



# A Case of Intraosseous Cavernous Hemangioma of the Inferior Turbinate

Yoon Heo<sup>1</sup> , Ye-Sol Jung<sup>1</sup> , Jun Yeon Won<sup>1,2</sup> , and Woo Hyun Lee<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Department of Otolaryngology, Kangwon National University Hospital, Chuncheon; and

<sup>2</sup>Department of Otolaryngology, School of Medicine, Kangwon National University, Chuncheon, Korea

## 하비갑개에서 발생한 골내 해면혈관종 1예

허 윤<sup>1</sup> · 정예솔<sup>1</sup> · 원준연<sup>1,2</sup> · 이우현<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>강원대학교병원 이비인후과, <sup>2</sup>강원대학교병원 의과대학·의학전문대학원 이비인후과학교실

**Received** December 30, 2021

**Revised** March 10, 2022

**Accepted** March 15, 2022

**Address for correspondence**

Woo Hyun Lee, MD

Department of Otolaryngology,

Kangwon National

University Hospital,

156 Baengnyeong-ro,

Chuncheon 24289, Korea

**Tel** +82-33-258-9108

**Fax** +82-33-258-9486

**E-mail** sniper212@hanmail.net

Various types of tumors can occur within the nasal cavity, among which non-epithelial tumors are relatively rare and most are benign. Being a non-epithelial tumor, intraosseous cavernous hemangioma (ICH) is very rare and makes up 0.7% to 1.0% of the total bone tumors. It can occur anywhere in the body but mainly in the vertebrae and calvarium. In addition, when it occurs, it does mostly in the maxilla, mandible and nasal bone but uncommonly in the facial bones. It is thus extremely rare for ICHs to occur in the inferior turbinate and only five such case reports have been published to date in English literature and none in Korea. Here we report a case of ICH of the right inferior turbinate in a 43-year-old male.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(6):408-11

**Keywords** Hemangioma; Turbinates; Vascular malformations.

## 서 론

비강 내에는 다양한 종류의 종양이 발생 가능하며, 그 중 비상피성 종양은 비교적 드문 질환으로 대부분이 양성종양이다.<sup>1)</sup> 비상피성 종양 중에서도 골내 해면혈관종(intraosseous cavernous hemangioma)은 전체 골 종양 중 0.7%~1.0%에 해당하는 매우 드문 종양으로서 전신에서 발생 가능하나 주로 척추와 두개골에서 발생한다.<sup>2)</sup> 안면골에서 발생하는 경우는 드물고 그 중에서도 대부분이 상악골, 하악골, 비골에서 발생한다.<sup>3)</sup> 골내 해면 혈관종이 하비갑개에서 발생하는 경우는 극히 드물어서 외국 문헌에서 단 5예<sup>1,4-7)</sup>가 보고되었고, 국내에서는 중비갑개에 발생한 2예<sup>8)</sup>가 보고되었고, 하비갑개에서 발생한 경우는 보고된 바가 없다.

본 저자들은 최근 우측 하비갑개에서 발생한 골내 해면 혈관종 1예를 경험하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. 본 연구는 환자 증례 보고로 강원대학교병원 생명의학연구윤리심의위원회(Institutional Review Board)부터 심사면제 받아 진행되었다(2021-12-019).

## 증 례

43세 남자 환자가 10년 전부터 시작된 우측 비폐색을 주소로 내원하였다. 환자는 비폐색 이외의 동반증상은 없었다. 또한 내원 이전에 외상이나 수술 등의 과거력은 없었다. 비내시경 검사를 통해 비중격이 우측으로 편위된 것을 확인하였고, 우측 비강의 공간이 하비갑개의 종괴로 인해 가득 찬 것을 확인하였다. 종괴는 단단한 양상이며 정상 점막조직으로 덮여있었다. 부비동 전산화단층촬영에서 우측 하비갑개에 2.3×1.5 cm 크기의 종괴가 확인되고, 내부에는 고음영의 석회화된

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

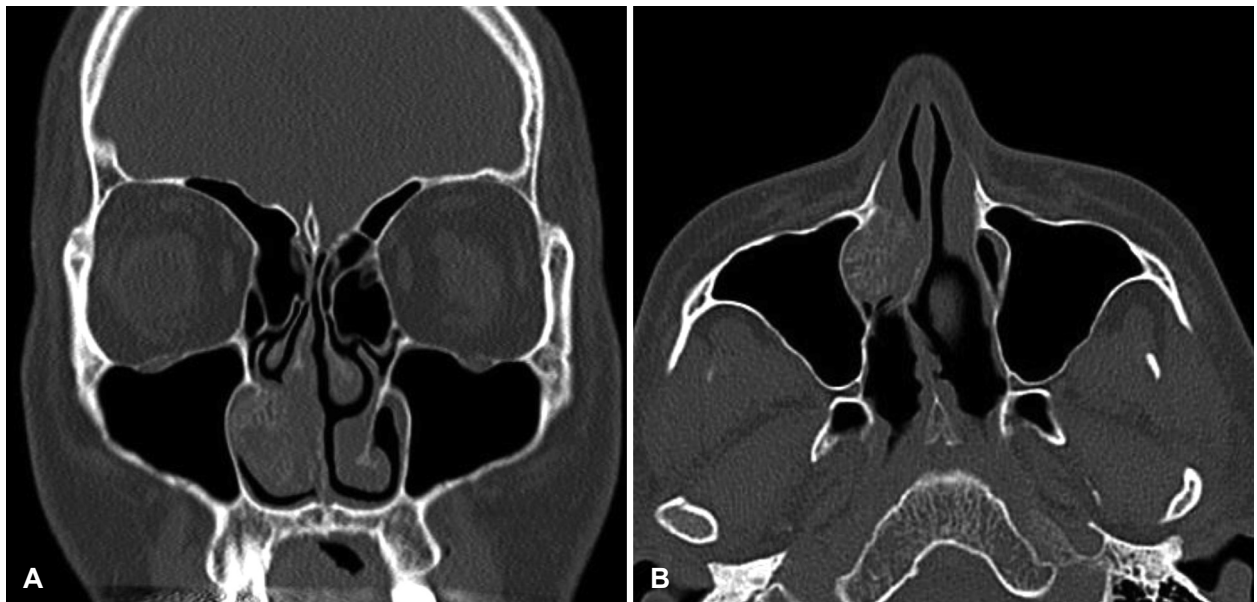
조직이 혼합되어 있음을 확인하였다(Fig. 1).

우측 비내 종물 제거 및 우측 비중격편위의 교정을 위해 전신마취하에 비중격교정술 및 하비갑개축소술을 시행하였다. 비내시경을 통해 우측 비강에서 정상 점막에 싸여 있는 하비갑개 종창을 확인하였고(Fig. 2A), 내시경하 점막하 절제를 시행하였다. 비내시경을 통해 하비갑개 점막 절개 후 잔기둥(trabecula)이 얹혀있는 양상의 종물(Fig. 2B)을 확인하였고 이를 절제하여 조직검사를 시행하였다. 이후 주변 변연을 포함하여 미세절삭기를 이용한 중앙감출술(debulking)을 시행하였고 하비갑개 점막 피판을 덮어 내부 조직을 보호하였다. 수술 중 출혈은 경미하였고 종물과 근접한 점막을 제외한 주변 점막은 보존하였다(Fig. 2C). 우측 하비갑개에서 절제한 종괴는 정상 점막 조직으로 싸여 있는 스폰지 모양의 단단한 골성 조직으로 되어 있었다(Fig. 3). 조직검사에서는 뼈잔기둥

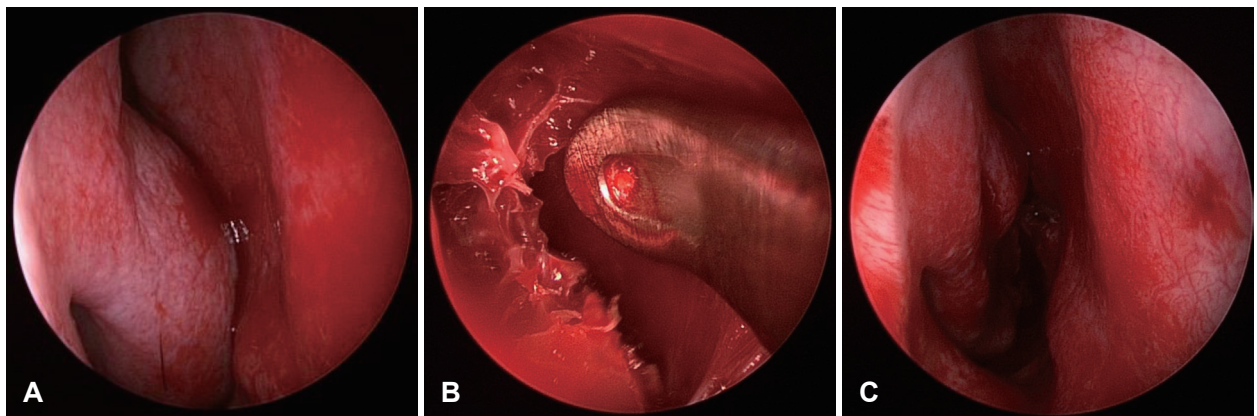
(bone trabeculae)이 확인되었고, 그 사이로 얇은 혈관 벽으로 된 혈관 공간(thin-walled vascular space)이 혼합된 양상을 보여 골내 해면혈관종으로 확인되었다(Fig. 4). 수술 후 호소하던 비폐색은 호전되었고, 현재 수술 1년 동안 증상의 재발이나 합병증은 없으며 하비갑개 상부의 돌출 부위에 대해서는 잔여 종괴로 인한 재발 여부 확인을 위해 추적 관찰 중이다(Fig. 5).

## 고 찰

혈관종(hemangioma)은 혈관 구조물에서 기원한 양성 종양을 의미하며, 50% 이상이 두경부 영역에서 발생하고 주로 구강 및 구순부에서 호발하며 드물게 비부비동 영역에서 발생한다. 조직학적으로는 혈관종을 모세혈관성(capillary type),



**Fig. 1.** Preoperative evaluation. The preoperative ostiomeatal unit CT finding shows a soap-bubble-like mass with calcified density from the right inferior turbinate in the coronal view (A) and the axial view (B).



**Fig. 2.** Intraoperative endoscopic image. A: A preoperative endoscopic image of the right nasal cavity revealing the bulging mass arising from the inferior turbinate. B: An intraoperative image showing the trabeculated structure in the submucosal area. C: Postoperative image.



해면성(cavernous type), 혼합성(mixed type)으로 분류할 수 있다. 모세혈관성 혈관종은 1세 이전에 발생하며 자연적으로 퇴화하는 경우가 많고, 해면성 혈관종은 주로 성인에서 나타나며 외상성 원인에서 기원하는 경우가 많다.<sup>9)</sup> 대부분의 혈관종은 연조직에서 기원하는 경우가 많지만 드물게 골조직 내의 혈관 구조물로부터도 발생이 가능하다.

골조직 기원의 혈관종인 골내 혈관종(intraosseous hemangioma)은 전체 골종양의 0.7%~1.0%에 해당하는 매우 드문 종류로 알려져 있으며, 대부분 척추 또는 두개골 등에서 발생한 예가 보고되고 있다.<sup>2)</sup> 안면골에서 발생하는 경우는 대부분이 상악골 또는 하악골과 같이 상대적으로 크기가 큰 골조직에서 기원하는 경우가 많고, 크기가 작은 비부비동 영역의 골조직에서는 발생하는 경우가 극히 드물다.<sup>10)</sup> 골내 혈관종은 서서히 자라는 특성 때문에 갑자기 증상을 나타내는 경우는 흔치 않고 안면골에서 발생한 경우 안면의 변형을 통해 발견이 가능하나 비부비동 영역에서의 병변은 증상이 미

미한 경우가 많아 감별진단이 쉽지 않다.

비부비동 영역에서 발생한 골내 해면혈관종(intraosseous cavernous hemangioma)은 증상을 일으킬 만한 크기가 되기까지는 환자가 호소하는 증상만으로는 진단이 어렵고, 비내시경을 통한 종괴의 발견과 전산화단층촬영을 통한 영상학적 특징을 통해 임상적 추정이 가능하다.<sup>7)</sup> 이전의 문헌 보고에 따르면 골내 해면혈관종은 컴퓨터전산화촬영에서 골융해를 일으키는 종괴 내부에 잔기둥을 형성한 형태로 나타나며 전체적으로 비누거품 모양 또는 벌집 모양의 양상을 보인다.<sup>11)</sup> 하비갑개에서 발생하는 해면혈관종은 무증상의 종물로 나타나는 경우가 대부분이며, 골종(osteoma), 골화성 섬유종(ossifying fibroma), 섬유성 이형성증(fibrous dysplasia), 혈관섬유종(angiofibroma), 소타액선 종양(minor salivary gland tumor) 등과의 감별진단이 필요하다.

하비갑개에서 발생한 골내 해면혈관종은 임상적 증상 및 영상학적 방법만으로는 정확한 진단이 어렵기 때문에 진단과 치료를 위해서는 수술적 절제가 필요하다. 영상의학적으로 충분한 변연을 확보하여 완전절제한 경우 재발의 빈도는 낮은 것으로 보고된다.<sup>12)</sup> 혈관종은 방사선 치료에 반응하는 것으로 알려져 있으나 악성화나 조직의 불균형 성장 등의 장기 합병증 등을 고려하였을 때 수술적 절제가 더 선호된다.<sup>13)</sup> 그 외에

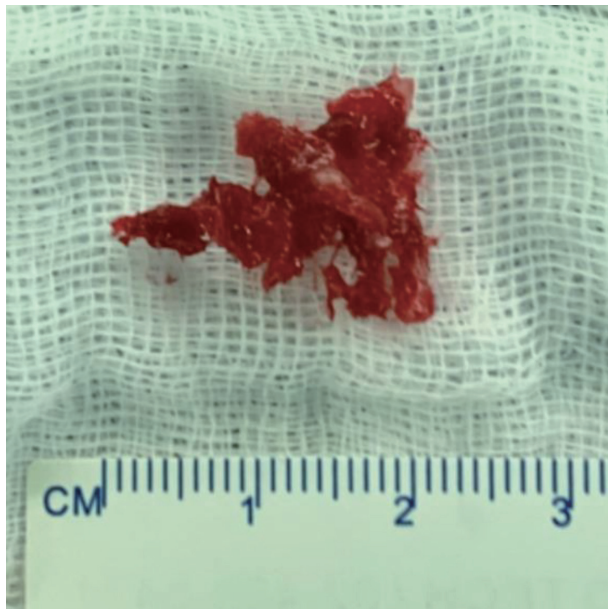


Fig. 3. An excised mass from the right inferior turbinate.

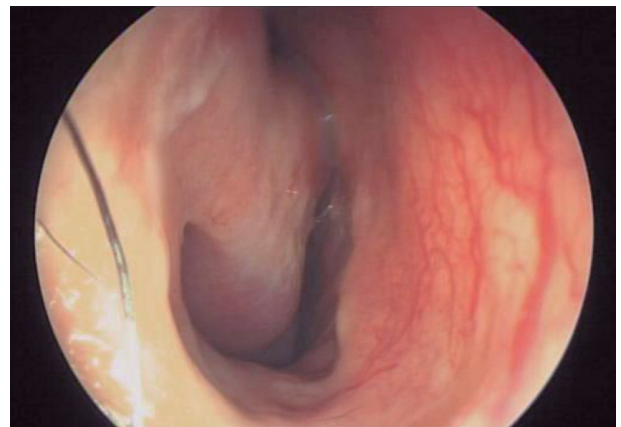


Fig. 5. 1-year postoperative follow-up image.

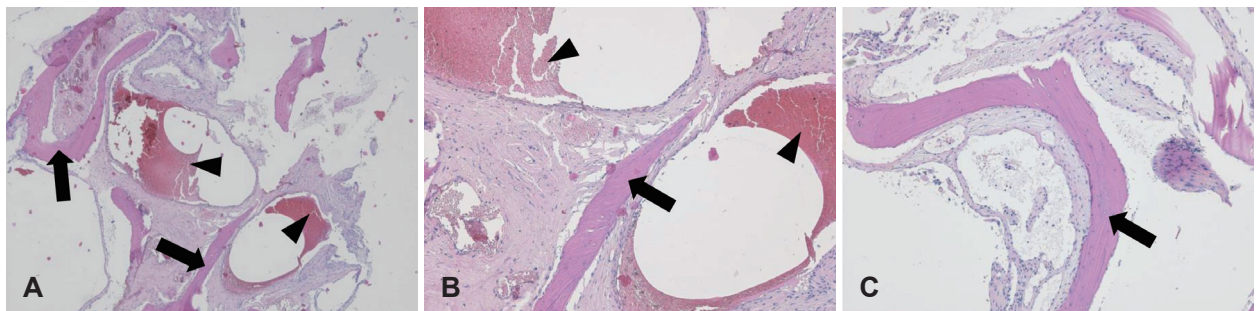


Fig. 4. The pathologic examination showing widely separated bone trabeculae (arrows) and thin-walled vascular spaces (arrowheads) (hematoxylin and eosin staining; A,  $\times 40$ ; B,  $\times 100$ ; C,  $\times 100$ ).

도 경화요법 또는 혈관색전술을 시행해 볼 수 있으나 이는 고식적 치료방법으로서 치료 효과는 제한적이다.<sup>14)</sup>

본 증례에서는 우측 하비갑개에서 발생하여 비폐색 증상을 나타낸 골내 해면혈관종을 비내시경을 통한 점막하 절제를 통하여 제거하였다. 또한 조직병리 검사를 통하여 뼈잔기 등과 같은 골성구조와 혈관내피세포의 증식이 혼재되어 있음을 확인하였다. 골내 해면혈관종은 비갑개와 같은 비부비동 영역에서 매우 드물게 발생하는 양성 종양이고, 천천히 진행되는 임상 양상을 보이나 크기가 커짐에 따라 비강 내 폐쇄를 일으켜 증상을 나타낼 가능성이 있다. 따라서 비내시경과 전산화단층촬영의 특징적 소견 등을 종합하여 골내 해면혈관종이 의심되는 경우 수술적 절제생검을 통하여 진단 및 치료를 시행하는 것이 추천된다.

## Acknowledgments

None

## Author Contribution

Conceptualization: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Formal analysis: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Supervision: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Visualization: Yoon Heo. Writing—original draft: Yoon Heo. Writing—review & editing: Ye-Sol Jung, Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee.

## ORCIDs

Yoon Heo	<a href="https://orcid.org/0000-0003-3372-7241">https://orcid.org/0000-0003-3372-7241</a>
Ye-Sol Jung	<a href="https://orcid.org/0000-0003-2383-0675">https://orcid.org/0000-0003-2383-0675</a>
Jun Yeon Won	<a href="https://orcid.org/0000-0002-1615-3760">https://orcid.org/0000-0002-1615-3760</a>
Woo Hyun Lee	<a href="https://orcid.org/0000-0001-7725-4146">https://orcid.org/0000-0001-7725-4146</a>

## REFERENCES

- 1) Fahmy FF, Back G, Smith CE, Hosni A. Osseous haemangioma of inferior turbinate. *J Laryngol Otol* 2001;115(5):417-8.
- 2) Park BH, Hwang E, Kim CH. Primary intraosseous hemangioma in the frontal bone. *Arch Plast Surg* 2013;40(3):283-5.
- 3) Moore SL, Chun JK, Mitre SA, Som PM. Intraosseous hemangioma of the zygoma: CT and MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2001;22(7):1383-5.
- 4) Akiner MN, Akturk MT, Demirtas M, Atmis EO. Intraosseous cavernous hemangioma of inferior turbinate: A rare case report. *Case Rep Otolaryngol* 2011;2011:431365.
- 5) Goomany A, Prowse S, Smith I. Intraosseous cavernous haemangioma of the inferior turbinate. *BMJ Case Rep* 2015;2015:bcr2015212624.
- 6) Sarkar S, Roychoudhury A, Roychoudhuri BK. Intractable anemia: A case of bleeding nasal cavernous hemangioma. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2011;63(Suppl 1):23-4.
- 7) Takeda K, Takenaka Y, Hashimoto M. Intraosseous hemangioma of the inferior turbinate. *Case Rep Med* 2010;2010:409429.
- 8) Kim YM, Han WK, Choi JW, Rha KS. Two cases of osseous hemangioma of the middle turbinate. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2008;51(9):842-5.
- 9) Baki A. Nasal cavity hemangiomas. In: Almasri MA, Kummoona R, editors. *Maxillofacial Surgery and Craniofacial Deformity-Practices and Updates*. London: IntechOpen;2020. p.67-72.
- 10) Sáenz AA, Porto NF, Sánchez MP. Intraosseous cavernous hemangioma: Presentation of a clinical case. *Egypt J Neurosurg* 2018;33(1):1-6.
- 11) Park M, Kim EJ, Jang JH, Lee KM, Choi WS, Kim SW, et al. Intraosseous hemangioma of the nasal septum: A case report. *J Korean Soc Radiol* 2015;73(2):113-5.
- 12) Peterson DL, Murk SE, Story JL. Multifocal cavernous hemangioma of the skull: Report of a case and review of the literature. *Neurosurgery* 1992;30(5):778-81; discussion 782.
- 13) Caylakli F, Çağici AC, Hürcan C, Bal N, Kizilkiliç O, Kiroglu F. Cavernous hemangioma of the middle turbinate: A case report. *Ear Nose Throat J* 2008;87(7):391-3.
- 14) Relf SJ, Bartley GB, Unni KK. Primary orbital intraosseous hemangioma. *Ophthalmology* 1991;98(4):541-6; discussion 547.

1) Fahmy FF, Back G, Smith CE, Hosni A. Osseous haemangioma of