

A Case of Angiomyolipoma of the Nasal Cavity

Woo Kil Park¹, Mi Seon Kang² and Seong Kook Park¹

¹Departments of Otolaryngology-Head & Neck Surgery, ²Pathology, College of Medicine, Inje University, Busan Paik Hospital, Busan, Korea

비강 내에 발생한 혈관근육지방종 1예

박우길¹ · 강미선² · 박성국¹

인제대학교 의과대학 부산백병원 이비인후-두경부외과학교실, ¹ 병리학교실²

Received January 6, 2013

Revised March 19, 2013

Accepted April 3, 2013

Address for correspondence

Seong Kook Park, MD, PhD
Department of Otolaryngology-
Head & Neck Surgery,
College of Medicine, Inje University,
Busan Paik Hospital, 75 Bokji-ro,
Busanjin-gu, Busan 614-735, Korea
Tel +82-51-890-6379
Fax +82-51-892-3831
E-mail sinus4@paik.ac.kr

Angiomyolipoma (AML) is a generally benign tumor that usually occurs in the kidney. Nasal AML is extremely rare, with eight cases of AML in the nasal cavity have been reported in the English-language literature and only one case has been reported in Korea. Our case involved a 55-year-old male who presented with a history of frequent nasal bleeding on the right side of nasal cavity. Physical examination revealed a mass of about 1.2-cm in the right nasal cavity, which was removed by an endoscopic approach. Microscopically, it consisted of bundles of smooth muscle and blood vessels, mature fat cells in various proportions. We suggest that the cause of the nasal bleeding should be considered this case.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2013;56:383-5

Key Words Angiomyolipoma · Nasal cavity.

서 론

혈관근육지방종(angiolipoma)은 평활근, 혈관, 지방 등으로 구성되어 있는 양성 병변으로¹⁾ 신장에서 가장 빈발하며, 간은 두 번째로 잘 발생하는 부위이다. 신장과 간 이외의 조직에서는 잘 발생하지 않으나, 몇몇의 예에서 종격동, 심장, 정삭(spermatic cord), 질벽, 나팔관, 구강, 인두, 비강 내, 피부에서 발견된 경우가 보고되었다.²⁾ 특히 비강 내에서는 매우 드물어서 영문 문헌에서 8예의 증례가 보고되어 있으며,³⁾ 국내의 경우 비강 내의 1예와⁴⁾ 후두에 발생한 1예가¹⁾ 보고되어 있다. 저자들은 비출혈을 호소한 55세 남자 환자의 비강 내에 발생한 혈관근육지방종 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

55세의 남자 환자가 2주 전부터 발생한 빈번한 우측 비출혈로 본원 이비인후과 외래를 방문하였다. 비출혈 외에 코막

힘, 콧물, 후각감소 등의 증상은 없었고, 비출혈 과거력도 없었다. 내원시 시행한 이학적 검사에서 비내시경상 분홍빛의 종물이 우측 비강 내 하비갑개 앞쪽에서 보였다. 기타 비강 내의 다른 부위와, 구강 내, 인후두 검사에서 특이사항이 발견되지 않았고, 혈액학적 검사에서도 이상 소견은 보이지 않았다. 부비동 전산화단층촬영을 시행하여, 우측 비강 내에 조영이 잘되는 소견으로 혈관종이 의심되는, 0.8×0.8×1.1 cm 가량의 둥근 결절 형태의 종물이 관찰되었다(Fig. 1).

국소 마취하 종물을 제거하였으며, 수술 중 우측 비강의 하비갑개 앞쪽에 비교적 규칙적 표면을 가진 종물이 있어 내시경하에 주변 정상 점막을 포함하여 House Inferior Turbinate Submucous Resection Scissor[®](Storz, Tuttlingen, Germany)로 절제하였다. 비강 내 Furazine 거즈 팩킹을 시행하였고, 출혈 등의 특이사항 없이 수술을 마쳤다.

조직검사에서 현미경 소견상 저배율에서 중간 크기의 동맥들이 증식되어 있었고, 사이사이에 성숙한 지방조직 침윤이 관찰되었다. 동맥들은 벽이 매우 두껍고, 방추상 또는 상피양 세포들의 증식이 관찰되었으며, 이 세포들은 면역 조직 화학 염

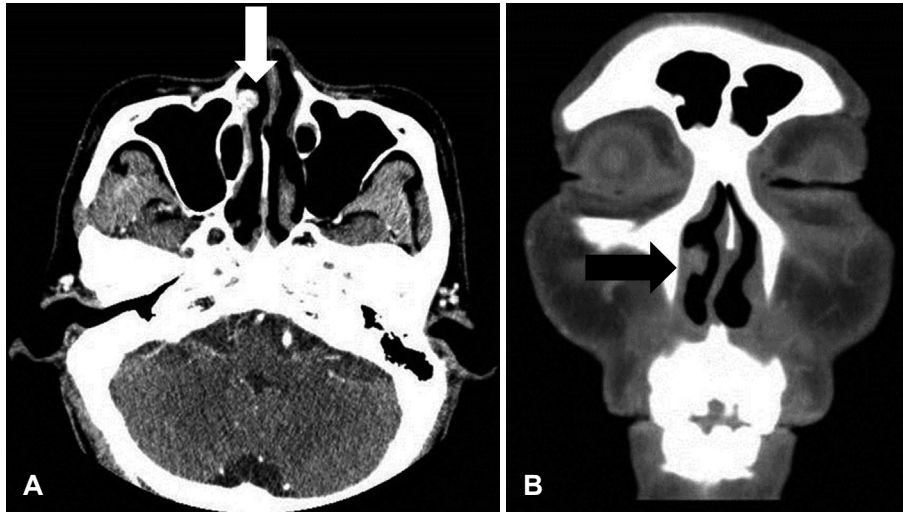


Fig. 1. Paranasal sinus computed tomography scans (A: axial image, B: coronal image) revealed a suspicious hemangiomatic mass at right nasal cavity (A: white arrow, B: black arrow).

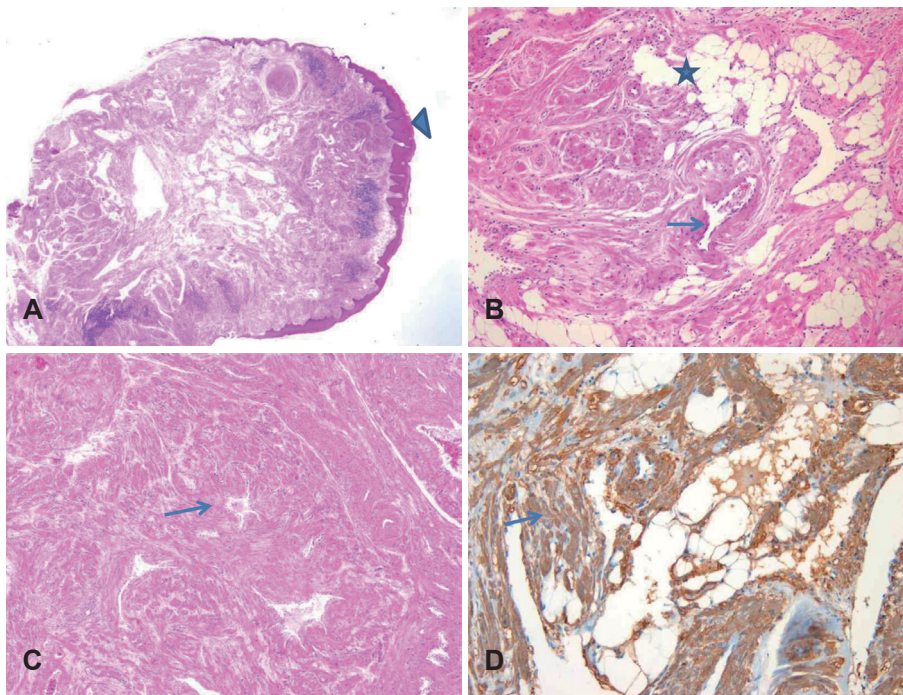


Fig. 2. Lesion is covered with squamous epithelium (arrow head)(A, H&E, $\times 10$) and shows thick-walled medium-sized arteries (arrow) and mature adipose tissue (star)(B and C, H&E, $\times 100$ and $\times 200$). Immunohistochemical staining of smooth muscle actin reveals positive reaction in spindle cells in vessel wall and stroma (arrow)(D, IHC, smooth muscle actin, $\times 200$). H&E: hematoxylin & eosin, IHC: immunohistochemistry.

색에서 smooth muscle actin은 양성, human melanoma black (HMB)-45에서는 음성이었다(Fig. 2). 상기 소견으로 혈관근육지방종으로 진단하였으며 환자는 수술 후 3년이 지난 현재 까지 재발소견과 합병증은 보이지 않고 있다.

고 찰

혈관근육지방종은 일반적으로 신장에서 빈발하는 단발성, 다중심성 종물로서 일반적으로 중년의 여성에서 흔하고, 약 80%의 경우에서 결절성 경화증을 동반하며, 신장의 혈관근육지방종 환자의 약 50%에서 결절성 경화증의 증상이 있는 것

으로 알려져 있다.⁵⁾ 피부와 비강 내에 혈관근육지방종이 발생하나, 피부와 비강 내의 혈관근육지방종은 신장과 간에서의 혈관근육지방종과 다른 특징이 있다. 첫째로 나이가 많은 남자에서 주로 발생한다. 비강에서 발생한 9예의 혈관근육지방종에서 7명은 남자, 2명은 여자였고, 연령은 44세에서 88세였고,^{3,4)} 본례의 환자는 55세의 남자였다. 둘째로 결절성 경화증을 동반하는 예는 없었다.²⁻⁸⁾ 본례 역시 결절성 경화증이 동반되지 않았다. 셋째로 종물의 크기가 작아 4 cm를 잘 넘지 않는다.¹⁾ 본례의 경우 약 1.2 cm 정도의 크기였다. 이에 비해 신장과 간에서 발생하는 혈관근육지방종은 보통 훨씬 큰 크기로 발견되는 경우가 많다. 넷째, 가장 독특한 차이로 신장이

나 간에서 발생하는 혈관근육지방종은 면역 화학염색상 상피 세포와 방추세포에 대한 평활근 항원을 포함하고, HMB-45 가 발현된다. 피부와 비강 내의 혈관근육지방종은 성숙한 평활근을 포함하고 있으나, HMB-45 양성의 상피모양 세포를 포함하지 않는다. 따라서 피부와 비강 내의 혈관근육지방종은 신장과 간의 혈관근육지방종과 별개의 것으로 볼 수 있다.⁶⁾ 본례의 경우도 HMB-45 음성의 세포가 나왔다.

비강에 발생한 혈관근육지방종의 증상으로는 비출혈 1예,³⁾ 코막힘 1예,⁵⁾ 비출혈과 코막힘을 같이 호소하는 1예,⁷⁾ 증상 없이 우연히 발견된 종물 3예^{4,6)}가 보고되었고, 본 증례의 환자는 내원시 우측 비출혈을 호소하였다. 감별해야 할 질환으로는 섬유육종, 혈관평활근종, 횡문근육종, 악성흑색종, 섬유지방종, 종상신경섬유종, 혈관평활근종, 혈관지방종 등이 있다.²⁾ 혈관지방종은 혈관과 지방으로 이루어진 점에서 혈관근육지방종과 비슷하나, 평활근이 없는 점에서 감별할 수 있다. 혈관평활근종은 풍부한 혈관과 평활근을 포함하는 점에서 비슷하나, 지방세포 발현에 의해 감별할 수 있다. 하지만 드문 예에서 혈관평활근종의 경우에도 지방세포가 발현한 경우가 있으나, 이 경우들은 지방세포의 증식이 적다.⁹⁾ 신장의 혈관근육지방종은 침습적이며 국소적 림프절 침범을 하는 경우가 있으나, 신장 외의 혈관근육지방종은 보통 경계가 잘 지어져 있어 외과적 절제가 용이한 것으로 알려져 있다.¹⁰⁾ 비강 내의 혈관근육지방종의 치료는 적절한 변연을 확보한 외과적 절제이며, 수술적 접근이 힘든 경우에서 일부 색전술 등의 치료가 필

요한 경우도 있다.¹¹⁾ 비강 내 혈관근육지방종을 전 절제한 후 재발한 예는 보고되어 있지 않다.²⁻⁷⁾ 본례의 경우도 3년간 경과 관찰하여 재발은 보이지 않았고, 비출혈 환자의 비강 내에서 종물이 발견될 경우 혈관근육지방종도 비출혈의 원인이 될 수 있음을 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Park JJ, Choi SM, Yoon SW, Kim EK. A case of angiomyolipoma originated in larynx. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2007; 50(3):278-80.
- 2) Piattelli A, Fioroni M, Rubini C, Fiera E. Angiomyolipoma of the palate. Report of a case. *Oral Oncol* 2001;37(3):323-5.
- 3) Moreira MD, Lessa MM, Lima CM, Lessa HA, Fonseca Júnior LE. Angiomyolipoma of the nasal cavity. *Braz J Otorhinolaryngol* 2011; 77(2):269.
- 4) Go JH. Angiomyolipoma of the nasal cavity. *Korean J Pathol* 2005; 39(4):284-6.
- 5) Erkiş S, Koçer NE, Mumbuç S, Kanlikama M. Nasal angiomyolipoma. *Acta Otolaryngol* 2005;125(4):446-8.
- 6) Watanabe K, Suzuki T. Mucocutaneous angiomyolipoma. A report of 2 cases arising in the nasal cavity. *Arch Pathol Lab Med* 1999;123 (9):789-92.
- 7) Tardío JC, Martín-Fragueiro LM. Angiomyolipoma of the nasal cavity. *Histopathology* 2002;41(2):174-5.
- 8) Dawlatly EE, Anim JT, el-Hassan AY. Angiomyolipoma of the nasal cavity. *J Laryngol Otol* 1988;102(12):1156-8.
- 9) Yamamoto K, Nakamine H, Osaki T. Angiomyolipoma of the oral cavity: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53(4):459-61.
- 10) Tsuruta D, Maekawa N, Ishii M. Cutaneous angiomyolipoma. *Dermatology* 2004;208(3):231-2.
- 11) Argenyi ZB, Piette WW, Goeken JA. Cutaneous angiomyolipoma. A light-microscopic, immunohistochemical, and electron-microscopic study. *Am J Dermatopathol* 1991;13(5):497-502.