

# 침습성 국균증과 동반된 침윤형 비부비강 혈관지방종 1예

경상대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실,<sup>1</sup> 건강과학연구원,<sup>2</sup>

서울대학교 의과대학 이비인후과학교실<sup>3</sup>

장동엽<sup>3</sup> · 김대우<sup>3</sup> · 전시영<sup>1,2</sup> · 김상욱<sup>1,2</sup>

## A Case of Infiltrating Sinonasal Angiolipoma Accompanied by Invasive Aspergillosis

Dong-Yeop Chang, MD<sup>3</sup>, Dae Woo Kim, MD<sup>3</sup>, Sea-Yuong Jeon, MD<sup>1,2</sup> and Sang-Wook Kim, MD<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Department of Otorhinolaryngology; Gyeongsang National University School of Medicine;

<sup>2</sup>Institute of Health Sciences, Jinju; and <sup>3</sup>Department of Otorhinolaryngology,

Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

### — ABSTRACT —

Angiolipoma is a benign adipose tissue tumor with marked vascular proliferation, which differentiates angiolipoma from common lipoma. Angiolipoma rarely occurs in head and neck regions. This is the first report on infiltrating angiolipoma arising from the pterygopalatine fossa accompanied by invasive aspergillosis. A 61-year-old male presented with diplopia which occurred after head trauma. An ill-defined mass originated from right pterygopalatine fossa was incidentally found by magnetic resonance imaging. The mass was removed via endonasal endoscopic approach combined with Caldwell-Luc approach. It was partially removed because the mass was firmly adhered to surrounding normal tissues and was adjacent to the right cavernous sinus. Pathologic examination confirmed the diagnosis of angiolipoma. Additionally, it unexpectedly revealed the presence of fungal hyphae inside the tissue obtained from right lamina papyracea. Following an antifungal medication for 6 months after surgery, the patient currently shows no evidence of invasive fungal infection at postoperative 9 months. (J Clinical Otolaryngol 2012;23:258-261)

**KEY WORDS** : Angiolipoma · Aspergillosis · Nose · Paranasal sinus neoplasm.

## 서 론

혈관지방종(angiolipoma)은 드문 양성 종양으로 성숙

논문접수일: 2012년 9월 24일

논문수정일: 2012년 10월 9일

심사완료일: 2012년 10월 31일

교신저자: 김상욱, 660-702 경남 진주시 강남로 79

경상대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

전화: (055) 750-8177 · 전송: (055) 759-0613

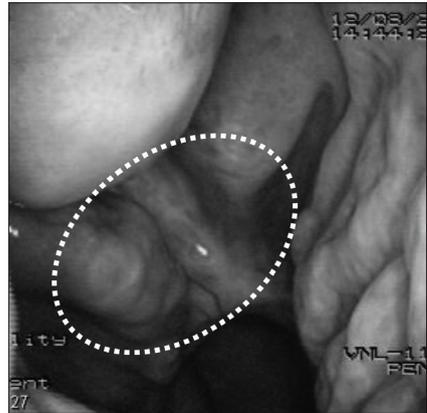
E-mail: astroflower77@hanmail.net

한 지방조직과 증식한 혈관으로 이루어져 있다.<sup>1)</sup> 혈관지방종은 지방종 중 5~7%를 차지하고, 젊은 성인에서 흔하며,<sup>2,3)</sup> 2/3에서 체간과 사지의 피하조직에서 발생한다.<sup>1,2)</sup> 혈관지방종 자체가 매우 드문 종양이며, 두경부의 혈관지방종은 더욱 드물게 발생하여, 현재까지 국제적으로 보고된 증례도 20예 이내이다.<sup>4)</sup> 특히 익구개와에서 접형동에 이르기까지 주변 조직을 침습하는 양상을 보이며 침습성 국균증을 동반한 혈관지방종은 보고된 바가 없다. 저자들은 최근 혈관지방종으로 진단된 종괴 제거후 병리검사서 우연히 침습성 진균증이 확인되어 항진균제로

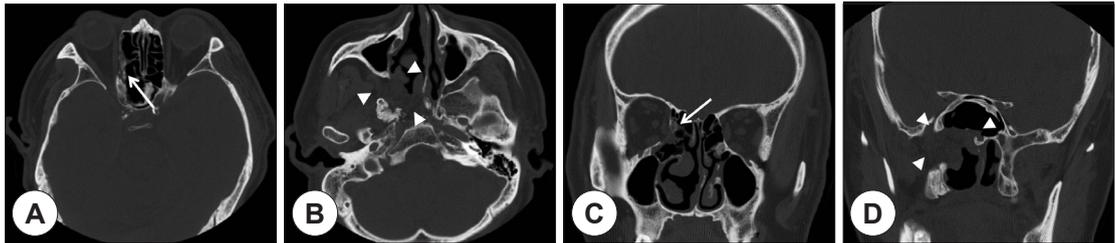
치료한 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증례

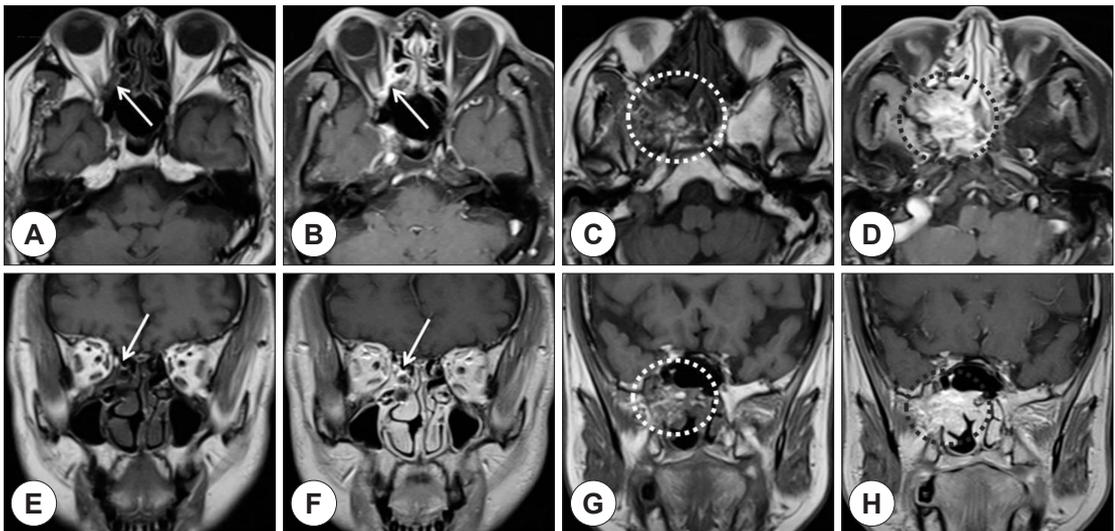
61세 남성이 내원 5일 전에 두부 외상 후 발생한 복시(diplopia)를 주소로 방문하였다. 두부 손상의 평가를 위해 촬영한 전산화단층촬영에서 우측 비인두, 익구개와, 사골안와판, 비중격과 접형동에 걸친 종괴 소견이 우연히 발견되었으며(Fig. 1) 이 종괴는 자기공명영상(magnetic resonance image)에서 조영증강이 잘 되는 소견을 보였다(Fig. 2). 비내시경 검사에서 정상 점막을 보이는 우측 비강 외측벽의 비특이적 돌출 소견(Fig. 3) 외에 신체검



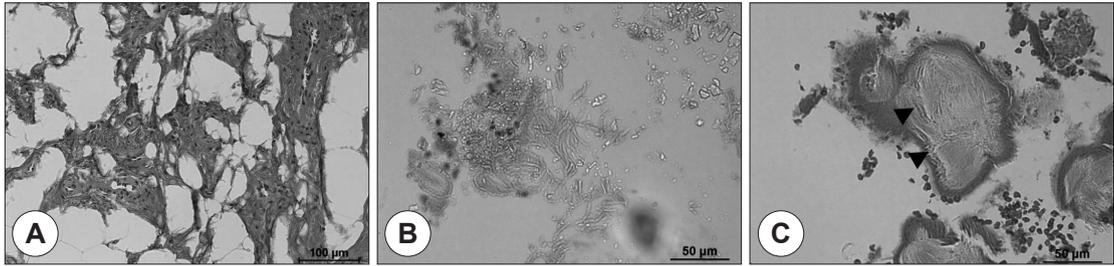
**Fig. 3.** A preoperative nasal endoscopic photograph. Nonspecific bulging in the lateral nasal wall is depicted (dotted circle).



**Fig. 1.** Representative preoperative non-enhanced computed tomography images in axial (A, B) and coronal (C, D) planes. Soft tissue density lesions spread along the right lamina papyracea (arrow)(A, C). Those in the right pterygopalatine fossa invaded into the lateral and inferior walls of the right sphenoid sinus, and the upper nasal septum (arrow heads)(B, D).



**Fig. 2.** Representative preoperative axial (A-D) and coronal (E-H) T1-weighted magnetic resonance images. Soft tissue lesions adjacent to the right lamina papyracea (arrow)(A, E) were enhanced by gadolinium administration (B, F). Main mass lesions in the right pterygopalatine fossa (dotted circle)(C, G) were also well enhanced (D, H).



**Fig. 4.** Microscopic findings of main lesions (A) and tissues adjacent to the right lamina papyracea (B, C). A : The main lesions contained mature adipocytes and small-medium caliber blood vessels indicative of angiolipoma (H&E stain, original magnification  $\times 200$ ). B : Clusters of fungal hyphae were observed in the tissues obtained at the right lamina papyracea (Periodic acid-Schiff stain, original magnification  $\times 400$ ). C : Fungal hyphae invading into the tissues were identified (H&E stain, original magnification  $\times 400$ ).

진에서 구강, 구인두 및 후두에 걸쳐 특이 소견은 관찰되지 않았다. 전신마취하에 우측 비인두 돌출 부위에서 조직검사를 시행하였으며, 조직검사 결과 혈관지방종으로 진단되었다. 환자는 과거력상 특별한 병력은 없었다. 자기공명영상검사서 종괴는 우측 접형동 외벽을 따라 해면정맥동에 연해 있는 것이 확인되어 안전한 제거를 위해 항법영상장치를 사용하였으며 비내접근법과 Caldwell-Luc 접근법을 병행한 내시경적 제거를 시도하였다. Caldwell-Luc 접근법을 통해 우측 상악동 내로 접근한 뒤 상악동의 후벽을 드릴과 검자 등을 이용하여 제거 후 골외막을 확인하였다. 골외막을 절개한 뒤 익구개와의 지방조직을 제거하였고 내상악동맥을 확인한 뒤 결찰하였다. 종괴의 외측 경계를 확인한 뒤 내측 및 후방으로 종괴를 움직이면서 박리를 진행하였으며 이를 위해 비내 접근법으로 상악동의 내벽과 구개골을 제거하였다. 종괴는 주변 조직과 경계가 뚜렷하지 않고 유착되어 있어 박리가 잘 되지 않았다. 종괴의 내측 경계는 비중격의 상방 및 접형동의 하벽에서 확인되었으며 익상구개와, 접형동 하벽 및 비중격에 걸친 병변은 제거가 가능하였다. 하지만 비인두 외측, 안와내벽 후방에서 접형동 외벽에 걸쳐 있는 종괴는 해면정맥동에 근접해서 위치해 있고 주변 조직과의 박리가 어려워서 완전히 제거되지 못하였다. 적출된 종괴는  $3 \times 2.2 \times 1$  cm의 크기였으며, 병리조직검사상 혈관지방종 및 경미한 비특이적 만성 염증 소견이 확인되었다 (Fig. 4A). 병리조직검사서 예상치 못하게 사골안와판에서 채취한 조직에서 균사(fungal hyphae)가 관찰되었으며 (Fig. 4B) 조직내로 균사가 침습하는 소견이 확인되어 침습성 국균증으로 확진되었다 (Fig. 4C). 감염내과와의

협진을 통해 6개월간 이트라코나졸(itraconazole)을 이용한 항진균제 치료를 시행하였다. 복시는 수술 후 소실되었으며 환자는 현재 술 후 9개월까지 침습성 국균증의 재발 및 잔존 종양의 진행소견 없이 추적관찰 중이다.

## 고 찰

두경부의 혈관지방종은 매우 드물며, 국제적으로 보고된 증례도 20예 이내에 불과하다. 두경부 혈관지방종은 대부분 경부에서 발생하였고, 경부 이외 부위로는 내이도,<sup>5)</sup> 교근,<sup>6)</sup> 측두근,<sup>7)</sup> 비인두,<sup>8)</sup> 부인두공간,<sup>9)</sup> 뺨,<sup>10)</sup> 구강,<sup>11)</sup> 이하선,<sup>2)</sup> 입술<sup>12)</sup>과 부비동<sup>13)</sup>에서 발생한 증례가 보고된 바 있다. 두경부 혈관지방종은 젊은 성인보다는 40대 이후의 환자에서 자주 발생했으며 남녀 간의 차이는 없었다. 절제 후에 재발하는 경우는 거의 없었으며 환자들은 통증을 비롯한 불편감보다 종괴 자체 때문에 방문하였으나, 특수한 위치에 발생한 경우 해부학적 특성에 따른 증상을 동반하였다. 즉, 내이도에서 발생한 혈관지방종은 돌발성 난청과 연관이 있었고,<sup>5)</sup> 비인두에서 발생한 경우 이충만감을 초래하였고,<sup>8)</sup> 부인두공간의 혈관지방종은 수면무호흡증을 유발하였으며,<sup>9)</sup> 부비동에서 발생한 혈관지방종은 비폐색, 비루, 압박감 등을 일으켰다.<sup>13)</sup>

혈관지방종은 비침윤형과 침윤형으로 나눌 수 있는데, 비침윤형은 주로 젊은 성인에서 발생하며, 피막에 싸여 있고 경계가 분명한 피하의 부드러운 결절로 나타나며 통증을 동반한다. 침윤형은 남녀 모두에서 고르게 발생하며, 모든 연령에서 발생한다고 알려져 있다. 침윤형은 피막이 없으며 사지에 주로 생기며 골, 근육, 신경 및 결합조직의

로 침윤한다.<sup>1)</sup> 두경부에 발생한 침윤형 혈관지방종은 11예가 국제적으로 보고된 바 있다. 비침윤형과 침윤형 혈관지방종 모두 재발을 최소화하기 위해 완전한 절제가 추천된다.<sup>7)</sup>

본 증례는 혈관지방종이 익구개와에서 발생하여 접형동과 비인두에까지 이르고 자기공명영상에서 주변 구조물과 경계가 불분명한 특징을 보였으며 중요 구조물인 해면정맥동에 인접한 침윤형 혈관지방종이었다. 자기공명영상에서 안와 내벽의 병변이 확인되었고, 환자가 복시를 호소하여 종괴의 일괄절제를 계획하였으나, 종괴가 주변 조직과 경계가 불분명하고 심하게 유착되어 있어 박리가 매우 더디게 진행되었고 사골안와판을 따라 넓게 퍼져 있고 해면정맥동에 인접해 있어, 내경동맥의 손상을 우려하여 접형동 외측벽보다 더 깊이 존재하는 병변은 절제하지 못하였다.

혈관지방종의 병리조직학적 소견은 성숙한 지방조직 내에 수많은 소혈관이 포함되어 있는 것이 특징적이다. 혈관은 모세혈관이 대부분이며, 혈관 내부에 혈전이 존재한다. 혈관지방종은 카포시 육종, 방추세포형 혈관내피종, 혈관근지방종과 감별해야 한다. 혈관지방종은 경계가 뚜렷하지만, 카포시 육종과 방추세포형 혈관내피종은 주위와 경계가 불분명하며, 카포시 육종에서는 비정형 세포가 관찰되지만, 혈관지방종에서는 관찰되지 않는다. 혈관지방종은 근육조직이 없고, 혈관 성분 대부분이 모세혈관인데 반해, 혈관근지방종은 종괴 내에 근육 조직이 존재하며 두꺼운 벽을 가진 혈관벽이 특징적이다.<sup>14)</sup> 한편, 본 증례의 병리조직검사에서 종괴의 절제연 중 안와 사골판에서 채취한 조직에서 국균증의 균사가 조직 내로 침습하는 소견이 우연히 관찰되어 침습성 국균증으로 진단이 되었으며 후향적으로 자기공명영상을 재검토 하였을 때 안와 사골판을 따라서 존재한 병변이 익구개와에서 발생한 종양과 연결되지는 않은 것을 확인할 수 있었으나 영상 검사로 침윤성 국균증을 진단할 수는 없었다.

결론적으로 주요혈관 및 신경 구조물들이 밀집되어 있는 두경부 영역의 특성상 침윤형 혈관지방종이 의심되는

경우 종괴의 안전한 절제를 위해 항법영상장치 등을 적극 활용하고, 완전 절제가 어려운 경우에 다른 질환과의 동반 가능성을 고려하여 절제연에 대한 세밀한 병리검사가 필요할 것으로 생각된다.

중심 단어 : 혈관지방종 · 국균증 · 코 · 부비강 종양.

## REFERENCES

- 1) Lin JJ, Lin F. Two entities in angiolipoma. A study of 459 cases of lipoma with review of literature on infiltrating angiolipoma. *Cancer* 1974;34(3):720-7.
- 2) Reilly JS, Kelly DR, Royal SA. Angiolipoma of the parotid: case report and review. *Laryngoscope* 1988;98(8 Pt 1): 818-21.
- 3) Howard WR, Helwig EB. Angiolipoma. *Arch Dermatol* 1960;82:924-31.
- 4) Alvi A, Garner C, Thomas W. Angiolipoma of the head and neck. *J Otolaryngol* 1998;27(2):100-3.
- 5) Murakami S, Yanagihara N, Takahasi H, Komori M, Oka Y, Miki H, et al. Angiolipoma of internal auditory canal presenting repeated sudden hearing loss. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1997;117(6):S80-4.
- 6) Cassoni A, Romano A, Terenzi V, Bartoli D, Buonaccorsi S, Valentini V. Intramassesterin-infiltrating angiolipoma: a challenging diagnosis. *J Craniofac Surg* 2012;23(4):e290-2.
- 7) Hoelt S, Luetgtes J, Werner JA. Infiltrating angiolipoma of the M. temporalis. *Auris Nasus Larynx* 2000;27(3):265-9.
- 8) Auo HJ, Kang JM. Infiltrating angiolipoma of the nasopharynx: adjacent to an aberrant internal carotid artery. *Auris Nasus Larynx* 2009;36(2):247-50.
- 9) Alobid I, Benitez P, Berenguer J, Bernal-Sprekelsen M, Mullol J. Parapharyngeal angiolipoma causing obstructive sleep apnoea syndrome. *Acta Otolaryngol* 2004;124(2): 210-2.
- 10) Dere H, Ozcan KM, Ergul G, Bahar S, Ozcan I, Kulacoglu S. Extranosopharyngeal angiofibroma of the cheek. *J Laryngol Otol* 2006;120(2):141-4.
- 11) Palaia G, Gaimari G, Giudice RL, Galanakis A, Tenore G, Romeo U. Excision of an oral angiolipoma by KTP laser: a case report. *Ann Stomatol (Roma)* 2011;2(1-2):28-31.
- 12) Sah K, Kadam A, Sunita J, Chandra S. Non-infiltrating angiolipoma of the upper lip: a rare entity. *J Oral Maxillofac Pathol* 2012;16(1):103-6.
- 13) Pfannenstiel TJ, Boseley M, Roach L. A case of paranasal sinus angiolipoma. *Laryngoscope* 2003;113(6):1080-1.
- 14) Hunt SJ, Santa Cruz DJ, Barr RJ. Cellular angiolipoma. *Am J Surg Pathol* 1990;14(1):75-81.