

타석증을 동반한 이하선의 정맥관 기형 1례

한승훈¹ · 성전¹ · 유윤종² · 김광현¹ · 정영호¹⁺

서울대학교 의과대학 이비인후과학교실, 서울특별시 보라매병원¹,
강원대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실, 강원대학교병원²

A Case of Venous Malformation with Sialolithiasis in the Parotid Gland

Seung Hoon Han¹, Jeon Seong¹, Yoon-Jong Ryu², Kwang Hyun Kim¹, Young Ho Jung¹⁺

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery¹, Seoul Metropolitan Government Seoul National University Boramae Medical Center, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

Department of Otolaryngology², Kangwon National University Hospital, School of Medicine, Kangwon National University, Chuncheon, Korea

= Abstract =

Venous malformation with phleboliths is uncommon cause of unilateral parotid swelling. The clinical and radiographic appearance of venous malformation with phleboliths may masquerade as sialolithiasis. A 49-year-old female complained about unilateral parotid swelling for 6 years. Preoperative evaluation including computed tomography and sonography showed the suspicion of venous malformation with phleboliths. Superficial parotidectomy was performed. Pathological examination confirmed that the mass was venous malformation with phleboliths combined with sialolith in the parotid gland. We present the case of unilateral parotid swelling caused by a venous malformation combined with sialolithiasis.

KEY WORDS : Vascular malformations · Salivary Gland Calculi · Parotid Gland.

서론

정맥관 기형은 출생 시부터 있지만 나이가 들면서 증상이 나타나는 경우가 일반적이다. 정맥관 기형은 정상 정맥과 달라서 피의 흐름이 원활하지 못하여 와류를 일으키며 혈액이 지나가기 때문에 혈구가 혈관 벽에 잘 달라붙어 혈전을 형성하고 혈전정맥염으로도 발전할 수도 있다. 또한 정맥관 기형은 혈전에 칼슘이 침착되어 생기는 정맥결석을 동반하는 경우가 많다.¹⁾

두경부 영역에서의 정맥관 기형은 흔치 않은데 보통

간헐적인 안면부종 증상을 보이게 된다. 정맥관 기형에 동반되는 정맥결석은 영상의학적 진단의 중요 단서가 된다. 그러나 정맥결석은 침샘에 발생하는 타석과 영상학적으로 매우 유사한 모습을 보이기 때문에 정맥관 기형과 타석증 사이에 감별진단이 매우 중요하다.²⁾ 저자들은 일측성 이하선 부종을 주소로 내원하여 타석과 정맥결석이 모두 동반된 정맥관 기형이라는 드문 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

고혈압 이외에 특별한 과거병력 없는 49세 여자 환자가 6년 전부터 지속된 우측 이하선 부위 부종을 주소로 내원하였다. 환자는 우측 이하선 부종 이외에 안면신경 마비 및 경부림프절 종대소견은 보이지 않았다. 우측 이하선 촉진 시 부드럽고 고정되어있지 않은 종물이 만져

Received: April 3, 2016
Revised: April 24, 2016
Accepted: April 28, 2016

⁺Corresponding author: 정영호, 서울 동작구 보라매길 39
서울대학교 의과대학 보라매병원 이비인후과학교실
Tel: (02) 870-2445 Fax: (02) 831-2826
E-mail: entist@naver.com, younghns@gmail.com

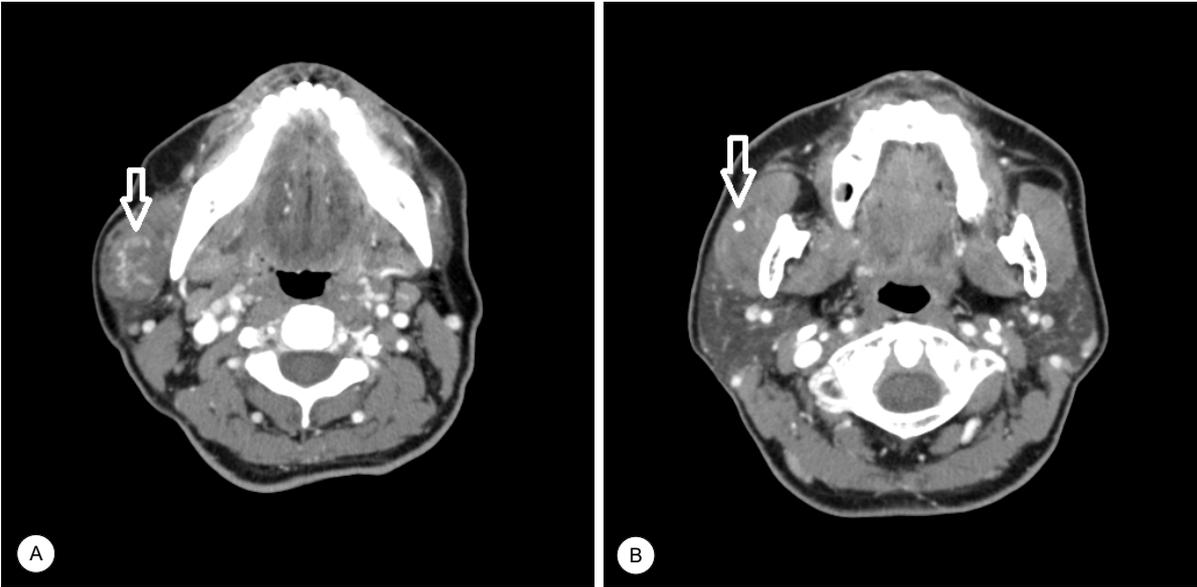


Fig. 1. Preoperative Neck CT: About 3.4 x 3.4 cm sized ovoid bulging soft tissue mass in the right parotid gland and masseter muscle with heterogeneous enhancement. (Empty white arrow: inner calcification, phlebolith) (A), (Empty white arrow : sialolith in the right parotid gland)(B)

졌고 통증은 호소하지 않았다. 수술 전 시행한 경부 전산화단층촬영에서 우측 이하선과 연접한 교근 부위에 타원형의 3.4 × 3.4 cm 가량의 비균질하게 조영증강되며 부분적으로 칼슘침착도 동반된 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 경부초음파 검사를 시행하였고 우측 이하선 부위와 교근 내에 정맥관 기형 또는 혈관종이 의심된다고 보고되었다. 검진 및 영상 검사를 종합하여 이하선 부위의 정맥관 기형 또는 혈관종 의증 하에 추가적인 세침검사나 혈관조영술을 시행하지 않고 이하선절제술을 계획하였다.

Modified Blair incision으로 절개 시행하고 안면신경을 후이복근과 이주점(tragal pointer) 사이에서 확인 후 이하선 천엽과 교근 부위에 위치한 혈관성 종물을 제거하였다. 부드러운 종물은 잘 분리되었고 모든 안면신경 가지를 보존하였다. 정맥관 기형과 함께 그 안에 있는 정맥결석으로 보이는 3mm에서 5mm 가량의 하얀 단단한 결석들도 모두 제거하였다(Fig. 2). 이하선관에서 발견된 타

석으로 생각되는 종물은 다른 정맥결석보다 단단하고 표면이 거칠어 보였다(Fig. 3). 반면에 정맥결석은 쉽게 으스러지는 양상을 보였다. 수술 후 배액관 삽입을 시행하였으며 안면신경마비 등의 합병증 없이 수술 후 3일째 퇴원하였다.

수술 후 확인한 병리 결과에서 정맥결석을 포함한 정맥관 기형이 진단되었고 이하선관에서 발견된 정맥결석보다 단단한 종물은 타석으로 진단되었다. 외래 경과관찰에서 절개부위 유착 이나 반흔구축, 안면신경마비 소견 없이 치유 확인되었고 치료를 종결하였다.

고찰

두경부 영역에서 편측의 이하선 부종은 보통은 타석이나 침샘관의 협착이 주된 원인으로 고려된다. 그러나 드물지만 정맥기형이 비슷하게 이하선 부위 부종 소견을

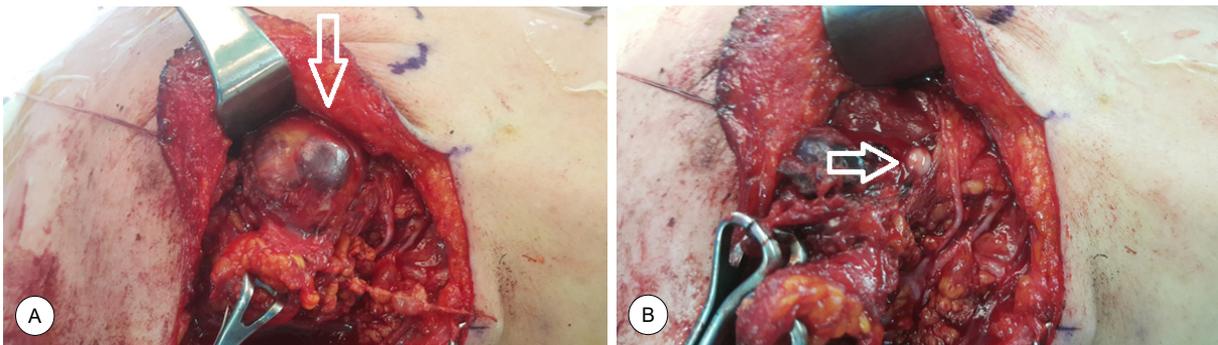


Fig. 2. Operative finding. The tumor was hypervascular mass and was completely removed. (A), Whitish phlebolith was small, rounded with calcification. (B)



Fig. 3. Specimen . Four phleboliths and one sialolith. (Empty white arrow: sialolith)

보이고 이와 동반되는 정맥결석은 비조영증강 전산화단층촬영에서 타석과 비슷한 소견을 보이기 때문에 타석증과 감별진단이 쉽지 않다.³⁾ 침샘부위에서 발생하는 혈관기형은 선천성이며 이하선에서 가장 호발한다(85.1%).¹⁾ 출생시 형성되는 것으로 알려져 있으며 통증 및 부종 등의 임상적인 증상을 나타나는 시기는 사람에 따라 수 개월에서 수십년까지 다양하며, 이는 호르몬 변화, 외상, 감염 등이 원인이 될 수 있다.⁴⁾ 혈관기형은 크게 고유동성(high flow)과 저유동성(low flow)으로 나눌 수 있는데 모세혈관, 정맥관, 림프관기형은 저유동성 기형으로 분류되며, 동맥관, 동정맥관기형은 고유동성으로 분류된다. 저유동성을 가지는 정맥관 기형에서는 피의 흐름이 원활하지 못하여 와류를 일으키므로 혈구가 혈관 벽에 달라붙게 되어 혈전을 형성하고 혈전에 갈슘이 침착되어 정맥결석이 형성된다.¹⁾ 초음파검사가 타석증과 감별진단으로서 정맥관 기형을 진단하고 병변의 범위와 특성을 평가하는데 중요한 역할을 한다.⁵⁾ 초음파검사상 보통 불균일한 저에코 소견을 보이며 혈류평가는 도플러를 이용하여 동시에 시행할 수 있다.⁶⁾ 정맥관 기형과 흔히 동반되는 정맥결석 역시 초음파 검사상 확인된다.^{5,6)} 전산화 단층촬영에서는 조영제를 주입하지 않으면 정맥관 기형은 다른 주변조직과 같은 밀도로 보이며 조영시 비균질하게 조영되는 종물 형태로 나타난다.⁶⁾ 이와 동반하여 등골거나 타원형의 고밀도의 석회화를 보이는 정맥결석도 역시 같이 관찰된다.⁶⁻⁸⁾ 자기공명영상은 고해상 영상을 얻을 수 있다는 점에서 정맥관 기형의 병변 범위를 평가하는데 전산화단층촬영보다 더 용이할 수 있으며 정맥관 기형은 자기공명영상에서 여러 소엽으로 나누어진 T2 강조 영상에서 강조되는 종물 소견을 보인다.⁹⁾ 증상이 없고 병변 크기가 작다면 경과관찰을 할 수 있으나 크기가 커지거나 증상을 동반하는 정맥관 기형인 경우 수술적 치료나 색전경화요법이 추천된다.^{3,10-13)} 수술적 완전 절제가 이전에는 유일한 치료법이었으나 불완전 절제시에 출혈을 포함하여 임상경과가 악화될 수 있다는 점에서 수술 전에 절제범위를 확보하기 위해서 혹은 크기가 작은 경우 완치를 목표로 에탄올, n-부틸 시아노아

크릴레이트(N-butyl-2-cyanoacrylate) 등의 다양한 물질들을 이용한 색전경화요법을 시도해 볼 수도 있다.^{14,15)} 이하선 부위의 정맥관 기형은 전세계적으로도 드물게 보고되었고 이번 증례는 감별진단으로 고려해야 하는 타석증을 동반한다는 점에서 임상적 가치가 높다고 판단하며 타석증으로 오인될 수 있는 정맥결석을 동반한 정맥관 기형을 이하선 부위 부종에 대한 감별진단으로서 강조하고자 본 증례를 보고한다.

중심 단어 : 정맥관 기형 · 타석증 · 이하선.

References

- 1) McMenamin M, Quinn A, Barry H, Sleeman D, Wilson G, Toner M. *Cavernous hemangioma in the sub-mandibular gland masquerading as sialadenitis: case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1997;84:146-148.*
- 2) Groppo ER1, Glastonbury CM, Orloff LA, Kraus PE, Eisele DW. *Vascular malformation masquerading as sialolithiasis and parotid obstruction: a case report and review of the literature. Laryngoscope. 2010;120 Suppl. 4:S130.*
- 3) Su YX, Liao GQ, Wang L, Liang YJ, Chu M, Zheng GS. *Sialoliths or phleboliths? Laryngoscope. 2009;119:1344-1347.*
- 4) Mulliken JB, Glowacki J. *Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. Plast Reconstr Surg. 1982;69:412-422.*
- 5) Ahuja AT, Richards P, Wong KT, Yuen EH, King AD. *Accuracy of high-resolution sonography compared with magnetic resonance imaging in the diagnosis of head and neck venous vascular malformations. Clin Radiol. 2003;58:869-875.*
- 6) Flis CM, Connor SE. *Imaging of head and neck venous malformations. Eur Radiol. 2005;15:2185-2193.*
- 7) Tart RP, Kotzur IM, Mancuso AA, Glantz MS, Mukherji SK. *CT and MR imaging of the buccal space and buccal space masses. Radiographics. 1995;15:531-550.*
- 8) Kim HC, Han MH, Moon MH, Kim JH, Kim IO, Chang KH. *CT and MR imaging of the buccal space: normal anatomy and abnormalities. Korean J Radiol. 2005;6:22-30.*
- 9) Dubois J, Soulez G, Oliva VL, Berthiaume MJ, Lapierre C, Therasse E. *Soft tissue venous malformations in adult patients: imaging and therapeutic issues. Radiographics. 2001;21:1519-1531.*
- 10) Svendsen P, Wikholm G, Fogdestam I, Naredi S, Eden E. *Instillation of alcohol into venous malformations of the head and neck. Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg. 1994;28:279-284.*
- 11) Yakes WF, Luethke JM, Parker SH, Stavros AT, Rak KM, Hopper KD, et al. *Ethanol embolization of vascular malformations. Radiographics. 1990;10:787-796.*

- 12) Zhi K, Wen Y, Li L, Ren W. *The role of intralesional Pingyangmycin in the treatment of venous malformation of facial and maxillary region. Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2008;72:593-597.
- 13) Zhao JH, Zhang WF, Zhao YF. *Sclerotherapy of oral and facial venous malformations with use of pingyangmycin and/or sodium morrhuate. Int J Oral Maxillofac Surg.* 2004;33:463-466.
- 14) Widlus DM, Murray RR, White RI Jr, Osterman FA Jr, Schreiber ER, Satre RW, et al. *Congenital arteriovenous malformations: tailored embolotherapy. Radiology.* 1988;169:511-516.
- 15) Rao VRK, Mandalam KR, Gupta AK, Kumar S, Joseph S. *Dissolution of isobutyl 2-cyanoacrylate on long term follow up. AJNR.* 1989;10:135-141.