

성문 상부에 발생한 혼합형 혈관종

동국대학교 의과대학 일산병원 이비인후-두경부외과학교실

이 은 경 · 권 성 근

A Case of Mixed Cavernous, Capillary Hemangioma Arising from Supraglottis

Eun Kyeong Lee and Seong Keun Kwon

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Dongguk University, Ilsan Hospital, Goyang, Korea

Laryngeal hemangioma occurs mostly in infantile patients and infantile hemangiomas can be frequently seen in the subglottic area. So, respiratory distress is a main symptom in this entity. But adult hemangiomas are rare and can be seen in different locations such as in epiglottis, aryepiglottic fold, arytenoids and false and true vocal folds. Authors experienced a case of mixed hemangioma at the right aryepiglottic fold in a 42 years-old-man who was presented with snoring, throat foreign body sense for 3 months. So, we report this case with a review of the literature.

Korean J Bronchoesophagol 2010;16:161-164

KEY WORDS Hemangioma · Adult · Snoring · Supraglottis.

서 론

혈관종(hemangioma)은 65%가 두경부 영역에서 발생하는 양성 종양으로,^{1,2)} 주로 소아에서 발생되며 두경부 영역에서는 이하선이나 혀, 후두에서 흔히 발생한다.^{2,3)}

후두에 발생한 혈관종은 발생 연령에 따라 흔히 소아형과 성인형으로 구분이 가능하다.^{3,4)} 소아형 혈관종의 경우 전체 혈관종의 95%를 차지하고 생후 6개월 이내에 발생되며 나이가 들면서 퇴화하는 경향을 보여 5세경에는 1.6%만이 퇴행되지 않고 남는 것으로 알려져 있다.^{4,5)} 소아형 혈관종은 주로 성문 하부에 위치하여 호흡부전이나 천명음이 주 증상이며, 병리학적으로 모세상 혈관종(venous hemangioma)이 대부분이다.^{2,4)} 성인형 혈관종은 매우 드물며, 해면상 혈관종(cavernous hemangioma)이 76%를 차지하며 주로 성문 상부나 성문부(glottis)에 생기고, 주 증상은 목소리 변화이며 드물게 호흡부전 증상을 나타낸다.^{2,4)}

최근 저자들은 경부 이물감과 코골이를 주소로 내원한 42

세 환자에서 성문 상부(supraglottis)에 위치한 혼합형 혈관종 1예를 경험하였기에 이에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

42세 남자 환자가 3개월 전부터 시작된 경부 이물감을 주소로 본원 외래에 내원하였다. 환자는 문진상 음성 변화나 호흡 곤란은 없었으나 심한 코골이와 수면 무호흡을 호소하였고, 직업은 학원 강사로 성대 과용의 병력이 있었다. 또한 과거 20년간 하루 1갑씩 20갑년의 흡연력이 있었으나 내원 6개월 전부터 중단한 상태였으며 후두 외상의 과거력은 없었다.

내원 당시 구강 검진 상, 양측 편도 비대증은 없었고 목젖 늘어짐도 관찰되지 않아 수면 무호흡증을 치료하기 위한 방법으로 구개수구개인두성형술은 적합하지 않았다. 후두 내시경 소견상 우측 피열후두덮개 주름(aryepiglottic fold)에 보라색의 매끈한 표면을 가진 구형의 종물이 관찰되었으며 이는 성문 상부 대부분을 막고 있어 심한 코골이와 수면 무호흡의 원인이 될 수 있었다(Fig. 1). 증상 호전을 위해 환자와 상의 후 후두미세수술을 시행하기로 결정하였다.

후두미세수술은 일반적인 시행 과정에 따랐으며, 전신 마

논문접수일: 2010년 12월 2일 / 심사완료일: 2010년 12월 17일
교신저자: 권성근, 410-773 경기도 고양시 일산동구 식사동 814
동국대학교 의과대학 일산병원 이비인후-두경부외과학교실
전화: 031-961-7438 · 전송: 031-961-7427
E-mail: otolarynx@hanmail.net

취 하에서 현수 후두경을 설치하여 병변을 노출시킨 후(Fig. 2A), CO₂ laser를 이용하여 병변을 완전히 적출하였다. 병변을 절제하는 데 특별히 어려운 점은 없었으며 혈관줄기(vessel stalk)을 자르기 전에 컵집자(cup forceps)로 혈관줄기를 잡고 컵집자에 Bovie를 대고 전기소작술을 시행하였기 때문에 출혈량도 많지 않았고, 수술 후에도 출혈 부위는 없었다(Fig. 2B). 수술 후 1일째까지 출혈 소견 보이지 않았다



Fig. 1. Preoperative laryngoscopic finding. A round pedunculated mass on right aryepiglottic fold was obstructing upper airway partially.

며 정상적으로 식사가 가능하여 퇴원하였다.

병리학적 검사에서 내피세포로 이루어진 얇은 벽을 가진 불규칙한 내강으로 구성되어 있는 굴 모양(sinusoid)의 공간과 미성숙 모세혈관이 있어 해면상 혈관종과 모세혈관상 혈관종의 혼합된 형태의 혈관종으로 최종 진단되었다(Fig. 3).

환자는 수술 후 1개월까지 성대 움직임에 이상 소견 없었고, 환자의 경부 이물감과 코골이는 호전되었으며, 다른 부작용이나 출혈 소견 관찰 되지 않았다(Fig. 4).

고 찰

혈관종은 인체에서 가장 흔한 선천성 양성종양으로 전체 혈관종의 50% 이상이 두경부 영역에서 발생한다고 알려져 있다.^{1,5,6)} 혈관종의 발생원인은 주로 선천적 이상에 의한 것으로 알려져 있고, 그 외 혈관 형성 과정에서의 과오종 혹은 혈류역학적 이상, 국소 외상 등도 원인이 될 수 있다.⁴⁻⁶⁾

후두의 혈관종은 1871년 Mackenzie에 의해서 처음 기술되었으며, 1921년 Sweets가 유아의 성문하부 혈관종과 성인의 성문, 성문상부 혈관종으로 구분하였다.²⁾ 후두 혈관종은 성인에서 매우 드문 질병으로 성대 과용, 담배, 후두 외상 등에 의해 발생할 수 있다.²⁾ 소아형 혈관종의 경우 생후 6개월 이내에 발생되며, 5세경에는 98.4%가 자연적으로 퇴화하므로^{5,7)} 이때까지 기도를 유지하며 기다리는 것이 일반적이다.^{4,8)} 대개 12세까지 자연 퇴행의 가능성은 남아 있으나, 실제적으

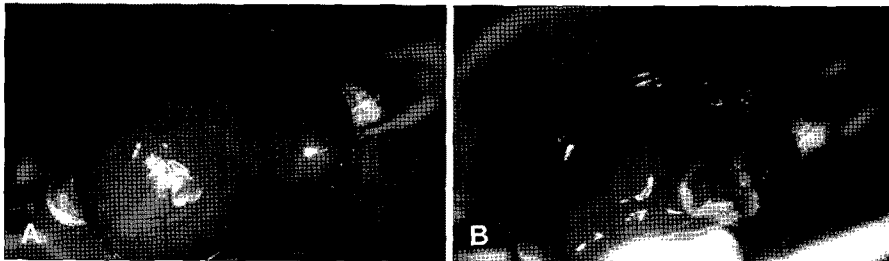


Fig. 2. Intraoperative laryngoscopic finding. A: There is a well vascularized round mass on right aryepiglottic fold. B: The mass was completely removed with CO₂ laser.

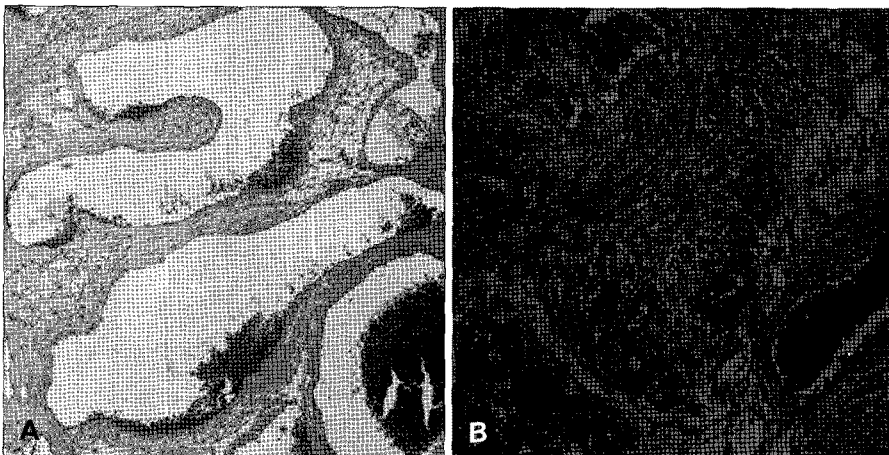


Fig. 3. Histopathologic findings of mixed hemangioma. A: Cavernous hemangioma is composed of large, dilated vessels lined by flattened endothelium (H&E × 100). B: There are lobular arrangement of capillary vessels in a fibrous stroma (H&E × 400).



Fig. 4. Postoperative laryngoscopic finding at 1 month after operation. Operative wound was healed without the damage to the true and false vocal fold.

로 자연 퇴행을 기대하기 어렵기 때문에 다른 치료를 고려하게 된다.^{4,8)} 성인형 혈관종의 경우 그 빈도가 매우 적으며, 주로 애성을 호소하나 드물게 호흡곤란을 호소하는 경우도 있다. 후두개, 피열후두덮개 주름 그리고 피열연골에 자주 발생하고, 자연 소실되는 경우가 드물기 때문에 절제술, 방사선 치료, 스테로이드, 레이저 치료를 환자의 상태에 맞게 적절히 시행하고 있다.^{1,4)}

성대에 국한된 혈관종은 Sataloff 등이 1995년에 처음으로 발표한 이래로 Yilmaz 등이 4예,¹⁾ Paul 등⁹⁾이 4예로 드물게 보고하고 있고, 본 증례와 같이 성문 상부에 발생한 혈관종은 후두개, 피열후두덮개 주름 그리고 피열연골에 자주 호발한다고 하나 Shpitzer 등,¹⁾ Martins 등¹⁰⁾이 총 4예만을 보고하였을 뿐이다. 보고된 증례 중 3예는 피열후두덮개 주름에 생긴 혈관종이고 나머지 1예는 가성대(false vocal fold)에 발생한 것이었으며, 피열후두덮개 주름에 생긴 3예 중 1예는 무증상이었고, 나머지 2예와 가성대에 생긴 증례에서는 애성을 호소하였다.^{1,10)} 본 증례에서와 같이 피열후두덮개 주름에 생긴 혼합형 혈관종이 성문상부 대부분을 덮어 심한 코골이를 유발하는 경우는 문헌고찰 결과 찾을 수 없었다.

진단은 임상 증상, 이학적 검사, 후두내시경 검사상의 육안적 소견, 방사선 검사 등으로 감별 진단할 수 있고 확진은 병리 조직 검사에 의한다. 병리 조직학적 소견에서 모세상, 해면상, 혼합형으로 분류되며, 임상적으로 해면상 혈관종은 모세상 혈관종과 구분하기 힘들지만, 해면상 혈관종은 조직학적으로 큰 정맥관이나 동양혈관(sinusoidal blood space)

으로 구성되어 있으며 좀 더 심층에서 발생하고 내측에 탄력 섬유와 탄성판이 거의 존재하지 않아 모세상 혈관종과 감별할 수 있다.⁶⁾ 소아형 혈관종은 모세상 혈관종이 주를 이루나, 대부분 자연 퇴행되기 때문에 성인에서는 모세상 혈관종의 비율은 줄고 해면상 혈관종의 비율이 크게 증가되는 것으로 생각된다.^{4,7)} 성인에서 발생한 두경부 혈관종을 보고한 국내 논문에서 총 25예 중에서 모세상 혈관종이 12%, 해면상 혈관종이 76%, 혼합형 혈관종이 12%로 보고하여 성인에서는 해면상 혈관종의 비율이 상대적으로 높다는 것을 보여 주었다.⁷⁾ 그러나 소아형 혈관종이 95% 이상 차지하므로 전체적인 규모 면에서 모세상 혈관종이 10배 이상 많다.^{4,6,7)}

혈관종의 치료에 있어서는 정해진 방법은 없지만 환자의 나이, 혈관종의 종류, 크기, 위치에 따라 치료 방법이 달라질 수 있다. 유아의 혈관종은 큰 불편감만 없다면 자연 퇴행할 때까지 기다려 볼 수 있지만 큰 혈관종은 수술이나 방사선으로 치료할 수 있다.^{2,7)} 성인의 혈관종은 자연 퇴행을 기대하기 어렵지만 진행하는 종양이 아니기 때문에 경과 관찰하는 것이 최선의 방법이 될 수 있다.²⁾ 하지만 크기가 커서 기능적 압박, 감염, 혈소판의 감소와 심장의 과도한 무리, 출혈이 있는 경우, 크기가 작더라도 외모의 향상에 도움이 되는 경우, 비록 퇴행이 되더라도 남아있는 섬유지방조직 때문에 얼굴의 기형을 초래하거나, 팽창된 피부로 인해 외피의 위축, 저색소증, 모세혈관 확장증의 우려가 있을 때는 적극적인 치료가 필요하며 이는 전체 혈관종의 10~20%에 해당된다.^{2,4,6,7)}

적극적인 치료로는 한랭수술(cryotherapy), 경화성 약제의 주입요법, 색전술, 스테로이드 사용 등의 비수술적 치료와 수술적 절제가 있다.^{1,4,8,11)} 고용량의 스테로이드를 사용하는 방법은 종양이 더 커지는 것을 막고 조직 손실이나 흉터, 혈소판 감소를 경감시킬 수 있지만, 재생장할 가능성이 약 30% 이상이므로 경과 관찰이 필요하다.^{1,4)}

수술적 절제는 스테로이드에 반응이 없거나, 뼈의 파괴 소견이나 주위 조직으로의 침윤이 있을 때, 그리고 진단적 결정을 내릴 때 시행된다. 크기가 작고 부분적이어서 쉽게 절제되고 치유되거나, 생명에 지장을 주는 부위, 외모에 지장을 줄 때는 조기에 수술을 하기도 한다.^{4,7)} 불안정한 절제를 하면 재발할 확률이 아주 높기 때문에 처음 수술할 때 종양을 완전한 제거하는 것이 가장 중요하다.^{4,7)} 레이저를 사용한 수술적 절제는 재발률이 높다는 보고가 있지만 레이저를 사용하지 않았을 때 발생할 수 있는 과도한 출혈과 감염 등의 합병증을 예방할 수 있고 수술시간의 단축과 탁월한 치유율을 보인다는 보고도 있었다.^{6,12)}

본 증례는 코골이를 주소로 내원한 성인의 좌측 피열후두

뒹개 주름에 발생한 혼합형 혈관종으로, 주증상 및 병리 조직학적 양상이 매우 드문 증례였으며, 크기가 커서 수면 시 기도 폐쇄 증상을 유발할 가능성이 있었기 때문에 적극적인 치료가 필요한 경우였고, 혈관줄기를 미리 결찰하여 출혈을 최소화하면서 완전 절제가 가능하였던 증례이었다.

REFERENCE

- 1) Shpitzer T, Noyek AM, Witterrick I, Kassel T, Ichise M, Gullane P, et al. Noncutaneous cavernous hemangiomas of the head and neck. *Am J Otolaryngol* 1997;18:367-74.
- 2) Ayse I, Evrim D, Sefik HA, Muharrem D, Levent A, Adil E. Vocal cord hemangiomas. *Turkey J Med Sci* 2009;39:305-7.
- 3) Kawakami M, Hayashi I, Yohimura K, Ichihara K, Nishikawas S, Ichihara T. Adult giant hemangioma of the larynx. *Auris Nasus Larynx* 2006;33:479-82.
- 4) Lee JH, Pack DJ, Lee JB, Kim SG. A case of cavernous hemangioma arising from left vocal cord. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2007;50:556-9.
- 5) Pitanguy I, Machado BH, Radwanski HN, Amorim NF. Surgical treatment of hemangiomas of the nose. *Ann Plast Surg* 1996;36:586-92.
- 6) Kang CY, Cho SI, Do NY, Lee JH. A case of maxillary venous hemangioma with invasion to hard palate and nasal cavity. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2007;50:954-7.
- 7) Moon JH, Hwang DJ, Kim JS, No HS, Lee SE, Kim SH, et al. Clinical study of the Hemangioma of the Head and Neck in adult. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43:878-82.
- 8) Waner M, Suen JY, Dinehart S. Treatment of hemangiomas of the head and neck. *Laryngoscope* 1992;102:1123-32.
- 9) Lomeo P, McDonald J, Finneman J. Adult laryngeal hemangioma: report of four cases. *Ear Nose Throat J* 2000;79:594, 597-8.
- 10) Martins RH, Lima Neto AC, Semenzate G, Lapate R. Laryngeal hemangioma. *Braz J Otorhinolaryngol* 2006;72:574.
- 11) Lim SC, Kim SH, Cho JS, Lee Cw. A case of hemangioma in maxilla. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1989;32:723-6.
- 12) Ahn HY, Chang EY, Kim YB, Hong NP, Cha CI. CO2 laser treatment of oropharyngeal hemangiomas. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1990;33:548-55.