

이하선 타석증 병발로 오인된 교근 내 혈관종 1예

서영욱¹ · 신승호¹ · 서자영² · 변형권^{1*}

연세대학교 의과대학 이비인후과학교실¹, 병리학교실²

Intramuscular Sinusoidal Hemangioma of the Masseter Muscle with Organizing Thrombus Preoperatively Mimicking Coincidental Parotid Sialolithiasis

Young Wook Seo, MD¹, Seung Ho Shin, MD¹, Ja Yeong Seo, MD², Hyung Kwon Byeon, MD, PhD^{1*}

Department of Otorhinolaryngology¹, and Pathology², Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

= Abstract =

Hemangioma is the most common benign tumor in neonatal and infant stage. In the head and neck region, the lesion mostly occurs in the masseter, trapezoidal or sternocleidomastoid muscle. Due to its rarity and non-specific symptoms, it is difficult to diagnose precisely. Intramuscular hemangioma can be misdiagnosed as sialolithiasis of the parotid gland. There are several treatment options for hemangiomas such as sclerotherapy, radiotherapy, embolization, and surgery.

Of all these, definitive surgical resection is considered most effective in preventing future recurrence. Here we report a case of intramuscular hemangioma that was detected in the patient's right masseter muscle which was initially misdiagnosed as parotid sialolithiasis and was consequently managed with surgical resection.

Key Words : Intramuscular hemangioma, masseter muscle, masson's lesion

서론

혈관종(Hemangioma)은 신생아기와 유아기에서 관찰되는 종양 중 가장 흔한 것으로, 대부분 12세 전후로 자연 소실되는 것으로 알려져 있다.^{1,2)} 근육 내 혈관종은 Linston에 의해 1843년 처음 보고되었으며, 두경부에서는 교근(Masseter m.)과 승모근(Trapezoidal m.)에서 가장 흔하게 발생하는 것으로 알려져 있다. 근육 내 혈관종은 흔치 않은 질환이며, 증상 또한 비특이적이므로 진단이 쉽지 않은 질환이다. 이전에 국내외에서 교근 내 혈관종을 보고한 사례가 많지 않다. 이에 본 저자들은 이하선 타석증

이 병발된 것으로 오인된 우측 안면부의 종물로 내원하여 수술 후 교근 내 혈관종으로 진단한 환자 1예를 보고하고자 한다.

증례

17세 여자 환자가 우측 안면부의 종물을 주소로 내원하였다. 수 년 전부터 우측 교근 주위로 만져지는 종물이 있어 3년 전 타대학 병원 내원하여, 혈관종 의심 하에 경과 관찰 및 추후 수술적 치료 고려하기로 하였으나, 최근 크기 증가 소견 및 저작 시의 통증 발생하여 내원하였다. 환자는 유년기에 갑상선 기능 저하증으로 약물 치료 받았던 것 외 특이 과거력은 없었으며, 흡연 및 음주 과거력 또한 없었다. 신체 문진 상 우측 교근 주위에서 약 3cm 크기의 부드럽고 움직임이 있으며, 무통성의 종물이 촉진되었다. 양수축진 시에 우측 협부공간(buccal space) 내 딱딱하게 촉진되는 결절양 병변이 확인되었다.

Received: April 18, 2017

Revised: May 10, 2017

Accepted: May 15, 2017

*Corresponding author: Hyung Kwon Byeon, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology, Yonsei University College of Medicine, 50 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, 03722, Seoul, Korea
Tel: +82-2-2228-3600 Fax: +82-2-393-0580

E-mail: ewell@yuhs.ac, ewellcastle@gmail.com



Fig 1. Preoperative facial image photographs of the patient. Facial weakness was not detected.



Fig 2. A relatively well delineated mass lesion with multiple enhancing foci was noted within the right masseter muscle on neck CT.

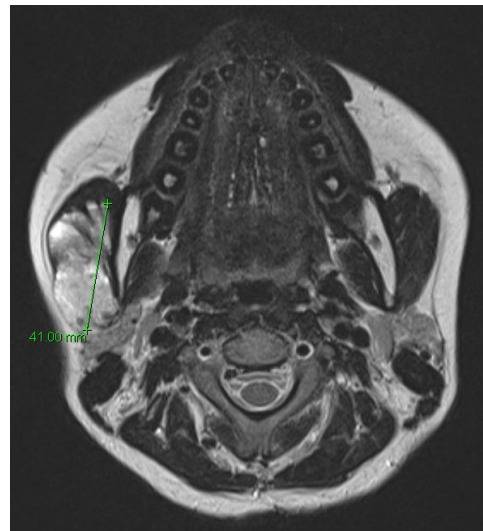


Fig 3. A 4.1cm lobulated heterogenous mass in the right masseter muscle was detected on T2 weighted MRI.

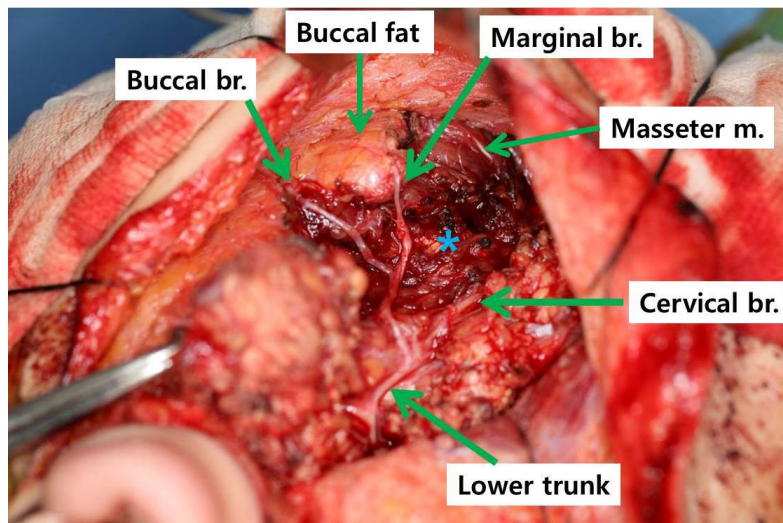


Fig 4. All branches of the facial nerve were preserved after resection of mass which was located within the masseter muscle (asterisk).

또한 우측 안면부의 비대 소견은 있었으나 안면 마비는 관찰되지 않았다(Fig. 1). 협부공간 내의 경성 결절양 병변 및 저작 시의 통증으로 이하선 타석증의 가능성을 고려하였으며, 그 외 혈관종의 가능성을 고려하며 추가적인 영상학적 검사를 시행하였다.

타병원에서 3년 전 내원 당시 시행한 경부 컴퓨터 전산화 단층 촬영(Neck CT) 소견 상 우측 교근의 측면에 위치한 3cm 크기의 국소 조영 증강 소견을 보이는 종물이 관찰되었다(Fig. 2). 본원 내원 후 시행한 경부 자기공명 영상(Neck MRI) 상 T2 강조 영상에서 4.1cm 크기의 비균질한 엷성의 종물이 우측 교근 내에 위치하고 있었다. 또한 T2 강조 영상에서 일부분 저신호강도를 보이는 부



Fig 5. Photograph of surgical specimen.

분들이 관찰되었으며, 이는 혈전증(Thrombosis) 또는 정맥석(Phlebolith)에 합당한 소견이었다(Fig. 3). 이를 바탕으로 혈관림프성 기형 의심하였으며, 이하선 타석증 또한 이차적 진단으로 고려하였다. 환자의 저작 시 통증 및 최근 크기 증가 소견에 따른 미용 상의 문제로 수술적 치료를 계획하였다. 혈관종의 치료에 있어 색전술은 필수적이진 않으며, 병변의 크기로 보아 수술적 치료만으로 완전 절제를 충분히 기대할 수 있었다. 수술 전 혈액 및 심전도, 흉부 촬영 상 특이 이상 소견은 없었다.

내원 1개월 후 전신 마취 하에 절제술을 시행하였다. 변형 안면 거상술(Modified Facial Lift)을 이용하여 광경근하 피관(Subplatysmal skin flap)을 거상하였으며, 교근까지 노출시켰다. 이주점(Tragal point)과 안면 신경의 주줄기를 확인한 후 각 분지 신경을 확인하였다(Fig. 4). 종물은 교근 내에 위치하고 있었으며 4 x 3cm 크기로 관찰되었다(Fig. 5). 안면신경의 변연하악지(Marginal br.)와 협부지(buccal br.)가 종물과 맞닿아 있었다. 모든 안면신경 분지들은 박리하여 종물을 절제하였으며, 안면신경 분지들은 모두 손상 없이 보존하였다. 이후 수술 부위 세척, 지혈 후 배액관을 넣고 봉합하여 수술을 종료하였다.

병리 조직 검사 결과, 검체 조직은 5.2 x 2.2 x 0.6cm 크기였으며, 혈전증 형성을 동반한 근육 내 굴모양 혈관종(Intramuscular sinusoidal hemangioma)에 합당한 소견이었다(Fig. 6).

환자는 수술 후 안면 마비 등의 이상 소견 없이 수술

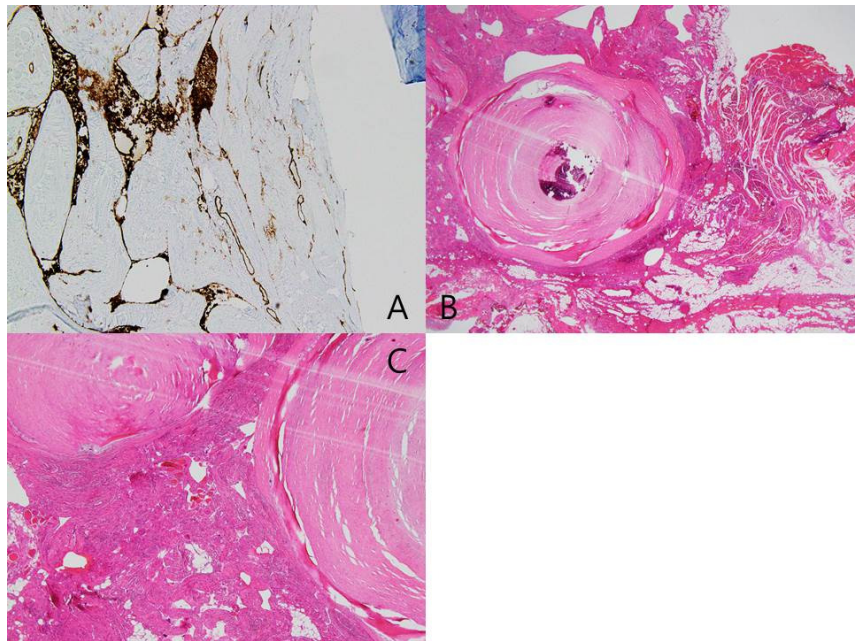


Fig 6. [A] CD31 immunohistochemical staining reveals endothelial cells. (CD31, x200), [B] Vascular spaces with thrombus formation in-between muscle bundles lined by a single layer of endothelium. Concentric fibrosis and dystrophic calcification within vascular lumen are seen. (Hematoxylin and eosin stain, x12.5), [C] Note the atrophic skeletal muscle fibers entrapped between vascular spaces. (Hematoxylin and eosin stain, x40)

후 7일 째 퇴원하였으며, 술 후 3개월 째 특이 소견 없이 외래 추적 관찰 중이다.

고찰

굴모양 혈관종(Sinusoidal hemangioma)의 개념은 1991년 Calonje와 Fletcher, 두 병리학자에 의해 처음 기술되었다. 조직학적 소견은, 확장된 채로 상호연결(Interconnecting)된 혈관으로 이루어진 엽성 구조물(Lobular architecture)이며, 해면동 혈관종(Cavernous hemangioma)의 한 부류로 분류된다. 병리 조직학적으로 혈관 내강 내에 내피세포(Endothelial cell)가 유두돌기(Papillary projection) 모양으로 증식한 소견은 1923년 Pierre Masson에 의해 처음 기술되어, 이후 그와 같은 소견을 보이는 병변을 Masson's lesion으로 정의하고 있으며, Masson's tumor, Masson's hemangioma 등으로도 불리고 있다.³⁾ Masson's lesion은 피부와 연조직에 발생하는 흔치 않은 양성 혈관성 질환이며, 주로 두경부와 사지 영역에서 호발하는 것으로 알려져 있다.⁴⁾

전체 근육 내 혈관종 중의 15%가 두경부 영역에서 발생하는 것으로 알려져 있으며, 교근, 승모근, 흉쇄유돌근 등의 순으로 호발한다. 이 중 교근에 발생하는 혈관종은 남자에서 3배 호발하는 것으로 보고된 바가 있다.⁵⁾ 근육 내 혈관종은 일반적으로 양성이고 과오증성(Hamartomatous) 성장을 보이며, 오랜 기간 관찰되지 않다가 특정 시점에서 급속히 성장하여 통증 또는 미용적인 문제를 일으켜 발견되는 경우가 많다. 원인에 대해선 알려진 바가 없지만, 젊은 연령에서 호발하는 경향으로 미루어 보아 선천성 질환일 가능성이 높은 것으로 알려져 있다. 본 증례에서도 특이 과거력 없는 젊은 여성에서 갑자기 만져지는 종물이 최근 들어 크기가 커져서 내원하였다.

진단을 위해서는 정확한 신체 문진과 병력 취취가 필수적이다. 본 증례에서는 외래 진찰 시의 신체 소견 상 이하선 타석증의 가능성을 고려하였으며, 혈관종을 비롯한 기타 양성 종양의 가능성 또한 고려하여 추가적인 검사를 시행하였다. 수술 전 세침흡인 검사는 진단에 단서를 제공하지 못 하는 경우가 많으므로 기본적으로 시행하지는 않는 것이 일반적이며, 세침흡인에 의해 출혈의 가능성이 있으므로 술 전 조직학적 소견이 필요한 경우에만 시행하는 것이 권유된다. 본 증례에서는 수술 전 세침흡인 검사는 시행하지 않았다. 수술 전 종양의 성격, 치료 범위를 파악하기 위해 컴퓨터 전산화단층촬영과 자기공명영상촬영을 시행하게 되며, 큰 혈관에 의한 증상이 동반될 경우 혈관조영술을 시행하는 것이 도

움이 된다. 정맥석은 흔치 않은 질환 소견이며, 주로 혈관성 기형과 관련된 질환에서 나타난다. 이하선 근처에 위치한 정맥석은 이하선의 타석증으로 오인되는 경우가 많다. 이하선 타석증과 비교하여, 정맥석은 주로 다발성이고 불규칙적인 분포를 나타내며, 막성 구조(lamellated)를 띤다.⁶⁾ 타석증은 자기공명영상 T2 강조영상에서 비균질(Heterogenous)의 고신호 강도를 보이는 종괴에 합당한 소견을 보이게 되며, 혈전증과 정맥석 등은 T2 강조영상에서 저신호 강도를 보인다.

근육 내 혈관종의 치료 방법은 환자의 병변의 상태에 따라 스테로이드 치료, 방사선 치료, 경화제 주입술, 색전술, 냉동 치료 등과 수술적 절제 등이 있다. 이중 병변의 완전한 제거 및 추후 재발을 피하기 위해서는 수술적인 치료가 원칙이다.⁷⁾ 본 증례에서는 환자의 병력 상 갑작스럽게 크기가 증가하면서 미용적 문제가 있었고, 동통이 생겨 불편감을 유발하였기 때문에 적극적 치료를 결정하였으며, 혈전 및 정맥석이 동반된 상태로 다른 치료 방법 보다는 수술적 치료를 계획하였다. 광범위 절제술 이후 국소 재발률은 9~28% 정도로 보고되고 있다.⁸⁾ 본 저자들은 변형 안면 거상술을 통해 접근하여 안면신경 분지를 보존하며, 병변과 주변 근육을 포함한 완전 절제를 시행하였다. 병변의 완전한 절제로써 재발을 최소화함과 동시에 변형 안면 거상술 절개를 통해 미용적으로 우수하고, 안면 신경 분지의 손상 없이 기능적으로도 양호한 결과를 보여 환자의 만족도를 높일 수 있었다.

중심 단어 : 근육 내 혈관종, 교근, Masson씨 병변

References

- 1) Liston R. Case of erectile tumour in the popliteal space.— Removal. *Medico-chirurgical transactions* 1843;26:120-32.
- 2) Yeo CK. Cavernous Hemangioma of the Masseter Muscle. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2006;49(6):669-71.
- 3) Halawar SS, Venugopal R, Varsha BK, Kavya BM. Intramuscular sinusoidal hemangioma with Masson's lesion. *Journal of Oral and Maxillofacial Pathology : JOMFP* 2013;17(2):315-7.
- 4) Makos CP, Nikolaidou AJ. Intravascular papillary endothelial hyperplasia (Masson's tumor) of the oral mucosa. Presentation of two cases and review. *Oral Oncology Extra* 2004;40(4-5):59-62.
- 5) Kumar L.K S, Kurien NM, Venugopal K, Nair PR, Mony V. Intramuscular hemangioma of the masseter muscle- a case report and review of literature. *International Journal of Surgery Case Reports* 2016;26:209-16.
- 6) Gordon JS, Mandel L. Masseteric Intramuscular Hemangioma: Case Report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery* 2014;72(11):2192-6.

7) Kim J-R, Kim S-J, Kang B, Woo J-S. *Intramuscular Hemangioma of the Sternocleidomastoid Muscle: An Unusual Neck Mass. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2017;0(0).

8) Makeieff M, Maurice N, Mondain M, Crampette L, Guerrier B. *Intramuscular hemangioma of posterior neck muscles. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2001;258(1):28-30.