

하악골의 동정맥 기형

경북대학교 치과대학 치과방사선학 교실

김 동 윤 · 이 강 숙 · 최 갑 식

목 차

- I. 서 론
- II. 증 례
- III. 고 찰
- IV. 결 론
- 참고문헌
- 영문초록
- 사진부도

I. 서 론

비교적 드문 질환인 동정맥 기형은 혈류가 동정맥간의 모세혈관계를 우회하여 직접 교통하는 발육성 이상으로서, 선천성과 후천성 기형으로 분류되며, 선천성 동정맥 기형은 일반적인 발생 원기에서 동, 정맥으로의 분화실패에 의해 발생되고, 후천성 동정맥 기형은 주로 외상에 의해 발생된다^{2,5,8)}. 신체 어느 부위에서나 발생될 수 있으나 두경부에서 특히 호발되며, 20세 이전의 나이에서 호발되고, 남자에 비해 여자에서 많이 발생되며, 상악보다 하악에서 2배정도 호발된다^{8,9)}. 임상소견으로는 병소가 발생하는 부위에 따라 골 팽창, 연조직 부종, 청진시 잡음, 촉진시 진동, 이환부 고열, 흡인시 혈액유입 등의 다양한 증상을 나타내며, 방사선학적 소견은 경계가 분명한 다발성 방사선투과성 병소로 관찰되고, 혈관조영술에서 혈관의 비정상적 군집으로 나타난다^{5,8)}.

저자들은 하악골 동통과 치은 출혈을 주소로

내원한 두 환자의 방사선학적 검사에서 골용해성 방사선투과성 병소를 관찰하고, 임상 및 혈관조영술을 포함하는 방사선학적 소견을 통해 동정맥 기형으로 확진된 증례를 경험하고 문헌고찰과 함께 보고한다.

II. 증 례

증례 1

임상 소견

17세 여자 환자가 좌측 하악각 부위의 둔통과 치은출혈을 주소로 내원하였다. 좌측 대구치의 치은부위에서 발적이 있었고, 촉진시 동통과 진전감이 있었으며, 그 외의 특기할 만한 병력은 없었다.

방사선학적 소견

파노라마 방사선사진상에서 좌측 하악체와 하악각부위에서 주위 정상골과 잘 경계지워지는 방사선투과성 병소가 관찰되었고, 병소의 내부에는 작은 크기의 많은 골용해성 결손부가 관찰되었다(Fig. 1, 2). 컴퓨터 단층촬영사진상에서는 병소와 관련된 부위의 골수강이 넓어졌고, 협설측으로 피질골의 비박이 관찰되었다(Fig. 3~5). 골주사 방사선사진에서 좌측 하악체부와 우각부의 병소 부위에 방사성동위원소의 집적이 증가되어 나타났다(Fig. 6). 혈관조영술을 통해 병소부위에서 안면동맥, 설동맥, 하치조동맥에 의해 영양이 공급되는 혈관 단락이 관찰되었다(Fig. 7~9). 색전

술이 시행된 후에도 재발이 의심되어 시행된 2차, 3차 계수공제 혈관조영술(digital subtraction angiography)에서 같은 부위에 병소가 관찰되었다(Fig. 10).

치료 및 예후

세차례의 안면동맥, 설동맥, 하치조동맥에 대한 색전술과 소파술이 병행되었고, 마지막 시술 후 3개월까지의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

증례 2

임상 소견

18세 여자 환자가 좌측 하악체 부위의 둔통과 치은출혈을 주소로 내원하였다. 구강내 소견으로는 좌측 소구치 치은부위의 발적과 부종이 관찰되었고, 경증의 두근거림이 있었으며, 그 외의 특기할 만한 병력은 없었다.

방사선학적 소견

파노라마 방사선사진에서 우측 하악체, 정중부, 좌측 하악체부위에서 많은 골 용해성 방사선 투과성 병소들이 관찰되었으며, 특히 좌측 하악체부위에서는 수직 고경의 증가가 관찰되었다(Fig. 11). 컴퓨터 단층촬영사진과 초음파사진상에서는 확장된 혈관이 좌측 하악체의 설측에서 정중부를 가로질러 반대편으로 주행하는 소견이 관찰되었다(Fig. 12, 13). 또한 계수공제 혈관조영술에서 병소부위에 좌측 안면동맥, 설동맥, 하치조동맥, 우측 안면동맥에 의해 영양이 공급되는 혈관 단락이 관찰되었다(Fig. 16~19).

치료 및 예후

Ivalon을 이용한 색전술이 시행되었으며, 술후 6개월간의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

Ⅲ. 고 찰

동정맥 기형은 1757년 Hunter에 의해 처음 보고된 이래, arteriovenous aneurysm, arteriove-

nous fistula, racemose aneurysm, aneurysms by anastomosis, plexiform angioma, aneurysmal varices, hemangioma of the bone 등으로 명명되어 보고되었다. 혈관발생은 모세혈관 망상조직시기, 망상조직시기, 혈관성숙시기의 3단계로 처음 분류되었으나, 내피세포기, 망상조직기, 전반적 분화기로 분류하는 것이 받아들여지고 있다. 이러한 혈관분화 혹은 성숙기의 이상으로 혈관 질환이 발생되며, 이는 그 혈관계를 구성하는 세포의 특징과 활성 및 생물학적 특징에 따라서 크게 혈관종과 동정맥 기형으로 분류된다^{5,8)}. 그 중 동정맥 기형은 고혈류 병소와 저혈류 병소로 나누어지며, 고혈류 병소에는 동맥형과 동정맥형이 있고, 저혈류 병소에는 모세혈관형, 정맥형, 림프형, 혼합형 등이 있다. 동정맥 기형은 이러한 여러 형태가 단일 혹은 혼재된 양상으로 나타나며, 내피세포기에서의 진행성 분화결핍에 의해 해면상 모세혈관형의 혈관종이 유발되고, 망상조직기에서의 발육정지에 의해 진성 동정맥 누공이 유발되는 것으로 알려져 있다.

동정맥 기형은 초기 발생학적 혈관이상에 의해 미세기형이 형성된 후, 혈류량 증가, 신생 측부혈행, 문합증가 등에 의해 기형이 유발되고, 그 후 혈관의 퇴행성 변화가 생기게 되며 결국 새로운 누공을 형성하게 된다^{2,7)}.

동정맥기형은 대개 유아기 또는 사춘기 이전에 발견되지만, 때로는 20대까지도 증상이 나타나지 않는 경우도 있으며, 사지, 폐, 두경부 등에서 가장 호발되며, 신장, 골반, 대정맥, 문맥혈관 등에서도 나타난다. 임상증상으로는 촉진시 외경정맥을 따라 지속적인 진동, 청진시 안면부와 두피의 전면에서 나타나는 지속적인 잡음, 관련 치아의 전위와 과동요, 자발적인 치은출혈, 동통, 하순과 턱의 감각이상, 이명 등이 나타날 수 있으며, 가장 흔한 증상은 치은부위의 출혈과 안면연조직의 부종이다⁸⁾. 이번 증례의 두 환자에서도 치은출혈과 안면 연조직의 부종, 그리고 동통이 주된 증상으로 나타났다. 동정맥 기형환자에서 나타날 수 있는 심장비대, 대사기능장애 등은 드물지만, 광범위한 크기의 동정맥 기형에서는 이러한 부작용이 나타날 수 있는 것으로 보고되었다³⁾. 이번 증례의 두 환자에서는 비교적 큰 크기

로 하악에 발생한 동정맥 기형이었으나, 이러한 혈역학적 부작용은 관찰되지 않았다.

방사선학적 소견으로는 하악 구치부와 상행지 부위에서 경계가 명확하거나 불분명한 단방성 혹은 다방성의 방사선투과성 병소로 관찰되며, 햇살, 비누거품, 벌집모양의 골용해성 부위가 정상골과 혼화된 양상으로 나타날 수도 있다^{2,8)}. 방사선학적으로 감별이 필요한 질환으로는 범랑모세포종, 거대세포병소, 점액종, 합치성 낭, 전이성 암종, 다발성 골수종, 섬유성 이형성증, 골육종 등이 있으나, 대부분의 병소들과는 임상적 특징과 연관해서 감별할 수 있다. 악골에 발생한 병소인 경우에는 안면골 등과 겹쳐 방사선학적으로 전체 병소의 범위를 정확하게 관찰하기 힘들기 때문에 동정맥 기형은 혈관조영술을 통해 가장 정확한 진단을 할 수 있겠다^{6,10)}.

조직병리학적으로는 두부 내부에 생긴 동정맥 기형에서는 큰 사행성의 혈관들이 관찰되며, 현미경적으로는 혈관들이 동맥과 정맥으로 나타나지만 대부분은 동맥과 정맥으로 구분되지 않고 혼재된 형태로 관찰된다^{5,8)}. 이차적 변화로는 혈관의 초자양 비후, 동맥 경화증, 석회화증, 혈전증 등이 흔히 나타날 수 있으나, 이번 증례에서는 이러한 이차적 변화의 소견은 관찰되지 않았다.

두경부 혈관질환의 대부분에서 병력과 임상적 소견만으로 대략적인 진단이 가능하지만 혈관조영술을 통해 확진하게 된다. 그리고 동정맥 기형은 생명을 위협하는 질환일 수 있으므로, 혈관계 질환이 의심되는 악골의 방사선투과성 병소인 경우에는 혈관조영술을 통해 두경부 전체에 대한 평가와 함께 감별 진단이 필요하다. 골에서는 거의 관찰되지 않는 혈관종과는 달리 선천성 동정맥 기형은 흔히 골 병소로 나타나며 병소의 범위가 광범위하고, 가끔 악성보다 더 빨리 파급되는 경우도 있다. Boyd등³⁾이 혈관종에 의한 골 변화는 약 1%정도에서 관찰 되지만, 동정맥 기형에 의한 골 변화는 약 34% 정도에서 나타나는 것으로 보고하였으며, 특히 림프 기형인 경우 골 비후가 나타나고 사지의 정맥 기형인 경우 발육 부전이 나타나며, 동맥 혹은 고혈류 병소인 경우 파괴적 골변화가 관찰된다고 보고하였다. 증례 1의 경우는 하악골 내부에서 발생한 골 용해성 병

소로 관찰되었으며, 이와 같은 하악골내 동정맥 기형은 상당히 드문 것으로 알려져 있다. 증례 2의 경우에는 하악골과 인접한 연조직에서 병소가 관찰되었으나, 인접 하악골에 골 용해성 병소가 관찰되었고 수직 고경의 증가도 나타났다.

동정맥 기형과 감별이 필요한 혈관종은 여성에서 호발되며, 출생시에는 병소가 대개 분명하지 않으나 출생후 급격히 성장되며 태생 10개월부터 퇴화하여 5~7세까지 퇴화한다. 또한 조직병리학적으로는 증가된 비만세포와 빠른 내피세포의 교체가 나타나며, 여러층의 기저막이 관찰된다. 두경부에서 발생하는 동정맥 기형은 대부분 안면동맥, 설동맥 또는 내악동맥에 의해 혈류를 공급받게 되며, 혈관조영술에서 관찰되는 병소 부위는 혈관조영제에 의해 명확한 경계의 소엽의 형태로 나타난다^{1,4)}. 일반적인 방사선사진상에서는 병소의 외형이 나타나지 않거나 병소와 인접한 부위에서 경미한 골 침식이 나타날 수 있으며, 중심성 병소인 경우 비누거품 모양의 다방성 방사선투과상을 나타내기도 한다^{8,10)}. 그러나 혈관종과는 달리 대부분 동정맥 기형은 출생시 분명하지 않으며 아동의 성장과 같이 성장하고, 외상이나 감염, 호르몬 등의 영향을 받아 급격히 성장하게 된다. 조직병리학적으로는 정상 비만세포와 느린 내피세포 교체율, 얇은 기저막이 관찰되며, 혈관조영술에서 넓게 퍼진 혈관들로 나타나고 방사선사진상에서 인접 정상조직의 변형이 나타난다⁸⁾.

치료법으로는 한랭요법, 경화요법, 방사선 치료, 병소내 결찰, 색전술, 색전술과 수술의 병행 등의 방법이 사용되며, 경화제는 sodium morrhuate, ethanol, acetic acid, phenol 등이 사용되지만, 최근에는 보존적 수술과 색전술의 병행이 주로 이루어진다^{1,4,8)}. 동정맥 기형은 재발률이 상당히 높으며, 이런 재발률은 병소의 신생 측부순환에 의한 것이라기 보다는, 혈관조영술에서 나타나지 않는 미세한 누공들 때문인 것으로 여겨진다. 선천적 누공의 경우 이러한 조직병리학적으로 인해 수술후 빠른 재발이 나타나며, 이전의 비이환부에서 새로운 누공이 형성된다. 증례 1에서 계속적인 재발의 소견이 관찰되어 3회에 걸친 색전술이 소파술과 함께 시행되었던 것

은 이러한 이유 때문인 것으로 생각된다. 색전술은 혈관중 혹은 동정맥 기형에서 인위적으로 혈전증을 유발시켜 수술시 출혈과 수혈의 필요성을 줄여 수술을 보다 쉽게 해주는 술식이다. 색전술에서 사용되는 재료들 중 일시적 재료로는 autologous clot, absorbable gelatin, gelform sponge, microfibrillar collagen 등이 있으며, 영구적 재료로는 silastic sphere, polyvinyl alcohol, bucrylate, silicone liquid, dura mater 등이 사용되고 있다. 색전술후 합병증은 무혈관성 괴사, 수술시 골막천공기의 응고, 색전 시술 부위에서의 치근형성 지연, 하악 비대칭, 술후 허혈성 현상 등이 나타날 수 있으며, 병소와 연관되지 않은 동맥의 폐색, 정맥의 이동으로 인한 폐혈관 색전, 내경동맥으로의 색전물질의 역행성 관류 등이 나타날 수 있는 것으로 보고되었다^{1,4,7)}.

IV. 결 론

저자들은 하악의 동통과 치은출혈을 주소로 하는 두 명의 10대 여자 환자에서 임상, 방사선학적 소견을 통해 동정맥 기형의 증례를 관찰하고 다음의 결과를 얻었다.

1. 임상적으로 병소부위에서 둔통과 치은출혈, 발적, 촉진시 통증과 진전감이 있었다.
2. 방사선학적으로 주위 정상골과 잘 경계지워진 방사선투과성 병소였으며, 내부에 작고 많은 골용해성 결손부가 관찰되었고, 골주사 방사선사진에서 병소부위에 방사성동위원소의 집적이 증가되었다.
3. 혈관조영술을 통해 병소부위에서 안면동맥, 설동맥, 하치조동맥 등에 의해 영양이 공급되는 혈관단락이 관찰되었으며, 색전술이 시행된 후, 3개월에서 6개월까지의 추적검사서 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

REFERENCES

1. Akker, H.P., Kuiper, L. and Peeters, L.M. : Embolization of an arteriovenous malformation of the mandible, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 45: 255-260, 1987.
2. Anderson, J.H., Grisius, R.J. and McKean, T.W. : Arteriovenous malformation of the mandible, *Oral Surg.*, 52:118-125, 1981.
3. Boyd, J.B., Mulliken, J.B., Kaban, L.B., Upton, J. and Murray, J.E. : Skeletal changes associated with vascular malformations, *Plast. Reconstr. Surg.*, 74:789-795, 1984.
4. Forbes, G., Earnest, F., Jackson, I.T., Marsh, W.R., Jack, C.R. and Cross, S.A. : Therapeutic embolization angiography for extra-axial lesions in the head, *Mayo Clin. Proc.*, 61:427-441, 1986.
5. Horswell, B.B. : Classification and therapy of vascular lesions of the jaws, *Oral Maxillofac. Surg. Clinic of North America*, 3:109-126, 1991.
6. McCarley, D.L. and Hall, E.H. : Arteriovenous malformation of the mandible ; report of case, *J.A.D.A.*, 117:449-451, 1988.
7. McKenna, S.J. and Roddy, S.C. : Delayed management of a mandibular vascular malformation, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 47:517-522, 1989.
8. Shafer, W.G., Hine, M.K. and Levy, B.M. : A textbook of oral pathology, 4th ed., W.B. Saunders, Philadelphia, pp.154-157, 1983.
9. Spatz, S., Kaltman, S. and Farber, S. : Vascular malformation ; report of a case with eight-year follow up, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 43:281-284, 1985.
10. Svane, T.J., Smith, B.R., Wolford, L.M. and Pace, L.L. : Arteriovenous malformation of the mandible and its treatment ; a case report, *Oral Surg.*, 67:379-383, 1989.

-ABSTRACT-

ARTERIOVENOUS MALFORMATION OF THE MANDIBLE

Dong-Youn Kim, Kang-Sook Lee, Karp-Shik Choi

Department of Dental Radiology, College of Dentistry, Kyungpook National University

The arteriovenous malformation, an uncommon lesion, is a direct communication between an artery and a vein that bypasses the intervening capillary bed. The authors experienced two cases of arteriovenous malformation in 17-year-old and 18-year-old female patients who had suffered from mandibular pain and gingival bleeding. As a result of careful analysis of clinical and angiographic radiological examinations, we diagnosed them as arteriovenous malformations, and the results were as follows :

1. Main clinical symptoms were dull pain and gingival bleeding on the mandibular body area, and redness, pain on palpation, thrill and palpitation in the lesional sites were also observed.
2. Radiographically, well-defined radiolucent lesions with multiple osteolytic defects were observed. In radio-nuclide scan, increased uptakes of radioisotope were observed in the lesional sites.
3. Increased venous shunt supplied by the facial, lingual and inferior alveolar arteries was observed in angiography. After embolotherapy was performed, no recurrence was reported during 3 to 6 months follow up.

논문사진부도①

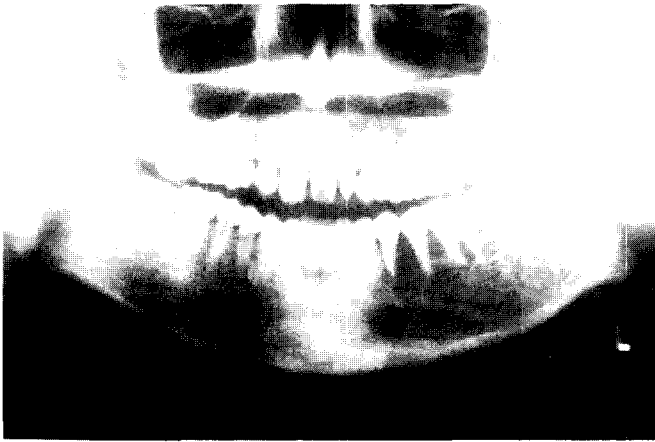


Fig. 1.



Fig. 2.



Fig. 3.

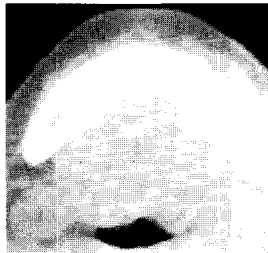


Fig. 4.



Fig. 5.



Fig. 6.



Fig. 7.

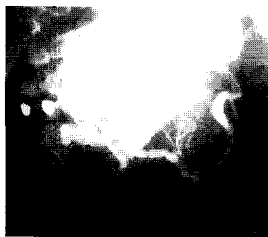


Fig. 8.



Fig. 9.



Fig. 10.



Fig. 7-1.



Fig. 8-1.



Fig. 9-1.

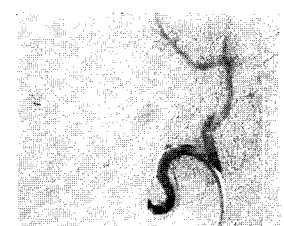


Fig. 10-1.

논문사진부도②

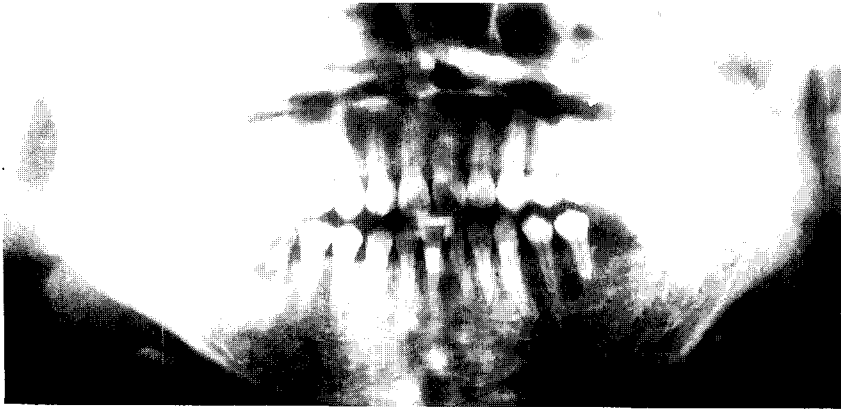


Fig. 11.



Fig. 12.



Fig. 13.

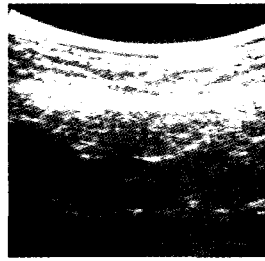


Fig. 14.

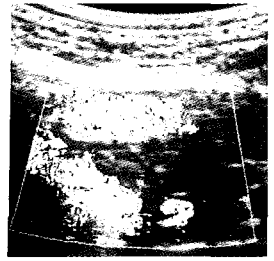


Fig. 15.

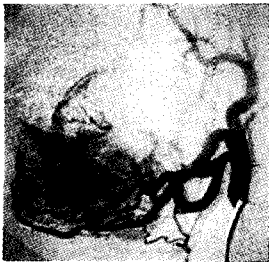


Fig. 16.



Fig. 17.



Fig. 18.



Fig. 19.



Fig. 16-1.

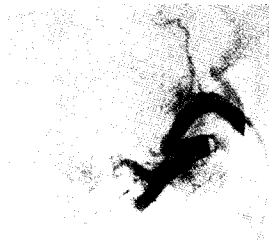


Fig. 17-1.

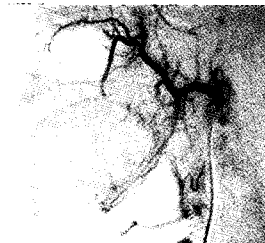


Fig. 18-1.



Fig. 19-1.