

구개부 다형선종 수술시 구개건막의 보존 4례

서울대학교 의과대학 분당서울대학교병원 이비인후과학교실
한승철 · 조형동 · 김정규 · 차원재

Four Cases of Palate Pleomorphic Adenoma Resection using Surgical Plane of Palatine Aponeurosis

Seung Cheol Han, MD, Hyung Dong Jo, MD, Jeong-Kyou Kim, MD and Wonjae Cha, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Seoul National University Bundang Hospital, Seoul National University College of Medicine, Seongnam, Korea

– ABSTRACT –

Pleomorphic adenoma is one of the most common benign neoplasm of salivary glands and resection with enough normal tissue margin is important treatment for preventing the local recurrence. For palate tumor involving both soft palate and hard palate, palatal fistula is easier to occur as post-operative complication after resection of the tumor. The palatine aponeurosis is important anatomical barrier between soft palate and nasal cavity, and we found that by using palatine aponeurosis as surgical plane, we can do R0 resection of the tumor with preventing the palatal fistula complication. Also, we used inguinal full thickness skin graft to protect the exposed palatine aponeurosis in some cases. We analyzed 4 cases of palate pleomorphic adenoma resection using palatine aponeurosis as surgical plane and those operations were done by single surgeon. All of 4 patients had no palatal fistula and also had no recurrence of the tumor during the post-operative course. (J Clinical Otolaryngol 2021;32:158-162)

KEY WORDS: Anatomy; Oral fistula; Palate; Adenoma, pleomorphic.

서 론

다형선종은 소타액선 종양의 70%를 차지하며, 구강 내에서 가장 흔한 위치는 구개부이고, 그 다음으로는 상순, 볼점막 등이 있다.^{1,2)} 다형선종의 경우, 음성 변연 절제가 가장 좋은 치료 방침이다.^{3,4)} 그렇기 때문에 구개부에 발생한 다형선종의 경우, 연구개, 경구개, 구인두를 포함하는 큰 결손이 남는 경우가 있을 수 있고, 이러한 점은 발음이상, 비음, 비구개 누공, 구개범인두 역류 등의 증상을 일으킬 수 있다. 구개건막은 구개골의 뒤쪽

아래쪽 표면에 붙어 있으며, 연구개 쪽에서 경구개 쪽으로 위치하는 얇은 섬유성 막으로, 구개긴장근의 건이 뻗어져 구성하고 있으며, 범거근, 구개인두근이 기시한다. 이러한 해부학적 근거로, 최근 저자들은 4례의 구개부 다형선종 환자들의 수술에서 구개건막을 중요한 수술적 절개면으로 사용하며, 이를 보존하는 데 중점을 두었고, 구개건막 보존 하 시행한 구개부 종양제거 및 술 후 합병증 예방을 성공적으로 체험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: August 3, 2021 / Revised: September 2, 2021 / Accepted: September 10, 2021

Corresponding author: Wonjae Cha, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Seoul National University Bundang Hospital, Seongnam 13620, Korea

Tel: +82-31-787-7413 · Fax: +82-31-787-4057 · E-mail: chawonjae@gmail.com

중 례

4례의 환자들은 54세 남성 1명(사례 1)과 57세 여성 2명(사례 2, 4) 67세 여성 1명(사례 3)으로 구성되어 있었다. 각각의 구개부 종물의 크기는 1.7 cm(사례 1), 3 cm(사례 2), 1.5 cm(사례 4), 2.0 cm(사례 3)이었으며, 수술 전 펀치 생검을 통한 조직검사 결과들은 모두 다형선종이었다. 또한 4명의 증례 환자들 모두 구개부 골 침범은 없었다. 이에 4개의 사례들에서 모두 종양 기준 앞쪽인 경구개의 골막 아래 수술면과, 종양 기준 뒤쪽인 구개건막 수술면, 양쪽에서의 접근을 통한 박리를 진행하기로 결정하였다. 경구개쪽 종양의 골막하 수술면을 따르는 박리는 경구개가 끝나는 부분 직전까지 진행하고 멈추었고, 뒤쪽의 연구개쪽 종양 경계면의 절개를 통해 구개부근육들을 확인하고, 이들의 표재부부터 박리하여 구개건막을 노출시켰다. 이후 구개건막의 박리는 두꺼운 섬유지방층(fibrofatty layer)을 만날 때까지 지속하다가, 마지막으로 골막하층과, 두꺼운 섬유지방층, 구개건막을 모두 이어줌으로써 구개부 종물을 안전하게

제거하였다. 수술 후 최종 조직검사 결과는 모두 다형선종이었다.

사례 1과 사례 2의 경우에서 이러한 수술 방식을 알 수 있는 사진들을 첨부하였다(Fig. 1 and 2). 사례 3, 4의 경우에도 수술 방식은 동일했고, 구개부 종물은 적절한 변연을 가지고 안전하게 제거되었다(Fig. 3). 사례 1과 사례 3의 경우에서 종양의 위치와 구개건막의 위치를 참고할 수 있는 수술 전 MRI(magnetic resonance imaging) 영상을 첨부하였다(Fig. 4).

사례 1, 2의 경우, 수술 후 이물감과 통증에 대한 환자의 지나친 걱정이 있어 노출된 구개건막과 섬유지방층을 덮어주기 위해 서혜부 전층피부이식을 시행하였고, 그 위로 compression tie over suture를 시행해 2주간 유지해 혈종, 장액종을 예방하였다(Fig. 1D and 2D). 수술 후 외래 경과 관찰 상 전층피부이식 여부에 관계없이 4례의 환자들 모두 비구강 누공, 비음, 발음이상 등의 부작용은 없었고, 상처 부위도 잘 회복되었으며, 재발의 증거도 관찰되지 않았다.

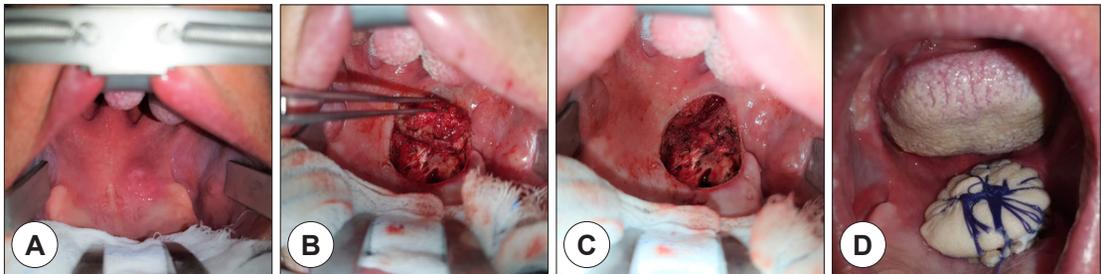


Fig. 1. Case 1. (A) Pre-operative state, (B) during resection, the place of forceps is palatine aponeurosis, (C) after resection, (D) post-operative state, compression tie over suture done.

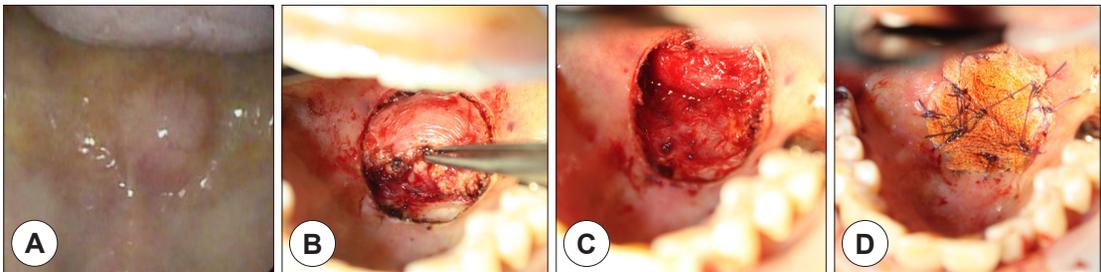


Fig. 2. Case 2. (A) Pre-operative state, (B) during resection, the place of forceps is palatine aponeurosis, (C) after resection, (D) post-operative state, compression tie over suture done.

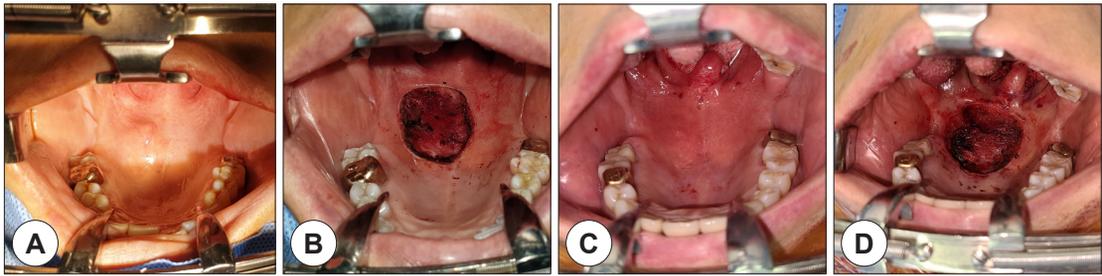


Fig. 3. Case 3, 4. (A) Case 3 Pre-operative state, (B) case 3 Post-operative state, (C) case 4 Pre-operative state, (D) case 4 Post-operative state.

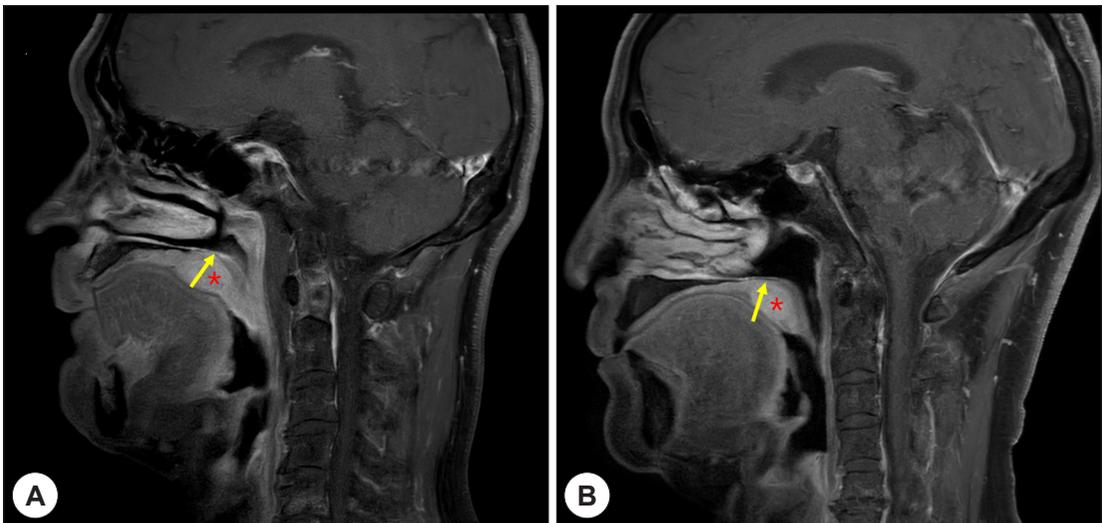


Fig. 4. MRI T1 gadolinium enhanced image of pre-operative state. (A) Case 1 Pre-operative state; arrow - palatine aponeurosis; asterisk - main mass, (B) case 3 Pre-operative state; arrow - palatine aponeurosis; asterisk - main mass. MRI, magnetic resonance imaging.

고 찰

다형선종은 타액선 종물 중 가장 흔한 질환으로, 다형선종의 80%~90%는 이하선에서 발생한다. 반면, 구강 내 소타액선 종물 중 40%는 다형선종이며, 이들 중 54% 정도는 구개부에서 발생하는 것으로 알려져 있다.⁴⁾ 다형선종은 양성종물이지만, 1.9%~23.3%의 악성화 가능성을 가지고 있고, 다형선종의 재발이 Carcinoma ex-pleomorphic adenomas 등과 같은 악성화를 유발한다고 알려져 있어, 종양을 둘러싸는 종양막(capsule) 및 연부조직을 포함해 충분한 변연을 둔 국소적 절제를 필요로 한다.³⁻⁶⁾ 아울러 수술 이후에도 지속적인 경과

관찰이 필요하다.^{6,7)} 다형선종의 재발은 주로 수술 중 종양세포유출, 종양막의 파열, 불충분한 절제가 원인이 되기 때문에, 종양막의 파열 없이 충분한 변연으로 박리해내는 것이 매우 중요하다.³⁻⁷⁾ 본 연구에서의 구개부전막 보존하 다형선종 제거 방식 사례 4개는 모두 종양막의 파열 없이 충분한 변연으로 박리하여 완전종양절제가 되었다.

소타액선의 다형선종은 대개 얇은 섬유성막을 가지고 있으며, 국소적으로 공격적인 성향이 있어 주변 뼈들을 잘 침범한다. 그렇기 때문에 종양이 뼈 및 골막 침범 소견을 보인다면 절제는 반드시 이들을 포함하여 이루어져야 하며, 재발을 막기 위해 sharp spoon이나 bur

등을 사용할 수 있다.^{1,3,8)} 하지만 이러한 결과로 비구개 누공이 생기는 경우, 술 후 환자에게 식이시마다 상당한 불편감을 유발하게 되며, 술 후 추가적인 치료가 필요해지는 경우에도 까다로워지게 된다. 그렇기 때문에 비구개 누공을 해결하는 다양한 방식이 연구되어 왔다. 특히 연구개 부위 종물 제거의 경우, 연조직의 육아조직이 발생하도록 기다리거나,^{3,6,8,9-11)} 주변의 남은 조직들이 충분히 당겨진다면, 이들을 당겨 봉합해주시도 한다.^{1,3,4,7,12,13)} 결손의 크기에 따라, 유리피판술이나 국소피판을 시행하는 경우도 있다. 대구개동맥을 이용하여 반대쪽 경구개에서 전층피판을 회전하는 피판술이 많이 알려져 있고,^{3,4,14)} 성형외과에서는 Wassmund - Borusiewicz 법을 사용하기도 한다.^{1,15)} 하지만, 이러한 치료들은 복잡하고, 육아조직이 증식해 결손을 메우는 데에도 꽤 많은 시간이 걸린다.¹⁶⁾ 본 연구진의 과거 경험으로는, 작은 비구개 누공도 막히는데 적어도 6개월에서 1년이 걸렸고, 그나마도 모두 외래에서 여러번 TCA chemocauterization를 시행하여 상당한 어려움을 겪은 바 있다. 그러므로, 뼈나 골막의 침범이 없는 다형선종은, 구개부 결손을 만들지 않고 제거하는 것이 가장 좋겠다.

이에 본 연구는, 뼈나 골막의 침범이 없는 구개부 종물을 제거하는 경우, 경구개의 골막 아래 절개면과, 구개건막 절개면 양쪽에서의 박리를 진행하는 방식으로 구개건막을 보존하였고, 이를 통해 구개부 종양제거 및 술 후 합병증 예방에 성공하였다.

구개건막은 연구개 쪽에서 경구개 쪽으로 위치하는 얇은 섬유성 막으로, 구개긴장근의 건이 뺏어져 구성하고 있다. 또한 구개골의 뒤쪽 아래쪽 표면에 붙어 있

며, 이 층에서 범저근이 가운데 부분에서, 구개인두근이 가쪽에서 기시한다. 반면 섬유성 지방층은 경구개의 뒤쪽 끝 부분에서 경구개의 코쪽, 입쪽 골막이 합쳐져 연구개 쪽으로 이어지는 두꺼운 층으로, 연구개의 코쪽 점막의 바로 아래에 위치하며, 구개인두근으로 이어진다. 이러한 해부학적 근거로, 본 연구에서는 Fig. 5와 같이 종양의 박리를 진행했다.

경구개쪽 박리를 골막하 수술면을 따라 진행하다가 경구개가 끝나는 부분 직전에서 멈추는 것은(Fig. 5B), 골막하 수술면 박리를 경구개 끝부분까지 지속하면 비강쪽의 골막부분을 경계부에서 만나게 되고, 이는 비구개 누공 합병증 발생의 주요한 원인이 되기 때문이다. 그 뒤 연구개쪽 종양의 경계면 절개로 범저근, 구개인두근 등의 구개부근육들을 확인하고, 이들의 표재부를 수술면으로 박리해 구개건막을 노출시키며, 이에 이어지는 두꺼운 섬유지방층(fibrofatty layer)을 만날 때까지 박리한다(Fig. 5C). 마지막으로 이전에 경구개부 쪽에서 박리해 두었던 골막하층과, 두꺼운 섬유지방층, 구개건막을 모두 연결해주고, 구개부 종물을 제거한다(Fig. 5D). 이러한 수술적인 방식으로 본 연구진은 연구개와 경구개 사이에 위치하는 다형선종을 코쪽 구개부 골막, 두꺼운 섬유성 지방층, 구개건막을 모두 보존하며 제거하고, 비구개 누공을 막을 수 있었다.

본 연구에서 제시한 연구개와 경구개 사이에 위치한 구개부 양성 종물의 수술적 접근법은 비강과 구강 사이의 경계부를 보존하는데 상당한 장점이 있다. 하지만 구개부 다형선종 중, 구개부 골막이나, 구개골이 침범된 경우에는 이러한 방식을 적용해서는 안된다. 그러한 경우에는 다형선종의 올바른 치료법이 충분한 변연을

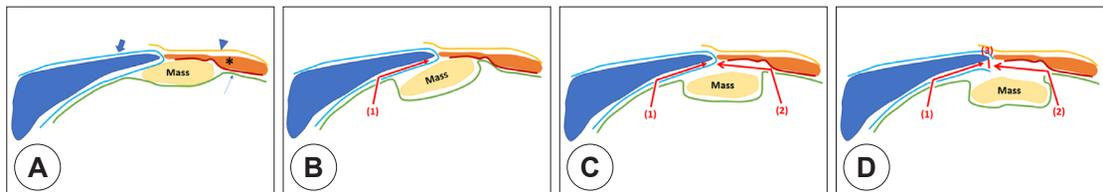


Fig. 5. Operation procedure. (A) Palate anatomy sagittal view; thick arrow - palate periosteum; arrow head - nasal side mucosa; thin arrow - oral side mucosa; asterisk - palatal muscle; thick line under palatal muscle is palatine aponeurosis. (B) Anterior incision and periosteal dissection following periosteal layer. (C) Posterior incision of supra-palatal muscle and dissection following supra-palatal aponeurosis. (D) Connecting the two planes (periosteal layer and palatine aponeurosis layer).

가진 절제이기 때문에, 골막과 침범된 골이 제거되어야 하기 때문이다. 또한 본 연구의 수술법을 사용하는 경우에도 항상 남은 구개부 종물이 없도록 반드시 신경 써야 한다. 그렇기 때문에 상당히 섬세한 박리가 중요 하겠다.

중심 단어: 해부학, 구비강누공, 구개, 다형선종

Acknowledgements

Not applicable.

Funding Information

Not applicable.

Conflict of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

ORCID

Seung Cheol Han, <https://orcid.org/0000-0003-1981-9334>
Hyung Dong Jo, <https://orcid.org/0000-0002-1294-6018>
Jeong-Kyou Kim, <https://orcid.org/0000-0003-3562-1678>
Wonjae Cha, <https://orcid.org/0000-0001-7292-9474>

Author Contribution

Conceptualization: Han SC, Cha W.
Data curation: Han SC, Jo HD, Kim JK.
Formal analysis: Han SC.
Methodology: Han SC, Cha W.
Software: Han SC.
Validation: Han SC, Cha W.
Investigation: Han SC, Jo HD, Kim JK.
Writing - original draft: Han SC.
Writing - review & editing: Cha W, Jo HD, Kim JK.

Ethics Approval

This article does not require IRB/IACUC approval because there are no human and animal participants.

References

- 1) Passi D, Ram H, Dutta SR, Revansidha Malkunje L. Pleomorphic adenoma of soft palate: unusual occurrence of the major tumor in minor salivary gland: a case report and literature review. *J Maxillofac Oral Surg* 2017;16(4):500-5.
- 2) Spiro RH. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2,807 patients. *Head Neck Surg* 1986;8(3):177-84.
- 3) Patigaroo SA, Patigaroo FA, Ashraf J, Mehfooz N, Shakeel M, Khan NA, et al. Pleomorphic adenoma of hard palate: an experience. *J Maxillofac Oral Surg* 2014;13(1):36-41.
- 4) Forde CT, Millard R, Ali S. Soft palate pleomorphic adenoma of a minor salivary gland: an unusual presentation. *Case Rep Otolaryngol* 2018;2018:3986098.
- 5) Chaturvedi M, Jaidev A, Thaddanee R, Khilnani AK. Large pleomorphic adenoma of hard palate. *Ann Maxillofac Surg* 2018;8(1):124-6.
- 6) Erdem MA, Çankaya AB, Güven G, Olgaç V, Kasapoğlu C. Pleomorphic adenoma of the palate. *J Craniofac Surg* 2011; 22(3):1131-4.
- 7) Arumugam P, Christopher PJ, Kumar S, Kengasubbiah S, Shenoy V. Pleomorphic adenoma of the palate: a case report. *Cureus* 2019;11(3):e4308.
- 8) Gupta M, Gupta M. Pleomorphic adenoma of the hard palate. *BMJ Case Rep* 2013;2013:bcr2013008969.
- 9) Sharma Y, Maria A, Chhabria A. Pleomorphic adenoma of the palate. *Natl J Maxillofac Surg* 2011;2(2):169-71.
- 10) Singh S, Shivamurthy DM, Agarwal R. Pleomorphic adenoma of the soft palate. *J Maxillofac Oral Surg* 2010;9(1):76-7.
- 11) Debnath SC, Saikia AK, Debnath A. Pleomorphic adenoma of the palate. *J Maxillofac Oral Surg* 2010;9(4):420-3.
- 12) Hmidi M, Aatif H, Boukhari A, Zalagh M, Messary A. Pleomorphic adenoma of the soft palate: major tumor in a minor gland. *Pan Afr Med J* 2015;22:281.
- 13) Sahoo NK, Rangan MN, Gadad RD. Pleomorphic adenoma palate: major tumor in a minor gland. *Ann Maxillofac Surg* 2013;3(2):195-7.
- 14) Clauser L, Mandrioli S, Dallera V, Sarti E, Galiè M, Cavazzini L. Pleomorphic adenoma of the palate. *J Craniofac Surg* 2004;15(6):1026-9.
- 15) Rahnama M, Orzędala-Koszel U, Czupkało Ł, Łobacz M. Pleomorphic adenoma of the palate: a case report and review of the literature. *Contemp Oncol* 2013;17(1):103-6.
- 16) Hang-Rip K, Sang-Hun S, Cheol-Hun K. Reconstruction of palatal defect using palatal flap. *J Korean Oral Maxillofac Surg* 2003;29:455-9.