

# 상악골에 발생한 섬유점액종 1예

단국대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

이 동 준 · 정 영 준

## A Case of Fibromyxoma of the Maxilla

Dong-Jun Lee, MD and Young-Jun Chung, MD

Department of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery, Dankook University College of Medicine, Cheonan, Korea

Fibromyxoma is a rare mesenchymal tumor that is benign, but locally invasive. It is a slow-growing painless tumor with the potential for extensile bony destruction and cortical expansion and shows a relatively high recurrence rate. Fibromyxoma is found predominantly in the jaw, with the mandible more frequently affected than the maxilla. We recently experienced a case of fibromyxoma originating from the maxilla in a 50-year-old woman who complained of swelling on the right side of her cheek. En bloc resection via a sublabial approach and middle meatal antrostomy were performed. A diagnosis of fibromyxoma was based on pathologic findings. No recurrence or locally residual lesion has been found during 2-years follow up. Therefore, we present this rare case with a review of the literature.

**KEY WORDS:** Fibromyxoma · Maxilla.

## 서 론

섬유점액종(fibromyxoma)은 10대에서 30대에 걸쳐 나타나며, 성별에 따른 차이는 없는 것으로 보고되는 매우 드문 질환으로, 상악골보다는 하악골에 주로 발생한다. 천천히 자라며 국소적으로 침습적이고, 팽창성으로 증식하는 종양으로 대부분 환자들은 무증상의 종창을 호소하나, 동통, 감각 이상, 과민증, 치아의 감각 소실을 나타낼 수도 있다.

영상학적으로 섬유점액종은 대부분 경계가 잘 지어진 단방성(unilocular) 혹은 다방성(multilocular)의 방사선 투과성으로 관찰되나, 경우에 따라서는 방사선 비투과성 또는 혼합성 종괴 양상으로 보이기도 한다.

McClure 등은 Mayo clinic에 내원한 11,000명의 원발성

골종양을 분석한 결과에서 안면골 이외 부위에서 발생한 섬유점액종은 넙다리뼈(femur)에서 발생한 3예에 불과했음을 보고하여,<sup>1)</sup> 섬유점액종이 안면골에 주로 발생하는 희귀 질환임을 확인하였다.

조직학적으로는 양성이나, 주변을 공격적으로 침습하는 특징을 가진 섬유점액종의 치료는 병소 크기나 범위에 따라 단순한 적출술부터 광범위 절제술에 이르기까지 다양한 의견이 존재하고 있다.

저자들은 우측 견치와 부위의 종창을 주소로 내원한 우측 상악골의 섬유점액종 1예를 구순하 접근법을 통해 제거한 뒤, 술 후 재발 여부를 평가하기 위해 경증비도 상악동 개방술을 동시에 시행한 후 2년이 지난 시점까지 재발 소견을 보이지 않는 양호한 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고

논문접수일: 2017년 1월 19일 / 수정완료일: 2017년 3월 14일 / 심사완료일: 2017년 3월 31일

교신저자: 정영준, 31116 충남 천안시 동남구 망향로 201 단국대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Tel: +82-41-550-3974, Fax: +82-41-556-1090, E-mail: entdocjung@hanmail.net

이 연구는 2016학년도 단국대학교 대학연구비 지원으로 연구되었음.

하는 바이다.

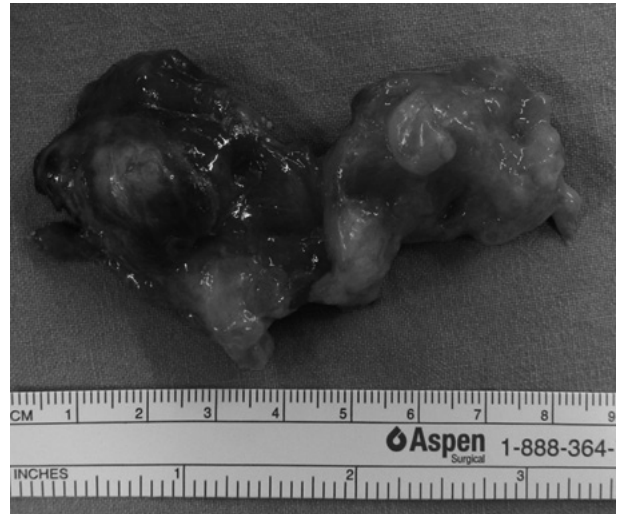
## 증 례

50세 여자 환자가 우측 견치와 부위의 종창을 발견하여 내원하였다. 신체 검진에서 우측 견치와 부위의 종창 소견 이외에 안면부의 외형적 변화는 관찰되지 않았고, 구강과 비강, 비인강 등 타 부위에 이상 소견은 보이지 않았다. 특히 질환에 대한 과거력이나 외상력 그리고 수술력은 없었다. 견치와 부위의 종창 부위는 딱딱하였으며, 통증이나 압통을 동반하지는 않았다. 병변의 평가를 위해 전산화단층촬영을 시행하였고, 3.8 cm 상당의 조영 증강되지 않는 낭성 종물이 우측 상악동 부위에서 관찰되었고, 상악동 전벽과 후벽의 골 미란 소견을 동반하였다(Fig. 1). 수술 전 치성 낭종일 가능성을 염두에 두고 구순하 접근법과 부비동 내시경 수술을 계획하였다. 전신 마취 하에 우측 견치부터 제 1대구치까지 잇몸 부분과 입술의 안쪽 점막 사이의 경계 부위에 4~5 cm의 절개를 가한 뒤 점막골막 피판을 들어올려 상악골을 노출시키자, 피막으로 덮힌 연분홍색의 종양이 주위 조직과 잘 경계 지어져 있었다. 악성 종물의 가능성을 배제하기 위해 동결 절편 검사를 시행하여 양성 점액종 병변임을 확인하였다. 상악동 내부를 가득 채우고 있는 종양으로 수술 기구의 접근이 쉽지 않아 조직 검사를 시행한 부분으로 흡입 절삭기(microdebrider)를 삽입하여 종양의 부피를 줄여준 후 국소 전파(local seeding)의 위험성을 방지하고자 피막 부위에 환상 봉합(purse string suture)을 시행하였다. 종양은 피막에 둘러 쌓여 주위 조직과 유착 없이 쉽게 박리되었으며, 종양의 기시부로 판단되는 부분을 중심으로 1.5 cm 정도의 점막을 소파술(curettage)과 드릴을 이용해 제거하였다(Fig. 2).

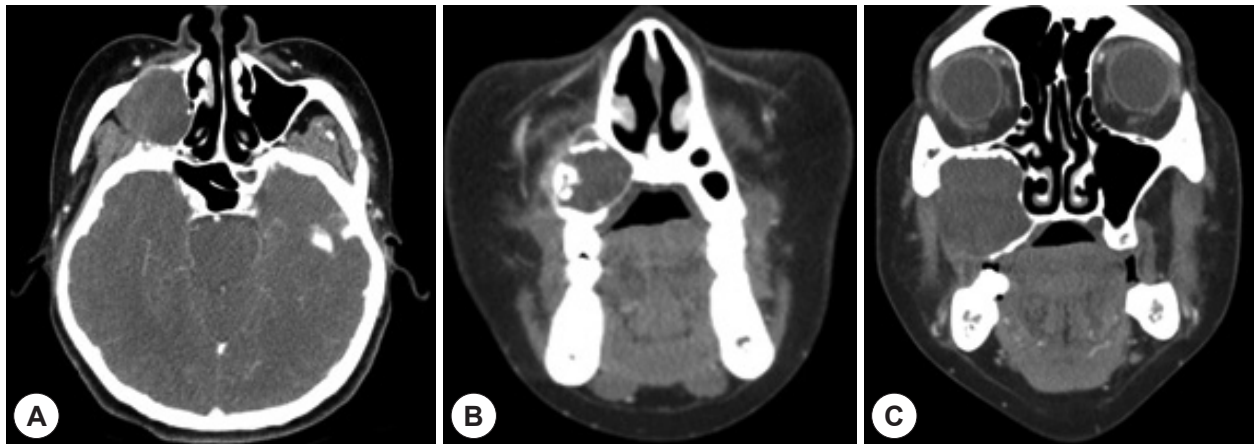
이어서 술 후 병변의 재발 여부를 내시경적으로 추적관찰하기 위해 경중비도 상악동 개방술을 시행한 후 수술을 종료하였다. 병리 조직학적 소견 상 저밀도 점액성 기질 속에 불규칙적인 방추상 세포들이 관찰되었으며, 면역 조직화학 염색상 vimentin에 반응을 보이는 섬유점액종으로 판명되었다(Fig. 3). 술 후 2일째 퇴원하였으며, 수술 후 2년이 경과된 시점까지 특이 합병증이나 재발 소견 없이 외래 추적 관찰 중이다.

## 고 찰

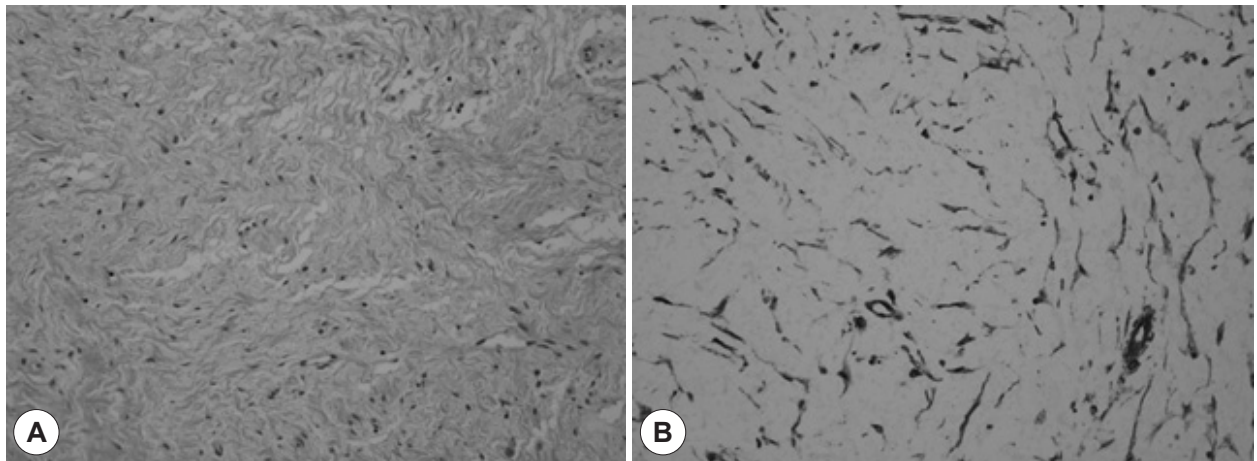
섬유점액종의 60%는 안면골에서 발생하며, 이 중 75%가 상악과 하악에 호발한다.<sup>2)</sup> 하악의 치성 섬유아세포나 기타



**Fig. 2.** Gross finding (cutting view in the middle) reveals a grayish gelatinous mass having a glistening mucoid appearance. The mass appears well circumscribed and encapsulated.



**Fig. 1.** Axial (A) and coronal (B and C) CT scans show that 3.8×3.5×3.3 cm non-enhancing low attenuated expansile cystic mass with bone erosion nature in the right maxillary sinus.



**Fig. 3.** Histological appearance of fibromyxoma shows that cellular myxoid lesion with bland stellate and spindle cell (A, H & E stain, ×200) and fibromyxoma cells are immunohistochemically positive for vimentin (B).

연부 조직의 중간엽 잔존물의 발생 과정 이상에 의해 초래되며, 양성 종양임에도 종양 자체의 공격적인 성향으로 수술 후 재발이 흔한 것으로 알려져 있다. 임상적으로 섬유점액종은 무증상인 상태로 우연히 발견되거나, 상악동을 포함하여 병이 진행됨에 따라 신경학적 이상이나 점진적인 통증을 호소하는 경우도 간혹 있다. 주로 상악보다 하악에 호발하며 상악에 발생한 경우에는 더욱 공격적인 임상 양상을 보여 종괴의 팽창으로 인한 치아 결손과, 안면 변형, 부정 교합이 발생하는 사례가 보고되고 있다.<sup>3)</sup> 영상학적으로 방사선 투과성의 단방성(unilocular) 혹은 다방성(multilocular)양상을 보이며 주로 단방성 병변이 턱뼈의 전방에서 발견되는 반면, 다방성 병변은 턱뼈의 후방에서 발견되는 경향이 있다.<sup>4)</sup> 단방성 병변일 경우에는 치근단낭(periapical cyst), 치주성낭종(periodontal cyst), 외상성골낭(tramatic bone cysts)과의 감별이 필요하며, 다방성 병변일 경우는 범랑질아세포종(ameloblastoma), 혈관종(hemangioma), 치성각화낭(odontogenic keratocyst)과의 감별이 필요하다.

광범위한 골파괴로 병적 골절을 유발시키는 치성각화낭과는 임상적으로 구분되는 것과는 달리 일반적인 치성 낭종들은 임상적으로 무증상인 경우가 많아 임상적으로 섬유점액종과 감별이 쉽지 않으며, 치근단낭, 범랑질아세포종, 치성각화낭 같은 치성 낭종들은 섬유점액종과 같이 단순 방사선 검사에서 방사선 투과성을 보여, 전산화단층촬영 및 자기 공명 영상 등의 추가 영상학적 검사들이 치성 낭종 및 악성 종양과의 감별에 유용하다.<sup>5)</sup> 전산화단층촬영에서 섬유점액종은 경계가 비교적 명확하고, 국소적인 골파괴를 동반하며 조영 증강되지 않는 균질한 종괴로 보이는 경우가 많다. 자기 공명 영상에서 섬유점액종은 T1 강조영상에서는 저신호 강

도를 나타내며, T2 강조영상에는 고신호 강도를 나타내는 것으로 알려져 있으나, 종양 내의 점액양 물질의 밀도와 구성비에 따라 다양한 양상을 보일 수 있다. 본 증례에서는 전산화단층촬영 상 치성 낭종일 가능성이 높다고 판단하여 추가적인 영상학적 평가 없이 수술을 진행하였으나, 악성 종양이나 다른 치성 낭종과의 감별을 위해 자기 공명 영상과 같은 추가적 술 전 평가가 시행되었다면 점액양 물질의 밀도 차이에 따른 소견 차이에 따라 술 전 감별 진단에 도움이 되었을 것으로 판단된다.

섬유점액종은 치아의 매몰이나 탈락 치아와 연관성이 높은 것으로 알려져 있는데, 병리 조직학적 검사에서 치성 상피가 같이 발견되는 비율이 높다는 것이 이를 뒷받침한다.<sup>6)</sup> 본 증례에서는 조직 검사상 치성 잔류물의 증거가 보이지 않아 섬유점액종의 정확한 기원을 밝힐 수는 없었으나, 조직학적 소견상 저밀도 점액성 기질 속에 불규칙하게 배열된 방추상 세포와 함께, 면역화학적으로 vimentin에 양성 소견을 보여 섬유점액종으로 진단 내릴 수 있었다. 실제로 치성 상피의 존재 유무는 섬유점액종 진단에 꼭 필요한 조건이 아닌 것으로 알려져 있다.<sup>7)</sup>

치료는 조직학적으로 양성 종양임에도 국소 침습 소견을 보이고 불완전 절제 시 재발하는 경우가 많아 광범위 절제가 치료 원칙이나, 술 후 후유증과 외모적 변형을 막기 위한 소파술 및 국소 절제술부터 완전 절제술까지 다양하게 문헌에 보고되고 있어 수술 범위에 대해서도 이견들이 존재하고 있다.<sup>8)</sup> 국내에서 상악동에 발생한 점액종을 내측 상악절제술과 안면부 중앙부 노출법으로 종양을 적출한 보고들이 있으며,<sup>9)10)</sup> 이런 광범위 절제술은 재발의 위험을 낮출 수 있는 반면, 술 후 미용적인 문제나 저작 기능의 심각한 후유증

을 초래할 가능성이 있다. 이에 반해 piecemeal surgery 후 재발 유무를 추적 관찰하는 방법은 종양 절제 과정 중에 피낭(encapsulation)이 소실되면서 국소 전파(local seeding)의 위험성이 있어 정상 구조물을 최대한 보존하기 위해 무리하게 수술 범위를 최소화하는 경우는 재발의 위험성을 높일 수 있다.<sup>11)</sup> 실제로 접형동에서 기원한 점액종을 제거하는 과정에서 피낭이 소실되고, 종양 기시부의 점막을 광범위하게 절제하지 못하여 재수술을 시행한 사례가 보고된 만큼,<sup>12)</sup> 재발을 줄이기 위해서는 수술 중 피낭 소실 방지와, 종양 주변 조직을 충분히 제거할 수 있는 수술법을 선택하는 것이 바람직하다.

본 증례는 종양이 상악골에서 발생하고 상악동에 국한되어 있어 구순하 접근법을 통해 조직 검사 후 피막 부위에 환상 봉합(purse string suture)을 시행하여 피낭 소실로 인한 종양의 국소 전파를 방지하면서 종양을 기시부 점막을 포함해 완전 절제했다는 점에서 기존 문헌에 보고된 증례들과 차이점을 보이는 임상적 의의가 있다고 판단된다. 또한, 수술 후 재발은 일반적으로 2년 내로 보고되고 있기 때문에,<sup>13)</sup> 최소한 이 기간 동안은 외래에서 추적 관찰을 통한 재발 여부를 평가하는 것이 필수적이라 하겠다.

중심 단어 : 섬유점액종 · 상악골.

## REFERENCES

1) McClure DK, Dahlin DC. Myxoma of bone. Report of three cases.

- Mayo Clin Proc 1977;52(4):249-53.
- 2) Andrews T, Kountakis SE, Maillard AA. Myxomas of the head and neck. Am J Otolaryngol 2000;21(3):184-9.
- 3) Chiodo AA, Strumas N, Gilbert RW, Birt BD. Management of odontogenic myxoma of the maxilla. Otolaryngol Head Neck Surg 1997;117(6):S73-6.
- 4) Chuchurru JA, Luberti R, Cornicelli JC, Dominguez FV. Myxoma of the mandible with unusual radiographic appearance. J Oral Maxillofac Surg 1985;43(12):987-90.
- 5) Kim YH, Choi JS, Kim BH, Kang SH, Lim DJ, Yu MS. A Large Dentigerous Cyst Found in the Mandible. J Rhinol 2013;20(1):46-9.
- 6) Stout AP. Myxoma, the tumor of primitive mesenchyme. Ann Surg 1948;127(4):706-19.
- 7) White DK, Chen S, Mohnac AM, Miller AS. Odontogenic myxoma. A clinical and ultrastructural study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1975;39(6):901-17.
- 8) Harris RJ, Garrow E, Spinnato G. Myxoma of the maxilla: report of case. J Oral Surg 1977;35(1):70-3.
- 9) Suh SH, Kim SR, Jung YS, Kang HJ. Fibromyxoma Arising from the Maxilla: A Case Report. Korean Journal of Otolaryngology-Head and Neck Surgery 1999;42(10):3121-5.
- 10) Kim YM, Song SY, Lee CJ. A case of myxoma of the maxillary sinus. Korean Journal of Otolaryngology-Head and Neck Surgery 1998;41(12):1614-6.
- 11) Kim DH, Jung H, Han TH, Park SK. Myxoma of the Maxillary Sinus: A Case Report. Korean Journal of Otolaryngology-Head and Neck Surgery 2007;50(1):76-9.
- 12) Park JY, Dhong HJ, Chung SK, Kim HY. Myxoma of Sphenoid Sinus. J Rhinol 2012;19(2):141-4.
- 13) Pahl S, Henn W, Binger T, Stein U, Remberger K. Malignant odontogenic myxoma of the maxilla: case with cytogenetic confirmation. J Laryngol Otol 2000;114 (7):533-5.