

## 악하선 공간에 생긴 동정맥 기형의 후이개 내시경 접근법을 이용한 절제술 1례

반명진<sup>1</sup> · 이치규<sup>1</sup> · 이지혜<sup>2</sup> · 박재홍<sup>1+</sup>

순천향대학교 천안병원 이비인후과학교실<sup>1</sup>, 순천향대학교 천안병원 병리과학교실<sup>2</sup>

### A Case of Retroauricular Endoscopic Excision of Arteriovenous Malformation in the Submandibular Space

Myung Jin Ban, MD<sup>1</sup>, Chi-Kyou Lee, MD, PhD<sup>1</sup>, Ji-Hye Lee, MD, PhD<sup>2</sup>, Jae Hong Park, MD<sup>1+</sup>

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery<sup>1</sup>, Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

Department of Pathology<sup>2</sup>, Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

#### = Abstract =

A 54-year-old female presented with a 4cm sized painless, submandibular gland area mass. Vascular lesion was suspected in computed tomography scan. Surgical excision was performed via retroauricular approach for its excellent cosmetic outcome. The vascular mass with peripheral focal calcification was clearly resected without complication such as bleeding or neural damage. Histopathological examination of the specimen revealed an arteriovenous malformation(AVM) with abnormal communications between arteries and veins without the normal intervening capillary bed. We report a successful excision of AVM in the submandibular space via retroauricular approach.

**Key Words** : Submandibular tumor · Arteriovenous malformation · Retroauricular approach.

## 서론

동정맥 기형은 혈관 발달의 이상으로 선천적으로 태생 4~6주경 발생하는 것으로 알려져 있으며 대개 크기가 점차 커지는 임상 특징을 가진다. 이 혈관기형은 고유속(fast flow) 선천성 혈관 기형의 하나로 주로 사지에 흔히 발생하며 두경부에서는 위치에 따라 두개내 또는 두개외 병변으로 분류되는데 대개 두개내에 발생하여 두개외 두경부에서 발생한 동정맥 기형은 드물다.<sup>1)</sup> 특히 악하

공간의 동정맥 기형은 문헌에서 1985년 57세 여환에서 최초로 보고되었으나 아직까지 전 세계적으로 많은 예가 보고되어 있지 않은 드문 질환이다.<sup>2)</sup> 최근 저자들은 악하선에 발생한 4cm 크기의 종괴를 주소로 내원한 54세 여자환자를 악하선에 발생한 동정맥 기형으로 진단하여 경부 절개 없이 후이개절개법을 통한 내시경 절제술로 성공적으로 치료하였기에 이에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증례

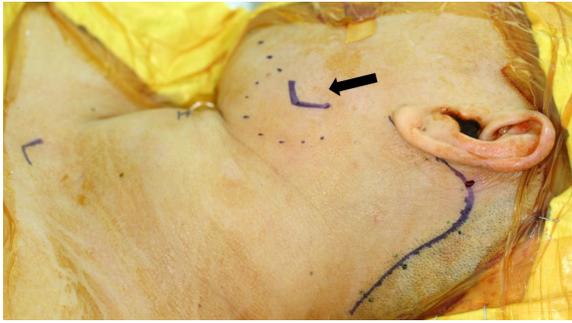
환자는 54세 여환으로 좌측 악하선 공간의 약 4cm 크기의 무통성 종괴를 주소로 내원하였다. 특이 병력은 없었으며 내원 당시 이 종괴는 3개월 전부터 서서히 커지는 양상으로 저명한 박동이 촉진되거나 피부의 침착 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 경비강 후두내시경상 비강, 구

Received: April 7, 2016

Revised: April 20, 2016

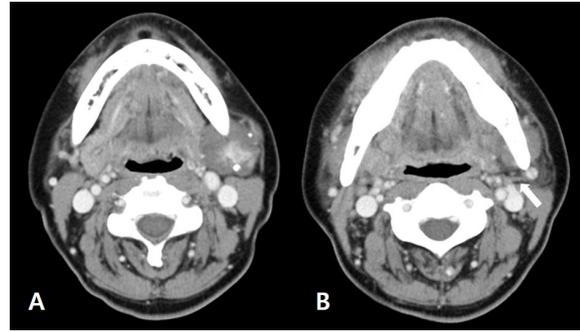
Accepted: April 26, 2016

<sup>+</sup>Corresponding author: 박재홍, 충청남도 천안시 동남구 봉명동 23-20 순천향대학교 의과대학 천안병원 이비인후과학교실  
Tel: (041) 570-2265 Fax: (041) 579-9022  
E-mail: entparkong@hanmail.net



**Fig. 1.** 3 x 4 cm sized soft mass on left submandibular area (black arrow) was noted and retroauricular incision was designed.

강, 인후두에 특이 소견은 관찰되지 않았다. 경부 CT에서 좌측 악하선 공간에 중앙의 조영 증강부위와 주변부의 석회화 결절을 포함한 3 x 4 x 3 cm 크기의 타원형의 종괴가 관찰되었고 이 종괴는 비교적 경계가 명확하였으며 안면동맥이 종괴 내부까지 이어져 관찰되었다(Fig. 2). 초음파 유도 생검에서 정상 타액선 조직외에 특이 소견은 보이지 않아 진단 및 치료목적의 수술적 절제술을 계획하였다. 수술적 치료는 수술반흔을 가릴 수 있는 후이개접근법을 이용한 내시경 절제술을 시행하였고 과정은 아래와 같다. 후이개 접근법을 위한 피부 절개는 이개 후방 후이개 고랑의 하연에서 시작하여 후이개 고랑의 중간부위까지 연장 후 모발선을 향하여 진행방향을 예각이 되지 않도록 부드럽게 후방으로 회전하여 모발선의 약 0.5cm 뒤에서 모발선을 따라 아래로 연장하였다. 피부 절개 후 피판은 광경근하 면을 따라 해부학적 지표인 대이개 신경 및 외경정맥을 보존하면서 level Ib 가 충분히 노출되도록 거상하였고 종괴의 모든 경계가 육안으로도 충분히 확인이 가능한 수술공간을 확보하였다. 수술 중 좌측 악하선과 이복근의 후복 부위를 충분히 노출시



**Fig. 2.** A) Preoperative CT reveals 3 x 4 cm sized heterogenous mass with central enhancement in left submandibular space B) Left facial artery (feeding vessel, white arrow) was noted at proximal portion of the mass.

켜 혈관성의 종괴 및 변연부의 석회화 결절들을 확인하였으며 안면동맥의 근위부를 먼저 결찰하여 혈관성 종괴로의 혈액유입을 먼저 차단한 후 혈관성 종괴를 절제하였다. 종괴는 좌측 악하선의 표층 부위에 위치해 있었고 악하선의 제거없이 안면신경의 하악분지를 보존하며 안전하게 절제하였다(Fig. 3).

병리 조직 검사에서 동맥, 정맥과 작은 혈관들로 구성된 혈관성 구조가 악하선 연조직 주변에서 관찰되었다. 간접 모세혈관총은 보이지 않았으며 정맥은 불규칙한 내막과 두꺼워진 혈관 벽이 관찰되었다. 혈관내에서는 조직화된 혈전이 보였으며 악하 공간에 생긴 동정맥 기형으로 진단하였다(Fig. 4).

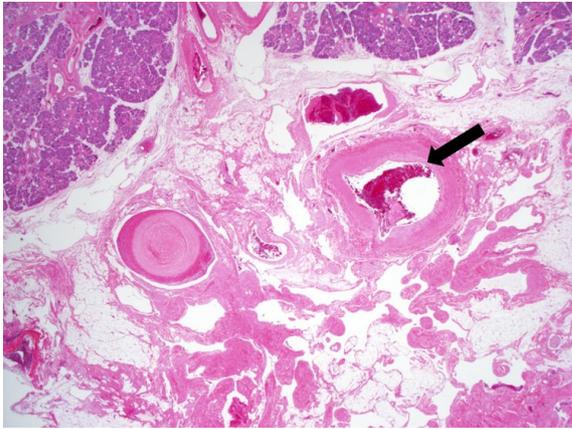
수술 후 4일째 하악분지의 마비소견 등 합병증 없이 퇴원하였으며 미용적 결과에 만족하였으며 술 후 1년까지 재발없이 정기적인 경과 관찰 중이다.

## 고찰

대부분의 동정맥 기형은 사지와 폐, 두경부에서 발생



**Fig. 3.** A) Operative field after submandibular mass excision via retroauricular approach. Great auricular nerve (white arrow) is preserved. B) Removed vascular mass with multiple calcified nodules.



**Fig. 4.** Pathologic examination of the vascular mass in the left submandibular space. There is a mixture of artery, veins, and small vessels within fibroadipose tissue. Organizing thrombi are found in the vascular space (black arrow). (x12.5, H&E)

하며, 두경부 병변은 전체의 51% 정도를 차지 한다. 대부분의 두경부영역의 동정맥 기형은 두개내 발생하며 약 인구의 약 0.1%에서 발생한다. 두개 외 두경부 영역에서 생긴 동정맥 기형은 매우 드문 질환으로 1998년 Mulliken 등이 81례의 두경부 두개 외 동정맥 기형 환자를 보고한 바가 있으며 2005년 Jeong 등이 19례의 국내 증례의 진단과 치료에 대해 보고한 적이 있다.<sup>3,4)</sup>

대개는 선천적으로 연령에 상관없이 발생하며 여성의 경우 호르몬 변화와 관련이 있다는 보고도 있다.<sup>3)</sup> 두경부 동정맥 기형은 주로 박동성의 종괴가 흔한 증상이나 본 증례에서는 관찰되지 않았으며 종괴의 비대로 인해 국소적인 압박증상, 심비대, 고혈압, 심부전까지 일으킬 수 있는 것으로 알려져 있다.<sup>2)</sup> 따라서 이러한 혈관 단락의 증가에 의해 병변의 악화를 방지하기 위한 다양한 치료법이 시행되고 있다.

동정맥 기형의 진단을 위해서 혈관 조영술, 혈류 초음파촬영술, 전산화 단층 촬영, 자기공명영상, 적혈구 스캔 등이 사용된다.<sup>4)</sup> 이 중 혈관 조영술은 확진을 위한 중요한 검사로서 동정맥 기형의 핵(midus)과 공급혈관(feeding vessel)에 대한 정보를 알 수 있고 색전술을 시행 할 수도 있지만 타 검사에 비해 침습적인 단점이 있다. 혈류 초음파 검사는 고유속의 단락을 확진이 가능하며 전산화 단층 촬영에서 강한 조영 증강 과 골 침범 유무, 자기 공명 영상에서는 연부조직내 침범 정도를 아는데 도움이 된

다. 그 밖에 적혈구 스캔은 99m Technetium(Tc) 20~25 mCi와 환자 혈액 5ml를 섞어서 표지한 후 다시 주입하여 감마 카메라로 전신 영상을 촬영하는 검사로 유속에 따른 혈관성 병변 분류를 구체적으로 할 수 있고 최종적인 치료효과를 판정하는 데에도 유용하다.<sup>5)</sup>

본 증례에서는 악하선 외측에 국한된 병변이며 CT상 병변내로 유입되는 안면동맥이 관찰되었으나 혈관성 병변이 크지 않았으며 그 외 기타 종양을 감별하기 위해 초음파 유도하 흡인 검사를 시행하였다. 또한 혈관조영술 및 색전술은 CT상 관찰된 안면동맥을 수술 중에 안전하게 결찰할 수 있을 것으로 판단되어 시행하지 않았다.

동정맥 기형의 분류는 Schobinger 분류로 단순화된 임상 분류가 알려져 있으며 제 1형은 Quiescent형, 제 2형은 Expansion 형, 제 3형은 Destruction형, 제 4형은 Decompensation 형으로 나뉜다. 본 증례는 제 1형으로 초기 병변에 해당하여 수술적인 치료가 합당하였다(Table 1).<sup>3,4)</sup>

두개 외 동정맥 기형은 기능적인 장애보다는 외형적인 문제를 유발하여 그 치료 목표가 외형적인 치료인 경우가 많다. 특히 상악,하악의 골 병변의 침범이 나타나있지 않은지 확인해야 하며 다만 악하 공간의 동정맥 기형은 골 침범이 흔하지 않고 침샘이나 림프절 기원인 경우가 많다.<sup>6)</sup> 특히 본 증례에서와 같이 증년여성의 경우 호르몬 변화가 혈관내피세포와 혈관 형성에 영향을 주어 더 흔하게 발생한다고 알려져 있다.<sup>7)</sup>

동정맥 기형의 치료 방법에는 경화요법, 색전술, 외과적 절제술, 색전술 및 절제술 병합요법등이 사용되고 있다. 수술적 치료법은 기술적 어려움, 수술 중 출혈이 많을 수 있는 단점 때문에 적절한 적응증을 고려하는 것이 중요하다. 색전술이 이러한 단점을 돕기 위해 시행되는 경우가 많으며 색전술 단독만으로 크기가 줄어들기도 하나 원치 않는 혈관의 폐쇄를 유발하지 않도록 숙련된 술기가 필요하다. 경화요법은 동정맥 기형 내부로 에탄올 등의 경화제를 주로 경피적으로 주입하여 혈전 형성, 단락의 폐쇄를 유도하는 방법이다. Jeong 등은 경피적 접근이 가능한 경우 경화요법을 시행한 후 반응이 없는 환자군에게 색전술과 외과적 절제술을 시행하는 치료방침을 권고하였다.<sup>4)</sup>

본 증례에서는 치료를 계획함에 있어 병변과 환자의

**Table 1.** Schobinger classification of the extracranial arteriovenous malformation in the head and neck region<sup>4)</sup>

Stage	Feature
I (Quiescent)	Cutaneous, blush, warmth
II (Expansion)	Bruit, audible pulsation, expanding lesion
III (Destruction)	Pain, ulceration, bleeding, infection
IV (Decompensation)	Cardiac failure

요인들을 다음과 같이 검토하였다. 병변의 정도 및 범위에 있어 쉽게 접근 및 결찰이 가능한 혈관과 연관된 초기 혈관성 병변인 점, 종괴로 인한 미용적 문제를 해결하기 위해 수술을 시행하려는 하는 점과 더불어 활발한 사회 활동을 하는 중년 여성인 점을 고려하여 최근 저자들이 기존 문헌에 보고한 바 있는 후이개 절개법을 통한 내시경 절제술을 결정하였다. 후이개 절개법을 이용한 상경부 종괴 절제술은 본 증례와 같은 양성 종괴를 절제함에 있어 기존의 경부절개시 피할 수 없는 경부절개반흔을 후이개부위의 절개로 대체할 수 있어 경부의 절개반흔이 가려지는 미용적 우수성이 있고 결과적으로 종괴로 인한 미용적 문제로 인하여 수술을 원하는 환자와 의사에게 수술을 결정함에 있어 수술반흔에 대한 부담을 덜어주는 효과가 있다.<sup>8)</sup> 또한 악하선 공간은 육안적으로도 충분히 안면동정맥의 혈관구조가 확실히 관찰되고 고식적인 수술에서 사용되는 기구와 술자의 손이 직접 닿는 위치에 있어 안전하게 주요 술식을 시행할 수 있어 보다 안전한 적응증이 된다고 할 수 있다.

## 결론

악하선 공간을 포함한 Level Ib 의 혈관성 종괴에 대하여 본 증례에서와 같이 종괴내로의 유입혈관이 확실히 관찰되며 유입혈관의 결찰이 충분히 가능한 위치에 있다면 후이개절개법을 이용한 내시경 절제술 또한 고식적인 방법과 더불어 선택가능한 치료법으로 고려될 수 있다.

**중심 단어 :** 악하선 종양 · 동정맥 기형 · 후이개 접근법.

## References

- 1) Fowell C, Jones R, Nishikawa H, Monaghan A. *Arteriovenous malformations of the head and neck: current concepts in management. Br J Oral Maxillofac Surg.* 2016.
- 2) Burns JC, Julian J, Alexander J. *Arteriovenous malformation of the submandibular gland. J Oral Maxillofac Surg.* 1985; 43:294-296.
- 3) Kohout MP, Hansen M, Pribaz JJ, Mulliken JB. *Arteriovenous malformations of the head and neck: natural history and management. Plast Reconstr Surg.* 1998;102:643-654.
- 4) Han-Sin Jeong C-HB. *Diagnosis and Treatment of Extracranial Arteriovenous Malformations in the Head and Neck Region. Korean J Otolaryngol.* 2005;48:1136-1142.
- 5) Fukuda Y, Murata Y, Umehara I, Yamashita T, Ono C, Iwai T, et al. *Perfusion and blood pool scintigraphy for diagnosing soft-tissue arteriovenous malformations. Clin Nucl Med.* 1999; 24:232-234.
- 6) Fine MJ, Holliday RA, Roland JT. *Clinically unsuspected venous malformations limited to the submandibular triangle: CT findings. AJNR Am J Neuroradiol.* 1995;16:491-494.
- 7) Persky MS, Yoo HJ, Berenstein A. *Management of vascular malformations of the mandible and maxilla. Laryngoscope.* 2003;113:1885-1892.
- 8) Lee HS, Lee D, Koo YC, Shin HA, Koh YW, Choi EC. *Endoscopic resection of upper neck masses via retroauricular approach is feasible with excellent cosmetic outcomes. J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71:520-527.