

성인의 기관에 발생한 모세관 혈관종

¹성균관대학교 의과대학 내과학교실, 삼성서울병원 ²호흡기내과, ³병리과

김혜정¹, 배소영¹, 성영경¹, 송승이¹, 전경만^{1,2}, 고원중^{1,2}, 서지영^{1,2}, 정만표^{1,2}, 김호중^{1,2}, 권오정^{1,2}, 한정호³, 엄상원^{1,2}

A Case of Tracheal Capillary Hemangioma in an Adult

Hye Jeong Kim, M.D.¹, So Young Bae, M.D.¹, Young Kyung Sung, M.D.¹, Song Yi Song, M.D.¹, Kyeongman Jeon, M.D.^{1,2}, Won-Jung Koh, M.D.^{1,2}, Gee Young Suh, M.D.^{1,2}, Man Pyo Chung, M.D.^{1,2}, Hojoong Kim, M.D.^{1,2}, O Jung Kwon, M.D.^{1,2}, Joungho Han, M.D.³, Sang-Won Um, M.D.^{1,2}

¹Department of Medicine, Sungkyunkwan University School of Medicine, ²Division of Pulmonary and Critical Care Medicine, Department of Medicine, ³Department of Pathology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

Capillary hemangioma of the trachea is an extremely rare benign tumor in adults. We present the case of a 28-year-old woman with hemoptysis owing to a tumor of the proximal trachea. The tumor was removed by rigid bronchoscopy. The resulting specimens showed capillary hemangioma without any signs of malignant transformation. This presentation is the first case in Korea. Although tracheal capillary hemangioma is a rare disease, we should consider it as a possible cause of hemoptysis in the young adult.

Key Words: Hemoptysis; Hemangioma, Capillary; Trachea

서 론

기관 혈관종(tracheal hemangioma)은 주로 영아에서 발생되며 점차적으로 퇴화되는 양성 질환으로 알려져 있다¹. 그러나 성인에서는 기관에 발생하는 종양은 매우 드물며, 이 중에서도 혈관종은 10% 미만에 달하고², 자연적으로 퇴화되는 성향을 보이지 않는다³. 저자들은 객혈을 주소로 내원한 28세 여자환자에서 기관 혈관종으로 진단된 국내 첫 증례를 보고하고자 한다.

증 례

환 자: 우○○, 여자, 28세

Address for correspondence: Sang-Won Um, M.D., Ph.D.
Division of Pulmonary and Critical Care Medicine, Department of Medicine, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, 50, Irwon-dong, Gangnam-gu, Seoul 135-710, Korea
Phone: 82-2-3410-3429, Fax: 82-2-3410-3849
E-mail: sangwonum@skku.edu

Received: Jun. 12, 2010

Accepted: Jun. 30, 2010

주 소: 내원 1일 전 발생한 25 mL 가량의 객혈
현병력: 내원 1년 전 기침과 함께 약 5 mL 가량의 객혈이 있었다. 당시 환자는 객혈에 대한 평가를 하지 않았다. 환자는 객혈 이외에 객담, 호흡곤란과 같은 다른 호흡기 증상의 동반은 없었다. 이후 객혈없이 지내오던 환자는 내원 1일 전 기침과 함께 갑자기 객혈 25 mL 가량이 발생되어 응급실로 내원하였다. 응급실 내원 당시 객담, 호흡곤란 등의 동반된 증상은 없었다. 환자는 발열, 오한 등 감염을 시사할 만한 증상도 호소하지 않았으며, 객혈은 응급실 내원 후 더 이상 발생하지는 않았다.

과거력: 결핵을 비롯한 호흡기계 감염력을 포함하여 특이 병력은 없었으며, 최근 복용하는 약물도 없었다.

가족력: 특이 사항 없었다.

이학적 소견: 내원 당시 활력징후는 혈압 115/67 mm Hg, 맥박수 96회/분, 체온 36.1°C, 호흡수 20회/분으로 측정되었다. 외관상 병색은 없었으며, 결막에 빈혈 소견은 관찰되지 않았고, 경부에서 종괴나 림프절은 촉진되지 않았다. 흉부청진상 호흡음은 깨끗하였고, 심음은 규칙적이며 심잡음은 들리지 않았다.

검사실 소견: 내원 당시 말초혈액검사상 백혈구 8,890/

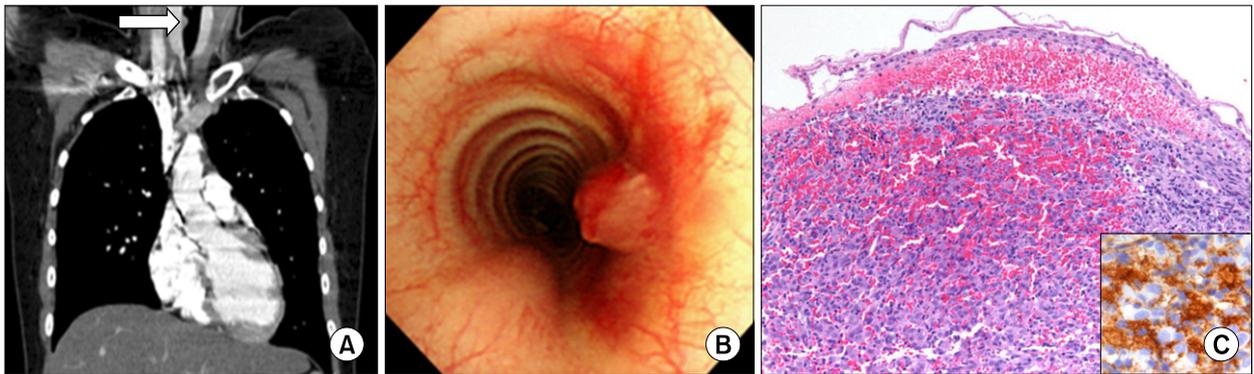


Figure 1. (A) Chest CT images shows a 10-mm-sized nodular lesion in the lateral wall of the cervical trachea with contrast enhancement (white arrows). (B) Bronchoscopy shows a polypoid lesion in the lateral wall of proximal trachea, measuring 1 cm in size, approximately 2 cm below the vocal cords, (C) Bronchoscopic forceps biopsy of the polypoid lesion composed of uniform vesicular endothelial cells with vascular channels (H&E stain, $\times 200$). Inset: Tumor cells shows strong immunoreactivity for CD31.

mm³ (중성구 55.1%, 림프구 35.9%, 단핵구 4%), 혈색소 12.5 g/dL, 혈소판 224,000/mm³이었고, 혈액응고검사는 프로트롬빈시간 105% (INR 0.97), 활성화부트롬보플라스틴시간 40.1초로 정상범위였다. 혈액화학검사는 뇨질소 6.3 mg/dL, 크레아티닌 0.53 mg/dL, CRP 0.03 mg/dL, 총 단백질 7.4 g/dL, 알부민 4.5 g/dL, AST 24 U/L, ALT 28 U/L, Na 137 mmol/L, K 4.0 mmol/L이었다. 산소없이 시행한 동맥혈검사에서 pH 7.397, 이산화탄소 분압 38.0 mm Hg, 산소 분압 110.8 mm Hg, 산소 포화도 98.5%였다. 일반 요 검사상 특이소견은 없었다.

폐기능 소견: FVC 3.24 L (예측치의 85%), FEV₁ 2.79 L (예측치의 92%), FEV₁/FVC 86%였다. DLCO/VA는 3.85 L/min/mm Hg (예측치의 81%)였다.

방사선 소견: 단순 흉부 방사선촬영에서 특별한 이상 소견은 관찰되지 않았다. 그러나 흉부 전산화 단층 촬영에서 갑상선 위의 경부 기관 오른쪽 가쪽 벽에 장경 1 cm 정도의 결절성 병변이 관찰되었고(Figure 1A), 폐나 림프절, 기관지 동맥에 특이소견은 관찰되지 않았다.

기관지내시경 소견: 성대로부터 2 cm 아래 상부 기관지 오른쪽 가쪽 벽에 폴립모양의 병변이 관찰되어 조직 검사를 시행하였다(Figure 1B). 이 외 기관지 내에 이상 소견은 보이지 않았다.

병리 소견: 기관지내시경을 통한 결절 생검 소견에서 내피세포로 구성된 균일성의 종양으로, 종양세포는 CD31 면역조직화학염색에서 양성으로 모세관 혈관종에 합당한 소견이었다(Figure 1C, inset).

치료 및 경과: 이상의 소견으로 기관지에 발생한 혈관

종으로 진단되어, 전신 마취 후 경직성 기관지 내시경으로 기관지 벽에 남아 있는 혈관종을 모두 제거한 후 출혈 등의 특별한 합병증 없이 퇴원하였다. 퇴원 3개월 후 시행한 추적 기관지 내시경 검사에서 재발 소견을 보이지 않았으며, 무증상인 상태로 추적 관찰 진행하고 있다.

고 찰

혈관종은 소아에서 두경부에 발생하는 가장 흔한 양성 종양이나, 성문하에 발생하는 혈관종은 매우 드물다⁴. Sweetser⁵은 혈관종을 소아형과 성인형으로 분류하였는데, 소아에서는 주로 신생아기에 성문하에 발생되어 증식기를 지나 저절로 퇴화하는 경과를 보이는 반면, 성인에서는 성문, 성문상부에 관찰되며 자연적으로 퇴화하지 않는다³. 조직병리학적으로 혈관종은 모세관 혈관종, 해면 혈관종, 혼합 혈관종으로 분류되는데⁶, 모세관 혈관종은 대개 피부, 구강과 입술, 내부 장기의 점막에 발생하는 양성 질환으로⁷ 기관지에 발생하는 모세관 혈관종은 극히 드물다².

현재까지 성인에서 기관 혈관종은 총 7예가 보고되어 있으며(Table 1)^{1,3,8-11}, 국내에는 이전에 전혀 보고된 바가 없다. 이전에 보고된 증례를 고찰해 보면, 연령 분포는 40세에서 72세로 진단 시의 평균 나이는 57세였으며, 남녀 비는 3 : 4로 여자가 더 많았다. 소아에서는 기도 폐쇄에 의한 호흡곤란이나 이중성 천명으로 흔히 발현되지만¹², 성인에서는 대부분 본 증례와 같이 기침과 동반된 객혈이 주증상이었다^{1,3,8-11}. 단순 흉부 방사선촬영은 대개 정상 소견을 보였으며, 흉부 전산화 단층촬영에서는 4예에서 기

Table 1. Review of case reports detailing tracheal capillary hemangiomas

Case report	Age, yr	Sex	Clinical symptoms	Radiologic findings	Bronchoscopic findings	Treatment	Follow-up
Strausz et al. ¹	55	M	Hemoptysis	Normal chest X-ray	2×2 mm sized, reddish lesion with capillarized surface	Bronchoscopy with forceps excisional biopsy	Normal bronchoscopy at 3-mo follow-up
Strausz et al. ¹	70	F	Chronic cough	Normal chest X-ray	5×4 mm sized, reddish smooth surface lesion	Nd:YAG laser	Resolution of cough and normal bronchoscopy at 3-mo follow-up
Brown et al. ³	47	M	Hemoptysis	Tracheal tumor on chest CT	Red, pedunculated, 5 mm mass on anterior tracheal wall	Endoscopic biopsy and Nd:YAG laser	NA
Irani et al. ⁸	72	F	Cough, hemoptysis	Unremarkable on chest CT	2~3 mm sized, polypoid tracheal tumor with hyperemic mucosa	Bronchoscopy and forceps biopsy	Asymptomatic at 1-yr follow-up
Zambudio et al. ⁹	66	F	Massive hemoptysis	Tracheal tumor on chest CT	Irregular excrescent tracheal mass	Embolization of branch of right intercostal artery by interventional radiology	Normal bronchoscopy at 1-yr follow-up
Madhumita et al. ¹⁰	40	F	Foreign body sensation, hemoptysis	Small tracheal mass on chest CT	10×5 mm sized, cherry-red tracheal mass	Bronchoscopy with forceps excisional biopsy	Normal bronchoscopy at 1-yr follow-up
Cordoş et al. ¹¹	50	M	Dyspnea, hemoptysis	Tracheal tumor on chest CT	NA	Interventional endoscopy and surgical resection, Nd:YAG laser	NA

Nd:YAG: neodymium:yttrium-aluminum-garnet; NA: not available.

관지 종양이 관찰되었다^{3,9-11}. 기관지 내시경 검사에서 크기는 장경 2 mm에서 10 mm까지 다양했으며, 붉거나 푸른색을 띤 경계가 명확한 점막하 종양으로 관찰되었고 조직학적으로 확진되었다. 일반적으로 조직학적 소견에서는 혈관을 구성하는 내피 세포와 염증성 세포로 구성되어 있으며, 비전형적인 분열은 관찰되지 않는다¹³.

소아에서는 성문하 혈관종이 영아의 기도에서 발생하는 가장 흔한 종양으로 보존적으로 경과를 관찰하거나 전신적 혹은 국소적 스테로이드 치료, 인터페론이나 빈크리스틴(vincristine)과 같은 약물치료, 내시경적 제거, CO₂나 potassium titanyl phosphate, neodymium : yttrium-aluminum-garnet (Nd : YAG) 등을 이용한 레이저 치료, 수술적 절제 등 여러 치료법이 고려되고 있다⁴. 그러나 소아에서의 성문하 혈관종은 증식기를 지나 저절로 퇴화하는 자연적 경과를 보이는 특성이 있어 Pransky와 Canto¹⁴는

연령, 임상적 증상, 병변의 크기나 위치, 외과의사의 경험 정도에 따라 개별화되어야 한다고 보고하고 있으며, 현재까지는 보편적으로 정립된 치료에 대한 지침은 없다¹². 성인에서의 기관 혈관종에 대한 치료는 일부 증례보고만 있을 뿐 잘 알려져 있지 않다. Strausz와 Soltész¹, Madhumita 등¹⁰, Irani 등⁸은 객혈과 기침 증상으로 내원한 기관 혈관종 환자에서 종양이 기관지 내시경으로 성공적으로 제거되었음을 보고하였고, Cordoş 등¹¹은 부분적인 기관 절제술 후 Nd : YAG 레이저로 치료한 증례를 보고하였으며, Zambudio 등⁹은 기관 혈관종에 의해 발생된 대량 객혈을 보인 환자에서 중재적 방사선에 의한 색전술로 출혈 치료에 효과가 있음을 보고하였다. 본 증례에서는 전신 마취 후 경직성 기관지 내시경을 이용하여 종양을 절제하였으며 출혈 등의 합병증없이 치료하였다. 향후에도 기관에 국한된 성인 혈관종의 치료에 기관지 내시경을 이용한 치

료가 이용될 수 있을 것으로 사료된다.

성인에서 기침과 동반된 객혈의 가장 흔한 원인은 기관지 확장증, 악성 종양, 폐렴, 기관지염과 결핵 등에 의한 감염성 질환, 심혈관계 질환으로 알려져 있으나, 본 증례와 같이 과거 특이 병력이 없는 젊은 환자에서의 기관지 혈관종도 객혈의 한 감별진단으로 고려되어야 할 것이다.

참 고 문 헌

1. Strausz J, Soltész I. Bronchial capillary hemangioma in adults. *Pathol Oncol Res* 1999;5:233-4.
2. Sie KC, Tampakopoulou DA. Hemangiomas and vascular malformations of the airway. *Otolaryngol Clin North Am* 2000;33:209-20.
3. Brown JS, Rebeiz EE. Pathologic quiz case 1. Capillary hemangioma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;119:700-2.
4. O-Lee TJ, Messner A. Subglottic hemangioma. *Otolaryngol Clin North Am* 2008;41:903-11.
5. Sweetser TH. Hemangioma of the larynx. *Laryngoscope* 1921;31:797-806.
6. Gregg CM, Wiatrak BJ, Koopmann CF Jr. Management options for infantile subglottic hemangioma. *Am J Otolaryngol* 1995;16:409-14.
7. Finn MC, Glowacki J, Mulliken JB. Congenital vascular lesions: clinical application of a new classification. *J Pediatr Surg* 1983;18:894-900.
8. Irani S, Brack T, Pfaltz M, Russi EW. Tracheal lobular capillary hemangioma: a rare cause of recurrent hemoptysis. *Chest* 2003;123:2148-9.
9. Zambudio AR, Calvo MJ, Lanzas JT, Medina JG, Paricio PP. Massive hemoptysis caused by tracheal hemangioma treated with interventional radiology. *Ann Thorac Surg* 2003;75:1302-4.
10. Madhumita K, Sreekumar KP, Malini H, Indudharan R. Tracheal haemangioma: case report. *J Laryngol Otol* 2004;118:655-8.
11. Cordoş I, Ulmeanu R, Mihălţan FD, Orghidan M, Galbenu P, Dragomir A, et al. Sequential approach in a case of tracheal hemangioma: segmental tracheal resection after Nd-YAG laser application. *Pneumologia* 2005;54:191-4.
12. Rahbar R, Nicollas R, Roger G, Triglia JM, Garabedian EN, McGill TJ, et al. The biology and management of subglottic hemangioma: past, present, future. *Laryngoscope* 2004;114:1880-91.
13. Mills SE, Cooper PH, Fechner RE. Lobular capillary hemangioma: the underlying lesion of pyogenic granuloma. A study of 73 cases from the oral and nasal mucous membranes. *Am J Surg Pathol* 1980;4:470-9.
14. Pransky SM, Canto C. Management of subglottic hemangioma. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2004;12:509-12.