

A Case of Vascular Leiomyoma in Nasal Cavity: Case Report and Literature Review

Sung Won Yoon¹, Min Joon Park¹, Eun Mee Han², and Jung Hyeob Sohn¹

¹Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, ²Pathology, Bundang Jesaeng Hospital, Seongnam, Korea

비강 내에 발생한 혈관성 평활근종 1예에 대한 증례 보고 및 문헌 고찰

윤성원¹ · 박민준¹ · 한은미² · 손정협¹

분당제생병원 이비인후과,¹ 병리학과²

Received April 29, 2014

Revised July 30, 2014

Accepted August 4, 2014

Address for correspondence

Jung Hyeob Sohn, MD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Bundang Jesaeng Hospital,
20 Seohyeon-ro 180beon-gil,
Bundang-gu, Seongnam 463-774,
Korea
Tel +82-31-779-0258
Fax +82-31-779-0265
E-mail entsohn@gmail.com

Vascular leiomyoma may arise from the muscular layer of blood vessel wall, which is extremely rare in the nasal cavity or paranasal sinuses. According to the online search on pubmed and koreamed, only 62 cases with vascular leiomyoma arising from nasal cavity or paranasal sinuses, including 13 cases of the nasal septum, have been reported since the first case was reported in 1966. The authors experienced a case of vascular leiomyoma arising in the left side of nasal septum in a patient. It was successfully removed by trans-nasal approach. In addition, we conducted a literature review of clinical features of the 62 cases of vascular leiomyoma in the nasal cavity.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2015;58(2):138-42

Key Words Angiomyoma · Leiomyoma · Nasal cavity · Nasal septum.

서 론

혈관성 평활근종은 혈관 및 평활근으로 구성되는 양성 종양으로 전체 양성 연조직 종양의 4.4%를 차지한다. 평활근이 존재하는 곳에서는 어디서든 발생할 수 있으나, 주로 하지(59%)와 상지(15%)의 피부에서 생기는 경우가 많으며 두경부 영역에서 발생하는 경우는 5~15%에 불과하다.¹⁾ 그중에서도 비강이나 부비동은 혈관성 평활근종이 매우 드물게 발생하는 것으로 알려져 있으며, 이는 혈관 외에는 비강 내에 평활근 조직이 거의 존재하지 않기 때문으로 여겨진다.²⁾

비강이나 부비동에서 발생하는 혈관성 평활근종에 대해 현재까지 여러 연구들이 보고되었으나, 매우 드문 발병률로 인해 대부분의 연구들은 1~2예의 증례 보고에 불과하였다. 현재까지 보고된 연구 중에서 가장 대규모의 연구는 Hachisuga 등³⁾이 부위에 상관없이 체내에 발생한 562예의 혈관성 평활근종에 대해 보고한 것으로, 그중 6예가 비강에서 발생한 것

이었다. 또한 Wang 등³⁾은 두경부 영역에 발생한 21예의 혈관성 평활근종을 보고하였으며, 이 중에서는 3예가 비강에서 발생한 경우였다. 국내에서는 Yoon 등⁴⁾이 비강에서 발생한 5예를 포함한 두경부 영역의 혈관성 평활근종 12예를 보고한 것이 가장 큰 연구였다. 따라서 현재까지 비강과 부비동에 발생한 혈관성 평활근종을 대상으로 그 임상 양상을 정리하여 보고한 연구는 없었다.

저자들은 비중격에서 발생한 혈관성 평활근종 1예를 비중격 점막 박리를 통해 정상 조직과 점막의 손상 없이 절제하여 이를 보고하며, 또한 현재까지 보고된 증례들에 대한 문헌 고찰을 통해 비강과 부비동에 발생한 혈관성 평활근종의 임상 양상을 정리하여 함께 보고하는 바이다.

증 례

67세 남자 환자가 1년간 지속된 좌측 비폐색감을 주소로

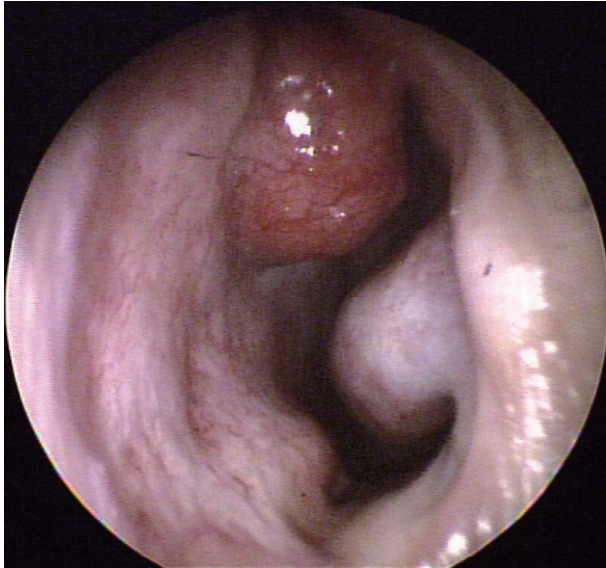


Fig. 1. Preoperative endoscopic findings of the septal mass showed 1.5 cm sized round pinkish mass with smooth surface on the left anterior septum.

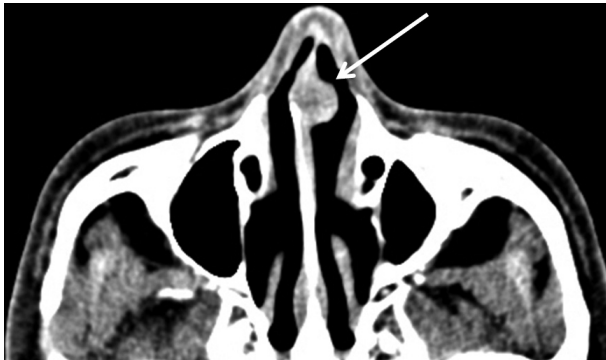


Fig. 2. CT finding of the septal mass showed 1.5 cm sized mass with soft tissue density on the left anterior septum. The mass was partially enhanced with contrast (arrow: suspected tumor).

내원하였다. 환자는 타 병원에서 진찰 후 좌측 비강 안에 종양으로 의심되는 병변이 있다고 들었으나 치료받지 않고 지냈으며, 약 1개월 전부터 왼쪽 코에서 간헐적으로 혈성 비루 증상이 동반되어 내원하였다. 내원 당시 비출혈 소견은 없었으며 환자는 통증 등의 다른 증상은 호소하지 않았다. 과거력에서 환자는 10년 전에 타 병원에서 아토피성 피부염으로 진단되었으며, 이후 증상에 따라 비정기적으로 스테로이드 경구 약제를 복용하고 있었다. 비내시경 검사에서 좌측 비중격 전방에 돌출된 약 1.5 cm 크기의 표면이 매끈한 붉은색 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 부비동 전산화단층촬영에서 종물은 비강 내에 국한되어 있었으며 균등한 밀도의 연부조직음영을 보였고 주변부로 약하게 조영 증강 되는 소견이 관찰되었다. 종물 주변부의 골 미란이나 종양 내 석회화 소견은 관찰되지 않았으며, 부비동 내에 다른 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 2).



Fig. 3. The specimen showed firm, ovoid and pinkish mass with 13 × 12 × 8 mm size.

국소 마취하에 비중격 점막 전방에 modified Killian 절개를 시행하였고, 일반적인 비중격 성형술의 경우와 달리 연골막을 남긴 채 종물을 확인할 때까지 Freer elevator를 이용하여 조심스럽게 비중격 점막의 박리를 시행하였다. 단단한 막으로 둘러싸여 있는 종물을 확인한 후, suction tip과 iris scissors를 이용하여 종물을 주변의 점막과 비중격 연골주위막에서 박리하였다. 종물은 주변 조직과 유착이 심하지 않았으며 출혈도 많지 않아 쉽게 제거될 수 있었고 종물을 덮고 있던 점막의 손상도 없었다. 제거된 병변은 단단하고 둥근 형태로 분홍색을 띠고 있었다(Fig. 3).

병리조직 검사상 종물 내부에 불규칙한 평활근 섬유다발의 주행이 관찰되었으며, 여러 개의 두꺼운 혈관벽을 가진 혈관이 관찰되었다. 종물은 주위 조직과 경계가 명확하였으며 평활근 섬유의 Actin과 Desmin에 대한 면역염색에서 양성 소견을 보여 혈관성 평활근종으로 진단되었다(Fig. 4).

환자는 수술 후 9개월째 추적 관찰 중이며, 주관적 증상은 없고 비내시경 검사상 재발 소견도 보이지 않고 있다.

고 찰

평활근종(leiomyoma)은 평활근 조직에서 기원하는 양성종양으로 세계보건기구의 분류에 의하면 비혈관성 평활근종(leiomyoma), 혈관성 평활근종(angioleiomyoma), 상피양 평활근종(epithelioid leiomyoma)으로 분류된다.^{5,6)} 비강 내에 존재하는 평활근은 정맥의 혈관벽에 주로 존재하므로, 비강과 부비동에서 발생하는 평활근종은 대부분 혈관성으로 알려져 있다.³⁾

PubMed와 KoreaMed를 통해 검색하여 확인한 결과, 비강

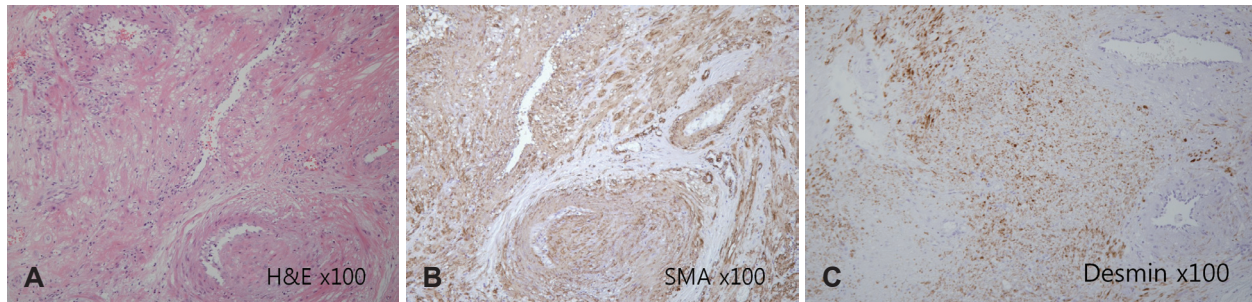


Fig. 4. Pathologic features of the specimen: The tumor showed smooth muscle cells with blunted nuclei, much thick-walled vasculature and no mitotic activity [A: hematoxylin and eosin (H&E) $\times 100$, B: smooth muscle actin (SMA) $\times 100$, C: Desmin $\times 100$].

Table 1. Previously published case reports of vascular leiomyoma of nasal cavity and sinuses in Korea

Authors	Symptoms	Tumor site	Size (cm)	Treatment	Recurrence
Lee, et al. ⁽⁴⁾	Epistaxis	Inferior turbinate	1	Endoscopic excision	NED after 12 months
Kim, et al. ⁽⁷⁾	Rhinorrhea, sneezing	Inferior turbinate	2	Endoscopic excision	NED after 6 months
Park, et al. ⁽²⁾	Nasal obstruction	Lateral nasal wall	2	Excision via allotomy	NED after 6 months
	Nasal obstruction	Nasal vestibule	1.4	Excision via allotomy	NED after 1 year
Choi, et al. ⁽⁸⁾	Epistaxis	Nasal septum	0.7	Excision*	NED after 6 months
Hwang, et al. ⁽⁹⁾	Epistaxis	Nasal vestibule	3	Excision via sublabial approach	NED after 6 months
Kim, et al. ⁽¹⁰⁾	Headache, Intermittent epistaxis	Inferior turbinate	2.5	Excision*	NED after 3 months
Lee, et al. ⁽¹¹⁾	Asymptomatic	Nasal vestibule	1.1	Endoscopic excision	NED after 8 months
Park, et al. ⁽¹²⁾	Asymptomatic	Nasal septum	2.6	Endoscopic excision	NED after 2 years
	Epistaxis	Inferior turbinate	1	Excision*	NED after 10 years
	Epistaxis	Nasal septum	1	Excision*	NED after the average duration of 52 months
Yoon, et al. ⁽⁴⁾	Asymptomatic	Nasal cavity	1		
	Nasal obstruction	Nasal vestibule	1.8		
	Nasal obstruction	Nasal septum	2		
	Asymptomatic	Inferior turbinate	0.8		
	Asymptomatic	Nasal septum	2		
Lim, et al. ⁽¹³⁾	Nasal obstruction	Nasal septum	2	Endoscopic excision	NED after 6 months

*there was no detailed data for the item. NED: no evidence of disease

이나 부비동에서 발생한 평활근종은 국외 문헌에서 1966년의 첫 보고 이후 현재까지 54개 문헌에서 72예, 국내에서는 1999년 이후 현재까지 14개 문헌에서 21예가 보고되었다. 이 중에서 혈관성 평활근종의 경우, 국외에서는 36개 문헌에서 46예, 국내에서는 10개 문헌에서 16예가 보고되었다(Table 1). 저자들은 문헌 고찰을 통해 확인한 총 62예의 비강과 부비동의 혈관성 평활근종에 대해 논문의 내용을 바탕으로 그 임상 양상을 정리하였다(Table 2).

혈관성 평활근종에서 성별과 연령에 대한 정보를 확인할 수 있었던 경우는 55예였으며, 여성이 37예(67.3%)로 여성에서 2배 정도 많이 발생하였고 진단 시 평균 연령은 55.5세(24~88세)였다. 환자의 증상은 54예에서 확인할 수 있었고, 코막힘이 30예(55.6%), 비출혈이 25예(46.3%), 두통이나 안면통이 13예(24.1%), 비루가 6예(11.1%), 유루증, 후각저하, 눈 주위 부종이 각각 2예(3.7%)에서 확인되었으며, 아무 증상 없이 우연히 발

견된 경우도 7예(13.0%)에서 있었다. 비강 내 혈관성 평활근종에 대한 보고가 극히 드문 것은 평활근 조직이 비강 내에 정맥의 혈관벽에만 존재하기 때문이기도 하지만, 발생하더라도 크기가 작은 경우에는 증상이 없거나 심하지 않기 때문인 것으로 생각된다.^(14,15)

혈관성 평활근종의 위치는 62예에서 기록되어 있었으나 7예(11.3%)에서는 비강으로만 언급되었으며, 하비갑개 17예(27.4%), 비중격 13예(21.0%), 비전정 10예(16.1%), 병변이 커서 비강과 주변 부비동에서 함께 확인되는 경우가 4예(6.5%), 사골동 3예(4.8%), 중비갑개 3예(4.8%), 비강의 측벽 2예(3.2%), 상비갑개 2예(3.2%), 상악동 1예(1.6%) 등이 있었다. 비갑개는 평활근을 포함하고 있는 혈관이 풍부하기 때문에 비갑개에서 발생한 예(22예, 35.5%)가 가장 많았던 것으로 생각된다.⁽¹⁶⁾

다발성으로 발생한 경우는 Hachisuga 등⁽¹⁾과 Tsobanidou⁽¹⁷⁾가 각 1예를 보고하였으며, 각각 비강과 하비갑개에서 두 개

Table 2. Assessment of the clinical data of vascular leiomyoma of nasal cavity and sinuses

	Variable	No. (%)
Gender (n=55)*	Male	18 (32.7)
	Female	37 (67.3)
Symptoms (n=54)**	Nasal obstruction	30 (55.6)
	Epistaxis	25 (46.3)
	Headache or facial pain	13 (24.1)
	Rhinorrhea	6 (11.1)
	Epiphora	2 (3.7)
	Periorbital swelling	2 (3.7)
	Hyposmia	2 (3.7)
	Asymptomatic	7 (13.0)
Location (n=62)	Nasal cavity	
	Nasal vestibule	10 (16.1)
	Nasal septum	13 (21.0)
	Lateral nasal wall	2 (3.2)
	Inferior turbinate	17 (27.4)
	Middle turbinate	3 (4.8)
	Superior turbinate	2 (3.2)
	Nasal cavity†	7 (11.3)
	Sinuses	
	Ethmoid sinus	3 (4.8)
	Maxillary sinus	1 (1.6)
	Nasal cavity and adjacent sinuses	4 (6.5)
Tumor size (n=45)*	Average	19.7 mm
Treatment (n=20)*	Endoscopic excision	11 (55)
	External approach	9 (45)
Recurrence (n=47)*	No recurrence§	45 (95.8)
	Recurrence	1 (2.1)
	Follow up loss	1 (2.1)

*cases without proper data on each item were excluded, †it was not fully explained in detail in the previous reports, ‡all the symptoms of each patient are included, therefore these results outnumbered total count, §no evidence of disease at least 3 months after surgery

의 종양 조직이 확인되었다. 종물의 크기는 45예에서 확인할 수 있었으며, 0.3 cm에서 7 cm까지 그 크기가 다양하였다(평균: 19.7 mm). 대부분의 혈관성 평활근종의 크기가 2 cm 정도인 것은 천천히 자라는 성질 때문으로 생각되며, 부비동 내에서는 크기가 더 큰 상태로 발견되는 경우도 보고되었다.³⁾

혈관성 평활근종이 발생하는 원인은 아직 확정적으로 알려져 있지 않으며, 이전 연구에서 외상이나, 스테로이드 약물, 호르몬 불균형 등이 언급된 바 있다.¹⁴⁾ 한 연구에서는 면역조직학적 검사를 통해 평활근종 조직에서 progesterone receptor 발현을 확인하여 종양의 성장과 progesterone의 관련 가능성을 주장하였다.¹⁸⁾ 본 증례에서는 환자가 장기적으로 경구 스테로이드 재제를 복용한 과거력이 있어 종양 발생과 관련이

있을 것으로 추정해볼 수 있었다.

비강과 부비동의 혈관성 평활근종은 조직에 대한 병리학적 검사를 통해 진단이 이루어지며, computed tomography 등의 영상 검사는 수술 전 종양의 크기와 범위를 확인할 때 도움이 될 수 있다.^{3,19)} 혈관성 평활근종은 CT에서 주변 골조직을 파괴시키지 않고 팽창하는 양상으로 경계가 분명하고 주변 연조직과 유사한 균일한 밀도의 타원형 종양으로 관찰되며, magnetic resonance imaging에서는 균일한 조영 증강을 보이고 T2-weighted 영상에서 약간 높은 신호강도를 보이는 종양으로 관찰된다. 이는 후비공 폴립, 반전성 유두종, 혈관종, 신경초종 등과의 감별이 필요하다.²⁰⁾

치료는 완전 절제로 최근에는 내시경을 이용한 절제술이 선호되고 있으며, 크기가 클 경우에는 외측 비절개, 외측 비익 절개도 가능하다. 혈관성 종물이 큰 경우에는 수술 전 선택적 색전술(selective embolism)도 고려할 수 있다.²¹⁾

재발은 극히 드물다고 알려져 있으나, 재발한 경우에는 저급 악성종양에 준하여 치료하여야 한다.²²⁾ 수술이 간단하여 치료 접근방법에 대해 언급한 경우가 적었는데(20예), 내시경을 이용하였다고 언급된 예는 11예, 측비절개술 2예, 비익절개술 2예, 비외사골동수술 2예, 상악동제거술 1예, Caldwell-Luc 접근법을 언급한 예는 1예였으며 전두개와 접근법을 함께 사용한 경우가 1예 있었다.

재발 여부는 47예에서 확인할 수 있었으며, 이 중 1예(2.1%)에서 재발을 보고하였다. 이는 비중격 종물에 대해 외래에서 endoscopic punch biopsy를 시행한 후 환자가 재채기를 하면서 잔존 병변이 떨어져 나가 내시경 소견에서 남아 있는 병변이 없는 것으로 확인된 경우로, 8개월 뒤 종양의 재발이 확인된 예였다. 내시경을 이용한 재수술로 병변을 완전히 절제한 후 재발은 없는 것으로 보고되었다.²³⁾ 일반적으로 혈관성 평활근종은 완전히 절제된 경우 재발하지 않는 것으로 알려져 있다.³⁾ 본 증례에서는 비중격 성형술과 같은 방식으로 비내 접근법을 통해 정상 조직에 대한 손상 없이 종양 조직만 제거할 수 있었으며, 합병증이나 재발 소견 없이 9개월째 경과 추적 관찰을 시행하고 있다.

REFERENCES

- 1) Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M. Angioleiomyoma. A clinicopathologic reappraisal of 562 cases. *Cancer* 1984;54(1):126-30.
- 2) Park CS, Cho JH, Kim SW, Park YJ. Two cases of angioleiomyoma arising from the lateral nasal wall. *J Rhinol* 2005;12(1):58-61.
- 3) Wang CP, Chang YL, Sheen TS. Vascular leiomyoma of the head and neck. *Laryngoscope* 2004;114(4):661-5.
- 4) Yoon TM, Yang HC, Choi YD, Lee DH, Lee JK, Lim SC. Vascular leiomyoma in the head and neck region: 11 years experience in one institution. *Clin Exp Otorhinolaryngol* 2013;6(3):171-5.
- 5) Batsakis JG. Tumors of the head and neck: clinical and pathological considerations. 2nd ed. Baltimore: Williams & Wilkins;1979.

- 6) Lee HM, Kim JM, Chu HS, Lee SH. A case of angioiomyoma of the inferior turbinate. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2002;45(12):1193-5.
- 7) Kim SJ, Hong SH, Roh MS. Angioleiomyoma of the nasal cavity. Korean J Pathol 2004;38(3):181-3.
- 8) Choi JH, Kim JM, Kim YD. Angioleiomyoma of the nasal septum: a case report. Yeungnam Univ J Med 2008;25(2):154-9.
- 9) Hwang SH, Chung J, Chung DH, Kim JM. A case of angioleiomyoma of nasal vestibule. J Rhinol 2008;15(2):160-3.
- 10) Kim YH, Youn SJ, Lee YJ, Kim JS. A case of angioiomyoma of the inferior turbinate. J Rhinol 2008;15(1):62-4.
- 11) Lee DH, Lee JW, Cho WS, Lim SC. A case of vascular leiomyoma of the nasal vestibule. J Rhinol 2013;20(2):153-5.
- 12) Park IH, Hong SM, Choi SW, Shin JM, Lee HM. Two cases of angioleiomyoma in the nasal cavity. J Rhinol 2013;20(2):113-5.
- 13) Lim SJ, Park YK, Kim HJ. A case of angioleiomyoma of nasal septum. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2014;57(5):337-9.
- 14) Bizakis J, Nikolidakis A, Panayiotides J, Chimona T, Kyrmizakis D, Helidonis E. Vascular tumours of the nasal septum. J Otolaryngol 2002;31(3):170-2.
- 15) Tang SO, Tse CH. Leiomyoma of the nasal cavity. J Laryngol Otol 1988;102(9):831-3.
- 16) Barr GD, More IA, McCallum HM. Leiomyoma of the nasal septum. J Laryngol Otol 1990;104(11):891-3.
- 17) Tsobanidou C. Leiomyoma of the nasal cavity-Report of two cases and review of the literature. Oral Oncology Extra 2006;42(7):255-7.
- 18) Marioni G, Marchese-Ragona R, Fernandez S, Bruzon J, Marino F, Staffieri A. Progesterone receptor expression in angioleiomyoma of the nasal cavity. Acta Otolaryngol 2002;122(4):408-12.
- 19) Trott MS, Gewirtz A, Lavertu P, Wood BG, Sebek BA. Sinonasal leiomyomas. Otolaryngol Head Neck Surg 1994;111(5):660-4.
- 20) Yang BT, Wang ZC, Xian JF, Hao DP, Chen QH. Leiomyoma of the sinonasal cavity: CT and MRI findings. Clin Radiol 2009;64(12):1203-9.
- 21) Nall AV, Stringer SP, Baughman RA. Vascular leiomyoma of the superior turbinate: first reported case. Head Neck 1997;19(1):63-7.
- 22) Colombo P, Conte U, Catellani P, Caramella C, La Manna A. The effect of fines on the physical properties of a starch-lactose granulation and of the corresponding tablets. Farmaco Prat 1974;29(2):102-9.
- 23) Bloom DC, Finley JC Jr, Broberg TG, Cueva RA. Leiomyoma of the nasal septum. Rhinology 2001;39(4):233-5.