

상악동을 침범하는 역위성 유두종의 증례보고

서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실
*서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실, 치학연구소
**경북대학교 치의학전문대학원 구강악안면방사선학교실
***서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실, 치학연구소 및 BK21
지용화 · 최보람 · 허경희* · 안창현** · 이삼선***

A case report of an inverted papilloma infiltrating into maxillary sinus

Yong-Hwa Ji, Bo-Ram Choi, Kyung-Hoe Huh*, Chang-Hyeon An**, Sam-Sun Lee***

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Seoul National University
*Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Dental Research Institute, School of Dentistry, Seoul National University
**Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Kyungpook National University
***Department of Oral and Maxillofacial Radiology, and Dental Research Institute and BK21, School of Dentistry, Seoul National University

ABSTRACT

The present study reports a case of inverted papilloma of the nasal cavity and infiltrating into the maxillary sinus. Inverted papilloma is an uncommon and locally aggressive benign tumor of the sinonasal region. The patient, 51-year-old male, presented with unilateral nasal obstruction and periodic swelling on the palate without pain. Enhanced CT scan revealed a heterogeneously enhancing solid mass in the nasal cavity and infiltrating into the right maxillary sinus, as well as an incidental, secondarily infected residual cyst in the periapical area of the right maxillary canine. The sinonasal mass was revealed as an inverted papilloma on histopathologic examination. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2009; 39 : 103-7)

KEY WORDS : Inverted papilloma; Maxillary sinus; Diagnostic imaging

동비성 유두종(sinonasal papilloma)은 국소적으로 발생하는 공격적인 양성 종양으로서 2-13%는 악성으로 전이되고, 비강이나 상악동 측벽의 Schneiderian 상피로부터 기원하는 것으로 알려져 있다.^{1,2} 악성 전이를 보이는 대부분이 편평상피세포암이며, 나타나는 시기는 초기와 일차 치료 이후로 다양하다. 조직학적 소견에 따라 진균성, 역위성, 원통성 세 가지로 분류하고 있으며 이중 역위성 유두종이 가장 발생률이 높다.

1994년 Woodruff 등³은 비강과 부비동에 생긴 역위성 유두종의 CT 영상의 특징에 대해 보고한 바 있고 2003년 Lawson 등⁴은 역위성 유두종의 치료 결과에 대해 증례를 발표하는 등 많은 연구가 있었으나, 구강악안면방사선학 분야의 논문으로는 2007년 Bakhshae 등⁵이 비강, 피부, 주

변 골조직의 침윤을 동반한 역위성 유두종에 대해 보고한 것이 유일하다.

이번 증례보고를 통해 구강악안면영역의 문헌에서는 보고가 드물었던 역위성 유두종에 대해 살펴보고, 이 질환의 진단영상학적 특징과 그 감별 진단에 대해 알아보하고자 한다.

증례

51세 남자 환자가 내원 두 달 전부터 우측 입천장 부위에 주기적인 부종의 발생을 주소로 본원에 내원하였으며, 우측 코막힘 증상도 호소하고 있었다. 내원 10여일 전 상악 우측 전치를 발거한 이후 다시 입천장 부위에서 부종이 나타났으며 특별한 동통은 호소하지 않은 상태였다. 20여년 전 타병원에서 부비동 부위에 수술을 받았으며 이때 축농증으로 진단받았다고 하였다.

파노라마 영상과 치근단 방사선영상에서 우측 상악 견

접수일 (2009년 3월 31일), 수정일 (2009년 4월 21일), 채택일 (2009년 4월 28일)
Correspondence to : Prof. Kyung-Hoe Huh
School of Dentistry, Seoul National University, 28 Yeongeon-dong, Jongno-gu, Seoul 110-749, Korea
Tel) 82-2-2072-3498, Fax) 82-2-744-3919, E-mail) future3@snu.ac.kr

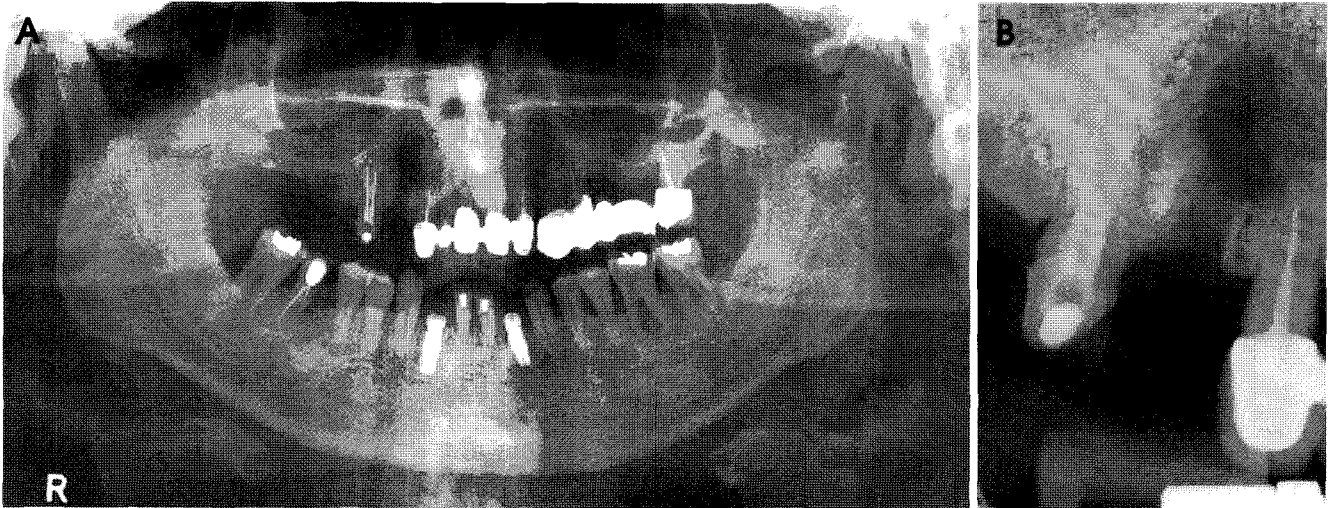


Fig. 1. (A) Although subtle change of increased haziness and sclerotic change is suspected on the right maxillary sinus, no apparent bony destruction or mass effect is noted on panorama. (B) A round radiolucent lesion with a blurred corticated margin, suspected of a secondarily infected residual cyst, is shown.

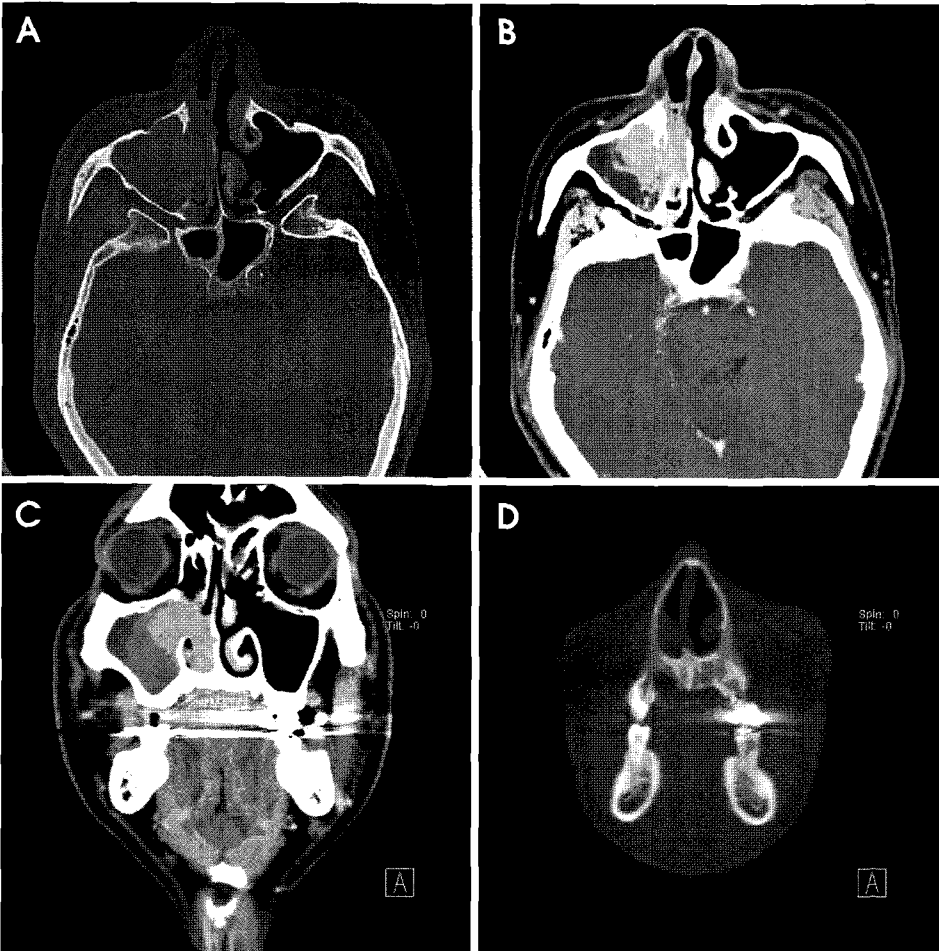


Fig. 2. On enhanced CT scans, heterogeneously enhancing solid mass, destructing the medial wall of the right maxillary sinus, occupies the right nasal cavity and infiltrates into the right maxillary sinus through the ostium (A-D).

치 발치와의 치근단 부위에서 경계가 흐려져 있는 동그란 형태의 방사성투과성을 보이는 낭성 병소가 관찰되었다

(Fig. 1). 한편, 우측 상악동 부위에서는 파노라마 영상에서 좌측과 비교 시 전반적인 방사선불투과성의 증가가 의심

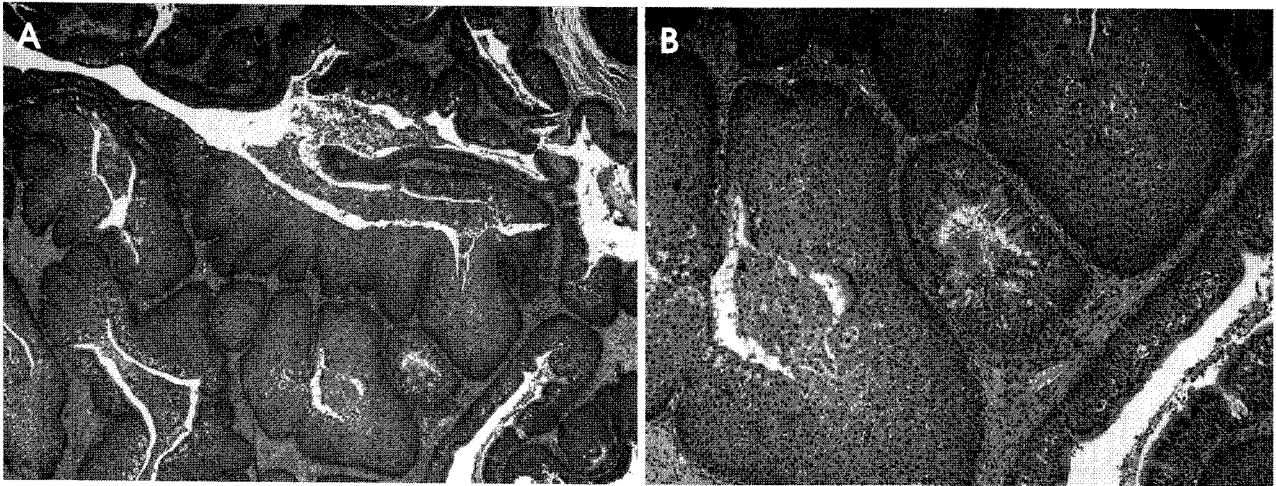


Fig. 3. (A) Photomicrograph demonstrates squamous epithelial proliferation with multiple inverting islands of epithelium extending into the underlying stroma (hematoxylin eosin, original magnification $\times 40$). (B) Goblet cells and microcystic structures containing mucin or neutrophils are present in the proliferating epithelium (hematoxylin eosin, original magnification $\times 100$).

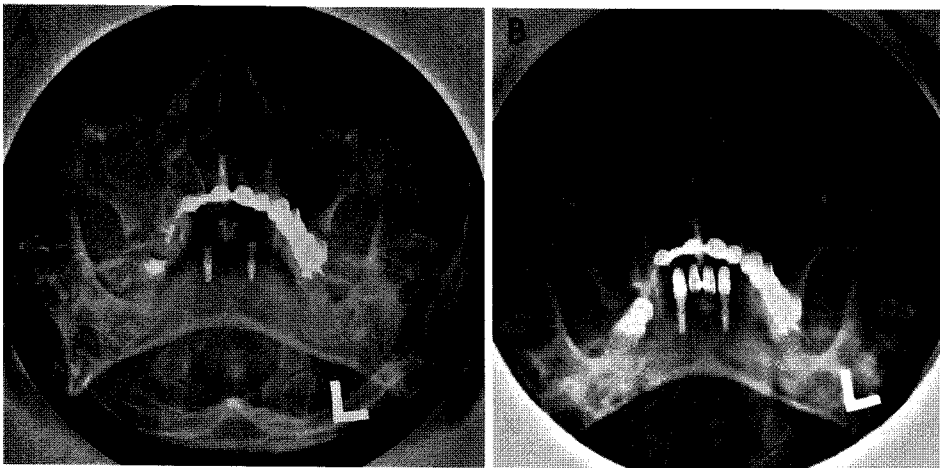


Fig. 4. (A) Waters' view taken 1 day after the operation. (B) Waters' view taken 5 months after the operation reveals increased aeration in the right maxillary sinus and no evidence of recurrence.

되는 소견을 보여주고 있었으나 뚜렷한 낭성 병소나 병적인 골파괴 소견을 발견할 수는 없었다. 입천장 부위의 부종의 원인을 더 정확히 평가해보기 위해 조영증강 CT를 추가로 촬영하였는데, 우측 비강 외측벽에서 비균일한 조영증강을 보이는 충실성의 연조직 종괴 소견이 관찰되었으며, 그것이 우측 상악동의 소공 부위를 확장시키고 내측벽을 소실시키면서 상악동 내로 침범하고 있는 소견이 관찰되었다(Fig. 2). 또한 우측 상악 견치 발치와의 치근단 부위에서는 구개측 피질골의 소실을 동반하면서 경계가 희미해진 잔존낭의 소견이 관찰되었다(Fig. 2d).

우측 비강의 종괴는 부비동에 발생하여 중비갑개와 하비갑개를 포함하면서 비중격과 비강저에 각각 닿아있고, 소공 부위를 통해 상악동 내로 침범하고 있으면서 조영증강 소견을 보이는 연조직 종괴의 양상을 띄어 역위성 유두종의 가능성이 가장 높아 보였으나, 진균성 상악동염과

악성병소도 감별진단에서 완전히 배제하기는 힘든 소견이었다.

우측 상악동과 우측 상악 견치 발치와 부위에서 각각 조직 검사를 시행하였다. 발치외에서는 육아조직으로 구성된 섬유성 반흔 조직이 관찰되어 이차 감염으로 인해 상피가 소실된 잔존낭으로 생각할 수 있었다. 한편, 우측 상악동에서 적출한 조직의 현미경 사진에서는 점막하 결체 조직 안으로 편평 상피의 증식이 일어나 마치 바깥에서 내측으로 합입되어 성장하는 듯한 역위성 유두종의 특징적인 모습이 나타났기에 역위성 유두종으로 진단되었다(Fig. 3).

상악 견치 발치와 치근단 부위의 잔존낭 소파술과 함께 우측 상악동에는 Caldwell-Luc 수술이 시행되었고, 술후 5개월에 촬영된 파노라마와 Waters 영상에서 우측 상악동 하부와 내측벽 부위에서 점막 비후 혹은 술후 반흔으로

생각할 수 있는 방사선불투과성이 국소적으로 관찰되었으나, 상악동 내부의 방사선투과성은 대부분 회복된 소견을 보이고 있었다 (Fig. 4).

고 찰

역위성 유두종은 부비동성 유두종 중 가장 흔한 유형으로서 주변 인접 조직 파괴 및 악성 전이로의 가능성이 높은 것을 특징으로 하고 있다.^{3,6,7} 대부분 중비갑개나 부비동 주위에서 편측성으로 발생하며, 성장 잠재력이 뛰어나 경우에 따라 인두, 눈, 두개저까지 확장되기도 한다.^{4,6} 원인 요소에 대해 명확한 결론은 내려지지 않은 상황이지만 인간 유두바이러스 (Human papilloma virus)가 이 종양의 발생에 관련되어 있는 것으로 보이며, 발병 환자의 75%가 흡연자였다는 연구결과도 있다.^{8,9} 2006년 Papon 등¹⁰은 metalloproteinase 9 양성 반응을 보이는 염증세포의 발현빈도가 역위성 유두종 환자에서 높은 것을 들어 연관성을 주장했으며 2006년 최 등¹¹ 역시 간 세포 성장인자와 c-Met 발현이 증가한 것을 들어 조직면역학적 관련성을 발표하기도 했다.

역위성 유두종은 20대 미만의 젊은 환자에서는 발견하기 힘들며 1994년 Woodruff와 Vrabec의 연구에 의하면 평균 발병 나이는 55세이고 남성 대 여성의 비율이 3:1로 나타났다.³ 비강 측벽에서 기원하여 주변 조직으로 침투해 나가는데 특히 사골동과 상악동이 주된 부위이고 경우에 따라 전두동과 접형동으로 침범한 경우도 있다. 2000년 Krouse는 역위성 유두종의 발병부위 및 전이 정도에 따라 단계를 분류하여 발표한 바 있는데,¹² 그 분류에 따르면 본 증례는 비강에만 국한되지 않고 비록 상악동으로 침범하여 있지만, 사골동 혹은 상악동의 외측벽이나 상악동저까지는 이르지 않았으므로 stage II에 해당한다고 할 수 있다. 하지만, 상악동 내측벽을 국소적이지만 완전히 소실시키고 있어 다소 공격적인 양상의 종양 소견을 나타내고 있었으며, 이런 특징으로 인해 진단영상에서는 악성으로의 변이 가능성을 완전히 배제하기는 힘들었고 추후 술후 재발 가능성도 고려해야 할 것으로 생각되었다.

역위성 유두종의 영상 진단은 CT, MRI, 파노라마와 치근단 영상을 통해 이루어지는데 1999년 Damman 등은 121개의 CT 영상을 통해 발생 부위, 크기, 표면 모양, 골 변화 등을 조사하였으며 편측으로 발생하는 엽 (lobule) 모양의 연조직 덩어리가 역위성 유두종일 확률이 높음을 주장한 바 있다.¹ 2007년 Head 등은 CT 영상이 특히 원발성 역위성 유두종의 진단에 유용하며 질병과 관련되어 나타난 비정상 소견의 90% 가량을 찾아낼 수 있었다고 발표한 바 있다.¹³ 그 이후 2008년 Sham 등은 CT 영상만으로는 주병의 염증성 병소와 종양을 구별할 수 없음을 들어 MRI의 필요성을 강조하기도 했다.¹⁴ 본 증례의 경우, 파노라마와

치근단 영상만으로는 우측 비강과 상악동에서 뚜렷한 종괴의 소견을 발견할 수는 없었으며, 조영증강 CT를 통해서 명확히 확인할 수 있었다. 만약, 조영증강 CT가 아닌 일반 CT를 촬영하였다면 종괴 내부의 조영증강 소견을 확인할 수 없었을 것이므로 진균성 상악동염에서 보이는 소견과 매우 유사하여 감별 진단이 매우 힘들었으리라 생각되며, 따라서 후비공 용종이나 진균성 상악동염 등의 염증성 질환과의 감별을 위해서는 조영증강 영상이 꼭 필요하다고 할 수 있겠다.

본 증례의 환자는 코막힘 외에 입천장 부위의 부종을 주된 증상으로 호소하고 있었는데, 입천장 부위의 부종은 역위성 유두종이 비강저와 상악동저를 침범하지는 않았으므로 그에 의한 것이 아니라 이차 감염된 잔존낭에 의한 것으로 생각할 수 있었다. 본 증례는 임상적으로 오히려 구개 부위의 종양을 의심하여 조영증강 CT를 촬영하였던 경우로, 일반 방사선사진에서는 확인이 힘들었던 비강과 부비동의 종괴를 확인할 수 있게 되어 비로소 코막힘의 증상이 재발된 상악동염이나 술후 상악낭과 관련된 것이 아님을 알 수 있었다. 일반적으로 역위성 유두종의 임상증상은 본 증례의 경우처럼 편측성 코막힘이 전체 환자의 80% 이상에서 나타나는 주된 징후이고 그 외에 상악동염, 비출혈, 안면 동통, 복시, 안면무감각증, 고름배출 등이 나타나는 것으로 알려져 있다. 이러한 증상이나 징후는 보통 수술에서 수년까지 다양한 기간을 통해 나타나지만 평균 2-3년 정도이다.^{3,7}

유두종은 단단하거나 부드러운 핑크색의 결정성 연조직 덩어리로서 종류에 따라 다양한 크기를 지니고 있다. 누두 폐쇄를 나타내며 중비갑개에 중심을 둔 3cm 이하의 작은 덩어리에서부터 비강 전체를 차지하며 주변 부비동을 파괴하거나 폐쇄시키는 3cm 이상의 큰 덩어리까지 다양하다. 만약 크기가 커지게 되면, 주변 조직의 뼈들은 얇아지거나 변형되고 흔치 않게 경화성 소견을 보이게 되는데 이러한 골성 변화는 후기에 비강 측벽을 따라 현저하게 나타난다. 이러한 경화성 소견과 관련지어 2007년 이 등은 CT 영상에서 나타나는 국소적인 과골성 소견이 실제 종양의 89.1%에서 나타났고 그 형태 역시 발생 부위에 따라 다르게 나타남을 발표한 바 있다.¹⁵ 본 증례에서도 종괴 주위의 비강벽과 상악동벽에서 과골성 소견이 관찰되었는데, 이는 종괴로 인해 직접적인 경화성 변화를 일으켰다고 보다는 상악동 소공이 폐쇄되어 우측 상악동 내부에서 만성 염증성 소견이 오랜 기간 지속된 결과로 생각되며, 그러한 변화로 인하여 영상에서 진균성 상악동염 등 골소실을 동반하는 염증성 소견과의 감별을 더욱 어렵게 하는 것으로 생각할 수 있다.

조직병리학적으로 살펴보면 역위성 유두종은 주위 결체 조직의 점막하기질 안으로 편평상피가 증식하면서 여러 개의 “역위성” 섬을 만들어내는 것을 특징으로 한다. 드문 경

우 술잔세포(goblet cell)나 점액 함유 미세낭종(mucin filled microcysts)들이 상피 내부에서 발견되기도 한다. 케라틴 생성은 흔치 않으나 얇게 표면의 케라틴화가 관찰되기도 한다.

추천되는 치료법으로는 외과적 절개와 광범위한 절개를 동반하는 외측 비절개술을 통한 내측 상악골 절제술이 있다. 수술 방법은 병소의 크기와 위치 및 주변 전이 조직에 따라 선택적으로 결정되며 재발 가능성은 절개 범위에 따라 5-50% 정도로 다양하다. 이러한 높은 재발률 때문에 2007년 Mendenhall 등은 술후 방사선 요법이 대부분의 환자에서 필요하다고 주장하였다.²

역위성 유두종의 감별진단에 포함될 질환들은 흔한 염증성 질환부터 종양까지 다양하다. 본 증례의 환자는 20여 년 전 상악동 수술을 받은 적이 있었기에 임상적으로 술 후 상악낭도 의심되었으나, 조영증강되는 충실성의 종괴가 관찰되어 감별진단에서 제외할 수 있었다. 또한 염증성 질환 중 후비공 용종을 생각할 수 있는데, 이는 다방성으로 나타나는 경우가 많고 골 변위나 팽윤이 드물게 동반되기는 하나 골 파괴는 일으키지 않으며 거의 10대나 어린 나이에서 발견된다. 진균성 상악동염의 경우는 해당 부위 상악동 벽을 부식시키는 특성을 지니고 있고 특히 발생 부위가 상악동 내측벽으로 비강을 침범하는 경우가 많아 역위성 유두종과 유사한 소견을 보이나, 본 증례에서는 조영증강되는 충실성 종괴를 확인할 수 있었기에 제외할 수 있었다. 유아성 혈관섬유종의 경우는 어린 나이 특히 20대에 주로 발병하고, 출혈이 많으며, 비강 뒤쪽의 접형구개와에 중심을 두고 있는 경우가 많다는 점에서 제외할 수 있겠고, 유두종의 악성 변화 형태인 편평상피세포암의 경우는 보다 광범위한 골파괴 특성을 지니고 있기에 제외할 수 있겠다. 하지만, 초기의 악성 변이 상태에서는 그 감별이 매우 어려울 수 있을 것으로 생각된다.

결론적으로 상악동과 비강을 동시에 채우고 있으면서 골 소실도 동반하는 연조직 괴가 관찰되는 경우에는 감별진단 시 역위성 유두종의 가능성을 고려할 필요가 있으며, 골 파괴를 동반하면서 주위 조직으로의 침범이나 악성 변이의 가능성이 매우 높으므로 수술 시 혹은 수술 후에도 세심한 주의가 필요하다고 할 수 있다.

참 고 문 헌

1. Dammann F, Pereira P, Laniado M, Plinker P, Lowenheim H, Claussen CD. Inverted papilloma of the nasal cavity and the paranasal sinuses: using CT for primary diagnosis and follow up. *Am J Roentgenol* 1999; 172 : 543-8.
2. Mendenhall WM, Hinerman RW, Malyapa RS, Werning JW, Amdur RJ, Villaret DB, et al. Inverted papilloma of the nasal cavity and paranasal sinuses. *Am J Clin Oncol* 2007; 30 : 560-3.
3. Woodruff WW, Vrabec DP. Inverted papilloma of the nasal vault and paranasal sinuses: spectrum of CT findings. *Am J Roentgenol* 1994; 162 : 419-23.
4. Lawson W, Kaufman MR, Biller HF. Treatment outcomes in the management of inverted papilloma: an analysis of 160 cases. *Laryngoscope* 2003; 113 : 1548-56.
5. Bakhshae M, Talebmehr M, Taiebi Meibod N, Razmara N. A case of neglected inverted papilloma with invasion to the skin. *Dentomaxillofac Radiol* 2007; 36 : 245-86.
6. Chhetri DK, Gajjar NA, Bhuta S, Andrews JC. Pathology forum. case 2. Schneiderian-type papilloma of the middle ear. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2001; 127 : 79-82.
7. Jardine AH, Davies GR, Birchall MA. Recurrence and malignant degeneration of 89 cases of inverted papilloma diagnosed in a nontertiary referral population between 1975 and 1995: clinical predictors and p53 studies. *Clin Otolaryngol Allied Sci* 2000; 25 : 363-9.
8. Buchwald C, Franzmann MB, Jacobsen GK, Lindeberg H. Human papilloma virus (HPV) in sinonasal papillomas: study of 78 cases using in situ hybridization and polymerase chain reaction. *Laryngoscope* 1995; 105 : 66-71.
9. Weiner JS, Sherris D, Kasperbauer J, Lewis J, Li H, Persing D. Relationship of human papillomavirus to schneiderian papillomas. *Laryngoscope* 1999; 109 : 21-6.
10. Papon JF, Lechapt-Zalcman E, Abina M, Abd-al-Sama I, Peynègre R, Escudier E, et al. Matrix metalloproteinase-2 and -9 expression in sinonasal inverted papilloma. *Rhinology* 2006; 44 : 211-5.
11. Choi JH, Lee SH, Lee HM, Lee SH, Jung HH, Choi J, et al. Expression and localization of hepatocyte growth factor and its receptor c-Met in inverted papillomas. *Acta Otolaryngol* 2006; 126 : 724-9.
12. Krouse JH. Development of a staging system for inverted papilloma. *Laryngoscope* 2000; 110 : 965-8.
13. Head CS, Sercarz JA, Luu Q, Collins J, Blackwell KE. Radiographic assessment of inverted papilloma. *Acta Otolaryngol* 2007; 127 : 515-20.
14. Sham CL, King AD, van Hasselt A, Tong MC. The roles and limitations of computed tomography in the preoperative assessment of sinonasal inverted papillomas. *Am J Rhinol* 2008; 22 : 144-50.
15. Lee DK, Chung SK, Dhong HJ, Kim HY, Kim HJ, Bok KH. Focal hyperostosis on CT of sinonasal inverted papilloma as a predictor of tumor origin. *Am J Neuroradiol* 2007; 28 : 618-21.