

구개에 발생한 혈관성 평활근종의 보고

원광대학교 치과대학 구강내과학교실 및 원광치의학연구소¹
원광대학교 치과대학 대전치과병원 구강병리과 및 원광골재생연구소²

강진규¹ · 윤정훈² · 심영주¹

평활근종(leiomyoma)은 평활근에서 발생하는 양성종양으로, 두경부 영역에서는 흔치 않은 질환이다. 구강내 평활근종의 경우 혈관성 평활근종이 가장 흔하다. 구강내 혈관성 평활근종은 비교적 단단하고, 매끈한 표면을 가지며, 경계가 명확하고, 둥글고 돌출되어 있다. 대부분 무통성으로 느리게 성장하기 때문에 환자가 병원을 찾게 될 때까지 수개월에서 수년이 걸리며, 병력 및 임상검사, 방사선학적으로 특징적인 소견을 나타내지 않아 수술 후 병리조직학적 소견으로만 진단이 가능하다. 본 증례는 구개부에 연성종양을 주소로 내원한 53세의 여자 환자에서 종양 적출술을 시행, 병리조직학적으로 혈관성 평활근종으로 확진된 1예를 문헌고찰과 함께 보고한다.

주제어: 구개, 평활근종, 혈관성 평활근종

I. 서 론

평활근종(leiomyoma)은 평활근에서 발생하는 양성 종양으로, 두경부 영역에서는 흔치 않다.¹⁾ 구강내에 발생한 평활근종은 전체의 0.065%로 매우 드문 편이며, 조직학적으로 혈관성 평활근종이 가장 흔하며, 그 빈도는 입술, 구개, 혀, 혀, 혀점막 순이다.²⁾

구강내 혈관성 평활근종은 비교적 단단하고, 매끈한 표면을 가지며, 경계가 명확하고, 둥글고 돔 형태로 돌출되어 있다.³⁾ 대부분 무통성으로 느리게 성장하기 때문에 환자가 병원을 찾게 될 때까지 수개월에서 수년이 걸리기도 하며, 병력 및 임상검사, 방사선학적으로 특징적인 소견을 나타내지 않아 수술 후 병

리조직학적 소견으로 진단이 가능하게 된다.⁴⁾

본 증례는 구개의 연성 종양을 주소로 내원한 53세 여자 환자에서 종양 적출술을 시행, 병리조직학적으로 혈관성 평활근종으로 확진된 1예를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증 례

53세 여자 환자가 언제부터 발생했는지는 알 수 없으나, 약 2주전 치과의사에 의해 발견된 경구개 중앙부위의 0.6 cm x 0.6 cm 크기의 무통성 종양을 주소로 2012년 11월 원광대학교 대전치과병원 구강내과에 내원하였다.

환자는 특기할만한 계기는 없다고 하였으며, 동반된 다른 증상은 없었다. 현재 고지혈증으로 약 복용중이었으며, 그 외 자궁근종을 포함한 특이 과거력, 가족력이 없는 상태로, 임상 검사상 상악 치아를 포함한 구강내 다른 부위 특이소견 없었다. 질은 자주-붉은색의 직경 0.6 cm정도의 크기로 경구개 후방부 중앙부위(median raphe) 근처에 경계가 명확한 모양으로 돌출된 비교적 단단한 종양이었다. 종양의 중앙부위에는 구개부위 소타액선 개구부로 의심되는 orifice가 관찰되었다 (Fig. 1). 환자는 그 부위를 혀로 건드렸을

교신저자 : 심영주

302-120, 대전광역시 서구 둔산로 77,

원광대학교 대전치과병원 구강내과

Tel: 042-366-1127

Fax: 042-366-1115

E-mail: gc21@wku.ac.kr

원고접수일: 2013-04-25

심사완료일: 2013-05-24

*이 논문은 2013학년도 원광대학교의 교비지원에 의해서 수행됨.



Fig. 1. A small well-defined red mass of the palate

때의 이물감 외에는 통증, 감각저하, 출혈, 농 배출 등은 호소하지 않았고 촉진 시에도 출혈, 농 배출은 없었다. 병소 중앙부위의 소타액선 개구부로 의심되는 orifice가 존재하여 타액선 질환으로 의심되었으며, 국소마취 하에 수술도를 이용하여 중앙 적출술을 시행하였다. 완전 절제 후 봉합하였고, 수술 중 출혈은 심하지 않았다.

절제된 조직은 직경 0.5 cm의 견고한 종양으로 표면은 매끈하였고, 절단면은 회백색의 충실성 종양이었다. 조직학적으로 종양은 주위 정상 소타액선 조직과 경계가 명확한 충실성 종양으로, 방추형세포들이 다발을 이루며, 서로 교차하고 있었다 (Fig. 2A). 증식

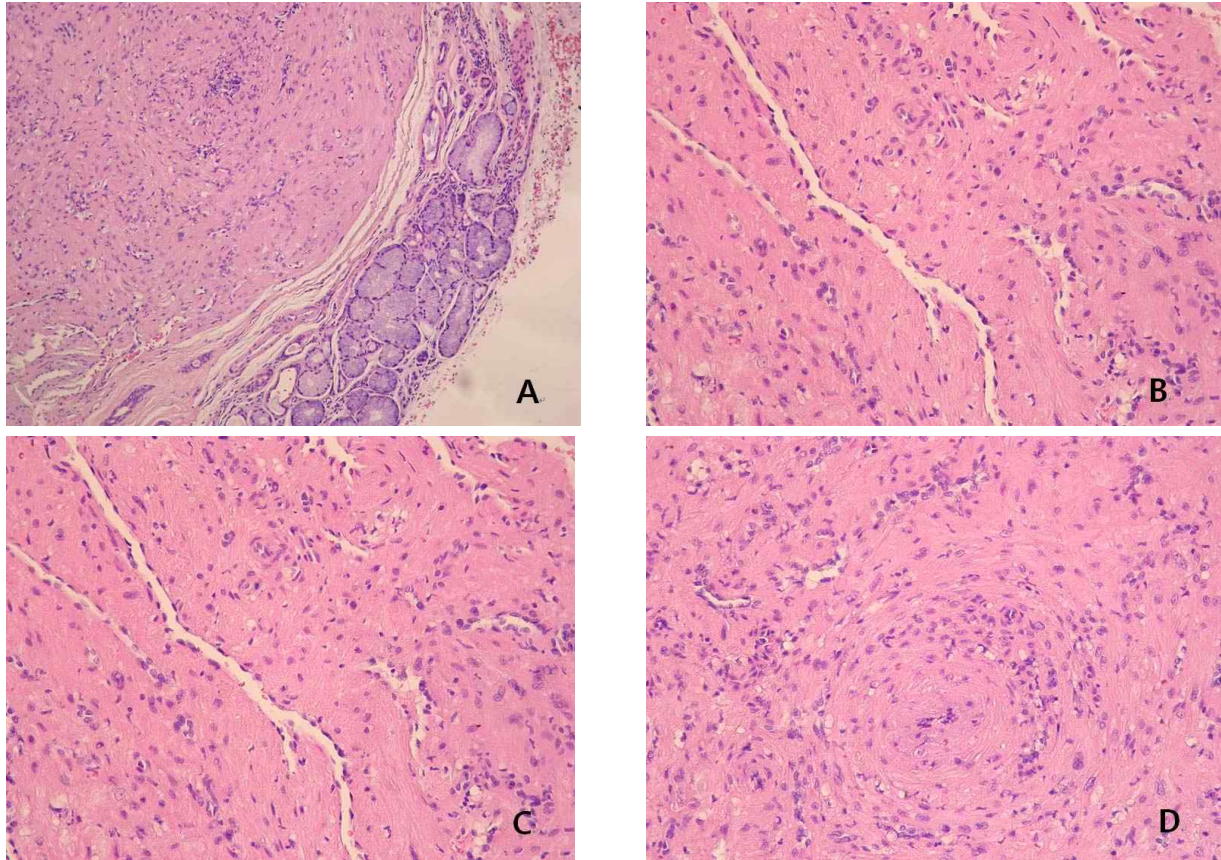


Fig. 2. Histopathological characteristics of the vascular leiomyoma of the palate

- A) Photomicrograph showing a well circumscribed tumor that consists of interlacing bundles of spindle cells.
- B) Photomicrograph showing multiple tortuous blood vessels. The nuclei of spindle cells are elongated, pale staining, and blunt ended.
- C) Thickened blood vessels caused by hyperplasia of their smooth muscle coats.
- D) Immunohistochemistry reveals the tumor cells to be positive for α -smooth muscle actin.



Fig. 3. Two weeks after resection. The palate was healed well.

하는 종양세포의 사이로 불규칙하게 작은 혈관들이 배열하고 있었다 (Fig 2B). 일부 조직에서는 평활근 세포로 인해 두꺼워진 혈관 벽을 보이며 종양세포들은 방추형 내지 상피양 형태를 취하고 있었다 (Fig 2C). 종양세포들은 α -smooth muscle actin에 대한 면역조직화학 염색에 강한 양성반응을 나타내었다 (Fig 2D).

Fig. 3은 절제 후 2주째의 모습으로 잘 치유되고 있는 모습이며, 환자는 특별한 불편감을 호소하지 않았고, 현재까지 재발 소견없이 잘 유지 중에 있다.

III. 고 찰

평활근종(leiomyoma)은 평활근에서 발생하는 양성 종양으로, 평활근이 존재하는 부위이면 신체 어느 부위에서나 발생할 수 있으며, 가장 호발하는 부위는 여성의 생식기이며 (95%), 그 다음이 피부 (3%), 그리고 소화관 등이다.¹⁾ 1973년 Morimoto는 평활근종을 조직학적으로 3가지 유형으로 분류하였고 (solid, venous, and cavernous)⁵⁾ 이것을 World Health Organization에서 수용함으로써 현재는 충실성 평활근종(solid leiomyoma), 혈관성 평활근종(vascular leiomyoma), 그리고 상피양 평활근종(epithelioid leiomyoma)로 분류한다.⁶⁾

구강내 평활근종은 매우 드문데, 이는 구강내에 평활근이 거의 존재하지 않기 때문이다. 평활근종 중에서 구강에는 혈관성 평활근종이 대부분을 차지하는

데 이는 구강내에 혈관이 풍부하기 때문이다. 구강내 평활근종은 혀에서 가장 호발하지만,⁷⁾ 혈관성 평활근종의 경우에는 구순에서 가장 호발하며, 이어서 구개, 혀, 혀점막 순이다.²⁾ 또한 하악 내에 중심성 종양으로 발생한 것도 보고되었다.^{8,9)} 호발 연령은 40-50대 사이로, 인종의 차이는 없고 성별에 따른 빈도는 비슷하나 여성에서 약간 더 많다는 보고가 있다.²⁾

평활근종의 원인 및 발생기전에 대해서는 명백히 알려져 있지는 않지만, 주로 미분화된 간엽 조직에서 발생하거나 혈관벽의 중막층(medial layer)을 구성하는 평활근에서 기원하는 것으로 알려져 있다.¹⁰⁾ 그 외 유곽유두(circumvallate papillae), 설관(ductus lingualis), 이소성 배아 근조직(heterotopic embryonal muscle tissue), 이소성 갑상선관 조직, 그리고 혀부의 평활근종의 구강내 이동 등으로 평활근종이 유발될 수 있다는 보고도 있다.^{7,11,12)}

구강내 혈관성 평활근종은 경계가 명확하며, 둥글고 돌출된 모양을 가지고 있으며, 단단함의 정도는 다양할 수 있으나, 비교적 단단한 양상을 띤다. 표면이 매끄러운 점막으로 덮여 있고 정상점막조직을 보인다. 색깔은 병변의 깊이와 혈관의 분포 정도에 따라 보통 붉거나 보라빛, 또는 푸른빛을 띠며, 경우에 따라 정상점막색인 연분홍색, 하얗거나 회백색의 빛을 띠는 경우도 있다.²⁾ 보통 무통성으로 느리게 성장하며, 크기는 2 mm에서 2 cm정도로 다양하나, 신체활동이나, 알코올 섭취, 온도에 따라서 크기의 변화를 보인다는 증례도 보고되었다.^{13,14)}

중심성 혈관성 평활근종 (central vascular leiomyoma)은 방사선사진에 단방성 또는 다방성의 경계가 명확한 방사선 투과상으로 보이며, 일반적으로 피질골의 변위가 없는 경화성 변연으로 이루어져 있다. 골조직 내에 존재하는 혈관성 평활근종은 하악골 내에 존재하는 혈관의 근육층에서 기원하거나, 하악골 부위로 들어오게 된 평활근의 배아기적 잔존조직 (embryonal rests)에서 유래하는 것으로 보인다.^{15,16)}

본 증례의 경우 구개부에 발생된 혈관성 평활근종으로 자주 또는 붉은 색의 연성 종양으로 임상적으로 표면에 구개의 소타액선 개구부로 생각되는 orifice가 특징적으로 발견되어 생검 전에는 타액선 질환의 하나로 생각되었으며, 무통성의 타액선 개구부 확장을 보이는 것으로 보아 괴사성 타액선 화생의 초기상태 또는 혈관종으로 잠정 진단되었다. 괴사성 타액선 화생은 급성으로 발생하는 소타액선 소엽의 괴사로, 케양이 형성되기 전단계에서는 소타액선 개구부가 확

장되며, 변연이 융기되고, 적색의 병변을 보이는 경우도 있어,¹⁷⁾ 본 증례처럼 타액선 개구부가 관찰될 경우에는 감별해야 한다.

평활근종은 병력 및 임상 소견이나, 세침흡인검사, 방사선 검사로는 특징적인 소견을 나타내지 않아 임상적으로는 확진이 어렵기 때문에 수술 후 병리 조직학적 소견만으로 진단이 가능하다.⁴⁾

병리조직학적 소견은 섬유모세포와 닮은 긴 핵을 가지는 방추형의 세포로 구성되어 있고 긴 핵의 끝은 뾰족해 ‘시가 담배모양’의 핵을 이룬다. 중앙 세포는 평행한 다발모양으로 배열되어 있고, 혈관 내피세포 내강을 중심으로, 원형으로 층층이 둘러싸고 있는 모양이다.¹⁸⁾ 조직학적으로 평활근세포의 증식은 주로 방추형 세포로 이루어진 다른 양성 종양과 유사한데 여기에는 신경섬유종, 신경초종, 결절성 근막염, 그리고 섬유성 조직구종 등이 있다. 평활근세포와 섬유모세포는 H-E 염색에 분홍색을 나타내기 때문에 두 세포의 차이는 Masson trichrome, Mallory’s phosphotungstic acid, 그리고 면역조직화학 염색으로 구별을 한다.¹⁹⁾ Masson trichrome은 청색이나 녹색을 나타내는 섬유모세포의 교원성 구조에서 분홍색을 나타내는 평활근 세포의 세포질 요소를 구분할 수 있게 해주며,¹⁸⁾ 면역조직화학검사에 이용되는 단일항체는 vimetin, desmin, α-smooth muscle actin, CD34, 그리고 S-100 등이 있다. 본 증례에서는 평활근세포로 인해 두꺼워진 혈관 벽을 보이며 중앙세포들은 방추형 내지 상피양 형태를 취하고 있었고, α-smooth muscle actin에 대한 면역조직화학 염색에 강한 양성 반응을 나타내어 혈관성 평활근종으로 진단하였다.

치료는 수술적 완전 절제이며, 재발은 극히 드물어 예후는 매우 좋은 편이다. 또한 아직까지 구강내 혈관성 평활근종이 악성변화를 일으켰다는 보고는 없다. 하지만 구강내에서 발생하는 모든 평활근 기원 종양의 20%는 악성이라는 점에서 악성 소견의 발생여부를 잘 살펴야 한다.⁷⁾

본 저자들은 구개에 발생한 적색 연성 종양의 외과적 절제를 통해 병리조직학으로 혈관성 평활근종으로 확진된 1예를 치험하였고, 현재까지 재발없이 잘 유지되고 있어 보고하였다.

참 고 문 헌

1. Lloria-Benet M, Bagan JV, Lloria de Miguel E, Borja-Morant A, Alonso S. Oral leiomyoma: a case report. *Med Oral* 2003;8(3):215-219.

2. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94(2):221-227.
3. Ramsh P, Annapureddy SR, Jhan F, Sutaria PD. Angioleiomyoma: a clinical, pathological and radiological review. *Int J Clin Pract* 2004;58:587-591.
4. Kim JW, Back SH, Kim DW, Lee BD. Two cases of leiomyoma. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2003;46(8):699-701.
5. Morimoto N. Angiomyoma. A clinicopathological study. *Med J Kagoshima Univ* 1973;24:663-683.
6. Al-Amad SH, Angel C, O’Grady JF, McCullough MJ. Angioleiomyoma on the hard palate. *Oral Oncol Extra* 2006;42:244-246.
7. Hong JE, Lym DK, Heo JH, Yoo CK. A case of vascular leiomyoma of the tongue. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54:347-351.
8. McMillan MD, Ferguson JW, Kardos TB. Mandibular vascular leiomyoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986;62:427-433.
9. Burkes EJ Jr. Vascular leiomyoma of the mandible: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53:65-66.
10. Batsakis JG. Tumors of the head and neck. Clinical and pathological considerations. 2nd ed., Baltimore, 1977, Williams and Wilkins, pp.354-356.
11. Chiang YC, Chen RM, Chao PZ, Yang TH, Lee FP. Glossal vascular leiomyoma. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;136(2):315-316.
12. Epivatianos A, Trigoniadis G, Papanayotou P. Vascular leiomyoma of the oral cavity. *J Oral Maxillofac Surg* 1985;43(5):377-382.
13. McGowan DA, Jones JH. Angioma (vascular leiomyoma) of the oral cavity. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1969;27:649-652.
14. Terui T, Takahashi M, Tagami H. Angioleiomyoma of the lip. *Int J Dermatol* 1987;26:119-120.
15. Suresh L, Matsumura E, Calixto LE, Ruckert E, Aguirre A. Intraosseous angioleiomyoma of the mandible. *Gen Dent* 2007;55(2):132-135.
16. Laffosse JM, Gomez-Brouchet A, Giordano G, Bonneville N, Puget J. Intraosseous leiomyoma: a report of two cases. *Joint Bone Spine*. 2007 Jul;74(4):389-392.
17. Garcia NG, Oliveira DT, Faustino SE, Azevedo AL. Necrotizing sialometaplasia of palate: a case report. *Case Rep Pathol* 2012;2012:679325. doi: 10.1155/2012/679325. Epub 2012 Aug 22.

18. Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP. Contemporary oral and maxillofacial pathology. 2nd ed., New York, 2003, Elsevier Inc., pp. 321-322.
19. Bouquot JE, Nikai H. Lesions of the oral cavity. In Gnepp DR (Ed). Diagnostic surgical pathology of the head and neck. Philadelphia, 2001, WB Saunders, pp. 199-200.

ABSTRACT

Vascular leiomyoma of the palate

Jin-Kyu Kang¹, D.D.S., M.S.D., Jung-Hoon Yoon², D.D.S., Ph.D., Young-Joo Shim¹, D.D.S., M.S.D.

Department of orofacial pain and oral medicine, Daejeon Dental Hospital, Wonkwang Dental research institute, Wonkwang University¹

Department of Oral & Maxillofacial Pathology, Daejeon Dental Hospital, Wonkwang Bone Regeneration Research Institute, Wonkwang University²

Leiomyoma is benign neoplasm of smooth muscle, but it is rare in the oral cavity. The most common type of leiomyoma in the oral cavity is vascular leiomyoma. Clinically, vascular leiomyoma usually grows slowly and is generally a small, painless, sessile, firm and superficial nodule like lesion, and the length of time before patients seek medical attention may span months to years. The diagnosis of oral leiomyoma is possible with only histological studies with special stains because there are no specific clinical and radiological signs. We experienced a 53-year-old woman with palatal mass. She underwent surgical excision and the final pathological result confirmed it to be vascular leiomyoma. We report this case with a review of the related literatures.

Key words: Palate, Leiomyoma, Vascular leiomyoma
