

하악골에 발생한 동정맥 기형의 혈관 색전술에 의한 치험례

이승호 · 서대철* · 장현호 · 이부규

울산대학교 의과대학 서울아산병원 구강악안면외과
울산대학교 의과대학 서울아산병원 진단방사선과*

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2003;29:450-454)

TREATMENT OF MANDIBULAR ARTERIOVENOUS MALFORMATION BY EMBOLIZATION : A CASE REPORT

Seung-Ho Lee, Dae-Cheol Seo*, Hyun-Ho Chang, Bu-Kyu Lee

Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery, Asan Medical Center, Medical College of Ulsan University

*Dept. of Diagnostic Radiology, Asan Medical Center, Medical College of Ulsan University**

Mandibular arteriovenous malformations(AVM) are relatively rare and potentially life threatening lesions. Surgical treatment consists of wide resection of the mandible, which is difficult and potentially hazardous due to significant blood loss during surgery. Therefore, some authors advocate that transvenous embolization may be a safer and more effective method in the treatment of mandibular AVM.

We report a treatment case of mandibular AVM in a 9-year-old-girl for episodes of spontaneous bleeding for 6 days using by selective transarterial embolization ,direct puncture embolization and microcoil embolization.

Key words : Mandible, Arteriovenous malformations, Embolization

I. 서 론

동정맥 기형(Arteriovenous malformation, AVM)은 동맥과 정맥 사이에 정상적인 모세혈관이 개재되지 않은채 동맥에서 정맥으로 고혈류의 흐름이 직접적으로 형성되는 혈관 기형질환으로 하악골에 생기는 경우는 전체 혈관 기형 질환의 5% 정도만을 차지할 정도로 희귀한 질환이다²⁾.

이러한 동정맥 기형이 하악골내에 이환되는 경우 매우 드물지만 잠재적으로 과다 출혈을 일으켜 생명을 위협할수 있는 매우 위험한 질환이다^{2,4)}. 통상의 방사선사진상에서는 평범한 낭종이나 양성종양과 유사한 특징을 나타내고 있어 정확하게 감별진단이 되지 않은 상태에서 동요치의 발치등을 포함하는 통상의 치과 치료를 시행할 경우 심각한 결과를 초래할 수 있다.

일반적으로 하악골내에 생긴 동정맥 기형의 치료방법에는 외과적 절제술과 혈관색전술 등이 있지만 외과적 절제술은 하악골의 광범위한 골절제를 요하며 많은 출혈을 동반하게 되고 특히 성장이 완료되지 않은 성장기 환자의 경우에는 장차 하악골 성

장장애를 초래하여 안면 비대칭이나 기능장애가 발생할 수 있다. 그래서 대부분의 경우에 성장이 완료되지 않은 경우나 응급상황시에는 혈관 색전술을 시행하고 있다⁴⁾.

혈관 색전술시 사용되는 재료와 방법은 여러 가지가 있으나 각 증례에 맞게 효율적으로 사용되어야 한다.

본 교실에서는 자발적인 치은출혈을 주소로 응급실에 내원한 9세 여자 환자에 발생한 거대 하악골 동정맥기형에 대하여 혈관 색전술을 사용하여 양호한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

9세의 여자 환아가 2002년 12월 30일에 자발적인 구강내 출혈을 주소로 본원 응급실에 내원하였다.

상기 환자는 응급실에 내원하기 6일전 구강내 출혈이 처음 있었으며 그 이후 특별한 증상없이 지내다 이틀후부터 지속적으로 구강내에서 과도한 출혈을 보여 내원하였다. 응급실 내원 당시 임상검사 소견으로 하악 좌측 제이대구치 치관 주위로 매우 심한 출혈이 관찰되었으며 출혈을 보이는 치아는 약간의 동요도를 보이고 있었다. 다른 특이적인 자발통이나 교합이상, 개구장애, 안면비대칭, 하악골에 대한 외상의 기왕력 등은 없었으며 단지 좌측 악하부 피부 부위에 약간의 bluish discoloration이 관찰되었다.

이 부 규

138-040, 서울시 송파구 풍납동 388-1

아산재단 서울 아산 병원 구강악안면외과

Bu-Kyu Lee

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Asan Medical Center

388-1, Pungnap-Dong, Songpa-Gu, Seoul, 138-040, KOREA

Tel : 82-2-3010-5970 Fax : 82-2-3010-6967

E-mail : bukyu67@yahoo.co.kr

응급으로 시행한 혈액 검사상 헤모글로빈이 6.5 g/dl 으로 정상치에 비하여 많이 떨어져 있었지만 혈소판 수치의 특이적인 감소나 intrinsic coagulation factor의 결핍은 보이지 않았다. 이후 촬영한 파노라마 방사선 사진상에서 좌측 하악골체부와 우각부에 비교적 넓게 경계가 뚜렷하지 않은 방사선 투과상이 관찰되었으며 하악관과 이공이 두드러지게 확장되어 있었다. 또한 하악 제 일소구치에서 제이대구치사이의 치간골에서 뚜렷한 골흡수상을 보였다.(Fig. 1) 초기 파노라마 사진상에서 follicular cyst, central giant cell granuloma, ameloblastic fibroma, aneurysmal cyst, ameloblastoma, AVM으로 잠정 진단을 내리고 환아를 본과에 입원시켰다.

이후 질환의 감별진단을 위해 work up을 시행하였다.

Work up을 위해 촬영한 CT scan상에서 좌측 하악골에서 골흡수성의 팽창을 보이는 병소가 관찰되었다. 질환에 대한 감별진단을 확실하게 하기 위하여 MRI를 촬영하여 AVM으로 진단할수 있었으며(Fig. 2) 혈관 조영 사진상을 통해서 maxillary artery에서 나온 multiple feeding arteries(특히 하치조 동맥)들이 하악골내에 분

포하고 있는 양상을 확인할 수 있었다. Maxillary artery에서 하치조 정맥으로 고혈류가 형성되어 혈류가 drain 되는 내경정맥이 크게 확장되어 있어 전형적인 고혈류의 intraosseous AVM으로 확진할 수가 있었다(Fig. 3).

환자의 나이와 응급 상황 등을 고려하여 femoral catheterization을 통한 혈관 색전술을 시행하기로 하였다. 2003년 1월 6일 retrograde femoral approach를 이용하여 maxillary artery에서 하악에 분포하는 large feeder vessel 2개를 선택하여 n-butyl cyanoacrylate glue embolization을 시행하였다(Fig. 4). 이후 시행한 angiogram에서 동맥의 혈류가 현저히 감소되었다. 동맥을 통한 혈류가 많이 감소된 것을 확인한 후 transfemoral venous approach로 하치조 정맥으로 접근하여 하악 소구치와 대구치 하방에 존재하는 병소의 venous sac(nidus)에 3개의 coil을 삽입하여 coil embolization을 시행하였다. Coil을 삽입한 후 angiogram을 시행하였으며 arterial flow와 venous return은 많이 감소된 것을 확인할 수 있었으나 하악 제이대구치 하방에 존재하던 venous pouch에 국소적인 collateral circulation pressure가 증가하면서 구강내 출혈이 여전히 계속

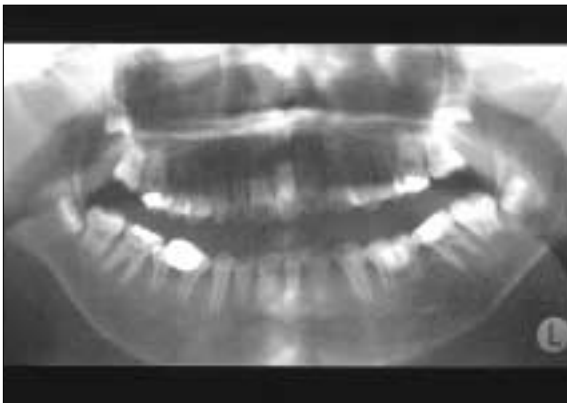


Fig. 1. Interradicular bone resorption state from left mandibular 1st premolar to 2nd molar.

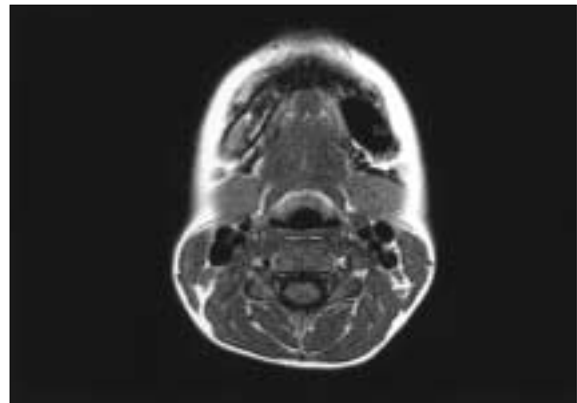


Fig. 2. MRI view.

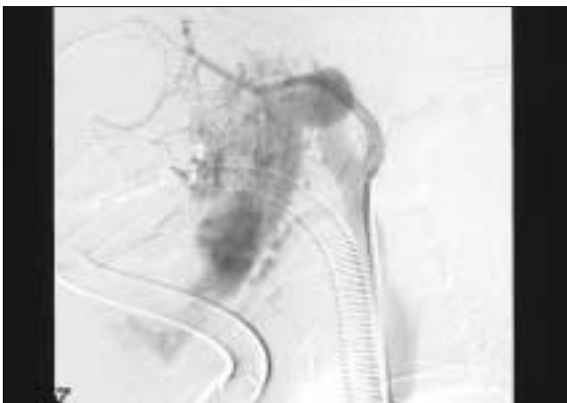


Fig. 3. Angiogram showing high blood flow.



Fig. 4. Selective embolization of larger feeder vessel.

되었다(Fig. 5). 이에 구강내에서 출혈지점을 확인한후 bone biopsy needle을 이용하여 direct percutaneous transmandibular puncture를 시행하여 glue을 병소에 직접 주입하였다(Fig. 6). 더 이상의 구강내 출혈은 관찰되지 않았으며 이후 시행한 angiogram상에서 골내 정맥류의 complete obliteration과 minimal venous drain을 관찰할 수 있었다(Fig. 7).

혈관 색전술후 환아는 소아 중환자실로 옮겨졌으며 출혈여부에 대한 세밀한 관찰을 시행하였다. 더 이상의 치관주위의 출혈은 관찰되지 않았으며 헤모글로빈도 안정적으로 유지되었다.

색전술후에 파노라마상을 촬영하였으며 골내 정맥류에 embolic material 이 적절히 위치되어 있는 것을 볼수가 있었다(Fig. 8a). 술후 5개월까지 시행한 Follow up에서 재발양상은 관찰되지 않았으며 좌측 하악 제이대구치는 안정된 양상을 보였다(Fig. 8b).



Fig. 5. Transoral bleeding state due to locally elevated collateral circulation pressure.



Fig. 6. Embolization by direct percutaneous transmandibular puncture.



Fig. 7. Angiogram following complete embolization.

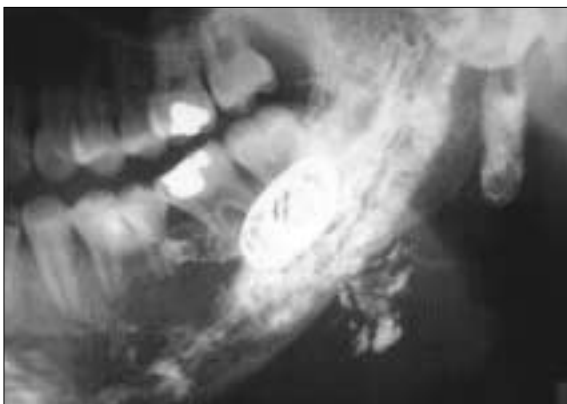


Fig. 8a. Panorama X ray after embolization.

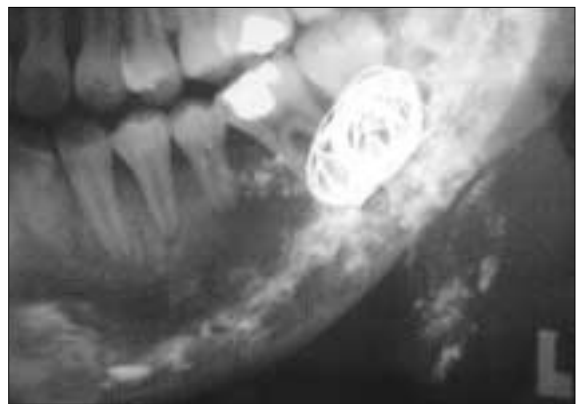


Fig. 8b. Follow up panorama X ray after 5 months.

III. 총괄 및 고찰

동정맥 기형(AVM)은 악안면 영역에 있어서 매우 희귀한 질환이다⁶⁾. 또한 악골내에 이환될 경우 치아 발치등과 같은 치과 처치가 질환에 대한 정확한 진단없이 시행될 경우 많은 출혈을 야기하여 생명을 위협할수 있는 매우 위험한 질환이다⁹⁾. 이러한 악골내 동정맥기형은 대체로 청소년기에 발견되나 발현 연령대가 비교적 넓은 편이어서 생후 3개월에서 70대까지 나타날 수 있다. 악골내 동정맥 기형의 가장 흔한 임상적 징후는 병소에 이환된 치아 주위의 잦은 출혈이다⁹⁾. 다른 임상적 징후로는 안면 비대칭, 동요치, 치은 변색, 이환부위의 맥동성 파지, bruits 등이다.

이러한 동정맥 기형은 통상적인 방사선 사진상에서 경계가 잘 형성 되어 있지 않은 다방성의 방사선 투과상을 나타내며^{3,4,11)} 치근흡수나 인접 치조골이 erosion되는 양상을 나타낼 수 있다. 크기가 작은 동정맥 기형의 병소가 확대될 경우 통상의 방사선 사진상에서 치성 낭종, 양성 종양 등과 유사한 양상을 나타내게 된다. 생각할 수 있는 여러 질환의 감별진단을 위하여 CT나 MRI의 추가 촬영이 필수적이며 확진을 위하여 혈관조영술을 시행한다. 혈관조영술은 동정맥 기형 질환의 진단과 그 정도를 파악하는데 있어 가장 유용한 검사방법¹⁰⁾으로 동정맥 기형 질환에 기여하는 feeding vessels과 collateral circulation, multiple anastomoses 등을 파악할수 있다.

하악골 동정맥 기형의 치료 방법에는 질환에 이환된 부위를 외과적으로 절제하거나 혈관을 완전히 막는 방법이 있다. 병소를 외과적으로 절제하는 방법은 성장중에 있는 환자에 있어서 악안면 부위에 deformity나 functional deficiency등을 초래할수 있으며 술중 과다 출혈을 일으켜 위험 할 수가 있어 어린 나이의 환자가거나 응급 상황 등에서는 적절하지 못하다.

이환된 혈관을 폐쇄하여 동정맥 기형을 치료할수 있는데 혈관을 폐쇄하기 위하여 이전에는 여러 가지 경화제(sodium morrhuate, boiling water, nitrogen mustard, etc)등이 이용되었으나 혈류속도에 의해 경화제가 다른 부위로 급속히 변위되는 등 여러가지 부작용을 일으켜 현재는 사용되지 않고 있다^{7,8)}. 또한 외경 동맥의 결찰이 악골내 동정맥 기형 치료의 보조적인 방법으로 사용되었으나 많은 혈관들(internal carotid, ophthalmic, vertebral, cervical, contralateral external carotid)의 collateral circulation이 나타나므로 유용하지 않다^{4,5,7,8)}.

대개의 경우 femoral catheterization을 이용한 혈관색전술이 많이 사용되고 있다^{7,8)}. 색전술에 사용되는 material 에는 polyvinyl alcohol particles^{3,6)}, muscle, gelfoam, cyanoacrylate^{4,7,8)}, metal coils¹¹⁾, collagen 등이 있다.

동정맥 기형은 재발이 잘되는 질환으로 병소에 대한 main feeding vessel 이 색전술에 의해 막히면 blood flow의 collateral circulation이 생기면서 다른 부위의 혈관이 확장된다. 따라서 한국의 색전술만으로는 만족할 만한 성공을 거둘 수 가 없으며 색전술을 성공하기 위해서는 여러 재료나 방법등을 복합적으로 사용해야 하는 경우가 많다.

색전술에 사용되는 재료중 병소에 대해 원위부에 위치한 동맥

을 색전 시키는데 보다 유용한 재료는 fluid material이며 이를 잘 사용하면 재발의 위험성을 낮출수 있다⁹⁾. 그리고 큰 혈관을 안정성있게 폐색 시키기 위하여 코일이 많이 이용되고 있다. 대부분의 경우 femoral approach를 통해서 혈관색전술을 시행하지만 접근이 어렵고 국소적으로 높아진 blood flow pressure를 효과적으로 조절하기 위하여 최근에는 병소를 덮고 있는 overlying bone을 직접 뚫어서 색전술을 시행하는 direct transosseous puncture embolization이 이용되고 있으며 양호한 결과들이 많이 보고되고 있다⁹⁾.

혈관 색전술 치료에 있어 중요한 고려사항은 flow characteristics를 정확히 평가 하고 적절한 embolic agent을 사용하여 high blood flow를 적절히 조절할수 있는 곳에 위치시키는 것이 관건이다.

본 증례의 경우에는 환자의 연령이 9세로 성장중인 환자였으며 응급 상황이었으므로 혈관 색전술을 이용한 치료를 계획하였으며 transfemoral approach로 주요부위에 대한 색전술과 잔존한 venous pouch에 대하여 direct transosseous puncture를 복합적으로 사용함으로써 외과적 절제술을 통하지 않고서도 색전술만으로 양호한결과를 얻을수 있었다.

IV. 결 론

하악골 내에 발생한 동정맥 기형은 매우 희귀한 질환으로 통상의 치과 치료시 주의해야 하는 질환으로 감별진단이 중요하다. 효과적인 초기 진단과 치료에 있어 진단 방사선과와 구강악안면 외과의 긴밀한 협진이 필수적이다.

동정맥 기형 치료에서 혈관색전술은 외과적 절제술에 비해 환자가 성장중이거나 응급상황인 경우에 비교적 간편하면서도 안전하게 사용될수 있는 방법이라 하겠다.

본 교실에서는 잦은 치은출혈을 주소로 내원한 9세 여자 환아에서 동정맥 기형을 진단하였으며 진단방사선과와 긴밀한 협진을 통하여 혈관 색전술로 동정맥 기형을 치료하여 양호한 결과를 얻었기에 본 증례를 보고 하는 바이다.

REFERENCE

1. Anderson J.H., R.J. Grisius, and T.W. McKean, Arteriovenous malformation of the mandible. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 52(2): p. 118-25,1981.
2. Engel J.D. J.S. Supancic, and L.F. Davis, Arteriovenous malformation of the mandible: life-threatening complications during tooth extraction. J Am Dent Assoc, 126(2): p. 237-42,1995.
3. Fathi, M. et al., Large arteriovenous high-flow mandibular, malformation with exsanguinating dental socket haemorrhage: a case report. J Craniomaxillofac Surg, 25(4): p. 228-31,1997.
4. Guibert-Tranier F. et al., Vascular malformations of the mandible (intraosseous haemangiomas). The importance of preoperative embolization. A study of 9 cases. Eur J Radiol, 2(4): p. 257-72,1982.
5. Svane T.J. et al., Arteriovenous malformation of the mandible and its treatment: a case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 67(4): p. 379-83,1989.
6. Gallagher D.M., D. Hilley, and B.N. Epker, Surgical treatment of an arteriovenous malformation of the mandible in a child. A case

- report. *J Maxillofac Surg*, 11(6): p. 279-83,1983.
7. Van den Akker H.P., L. Kuiper, and F.L. Peeters, Embolization of an arteriovenous malformation of the mandible. *J Oral Maxillofac Surg*, 45(3): p. 255-60,1987.
 8. Abouzgja M.B. and J.M. Symington, Recurrent arteriovenous malformation of the mandible: a case report. *J Oral Maxillofac Surg*, 50(11): p. 1230-3,1992.
 9. Flandroy P. and J.P. Pruvo, Treatment of mandibular arteriovenous malformations by direct transosseous puncture: report of two cases. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 17(4): p. 222-5,1994.
 10. Perrott D.H., et al., Treatment of a high-flow arteriovenous malformation by direct puncture and coil embolization. *J Oral Maxillofac Surg*, 52(10): p. 1083-6,1994.
 11. Mosnier I., et al., [Arteriovenous malformation of the mandible. Apropos of a case in a 6-year-old child]. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac*, 113(7-8): p. 434-9,1996.
 12. Jackson I.T., et al., The management of intraosseous arteriovenous malformations in the head and neck area. *Plast Reconstr Surg*, 84(1): p. 47-54,1989.
 13. Kula K., et al., High-flow vascular malformations: literature review and case report. *Pediatr Dent*, 18(4): p. 322-7,1996.
 14. McKenna S.J. and S.C. Roddy, Jr., Delayed management of a mandibular vascular malformation. *J Oral Maxillofac Surg*, 47(5): p. 517-22,1989.
 15. Kiyosue H., et al., Treatment of mandibular arteriovenous malformation by transvenous embolization: A case report. *Head Neck*, 21(6): p. 574-7,1999.
 16. Mohammadi H., N.A. Said-al-Naief, and L.B. Heffez, Arteriovenous malformation of the mandible: report of a case with a note on the differential diagnosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 84(3): p. 286-9,1997.
 17. Beek F.J. et al., Transvenous embolisation of an arteriovenous malformation of the mandible via a femoral approach. *Pediatr Radiol*, 27(11): p. 855-7,1997..
 18. Benndorf G. et al., Endovascular management of a bleeding mandibular arteriovenous malformation by transfemoral venous embolization with NBCA. *AJNR Am J Neuroradiol*, 22(2): p. 359-62,2001.