi H, Shimokawa K : Painful angioleiomyoma of the oral cavity : report of a case and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 58:450, 2000.
14. Morimoto N : Angioleiomyoma(vascular leiomyoma): a clinicopathologic study. Med J Kagoshima Univ 24:663, 1973.
15. Anastassov GE, van Damme PA : Angioleiomyoma of the upper lip: report of a case. Int J Oral Maxillofacial Surg 24:301, 1995.

16. Toida M, Shimokawa K, Ikeda T *et al* : Schwannoma(neurilemmoma) of the tongue: the immunohistochemical differentiation from angiomyoma. *Hosp Dent Oral Maxillofac Surg* 7:68, 1995.
17. Nakayama H, Enzan H, Miyazaki E *et al* : Lack of CD34 positive stromal cells within angiomyomas(vascular leiomyomas). *J Clin Pathol* 55:395, 2002.
18. Nikitakis NG, Lopes MA, Bailey JS *et al* : Oral leiomyosarcoma: review of the literature and report of two cases with assessment of the prognostic and diagnostic significance of immunohistochemical and molecular markers. *Oral Oncol* 38:201, 2002.
19. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ *et al* : Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral surg oral med oral pathol* 94:221, 2002.
20. Svane TJ, Smith BR, Cosentino BJ *et al* : Oral leiomyomas : review of the literature and report of a case of palatal angioleiomyoma. *J Periodontol* 57:433, 1986.

저자 연락처

우편번호 139-707
서울시 노원구 상계7동 761-1
상계백병원 구강악안면외과학교실
박관수

원고 접수일 2008년 7월 31일
게재 확정일 2008년 9월 17일

Reprint Requests

Kwan-Soo Park
Dept. of OMFS, Inje Univ. Sanggye Paik Hospital
761-1, Sanggye 7 dong, Nowon-gu, Seoul, 139-707, Korea
Tel: 82-2-950-1161
E-mail: elegie@paik.ac.kr

Paper received July 31 2008
Paper accepted September 17 2008