신우에 발생한 해면상 혈관종

Cavernous Hemangioma in the Renal Pelvis

Moon Soo Chung, Moo Yeul Chung, Ok Ran Shin¹, Chang Hee Han, Sung Hak Kang, Yong Seok Lee

From the Departments of Urology and ¹Pathology, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

Hemangioma in the urinary tract is a very rare benign tumor that usually causes painless or painful gross hematuria. Its preoperative diagnosis is extremely difficult or even impossible. A female 47-year old patient presented with painless gross hematuria that she'd experience for 4 days. The patient underwent abdominal ultrasound, intravenous pyelography (IVP), cystoscopy, urine cytology, retrograde pyelography (RGP), kidney dynamic computed tomography (CT) and surgical excision. She was finally diagnosed with cavernous hemangioma in the renal pelvis. (Korean J Urol 2008;49:457-460)

Key Words: Hemangioma, Renal pelvis

대한비뇨기과학회지 제 49 권 제 5 호 2008

가톨릭대학교 의과대학 비뇨기과학교실, ¹해부병리학교실

정문수·정무열·신옥란¹ 한창희·강성학·이용석

접수일자: 2007년 10월 2일 채택일자: 2008년 3월 19일

교신저자: 이용석

가톨릭대학교 의정부 성모병원 비뇨기과

경기도 의정부시 금오동 65-1

⊕ 480-130
TEL: 031-820-3128

FAX: 031-847-2548 E-mail: ysleemd@ catholic.ac.kr

비뇨기계 혈관종은 매우 희귀한 질환으로 무통성 혹은 통증을 동반한 육안적 혈뇨를 보이며, 술 전 진단은 매우 어려운 것으로 알려져 있다. 저자들은 무통성 육안적 혈뇨 를 주소로 내원한 47세 여환으로부터 우연히 신우의 해면 상 혈관종을 발견하여 이 증례를 문헌고찰과 함께 보고하 는 바이다.

증 례

47세 여자 환자로 4일 전부터 시작된 무통성 육안적 혈뇨를 주소로 개인병원에서 신장 초음파 시행 후 정밀 검사 및 치료를 위해 본원으로 전원되었다. 과거력에서 10년 전자궁근종으로 전자궁 적출술을 시행받은 기왕력이 있었다. 가족력에서 특이 사항은 없었다. 전원 당시 환자는 신체 발육이나 영양상태는 양호하였으며 혈압, 맥박 및 체온도 정상이었다. 신체검사에서 흉부, 복부 및 측복부에도 특이 사항은 없었다. 검사 소견에서 일반혈액검사 및 혈액화학검사에서 특이 소견은 없었으며 요검사에서 적혈구 many/high-power fields (HPF), 백혈구 0-1/HPF로 관찰되었다. 개인병원에서의 신장 초음파 검사에서 특이 소견은 보이지 않았다. 시행한 경정맥 신우조영술에서 좌신 상측 신배부위의 충만 결손이 의심되었으며 (Fig. 1), 방광경에서 좌측 요관구에서 혈액 유출이 관찰되었다. 시행한 요세포 검사 결과는 음성이었다. 역방향 신우조영에서도 좌신 상측 신배

부위의 충만 결손이 관찰되었다 (Fig. 2). 신장역동적 컴퓨터단층촬영을 시행하였으며 좌신의 상측 신배에 조영증강이 되지 않는 직경 10mm 정도의 구형의 국소적 종괴가 관찰되었다 (Fig. 3). 이에, 저자들은 요로 상피암의 치료에 준해 좌측 신-요관 전적출술 및 방광 부분 절제술을 시행하였다. 술후 경과는 양호하였으며 술후 병리 조직 검사에서 좌측 신우의 해면상혈관종으로 진단되었다 (Fig. 4).



Fig. 1. Intravenous pyelography (IVP) shows a filling defect in the upper calyx of the left kidney.

고 찰

Jahn과 Nissen¹은 혈관종은 양성의 혈관기원성 종양으로 배아성 단일분화성의 혈관모세포 잔류에서 기원하고 정상 혈관으로 발달하지 않는 것으로 추정되고 있다고 보고하였 다. 혈관종을 분류하면 양성혈관내피종 (benign hemangioendothelioma), 모세혈관종 (capillary hamangioma), 해면상혈 관종 (cavernous hemangioma), 정맥혈관종 (venous hemangioma), 무리혈관종 (racemose hemangioma)으로 나눌 수 있으며, 이중 해면상혈관종이 가장 흔하다. 해면상혈관종은 대개 피부나 점막 표면에서 발견되며 간혹 간이나 비장, 췌장, 신장에서 발견되고 있다. 비뇨기계의 혈관종은 매우 드물며 그 빈도는 신장, 방광, 요관, 요도의 순서로 알려져 있다. 신장의 해면상혈관종은 1867년 Virchow에 의해 처음 보고된 후 현재까지 약 200 여 건의 증례가 보고된 바 있고, 국내에서는 1970년 최초로 보고되었으며 2000년까지 총 7건이 보고된 바 있다. Peterson과 Thompson², Lee 등³은 이 신장



Fig. 2. Retrograde pyelography (RGP) shows a filling defect in the upper calyx of the left kidney.

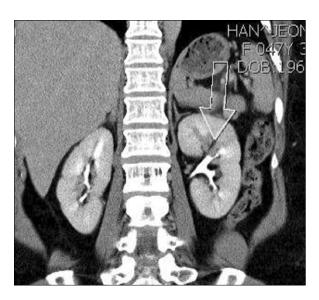


Fig. 3. Kidney dynamic computed tomography (CT) shows a poorly enhancing mass-like lesion in the upper calyx of the left kidney.

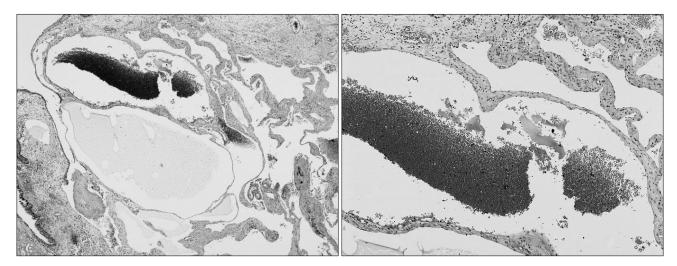


Fig. 4. Microscopic finding of hemangioma in the renal pelvis. Cavernous hemangioma: lower magnification reveals a typical sinusoidal appearance. Cavernous hemangioma: part of a markedly dilated vascular channel, which is intermixed with red blood cells.

의 해면상혈관종이 대개 단발성이고 일측성이며, 좌우 빈 도나 성별에 따른 차이는 없고 30-40대에 가장 많이 호발하 는 것으로 알려져 있다고 보고하였다. 혈관종은 Klippel-Trenaunay syndrome이나 Sturge-Weber syndrome, 결절성경 화증 (tuberous sclerosis), 전신성혈관종증 (systemic angiomatosis)과 같은 선천성 질환과의 관련성이 알려져 있다. 신장 내 혈관종의 발생부위로는 '신우'의 점막 혹은 상피하 부위 가 48.7%로 가장 많으며 추체부위가 42.1%, 신피질이 9.2% 를 차지한다. 육안적으로 부드러운 적색-청색의 종괴로 대 개 2-3cm 정도의 직경을 가지며, 조직학적으로는 피막이 없 으며, 부분적 혹은 전체적으로 혈액으로 차있는 큼직한 해 면상 혈관의 공간으로 구성되어 있고 소량의 결합 조직들 로 구획되어 진다. Haas 등⁴은 혈관종이 신수질에 침범될 경우는 신배의 변형과 혈뇨가 초래될 수 있고, 신피질에 침 범된 경우 신주위 출혈과 혈종이 초래될 수 있다고 보고하 였다. 신혈관종은 비록 양성일지라도, 이는 위중한 정도의 출혈을 야기할 수도 있고 신우 요관경계를 페색시킬 수도 있다. 임상적으로 신장의 혈관종과 같은 양성 종괴는 악성 종괴와의 감별이 중요한 관건이다. 실제로 신장의 혈관종 의 진단은 매우 어렵다. 더우기 신혈관종의 호발부위가 신 우 부위이며, 이 경우 신우의 요로상피암을 감별하는 데 있 어 어려움을 겪게 된다. Numan 등⁵은 신혈관종은 신초음파 상 다양한 에코 (echogenecity)를 보일 수 있고 비특이적이기 때문에 신세포암 혹은 요로상피암과의 감별이 용이하지 않 다고 보고하였다. 경정맥 신우 조영술상 정상을 보일 수 있 으며 응혈괴로 인한 충만 결손을 보일 수도 있다. Biyani 등6 은 경정맥 신우 조영술 또는 역방향 신우 조영술상 충만 결손을 보일 경우는 양성 종양 외에도 방사선 투과성 결석, 응혈괴, 기포, 벗겨진 유두, 교차 혈관의 외부 압박 등을 감 별해야 한다고 보고하였다. Jahn과 Nissen¹은 신혈관종은 컴 퓨터 단층 촬영상 대개 조영 증강되는 이질성의 고형종괴 로 보여 악성종괴로 오인될 수 있다고 보고하였으며, 종괴 내의 출혈로 응혈괴가 있는 경우에는 조영증강이 되지 않 을 수 있다. 또한 신혈관종은 컴퓨터 단층 촬영상 신장 낭종 이나 진균종, 신농양, 염증성 종괴와의 감별이 용이하지 않 으며, 신혈관 조영술에서도 다양한 소견(혈관 과다성, 혈관 과소성, 정상소견)을 보일수 있다. 신혈관종을 신혈관 조영 술로 진단할 경우, 혈관종 크기가 작거나 혈관종 내 혈관구 조에 혈전이 있는 경우 악성과의 감별이 힘들 수 있다. Lee 등³은 비교적 젊은 환자가 육안적 혈뇨를 보이는 경우, 특히 신우신배 경계부위 혹은 내측수질의 조영증강이 잘 되지 않는 종괴가 있는 경우 신혈관종의 가능성을 반드시 생각 해야 한다고 강조하였다. 이러한 이유로 대부분의 신혈관 종은 수술적 절제 후 병리조직검사로 진단된다. Virgili 등⁷

은 신혈관종의 술 전 진단이 어려운 이유로, 신혈관종이 여 러 영상 검사소견상 혈관 과다소견 (hypervascularized)을 보 이기 때문이라고 보고하였다 (실제로 해면상혈관종에 있어 혈관 과다소견이 없는 경우는 매우 드물며, 혈관 과다소견 이 조영되지 않는다면 이는 혈관종 내 혈전이 있을 경우에 국한되는 것으로 생각한다). 이러한 신혈관종의 치료에 대 하여, Costa Neto 등®은 요관경으로 종괴까지의 접근이 용이 하고, 크기나 구조 등이 전기 소작이나 레이저 치료로 가능 한 경우 요관경으로서 치료가 가능할 수 있겠으나 이러한 비교적 비침습적 방법이 용이하지 않을 경우 개복하 수술 적 치료가 필요하다고 보고하였다. Numan 등5은 신장의 해 면상혈관종의 치료는 경과 관찰부터 신장 전 적출술까지 다양하여 그 방법으로서 경과 관찰, 색전술, 유두절제술, 신 부분절제술, 신전적출술 등을 들 수 있으며, 경한 혈뇨를 보 일뿐 여타 임상적 문제를 보이지 않는 건강한 사람의 경우 경과 관찰은 금기가 아니라고 보고하였다. 하지만 Jahn과 Nissen¹은 실제로 수술 전에 신혈관종이 진단되어 지는 경 우는 극히 드물기 때문에, 특정의 치료를 제시하기란 불가 능하다고 보고하였다. 일반적으로, 심한 출혈이 있거나 악 성과의 감별이 어려운 경우는 신적출술을 고려하는 것이 타 당하다고 하겠으며, 이러한 경우 신부분절제술 혹은 신전적 출술을 치료의 선택으로 생각해 볼 수 있다. 일부의 경우에 서 방사선 치료나 동맥 내 색전술을 고려해 볼 수도 있다. Daneshmand와 Huffman⁹은 신장의 혈관종에 대하여 요관경 을 이용하여 전기 소작함으로써 성공적으로 치료한 14례를 보고하였으며, Poulsen과 Fisker¹⁰는 신혈관조영술 후 동맥 내 색전술을 시행하여 치료한 1례를 보고한 바 있다. 저자 들의 증례에서의 경우 역시, 현재까지 보고된 바와 마찬가 지로 육안적 혈뇨를 보인 비교적 젊은 40대의 환자에서 복 부 컴퓨터 단층 촬영상 일측 신장의 신배 부위에 조영증강 이 되지 않는 국소적 종괴가 발견되었으며, 이는 술 후 병리 조직 검사상 해면상 혈관종으로 진단되었다. 컴퓨터 단층 촬영상 종괴가 조영증강이 되지 않았던 이유는, 종괴 내 출 혈로 인해 응혈괴가 있었기 때문인 것으로 생각한다. 이러 한 종괴의 진단 및 치료에 있어서 그 위치상 요관경으로의 접근 및 조작이 불가능했으며, 악성과의 감별이 용이하지 않은 경우라 생각되었기 때문에, 또한 환자 자신이 악성에 대한 심한 불안을 호소하였고 정확한 진단을 강력히 원하 여 저자들은 수술적 진단 및 치료를 선택하였다. 하지만, 역 시 경한 혈뇨 외에 임상적 문제를 보이지 않고 요세포 검사 에서 음성을 보인 점 등으로 고려해볼 때, 이 환자의 경우 경과 관찰 및 시간 간격을 둔 추적 검사가 더 권장된다고 볼 수 있겠다.

REFERENCES

- 1. Jahn H, Nissen HM. Hemangioma of the urinary tract: review of the literature. Br J Urol 1991;68:113-7
- 2. Peterson NE, Thompson HT. Renal hemangioma. J Urol 1971; 105:27-31
- 3. Lee HS, Koh BH, Kim JW, Kim YS, Rhim HC, Cho OK, et al. Radiologic findings of renal hemangioma: report of three cases. Korean J Radiol 2000;1:60-3
- 4. Haas CA, Resnick MI, Abdul-Karim FW. Cavernous hemangioma presenting as a renal hilar mass. J Urol 1998; 160:2139-40
- 5. Numan F, Berkmen T, Korman U, Ogut G, Cokyuksel O.

- Cavernous hemangioma of the kidney. Case report. Clin Imaging 1993;17:106-8
- 6. Biyani CS, Mackay AM, Sissions G, Pettersson B. An unusual filling defect in the ureter. Urol Int 1998;61:124-5
- 7. Virgili G, Di Stasi SM, Bove P, Orlandi A, Preziosi P, Vespasiani G. Cavernous hemangioma of the renal hilum presenting as an avascularized solid mass. Urol Int 2003;71:325-8
- 8. Costa Neto TF, Renteria JM, Di Biase Filho G. Renal hemangioma. Int Braz J Urol 2004;30:216-8
- 9. Daneshmand S, Huffman JL. Endoscopic management of renal hemangioma. J Urol 2002;167:488-9
- 10. Poulsen MB, Fisker RV. Spontaneously bleeding renal hemangioma treated by embolization. Ugeskr Laeger 1993;155: 3855-6