

비강내에 발생한 해면상혈관종 1례

동아대학교 의과대학 이비인후과학교실
서세훈 · 정용수 · 김동환 · 조명준

A Case of Cavernous Hemangioma in the Nasal Cavity

Se-Hoon Suh, M.D., Yong-Soo Jeong, M.D.,
Dong-Hwan Kim, M.D., Myung-Jun Cho, M.D.
Department of Otolaryngology, College of Medicine, Dong-A University, Pusan

= Abstract =

The hemangiomas are the most common congenital disease in the head and neck region of the human. They are broadly classified as capillary, cavernous and mixed (capillary-cavernous). Cavernous hemangiomas commonly occur on subglottic area and skeletal muscles in head and neck region, but they are extremely rare in the nasal cavity.

We have experienced a case of cavernous hemangioma in the nasal cavity which was removed with minimal blood loss after vascular embolization.

We report this case with review of literatures.

KEY WORDS : Cavernous hemangioma, Nasal cavity, Vascular embolization

서론

혈관종은 인체에서 가장 흔히 발생하는 선천성 종물로 신생아의 2.6% 정도에서 발견되며 두경부영역에서 가장 흔히 볼 수 있다. 이는 크게 모세상혈관종, 해면상혈관종 그리고 혼합성혈관종으로 분류된다. 이중 해면상혈관종은 자연퇴화가 적다고 알려져 있으며 두경부에서는 골격근과 성문하부에서 흔히 보고되나 비강내에서는 아주 드물게 발생하며 국내에서의 보고는 아직 없다. 최근 저자들은 비강내에 발생한 해면상혈관종 1례를 혈관색전술후 소량의 출혈만으로 쉽게 제거할 수 있었기에 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

중례

환자 : 이○섭, 33세, 남자
초진일 : 1996년 5월 9일
주소 : 우측 비폐색 및 비출혈
가족력 : 특이 사항 없음.
과거력 : 특이 사항 없음.
현병력 : 내원 1개월전부터 간헐적인 두통과 심한 우측 비폐색이 있었고 내원 5일전부터는 우측의 심한 비출혈이 있어 개인의원에서 전산화 단층촬영을 시행한 결과 출혈성 종양이 의심되어 본원 이비인후과로 전원되었다.

이학적 소견 : 우측 하부 비강을 채우는 4×3cm 크기의 출혈성 연분홍 종양(Fig. 1)과 좌측으로의 비중격 만곡이 관찰되었다.

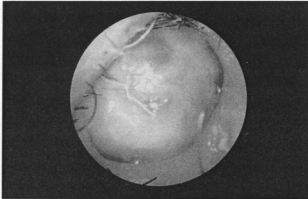


Fig. 1. Nasal endoscopic finding. Pale and pinkish mass in right nasal cavity which was firm and easy to bleed

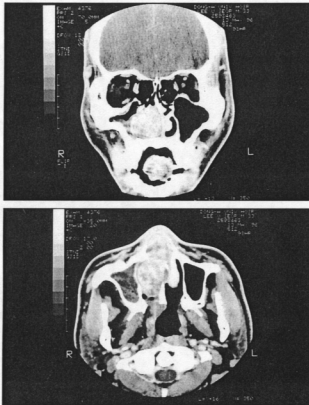


Fig. 2. Preoperative CT scan with enhancement. A huge, inhomogenous and well enhanced mass was noted destructing the medial wall of right maxilla and deviating the septum. A : Coronal view. B : Axial view.

검사실검사 소견 : 특이 사항 없음.

방사선검사 소견 : 부비동 단층촬영소견상 우측 비강을 채우고 있는 4×3cm의 크고 비균질성인 연조직 음영의 종양과 이 종양으로 인한 우측 상악동 내측벽의 파괴 및 비중격 만곡이 관찰되었고, 우측 상악동 내에는 액체저류소견을 보이고 있었다(Fig. 2). 혈관조영촬영소견은 우측 외경동맥 및 상악동맥조영술상 late arterial phase에서 하안와동맥, 접형구개동맥, 대구개동맥으로부터 혈액을 공급받는 비균질성의 혈관괴가 우측 비강하부에서 관찰되었다(Fig. 3A). 혈관색전술후의 혈관조영촬영상 우측 비강으로의 혈액 공급이 차단된 소견을 보였으나 약간의 부행 혈류 순환(collateral blood supply)이 관찰되었다(Fig. 3B).

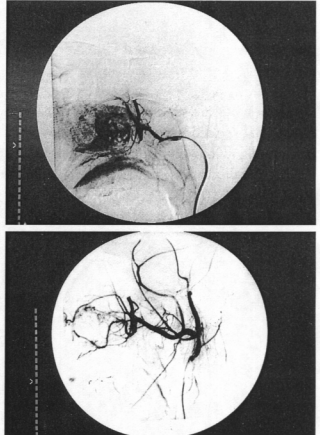


Fig. 3. Angiographic finding. A : Pre-embolization. Rich blood supply to the mass from infraorbital artery, sphenopalatine artery and greater palatine artery. B : Post-embolization. Blood supply to the mass was decreased, but collateral vascular supply was seen.

수술 소견 : 수술 3일전 Ivalon과 Gelfoam으로 절형구개동맥, 대구개동맥, 하안와동맥에 전색술을 시행한 후 종양의 크기가 약간 감소하였고 암적색으로 변한 모습이 관찰되었다. 수술은 전신마취 하에서 시행하였고 관통절개(transfixion incision), 치은협부절개(gingivobuccal incision), 연골간절개(intercartilagenous incision)를 이용하여 안면중앙부 노출술(midfacial degloving)로 이상와(pyriform aperture)를 노출시킨 다음 내측 상악절제술(medial maxillectomy)을 시행하여 종양을 제거하였다. 수술시야에서는 하비갑개에서 생긴 종양이 아래쪽으로는 하비도의 외측벽 및 상악동의 내측벽을 파괴시키면서 상악동내로 침범되어 있었고 뒷쪽으로는 내익돌관까지, 위쪽으로는 중비갑개의 부착부 아래까지 확장되어 있었다. 비중격은 종양으로 인해 좌측으로 밀려 있었고 부분적으로 비중격 점막과 종양이 유착되어 있어 비중격 점막의 일부와 함께 종양을 제거하였다. 상악동내에는 배출의 장애로 인해 생긴 것으로 생각되는 갈색의 액체가 저류되어 있었다. 수술시 출혈은 거의 없어 수혈 없이 수술할 수 있었다.

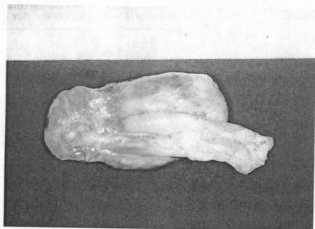


Fig. 4. Gross finding. A 4.0×3.5×1.5 cm sized, blue-reddish mass which was adherent to the small cord-like inferior turbinate

병리조직학적 소견 : 육안 소견상 종양은 암적색으로 4.5×3.0×1.5cm 크기의 비교적 경계가 분명한 타원형이었으며 한쪽 끝이 종양에 밀려 삭(cord)모양으로 남은 하비갑개의 일부와 유착되어 있었다(Fig.

4). 현미경 소견상 안쪽에 혈전을 포함하는 다발성의 낭포성 공간들이 형성한 결체조직으로 싸여있었고, 그 내면은 편평한 혈관내피세포로 되어있었다(Fig. 5).



Fig. 5. Histologic finding. Dilated and thin walled vascular spaces filled with multiple thrombi, surrounded with loose stroma(H & E, × 400)

술후경과 : 수술후 출혈은 보이지 않았으며 혈관색 전술에 의한 것으로 추정되는 간헐적인 우측 측두부 두통 및 협부 통통을 호소하였으나 약 2개월 후 소실되었으며 현재까지 종양의 재발은 관찰되지 않았다.

고 찰

혈관종은 인체 피부에 흔하게 생기는 양성 종양으로 생후 1년까지 백인 신생아의 10-12%, 미국아의 23%에서 발생한다.¹⁾ 두경부에서는 주로 피부, 성문 하부 및 이하선에서 호발하며²⁾ 두경부의 혈관종은 주로 선천성으로 알려져 있으며 원인으로서는 발생학적 기형, 혈관 형성과정에서의 과오종 혹은 혈류역학의 이상 등에 의한다고 한다. Sasaki등³⁾은 임신부나 사춘기때 증식기의 혈관종에서 estradiol-17 beta 수용체의 수가 급격히 증가되어 있다는 사실을 발견하였고, 이러한 사실을 바탕으로 증식기의 혈관 형성을 설명하였다. 최근의 연구에서는 혈관종의 발생과 HLA-B40 항원과의 상관관계에 관해서도 보고되고 있으며,⁴⁾ 비만세포에서 분비되는 heparin이나 다른 혈관형성인자(angiogenic factor)들이 혈관종의 증

식에 관련되어 있다고 보고되고 있다.⁵⁶⁾ 혈관종은 주로 해면상, 모세상, 혼합형으로 나뉘며, 조직학적으로는 단순 또는 모세상혈관종, 해면상혈관종, 위혈관상 혈관종, 비후성혈관종 등 4가지 형태로 분류하기도 한다. 한편 Mulliken등⁷⁾은 혈관종의 조직학적 및 생리학적 특성을 고려해 증식기(proliferating phase), 퇴행기(involuting phase)로 나누기도 하였다.

해면상혈관종은 주로 사지의 골격근에서 발생하고⁵⁾ 비강내에서는 아주 드문 질환으로 비강내에서 발생한 경우 40대 이후에 주로 비강개에서 발생한다.⁸⁾ 또한 이것은 비교적 성장이 늦어 오랜 기간에 걸쳐 발생하며 동통이 있는 경우가 많아서 모세상혈관종보다 비교적 진단이 용이한 경우가 많다.⁹⁾ 조직학적으로는 진피의 심부나 피하조직에 큰 정맥관이나 동양혈관으로 구성되어 있으며,¹⁾ 모세상혈관종의 일부도 포함되어 있는 혼합형이 더 흔하게 발생한다.^{4,10)} 발생빈도는 해면상혈관종이 모세상혈관종에 비해 1/10 수준이며 선천성 해면상혈관종은 출생시 아주 드물지만 생후 첫 6 개월간 빠른 성장을 보이기도 한다.¹⁾ 또한 모세상혈관종과는 달리 해면상혈관종은 자연 퇴화가 적고 완전한 흡수는 아주 드물며, Klippel-Trenaunay-Weber syndrome이나 Maffucci's syndrome, Blue rubber bleb nevus syndrome 등의 몇 가지 선천성 질환들과 연관되어 있다.¹⁾ 해면상혈관종은 주변의 관절강이나 구강 및 호흡기관 그리고 안과주변의 조직 등을 침범한 경우 이들 기관들의 기능장애를 일으켜 심각한 합병증을 야기시킬 수 있다.¹⁾ 두경부 혈관종의 진단방법으로는 철저한 이학적 검사와 병력 청취 그리고 종양의 존재와 그 범위를 결정하기 위해 도플러초음파검사법, 전산화단층촬영, 혈관조영술, technetium 스캔 등이 사용되고 있다.⁵⁾

두경부 혈관종의 치료 방법은 여러 가지가 사용되고 있으며, 발생부위, 연령, 크기, 증식기 또는 퇴행기의 단계 등에 따라 적절한 치료방법을 선택해야 할 것이다.⁵⁾ 구체적인 치료방법으로는 다음과 같은 것들이 있다. 우선 자연적 소실을 기다리며 추적 관찰하는 방법으로 유소아의 경종의 혈관종일 경우에 해당되며, 방사선요법은 동통의 감소, 종양의 축소 등의

효과가 있으나 재발이 많고 후일 악성종양의 발생 및 소아에서의 성장장애와 관련이 있다고 하여 최근에는 잘 사용하지 않는다.¹¹⁾ 또 sodium morrhuate나 ethanol 등 경화성 약제의 주입 요법이 있으며, 혈관조영술을 이용하여 gelfoam등으로 색전시키는 방법,¹²⁾ 한냉수술(cryosurgery) 등이 있다. 대부분이 모세상혈관종인 성문하 혈관종과 같은 경우 CO2 laser에 의한 내시경적 제거술을 시행해 볼 수도 있다. 그리고 전신요법 또는 국소요법으로 스테로이드를 사용해 볼 수도 있는데, 이는 내인성 혈관수축매개체의 혈관내 작용을 중대시키고 전모세혈관 괄약근(precapillary sphincter)의 수축을 일으키는 것으로 생각된다.¹²⁾ Interferone- α -2a도 혈관 생성을 저해하는 성질을 이용해 혈관종에 사용해 볼 수 있으며,¹³⁾ 주로 스테로이드에 반응하지 않는 위험한 혈관종에 사용하며 심각한 부작용이 없다는 것이 장점이 다. 또한 수술적 제거술이 있는데, 이 경우 종양의 침윤성 때문에 종양이 기원한 근육의 정상부분을 포함하여 완전 제거하는 것이 가장 효과적이며,^{8,13,14)} 술 후 재발율은 9% 정도이다.¹⁵⁾

Kim 등은 혈관종에서의 예후를 결정하는 요인으로서는 첫째, 병변의 해부학적 위치, 둘째는 병변의 크기, 범위 및 깊이, 셋째는 일차 치료의 선택이며, 동정맥류의 숫자가 증가할 수록 자연퇴행의 예후는 나쁜 편이다.¹⁶⁾

결 론

저자들은 최근 심한 비출혈로 인해 빠른 제거가 필요한 비강내의 해면상 혈관종을 혈관색전술후에 많은 출혈 없이 제거할 수 있었기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) McGill TJI, Mulliken JB. Vascular anomalies of the head and neck. In : Cummings CW, Fredrickson JM, Harker LA, Krause CJ, Schuller DE, editors. The Otolaryngology Head & Neck

- Surgery. 2nd ed. St. Louis : Mosby Year Book;1993. p.333-46.
- 2) Persky MS, Bernstein A, Cohen NL. Combined treatment of head and neck vascular masses with preoperative embolization. *Laryngoscope* 1984;94:20-7.
- 3) Sasaki GH, Pang CY, Wittliff JL. Pathogenesis and treatment of infant skin strawberry hemangioma : clinical and in vitro studies of hormonal effects. *Plast Reconstr Surg* 1984;73:359-70.
- 4) Abrahanova J, Majsky A, Bek V. HLA system and Hemangiomas. *Cas Lek Cesk* 1980;119:54-5.
- 5) Stal S, Hamilton S, Spira M. Hemangiomas, lymphangiomas, and vascular malformations of the head and neck. In : Freidman M, editor. *The Otolaryngologic clinics of North America* 1986;19:769-86.
- 6) Glowacki J, Mulliken JB. Mast cells in hemangiomas and vascular malformations. *Pediatrics* 1982;70:48-51.
- 7) Mulliken JB, Zetter BR, Folkman J. In vitro characteristics of endothelium from hemangiomas and vascular malformations. *Surgery* 1982;92:348-53.
- 8) Yanagisawa E, Hausfeld JN, Pensak ML. Sudden airway obstruction due to pedunculated laryngeal polyps. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1983;92:340-3.
- 9) Park SH, Ko KE, Park DS. A case of intramuscular hemangioma of buccinator muscle. *Korean J Otolaryngol* 1986;29:688-91.
- 10) Sato M, Shirasuna K, Imai J, Miyazaki T. Giant cavernous hemangioma of the masseter muscle. Report of a case. *J Oral Surg* 1979;37:496-9.
- 11) Helle TL, Conley FK, Britt RH. Effect of radiation therapy on hemangioblastoma : a case report and review of the literature. *Neurosurgery* 1980;6:82-6.
- 12) Edgerton MT. Steroid therapy of hemangioma. In : Williams HG, editor. *Symposium on vascular malformations and melanotic lesions*. St. Louis : Mosby Year Book;1983. p.74-83.
- 13) Walf GT, Daniel F, Krause CJ, Kaufman DS. Intramuscular hemangiomas of the head and neck. *Laryngoscope* 1985;95:210-3.
- 14) Mizono G, Dedo HH. Subglottic hemangiomas in infants : treatment with CO2 laser. *Laryngoscope* 1984;94:638-41.
- 15) Clemis JD, Briggs DR, Changus GW. Intramuscular hemangioma in head and neck. *Can J Otolaryngol* 1975;4:339-46.
- 16) Kim CH, Joo HK, Choi HS. Venous hemangioma. *Korean J Otolaryngol* 1987; 30:591-5.