



A Case of Lobular Capillary Hemangioma With Superimposed Fungus

Jae-Hoon Lee

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Wonkwang University, Iksan, Korea

진균을 동반한 소엽성 모세관 혈관종 1예

이재훈

원광대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received March 17, 2025

Revised March 25, 2025

Accepted March 26, 2025

Address for correspondence

Jae-Hoon Lee, MD

Department of Otolaryngology-

Head and Neck Surgery,

College of Medicine,

Wonkwang University,

895 Muwang-ro, Iksan 54538, Korea

Tel +82-63-859-1441

Fax +82-63-841-6556

E-mail Leejaehoon64@gmail.com

Lobular capillary hemangioma, also known as pyogenic granuloma, is characterized by anastomosing networks of capillaries arranged in one or more lobules in edematous and fibroblastic stroma on histopathological examination. The majority of the lesions are usually small and they tend to be localized in the anterior part of the septum or in the head of the inferior turbinate, mainly affecting the anterior part of the nasal cavities. Proposed contributing factors for the development of lobular capillary hemangioma include trauma, hormones, viral oncogenes, arteriovenous malformations, and angiogenic growth factors. Reported herein is a 27-year-old male with a 3-month history of left nasal obstruction and intermittent epistaxis, who was found to have a nasal cavity mass that was successfully removed via endoscopic endonasal approach. We describe here a case of lobular capillary hemangioma originated from the posterior nasal septum with superimposed fungus.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2025;68(8):332-5

Keywords Fungus; Lobular capillary hemangioma; Nasal septum.

서론

화농성 육아종으로도 불리는 소엽성 모세관 혈관종은 양성 종양으로, 이비인후과 영역에서는 입술, 혀, 구강 점막에서 잘 발생하나 비강에서의 발생은 상대적으로 드물다.¹⁾

모든 연령층에서 발생할 수 있으나 30대에 흔하며 여성에서는 특히 가임기에 호발한다.²⁾ 소엽성 모세관 혈관종은 급속하게 성장하며 쉽게 출혈하는 경향을 가져 편측성 비출혈 및 비폐색을 주소로 내원하는 경우가 많으나, 특별한 증상 없이 우연히 발견된 경우도 있다.³⁾

진균은 작은 포자형태로 호흡기로 들어가는데 흔히 볼 수 있는 기생생물이다.⁴⁾ Ponikau 등⁵⁾과 Shin 등⁶⁾은 만성 부비

동염 환자뿐만 아니라 정상인의 비측에서 진균들이 배양된다고 보고하였으며 *Alternaria*, *Cladosporium*, *Penicillium*, *Aspergillus* 등이 주된 종류였다. 수많은 진균 중에서 그중 200여종이 병원성을 가지고 있으며, *Alternaria*, *Cladosporium*, *Penicillium*, *Aspergillus*, *Candida* 등 20여종이 호흡기 질환과 관련이 있다고 알려져 있다.^{7,8)}

비강과 부비동에서의 진균은 항암치료, 면역 억제요법 또는 암에 대한 방사선 치료 시 발생할 수 있으나, 전신 상태가 양호한 사람인 경우에서도 비강과 부비동 점막의 국소적 손상이나 비강 내 국소 스테로이드를 장기간 사용할 때 국소 저항의 감소로 질환이 발생할 수 있으나, 아직까지 발생위험인자에 대해서는 정확하게 밝혀져 있지 않다.⁹⁾

비강에 발생한 소엽성 모세관 혈관종과 진균이 같이 동반된 경우는 국내외 문헌에서 아직까지 보고된 바가 없다. 이에 저자들은 편측성 비출혈을 주소로 내원한 27세의 전신 상태

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.

가 양호한 남자 환자에서 진균을 동반한 소엽성 모세관 혈관 종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. 본 연구는 본 병원 기관심의위원회에서 심의면제(2024-10-015)를 받고 수행되었다.

증 례

27세 남자 환자가 3개월 전부터 발생한 좌측 비폐색, 간헐적인 비출혈을 주소로 내원하였다. 과거에 코 수술을 받았거나 혹은 비출혈로 인해 비강 내 패킹을 한 적은 없었다. 비내시경 검사상 좌측 비중격의 후반부에 붉고 쉽게 출혈을 동반한 종물과 그 주변 여러 곳에서 응혈이 관찰되었다(Fig. 1).

부비동 컴퓨터단층촬영에서 좌측 비중격과 중비갑개 사이에 연조직 음영이 관찰되었으며(Fig. 2), 혈관종이 의심되어서 외래에서 조직검사 중 출혈 가능성을 염두에 두어 조직검사는 하지 않았다.

종물 제거 시 출혈에 대비하여 흡입 소작기를 준비하였고 전신마취하에서 비내시경을 이용하여 종물을 제거하였다. 종물은 좌측 비중격 후반부와 중비갑개 사이에 있었으며 부착부위인 비중격으로부터 쉽게 제거되었다. 종물 제거 시 심한 출혈은 없었으며 재발의 가능성을 최소화하기 위해 종물이 부착된 점막을 같이 제거하였고, 흡입 소작기를 이용하여 지혈하였다. 종물의 주된 부위에 하얀색의 판(plaque)이 관찰되었으며, 종물의 크기는 육경(stalk)을 포함하여 장축이

4.0 cm, 단축이 2.5 cm, 두께가 1.3 cm였다(Fig. 3).

수술로 제거된 종물의 조직학적 소견은 섬유성 기질을 배경으로 수많은 모세혈관 크기의 혈관들이 소엽성으로 배열되어 있어 소엽성 모세관 혈관종으로 진단되었고, 소엽성 모세관 혈관종의 점막 표면 궤양 부위를 따라 국균(*Aspergillus*)이 관찰되었다(Figs. 4 and 5).

술후 2일째 비강 내 패킹을 제거하고 다음 날 퇴원하였으며, 술후 6개월째 재발 등의 소견없이 주기적으로 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

비강 내 소엽성 모세관 혈관종의 원인으로는 외상이 가장 유력하다. 특히 비강 내 패킹, 코를 후비는 습관으로 인해 받

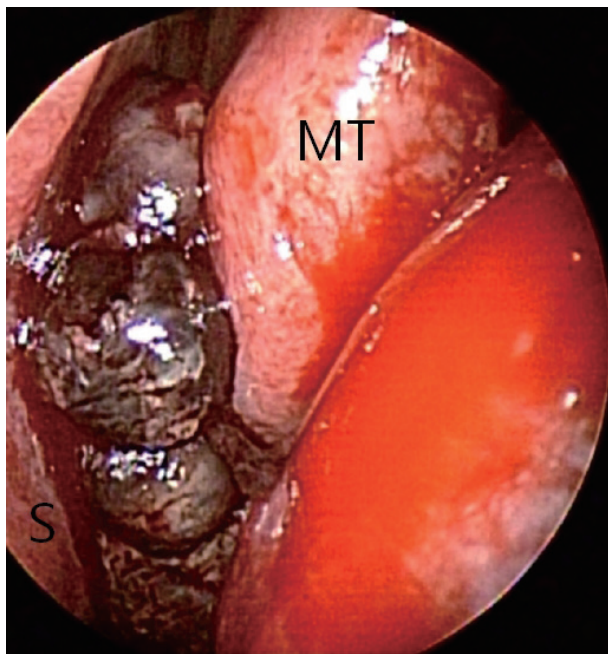


Fig. 1. Endoscopic view of left nasal cavity shows a reddish polypoid mass located between the posterior nasal septum and middle turbinate. S, septum; MT, middle turbinate.

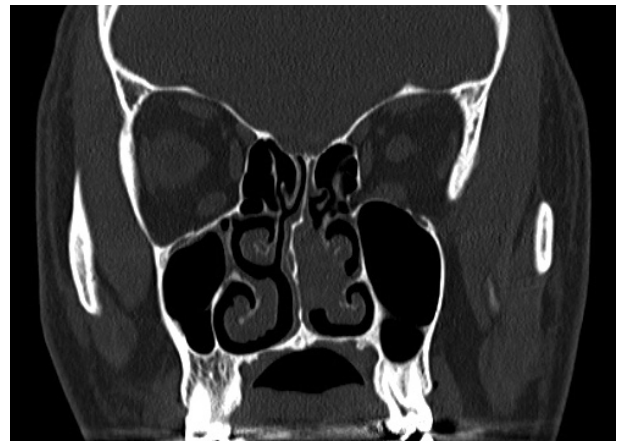


Fig. 2. CT of the sinuses shows a soft-density mass located between the posterior nasal septum and middle turbinate.



Fig. 3. Gross finding of the mass. It measures about 40×25×13 mm sized single mass with a stalk (arrows: whitish plaque).

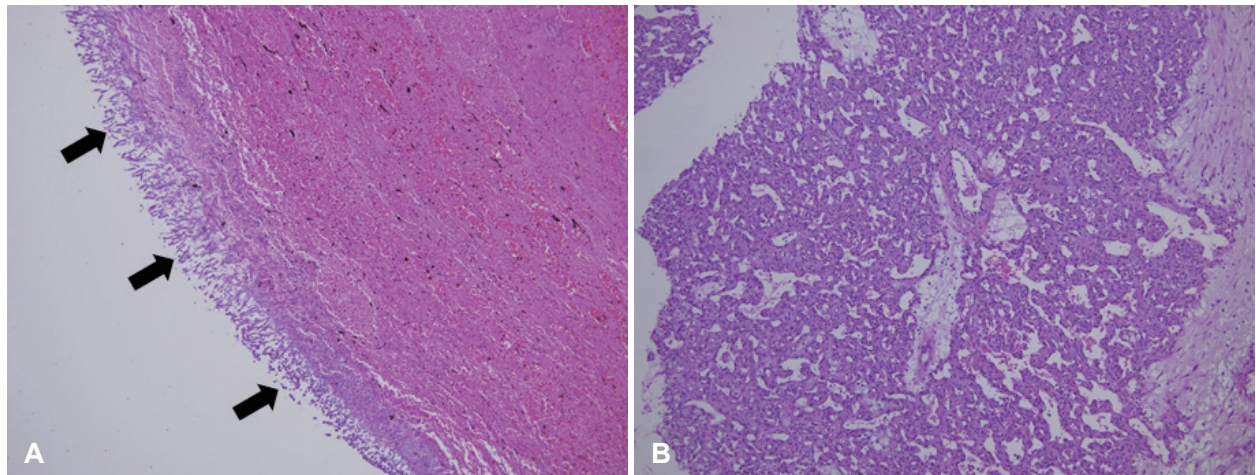


Fig. 4. Pathologic findings of the mass. Fungal hyphae (arrows) on tumor surface are shown. The tumor shows lobular arrangement anastomosing networks of capillary vessels in a fibrous stroma (H&E, $\times 100$) (A). The lobular mass is composed of proliferation of small capillaries and endothelial cells (H&E, $\times 100$) (B). H&E, hematoxylin and eosin.

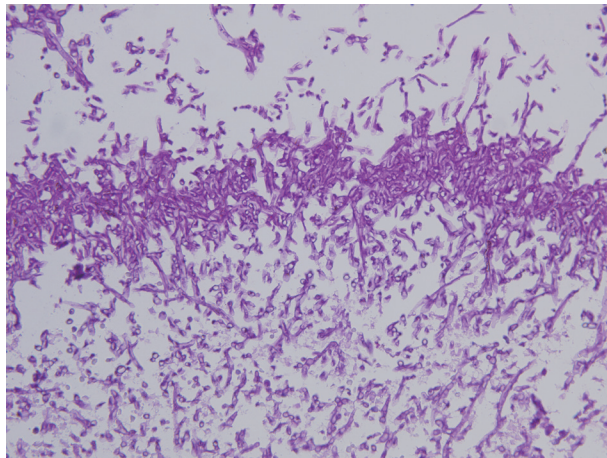


Fig. 5. PAS stain demonstrates numerous 45 angled dichotomous branching and septated fungal hyphae on tumor surface (PAS, $\times 400$). PAS, Periodic acid-Schiff.

생할 수 있다. 비강 내 소엽성 모세관 혈관종이 비강 앞쪽 부위인 비중격 전반부 혹은 하비갑개 전반부에 주로 발생하여 비강 내 외상이 중요한 원인이 될 수 있는 근거가 된다.^{10,11)} 그러나 본 증례에서는 비강 내에 패킹한 과거력이 없고, 비강 내 외상을 받기에는 위치적으로 거리가 떨어져 있는 비중격 후반부에서 발생한 경우여서 외상을 원인으로 추정하기는 어렵다.

Puxeddu 등¹¹⁾의 보고에 의하면 비강에서 발생한 소엽성 모세관 혈관종 40예 중 비중격(55.0%), 비전정(17.5%), 하비갑개(12.5%), 중비갑개(7.5%), 구상돌기(7.5%)의 순이었다. Chi 등¹²⁾은 15예 중 비중격 전반부(6예), 하비갑개(4예), 비전정(3예), 비중격 후반부(1예), 중비갑개(1예) 순으로 보고하였다. 국내에서는 Park 등³⁾이 총 19예 중 비중격이 8예, 하비갑개 7예, 비외측벽 3예, 비강저에서 1예 순으로 보고하였다. 소

엽성 모세관 혈관종의 발생부위는 비중격 전반부에서 발생되는 경우가 많아 본 예의 경우에서처럼 비중격 후반부인 경우는 비교적 드물다.

방사선학적 진단으로 컴퓨터단층촬영에서 골파괴를 동반하지 않는 일측성의 연조직 음영으로 나타나 특징적이지는 않다. 크기가 큰 경우 혈관섬유종(angiofibroma), 혈관육종(angiosarcoma)과의 감별 진단이 필요할 수 있다.¹¹⁾

소엽성 모세관 혈관종은 조직학적으로 점액섬유종의 기질(fibromyxoid stroma)에 엽상 혈관종이 흩어져 있는 특징을 보이는데, 염증세포의 침윤, 육아 조직, 점막 표면 궤양 등을 동반하기도 한다.³⁾ Toida 등¹³⁾에 따르면, 대부분의 소엽성 모세관 혈관종에서 크게 엽상 부분과 점막 표면 궤양 부분으로 구분할 수 있으며, 엽상 부분에서는 미세혈관이 산재하여 있는 특징과 점막 표면 궤양 부분에서는 호중구의 침윤 소견이 있었다. 본 증례에서는 소엽성 모세관 혈관종의 점막 표면 궤양 부위에 국균이 동반되었다.

호흡기 점막은 점액섬모운동을 통해 호흡기 내로 들어온 미생물과 이물질을 제거하는 데 매우 효과적인 기능을 가지고 있다. 요사이 호흡기 점막 진균총(mycobiome)의 역할에 대한 연구가 진행되고 있으며, 진균총의 변화에 의한 호흡기 질환을 유발할 수 있음이 보고되고 있다.^{14,15)}

호흡을 통해 기도로 들어온 진균 포자들이 기도 점막의 방어기전에 의해 제거되지 못하는 경우 점막 내에서 군사체를 형성하게 되고 세포외 기질과 다당류와의 상호작용을 통해 진균성 생물막(biofilm)이 형성된다. 진균은 호흡 점막의 방어기전이 정상적으로 작동하는 경우 생물막을 형성하기 어려우나 다양한 원인, 즉 호흡기 점막의 물리적 손상이나 세균성 혹은 항원에 의한 점막의 손상이 있는 경우 진균성 생물

막이 형성되며, 호흡기 질환을 일으키게 된다.¹⁶⁾

본 증례의 경우 소엽성 모세관 혈관종의 발생부위가 부비동과 같은 폐쇄된 공간이 아닌 환기가 잘 되는 비강 내에서 발생된 예로 진균이 동반된 이유를 정확히 추정하기는 어렵다. 그러나 몇 가지 생각할 수 있는 기전으로는 비교적 크기가 큰 소엽성 모세관 혈관종으로 인한 비강 내 환기장애, 혈관종으로 인한 비강 점막의 국소적 손상, 그리고 혈관종으로부터의 반복적인 출혈로 인한 잦은 혈종 형성이 진균 서식에 좋은 환경을 제공하였던 것으로 추정할 수 있다.

본 저자는 비강에서 소엽성 모세관 혈관종에 진균이 동반된 매우 드문 경우를 경험하여 보고하는 바이다.

Acknowledgments

This paper was supported by Wonkwang University in 2025.

ORCID

Jae-Hoon Lee <https://orcid.org/0000-0002-0856-8173>

REFERENCES

- 1) el-Sayed Y, al-Serhani A. Lobular capillary haemangioma (pyogenic granuloma) of the nose. *J Laryngol Otol* 1997;111(10):941-5.
- 2) Mills SE, Cooper PH, Fechner RE. Lobular capillary hemangioma: the underlying lesion of pyogenic granuloma. A study of 73 cases from the oral and nasal mucous membranes. *Am J Surg Pathol* 1980;4(5):470-9.
- 3) Park SK, Cho HW, Jang SH, Park CK. [Clinical study of lobular capillary hemangioma in nasal cavity]. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43(4):402-5. Korean
- 4) Kurup VP, Banerjee B. Fungal allergens and peptide epitopes. *Peptides* 2000;21(4):589-99.
- 5) Ponikau JU, Sherris DA, Kern EB, Homburger HA, Frigas E, Gaffey TA, et al. The diagnosis and incidence of allergic fungal sinusitis. *Mayo Clin Proc* 1999;74(9):877-84.
- 6) Shin SH, Lee YH, Lee SJ, Kim CG, Ye MK. [Analysis of fungi in the nasal secretion of chronic rhinosinusitis patients]. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2002;45(5):479-82. Korean
- 7) Koivikko A, Viander M, Lanner A. Use of the extended Phadebas RAST panel in the diagnosis of mould allergy in asthmatic children. *Allergy* 1991;46(2):85-91.
- 8) Shen HD, Lin WL, Tam MF, Wang SR, Tsai JJ, Chou H, et al. Alkaline serine proteinase: a major allergen of *Aspergillus oryzae* and its cross-reactivity with *Penicillium citrinum*. *Int Arch Allergy Immunol* 1998;116(1):29-35.
- 9) Dufour X, Kauffmann-Lacroix C, Ferrie JC, Goujon JM, Rodier MH, Klossek JM. Paranasal sinus fungus ball: epidemiology, clinical features and diagnosis. A retrospective analysis of 173 cases from a single medical center in France, 1989-2002. *Med Mycol* 2006;44(1):61-7.
- 10) Lee HM, Lee SH, Hwang SJ. A giant pyogenic granuloma in the nasal cavity caused by nasal packing. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2002;259(5):231-3.
- 11) Puxeddu R, Berlucchi M, Ledda GP, Parodo G, Farina D, Nicolai P. Lobular capillary hemangioma of the nasal cavity: a retrospective study on 40 patients. *Am J Rhinol* 2006;20(4):480-4.
- 12) Chi TH, Yuan CH, Chien ST. Lobular capillary hemangioma of the nasal cavity: a retrospective study of 15 cases in Taiwan. *Balkan Med J* 2014;31(1):69-71.
- 13) Toida M, Hasegawa T, Watanabe F, Kato K, Makita H, Fujitsuka H, et al. Lobular capillary hemangioma of the oral mucosa: clinicopathological study of 43 cases with a special reference to immunohistochemical characterization of the vascular elements. *Pathol Int* 2003;53(1):1-7.
- 14) Zhao YC, Bassiouni A, Tanjararak K, Vreugde S, Wormald PJ, Psaltis AJ. Role of fungi in chronic rhinosinusitis through ITS sequencing. *Laryngoscope* 2018;128(1):16-22.
- 15) Jiang RS, Shih CH, Jiang YH, Hsieh HH, Chiang YF, Chuang HN, et al. Nasal mycology of chronic rhinosinusitis revealed by nanopore sequencing. *Diagnostics (Basel)* 2022;12(11):2735.
- 16) Boase S, Jervis-Bardy J, Cleland E, Pant H, Tan L, Wormald PJ. Bacterial-induced epithelial damage promotes fungal biofilm formation in a sheep model of sinusitis. *Int Forum Allergy Rhinol* 2013;3(5):341-8.