

이하공간에 발생한 점액선 선종양 과오종 1예

김상욱 · 이성민 · 이강현 · 박기준 · 박혜상*

한림대학교 의과대학 춘천성심병원 이비인후-두경부외과학교실

A Case of Mucinous Gland Adenomatoid Hamartoma Originated from Submental Space

Kim Sang Wook MD, Lee Sung Min, MD, Lee Kang Hyun, MD, Park Ki Joon, MD, Park Hae Sang, MD, PhD*

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Chuncheon Sacred Heart Hospital,
Hallym University, College of Medicine, Chuncheon, Korea

= Abstract =

Hamartomas are non-neoplastic malformations or congenital errors of tissue development. Hamartoma is composed by an excessive growth of mature tissue present in wrong proportions and abnormal arrangements. The lesion usually presents as a submucosal mass with ill-defined margins. Hamartoma occurs in all areas of the body, especially in the liver, spleen, kidney and lung. However, hamartoma is very rare in the head and neck. Presenting symptoms of hamartoma are typically vague and nonspecific. Treatment of hamartomas consists of adequate surgical excision. We present a 59 year-old male patient who presented with submental swelling. Malignancy could not be ruled out with preoperative radiologic examination, so surgical excision was planned. The mass was excised with transcervical approach. Histopathologic examination has confirmed the mass as a mucinous gland adenomatoid hamartoma.

Key Words : Adenomatoid hamartoma · Submental space

서론

과오종(hamartoma)은 1904년 Albrecht에 의해 처음 기술된 질환으로¹⁾, 발생 부위의 고유 조직들 중 하나 또는 그 이상의 세포 성분의 비정상적 혼합을 특징으로 하는 양성 종양이다. 아직까지 정확한 원인과 병태 생리는 밝혀져 있지 않지만 발생학적 이상 또는 염증에 대한 조직 반응의 결과로 인해 발생하는 것으로 생각되고 있다.²⁾ 과오종은 신체의 어느 부위에서나 발생할 수 있으며 간, 비장, 신장 그리고 폐에 주로 발생하고, 두경부에 발생한

과오종에 대한 보고는 매우 적다.³⁾ 두경부에 발생한 과오종은 주로 비강, 부비동, 인두, 혀 등의 구조물에서 발생하고, 다양한 종류들의 조직들이 과오종을 형성한다. 과오종은 병리학적으로 연골과 혈관, 지방 등의 간엽조직에서 유래된 간엽성 과오종과 상피와 분비선 등의 상피조직에서 유래된 상피성 과오종으로 크게 나뉜다.⁴⁾ 한 개의 병변 형태로 나타나기도 하고, 다발성 과오종 증후군 형태로 나타나기도 하며 대개 과오종 자체로 인한 증상은 없으나 과오종의 크기가 커지면서 발생 장기에 대한 특이 증상을 유발한다.⁵⁾ 국내에서 비강^{3,6)}, 비인두⁷⁾, 혀⁸⁾, 구개편도⁹⁾, 성문하부¹⁰⁾에서 발생한 과오종이 보고되었으나 아직까지 이하공간에 발생한 과오종은 보고된 바 없다. 이에 저자들은 59세 남자 환자의 이하공간에 발생한 과오종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received : August 29, 2019

Revised : November 6, 2019

Accepted : November 7, 2019

*Corresponding author: Park Hae Sang, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
Chuncheon Sacred Heart Hospital, Hallym University College
of Medicine, 77 Sakju-ro, Chuncheon 24253, Korea
Tel: +82-33-240-5180, Fax: +82-33-241-2909

E-mail: hs-piao@hanmail.net

증례

59세 남자가 8개월 전 발견한 턱밑의 점차 커지는 종물

을 주소로 내원하였다. 기저 질환으로 고혈압이 있고, 40갑년의 흡연력과 월 10회, 회당 소주 1병, 40년간의 음주력이 있었다. 외래에서 시행한 신체 검사에서 level IA 부위에 약 5 x 4cm 크기의 단단하고 주변 조직과 고정된 양상의 종괴가 만져졌으며, 통증이나 압통은 없었다. 구강 내에서도 촉진 시 우측 구강저 부위로 단단하고 유동성이 없으며 무통성의 종괴가 만져졌고, 그 외에 인두 및 후두에 특이소견은 없었다.

경부 전산화 단층 촬영 검사에서 우측 구개저 및 level IA 부위에서 비균질적으로 조영 증가되며 경계가 명확하지 않고 우측 설하 공간 및 우측 악하 공간 침윤을

보이는 4 x 4.5 cm 크기의 종물이 관찰되었고 양측 level IB 및 IIA의 반응성 림프절 종대 소견 보였다(Fig. 1). 악성 종물 또는 혈관종과의 감별이 필요하다는 영상의학과 의견으로 추가적으로 초음파 유도 하 세침 흡인 세포 검사를 의뢰하였다. 초음파 검사상 혈관의 과증식 소견 보여 혈관종이 의심되어 출혈 위험으로 세침 흡인 세포 검사는 시행하지 않았다(Fig. 2).

종물의 정확한 조직학적 평가 및 절제를 위해 전신 마취 하에 경경부접근법을 통한 절제술을 시행하였다. 수술 전 환자에게는 경구강 접근법이 추가로 필요할 수 있음을 설명하였고, 종물의 악성 가능성 및 병리 검사에

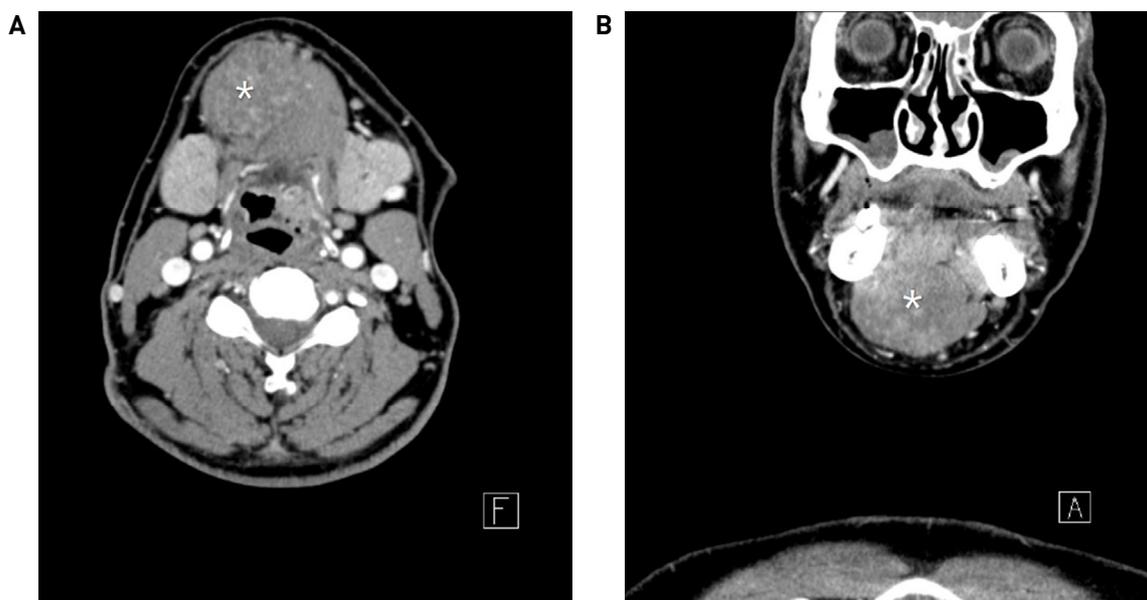


Fig. 1. Preoperative CT findings in the patient. (A and B) Submental mass with heterogeneous enhancement, ill defined margin, right sublingual space and right submandibular space invasion, poor differentiation with right mylohyoid muscle, partial midline cross over at anterior mouth floor.

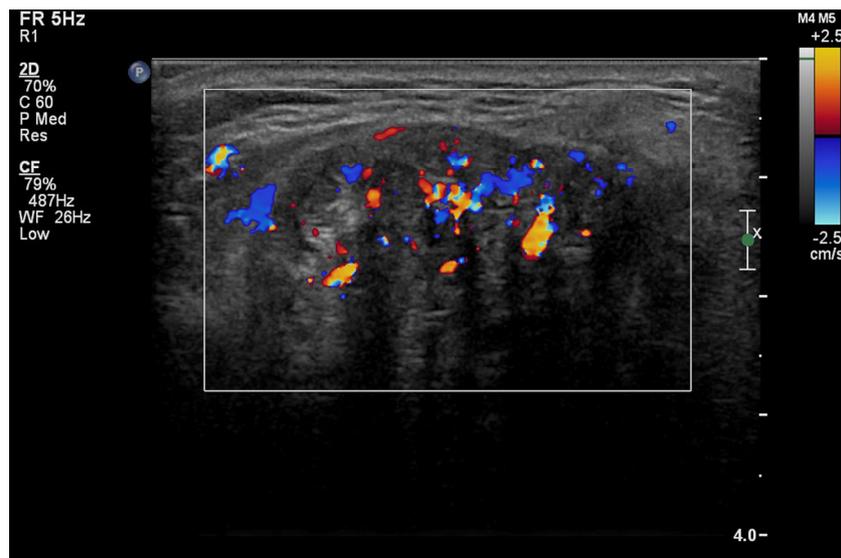


Fig. 2. Preoperative ultrasound finding of the mass. Hemangioma was suspected due to hypervascularity of the mass.

따른 2차 수술과 추가 치료 가능성에 대해서도 설명하였다. 경구강 접근법을 대비하여 경비강 기도 삼관을 시행하였으며, level IA에 약 10 cm 길이의 피부절개를 피부 주름을 따라 수평하게 시행하였다. Level IA 에 이복근, 악설골근과 유착이 심하고 하악골의 하연과도 유착되어 분리되지 않는 4 x 4.5 cm 크기의 단단하고 경계가 불분명한 종물이 보였으며, 이는 악설골근을 통과하여 우측 구강저로 연결되어 있었다(Fig. 3). 이상의 수술 소견으로 악성의 가능성이 높아 보였으나, 수술 중 시행한 동결 절편 검사상 현미경적으로 양성의 가능성이 높으며, 다만 종괴의 경계가 불분명하고 유착이 보여 최종 조직 검사를 통해 선량암종의 감별이 필요하다는 답변을 받았다. 종괴의 완전 절제를 위해서는 종물의 주변 유착이 매우 심하여 경경부 접근만으로는 불충분하였고 추가적으로 경구강 절개가 필요하였으나, 악성의 경우, 수술 소견 상 구강저 점막과의 박리 및 보존이 어려울 것으로 판단되었다. 따라서, 최종 병리 결과에 따라 PET-CT를

포함한 추가 영상학적 검사 및 경부 임파선 청소술을 포함한 광범위 절제술, 재건술 가능성에 대한 준비가 필요할 것으로 판단되어, 보호자에게 설명 후 종괴의 구강저 부분은 일부 남겨놓고 수술을 종료하였다. 환자는 특별한 합병증 없이 퇴원하였으며, 최종 병리 검사상 점액선이 과증식된 소견 보이는 점액선 선종양 과오종으로 진단되었다(Fig. 4). 현재 수술 후 4개월째로, level IA 종물로 인한 종창은 수술 후 사라진 상태이며, 구강 내 촉진 시 우측 구강저에는 약 1 x 1cm 크기의 종괴가 남아 있는 상태이나, 특별한 합병증 또는 불편감 없어 경과 관찰 중이다. 종물이 일부 남아있기 때문에 다시 커질 가능성에 대해서 환자에게 설명하였으며, 정기적 외래 관찰 및 경부 전산화 단층 촬영을 통해 종물이 다시 커짐으로써 환자가 구강 내 불편감, 압박감 등의 기능적 이상을 호소하거나 미용적 필요성을 느낄 시에는 재수술을 시행하기로 하였다.



Fig. 3. Intraoperative photo of the mass. Ill demarcated mass measuring approximately 4x4.5 cm.

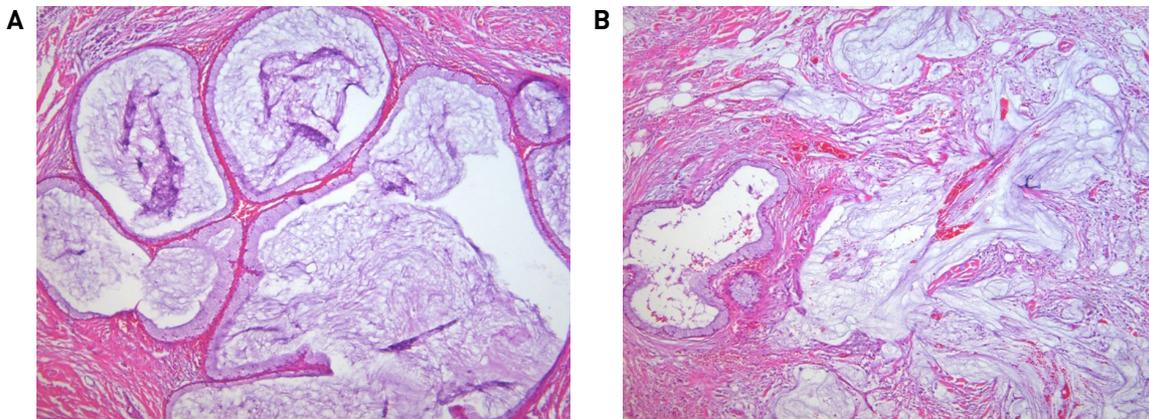


Fig. 4. Microscopic findings (A and B). A (H&E stain, ×200): Hamartoma with hyperplasia of mucinous gland. B (H&E stain, ×100): Mucocoele made from mucin spillage of Hamartoma.

고찰

과오종은 연골, 혈관, 지방, 상피, 분비선 등의 여러 종류의 조직들이 일정한 비율 없이 증식되어서 배열되어 있거나, 어느 한 종류의 조직이 현저하게 형성된 양성 종양의 일종이다.²⁾ 과오종은 연골, 혈관, 지방 등의 간엽 조직에서 유래된 간엽성 과오종과 상피, 분비선 등의 상피조직에서 유래된 상피성 과오종으로 나누어지며 상피성 과오종은 간엽성 과오종에 비하여 드물다.⁴⁾ 점액선 선종양 과오종은 상피성 과오종에 해당한다.

과오종은 다른 신생물과 달리 지속적인 분열을 통한 성장을 하지 않아 크기 성장의 제한이 있으며 주변 조직으로의 침습 및 악성 변화를 하지 않는다.¹¹⁾ 과오종 자체로 인한 증상은 거의 없거나 비특이적인 증상을 보이고, 크기가 증가하면서 발생 부위에 따른 압박 증상을 나타낸다.^{9,10)} 이런 특징을 살펴 보았을 때 증상이 없는 경우 경과 관찰을 시행할 수 있을 것으로 생각되나 실제로 임상에서 불규칙한 경계와 점막 하 종양으로 관찰되고 과오종은 정상 세포의 과도한 증식으로 발생하기 때문에 증식한 세포의 종류에 따라 다양한 영상학적 소견을 관찰 할 수 있어 영상 검사만으로는 진단의 어려움이 있다.¹²⁾

본 증례의 환자도 경부 전산화단층촬영에서는 불명확한 경계의 악성 종괴 의심 소견 보인 반면, 초음파 검사 상에는 혈관중 소견을 보여 명확한 평가를 위해 수술적 절제 및 생검이 필요하였다. 수술 소견 상 종물의 경계가 불명확하고 주변 조직과의 심각한 유착을 보여 악성으로 의심되었으나, 동결절편 검사는 양성의 가능성이 더 높았고, 다만 최종 병리 검사를 통해 선낭암종과 감별이 필요한 상황이었다. 본 증례는 최종적으로는 과오종으로 진단되었으나, 경부 전산화단층촬영과 초음파 소견의 불일치, 수술 소견과 동결절편 검사의 불일치가 있어 진단에 어려움이 있었다. 따라서 과오종의 경우 수술적 절제 이전에 신체진찰, 영상학적 검사 만으로는 진단에 어려움이 있어 수술적 절제를 통한 병리학적 진단이 필요하다. 또한 과오종은 영상학적 검사, 임상적 소견, 조직 검사 결과가 다르게 나올 수 있음을 유념하고 이에 대한 적절한 치료 계획을 수립하는 것이 중요할 것이다.

과오종의 치료는 매우 드물게 악성화의 가능성이 있으므로¹³⁾ 수술을 통한 종물 자체의 완전한 절제가 추천되고 있으며, 불완전하게 제거한 경우에는 재발의 원인이 될 수 있다.¹⁴⁾ Alimujiang Wushou 등이 두경부에 발생한 194예의 과오종에 대해 분석한 결과 부분 절제술을 시행한 10건 중 4건에서 재발하였다는 보고가 있다.¹⁵⁾ 그러나, 악성화 가능성이 적은 병변이기 때문에, 경부의 주요

구조물에서 발생한 경우나 광범위한 절제가 필요한 경우에는 부분 절제술 후 전산화단층촬영 및 자기공명영상 촬영을 시행하며 장기적인 관찰을 고려할 수 있다는 보고도 있다.⁴⁾ 본 증례의 환자는 경경부적 접근으로 종괴의 대부분을 절제하였고, 환자에게 재발 가능성에 대한 충분한 설명 후 정기적 전산화단층촬영을 통한 경과 관찰을 진행 중이다. 종괴가 다시 커짐으로써 구강 내 불편감, 압박감 등의 증상이 생기거나, 미용적 필요성이 생긴다면 재수술을 고려해 볼 수 있을 것이다. 다만, 동결절편 검사 상 과오종이 확실하다면, 주요 구조물을 보존하는 범위 내에서는 완전 절제를 하는 것이 재발을 줄일 수 있을 것으로 생각한다.

결론적으로, 과오종은 비특이적인 신체검사 소견과 임상양상을 보이며, 영상학적으로 경계가 불분명한 병변으로써 악성종양과 감별이 어렵고, 두경부에 매우 드물게 발생하므로 수술 전에 정확히 진단하기 쉽지 않다. 이하공간에 단단한 종물이 발견 될 경우 과오종을 감별 진단에 포함 시켜야 하며, 영상의학적 검사, 수술 시의 소견, 병리학적 소견을 종합하여 적절한 수술 방법을 결정하는 것이 중요하다. 수술 중 동결절편 검사 상 과오종이 의심된다면, 완전 절제가 가능하다면 재발의 가능성을 낮추기 위해 완전 절제를 시행하는 것이 바람직하다. 그러나, 병변이 광범위한 경우, 주요 구조물을 최대한 보존하며 용적 축소 수술을 시행하고 경과 관찰을 하는 것도 치료의 한 방법이 될 수 있다. 다만 점액선 선종양 과오종은 보고된 예가 전세계적으로 많지 않아 병의 정확한 경과를 알기 위해서는 앞으로 더 많은 증례에 대한 연구가 필요할 것으로 생각된다.

References

- 1) Albrecht E. Über hamartome. *Verh Dtsch Ges Pathol.* 1904; 7:153-157.
- 2) Lupovitch A, Salama D, Batmanghelichi O. Benign hamartomatous polyp of the palatine tonsil. *J Laryngol Otol.* 1993;107:1073-1075.
- 3) Park KH, Kwon SU, Yoon SW, Joo JE. A case of adenomatoid hamartoma originated from nasal cavity. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg.* 2004;47:1323-1325.
- 4) Windfuhr JP. Laryngeal hamartoma. *Acta Otolaryngol.* 2004; 124:301-308.
- 5) Santana-Hernandez DJ, Ell SR, Da Costa P, Macklin CP, Hussain SS. Giant hamartoma of the oropharynx. *J Laryngol Otol.* 1996;110:480-482.
- 6) Lee HK, Cho KJ, Jung SH, Kim NS. A case of fibro-osseous hamartoma originated from nasal cavity. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg.* 2008;51:495-498.
- 7) Kim KM, Kwon SH, Park HS, Kang MJ. A case of mixed epi-

- thelial and mesenchymal hamartoma of nasopharynx. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg. 2012;55:191-193.*
- 8) Park JB. *A rare case of hamartoma of the tongue. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg. 1975;18:57-59.*
 - 9) Na HG, Bae CH, Kim YD, Song SY. *A case of hamartoma originated from the palatine tonsil. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg. 2011;54:731-733.*
 - 10) Lee MJ, Kim JY, Shim H-K, Kim MR. *A case of hamartoma of the subglottis. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg. 2018;61:370-373.*
 - 11) Davidson TM. *Tumors of the head and neck: Clinical and pathological considerations, 2nd Edition By John G. Batsakis, 573 pp. illus, Williams & Wilkins Co., Baltimore, MD, 1979. \$49.50. Head & Neck Surgery. 1980;3:77-77.*
 - 12) Kim BH, Kwon SK. *A case of hamartoma arising in the larynx. J Korean Soc Laryngol Phoniatr Logop. 2012;23:133-136.*
 - 13) Basile A, Gregoris A, Antoci B, Romanelli M. *Malignant change in a benign pulmonary hamartoma. Thorax. 1989;44:232-233.*
 - 14) Shara KA, al-Muhana AA, al-Shennawy M. *Hamartomatous tonsillar polyp. J Laryngol Otol. 1991;105:1089-1090.*
 - 15) Wushou A, Liu W, Bai XF, Xiong XP, Li G, Zhi KQ, et al. *Clinical analysis of 194 cases of head and neck hamartoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2013;115:299-303.*