

# A Case of Schwannoma of the Mouth Floor Mistaken as a Ranula

Young Tae Yoo, Hyunchung Chung, Joo Hyun Park and Young Ho Jung

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Seoul National University Boramae Hospital, Seoul, Korea

## 하마종으로 오인한 구강저 신경초종 1예

유영태 · 정현정 · 박주현 · 정영호

서울대학교 의과대학 보라매병원 이비인후과학교실

Received April 13, 2011

Revised May 29, 2011

Accepted June 9, 2011

Address for correspondence

Young Ho Jung, MD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Seoul National University

Boramae Hospital,

20 Boramaero 5-gil, Dongjak-gu,

Seoul 156-707, Korea

Tel +82-2-870-2445

Fax +82-2-831-2826

E-mail entist@naver.com

Schwannoma is a relatively slow-growing, encapsulated benign tumor that is derived from the Schwann cell of the nerve sheath. We report here on a case of schwannoma of the mouth floor with a review of the literature. A 67-year-old woman presented with a right mouth floor mass, which was first detected 5 years ago. The preoperative diagnosis was ranula on the basis of the physical findings and the computerized tomographic findings. However, the mass was found to be a true neoplastic lesion rather than a cystic lesion in the course of surgical dissection. The permanent pathologic report of the mass was schwannoma. Postoperatively, although the patient had no problem with taste, the pain-sense, speech and swallowing, she had mild deviation of the tongue towards the same side of the mass, which means that the function of the hypoglossal nerve was somewhat impaired. Her tongue deviation was spontaneously resolved within 6 weeks postoperatively.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:564-6

**Key Words** Schwannoma · Ranula · Mouth floor · Lingual nerve.

## 서 론

신경초종(schwannoma)은 신경초 세포(Schwann cell)에서 기원하는 양성 종양이며 25~45%는 두경부에 발생한다. 두경부에 발생하는 신경초종의 1%가 구강에서 발생하는 것으로 알려져 있으며, 혀가 가장 흔한 호발 부위이고 그 다음으로는 혀부 점막, 경구개, 구강저, 구순 순이다.<sup>1,2)</sup> 국내 문헌에는 입술, 혀, 하악골에 발생한 신경초종에 대한 보고는 있으나 구강저의 경우는 보고된 바 없었다. 이에 저자들은 수술 전에는 하마종이 의심되는 임상적 진단으로 수술적 치료를 계획하였으나, 수술 도중에 종양성 병변으로 인지하였으며, 동결절편 검사와 수술 후 병리조직 영구절편 검사로 신경초종으로 확진한 구강저에 발생한 신경초종 1예를 치험하고 보고하고자 한다.

## 증 례

67세 여자 환자가 5년 전부터 발생하여 점차 크기가 커지는 오른쪽 구강저의 무통성 종창을 주소로 내원하였다. 구강 내 이물감 이외에 연하곤란, 연하통, 구음 장애 등의 증상은 없었다. 식사 전후로 종창의 크기 변화는 없었으며 과거력상 외상이나 다른 질환은 없었다. 신체 검진에서 우측 구강저에 5×4×3 cm 정도의 점막하 종창이 악하선관 개구부(orifice)에서 악하선에 이르기까지 있었으며, 부드럽고, 쉽게 눌러지며, 압통은 없었다(Fig. 1). 경부 조영 computed tomography(CT) 소견에서 조영 증강되지 않으면서, 근육보다 낮은 저음영의 낭성 종괴가 하악설골근 위쪽에서 관찰되어 수술 전 임상 진단은 구강내 하마종(ranula, non-plunging type)이었다(Fig. 2).

하마종에 대한 수술적 치료로서 경구강 하마종 조대술(marsupialization) 및 우측 설하선 절제수술을 계획하였다.

수술시에 종괴를 덮고 있는 구강저 점막에 절개를 가하였을 때, 병변은 하마종과 같은 가성 피막을 가진 병변이 아닌 진성 피막에 싸여진 종양성 병변임을 알 수 있었다. 종괴는 피막 내측을 따라 잘 박리되었고 비교적 쉽게 제거가 가능하였다. 수술 중 주변 혈관 손상 및 주요 신경 노출은 없었다. 절제된 종괴는 최대 직경 6 cm의 계란 모양이었고, 액화나 출혈이 없는 균질한 절단면을 보였다(Fig. 3). 수술 중에 시행한 동결절편 검사에서는 과립세포 종양이 의심된다고 하였다. 감별진단으로는 지방종, 신경초종 등이 제시되었다.



**Fig. 1.** Preoperative gross photo. A large soft protruding mass is found at the right mouth floor (white arrow).



**Fig. 2.** Preoperative axial CT scan. A contrast-enhanced CT axial scan shows a poorly enhanced mass (white arrow). CT: computed tomography.

병리학적 검사상 조직은 균일하고 길어진 핵과 근섬유의 호산성 세포질을 가진 방추 세포로 구성되어 있었다. 방추상 세포들로 구성된 세포 성분이 많은 Antoni A 부분과 기질부가 엉성하면서 세포들의 배열은 불규칙한 Antoni B 부분이 관찰되었다(Fig. 4). 이에 신경초종으로 최종 진단하였다.

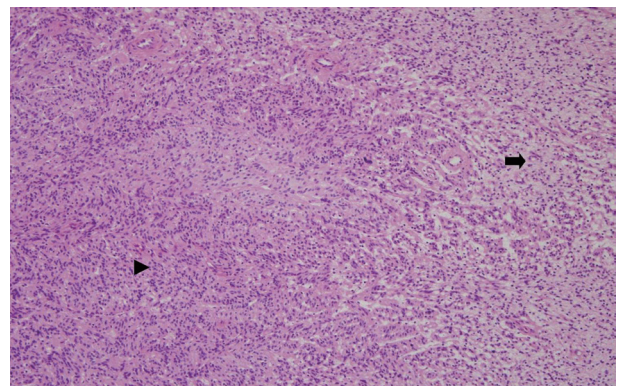
환자는 수술 다음날 혀의 경미한 우측 편위가 관찰되었다. 환자는 주관적으로 식이나 발음에 문제를 느끼지 못하였고, 양측 혀의 미각 및 통각은 대칭적이었다. 혀의 우측 편위는 특별한 치료 없이 외래 경과 관찰 중 수술 6주 후에 회복되었다.

## 고 찰

구강내 신경초종은 대부분 단발성으로 서서히 자라고 특별한 증상을 나타내지 않는 양성 종양이나 종양 자체로 인한 종물감이나 신경이 종양에 눌려서 이에 따르는 증상이 발생할 수 있다.



**Fig. 3.** Gross findings of the removed mouth floor mass, which was 6×5 cm in size. The cut surface shows a yellowish homogeneous solid lesion without any fluid content.



**Fig. 4.** Histopathologic findings. The mass was composed of spindle cells. The mass showed Antoni A (arrowhead) and Antoni B (black arrow) areas (H&E stain, original magnification ×40).

구강내 신경초종은 대부분 혀에서 발생하고, 협부 점막, 경구개 등에도 발생하나, 구강저에는 아주 드물게 발생한다. 어느 연령에서나 발생할 수 있으며 20, 30대에 좀 더 흔한 것으로 되어 있다.<sup>3,4)</sup> 다른 감별 질환으로는 편평 상피암, 침샘 종양 등의 악성 종양과 점액 낭종, 섬유종, 지방종, 과립세포종 등의 양성 종양이 있다.<sup>5)</sup> 그러나, 수술 전에 방사선 소견만으로 구강내 신경초종을 의심 또는 진단하기는 매우 어렵다. 그 이유는 구강내 특히 구강저에서 신경초종이 발생하는 경우는 극히 드물고, 특이 소견이 없기 때문이다. 본 증례의 경우 수술 전 시행한 CT에서 종괴가 조영증강 되지 않았으면서, 근육보다 낮은 저음영의 낭성 병변으로 보여 영상의학적인 진단은 하마종이었다. 역으로 추론해 보면, 거대 하마종이 하악설골근을 아래로 내려가서 몰입형(plunging) 하마종이 되지 않은 점과 종괴가 초승달 모양(crescent-shape)이 아닌 타원형(elliptical-shape)의 모양을 하고 있다는 점을 통해서 병변이 종양성 병변일 가능성을 의심할 수 있었을 것으로 생각된다.<sup>6)</sup> 본 증례와 같이 신경 마비가 없는 경부 종괴의 경우에 신경초종을 수술 전에 진단하기는 어렵다. 따라서 MRI, 초음파 등의 영상학적 검사 및 세침흡입검사를 통해서 병변을 확인하는 것이 치료의 방침을 결정하는 데 있어 중요하다.<sup>7)</sup>

본 환자는 동결절편 검사에서 같은 신경원성 종양인 과립세포종이 의심된다고 하였으나, 최종 병리학적 소견상에서 신경초종으로 진단되었다. 신경초종은 종양을 둘러싸고 있는 얇은 섬유피막과 Antoni A와 Antoni B의 두 가지 조직 배열이 관찰되며 서로 혼재되어 있다. Antoni A는 신장된 방추상 세포가 균일하게 책상배열(palisading pattern)을 이루고 있는 곳이며 Verocay소체라고 불리는 방추상 핵 군이 빈번하게 보이는 곳으로 세포가 많이 있는 부분이다. 반면에 Antoni B는 미세낭포(microcyst)와 조직의 간질이 엉성한 형태를 보이는 세포가 적은 부분이다. 면역조직화학 검사상에서는 최종 진단인 신경초종 및 동결절편 검사 결과인 과립세포종 모두 신경 계통 표지자인 S-100 단백에 양성 소견을 보인다.<sup>8,9)</sup>

신경초종의 치료는 수술적 절제이다. 피막에 싸여 있는 경우에는 피막내 적출술(intracapsular enucleation)로 쉽게 제거할 수 있지만 피막이 없는 경우에는 재발을 방지하기 위해 정상 조직을 포함하는 절제연을 가져야 한다. 종양의 완전 절제를 위해 신경 또한 절제하는 경우가 있는데 이런 경우에는

신경의 부분 절제보다는 완전 절제가 선호된다. 그 이유는 매우 드물기는 하지만 악성화가 가능하고 부분 절제시 재발의 가능성이 있기 때문이다.<sup>10,11)</sup> 본 증례에서는 신경초종을 피막내 적출술(intracapsular enucleation)로 연결된 기원 신경을 보지 않고 제거가 가능하였다. 기원 신경과의 연결을 직접적으로 확인하지 않았기 때문에 단정할 수 없지만 종괴의 해부학적 위치상 상기 환자의 신경초종은 설신경 또는 그 분지에서 유래된 것으로 생각된다. 수술 후에 혀의 미각 및 일반 감각, 통각에는 이상이 없었지만 수술시 신경의 노출이 없었고 종양의 피막내측 또는 얇은 피막만 남기고 절제할 경우에 신경손상 없이 절제가 가능하기 때문이다. 수술 직후 혀를 내밀 때 혀가 오른쪽으로 경미하게 편위되어서 우측 설하신경 마비의 증상을 보였지만, 수술 후 6주 만에 별다른 치료 없이 자연회복 되었다. 이는 신경초종이 설하 신경에서 기원하였기 때문이 아니라 설하 신경이 열 또는 견인에 의하여 일시적 손상을 받았거나, 거대한 종괴의 제거로 인한 일시적인 부피의 감소로 인해 동측으로 편위되어 보인 것으로 생각된다.

## REFERENCES

- 1) Pfeifle R, Baur DA, Paulino A, Helman J. Schwannoma of the tongue: report of 2 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2001;59(7):802-4.
- 2) Martins MD, Anunciato de Jesus L, Fernandes KP, Bussadori SK, Taghloubi SA, Martins MA. Intra-oral schwannoma: case report and literature review. *Indian J Dent Res* 2009;20(1):121-5.
- 3) Takeda Y. Neurilemmoma in maxillary alveolar bone: report of a case. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1991;29(3):208-10.
- 4) Kang GC, Soo KC, Lim DT. Extracranial non-vestibular head and neck schwannomas: a ten-year experience. *Ann Acad Med Singapore* 2007;36(4):233-8.
- 5) Ying YL, Zimmer LA, Myers EN. Base of tongue schwannoma: a case report. *Laryngoscope* 2006;116(7):1284-7.
- 6) Kim SH, Han MH, Park SW, Chang KH. Radiologic-pathologic correlation of unusual lingual masses: Part II: benign and malignant tumors. *Korean J Radiol* 2001;2(1):42-51.
- 7) Yoo SH, Lee EJ, Yang YS, Hong KH. A case of multiple hypoglossal neurilemmomas in the submandibular Space. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2009;52(8):701-3.
- 8) Artzi Z, Taicher S, Nass D. Neurilemmoma of the mental nerve. *J Oral Maxillofac Surg* 1991;49(2):196-200.
- 9) Cho NH, Yoon JH, Jeong HJ. Histopathological analysis of 9 cases of plexiform schwannoma. *Korean J Pathol* 1988;22(4):435-9.
- 10) De Vicente Rodríguez JC, Junquera Gutiérrez LM, Fresno Forcelledo MF, López Arranz JS. Neck schwannomas. *Med Oral* 2003; 8(1):71-6.
- 11) Chang SC, Schi YM. Neurilemmoma of the vagus nerve. A case report and brief literature review. *Laryngoscope* 1984;94(7):946-9.