

관골에 발생한 혈관종의 수술적 절제술

박범진 · 임소영 · 박진홍 · 변재경 · 문구현 · 방사익 · 오갑성

성균관대학교 의과대학 삼성서울병원 성형외과학교실

Intraosseous Hemangioma of the Zygoma and Its Management

Bum Jin Park, M.D., So Young Lim, M.D.,
Jin Hong Park, M.D., Jai Kyong Pyon, M.D.,
Goo Hyun Mun, M.D., Sa Ik Bang, M.D.,
Kap Sung Oh, M.D

Department of Plastic Surgery, Sungkyunkwan University
School of Medicine, Seoul, Korea

Purpose: Intraosseous hemangiomas are rare and account for fewer than 1% of all bone tumors. The site that is most commonly involved are the vertebral column and the skull. Within the facial skeleton, hemangiomas can occur in the mandible, maxilla, the nasal bones, and rarely the zygoma.

Methods: We report a case of an intraosseous hemangioma of the zygoma in a 49-year-old male. The patient had a slow growing hard mass in the left zygoma, which had been present for 8 years. Other than the cosmetic deformity, the patient experienced no pain and did not have any problem. He had no history of trauma in that area and no ocular symptoms. Preoperative computed tomography showed a trabeculated mass arising from the body of the left zygoma. The mass was surgically removed without having to reconstruct the bone defect by sparing the inner cortex.

Results: Histopathological examination indicated a cavernous hemangioma. After 4 months of follow up, no functional and cosmetic impairment was identified. The patient was satisfied with the result.

Conclusion: An intraosseous hemangioma of the zygoma can be treated with total surgical excision with preservation of the inner cortex, thus eliminating the

need for reconstruction of bone defect.

Key Words : Intraosseous hemangioma, Zygoma

I. 서 론

골에서 발생한 혈관종은 골내의 혈관계에서 생긴 양성 일차성 종양으로 전체 골종양의 1% 미만으로 알려져 있다.¹ 골내 혈관종은 30대와 40대에 제일 호발하며 남성보다 여성에서 더 많이 발생한다.² 골내 혈관종의 경우 척주(vertebral column)와 두개골에 많이 발생하며 안면골에서는 상대적으로 덜 발생하는 것으로 보고되고 있다.³ 안면골에서 발생하는 경우 상악골, 하악골, 비골에서 주로 발생하며 관골에서는 매우 희귀하여 몇몇 문헌에서만 보고되고 있다.⁴ 관골에 생기는 경우 주로 느리게 커지는 안면부의 단단한 종괴로 발견되며 흔한 증상으로는 안면부의 기형, 출혈, 두통, 안구돌출증, 그리고 복시가 있다.⁵ 치료법으로는 방사선치료, 색전술, 소파술, 수술적 절제술이 있다.

II. 증 례

49세 남자 환자로 좌측 관골부위의 종괴를 주소로 내원하였다. 종괴는 약 8년 전부터 시작되어 서서히 커졌으며 상기 부위에 외상성 충격을 받은 과거력은 없었다. 신체검사 소견 상 좌측 광대뼈 부위에 단단하고 무통성이며 고정된 2×2cm 크기의 융기가 촉지되었고 융기부위의 피부는 정상적인 모습이였다. 시력, 안구운동, 안구의 위치 모두 정상이었다. 환자는 종괴로 인한 통증이나 기능상의 장애는 없었으나 미용적 문제와, 병변이 악성종양일지도 모른다는 걱정으로 심한 스트레스를 받고 있었다. 수술 전 시행한 CT 상 좌측 광대뼈에서 발생되어 외측으로 성장하는 경계가 분명한 골 경화성 병변이 관찰되었고(Fig. 1) MRI 소견 상 병변의 연부조직 침윤은 관찰되지 않았다.

전신마취 하에 양와위로 연장된 좌측 눈썹아래쪽 절개(extended subciliary incision)를 하여 병변을 노출하였다. 톱(saw)과 절골도를 이용하여 병변과 그 주위의 정상골을 일부 포함하여 한 덩어리로 절제하였고(Fig. 2), 바닥의 내측 피질골을 보존하였다. 절제된 변연은 버(burr)를 이용하여 다듬었다. 병변의 절제 시 출혈은 심하지 않았다. 절제된 병변의 크기는

Received June 20, 2008
Revised July 16, 2008
Accepted August 4, 2008

Address Correspondence: So Young Lim, M.D., Department of Plastic Surgery, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, 50 Ilwon-dong, Kangnam-gu, Seoul 135-710, Korea. Tel: (02) 3410-2235 / Fax: (02) 3410-0036 / E-mail: pslisy@hanmail.net

* 본 논문은 2008년 제 64차 대한성형외과학회 학술대회에서 포스터 발표되었음.

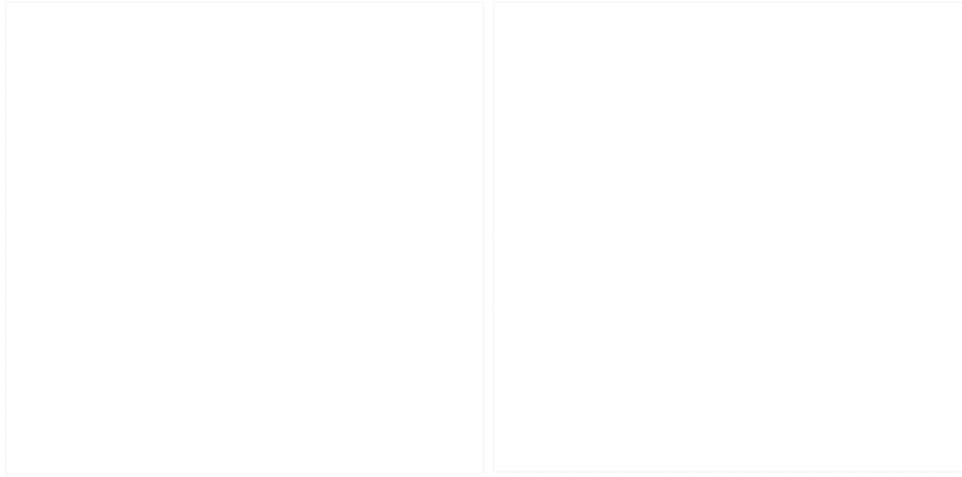


Fig. 1. (Left) Preoperative computed tomographic scan revealing a radiolucent lesion expanding the outer cortex of the zygoma. (Right) Three-dimensional image clearly demarcating the involved tumor area.

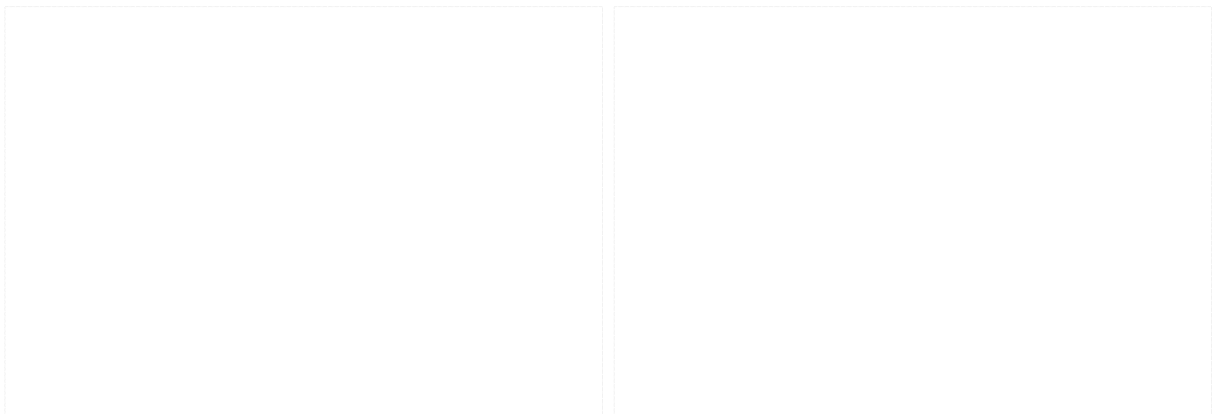


Fig. 2. (Left) Intraoperative view of expansile mass on the zygoma. (Right) En bloc excised specimen: purplish-red, unencapsulated mass measuring 4 × 2.5 cm. Specimen consisting of a rim of normal bone.

4 × 2.5 cm이었으며 결손된 외측 피질골과 수질골은 따로 재건하지 않았다(Fig. 3). 병리조직 소견으로서 채취된 표본의 절단면에서는 중심 부위에서 가장자리로 방사하는 골선문(bony striae)이 관찰되었다. 골 수질 내에 충혈이 관찰되었다. 현미경 소견으로 망상형의 골 소주 사이에 내피로 둘러싸인 확장된 혈관구조들이 산재해 있음이 관찰되었다(Fig. 4).

환자는 비교적 만족스러운 미용적 결과를 보였으며 별다른 합병증 없이 수술 후 4일째에 퇴원하였다. 술후 4개월간의 추적과정에서 재발의 임상적 소견은 없었으며 비교적 만족스러운 외모를 얻을 수 있었다(Fig. 5). 환자는 수술 부위의 통증이나 기능적 장애를 호소하지 않았고 수술결과에 만족해하였다.

III. 고 찰

골내 혈관종은 일반적으로 척주와 두개골에서 발견된다. 혈관종은 일반적으로 뼈의 판사이층에서 시작된다.

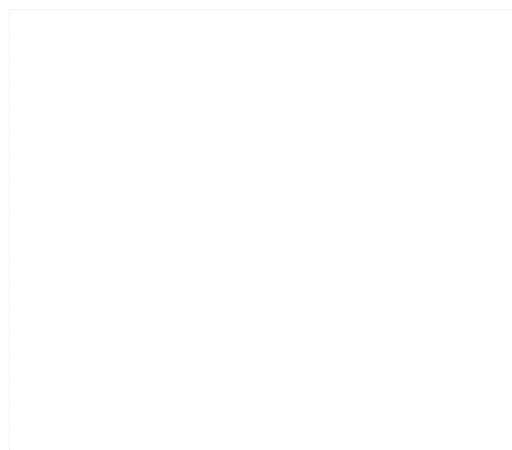


Fig. 3. Postoperative computed tomographic scan revealing the mass was surgically removed without having to reconstruct the bone defect by sparing the inner cortex.

혈관종의 초기에는 병변부의 용기가 일어나며 병변이 진행된 이후에는 내판과 외판의 미란이 발생되게 된다.⁴ 안면골에서의 혈관종의 발생은 드물며 안면골에서 발생하는 경우 하악골, 상악골, 비골의 순서로 많이 발생하는 것으로 알려져 있다. 관골에서 혈관종의 발생은 매우 드물어 2005년까지 영어 문헌으로 25례가 보고된 것에 그치고 있다.^{1,5-7}

골내 혈관종은 여성에서의 발생률이 남성에서보다 3



Fig. 4. Photomicrography showing mature lamellar trabecular bone in which the intertrabecular space is completely occupied by large, dilated, thin walled vessels, consistent with a cavernous hemangioma(Hematoxylin and eosin stain, original magnification 100 ×).

배정도 높은 것으로 알려져 있다. 일반적인 연부조직의 혈관종이 소아에서 많이 발생하는 것과 달리 골내 혈관종은 더 나이가 많은 연령대에서 호발하며 30대와 40대에서 제일 많이 발생하는 것으로 보고되고 있다.²

관골내의 혈관종은 미용 상의 문제를 유발하는 천천히 자라는 종괴로 나타나며 일부 환자에서는 손가락으로 눌렀을 때 통증을 느끼기도 한다.

조직학적으로 혈관종은 해면상 혈관종, 모세혈관종, 혼합형 혈관종의 3종류로 나뉜다. 안면골의 혈관종 대부분은 해면상 혈관종이며 현미경 소견상 확장된, 얇은 벽을 지닌 혈관들과 골 소주가 한층의 혈관내피세포로 둘러 쌓인 모습을 보인다. 모세혈관종은 상대적으로 더 드물게 발생하며 작고 비비꼬인 혈관들로 이루어져 있다. 혼합형은 해면상 혈관종과 모세혈관종의 성분이 섞여있는 형태이다.

방사선학적 평가는 단순 방사선 사진과 CT scan으로 이루어진다. 단순 방사선 사진에서는 골용해성 병변 햇살무늬 형태나 별집모양으로 나타난다. 방사선학적인 감별진단은 수막종, 골육종, 악성 질환의 전이, 다발 골수종, 혈관내피종 그리고 섬유형성이상을 고려해야 한다.⁴

CT scan은 골피질과 골소주의 병변의 범위와 주변 조직과의 관계를 밝히는데 유용하여 제일 효과적인 진단 도구로 여겨진다.⁴ 관골내 혈관종은 특징적으로 손상되지 않은 내판과 외판을 보이는 경계가 분명한 팽창성의 병변으로 나타난다. 병변 내에는 별집모양이나 햇살 무늬 형태가 나타날 수도 있다.¹

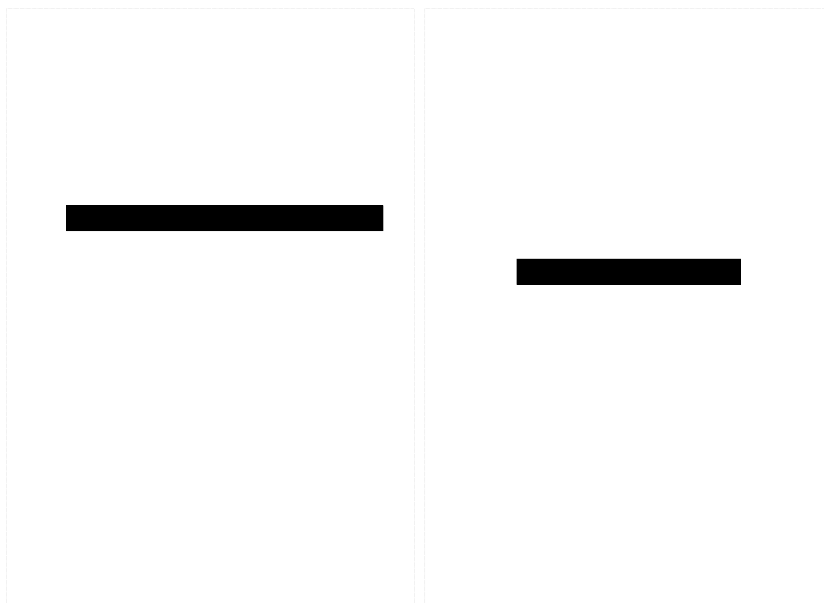


Fig. 5. (Left) A 49-year-old man with intraosseous hemangioma of the left zygoma. (Right) 4 months after complete resection of tumor.

일부 저자들은 MRI가 골내 혈관종 같은 혈관이 많은 병변의 평가에 더 유용하다고 주장한다.⁸ 본 증례에서는 CT의 촬영 이후 다른 질환과의 감별진단을 위하여 MRI를 촬영하였으며 MRI를 통해 연부조직내의 병변의 침윤 여부에 대한 더 정확한 판단 이외에 CT에서 얻은 정보 이상의 감별진단이 가능하지는 않았다.

수술 전 평가를 위한 혈관조영술의 사용은 논란이 있는 부분이며 일부 저자들은 혈관조영술의 사용을 옹호하는 반면¹ 일부 저자들은 수술 중 큰 출혈의 위험성이 극히 적기 때문에 수술 전 혈관조영술이 큰 의미가 없다고 본다.⁵ 본 증례에서도 수술 전에 혈관조영술을 시행하지 않았으며 환자의 수술 중 실혈은 무시해도 될 정도로 적었다. 문헌검토 상 관골내 혈관종의 한 덩어리(en bloc) 절제술 시 심각한 수술 중 출혈이나 실혈을 보고한 경우는 없었다.

안면골에 혈관종이 의심될 때에는 병변 자체가 양성 병변이므로 특별한 치료 없이 관찰하는 것을 권한다.⁵ 치료의 적응증은 종괴 효과, 출혈, 미용 상의 문제가 발생할 때이다.⁷ 방사선 치료, 색전술, 소파술, 수술적 절제술이 고려할 수 있는 치료법이다.

과거에는 두경부의 혈관종 치료에 방사선 치료와 경화제의 병변내 주사가 시도되었다. 그러나 방사선 치료는 암의 발생, 국소적 성장 장애, 흉터 등의 치료에 따르는 합병증 때문에 수술적인 치료가 불가능할 경우에만 사용되고 있다. 색전술의 경우 일부 저자들은 경동맥 혹은 경피적 색전술을 주장하고 있으나 그러한 시술에 의해 얻어지는 치료 효과보다 그러한 시술을 통해 감염해야 하는 위험이 더 크다. 소파술은 조절되지 않는 출혈의 위험성을 높인다.³ 따라서 종괴의 경계면에 위치할 건강한 뼈를 일부 포함하여 종괴를 완전히 수술적으로 절제하는 것이 제일 선호되는 치료방식이다.⁶ 안면골의 전층 절제 시에는 수술로 인한 골 결손부의 즉시 재건이 필요하게 된다.⁴ 이러한 골 결손부의 재건에는 다양한 방식이 이용되고 있다. 골이식이나 무생물재료 삽입물을 이용하게 되며 두개골, 갈비뼈의 외부 피질, 하이드록시아파타이트(hydroxyapatite) 또는 실리콘을 이용하는 방식들이 있다.^{4,6} 쉽게 얻어질 수 있는 두개골의 외관이 골 결손부의 재건에 가장 자주 사용된다. 수술 후 추적 관찰에서 골 외부 피질의 상당한 정도의 재흡수가 관찰되며 이는 이후에 미용적인 문제를 유발할 수 있다.

그러나 대부분의 이러한 골내 혈관종 병변이 특징적으로 내부피질 보다는 외부피질을 포함하고 있으므로, 본 증례에서는 종괴를 관강층에서 분리하여 골 내부피질을 보존하고 외부피질과 수질의 한 덩어리 절제를 통

하여 종괴를 완전히 절제하였다. 따라서 종괴의 절제 이후 특별한 재건 없이 병변을 단았으며 이후에 특별한 미용상, 기능상의 문제가 발생하지 않았다. 자가골의 이용에 따르는 공여부의 골 결손과 흉터, 이물질의 사용에 따르는 감염 등의 문제를 고려할 때 절제 술후 재건 여부는 집도의의 판단에 따라야 한다고 생각하며 재건이 없는 절제술도 한가지의 치료방법으로 고려할 수 있다.

다른 증상 없이 미용적인 문제만 있는 총 5명의 안면골에 발생한 골내 혈관종 환자에서 얇은 절골술(Superficial osteotomy)을 이용한 종괴의 부분절제로 절개선의 길이를 줄이고 골 결손부의 재건의 필요성을 없애는 방식도 보고되었으나, 이러한 부분절제술을 시행한 환자군에서 1년 내에 2명의 환자에서 재발이 발생하여 추가적인 한 덩어리 절제술과 두개골을 이용한 재건술을 시행하였다는 보고도 있다.⁵

저자들은 국내에서 아직 보고된 바 없는 매우 희귀한 증례인 광대뼈에 발생한 혈관종에 대한 절제를 경험하였고 다른 증상 없이 미용 상의 문제만을 유발하는 혈관종에서 골 내부피질(inner cortex)을 보존한 절제로써, 골 결손부의 재건 없는 근치적 절제술을 통해 재발이 없고 미용적으로도 만족스러운 결과를 얻었기에 이에 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Moore SL, Chun JK, Mitre SA, Som PM: Intraosseous hemangioma of the zygoma: CT and MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 22: 1383, 2001
2. Colombo F, Cursiefen C, Hofmann-Rummelt C, Holbach LM: Primary intraosseous cavernous hemangioma of the orbit. *Am J Ophthalmol* 131: 151, 2001
3. Savastano G, Russo A, Dell'Aquila A: Osseous hamangioma of the zygoma: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 55: 1352, 1997
4. Koybasi S, Saydam L, Kutluay L: Intraosseous hemangioma of the zygoma. *Am J Otolaryngol* 24: 194, 2003
5. Cheng NC, Lai DM, Liao SL, Chen YB: Intraosseous hemangioma of the facial bone. *Plast Reconstr Surg* 117: 2366, 2006
6. Sary A, Yavuzer R, Latfoglu O, Celebi MC: Intraosseous zygomatic hemangioma. *Ann Plast Surg* 46: 659, 2001
7. Taylan G, Yildirim S, Gideroglu K, Akoz T: Conservative approach in a rare case of intrazygomatic hemangioma. *Plast Reconstr Surg* 112: 1490, 2003
8. Sweet C, Silbergleit R, Mehta B: Primary intraosseous hemangioma of the orbit: CT and MR appearance. *AJNR Am J Neuroradiol* 18: 379, 1997