

후두개곡의 혈관평활근종 환자 1예

이예환 · 강병재 · 김민석 · 김홍진 · 권순영 · 오경호

고려대학교 의과대학 안산병원 이비인후-두경부외과학교실

A Case Report of Vallecule Angioleiomyoma

Ye Hwan Lee, MD, Byung Jae Kang, MD, Min Suk Kim, MD, Hong Jin Kim, MD,
Soon Young Kwon, MD, PhD, Kyung Ho Oh, MD, PhD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine,
Korea University Ansan Hospital, Ansan, Korea

= Abstract =

Angioleiomyoma is benign smooth muscle tumor originating from the vascular wall. While they can occur in various anatomical locations, they are rarely reported in the vallecule region of the oropharynx. We present a case of a 58-year-old female patient with a five-year history of progressive dysphagia and throat discomfort. Laryngoscopy revealed a large, soft, mobile mass located on the right side of the vallecule. Radiological imaging further characterized the lesion as a well-circumscribed, heterogeneous mass. Surgical intervention in the form of Transoral Videolaryngoscopic Surgery (TOVS) was performed, leading to the successful removal of the mass. Histopathological analysis confirmed the diagnosis of angioleiomyoma.

Key Words : Angioleiomyoma · Oropharynx · Vallecule · Head and neck neoplasm

서론

혈관평활근종(Angioleiomyoma)이란, 혈관의 평활근(Smooth muscle)에서 발생하는 평활근종으로, 매우 드물며 천천히 자라는 양성 종양이다.¹⁾ 일반적으로 인접한 해부학적 영역에 압박을 일으킬 정도로 충분한 크기에 도달하게 되면 증상을 나타나게 된다. 혈관평활근종은 다양한 해부학적 위치에서 발생할 수 있으나, 혀 기저부와 후두부 사이에 위치한 후두개곡에서 발생하는 것은 임상적으로 매우 드물다.²⁾ 해부학적 위치를 고려하였을

때, 후두개곡은 연하와 음성에 중요한 역할을 한다. 따라서 이 부위의 병변은 연하 곤란, 목소리 변화, 인후통을 포함한 다양한 증상을 유발할 수 있다. 후두개곡의 혈관평활근종이 드물기 때문에 임상 의사가 임상 증상 확인 및 정확한 진단을 하는 것이 중요하다. 저자들은 58세 여성의 후두개곡에서 발생한 혈관평활근종 1예를 보고하고자 한다.

증례

58세 여성 환자가 5년 동안 지속된 진행성 연하 곤란 및 인후 불편감으로 본원 이비인후과 외래를 방문하였다. 문진 상 특이병력 없었으며 흡연력도 없었다. 초진 당시 시행한 후두경 검사 상 우측 후두개곡에 위치한 장경 3cm 정도의 부드럽고 이동성 있는 종물이 확인되었다(Fig. 1). 컴퓨터 단층 촬영(CT) 상에서도 3.2x2.8x3.1cm 크기의 타원형의 강한 이질성(Heterogeneous)의 조영증강을

Received: September 27, 2023

Revised: November 18, 2023

Accepted: November 20, 2023

+Corresponding author: Kyung Ho Oh, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
Korea University College of Medicine, 123, Jeokgeum-ro
(Gojan-dong), Danwon-gu, Ansan-si, Gyeonggi-do 15355, Korea
Tel: +82-31-412-5170, Fax: +82-31-412-5174
E-mail: anamjigu@gmail.com

보이는 종물 확인되었다(Fig. 1).

해당 종물의 위치와 환자의 증상 간에 연관성이 있으며 합병증의 가능성을 고려할 때 수술적 개입이 필요하다고 판단하였다. 해당 종물 위치 특성 상 구역 반사 등으로 국소마취적 접근은 어려울 것으로 판단되어 전신 마취하에 경구강 비디오 후두경 수술(TOVS; Transoral Videolar-yngoscopic Surgery)을 시행하였다. 수술 중 종물은 Harmonic scalpel(Ethicon, Cincinnati, OH, USA)과 단극성 전기소작기를 사용하여 비교적 쉽게 우측 후두개곡으로부터 박리되어 분리되었으며 주위 조직으로의 침범은 확인되지 않았다. 수술 전 시행한 컴퓨터 단층 촬영 상에서 강한

이질성의 조영증강을 보였던 종물로, 종물의 파열을 막기 위해 Harmonic scalpel 단독으로 사용하지 않고 단극성 전기소작기를 함께 이용하여 일괄적으로 제거하였고 큰 출혈 없이 수술을 마쳤다.

수술로 절제된 종물에 대하여 H&E 염색을 시행하여 광학현미경적 조직병리검사를 시행하였다. 두드러진 혈관 구조를 가진 방추세포(Spindle cell)의 교차 다발로 구성된 종양이 확인되었다. 면역조직화학염색을 시행하였으며 이는 CD31, CD34, Desmin, Vimentin에 양성을 보였으며, SMA, Myo-D1, S-100에 음성을 보였다. 유의한 비정형 세포는 관찰되지 않았다(Fig. 2).

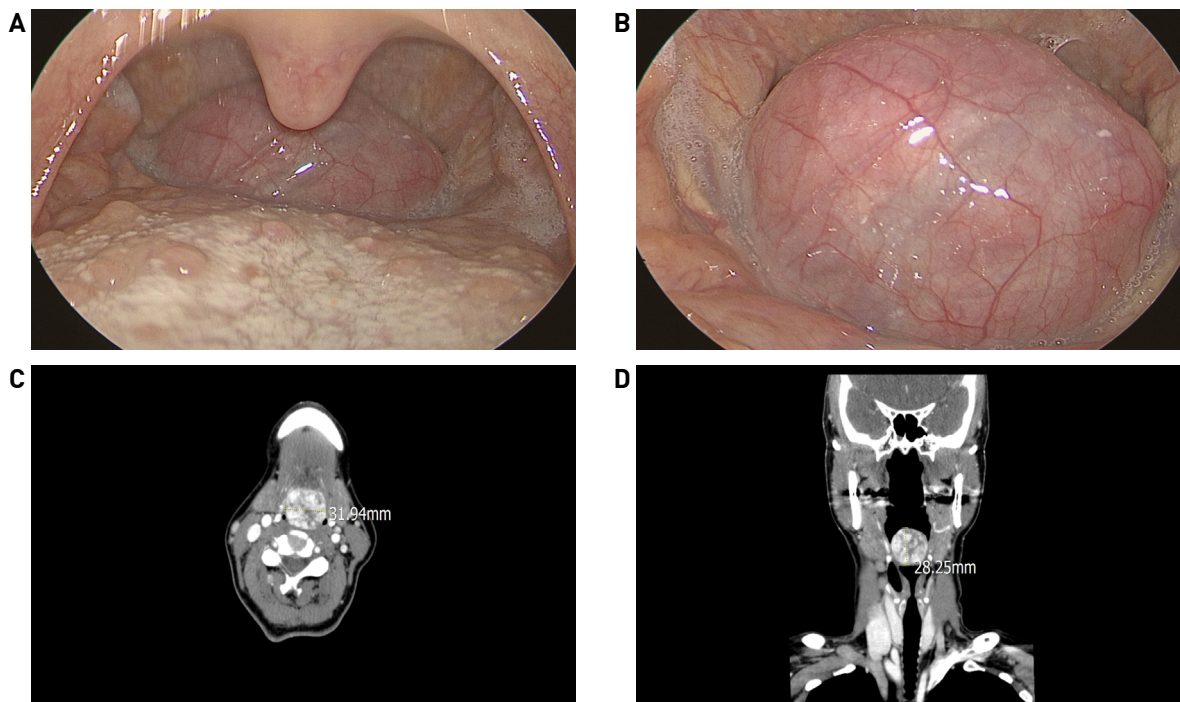


Fig. 1. Endoscopic view of the oropharynx at initial outpatient clinical visit. (A) 70° Rigid laryngoscopic examination revealed a tumor in the vallecula, (B) Flexible fiber-optic laryngoscopic examination revealed the same tumor. (C),(D) Enhanced CT scan depicted a well-defined ovoid strong heterogeneous enhancing lesion between midline tongue base and epiglottis.

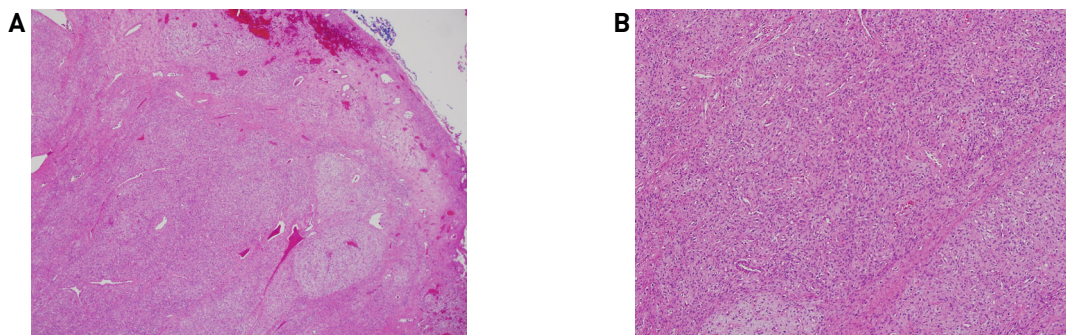


Fig. 2. Representative pathologic findings of vallecular angioleiomyoma. (A) The tumor was composed of bundles of smooth muscle and many congested vessels were located within these bundles of smooth muscle. (x12.5, H&E staining). (B),(C) The more magnified specimen revealed bundles of smooth muscle without mitoses, atypia or necrosis. (x40, H&E staining, x200, H&E staining). (D) CD34 immunohistochemical staining was positive.

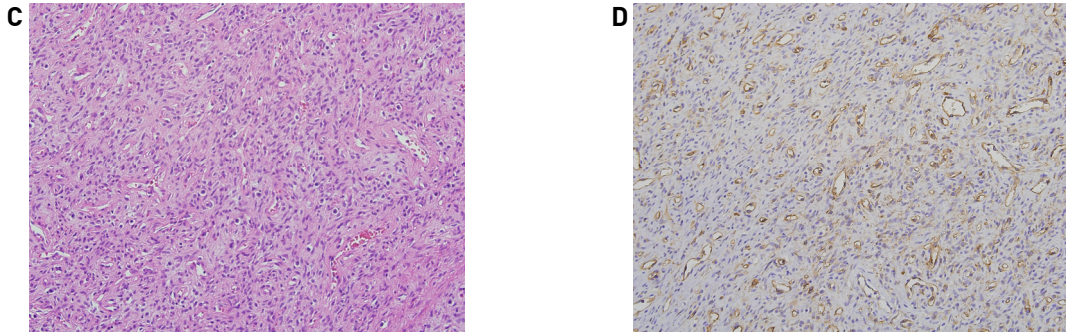


Fig. 2. Continued.

환자는 수술 후 1일 차에 특이 합병증 없이 퇴원하였다. 후두경을 이용한 1개월간의 외래 추적 검사를 시행하였다. 수술 1주일 후 외래 추적 진료 시 수술 전 호소하였던 연하곤란 및 인후 불편감이 호전되었으며, 수술 1개월 후 외래 추적 진료 시 특별히 호소하는 증상 없었으며, 재발의 증거나 잔존 종물은 확인되지 않아 안정적인 상태로 판단되어 추적을 종료하였다.

고찰

혈관평활근종은 혈관의 평활근(Smooth muscle)에서 발생하는 평활근종으로, 다양한 신체 부위에서 발생할 수 있다. 가장 흔한 부위로 상하지의 피부로, 하지에서 59%, 상지에서 15%를 차지하며, 자궁, 소화기관에서도 발병 가능하다.^{2,3)} 경미한 외상, 정맥 정체, 그리고 에스트로겐 등의 호르몬 변화가 혈관평활근종의 생리학적인 특징으로 제안되었으며, 이는 일부 병변에서 만성 염증 세포의 침범 소견이 이 주장을 뒷받침하고 있다.³⁻⁵⁾

금번 보고한 사례와 같이 후두개곡에서 발생하는 혈관평활근종은 극히 드문 경우이다. 양성 종양이나 임상적 특성 상 진행되는 경부 불편감, 인후통 증상은 환자에게 심한 불편감을 초래할 수 있으며, 적절한 진단 및 치료를 하지 않을 경우 기도폐쇄를 유발할 수 있으며 생명의 위협을 초래할 수 있다.⁶⁾ 따라서 임상적 증상을 확인하고 질환을 발견하여 적절한 수술적 개입을 통한 제거를 하는 것이 매우 중요하다.

감별해야할 질환으로는 후두개낭종(vallecular cyst), 후두암(laryngeal cancer), 갑상선관낭종(thyroglossal duct cyst), 혀갑상샘(lingual thyroid), 혈관근육지방종(angiomyolipoma), 감염성 병변, 혈관종(hemangioma), 신경성 종양 등이 있다.⁷⁾ 후두개낭종은 대부분 선천성이나 늦게 증상이 발현되어 본 증례와 비슷한 증상을 유발할 수 있는 부드러운 양성 병변이다. 후두암 역시 감별을 해야하며 CT나

MRI 등 영상검사를 시행하는 것이 필수적이다. 혀갑상샘은 혀의 기저부에 발생한 이소성갑상샘으로 경부 불편감 및 인후통을 유발할 수 있으며 CT 상 균일성(homogenous)의 조영증강을 주로 보인다. 혈관근육지방종은 혈관평활근종과 풍부한 혈관과 평활근을 포함하는 점에서 비슷하나 지방세포 발현에 의해 감별이 가능하다.⁸⁾ 세균, 바이러스에 의한 구인두의 염증 및 농양 또한 비슷한 증상을 유발할 수 있다. 신경 조직에서 기원한 신경초종, 신경섬유종과 같은 신경성 종양 또한 발생가능하다. 혈관평활근종과 이러한 다양한 질환을 감별하는 것이 적절한 치료를 하는데 있어 중요하다. 치료는 수술적 완전 절제, 정확한 진단과 재발 방지에 도움이 된다.^{9,10)} 악성으로의 변화 가능성은 낮아 대부분 추가적인 치료는 요하지 않는다.¹¹⁾

본 증례의 환자는 수술 전 시행한 CT 상 결절과다형성(nodular hyperplasia)이 동반된 이소성 갑상샘과 구분이 어려움이 있었다. 하지만 CT 상 정상 갑상샘 구조물이 있었으며, 수술 전 시행한 갑상선 기능 검사 상 정상으로 확인되어 수술을 진행하였다. 혈관종 등의 과혈관성 종양 가능성 있어 수술 시 출혈에 주의하며 진행하기로 하였다. 또한 내시경 소견 및 영상의학적 검사 상 악성의 가능성이 낮아 추가적인 조직검사 없이 수술 진행하였고, 필요시 수술실에서 동결절편 생검을 시행하기로 계획하였다.

본 증례에서는 기관절개술 없이 기관내삽관 시행 후 경구강 비디오 후두경 수술(TOVS; Transoral Videolaryngoscopic Surgery)을 시행하였다. 이는 현수후두경을 이용한 수술보다 시야 확보에 유리하다는 장점이 있으며, 수술 기구 사용에 유리함이 있었다. 수술 전 시행한 영상 검사 상 과혈관성으로 수술 중 대량출혈 위험성이 있어 이를 고려하여 경구강 비디오 후두경 수술을 진행하였다.

광학현미경적 조직병리검사는 혈관평활근종의 진단에 가장 중요한 요소로, 다양한 정도의 혈관성을 보이는 혈

관에 둘러싸인 평활근세포의 증식이 특징적이다.¹²⁾ 일반적인 혈관평활근종에서 SMA, Desmin, Myosin, trichrome, HHF35, calponin, vimentin, S100 등에서 양성을 보인다. 본 사례에서는 CD31, CD34, Desmin, Vimentin에서 양성 소견을 보였다.

본 증례보고에서는 후두개골에서 발생한 혈관평활근종 1예를 보고하였다. 후두개골의 혈관평활근종은 매우 드문 종양으로, 진단 및 치료가 어렵지 않으나 해당 질환의 희귀성을 고려하였을 때 추후에도 적극적인 보고가 필요할 것으로 판단된다.

References

- 1) Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M. *Angioleiomyoma. A clinicopathologic reappraisal of 562 cases. Cancer. 1984;54:126-130.*
- 2) Perardi F, Abbate G, Iannuzzelli LR, Contini R, De Munari M, Sciuto FG, et al. *Angioleiomyoma of the Larynx: A Case Report and Literature Review. Ear Nose Throat J. 2020;99:658-663.*
- 3) Wang CP, Chang YL, Sheen TS. *Vascular leiomyoma of the head and neck. Laryngoscope. 2004;114:661-665.*
- 4) Ramesh P, Annapureddy SR, Khan F, Sutaria PD. *Angioleiomyoma: a clinical, pathological and radiological review. Int J Clin Pract. 2004;58:587-591.*
- 5) Ishikawa S, Fuyama S, Kobayashi T, Taira Y, Sugano A, Iino M. *Angioleiomyoma of the tongue: a case report and review of the literature. Odontology. 2016;104:119-122.*
- 6) Evans KL, Lowe DG, Keene MH. *Vallecula angioleiomyoma: unusual cause of acute adult airway obstruction. J Laryngol Otol. 1990;104:341-343.*
- 7) Lahiri AK, Somashekar KK, Wittkop B, Ayshford C. *Large val-
lecular masses; Differential diagnosis and imaging features. J Clin Imaging Sci. 2018;8:26.*
- 8) Lee SY, Kim DS, Jang GH, Kim JK. *Angiomyolipoma of the Vallecula : A Case Report. Korean Journal of Head & Neck Oncology. 2015;31:43-45.*
- 9) Eley KA, Alroyayamina S, Golding SJ, Tiam RN, Watt-Smith SR. *Angioleiomyoma of the hard palate: report of a case and review of the literature and magnetic resonance imaging findings of this rare entity. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2012;114:e45-49.*
- 10) Zhao X, Yu D, Zhao Y, Liu Y, Qi X, Jin C. *A case of laryngeal angioleiomyoma and review of literature. Int J Clin Exp Med. 2015;8:1446-1452.*
- 11) Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. *Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2002;94:221-227.*
- 12) Kim HY, Jung SN, Kwon H, Sohn WI, Moon SH. *Angiomyoma in the buccal space. J Craniofac Surg. 2010;21:1634-1635.*