



치성각화낭의 외과적 소파술 후 하치조 동맥에 발생한 가성 동맥류: 증례보고

이상창 · 김종배¹ · 진병로² · 김진욱 · 김진수 · 권대근

경북대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실, ¹계명대학교 의과대학 치과학교실, ²영남대학교 의과대학 치과학교실

Abstract

Pseudoaneurysm of the Inferior Alveolar Artery after Surgical Curettage for Keratocystic Odontogenic Tumor: A Case Report

Sang-Chang Lee, Jong-Bae Kim¹, Byung-Rho Chin², Jin-Wook Kim, Chin-Soo Kim, Tae-Geon Kwon

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kyungpook National University School of Dentistry, ¹Department of Dentistry, Keimyung University College of Medicine, ²Department of Dentistry, Yeungnam University College of Medicine

Pseudoaneurysms are rare complications of orthognathic surgery, trauma or other surgical procedures in the head and neck regions. Surgical approach is a routine procedure of bleeding control. However, bleeding control using angiography and embolization can also be an excellent method. We experienced pseudoaneurysm of the inferior alveolar artery occurring after surgical curettage of cystic lesion. The 33-year-old man who underwent surgical curettage of keratocystic odontogenic tumor was presented with severe bleeding in the right mandible ramal inner surface 14 days after the surgical curettage. After hemostasis with vaseline gauze packing and pressure, bleeding temporarily stopped. However, bleeding started after 14 days and soon it has been continued. Finally, the patient was diagnosed as pseudoaneurysm of the inferior alveolar artery from the enhanced-computed tomography images, and angiographic embolization was performed successfully. We report a rare case of pseudoaneurysm of the inferior alveolar artery after benign tumor curettage and review of the previewer's literature.

Key words: False aneurysm, Inferior alveolar artery, Angiography, Therapeutic embolization, Keratocystic odontogenic tumor

서론

동맥류(aneurysm)는 혈관벽의 구조적인 약화로 인해 동맥벽이 탄력성을 잃어 부분적으로 약해지거나 늘어나서 일부분이 비정

상적으로 팽창된 주머니 모양의 병변을 의미하며, 그 원인과 구조에 의해 진성(true)과 가성(false)으로 분류된다. 조직학적으로 동맥의 세층인 내막(intima), 중간막(media), 외막(advantitia)을 갖는 것이 진성 동맥류이다. 발생 원인은 주로 죽상경화

원고 접수일 2013년 2월 28일, 원고 수정일 2013년 3월 30일,
게재 확정일 2013년 5월 20일

책임저자 권대근
(700-412) 대구시 중구 달구벌대로 2177, 경북대학교 치의학전문대학원 구강악안면
외과학교실
Tel: 053-600-7551, Fax: 053-426-5365, E-mail: kwondk@knu.ac.kr

RECEIVED February 28, 2013, REVISED March 30, 2013,
ACCEPTED May 20, 2013

Correspondence to Tae-Geon Kwon
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kyungpook National
University School of Dentistry
2177 Dalgubeol-daero, Jung-gu, Daegu 700-412, Korea
Tel: 82-53-600-7551, Fax: 82-53-426-5365, E-mail: kwondk@knu.ac.kr

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

(atherosclerosis)이지만, 매독(syphilis), 패혈 색전(septic emboli), 그리고 선천적인 구조적 결함 또한 그 원인이 될 수 있다 [1,2]. 가성 동맥류(false arterial aneurysms or pseudoaneurysms)는 혈관벽의 전층(full thickness)을 파열시키는 외상에 의해 야기되며 이러한 외상으로 인해 주변조직으로 혈액의 유출이 일어난다. 이러한 혈액의 유출이 박동 혈종(pulsating hematoma)을 생성하며 혈관 주위 결합조직(perivascular connective tissue)은 가성 동맥류의 낭(sac)을 형성한다. 동맥압은 가성 동맥류의 점진적인 팽창을 야기하고, 이로 인해 동맥류는 파열되어 생명까지 위협하는 출혈을 야기할 수 있다[3]. 발생 원인은 자상(knife wound)과 총상(gunshot wound)이 대부분이지만 골절에 의해서도 일어날 수 있는 것으로 보고되고 있으며[4,5], 주로 상지나 하지에 외상으로 인한 가성 동맥류가 일어나고 안면부 영역에서는 매우 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다[6]. 현재 보고되는 외상으로 인한 악안면 영역의 가성 동맥류는 대부분 안면 동맥에서 일어난 것이다[7-10].

하지만 낭성 병소에 대한 수술적 처치 후 발생한 가성 동맥류는 현재까지 보고된 바가 없다. 저자들은 하악의 낭성 병소를 주소로 경북대학교 치과병원 구강악안면외과에 내원한 환자에서 외과적 소파술 시행 후 하치조 동맥에 발생한 가성 동맥류를 치험하였기에 임상 증례를 그 원인과 증상, 치료법 등의 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

33세 남자환자가 하악 우측 제3대구치 부위의 간헐적인 둔통과

가벼운 치은 부종을 주소로 내원하였다. 파노라마 방사선 사진에서 하악 우측 제3대구치 치근 주위 및 하악 우측 가지 영역에서 중등도로 경계된 방사선 불투과상이 나타났다(Fig. 1). 치성각화낭(keratocystic odontogenic tumor)으로 잠정 진단을 내린 후 전신마취하에 외측 피질골 박리(lateral decortication)를 이용한 외과적 소파술 및 하악 우측 제3대구치의 발치술을 시행하였고, 수술 당시 낭종벽을 완전히 소파해내는 과정에서 하치조 신경을 직접 관찰하였으며 이때 하치조 신경을 견인해서 낭종벽만을 제거하였다. 낭종벽을 제거하는 과정 중에 약간의 출혈이 있었으나 10분간의 압박지혈 후 출혈은 어느 정도 멈추었으며 수술은 별다른 이상 없이 마무리되었다(Fig. 2). 환자는 약 5일간의 입원 치료 후 양호한 치유 경과를 보여 퇴원하였으며, 소파된 종물은 최종 조직검사 결과 치성각화낭으로 진단되었다. 약 1주일마다 정기적인 경과 관찰이 이루어졌는데, 수술 후 14일 경과 시 우측 하악각 부위의 부종, 통증과 함께 구강 내 출혈을 호소하였고, 구강 내 검사에서 하악 우측 제2대구치 후방 부위의 열개에서 동맥성 출혈(arterial bleeding)이 나타났다. 약 30분간의 압박지혈이 행해졌고 출혈은 멈추었다. 지혈된 것을 확인한 뒤 지연성 출혈을 막기 위해 하루 동안 바세린 거즈 충전이 시행되었다. 그로부터 하루 뒤 바세린 거즈는 제거되었고 혈병이 차있는 것이 확인되어 추가적인 검사 없이 경과 관찰하기로 하였다. 그러나 약 2주 뒤, 더욱 심해진 우측 하악각 부위의 부종과 구강 내 출혈을 주소로 응급실을 내원하였다. 한시간 이상의 압박 지혈이 행해졌지만 지혈이 되지 않았다. 따라서 진단을 위해 조영제를 사용한 전산화 단층촬영과 전혈구(complete blood count) 검사실 검사가 행해졌다. 백혈구(white blood cell, WBC) $5.7 \times 10^3/\mu\text{L}$, 헤모글로빈(hemoglobin,

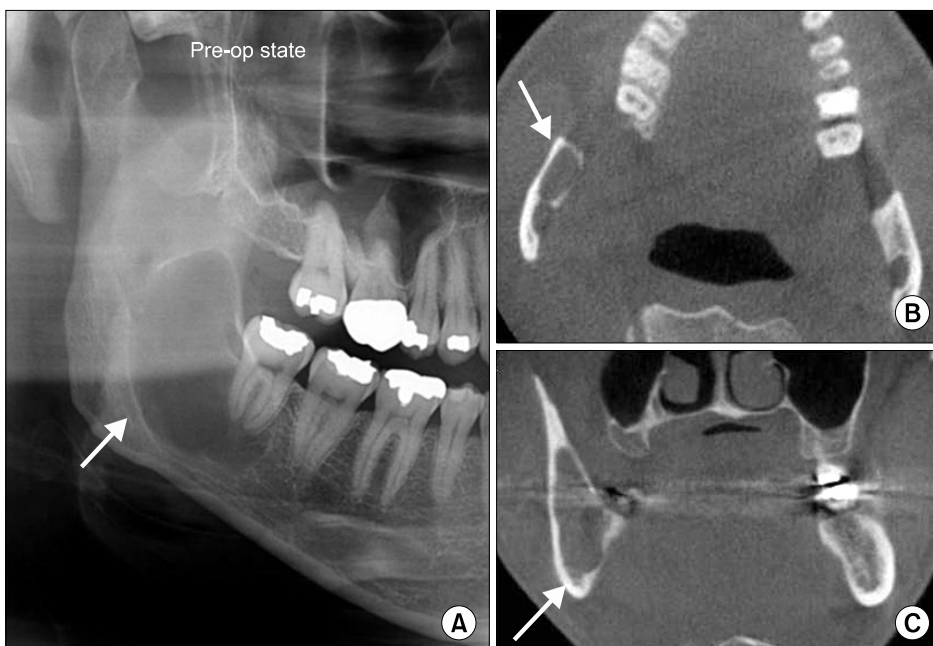


Fig. 1. Preoperative (pre-op) radiographic examination revealed a moderate-defined cystic radiolucency (A~C: white arrows) on #48 distal area. (A) Panoramic radiography. (B) Axial view. (C) Coronal view.

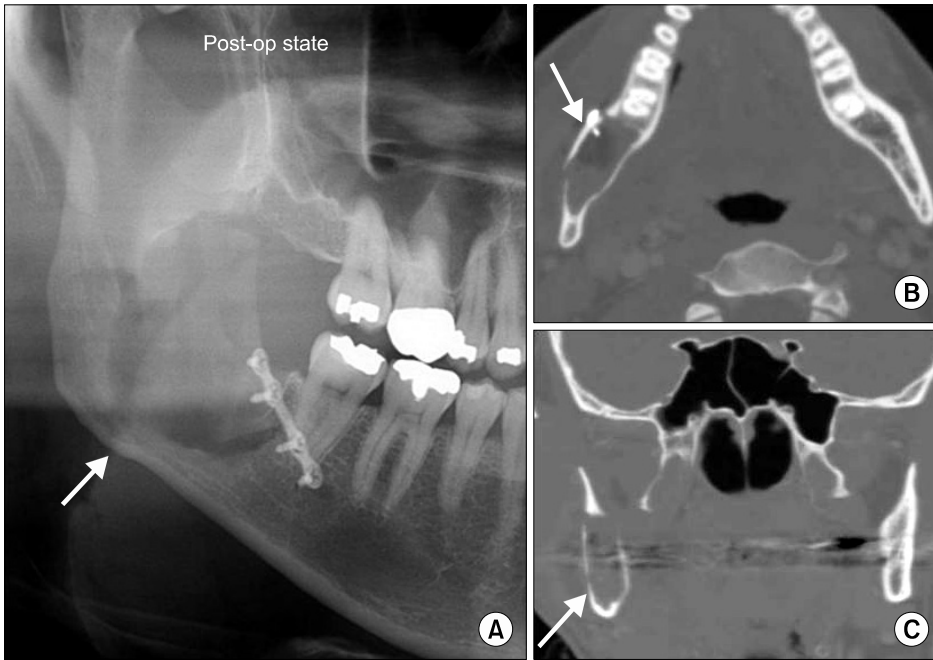


Fig. 2. One week postoperative (post-op) radiographic examination revealed a radiolucent cavity (A~C: white arrows) after surgical curettage with lateral decortications. (A) Panoramic radiography. (B) Axial view. (C) Coronal view.

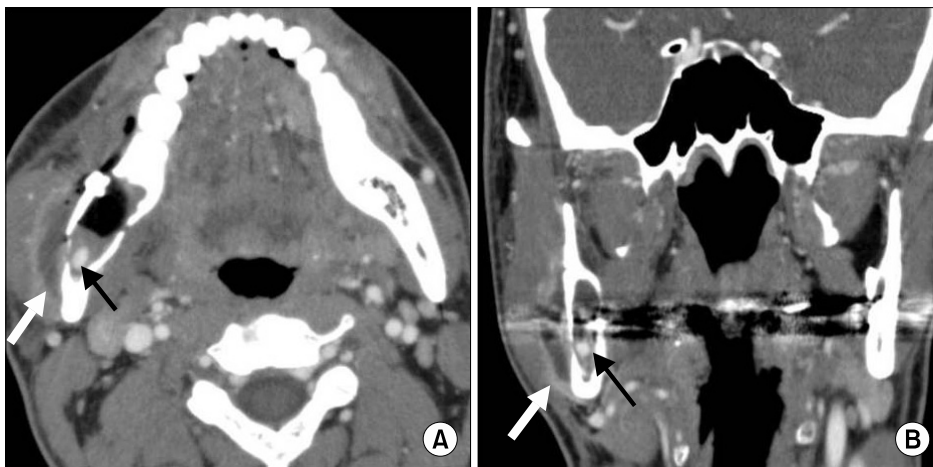


Fig. 3. Paranasal sinus-enhanced computed tomography for diagnosis revealed a large central enhancement (arterial phase), which suggests pseudoaneurysm (black thin arrow) and hematoma around the operation site (white thick arrow). (A) Axial view. (B) Coronal view.

Hb) 8.8 g/dL, 혈소판(platelet, PLT) $328 \times 10^3 / \mu\text{L}$ 로 혈액 손실 소견을 보였으며, 조영제 포함한 전산화 단층촬영에서 수술 부위 주변으로 혈종(hematoma) 및 가성 동맥류로 추정되는 경계가 뚜렷한 방사선 투과성 공동 내로 방사선 불투과성 부위가 위치하는 것을 관찰할 수 있었다(Fig. 3). 외과적 외상에 의해 발생한 우측 하치조 동맥의 가성 동맥류로 진단을 내리고, 혈관 조영술(angiography)이 시행되었다. 촬영한 혈관 조영도에서 우측 하치조 동맥에 발생한 가성 동맥류가 확인되었고(Fig. 4A), 곧바로 glue (Histoacryl[®], B. Braun, Tuttlingen, Germany)를 이용하여 상악동맥의 가지인 하치조 동맥의 색전술(embolization)이 시행되었다(Fig. 4B). 하치조 동맥의 색전술 이후, 혈관 조영술상에서

하치조 동맥에서의 출혈이 멈춘 것이 확인되었다(Fig. 4B). 시술 후 지혈되었지만, 지연 출혈을 막기 위해 한시간 동안의 압박지혈이 시행되었다. 환자는 수혈을 받지 않았으며, 색전술 2일 뒤 시행한 혈액 검사에서 WBC $5.3 \times 10^3 / \mu\text{L}$, Hb 13.3 g/dL, PLT $335 \times 10^3 / \mu\text{L}$ 로 출혈이 조절되어 혈액 수치가 정상 범위에 들어온 것이 확인되었고, 환자의 증상 또한 해소되었다. 이후 경과 관찰 약 6달 후 시행된 조영제를 사용한 전산화 단층촬영 결과 혈종 및 가성 동맥류로 보이는 방사선 불투과상이 사라진 것이 확인되었고(Fig. 5), 환자 구강의 치유상태도 양호한 것을 확인할 수 있었다. 환자는 이후 약 1년이 지난 현재까지 재발 없이 양호한 결과를 보이고 있다.



Fig. 4. (A) Diagnostic angiography indicates the hemorrhage on the right inferior alveolar artery (arrow). (B) Post-embolization state showed that the bleeding was controlled via angiographic embolization (arrow).

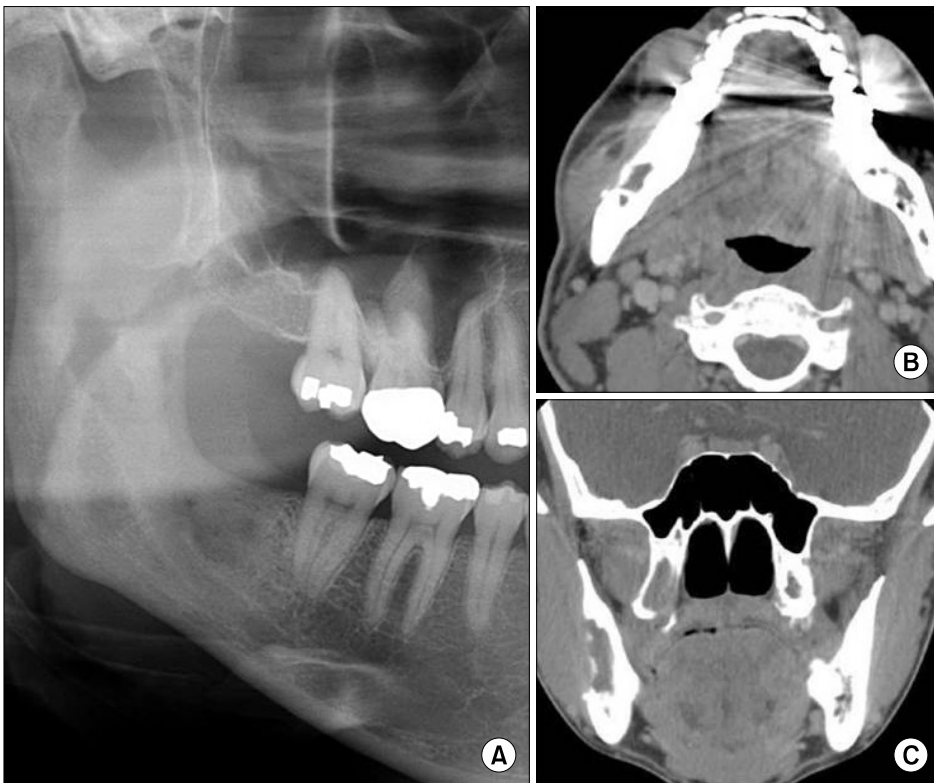


Fig. 5. Seven months post-embolization radiographic examination. (A) Panoramic radiography showed a favorable bone healing on the operation site. Axial view (B), coronal view (C) revealed that central enhancement and hematoma formation was completely resorbed state.

고 찰

상악 동맥에서 가성 동맥류의 발생은 매우 흔치 않은 일로 외상과 안면 골절[5,11-13], 바늘 흡인, 하악 골절술, 감염[14] 등에 의해 일어나며, 통상적인 발병시기는 수주에서 수개월에 이른다. 이러한 가성 동맥류는 심한 통증, 박동성의 부종, 비출혈(epistaxis)과 구강 안에서의 심각한 출혈을 나타내며, 간혹 안면 신경 마비 또한 동반될 수 있다. 또한, 피부 표면에 가깝게 주행하는 천측두 동맥이나 안면 동맥의 가지에서 잘 나타나는데 이는 외상에 잘 노출되기 때문이다[15]. Conner 등[16]은 안면 영역에 발생한

가성 동맥류를 조사한 결과 약 85%가 천측두 동맥에서 발생했고, 약 7% 정도에서 안면 동맥과 내상악 동맥에서 발생했다고 보고했다.

Lanigan 등[14]은 수직 하악 가지 절단술 후 발생한 하치조 동맥의 가성 동맥류를 보고하고 있다. 하지만 구강악안면 영역에서의 외과적 소파술 후에 하치조 동맥에 발생한 가성 동맥류는 극히 드문 병변으로 현재까지 보고된 적이 없다. 그 원인은 낭종 병소의 소파술에 의한 외과적 외상을 고려해 볼 수 있었으며 임상적으로 박동성 잡음, 촉진 가능한 맥동이 있었고 조절되지 않는 과다 출혈의 양상을 보여 전형적인 가성 동맥류를 나타낸 것으로 보인다.

이러한 가상 동맥류의 치료로는 크게 2가지로 분류된다. 첫 번째가 외과적 접근법이고, 두 번째가 혈관 조영술 및 선택적 색전술(selective embolization)과 같은 중재 요법(interventional radiology)이다. 외과적 접근법은 절개를 가한 후 혈관을 묶는 방법으로 좋은 시야를 확보할 수 있는 반면에 좀 더 외상적이고 침습적이며 신경 손상 가능성이 높다. 내상악 동맥에서 발생한 가상 동맥류에 대한 외과적 접근법은 여러 가지가 있다. Banks와 Redpath[17]에 의해서 외경 동맥의 결찰이 이루어졌으나 구강악안면 영역의 풍부한 혈액 순환 등으로 인해 완전한 지혈은 이루어지지 않았다. 다른 방법으로는 내상악 동맥 자체의 결찰이 있다[18,19]. 하지만 내상악 동맥 말단부의 해부학적 변이가 심하기 때문에 술 후 재출혈 가능성이 있다고 보고된다[11]. 이에 반해 혈관 조영술은 침습성과 외상성이 낮고 짧은 회복시간을 요하며 해부학적 구조물의 보존율이 높다. 게다가 혈관 조영술은 급양혈관(feeding vessel)의 위치를 정확히 알 수 있으며, 출혈의 정확한 해부학적 위치를 찾을 수 있다. 그래서 치료적인 색전술(therapeutic embolization)이 시행되지 않을 경우에도 혈관 조영술은 원인 혈관의 구조 및 위치를 제공하여 정확한 외과적 접근이 가능하게 한다[13]. 내상악 동맥의 가지인 하치조 동맥에서 발생한 가상 동맥류의 치료 또한 유사하다. 첫 번째는 혈관 수축 스프레이, 거즈 충전 등과 같은 보존적인 치료이며, 두 번째는 혈관 소작, 혈관 결찰과 같은 외과적 시술이고, 세 번째는 혈관 조영술과 색전술을 이용한 치료 방법이다[4]. 하지만 구강악안면 영역에서의 색전술은 두경부 혈관의 복잡한 해부학적 구조와 문합으로 인해 색전 재료가 역류되어 합병증을 유발할 수 있다고 보고된다[20]. 저자들은 혈관 조영술의 비침습적인 측면과 병소의 해부학적 접근이 매우 어려운 경우를 생각하여 두 번째 방법을 택하였다. 병소는 혈관 조영술에 의해 확인되었으며, 색전술로 치료하였고, 양호한 결과를 보였다. 이러한 중재 요법은 외상 후 출혈의 처치에 있어서 중요한 역할을 한다.

구강 악안면 영역에서의 내상악 동맥의 가상 동맥류는 드문 증례이지만 이러한 증례 대부분은 외상에 의해 나타난다. 하지만 악골의 낭종 병소의 치료를 위해 시행된 소파술 후 발생한 가상 동맥류는 현재까지 보고된 바 없으며, 이러한 드문 증례를 조영제를 포함한 전산화 단층촬영 및 혈관 조영술(angiography)에 의해 확진하여 색전술(embolization)로 치료하였다. 가상 동맥류는 과다 출혈을 일으켜 생명을 위협할 정도까지 영향이 있으므로 이에 대한 진단과 치료는 중요하다. 혈관 조영술은 과다 출혈을 일으키는 환자에 있어서 정확한 진단을 가능하게 해주며 이를 이용한 색전술은 외상적이며 신경손상 가능성이 높은 외과적 접근법에 비해 외상성이 낮고, 해부학적 구조물의 보존할 수 있으며 진단과 치료의 연속성이 있다는 장점을 가지므로 좋은 치료법이 될 수 있다.

References

1. Orihovac Z, Virag M, Manojlović S. Traumatic facial artery aneurysm: case report. *J Oral Maxillofac Surg* 1999;57:199-201.
2. Lutcavage GJ. Traumatic facial artery aneurysm and arteriovenous fistula: case report. *J Oral Maxillofac Surg* 1992;50:402-5.
3. Gerbino G, Rocca F, Grosso M, Regge D. Pseudoaneurysm of the internal maxillary artery and Frey's syndrome after blunt facial trauma. *J Oral Maxillofac Surg* 1997;55:1485-90.
4. Pham N, Sivapatham T, Hussain MS, Bhalla T, Masaryk TJ, Hui FK. Particle embolization of the bilateral superior and inferior alveolar arteries for life threatening dental socket hemorrhage. *J Neurointerv Surg* 2012;4:e20.
5. Schwartz HC, Kendrick RW, Pogorel BS. False aneurysm of the maxillary artery. An unusual complication of closed facial trauma. *Arch Otolaryngol* 1983;109:616-8.
6. Rich NM, Hobson RW 2nd, Collins GJ Jr. Traumatic arteriovenous fistulas and false aneurysms: a review of 558 lesions. *Surgery* 1975;78:817-28.
7. Cooperband BR, Friedel W, Bhatt GM, Eisig S. False aneurysm of the facial artery. *J Oral Maxillofac Surg* 1989;47:1327-9.
8. van den Akker HP, van der Lijn F. A false aneurysm of the facial artery as a complication of circumferential wiring. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1974;37:514-7.
9. Schwartz SH, Blankenship BJ, Stout RA. False aneurysm of the facial artery: report of case. *J Oral Surg* 1971;29:672-3.
10. Cohen MA. False (traumatic) aneurysm of the facial artery caused by a foreign body. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1986;15:336-8.
11. Roberson GH, Reardon EJ. Angiography and embolization of the internal maxillary artery for posterior epistaxis. *Arch Otolaryngol* 1979;105:333-7.
12. D'Orta JA, Shatney CH. Post-traumatic pseudoaneurysm of the internal maxillary artery. *J Trauma* 1982;22:161-4.
13. Rogers SN, Patel M, Beirne JC, Nixon TE. Traumatic aneurysm of the maxillary artery: the role of interventional radiology. A report of two cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1995;24:336-9.
14. Lanigan DT, Hey JH, West RA. Major vascular complications of orthognathic surgery: false aneurysms and arteriovenous fistulas following orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 1991;49:571-7.
15. Pappa H, Richardson D, Niven S. False aneurysm of the facial artery as complication of sagittal split osteotomy. *J Craniomaxillofac Surg* 2008;36:180-2.
16. Conner WC 3rd, Rohrich RJ, Pollock RA. Traumatic aneurysms of the face and temple: a patient report and literature review, 1644 to 1998. *Ann Plast Surg* 1998;41:321-6.
17. Banks P, Redpath TH. Closed carotid artery hemorrhage as a complication of minor gunshot wounds of the face and jaws. *J Oral Surg* 1972;30:176-83.
18. Pick TP. On partial rupture of arteries from external violence. *St. Georges Hosp Rep* 1871-1872;6:161-9.
19. Allen GW. Ligation of the internal maxillary artery for epistaxis. *Laryngoscope* 1970;80:915-23.
20. Mehrotra ON, Brown GE, Widdowson WP, Wilson JP. Arteriography and selective embolisation in the control of life-threatening haemorrhage following facial fractures. *Br J Plast Surg* 1984;37:482-5.