

# 상비갑개에 발생한 비인강외 혈관섬유종 1예

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

손호진 · 고재진 · 김이혁 · 신승헌

## A Case of Extranasopharyngeal Angiofibroma Originating from Superior Turbinate

Ho Jin Son, MD, Jae Jin Ko, MD, Yee Hyuk Kim, MD and Seung Heon Shin, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery,  
School of medicine, Catholic University of Daegu, Daegu, Korea

### ABSTRACT

Angiofibromas originate predominantly from the posterolateral wall of the nasopharynx and are typically seen in adolescent males, but they may also exist outside of the nasopharynx. Nine patients with extranasopharyngeal angiofibromas have been reported in Korea. The inferior turbinate was the most commonly affected site, and patients reported experiencing various nasal symptoms, such as epistaxis and nasal obstruction. Extranasopharyngeal angiofibroma arising from the superior turbinate is extremely rare and has not been reported to date. Recently we experienced a case of angiofibroma of the left superior turbinate in a 68-year-old male that was successfully treated with endoscopic surgery.

**KEY WORDS** : Extranasopharyngeal Angiofibroma · Superior Turbinate.

### 서 론

혈관섬유종은 두정부 종양 중 0.5%를 차지하는 양성 종양이다. 대부분 청소년기 남성에서 발생하지만 10세 이하의 소아나, 성인, 여성 혹은 임신부에서도 발생할 수 있다.<sup>1-2)</sup> 대부분 비인강에서 발생하며, 코막힘, 코피, 비출혈, 비성 증가 등의 증상을 나타낸다. 비인강 혈관섬유종의 경우 비인두의 익돌구개와 후비공 및 접형개구공에서 기원하지만 드물게 비인강의 혈관섬유종이 발병하기도 한다. 이 경우는 비인강 혈관섬유종과 달리 성인과 여성에서 자주 발생한다.<sup>1-3)</sup>

비인강외 혈관섬유종은 전세계적으로 적은 보고만 있었고 국내의 경우 9번의 보고가 있었으며, 그 중 하비갑개에 발생한 혈관섬유종이 4예로 가장 많았고, 중비갑개, 사골동, 연구개, 인두 및 부인두강에 발생한 경우가 각 1예

씩 보고되었다.<sup>2)</sup> 4-5) 하지만 지금까지 상비갑개에 발생한 비인강외 혈관섬유종에 대한 보고는 없었다. 저자들은 상비갑개에서 기원한 비인강외 혈관섬유종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 증례를 보고하고자 한다.

### 증 례

68세의 남자 환자가 7년간의 좌측 코막힘과 후각감퇴를 주소로 내원하였다. 환자는 B형 간염 보균자이며 충수돌기염 수술을 받은 것 이외에 다른 내외과적 질환은 없었다. 외래에서 시행한 비내시경 검사에서 좌측 비강의 비중격과 중비갑개 사이에 위치한 적색의 종괴가 보였으나 전체 종괴의 경계 및 크기를 식별할 수 없었으며, 우측 비강, 인두 및 후두는 정상 소견이었다(Fig. 1).

조영제를 사용한 부비동 전산화단층촬영에서 좌측 비강과 비인강에 경계가 분명하고 조영 증강된 종괴가 위치하고 있었으며 비중격이 우측으로 편위되어 있었다. 주변 골조직의 미란이나 구인두강 부위에는 이상 소견이 없었다(Fig. 2).

논문접수일 : 2014년 1월 21일 / 심사완료일 : 2014년 6월 5일

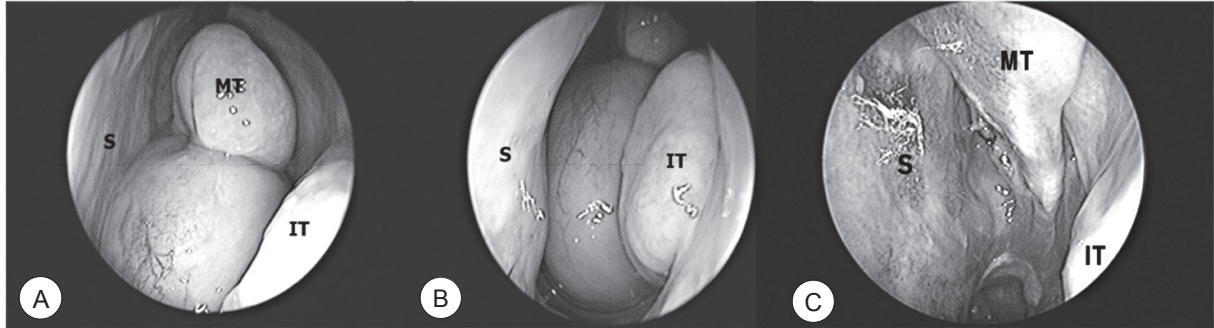
교신저자 : 신승헌 대구광역시 남구 대명 4동 3056-6

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

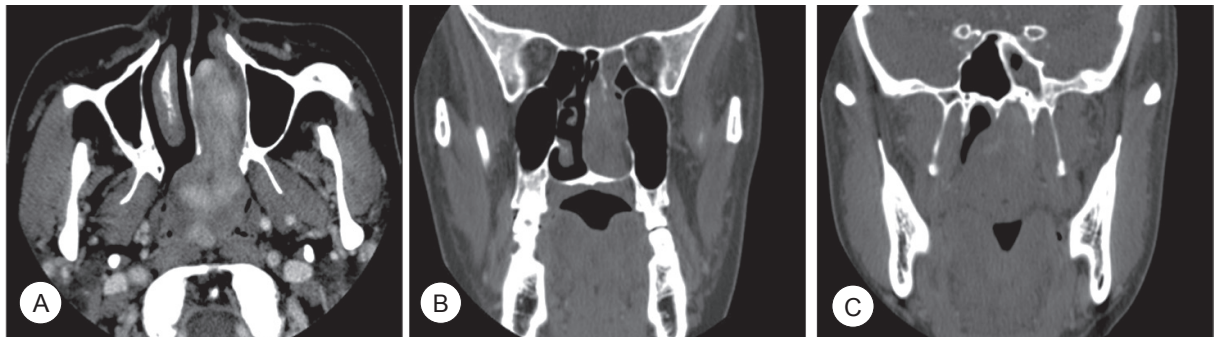
전화 : (053) 650-4530 · 전송 : (053) 650-4533

E-mail : hsseung@cu.ac.kr

**Fig. 1.** Endoscopic findings of nasal cavity. A) & B) Preoperative findings show a pinkish mass between middle turbinate and nasal septum. C) Postoperative finding shows the tumor origin site between middle turbinate and nasal septum. S: septum, IT: inferior turbinate, MT: middle turbinate, O: origin site.



**Fig. 2.** Axial and coronal computed tomography of tumor occupying the left nasal cavity and nasopharynx. The vascular enhancement of the tumor was remarkable.



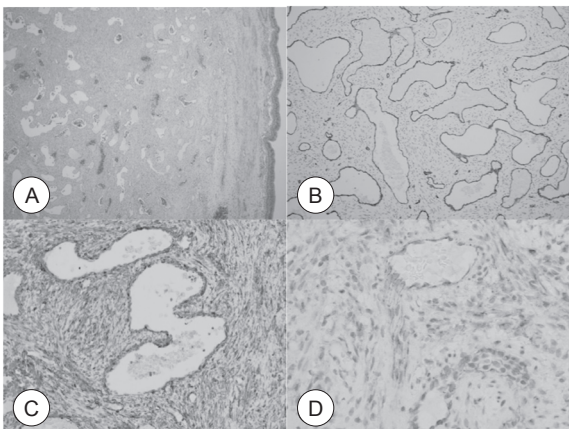
조직검사와 종양제거를 위하여 전신마취 하에 비내시경수술을 시행하였다. 종괴는 상비갑개에서 기원하였고 비인강까지 걸쳐있는 소견을 보였다. 수술 중 심한 출혈 없이 비교적 간단하게 제거할 수 있었으며, 종괴가 제거된 후 상비갑개 부위에 출혈이 있었으나 흡입소작기로 지

혈되었다. 종양은 7 x 3 cm 의 크기였으며 경계가 명확하며 표면이 매끄러운 적백색의 유경성 종물로 혈관이 풍부해 보이지는 않았다. 환자는 별 다른 합병증 없이 술 후 1 일째 퇴원을 하였고 특별한 불편함 없이 지내고 있으며, 술 후 1년 동안 재발 소견 없이 추적 관찰 중이다.

병리학적 검사에서 종물은 섬유조직과 풍부한 혈관으로 구성되어 있었으며, 편평한 내피세포에 둘러싸인 다양한 크기의 혈관들과 섬유성 간질조직이 보였고 이는 혈관 섬유종에 합당한 소견이었다(Fig. 3).

## 고 찰

혈관섬유종은 두경부 종양의 0.5%를 차지하며, 비인강에 주로 발생하는 양성종양이다. 구개골의 접형돌기, 서골의 수평부와 접형골의 익상돌기가 접해있는 접형구개공 상연에서 발생하여 비강과 비인강으로 확장하게 되면서 코막힘, 반복적인 비출혈 등의 증상을 나타내게 된다. 비인강외 혈관섬유종의 경우 비인강 섬유종이 청년기 남성에서 주로 발생하는 것과 달리 성인과 여성에서 빈번하게 발생한다. Huang 등<sup>6)</sup>이 비인강외 혈관섬유종 55예의 발생부위를 분석하여 부비동이 22예로 가장 많았으며, 비강에 발생한 경우는 8예로 비천정, 비중격, 중비갑개, 하



**Fig. 3.** Histopathological and immunohistochemical findings consistent with an angiofibroma. A) H&E stain shows a numerous irregular thin walled vessels lining in a fibrous stroma (x40). B) CD 34 stain shows the positive vascular endothelial cells (x200). C) Smooth muscle actin-positive cells are around the circumference of vascular space (x 200). D) Beta-catenin show positive membranous stain (x 200)

비갑개에서 각각 2예를 보고하였다. Windfuhr 등<sup>7)</sup>은 65명의 환자를 분석하였으며 상악동이 16예로 가장 빈번히 발생하였고, 사골동(6예), 비강(6예), 후두(4예), 비중격, 접형동과 뺨(각 3예), 구인두, 편도, 중비갑개, 하비갑개(각 2예) 등의 순으로 발생하였다. 국내의 경우도 9예가 보고되었지만 상비갑개에서 발생한 혈관섬유종은 국내외를 통틀어 본 증례가 처음일 것이다.

국외 이비인후과영역에서 보고된 65예 중 비부비강에 발생한 증례는 39예로 60.0%를 차지하였고 상악동, 사골동, 비강 순으로 빈발하였으며 중비갑개와 하비갑개는 각 2예씩 보고하였다.<sup>7)</sup> 국내에서 발표된 9예의 경우 비부비강에서 6예(하비갑개 4예, 중비갑개 1예, 사골동 1예) 발생하였으며, 그 외 연구개, 구인두, 부인두강 등이 각 1예였다(Table 1).<sup>2) 5) 8-14)</sup> 국외에서 가장 빈발했던 상악동에서 발생한 혈관섬유종은 국내에서 보고된 바 없었다. 국외 비인강의 혈관섬유종 환자의 평균 연령은 22.9세였다. 국내 환자의 평균 연령은 39.6세였으며, 비부비강에 발생한 6예의 경우 48.3세로 비부비강 외에 발생한 환자의 평균 연령 22.0세나 비인강 혈관섬유종의 평균 발생 연령 17.0세에 비해 높은 연령에서 발생하였으며 본 증례의 경우도 66세의 고령에서 발생하였다. Windfuhr 등<sup>7)</sup>이 보고한 비부비강에 발생한 혈관섬유종 39명의 환자에서 비출혈이 25예, 64.0%로 가장 흔한 증상이었고, 코막힘 증상은 19예, 48.7%에서 나타났다. 국내에서 보고된 6예의 경우는 비출혈이 가장 흔한(5예) 증상이었고, 그 외 코막힘(4예), 후각장애와 통증 등을 호소하였다. 국외 비부비강 혈관섬유종의 경우 증상 발생 후 평균 7.2개월 경과 후 진료를 시행하였으며, 국내의 경우는 3.2개월로 비교적 짧은 시간내에 진료가 이루어 졌다. 본 증례의 경우는 코

막힘이 주증상이었으며 증상 발생 후 7년 경과 후 내원하였다. 이는 본 증례의 혈관섬유종이 비출혈 증상 보다는 코막힘 증상을 주증상으로 하였지만 종괴가 호흡에 크게 영향을 미치지 않는 상비갑개에서 발생 하여 진단이 늦어진 것으로 추측된다. 또 전형적인 혈관섬유종에서 혈관의 평활근육과 탄력섬유가 존재하지 않아 쉽게 출혈하는 경향을 보이는 것과 달리 일부 비전형적 혈관섬유종에서 평활근육이 존재하는 경우 출혈보다는 종괴에 의한 코막힘이 주증상이 될 수 있다.<sup>5)</sup>

비인강 혈관섬유종의 경우 사춘기 소년에서 비강 후외측에 위치하는 출혈성 종괴를 특징으로 하며, 비내시경 검사, 전산화 단층촬영, 자기공명영상 등을 통해 진단할 수 있고, 외경동맥인 내상악동맥이나 상행 인두동맥이 주요 영양혈관이며, 내경동맥의 안구분지와 척추동맥도 영양혈관이 되기도 한다. 이러한 비인강섬유종의 근본치료는 색전술 시행 후 수술을 통해 완전히 절제하는 것이다. 하지만 비인강외 혈관섬유종의 경우는 임상에서 흔히 경험하지 못할 뿐 아니라 영양혈관도 발생부위에 따라 다르기 때문에 조기 진단이 어려우며, 수술 후 혈관섬유종으로 확인되는 경우도 많다. 본 증례의 경우 상비갑개에 분포하는 후사골동맥이 주된 영양혈관이었을 것이다. 비부비강에 발생한 비강외 혈관섬유종의 경우 국내에서는 1예에서 색전술을 시행하였으며 그 외에는 색전술 시행없이 비내시경을 이용하여 완전한 제거가 가능하였다.<sup>9)</sup> 비인강 혈관섬유종의 재발률이 25-40%인 것에 비해 비인강외 혈관섬유종의 예후는 양호하였다.<sup>3) 7)</sup> 본 증례에서도 종괴가 상비갑개에 국한되어 있었으며, 경계가 명확하고 주위 조직으로의 침범 소견이 없어 색전술 시행없이 비내시경을 이용하여 완전히 제거할 수 있었다. 하지

**Table 1.** Characteristics of previously reported extranasopharyngeal angiofibrom in Korea. M: male, F: female, IT: inferior turbinate, MT: middle turbinate, NA: non-available, Mo: months.

Year	Sex	Age	Origin	Main Symptoms	Duration	Enhance	Therapy
2013	M	37	IT	Nasal obstruction	4 Mo	Yes	Endoscopic
2012	F	57	IT	Pain	2 Mo	No	Endoscopic
2007	M	72	Ethmoid	Hyposmia	6 Mo	Yes	Endoscopic
2005	F	41	MT	Nasal obstruction	2 Mo	Yes	Endoscopic
2005	M	57	IT	Bleeding	NA	Yes	Endoscopic
2002	M	23	Pharynx	Sore throat	2 Mo	Yes	Transparotid
1995	M	21	Soft palate	Foreignbody sense	4 Yr	Yes	Transoral
1982	F	26	IT	Nasal obstruction	5 Mo	NA	Transoral
1972	M	22	Pharynx	Dyspnea	4 Mo	NA	NA

만 비부비강의 인후두나 경부 등에 발생한 비인강의 혈관섬유종의 경우는 영양혈관의 확인과 술전 색전술이 필요할 것이다.

비인강외 혈관섬유종의 임상적, 병태생리학적, 발생학적 특성에 대한 충분한 연구가 이루어져 있지 않으며, 예후나 재발 등에 대한 보고도 많지 않다. 추후 비인강외 혈관섬유종의 표준화된 분류나 치료 지침을 마련하기 위해서는 국내외에서 보고된 비인강외 혈관섬유종 증례에 대한 전반적인 메타분석이 필요할 것이다. 본 증례의 경우는 상비갑개에서 기원한 비인강외 혈관섬유종으로 기존에 보고된 바가 없어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이며, 출혈을 주증상으로 호소하지 않더라도 비강내 질기고 단단한 피막을 가진 조형증가 소견을 보이는 종괴가 있는 경우 혈관섬유종의 가능성을 생각해 보아야 할 것이다.

**중심단어 :** 비인강외 혈관섬유종 · 상비갑개

#### 저자역할 (Author Contributions)

손호진, 고재진, 김이혁, 신승현은 본 연구에서 모든 자료에 접근할 수 있으며 자료의 완전성과 자료 분석의 정확성에 책임을 지고 있습니다.  
연구기획 : 신승현. 자료 해석 및 분석 : 신승현, 손호진, 고재진. 논문초안 : 손호진, 고재진. 논문수정 : 김이혁. 연구 총괄 : 신승현.

## REFERECE

- 1) Peloquin L, Klossek JM, Basso-Brusa F, Gougeon JM, Toffel PH, Fontanel JP. A rare case of nasopharyngeal angiofibroma in a pregnant woman. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1997;117:S111-4.
- 2) Cho JH, Kim CS, Ihn YK, Park YJ. A case of extranasopharyngeal angiofibroma of the ethmoid sinus in a 72-year-old man. *Korean J Otolaryngol* 2007;50:268-71.
- 3) Nomura K, Shimomura A, Awataguchi T, Murakami K, Kobayashi T. A case of angiofibroma originating from the inferior nasal turbinate. *Auris Nasus Larynx* 2006;33:191-3.
- 4) Garcia-Rodriguez L, Rudman K, Cogbill CH, Loehrl T, Poetker DM. Nasal septal angiofibroma, a subclass of extranasopharyngeal angiofibroma. *Am J Otolaryngol* 2012;33:473-6.
- 5) Lee DK, Bae WY, Jo KS, Rha SH. Atypical angiofibroma originating from the inferior turbinate. *Korean J Otolaryngol* 2012;55:382-5.
- 6) Huang RY, Damrose EJ, Blackwell KE, Cohen AN, Calcaterra TC. Extran asopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otolaryngol* 2000;56:59-64.
- 7) Windfuhr JP, Remmert S. Extran asopharyngeal angiofibroma: etiology, incidence and management. *Acta Otolaryngol* 2004;124:880-9.
- 8) Lee HM, Lee JM, Kim JK, Nam JG. A case of extranasopharyngeal angiofibroma arising from the inferior turbinate removed without pre-operative embolization. *J Rhinol* 2013;20:119-122.
- 9) Lim DJ, Kang SH, Jung MS, Kim HG. A case of angiofibroma arising from the middle turbinate of an adult woman. *Korean J Otolaryngol* 2005;48:543-6.
- 10) Park YJ, Hwang SJ, Hong JH, Lee BH. A case of extranasopharyngeal angiofibroma of the inferior turbinate. *Korean J Otolaryngol* 2005;48:523-5.
- 11) Rho YS, Park IS, Kim JH, Kim SD. A case of angiofibroma arising in parapharyngeal space. *Korean J Otolaryngol* 2002;45:1105-9.
- 12) Chung YS, Kim JK, Kweon HW, Lee WS, Lee HH. Angiofibroma: an unusual presentation in soft palate. *Korean J Otolaryngol* 1995;38:779-85.
- 13) Kim JJ, Lee KS, Kim KS. A case of angiofibroma in the nasal cavity of the pregnant woman. *Korean J Otolaryngol* 1982;25:209-12.
- 14) Kim JK. A case of angiofibroma in the oropharynx. *Korean J Otolaryngol* 1972;15:69-72.