

감염된 비순낭종으로 오인된 신경초종 1예

인제대학교 의과대학 상계백병원 이비인후과학교실,¹ 병리학교실²

손정협¹ · 권창윤¹ · 조경래¹ · 김현정²

A Case of Neurilemmoma Misdiagnosed as Infected Nasolabial Cyst

Jung Heob Sohn, MD¹, Changyun Kwon, MD¹, Kyoung Rai Cho, MD, PhD¹ and Hyun-Jung Kim, MD²

¹Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery; ²Pathology, Sanggye Paik Hospital, College of Medicine, Inje University, Seoul, Korea

— ABSTRACT —

Neurilemmoma is a tumorous lesion that arises from the neural sheath of peripheral nerves, autonomic nerves, or cranial nerves. Neurilemmoma on the nasolabial area is very rare and only 1 case was reported in the Korean literature. The authors experienced one case of round and elastic mass occurs from the nasolabial area. It was diagnosed as an infected nasolabial cyst. The pathologic diagnosis after surgical removal was proved as neurilemmoma. We report an unusual case with a review of literatures. (J Clinical Otolaryngol 2017;28:243-247)

KEY WORDS : Neurilemmoma · Nose · Nonodontogenic cysts.

서 론

비순부의 종물은 치근의 염증성 병변이나 연조직염과 같은 염증성 질환부터 지방종, 혈관종, 혈관섬유종, 섬유종, 평활근육종, 과오종 등 다양한 종양을 의심해 볼 수 있으며, 선천성 병변으로는 비순낭종, 유피낭종 등이 있다.¹⁾

신경초종은 말초신경집(peripheral nerve sheath) 내 신경초 세포(schwann cell)에서 유래하는 종양성 질환이다.²⁾ 약 25~45%가 두경부에서 발견되고, 후각신경 및 시신경을 제외한 신경세포에서 발생 가능하다고 알려져 있

다.³⁾ 비강이나 부비동 내, 비순부에서 발견되는 경우는 매우 드물며,^{4,5)} 특수면역염색을 통한 조직병리학적 검사를 통해 확진할 수 있다.⁶⁾

본 증례는 내원 6개월 전부터 우측 비순부에서 종물이 만져졌으나 별다른 치료 없이 지내던 중, 내원 3일 전부터 종물 주변에서 압통을 호소하여 내원한 49세 여자 환자로, 단 기간에 악화된 증상과, 안면통, 오한 증상이 동반되고 있어 감염성 비순 낭종을 의심하였으나, 항생제 투여와 함께 수술적 절제술 후 최종적으로 신경초종(neurilemmoma)으로 진단되어 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

49세 여자 환자가 3일 전부터 발생한 점액성 비루, 코를 중심으로 안면부의 작열감과 육신거리는 통증, 오한 증상과 함께 우측 비순부의 압통을 동반한 종물을 주소로 내원하였다. 환자는 6개월 전에 처음 종물을 인지하

논문접수일 : 2017년 3월 6일

논문수정일 : 2017년 7월 24일

심사완료일 : 2017년 8월 16일

교신저자 : 조경래, 01757 서울 노원구 동일 1342

인제대학교 의과대학 상계백병원 이비인후과학교실

전화 : (02) 950-1104 · 전송 : (02) 935-6220

E-mail : entr1@naver.com

였으며, 병변은 시간이 지나면서 그 크기가 증가하였고, 이에 동반한 우측 코막힘이 점점 심해지고 있었다.

비강 내시경 검사상 우측 비강 전정부의 바닥에서 돌출된 병변을 확인할 수 있었으며(Fig. 1A), 비순부에도 종창을 확인할 수 있었다. 비순부의 종물을 촉진했을 때 비교적 탄력성을 띠고 부드러운 양상으로 낭종을 의심할 수 있었고, 압통이 있었다. 조영제를 사용한 전산화

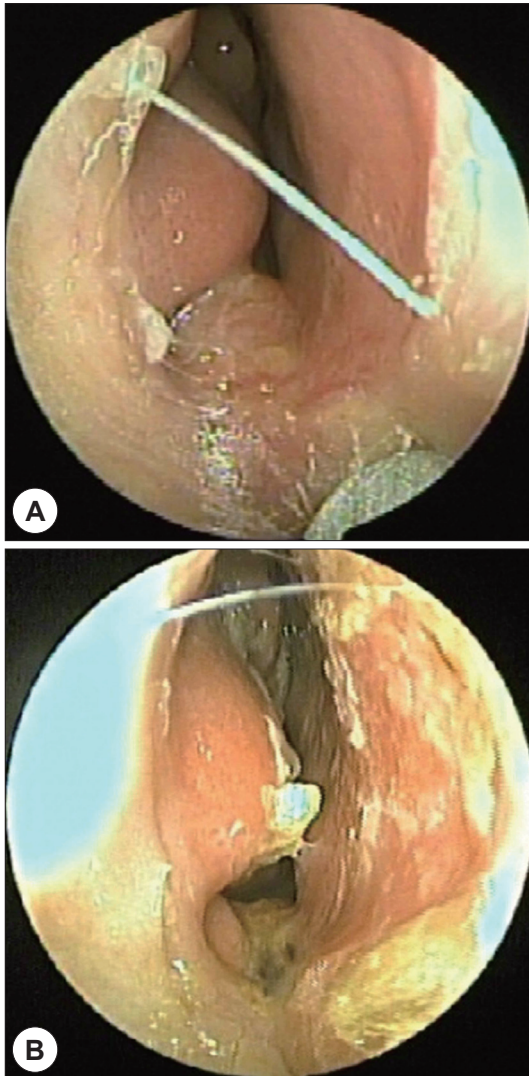


Fig. 1. Preoperative (A) and postoperative (B) endoscopic findings : a smooth surfaced ovoid shape mass at the right nasal floor of vestibular area (A) was removed (B).

화 단층 촬영 소견에서는 우측 비순부에 낭종의 피막을 따라 조영 증강으로 주변 조직과 경계가 비교적 명확한 1.8×1×1.5 cm 크기의 타원형 종괴가 확인되었다. 일반적인 비순 낭종의 경우와 달리, 종물 내에는 불균등한 조영 증강이 이루어지고 있었으며 병변 주변에서 골변형 등 침습적인 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 혈액 검사에서 백혈구는 10,920/μL로 약간 상승 소견을 보이고 있었으며, ESR과 CRP도 각각 26 mm/hr, 0.9 mg/dL로 상승되어 있었다.

항생제 투여 및 수술적 접근을 시행하기 전, 조직학적 진단과 항생제의 선택을 위한 세균 배양 및 항생제 감수성 검사를 시행하기 위해 실시한 세침흡인검사에서는 소량의 혈액이 검출된 것 외에 특이 소견이 관찰되지 않았다. 비록 전산화 단층 촬영 소견에서 종괴 내부의 불균등한 조영 증강이 확인되었으나, 비순부의 낭성 종물로는 비순낭종이 비교적 흔하므로 급성 감염이 동반된 비순 낭종을 우선 의심하여 국소 마취 하에 비강을 통해 조대술(marsupialization)을 시도하였다. 그러나 절개 후 고름은 나오지 않고 병변 내부에는 고형 성분만 확인되어 병변 내 조직을 일부 제거하여 조직검사를 시행했으며, 절개 부위는 흡수성 봉합사로 봉합 후 수술을 종료하였고, 병리학적 검사에서 신경초종으로 진단되었다. 이후 전신 마취 하에 비순하 절개를 통해 밝은 황색을 띤 탄력성의 종물을 확인하여 주변 조직과 박리하여 일괄 절제하였다(Fig. 3). 종물은 우측 상구순 아래에서 시작하여 동측 비강의 전정부위에 이르고 있었고, 주변

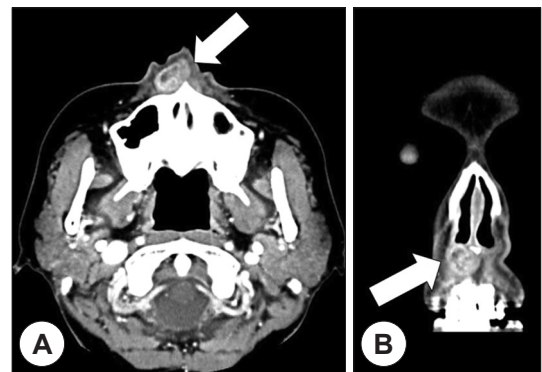


Fig. 2. Enhanced CT scan of axial (A) and coronal (B) image shows the 1.8×1.1×1.5 mm sized heterogeneous enhancing lesion in right alar base area with fat infiltration.

점막이나 연부 조직 및 골로의 침범 소견이 없어 큰 어려움 없이 주변 조직과 박리되었다. 다만 종물이 비전정 바닥의 피부와 매우 근접해 있었고, 이전 비강을 통한 절개로 인해 일부 유착이 있어 병변의 제거 후 비전정 바닥의 피부가 일부 찢어졌으나 별다른 봉합 없이 1일 동안 비강 패킹만 시행하였다. 비순하 절개 부위는 흡수성 봉합사로 봉합하였다. 제거된 병변은 수술 후 시행한 조직검사에서 낭종성 변화를 동반한 신경초종으로 확진되었다(Fig. 4).

환자는 수술 후 주관적 증상이 소실되었으며, 외래에서 정기적으로 확인하였을 때 절개 부위와 비전정 하부도 완전히 회복되었다(Fig. 1B). 수술 후 9개월까지 환자는 수술 부위의 감각 이상이나 재발 소견 없이 경과 관찰 중이다.

고 찰

신경초종은 신경집을 이루는 신경초 세포에서 기원하는 비교적 드문 양성 종양이다.⁸⁾ 약 25~45%의 빈도로 두경부 영역에서 발견되는데 주로 8번 뇌신경에서 기원하는 청신경종(acoustic neuroma)이 대표적이다. 시각 신경과 후각 신경에는 신경초 세포층이 없기 때문에 신경초종이 발생하지 않는다.⁹⁾ 두경부 영역 중 비강 내에 발생하는 신경초종은 매우 드물고, 비강 내 신경초종은 삼차



Fig. 3. The excised specimen shows that the well-encapsulated tumor consists of yellowish jellylike mass.

신경과 연관된 사골동 기원의 발생, 교감 및 부교감 신경 기원의 발생이 알려져 있다.¹⁰⁾

임상증상은 종물의 위치나 신경분포에 따라 다양한 편인데,³⁾ 본 증례의 환자는 비루와 통증, 오한을 동반한

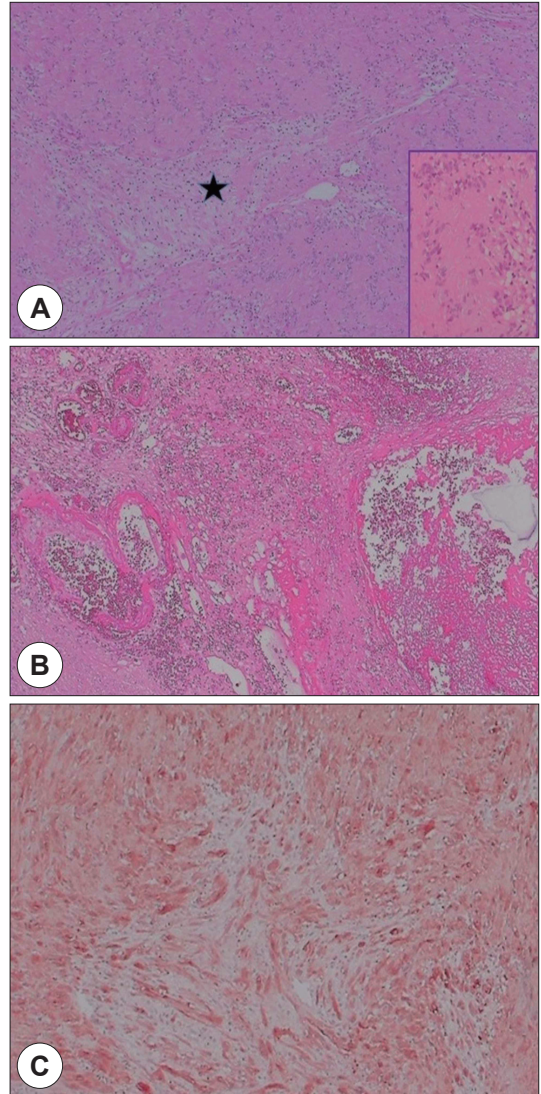


Fig. 4. A : The sections of the nodular mass shows the alternating spindle cell proliferation of hypercellular (Antoni A) and hypocellular (Antoni B ★) areas. The hypercellular zone shows a nuclear palisading, so called "Verocay body" (inlet). B : Some foci reveals hemorrhagic & cystic degeneration by secondary change of vascular wall. C : S-100 protein immunohistochemistry represents a reactivity in both nuclei & cytoplasm of tumor cells.

압통성의 우측 비전정부위 종물을 호소하고 있었다. 비강 내시경 소견상 비점막에 둘러싸여 있는 낭성의 종물로 관찰되고 있었는데, 이러한 양상의 병변에서 골종, 혈관종, 혈관섬유종 등의 양성 병변이나, 비순낭종, 유피낭종 등의 선천성 병변과의 감별이 필요하다.¹⁾

저자들은 병변의 위치와 신체 진찰에서 확인된 압통 및 혈액 검사 소견, 그리고 조영 증강 전산화단층촬영에서 병변 내에 불균등한 조영 증강이 확인되고 병변 주변의 지방 조직으로의 침범이 같이 관찰되는 점으로 미루어 초기에는 비순 낭종의 2차 감염으로 판단하였다. 일반적으로 감염이 동반되지 않는 비순 낭종은 조영제를 이용한 전산화 단층 촬영에서 종괴의 피막이 조영 증강되는 것과 대비하여 내부가 균등한 저밀도(homogenous low density)를 보이지만, 본 증례처럼 신경초종 내부에 부분적인 낭성 변성이 발생하거나, 낭종 내부에 급성 염증이 동반될 경우에는 영상 소견을 통한 감별 진단이 어려울 수 있다. 문헌 고찰을 통해 확인했을 때, 비강과 부비동에서 발생한 신경초종의 보고는 드물지 않으나,²⁻⁵⁾ 본 증례처럼 비순부에 발생한 것은 매우 드물어 국내에서 1예만이 보고되었다.⁶⁾ 비전정에서 발생한 신경초종의 증례가 2예 있으나 이 경우에는 전형적인 비순 낭종의 위치인 외측 비 돌기(lateral nasal process)와 유틱 융기(maxillary prominence)가 아니라 주로 비전정과 비강 내에 병변이 있어, 비순 낭종과는 임상적으로 명확하게 구분되는 특징이 있었다.^{7,8)} 종양이 비순 낭종의 위치에 발생할 경우 기원 신경은 삼차신경의 안분지와 상악분지가 가장 가능성이 높으며,¹²⁾ 그 중에서도 협부, 상구순, 비익, 하안검의 피부에 분포하는 상악분지의 안와하신경의 분지일 것으로 추측된다. 본 증례에서는 절제하는 과정에서 신경으로 의심되는 부분은 확인되지 않았으며, 수술 후 비순을 포함한 우측 안면부위의 감각 이상을 호소하지 않았다.

Lida 등¹²⁾에 의하면 비순낭종과 신경초종 모두 자기공명 T1 강조영상에서는 주변과 잘 구분되면서 근육조직과 비교하여 등강도(isointensity)의 형태로 관찰되고, T2 강조영상에서는 고강도(hyperintensity)로 관찰된다. 비순 낭종은 병변 주변으로 부채꼴 형태의 골흡수가 자주 관찰되지만, 이에 반해 신경초종은 조영제 주입 후 강한 조영 증강이 특징적이다.

병리학적으로는 Antoni type A와 B로 구분되고, 임상적으로는 대부분 두 형태가 같이 관찰된다. Antoni A형은 고밀도의 방추형세포가 관찰되고, 핵은 책상 배열(palisading pattern)을 이루며 내부에 Verocay body 분포가 특징적이다.¹³⁾ 이와 비교하여 Antoni B형은 상대적으로 방추형세포의 밀도가 낮게 관찰된다. 조직의 일부는 혈관벽의 2차 변화에 의한 출혈성과 낭변성을 보이기도 한다. 또한 신경초종은 S-100 단백질 면역화학 염색 양성 소견을 보이는 것이 특징적이다.^{3,14)}

일반적으로 신경초종은 방사선 치료에 저항성이 있어 외과적으로 절제하는 것이 원칙이다.¹⁵⁾ 비강 안의 신경초종은 대부분 주변 구조물과 잘 구분되고, 단일 종물의 형태로 발견되며 피막화가 잘 되어 있어 병변의 위치에 따라 내시경을 이용한 절제술을 시행하거나 외부 접근을 통해 절제하기도 한다.¹⁴⁾ 본 증례와 같이 비순부에 발생하는 경우에도 비순하 절개를 통해 큰 어려움 없이 종괴의 완전 절제가 가능하였으며, 이전의 보고에서도 동일한 방식으로 절제가 이루어졌다.⁶⁾ 종양이 중요 혈관이나 신경에 유착되어 있는 경우에는 감마나이프를 이용하여 치료한 경우도 보고 되었다.⁵⁾ 예후는 좋은 편이나 드물게 악성변화가 보고되고 있어 지속적인 경과 관찰이 필요하다.³⁾

비순부에 발생한 낭종성 병변의 경우, 비순 낭종을 우선 의심하게 되지만, 낭성 변화를 보이는 신경초종 등 다른 양성 종양의 가능성도 배제할 수 없다.¹⁶⁾ 최근 열감, 오한, 통증과 함께 갑자기 압통을 동반하여 병변의 크기가 증가하는 것이 반드시 농양의 형성을 의미하는 것은 아니므로, 수술적 절개 배농을 고려하기에 앞서 조영제를 사용한 전산화 단층 촬영과 같은 영상학적 검사를 통해 병변 내부를 확인하고 치료 계획을 수립하는 것이 반드시 필요하겠다.

중심 단어 : 신경초종 · 비순부 · 비치성종양.

REFERENCES

- 1) Yildirim D, Saglam O, Gurpinar B, Ilica T. Nasal cavity masses: clinico-radiologic collaborations, differential diagnosis by special clues. *Open J Med Imag* 2012;2(01):10.
- 2) Seo YI, Nam SY, An KH, Kim SY, Lee KS. Extracranial nerve sheath tumors of the head and neck. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40(6):908-13.

- 3) Lim SH, Lee KS, Hwang BU, Park HT, Yang YS, Hong KH. *A clinical analysis on schwannoma in head and neck. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54(4):278-82.
- 4) Han SW, Aum JH, Kang IG. *A case of multiple schwannoma that originated in the nasal septum. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2015;58(6):425-8.
- 5) Choe H, Jun YJ, Cho WS, Kim TH. *A case of schwannoma of the nasal cavity mimicking olfactory neuroblastoma. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2007;50(6):548-51.
- 6) Sah DJ, Kim CD, Kim YJ, Kim SW. *A case of neurofibroma presenting as a nasolabial mass. J Rhinol* 2-14;21(1):71-3.
- 7) Boo SH, Hong JW, Heo MJ. *A case of neurilemmoma in the nasal vestibule. Journal of Rhinology* 2008;15(2):140-3.
- 8) Nam GY, Jung MJ, Kwon JH, Kim JY. *A Case of Schwannoma in the Nasal Vestibule. J Clinical Otolaryngol* 2014; 25:195-8.
- 9) Berlucchi M, Piazza C, Blanzuoli L, Battaglia G, Nicolai P. *Schwannoma of the nasal septum: a case report with review of the literature. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2000; 257(7):402-5.
- 10) Wang L, Tai C, Ho K, Kuo W, Chai C. *Schwannoma of the nasal septum: a case report. Kaohsiung J Med Sci* 2004;20(3):142-5.
- 11) Tidmore T, Calhoun KH, Hirschi S, Miick R. *Columellar schwannoma. Ear Nos Throat J* 2009;88(10):E38-40.
- 12) Lida S, Aikawa T, Kishino M, Sakai T, Nakano Y, Okura M, et al. *Spheric mass beneath the alar base: MR images of nasolabial cyst and schwannoma. AJNR Am J Neuroradiol* 2006;27(9):1826-9.
- 13) Hegazy HM, Snyderman CH, Fan C, Kassam AB. *Neurilemmomas of the paranasal sinuses. Am J Otolaryngol* 2001;22(3):215-8.
- 14) Jung SG, Han SY, Kim DE, Ahn BH. *A case of schwannoma of the nasal septum. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2010;53(8):497-500.
- 15) Koh TK, Bae WY, Rha SH. *A case of nasal schwannoma coexisting with epidermal cyst. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2013;56(12):787-90.
- 16) Song JW, Jang SU, Kim JY, Kwon JH. *A radicular cyst cutaneous fistula which was misunderstood as a nasolabial cyst. J Clinical Otolaryngol* 2014;25(2):211-4.