

성인에서 발생한 혀의 거대 혈관종 1예

한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과
정문상 · 이병철 · 모정아 · 조평산

= Abstract =

A Case of Hemangioma of the Tongue in Adult

Moon-Sang Jung, MD, Byeong-Cheol Lee, MD, Jung-A Mo, MD, Pyung-San Cho, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Seoul, Korea

Hemangiomas are the most common benign tumors or tumor-like malformations of blood vessels or blood filled cavernous spaces. Hemangiomas of the oral cavity represents 14% of all hemangiomas. Most hemangiomas are detected by one year of age and most commonly occurred in the lips, tongue, buccal mucosa and palate. But hemangiomas are sometimes reported in adults. We report one case of extensive hemangioma of the tongue in adult. Our case is a 48-year-old male who presented with a hemangioma occupying entirely two-third of the tongue. Treating those lesions pose a challenge to the surgeon. This paper discusses one case of extensive tongue hemangiomas treated with alcoholic sclerotherapy with satisfactory results supporting this particular approach in the management of these lesion.

KEY WORDS : Hemangioma · Tongue · Alcoholic sclerotherapy.

서 론

혈관종은 매우 흔한 선천성 질환으로 대부분 신생아 시기에 발생하며, 일정한 시기가 지난 후에는 혈관종내 출혈, 혈전, 그리고 재구성으로 인하여 저절로 소실되는 혈관성 양성종물이다.¹⁾ 85% 정도가 1세 이전에 발생하며, 이중 14% 정도가 두경부 영역에 발생한다. 두경부 영역에서는 입술, 혀, 구강점막, 구개부에 호발한다.²⁾ 혈관종은 혀에 발생시 국소적 병변으로 발생할 수도 있으나 표면과 심부 근육층까지 광범위하게 침투하여 지속적으로 성장시에는 구강의 기능적 장애를 유발할 수도 있다.^{1,2)}

혈관종은 혈관내피세포로 구성된 혈관의 증식으로 인하여 발생하며, Bhaskar 등³⁾은 혈관종을 모세혈관성, 해면상 그리고 유아형으로 구분하였다.

치료방법으로는 보존적인 외과적 절제술이 근간이 되어 왔으나 드물지 않은 재발과 지속으로 인하여 색전술, 구강내 경화요법, 레이저술, 스테로이드, 인터페론, 방사선 치료 등이 시도되고 있다.⁴⁾

성인에서의 혈관종에 대한 고찰은 매우 드문 실정이다. 이에 본 저자들이 치험한 성인에서 발생한 혀의 거대 혈관종의 치료에 관하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

48세 남자로 거대 혀를 주소로 본원 내원하였다. 임상검사상 보라빛의 혈관성 종괴는 혀의 대부분을 차지하고 있었으며 음성, 저작, 연하에 불편감을 정도로 호소하였다(Fig. 1). 환자의 과거 병력상 출생시부터 진단 미상의 좌측 안면 부위의 종괴로 30년 전 타병원에서 수술받은 경력과 15년전 타병원에서 설혈관종으로 영상학적 검사 후 특별한 치료없이 지내왔다. 이후 지속적으로 혀의 크기가 증가되어 치료를 위해 본원으로 내원하였다.

경부 MRI 및 혈관조영술에서 혀와 좌측 안면정맥계의 뚜

교신저자 : 이병철, 139-706 서울 노원구 공릉2동 215-4
한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과
전화 : (02) 970-2173 · 전송 : (02) 970-2450
E-mail : bcleemd@kccch.re.kr

릿한 확장소견이 보이며, 특별한 공급혈관은 찾을 수 없었고, 경계는 불명확하였다(Fig. 2). 외래에서 시행한 조직생검상 혈관종으로 확인되었다. 전신마취하에 양측 설동맥 결찰술을



Fig. 1. A male who presented with a hemangioma occupying entirely two-third of the tongue.

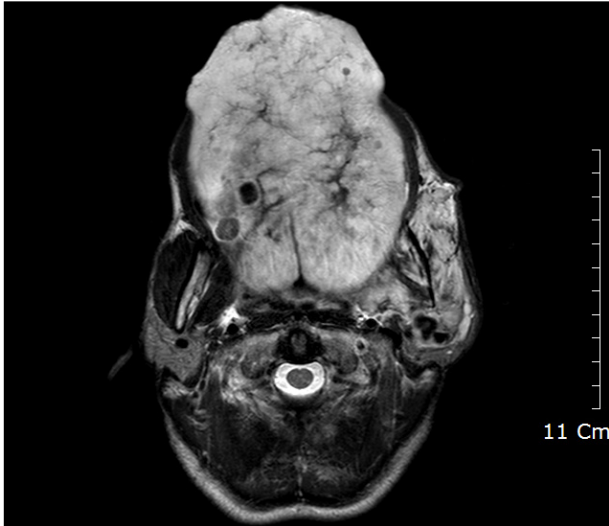


Fig. 2. MRI showing macroglossia & marked increased venous structure involving tongue, left cheek, pterygoid plexus, left masseter muscle, temporalis muscle.



Fig. 3. The hemangioma of the tongue with dark-bloody color change after alcohol injection.

시행한 후 입원한 상태에서 경과관찰하며 지켜보았으나 혀의 색깔 변화는 전혀 없었다. 1달 후 외래 경과관찰에서도 혀의 전체 크기는 거의 변화가 없었다. 양측 설동맥 결찰술을 시도한지 3개월 후에 재치료 방법으로서 혈관조영술하에 색



Fig. 4. The two-third of tongue was necrotized and excised after 2 weeks postsclerotherapy.

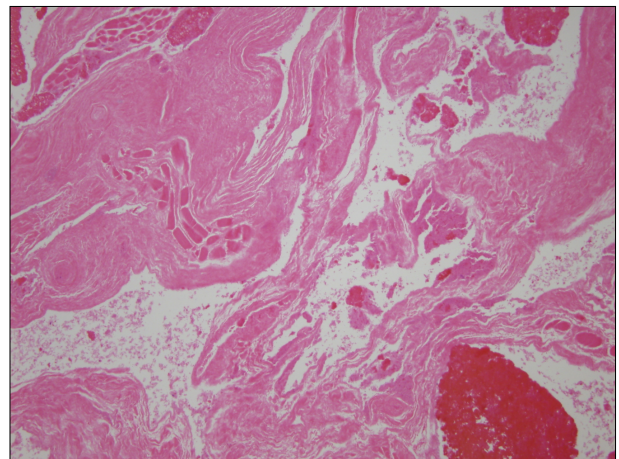


Fig. 5. Microscopic feature represents cavernous hemangioma with complete coagulative necrosis. Degenerated blood clots are identified in the abnormal shape vascular spaces (H&E, $\times 100$)



Fig. 6. The wound of tongue has healed up with nearly normal texture.

전술을 계획하였으나 주요 혈관을 찾을 수 없어 색전술 시행은 실패하였다. 3차 치료방법으로 알코올 경화제 주입방법을 시도하였다(Fig. 3). 전신마취하에 알코올의 전신혈류로의 이행을 예방하기 위하여 허뿌리부분을 고무 도뇨관을 사용하여 결찰하였다. 이후 경피적 초음파 유도하에 혈관중으로 보이는 부위의 허 표피에서 정맥으로 생각되는 깊이로 주사바늘을 찔러 알코올 50cc를 여러 번으로 나누어 주입하였다. 이후 경과관찰 중 허는 부종과 검붉은 색깔을 띠며 충혈과 괴사소견을 보였다. 경화요법 2주후 허의 깊이는 안쪽은 정상 조직이었으나, 허의 측면으로부터 괴사가 진행된 소견 보여, 허의 전방과 측방부의 괴사조직 절제술을 추가 시행하였다(Fig. 4). 수술시 절제된 허의 조직검사결과 해면상 혈관중으로 확인되었다(Fig. 5). 수술 1개월 후 경과 관찰상 허의 봉합 상처는 특별한 문제 없이 치유되었으며(Fig. 6), 수술 4개월후 경과 관찰상 허의 움직임은 제한이 있으나 발음에는 큰 문제가 없으며 기능면에서도 양호한 편이었다. 이후 더 원활한 허의 가동성을 위하여 설소대 절제술을 추가적으로 시행하였다. 현재 특별한 합병증은 없이 경과관찰 중이다.

고 찰

혈관중은 인체에서 가장 흔한 선천성 양성종양으로 전체 혈관중의 50% 이상이 두경부 영역에서 발생한다고 알려져 있다.¹⁾ 혈관중은 보통 양성으로 시작되어 서서히 성장하여 주위 구조물에 압박을 가하여 구조적 변화를 일으킬 수 있는 종양으로 이비인후과 영역에서는 코를 포함한 두경부의 어느 부위에서나 발생할 수 있다.^{2,5-7)} 보통 12세까지 자연퇴행이 가능하며, 이후 성인까지 존재하는 혈관중은 자연퇴행을 기대하기 어렵다.⁶⁾

발생원인에 대해선 아직까지 정설은 없으나 주로 혈관 형성과정에서의 과오종 혹은 혈류역학적 이상인 선천성 원인인 것으로 알려져 있으며, 그외에도 외상, 감염 및 호르몬 영향등의 이차적 원인에 기인하는 것으로 알려져 있다.^{1,4)}

혈관기형의 정도는 자연퇴행에서부터 빠른 진행 등 여러 가지 양상을 보일수 있으며 혈관중외에도 동정맥 기형이 포함되며, 조직학적 분류는 말초혈관형, 해면형, 혼합형, 증식형으로 나눈다.^{5,8)} 조직학적으로 모세혈관성 혈관중은 수많은 내피세포로 형성된 모세혈관으로 구성되어 있으며, 해면상 혈관중은 납작한 형태의 내피세포로 형성된 크고 얇은 벽으로 구성된 혈액성분 공간으로 형성되어 있다.^{5,8)}

진단방법은 철저한 이학적 검사 및 병력 청취가 필수적이며, 컴퓨터 전산화 단층촬영, 자기공명영상촬영, 혈관조영술, 스캔, 초음파등이 사용되고 있다.⁵⁾

치료방법으로는 대다수의 혈관중이 연령이 증가함에 따라 자연소실되는 경우가 있어 충분한 기간을 두고 관찰하는 보

존적 치료를 시행하며,⁶⁾ 빠르게 성장하는 혈관중에 대해서는 레이저 절제술, 한냉수술, 경화성 약제의 주입요법, 색전술, 외과적 절제 및 방사선 조사법등을 시행할 수 있다.^{1,4,8)} 치료방법이 보존적일수록 증상의 해소가 불안전하고 재발율이 높아지며, 또한 보다 적극적인 절제방법은 기능상의 결함을 초래할 수도 있다는 단점이 있다.⁴⁾ 하지만, 본 증례와 같이, 성인에서 발생하고, 혈관중의 크기가 커서 기능적 압박, 감염, 출혈, 외모 문제 등이 초래될 때는 치료를 시작하여야 한다.^{1,4,5,8)}

본 증례에서는 허에 발생한 혈관중으로 허의 가동부의 전반에 걸쳐 형성된 혈관중으로 지속적인 크기의 증가를 보여 적극적인 치료가 필요할 것으로 판단되었다. 혈관중의 적극적 치료방법으로는 여러가지 방법이 있겠으나 환자의 연령, 발생부위, 크기, 조직학적 특성등을 고려하여 결정하여야 한다.^{4,9)}

본 증례의 경우 지속적으로 성장하는 거대 허로 인한 기능적 및 미용적 결함을 가지고 있으며, 과거력상 외과적 절제술의 실패 경력이 있었다. 혈관 조영술상 주요 공급혈관을 찾으려 하였으나 찾지 못하였다. 치료방법으로는 양측 설동맥 결찰술을 통한 혈관중의 퇴축을 기대하였다. 하지만 허의 크기는 감소하지 않았다. 이는 허의 공급 혈관을 적절히 차단하지 못하였기 때문이거나 또는 정맥계의 확장으로 인한 혈관중이기 때문이라 판단된다.

두번째 치료방법으로 시도한 색전술도 주요 혈관을 찾기 힘들어 시도할 수 없었다.

세번째 치료방법으로는 첫 치료 3개월 후 정맥을 통한 알코올 경화요법을 시행하였으며, 이로 인하여 혈관중부위의 전반적인 울혈성 괴사가 형성되었고, 이로 인하여 형성된 허의 전방부위와 측방의 괴사조직에 대한 절제술을 추가 시행하였다.

치료시작 전부터 예상한 결과는 아니었지만, 알코올 경화요법 후 혈관중부위만 선택적으로 괴사되어 절제의 경계를 가시적으로 확인할 수 있었던 장점이 있었고, 괴사로 인하여 절제시 출혈이 심하지 않았던 잇점도 있었다.

거대 허를 형성하는 혈관중에 대한 증례는 흔치 않지만, 진단시 치료방법의 결정과 재발 없는 치료에 있어 어려움이 있다.

본 저자들은 성인에서 발생한 진행되는 허의 거대 혈관중에 대하여 알코올 경화요법의 시행과 이로 인한 혈관중의 괴사 및 괴사조직에 대하여 이차적인 수술적 제거를 추가적으로 시행함으로써 거대 혈관중의 치료를 경험하였다. 성인의 혈관중은 소아에서와는 달리 자연퇴행되지 않는 경우가 많다. 그러므로 혈관중병변의 양상에 따라 시도해볼 수 있는 다양한 치료방법들이 보고되고 있다. 레이저 절제술, 한냉수술, 경화요법, 색전술, 외과적 절제, 방사선 조사 등의 치료방법들 중 적절한 치료방법의 선택을 통하여, 퇴화하지 않고 성

장하며, 기능적 장애를 초래하는 혈관종의 경우에는 적극적 치료가 시행되어야 한다고 판단된다.

중심 단어 : 혈관종 · 혀 · 알코올 경화요법.

References

- 1) Shipitzer T, Noyek AM, Witterick I, Kassel T, Ichise M, Gullane P, et al. *Noncutaneous cavernous hemangiomas of the head and neck. Am J Otolaryngol.* 1997;18:367-374.
- 2) Edgerton MT. *Steroid therapy of hemangiomas, in Williams HG: Symposium on Vascular Malformations and Melanotic Lesions, St Louise, MO, Mosby; 1983. p.74-83.*
- 3) Bhaskar SN. *Synopsis of Oral Pathology, W.B, St. Louise, C.V. Mosby Co; 1981. p.502-507.*
- 4) Lim SC, Kim SH, Cho JS, Lee CW. *A case of hemangioma in maxilla. Korean J Otolaryngol.* 1989;32:723-726.
- 5) Bartlett JA, Riding KH, Salkeld LJ. *Management of hemangiomas of the head and neck in children. J Otolaryngol.* 1998;17:111-120.
- 6) Wander M, Suen JY, Dinehart S. *Treatment of hemangiomas of the head and neck. Laryngoscope.* 1992;102:1123-1132.
- 7) Robert G. Delano D. *Hemangioma of the tongue. General dentistry.* 1988;36 (2):144-145.
- 8) Stal S, Hamilton S, Spira M. *Hemangiomas, lymphangiomas and vascular malformations of the head and neck. The Otolaryngologic Clinics of North America.* 1986;29:688-691.
- 9) Moon JH, Hwang DJ, Kim JS, No HS. *Clinical Study of the Hemangioma of the Head and Neck in Adult. Korean J Otolaryngol.* 2000;43 (8):878-882.