



# A Case of Supraglottic Inverted Papilloma

Doyeon Kim , Yong Han Kim , and Seung-Ho Choi

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

## 후두 성문상부에 발생한 반전성 유두종 1예

김도연, 김용한, 최승호

울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실

Inverted papilloma is a rare benign tumor which usually arises from sinonasal mucosa. We experienced a case of 62-year-old male who presented with foreign body sensation in throat. A round mass was found at right false vocal cord in laryngoscopic examination. It was excised in laryngeal microsurgery. The pathologic diagnosis was inverted papilloma of false vocal cord. Recurrence or complication did not occur during the follow up period of three months.

**Keywords** Papilloma, Inverted; Laryngeal neoplasms; Vocal cords.

**Received** May 28, 2020

**Revised** June 25, 2020

**Accepted** July 1, 2020

**Corresponding Author**

Seung-Ho Choi, MD, PhD  
 Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, 88 Olympic-ro 43-gil, Songpa-gu, Seoul 05505, Korea  
 Tel +82-2-3010-3750  
 Fax +82-2-489-2773  
 E-mail shchoi@amc.seoul.kr

**ORCID iDs**

Doyeon Kim   
<https://orcid.org/0000-0003-2611-616X>  
 Yong Han Kim   
<https://orcid.org/0000-0003-0918-6668>  
 Seung-Ho Choi   
<https://orcid.org/0000-0001-9109-9621>

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.

## 서 론

반전성 유두종은 드물게 나타나는 비강의 양성 종양으로 전체 비강 종양의 0.5~4%를 차지한다. 주로 비강의 측벽이나 부비동에서 증식된 상피세포가 반전성으로 기질 내로 성장하여 발생한다.<sup>1)</sup> 이러한 반전성 유두종은 주로 40~70세에 발생하며 소아나 청소년 기에는 드문 것으로 알려져 있으며, 남녀 비는 4:1로 보고된다.<sup>2)</sup> 병리학적으로 양성 종양이지만 재발률이 높고 골 및 주위 조직을 파괴할 수 있으며, 악성 종양과의 연관성이 최대 15%까지 있는 것으로 알려져 있어 임상적으로는 악성 종양과 같이 취급되고 있으며 광범위한 수술적 제거 및 지속적인 추적이 필요하다.<sup>3)</sup>

비강 이외에서의 발생은 드문 것으로 알려져 있으나 일부 문헌에서 비강 외 발생이 보고된 바 있다. Swaid와 Alsaied<sup>4)</sup>는 성문상에서 발생한 반전성 유두종 1예를 최초로 보고한 바 있으나, 이후 보고된 바 없다. 이에 본 증례보고에서는 국내에서 최초로 확인된 성문상의 반전성 유두종 1예를 보고하고자 한다.

## 증 례

62세 남자 환자가 내원 2개월 전부터 발생한 경부 이물감을 주소로 본원 외래에 내원하였다. 외래에서 시행한 후두내시경검사상 우측 가성대에 직경 2 cm가량의 종물이 확인되었다(Fig. 1). 경부 전산화단층촬영상 경계 부위에 조영이 증강되고 내부에 격벽이

동반된 소엽상의(lobulated) 낭성 병변이 관찰되었다(Fig. 2). 이후, 경부 자기공명영상을 촬영하였고 T2 강조영상에서 중등도의 신호를 보였다(Fig. 3). 임상 및 영상검사상 후두낭종(laryngocele) 가능성이 높다고 확인되어, 조직검사 및 치료 목적으로 후두미세현미경하 레이저 절제술을 전신마취하에 시행하였다. 양성 종양의 수술에 준하여 종양의 경계를 따라 절제하였으며, 수술 중 동결절편검사는 시행하지 않았다. 종물 절제 이후, 절제면이 일부분 단단하게 만져지는 것을 확인하였으며, 수술 후 최종 병리검사 결과에 따라 필요 시 추가적인 치료 계획을 수립하기로 하였다.

수술 후 hematoxylin and eosin 염색을 통한 병리검사 결과, 과형성된 편평상피세포가 기질 내로 내변하는 양상이 확인되어 반전성 유두종으로 진단되었다(Fig. 4). 현재 수술 후

약 3개월 경과한 상태로 경부 전산화단층촬영 및 후두내시경 검사상 재발 및 합병증 없이 잘 치유된 소견을 보였다(Fig. 5).

## 고 찰

반전성 유두종은 외배엽 기원의 섬모호흡상피인 schneiderian 상피에서 발생하며 주로 비부비강 내에 발생한다.<sup>5)</sup> Schneiderian 상피에서 발생한 유두종은 그 성장 양식에 따라 반전성(inverted), 버섯 모양(fungiform), 원통형(cylindrical) 유두종으로 나뉜다.<sup>5)</sup>

반전성 유두종의 병인은 명확하게 알려져 있지 않으나, 반전성 유두종 검체에서 인유두종바이러스(human papilloma virus, HPV), 파포바바이러스(papovavirus)와 같은 바이러스

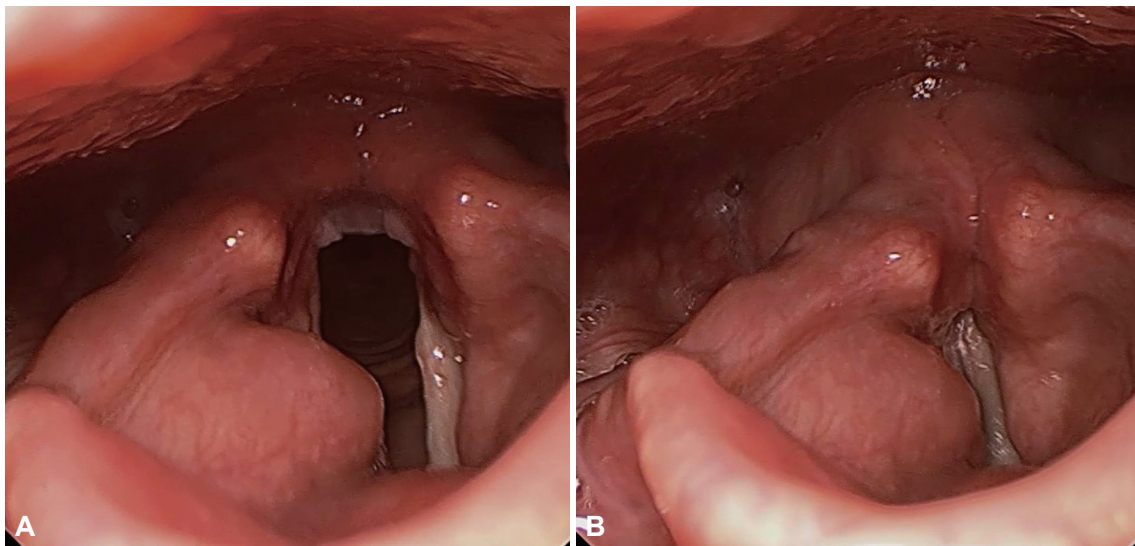


Fig. 1. Preoperative laryngoscopy image of a 2 cm sized, protruding mass on the right false vocal cord. A: Abduction. B: Adduction.

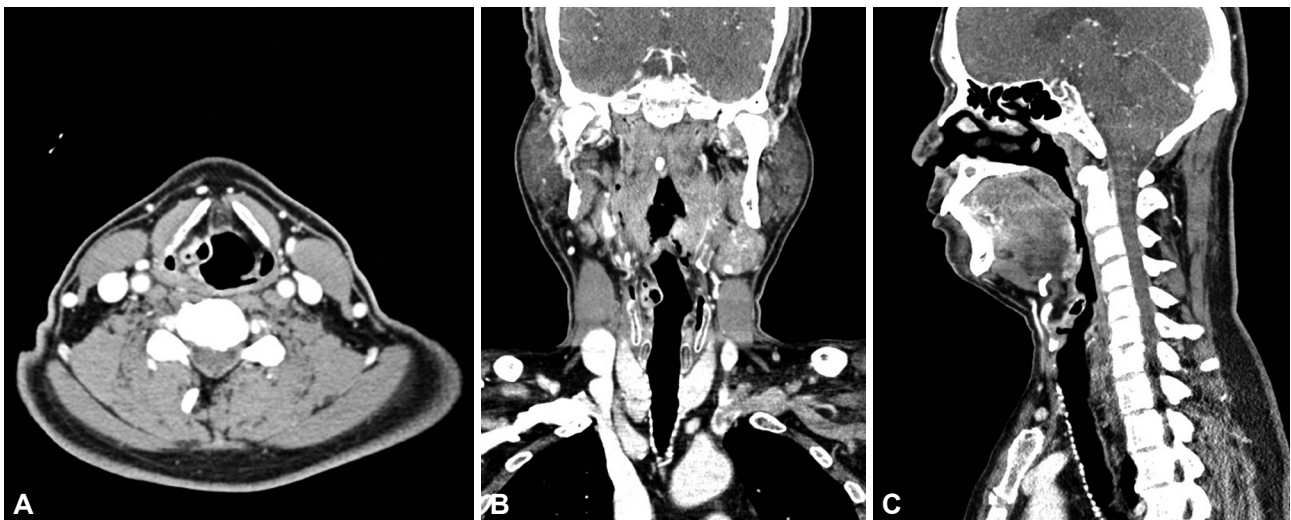


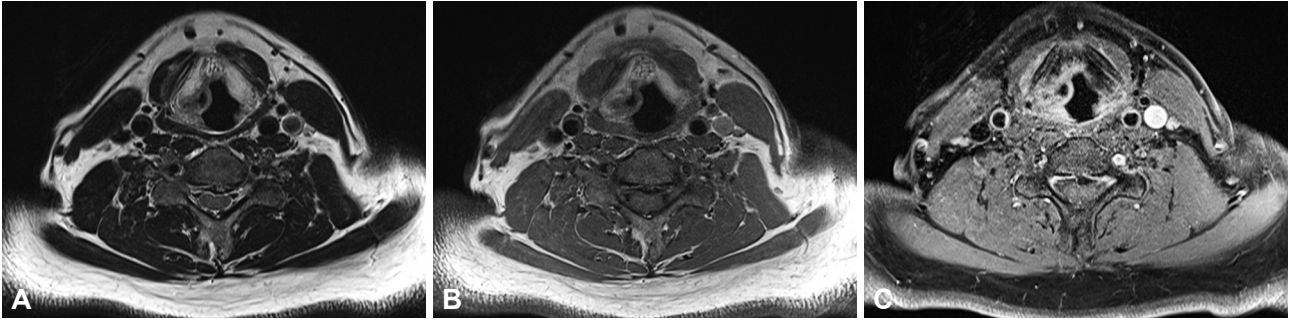
Fig. 2. CT findings. A 2 cm sized mass with thick wall enhancement on the right false vocal cord. A: Axial. B: Coronal. C: Sagittal.



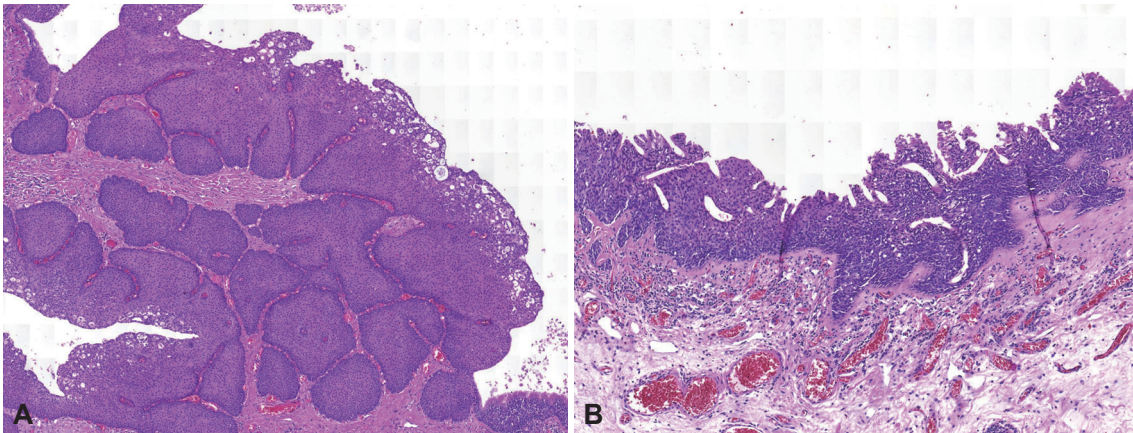
# JKSLP

검출이 보고된 바 있다.<sup>6)</sup> 특히, 반전성 유두종의 형성, 재발, 악성 변화와 인유두종바이러스의 연관성이 알려져 있다.<sup>7)</sup> Caruana 등<sup>8)</sup>은 반전성 유두종의 38%, 이형성을 보이는 반전성 유두종의 50%에서 인유두종바이러스가 검출되었다고 보고하

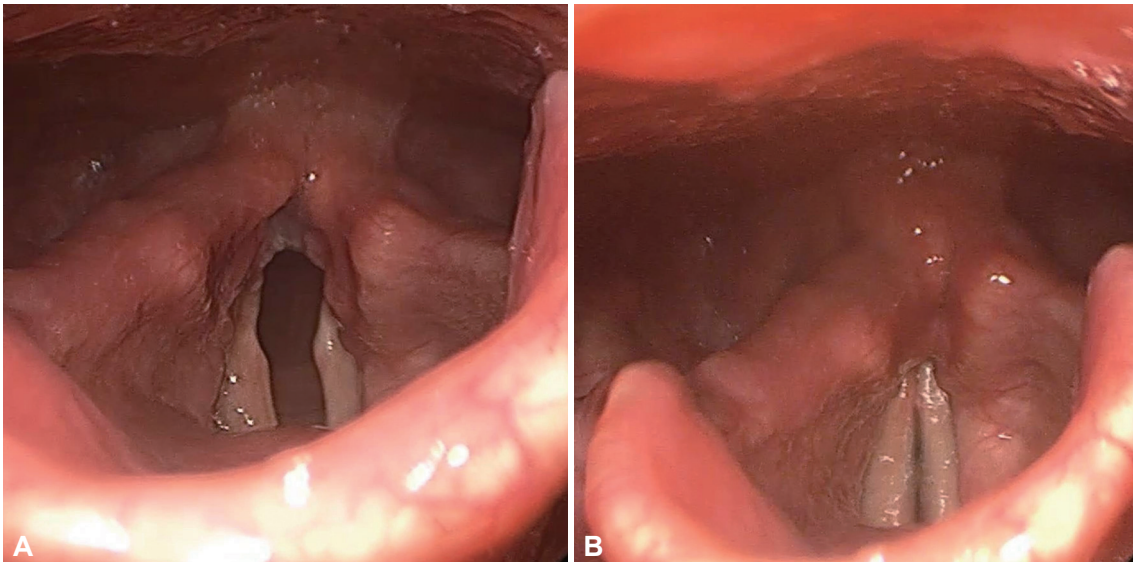
였다. HPV type은 종양원성(oncogenicity)을 기준으로 저위험도와 고위험도로 구분하는데, 저위험도의 HPV 6과 HPV 11 초회감염이 반전성 유두종의 발생과 연관이 있고 이후 고위험도의 HPV 16과 HPV 18 감염이 악성 변화(편평이형성 또는 편



**Fig. 3.** MR findings. Right supraglottic mass with intermediate signal intensity on T2-weighted image. A: T2-weighted image. B: T1-weighted image. C: enhanced T1-weighted image.



**Fig. 4.** Postoperative surgical specimen finding showing mucosa with features of a Schneiderian membrane. A: Low-power (H&E staining,  $\times 40$ ) magnification of inverted papilloma. It shows prominent downward endophytic growth to elongated epithelial nests with smooth outer contour. B: High-power (H&E staining,  $\times 100$ ) magnification of inverted papilloma. It shows no evidence of dysplasia. H&E: hematoxylin and eosin.



**Fig. 5.** Postoperative laryngoscopy image. A: Abduction. B: Adduction.

평세포암)를 일으킬 수 있다.<sup>7)</sup>

현재까지 연구에 따르면, 중이, 유양동, 측두골, 눈물주머니, 비인두, 구인두, 하인두, 구강, 기관, 폐 등에 이소성 반전성 유두종 발생이 보고되었다. 비강 이외에서 발생한 반전성 유두종의 병인은 명확히 알려져 있지 않다. 비부비강 내 반전성 유두종의 직접 침범(direct extension)에 의해 중이, 비인두, 구인두의 반전성 유두종이 발생할 수 있다.<sup>9)</sup> 직접 침범의 증거가 없는 비강 이외의 반전성 유두종의 병인으로는 이소성 표현(ectopic expression)을 고려할 수 있다.<sup>9)</sup> 또한, 비부비강 내 반전성 유두종의 수술 과정에서, 반전성 유두종이 전파될 수도 있다.<sup>10)</sup> 본 증례에서는 비부비강 내 반전성 유두종의 임상적 증거는 없었으며, 후두의 반전성 유두종의 명확한 병인을 파악할 수는 없었다.

후두의 반전성 유두종의 발생은 극히 드문 것으로 알려져 있다. Saddawi-Konefka 등<sup>11)</sup>에 따르면, 음성 변화를 주소로 내원한 59세 여성 환자에서 1.5 cm 크기의 좌측 가성대 종물이 확인되어 시행한 조직검사상 성문상 반전성 유두종이 최초로 확인된 바 있다. 또한, Swaid와 Alsaied<sup>4)</sup>는 천명음을 주소로 내원한 4세 남자 환자에서 기관지내시경상 내경의 약 50%를 차지하는 성문하부 종양이 확인되어 절제 후 시행한 조직검사상 성문하 반전성 유두종 1예를 최초로 보고하였다. 비강 이외에 발생하는 반전성 유두종이 비강 내 반전성 유두종과는 구별되는 질병인지는 불분명하다. 현재까지 비강 이외에서 발생한 반전성 유두종에 대한 치료법은 정립되어 있지 않다.<sup>11)</sup>

영상의학적으로, 반전성 유두종은 주로 전산화단층촬영을 통해 진단되지만, 종종 전산화단층촬영 영상에서 비용종과 반전성 유두종을 감별하기 어려울 수 있다. 이러한 경우, T2 강조 자기공명영상을 통해 더욱 정확히 반전성 유두종을 감별할 수 있다.<sup>12)</sup> 반전성 유두종은 장기간의 임상 경과를 보이며, 비용종으로 오인될 경우 제거 후 조직학적 검사를 시행하지 않는 경우가 많기 때문에, 진단되지 않는 경우가 많다.<sup>13)</sup>

반전성 유두종의 악성화율은 5~15%로 알려져 있다.<sup>14)</sup> 비부비강 내의 반전성 유두종의 치료법으로 과거에는 측비절개술을 통한 상악동절제술(lateral rhinotomy and maxillectomy), 안면중앙접근법(midfacial degloving approach), 두개안면접근법(craniofacial approach)과 같은 광범위한 근치적 수술이 선호되었다.<sup>15)</sup> 이러한 광범위한 근치적 수술은 많은 기능적, 미용적 합병증을 유발할 수 있기 때문에, 최근에는 내시경적 치료가 주로 사용되고 있다. Karkos 등<sup>13)</sup>은 근치적 치료와 내시경적 치료를 비교하였고 두 군 간에 재발률에 유의미한 차이가 없음을 보고하였다.

반전성 유두종은 재발률이 높은 것으로 알려져 있다. 종양

의 다중심성(multicentricity) 및 불완전한 절제가 높은 재발률의 주요 원인이다. 대부분의 경우 수술 후 5년 이내 재발하지만, 10년 이후에도 재발할 수 있어서 지속적인 경과 관찰이 필요하다.<sup>7)</sup> 현재까지의 소수의 증례보고에 따르면, 후두의 반전성 유두종에서 단기간에 재발은 확인된 바 없다.<sup>4,11)</sup> 후두의 반전성 유두종에 대한 경과 관찰 기간은 정립되어 있지 않으나 비강 내 반전성 유두종에 준하여 경과 관찰이 필요할 것으로 보인다.

본 증례를 통하여, 후두 종양의 감별 진단에 반전성 유두종의 가능성도 드물지만 고려하여야 함을 알 수 있다.

중심 단어: 반전성 유두종, 후두 종양, 성대.

#### Acknowledgments

None.

#### Conflicts of Interest

The authors have no financial conflicts of interest.

#### Authors' Contribution

Conceptualization: Seung-Ho Choi. Data curation: Doyeon Kim, Yong Han Kim. Resources: Seung-Ho Choi. Supervision: Seung-Ho Choi. Writing—original draft: Doyeon Kim. Writing—review & editing: Seung-Ho Choi. Approval of final manuscript: all authors.

#### REFERENCES

1. McCollister KB, Hopper BD, Ginsberg LE, Michel MA. Inverted papilloma: a review and What's new. *Neurographics* 2015;5(3):96-103.
2. Lee DK, Chung SK, Dhong HJ, Kim HY, Kim HJ, Bok KH. Focal hyperostosis on CT of sinonasal inverted papilloma as a predictor of tumor origin. *AJNR Am J Neuroradiol* 2007;28(4):618-21.
3. Bielamowicz S, Calcaterra TC, Watson D. Inverting papilloma of the head and neck: the UCLA update. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1993; 109(1):71-6.
4. Swaid A, Alsaied A. Subglottic inverted papilloma: case report and literature review. *Egyptian Journal of Ear, Nose, Throat and Allied Sciences* 2011;12(1):73-5.
5. Hyams VJ. Papillomas of the nasal cavity and paranasal sinuses: a clinicopathological study of 315 cases. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1971; 80(2):192-206.
6. Eggers G, Eggers H, Sander N, Köföling F, Chilla R. Histological features and malignant transformation of inverted papilloma. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005;262(4):263-8.
7. Lawson W, Schlecht NE, Brandwein-Gensler M. The role of the human papillomavirus in the pathogenesis of Schneiderian inverted papillomas: an analytic overview of the evidence. *Head Neck Pathol* 2008;2(2):49-59.
8. Caruana SM, Zwiebel N, Cocker R, McCormick SA, Eberle RC, Lazarus P. p53 alteration and human papilloma virus infection in paranasal sinus cancer. *Cancer* 1997;79(7):1320-8.
9. Stone DM, Berkold RE, Ranganathan C, Wiet RJ. Inverted papilloma of the middle ear and mastoid. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1987;97(4):416-8.
10. Shen J, Baik F, Mafee MF, Peterson M, Nguyen QT. Inverting papilloma of the temporal bone: case report and meta-analysis of risk factors. *Otol Neurotol* 2011;32(7):1124-33.
11. Saddawi-Konefka R, Hariri N, Shabaik A, Weissbrod PA. Inverted schneiderian papilloma of the supraglottis: case report. *Laryngoscope*

- 2017;127(12):2830-2.
12. Maroldi R, Farina D, Palvarini L, Lombardi D, Tomenzoli D, Nicolai P. Magnetic resonance imaging findings of inverted papilloma: differential diagnosis with malignant sinonasal tumors. *Am J Rhinol* 2004; 18(5):305-10.
  13. Karkos PD, Fyrmpas G, Carrie SC, Swift AC. Endoscopic versus open surgical interventions for inverted nasal papilloma: a systematic review. *Clin Otolaryngol* 2006;31(6):499-503.
  14. Han JK, Smith TL, Loehrl T, Toohill RJ, Smith MM. An evolution in the management of sinonasal inverting papilloma. *Laryngoscope* 2001;111(8):1395-400.
  15. Vrabec DP. The inverted Schneiderian papilloma: a 25-year study. *Laryngoscope* 1994;104(5):582-605.