

내시경을 이용하여 양측 비강 및 구순하 경상악동 접근을 통해 제거한 익돌구개와, 측두하와 및 측두개저를 침범한 유소년 혈관섬유종 치험 1예

부산대학교 의학전문대학원 부산대학교병원 이비인후과학교실,¹
부산대학교 의학전문대학원 양산부산대학교병원 이비인후과학교실²

이종길¹ · 홍성룡¹ · 이정훈¹ · 노환중²

A Case of Juvenile Angiofibroma Invading Pterygopalatine Fossa, Infratemporal Fossa and Lateral Skull Base Treated by Combined Endoscopic Trans-Binasal and Endoscopic Sublabial-Transmaxillary Approach

Jong-Kil Lee, MD¹, Sung-Lyong Hong, MD¹, Jung-Hoon Lee, MD¹ and Hwan-Jung Roh, MD²

¹Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University School of Medicine, Pusan National University Hospital, Busan; and

²Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University School of Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

— ABSTRACT —

Recently, transnasal endoscopic surgery of nasopharyngeal angiofibroma has been extensively used as an excellent alternative to external approaches in the management of small-intermediate size nasopharyngeal angiofibroma. But if tumor has extended to the pterygopalatine fossa or infratemporal fossa, transnasal endoscopic approach alone has limitations for complete removal. Combining transnasal and endoscopic sublabial-transmaxillary approach can be helpful for management of extremely lateral lesions of the pterygopalatine fossa, as well as the infratemporal fossa. We present a case of nasopharyngeal angiofibroma extended to pterygopalatine fossa, lateral skull base and infratemporal fossa, which was successfully removed by combined endoscopic trans-binasal and endoscopic sublabial-transmaxillary approach using three holes-six hands technique. (J Clinical Otolaryngol 2012;23:283-288)

KEY WORDS : Angiofibroma · Endoscopic surgery · Sublabial-transmaxillary approach.

서 론

유소년 비인강 혈관섬유종은 주로 15세 전후의 청소년

기 남성에서 호발하며, 비출혈 및 비폐색, 구호흡, 심할 경우 안면변형을 보이기도 한다. 주위 조직으로의 국소적 침윤성, 수술시 과도한 출혈 및 불완전한 제거시 높은 재발

논문접수일 : 2012년 7월 11일 / 논문수정일 : 2012년 8월 14일 / 심사완료일 : 2012년 10월 11일

교신저자 : 노환중, 626-770 경남 양산시 물금읍 금오로 20

부산대학교병원 의학전문대학원 양산부산대학교병원 이비인후과학교실

전화 : (055) 360-2650 · 전송 : (055) 360-2930 · E-mail : rohhj@pusan.ac.kr

을 등으로 인해 병리조직학적으로는 양성이나 임상적으로는 악성으로 취급된다. 따라서 충분한 수술시야의 확보와 완전한 수술 절제가 성공적인 치료에 필수적이다. 내시경이 치료에 적극적으로 도입되기 전에는 측면 비절개술(lateral rhinotomy) 혹은 구순하 안면중앙 접근법(midfacial degloving approach)을 통한 내측 상악골 절제술(medial maxillectomy), 경구개 접근법, 측두하 접근법 등의 고식적인 수술이 많이 이용되어 왔다. 수년 전부터 비인강 혈관섬유종에도 내시경 수술이 선택적으로 시행되고 있으며, 이는 고식적 수술의 단점인 미용 및 기능적 장애를 줄일 수 있는 방법으로 점차 적용이 확대되고 있다. 그러나 종양이 외측 두개저 및 익돌구개와를 거쳐 측두하와까지 진행된 경우 비강을 통한 내시경 수술만으로는 수술시야 및 접근범위의 한계로 종양의 완전제거가 어렵다. 저자들은 외측 두개저와 익돌구개와 및 측두하와까지 침범한 혈관섬유종 환자에서 내시경을 이용하여 양측 비강 및 병변측 구순하 경상악동 접근법을 병용하여 종양을 성공적으로 제거하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자는 17세 남자로 내원 1개월 전부터 시작된 잦은 비출혈을 주소로 내원하였다. 과거력상 환자는 42개월 전 본원에서 좌측 비인강 혈관섬유종으로 혈관색전술 및 비강을 통한 내시경 제거 수술을 한차례 시행 받았다. 당

시 수술소견은 좌측 접형동개공주위에서 종양이 기시하여 접형동을 침범하고 익돌구개와 내측까지 침범된 소견이었다. 수술 후 16개월까지 재발소견 없이 경과관찰 하였으나 그 이후 추적관찰하지 못하였고, 42개월 만에 비출혈을 주소로 다시 내원하였다. 국소소견 상 좌측 비강 후반부 채우는 표면이 매끄러운 주홍색의 종괴가 관찰되었다(Fig. 1). 조영증강 부비동 전산화단층촬영상 종물은 내측으로 비중격과 맞닿아 있었고, 외측으로는 좌측 익돌구개와를 침범하며 상악동 후벽을 전방으로 전위시키고, 측두하와까지 침범된 소견이었다. 상부로는 측두개저의 경막과 맞닿아 있었으며, 후방으로는 좌측 접형동 외측벽을 침식하며 중두개저의 저부를 미란시키는 소견이었다(Fig. 2).

환자는 수술 전날 혈관조영술을 시행받았다. 이전 수

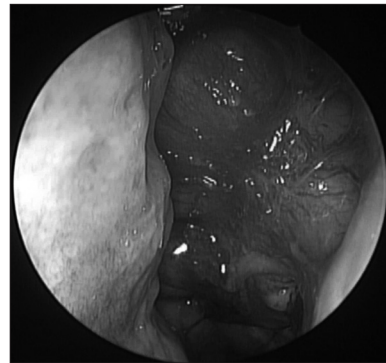


Fig. 1. Nasal endoscopy shows left nasal cavity filled with pinkish polypoid mass.

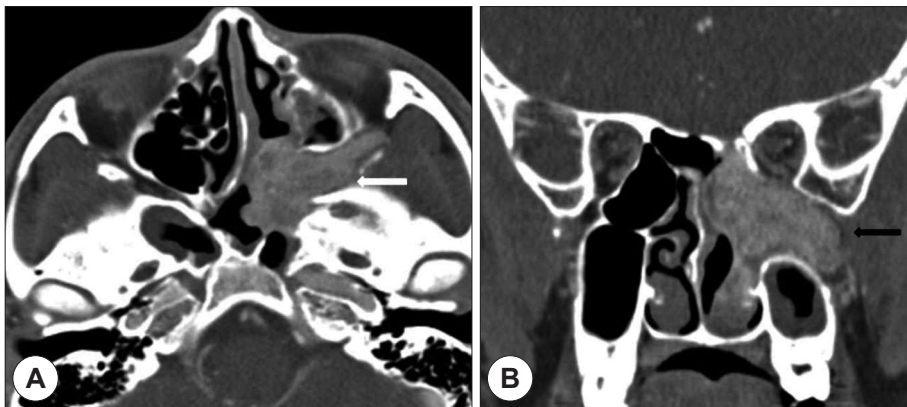


Fig. 2. Preoperative PNS CT findings. A : Axial contrast enhanced CT image shows heterogeneously enhancing tumor (white arrow) at left pterygopalatine fossa and nasal cavity. B : Coronal CT image shows lateral extension of tumor mass through the pterygomaxillary fissure to reach the infratemporal fossa (black arrow).

술시 시행한 색전술로 좌측 내상악동맥은 조영되지 않았으나, 이번에는 새롭게 안동맥(ophthalmic artery), 중간 뇌막동맥(middle meningeal artery), 안면동맥(facial artery) 및 그 분지들이 종양에 혈액을 공급하고 있었다. Polyvinyl alcohol을 이용하여 중간뇌막동맥, 안면동맥의 분지에 색전술을 시행하였으나, 내경동맥의 분지인 안동맥에는 색전술을 시행하지 않았다(Fig. 3). 비강 내시경 소견상 종양은 좌측 비강의 후반부를 채우고 비인강으로까지 확장되어 있었다. 종양의 전체적인 범위를 전산화단층 촬영 소견과 함께 종합해보면 종물은 기원인 접형구개공 근처에서 다시 재발하여 익돌구개와를 거쳐 측두하와까지 침범하고 상부로는 외측 두개저 골을 미란시키고 경막까지 접촉하고 있는 것으로 추정되었다.

수술은 내시경 시야하에서 양측 비강 및 좌측 구순하 경상악동 접근법을 병용하여 시행하였다. 요약하면 먼저 시야 확보를 위해 좌측 하비갑개의 하부 1/3을 절제하여 좌측 비강 내시경 공간을 확보하였다. 이어 비중격 후방 1/3 즉 후비공측 비중격(interchoanal septum)을 제거하여, 비인강을 넓게 노출시키고, 양측 비공을 통해서 각각 비인강까지 접근이 가능하도록 하였다. 이전 수술때 시행한 좌측 중비도를 통한 상악동 자연공 개방술(middle meatal antrostomy, MMA)을 다시 넓게 하여 30도 및 70도 내시경하에서 상악동 후벽, 상벽 및 저부까지 충분히 구조조정이 가능하게 하였다. 종양은 MMA 부위의 후방인 구개골과 내측의 상악골에 유착되어 있었으며, harmonic scaphel을 이용하여 유착된 부분을 분리시켰다.

종양이 침범한 측두하와 부분의 수술시야 확보가 필요하였다. 먼저 좌측 구순하 절개를 통하여 견치와 개방(canine fossa opening)을 하고 개방 직경은 1 cm 정도로 하였다. 견치와 개방을 통하여 내시경 시야 하에서 상악동 후벽의 점막을 전기소작기로 소작하여 점막출혈을 없애고 상악동 후벽의 골을 노출한 후 Kerrison rongeur를 이용하여 후벽 골을 제거하여 측두하와로 통하는 수술시야를 확보하였다. 후벽 골을 제거하고 골막을 노출시킨 다음 골막을 절개하여 측두하와로 침범된 종양의 피막(capsule)을 최대한 노출시켰다. 종양의 최외측은 측두하와 연조직인 지방조직과 경계를 이루고 있었으며, 유착조건을 보이고 있었다. 우측 비강을 통하여 비인강에서 노출된 종양의 피막 일부분을 겸자로 단단히 잡고 우측으로 견인

한 후, 견치와 개방과 상악동 후벽 개방을 통하여 측두하와를 침범한 종양 피막과 유착된 지방조직을 분리하였다(Fig. 4). 이후 상부에서 외측 두개저와 종양피막을 분리하고, 상부의 외측에 이전 수술로 노출된 중두개와의 경막과 종양 피막 사이를 박리하여 분리하였다.

기원 부위인 접형구개공 부위만 제외하고 유착된 모든 종양의 피막은 박리되었으며, 접형구개공 부위와 마지막으로 붙어있는 종양부분은 harmonic scaphel을 이용하여 절개하니 종양은 주위조직과 유착된 모든 부분에서 분리되었다. 그런 다음 종양의 크기가 너무 커서 비강으로 적출하기가 어려워서, 비인강을 통해 구강으로 종양을 이동시킨 후 구강을 통해 빼내었다. 적출된 종양은 3.2×2.5×1.4 cm의 크기로 열은 주홍빛을 띄었고 매끄러운 피막을 보였다. 병리조직학적 결과는 혈관조직과 섬유성 결합조직이 혼합된 혈관섬유종이었다. 수술 3일 후 패킹을 제거하였으며 수술 5일 후 출혈이나 기타 합병증 없이 퇴원하였다. 수술 후 방학마다 정기적인 추적관찰에 협조적이며 26개월째 현재 재발의 소견은 없다(Fig. 5).

고 찰

유소년 비인강 혈관섬유종은 주 공급혈관이 접형구개동맥이므로 처음에는 종양이 접형구개공(sphenopalatine foramen)을 통해서 점막하층을 따라 비강 및 비인강쪽으로 자라게 된다. 더 성장하게 되면 익돌구개와의 주위 여러 foramina 및 fissure를 통하여 익상돌기, 측두하와, 안와, 중두개와까지 침범할 수 있다.^{1,2)} 비인강 혈관섬유종의 치료는 색전술을 통한 공급혈관의 폐색 이후 완전한 수술적 절제이다. 수술적 접근법을 결정할 때에는 종양의 크기, 위치, 병기, 수술시야 확보, 환자의 나이, 환자의 순응도, 및 미용적인 측면을 고려해야 한다.³⁾ 내시경수술이 발달하기 전에는 측면 비절개술(lateral rhinotomy approach), 구순하 안면중양 접근법(midfacial degloving approach) 등의 비외접근법을 통한 고식적인 수술이 많이 이용되었다.⁴⁾ 측면 비절개술은 비교적 쉽게 상악골을 노출시킬수 있으나 안면에 흉터를 남기는 단점이 있다. 구순하 안면중양 접근법은 안면에 흉터를 남기지 않는 장점이 있지만, 측면 비절개술에 비해 노출이 불완전하며, 수술시간이 길고, 술 후 잇몸 및 치아의 감각이상 발생하

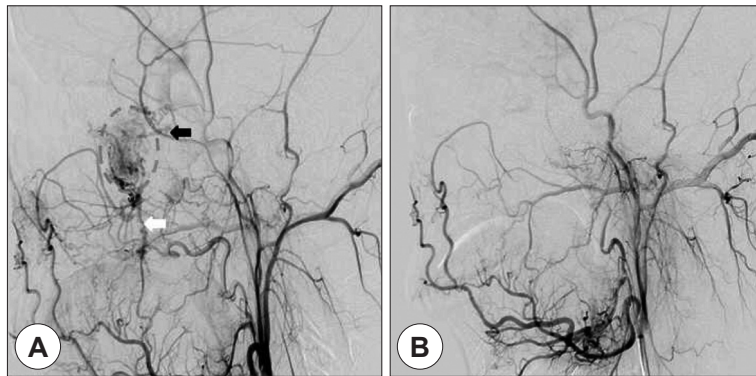


Fig. 3. A : Pre-embolization angiogram shows hypervascular appearance of mass fed by facial artery (white arrow) and middle meningeal artery (black arrow). B : After embolization, markedly decreased vascularity of tumor can be seen.

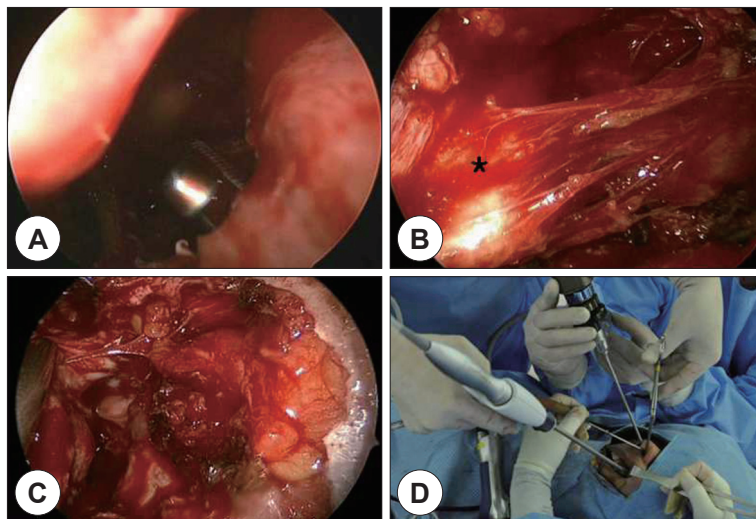


Fig. 4. A : Posterior third of the nasal septum was resected to enhance exposure of the nasopharynx and to secure enough surgical field to work through both nostrils with the two-handed technique. B : The bone and periosteum of posterior wall of the maxillary sinus was removed. The assistant gently pulled on the mass (asterisk) while the surgeon separated it from fat and pterygoid muscles in the infratemporal fossa. C : After removal of tumor, infratemporal fat and soft tissues are visible. D : Both nostrils and left canine opening (3 holes) were used to remove the tumor.



Fig. 5. A : Postoperative endoscopic finding at 26 months after surgery showed no evidence of local recurrence. B, C : Postoperative CT finding of 6 months reveals completely removed tumor mass.

는 단점이 있다.⁵⁾

내시경 수술의 장비와 술기가 발전함에 따라 비과영역의 많은 질환들이 내시경 수술의 적응이 되었다. 비인강 혈관섬유종은 피막형성이 잘 되어있어 강한 견인과 무딘 박리가 가능하고, 양성종양이므로 안전역(safety margin)을 많이 두지 않아도 되며, 또한 골벽에 대한 미란이 있지만 직접 침윤이 없는 특성으로 인하여 내시경 수술의 좋은 적응이 될 수 있다.⁶⁾ 내시경 시야하 접근법의 장점은 다음과 같다. 첫째, 다양한 각도의 내시경을 통해 넓은 수술시야를 확보할 수 있으며, 넓고 명확한 시야에서 수술을 시행하므로 출혈부위, 병변의 경계를 쉽게 확인할 수 있다. 둘째, 안면부나 구강부 절개 없어 외부에 상처가 남지 않는다. 셋째, 비외접근법과 달리 상악골이나 구개의 일부를 제거하지 않으므로 절골술(osteotomy)을 시행할 필요가 없다. 넷째, 고식적 수술과 달리 비강으로 직접 접근하므로 수술시간을 현저히 단축시킬 수 있다. 다섯째, 고식적 수술에서 발생할 수 있는 안면골성장장애가 발생하지 않는다. 여섯째, 술 후 통증이 덜하고, 재원기간이 짧으며, 환자의 후유증 및 합병증이 낫다. 이러한 장점을 바탕으로 내시경을 이용한 수술은 비외접근법을 대체할 수 있는 수술로서 주목을 받고 있다.^{7,8)} 비인강, 비강, 사골동 및 접형동까지만 침범된 국한된 비인강 혈관섬유종인 경우에는 비내 접근에 의한 내시경 수술이 많이 사용되고 있다.^{8,9)} 최근에는 익돌구개와까지 침범한 종양도 비내접근에 의한 내시경 수술이 사용되고 있는데, 이것은 비내 내시경 수술로서 상악동 자연공을 크게 확장한 후에 이를 통하여 상악동 후벽을 내측에서 외측으로 제거하고 익돌구개와로 접근하는 방법이다.¹⁰⁻¹²⁾ 하지만 혈관섬유종이 익돌구개와 외측으로 많이 진행되거나 측두하와까지 침범된 경우, 비내 내시경 수술 단독만으로 접근하기에는 수술시야가 좁고 기구 삽입과 사용에 상당한 제한을 받을 수 있으며, 무리하게 박리하는 경우 출혈의 가능성도 높다.^{13,14)} 이 때 구순하 절개(gingivobuccal incision)를 하고 상악동 전벽 및 후벽의 일부 제거를 통하여(즉 구순하 경상악 접근법) 내시경 시야하에서 접근하면 익돌구개와의 외측부위, 측두하와, 중두개와(middle cranial fossa), 하안와열(inferior orbital fissure), 안와후방(posterior orbit)까지 효과적으로 접근할 수 있고, 내상악동맥(internal maxillary artery)을 육안으로 직접 확인하고 결찰할 수 있어 수

술시 출혈을 줄일 수도 있다.^{14,15)} Nicolai 등은 익돌구개와 및 측두하와로 접근할 때, 상악동 후벽을 제거하고 난 후 노출된 골막(periosteum)을 종양이 충분히 노출될 수 있도록 크게 절개하여야 병변과 주변 연조직을 쉽게 구분할 수 있고 two-hand technique을 통한 박리를 진행할 수 있다고 하였다.⁷⁾

본 예에서는 비중격 후방 1/3을 제거를 통하여 비인강 부위의 수술시야를 넓히고, 병변 반대측 비강으로도 내시경을 삽입해 수술시야 확보도 가능케하고 병변측으로 기구를 삽입하여 사용할 수 있었다. 또한 병변측 비강이나 경상악동으로 harmonic scaphel 혹은 dioide laser 등의 기구를 삽입하여 사용할 때 발생하는 연기를 병변 반대측 비강이나 비인강에 흡입기를 삽입하여 수술시야에 방해되지 않도록 연기를 효과적으로 제거할 수 있었다. 본 증례에서도 비인강 혈관섬유종이 익돌구개와를 통해 측두하와 및 외측 두개저까지 진행된 상태였기에 저자들은 내시경적 구순하 경상악 접근법을 병용함으로써 익돌구개와, 외측 두개저 및 측두하와까지 용이하게 접근할 수 있었으며, 충분한 시야를 확보하면서 보조의와 집도의의 손을 모두 사용할 수 있는 two-handed technique 즉 보조의사가 양측 비강을 통해 좌측에 있는 종양을 검자로 잡고 우측으로 부드럽게 당기며 다른 손으로 흡인기로 연기를 제거하는 동안, 집도의는 양손을 사용하여 종양을 측두하와에 있는 지방조직 및 익돌근(ptyergoid muscle)과 같은 주변 연조직을 종양 피막으로부터 박리하고 또한 상방의 외측 두개저의 경막으로부터도 종양피막과 박리하여 성공적으로 종양을 분리 제거할 수 있었다. 본 증례와 같이 이런 경우는 양측 비강 및 구순하 경상악 접근 즉 세 개의 구멍(hole)을 통하여 내시경 및 다양한 수술 기구들을 삽입하고, 집도의와 보조의 손 모두를 최대한으로 이용하여 적절하게 상황에 따라 자유자재로 사용할 수 있었다.

국내에서는 현미경을 이용한 경상악 미세수술과 비내 내시경 접근을 병용해 치료한 익돌구개와를 침범한 비인강 혈관섬유종 2예의 증례 보고가 있다.¹⁶⁾ 하지만 본 증례의 경우 같이, 익돌구개와를 넘어 측두하와까지 침범하였으며 양측 비강을 통한 내시경 수술 및 내시경적 구순하 경상악 접근을 병용하여 치험한 예가 없었기에 보고하고자 하였다. 단, 본 증례와 같이 유소년 비인강 혈관섬유

중이 익돌구개와, 측두하와, 외측 두개저까지 확장 있을 경우 내시경을 이용하여 미세침습적(minimally invasive)으로 제거하고자 할 때는 숙련된 술자의 충분한 경험, 접근 경로에 대한 다양한 해부학적 지식, 여기에 필요한 장비와 기구를 모두 갖추고 있을 때에만 가능하다는 한계점이 있다. 또한 종양이 내경동맥으로부터 광범위한 혈류공급을 받거나, 내경동맥의 사대 분지(paraclival segment)의 외측으로 두개 내 침범(intracranial extension)이 있는 경우 혹은 경막 안으로 종양이 자란 경우는 비외접근법이 더 적합한 것으로 추천된다.⁷⁾

결 론

저자들은 익돌구개와, 측두하와 및 외측 두개저까지 침범한 유소년 비인강 혈관섬유종에서 내시경을 이용한 양측 비내 접근 및 내시경적 구순하 경상악 접근법을 통하여 성공적으로 종양을 제거하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 혈관섬유종 · 부비동내시경수술 · 다중접근 수술.

본 연구는 2011년도 양산부산대학교병원 임상연구비 지원으로 이루어졌음.

REFERENCES

- Harrison DF. *The natural history, pathogenesis, and treatment of juvenile angiofibroma. Personal experience with 44 patients. Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1987;113(9):936-42.
- Spector JG. *Management of juvenile angiofibromata. Laryngoscope* 1988;98(9):1016-26.
- Krause CJ, Baker SR. *Extended transantral approach to pterygomaxillary tumors. Ann Otol Rhinol Laryngol* 1982; 91(4 Pt 1):395-8.
- Kim SY, Jun HK, Lee BJ, Kim YJ, Kang SH. *Eight cases of nasopharyngeal angiofibromas. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40(10):1501-5.
- Lee CH, Jung HW, Rhee CS, Park HJ, Ha JH, Min YG, et al. *Anterior and middle skull base surgery: the SNUH experience. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1998;41(2):218-25.
- Lee BJ, Lee SK, Chung YS, Park SK, Jang YJ. *Endonasal endoscopic removal of nasopharyngeal angiofibroma: comparison with conventional surgery. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2005;48(8):986-90.
- Nicolai P, Villaret AB, Farina D, Nadeau S, Yakirevitch A, Berlucchi M, et al. *Endoscopic surgery for juvenile angiofibroma: a critical review of indications after 46 cases. Am J Rhinol Allergy* 2010;24(2):67-72.
- Kamel RH. *Transnasal endoscopic surgery in juvenile nasopharyngeal angiofibroma. J Laryngol Otol* 1996;110(10):962-8.
- Scholtz AW, Appenroth E, Kammen-Jolly K, Scholtz LU, Thumfart WF. *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma: management and therapy. Laryngoscope* 2001;111(4 Pt 1):681-7.
- DelGaudio JM. *Endoscopic transnasal approach to the pterygopalatine fossa. Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129(4):441-6.
- Kassam AB, Gardner P, Snyderman C, Mintz A, Carrau R. *Expanded endonasal approach: fully endoscopic, completely transnasal approach to the middle third of the clivus, petrous bone, middle cranial fossa, and infratemporal fossa. Neurosurg Focus* 2005;19(1):E6.
- Cavallo LM, Messina A, Gardner P, Esposito F, Kassam AB, Cappabianca P, et al. *Extended endoscopic endonasal approach to the pterygopalatine fossa: anatomical study and clinical considerations. Neurosurg Focus* 2005;19(1):E5.
- Cansiz H, Guvenc MG, Sekercioglu N. *Surgical approaches to juvenile nasopharyngeal angiofibroma. J Craniomaxillofac Surg* 2006;34(1):3-8.
- Har-El G. *Combined endoscopic transmaxillary-transnasal approach to the pterygoid region, lateral sphenoid sinus, and retrobulbar orbit. Ann Otol Rhinol Laryngol* 2005;114(6):439-42.
- Terzian AE. *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma-transantral microsurgical approach. In: Stamm AC, Draf W, editors. Micro-endoscopic surgery of the paranasal sinuses and the skull base. 1st ed. Springer-Verlag;2000. p.515-28.*
- Kim DK, Kang IG, Min KK, Kim ST. *Two cases of nasopharyngeal angiofibroma in pterygopalatine fossa treated by transantral microsurgery and endoscopic removal. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2006;49(9):931-5.