



Septodermoplasty in Recurrent Epistaxis Without Hereditary Hemorrhagic Telangiectasia

Yeong Ju Lee^{ID} and Yong Ju Jang^{ID}

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

유전성 출혈성 모세혈관 확장증으로 진단받지 않은 반복적인 비출혈 환자에서의
비중격 식피술 증례

이영주 · 장용주

울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실

Received September 20, 2022

Revised October 8, 2022

Accepted October 12, 2022

Address for correspondence

Yong Ju Jang, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Asan Medical Center,
University of Ulsan
College of Medicine,
88 Olympic-ro 43-gil, Songpa-gu,
Seoul 05505, Korea

Tel +82-2-3010-3710

Fax +82-2-489-2773

E-mail jangyj@amc.seoul.kr

Epistaxis is a common disease, most of which is naturally improved without treatment. However, some patients experience recurrent epistaxis despite having received various treatments. In such cases, the control of epistaxis may require a more invasive technique, such as embolization or surgical ligation of the main feeding arteries of the nasal cavity. However, the nasal septum receives blood supply from various branches of blood vessels, so these vascular controls can be inappropriate. In this case report, we applied septodermoplasty - a surgical technique mostly aimed for the treatment of intractable epistaxis from hereditary hemorrhagic telangiectasia (HHT) - to treat patients suffering recurrent epistaxis from the nasal septum. Although the two patients we treated were non-HHT, our application of this surgical technique turned out to be successful. Here, we suggest expanding the indication of septodermoplasty to non-HHT patients presenting with recurrent and difficult-to-treat epistaxis.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(12):883-6

Keywords Epistaxis; Nasal septum; Skin grafting.

서론

비출혈 환자들 중 약 6% 정도에서는 치료가 필요할 정도의 출혈을 경험하며, 10000명 중 약 1.6명의 환자에서 입원이 필요할 정도로 대량 출혈이 발생한다.¹⁾ 비출혈의 보존적 치료로 단순 압박법 외에 소작술, 비강 내 패킹 등을 시행할 수 있다.^{2,3)} 이러한 보존적인 치료에도 해결되지 않는 경우에는 보다 침습적인 치료가 필요할 수 있다. 후방 비출혈 및 대량 출혈의 경우에는 동맥 결찰술 및 색전술 등을 비출혈의 치료로 고려할 수 있다.^{2,4-7)} 그러나 임상 양상이 심하지 않지만, 비출혈에 대한 다양한 치료 후에도 재발하는 비출혈의 경우 반복

적으로 같은 치료를 시행할 것인지, 동맥 결찰술 등 침습적인 치료를 시행해야 할지 임상적으로 결정하기 어려운 경우가 있다.⁸⁾ 특히 비중격은 혈관 분포가 복잡하며, 비중격 기원의 출혈은 대부분 보존적 치료로 호전된다고 알려져 있어 반복적인 비출혈에 대한 치료 방법을 결정하기 어려울 수 있다.⁵⁾ 비중격 식피술(septodermoplasty)은 Saunders 등이 유전성 출혈성 모세혈관 확장증(hereditary hemorrhagic telangiectasia, HHT) 치료를 위하여 도입한 수술 방법으로, 출혈 경향이 있는 비강 내 점막을 제거하고 두터운 피부 이식편으로 점막을 대체시키는 수술법이다.⁹⁾ HHT 환자에서 비중격 식피술의 유용성은 잘 알려져 있다.⁹⁾ 그러나 HHT로 진단받지 않은 환자에서, 비출혈의 치료로 비중격 식피술을 시행한 증례는 보고된 적이 없다. 본 연구에서는 HHT가 아닌 환자들 중 반복적인 치료에도 불구하고 비출혈이 재발하는 환자

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

에서 비중격 식피술의 성공적인 결과를 보고하고자 한다.

증 례

증례 1

기저질환 없이 건강하던 25세 여자 환자가 반복되는 비출혈을 주소로 내원하였다. 환자는 5년 전 재발성 비출혈로 3차례 응급실 진료를 보았고 당시 시행한 비내시경상 비중격은 좌측으로 만곡되어 있으며, 좌측 비중격 중하부 점막 부위에 출혈이 확인되었다. 비강 외 입술, 구강 내, 손가락 끝 등 피부에 모세혈관 확장 소견은 관찰되지 않았으며, 3세대 직계 가족 내 HHT의 가족력은 없었다. 비출혈에 대한 치료로 환자는 소작술 및 비강 내 패킹 등을 시행 받았으며 혈색소 7.1 g/dL로 감소한 소견을 보여 수혈도 한 차례 시행 받았다. 빈혈에 대한 다른 원인 감별하기 위하여 혈액 내과 의뢰하여 빈혈에 대한 여러 검사들 시행해 보았지만 급성 출혈에 의한 혈색소 감소 외 다른 특이소견은 보이지 않았다. 반복적인 비출혈의 원인 중 하나로서 비중격이 심하게 만곡되어 있지 않지만, 이로 인한 비정상적인 비강 기류 및 비중격 극(spur)으로 인한 비중격 점막의 자극의 영향으로 보고 비중격 교정술을 시행하였다. 비중격 교정술을 시행한 지 5년 후 비출혈이 재발생하였다. 비내시경 검사상 좌측 비중격 중하부 점막에 모세혈관들이 확장되어 있으며, 점막의 괴사를 동반한 미란 소견이 보였다(Fig. 1A). 1년간 경과 관찰을 시행하였으나, 지속 시간은 짧지만 소량의 비출혈이 반복되었으며 말초 혈액 검사상 혈색소 7.9 g/dL로 측정되어 수술적 치료를 계획하였다. 혈관

분포가 복잡한 비중격의 특성상 혈관 결찰술 등의 치료는 적절하지 않다고 판단하였으며, 좌측 중하부 비중격 점막에 비출혈이 반복되는 국소적인 병변이 있음을 고려하여 치료적 방법으로 비중격 식피술을 계획하였다. 수술은 전신마취하에 시행하였다. 피부 이식편 채취를 위하여 우측 서혜부와 허벅지의 제모를 시행한 후, 베타딘 용액을 이용하여 소독을 시행하였다. 0도 내시경을 이용하여 병변이 확인되는 부위를 일자형 4 mm microdebrider (Medtronic, Minneapolis, MN, USA)를 사용하여 연골막보다 바깥쪽의 부분만을 제거하였다. 점막을 제거 후 1:200000 에피네프린을 적신 거즈를 비강 내에 삽입하였으며, 지혈이 이루어지는 동안 피부 이식편을 채취하였다. 피부 이식편은 우측 허벅지 내측에서 채취하였으며, Zimmer Air Dermatome (Zimmer Surgical Inc., Warsaw, IN, USA)을 이용하여 0.010-0.025 인치 두께의 부분층 피부이식편을 채취하였다. 이식이 필요한 부위의 넓이는 실라스틱 시트를 재단하여 실제 비강 내에 삽입해 보는 방식으로 확인 후 병변의 범위에 맞게 실라스틱 시트를 미리 디자인하였다. 이 넓이에 맞춰서 2×3 cm 크기의 이식편을 채취한 후 디자인한 실라스틱 시트 모양에 맞게 다듬어준 뒤 실라스틱 시트 위에 올리고 가장자리를 따라 6-0 vicryl로 봉합하여 고정하였다. 이때 피부 이식편의 진피 방향이 위를 향하고 표피 방향은 실라스틱 시트와 접하도록 하였다. 실라스틱 시트와 피부 이식편을 결합한 복합 이식편을 비강 내에 삽입 후 비중격을 사이에 두고 양측 비강의 실라스틱 시트를 4-0 monocryl로 through-and-through 방식으로 봉합하여 고정하였다. 흡수성 비강 충전재(Algi-pack®; (주) T&L, Yongin,

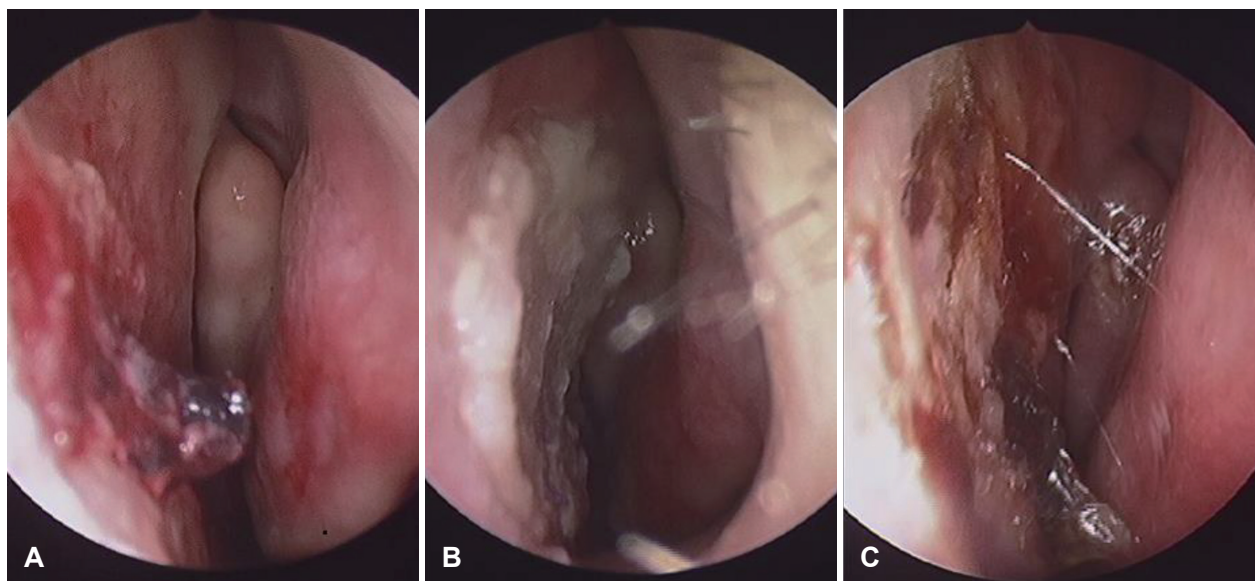


Fig. 1. Endoscopic findings of case 1. A: Preoperative nasal endoscopic finding: erosion of left mid lower septal mucosa. B: Postoperative nasal endoscopic finding after removal of the silastic sheet: intact graft in nasal septum. C: Last follow-up nasal endoscopic finding.

Korea)를 삽입 후 수술을 종료하였다. 2주가 경과한 후에 외래에서 내시경을 이용하여 실라스틱 시트를 제거하였다. 수술 후 4개월간 경과 관찰하였으며 추가적인 비출혈은 없었으며, 이식 피부의 생착 또한 문제없이 이루어졌다(Fig. 1B and C).

증례 2

기저질환이 없는 29세 남자 환자가 반복되는 비출혈을 주소로 내원하였다. 환자는 1년 전부터 반복되는 비출혈로 타원에서 수차례 응급실을 내원하였었다. 환자는 소작술 및 비강내 패킹 등 비출혈에 대한 보존적 치료 및 비중격 교정술도 시행 받았으나, 여러 치료 후에도 비출혈이 반복되었다. 비내시경상 좌측 비중격 앞쪽 점막에 응혈 및 점막 미란 소견 관찰되었다(Fig. 2A). 환자는 타원에서 여러 차례 응급실을 방문했던 경험이 있으며, 다양한 치료에도 불구하고 재발하는 비출혈에 대하여 보존적 치료보다는 근본적인 수술적 치료를 원하였다. 환자 또한 비내시경상 비중격 점막 전방에 모세혈관의 확장이 관찰되며 출혈이 되는 부위 국소적으로 명확하였기에 치료적 방법으로 비중격 식피술을 계획하였다. 증례 1과 동일한 방법으로 수술을 진행하였으며, 4×3 cm 크기로 피부 이식편을 채취하였다. 마찬가지로 2주 후 외래에서 실라스틱 시트를 제거하였다. 수술 후 4달간 외래를 통한 경과 관찰을 하였으며, 추가적인 비출혈은 없었다. 비내시경 소견상 이식 피부의 생착이 문제없이 이루어졌으며 출혈 소견이 관찰되지 않았다(Fig. 2B and C).

고 찰

두 환자 모두 반복적인 비출혈로 비강 내 패킹, 소작술, 비중격 교정술 등 여러 치료를 시행 받았으나, 비출혈이 반복되었다. 비출혈의 원인으로 생각되는 병변이 비중격 점막에 명확히 확인되었기에 문제가 되는 점막을 제거 후 비중격 식피술을 시행하였다. 비중격 식피술 후 두 환자 모두 추가적인 비출혈은 없었다.

HHT에서 혈관 이상은 비점막에서 가장 흔하게 발견되며, 많은 환자에서 반복적인 비출혈이 발생한다.¹⁰⁾ 재발성 비출혈, 피부 또는 점막의 모세혈관 확장증, 위장관계 침범(동정맥 기형, 위장관 모세혈관 확장증 등), 가족력 중 3가지 이상을 만족할 때 확진할 수 있다.¹¹⁾ 두 환자 모두 잦은 비출혈과 비점막의 모세혈관 확장증 외에는 HHT를 의심할만한 다른 소견은 없었다.

보존적 치료에 실패한 비출혈에는 수술적 치료를 시행할 수 있다. 흔히 동맥 결찰술이 사용되며 최근에는 국소 해부의 이해의 증진 및 내시경이 발달함에 따라 비강의 주요 혈관의 말단 부위인 접형구개동맥 결찰술 및 전사골 동맥 결찰술 등을 주로 시행한다.⁴⁻⁶⁾ 난치성 비출혈에 대한 접형구개 동맥 결찰술의 성공률은 85% 이상으로 보고되나, 출혈 부위가 전사골 동맥 등으로부터 결순환을 받는 경우 재출혈이 발생할 수 있다.¹²⁾ 특히 비중격 앞쪽 kiesselbach 영역은 다양한 동맥의 분지에서 혈관 공급이 이루어진다.¹³⁾ 또한 혈관 결찰술은 보존적 치료에도 반응하지 않는 심각한 대량 비출혈, 특히 후방 출혈의 경우에 적합한 치료법이다.¹⁴⁾ 본 증례와 같이 비중격

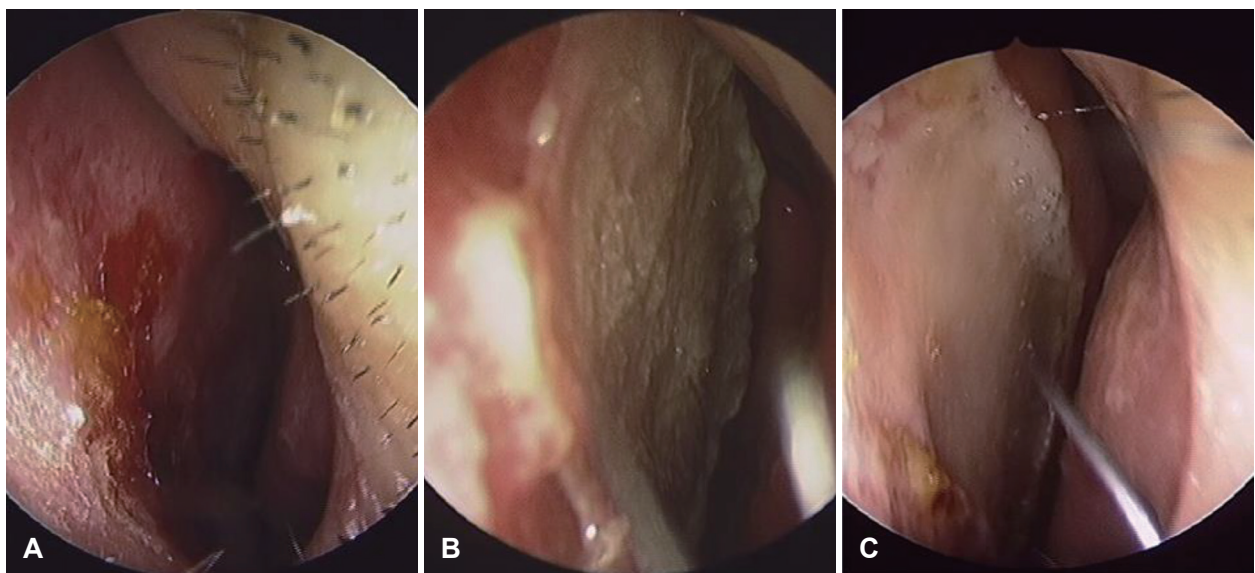


Fig. 2. Endoscopic findings of case 2. A: Preoperative nasal endoscopic finding: erosive mucosa, engorged vessel and telangiectases in left anterior nasal septum. B: Postoperative nasal endoscopic finding after removal of the silastic sheet: intact graft in nasal septum. C: Last follow-up nasal endoscopic finding.

점막에서 보존적 치료에도 호전되지 않는 재발성 출혈이 있으며 발생 부위가 국소적으로 명확한 경우에는 치료적 방법 중 하나로 비중격 식피술을 먼저 고려해 볼 수 있다고 생각한다.

HHT 환자에서 새롭게 증식되는 모세혈관들이 이식 피부를 관통하여 모세혈관 확장증이 재발되는 경우가 비중격 식피술의 실패의 원인 중 하나로 보고되고 있다.¹⁵⁾ 따라서 본 증례와 같이 HHT가 아닌 환자들에게서 비중격 식피술 후 비출혈의 재발률이 더 낮을 것이라 기대해 볼 수 있다. 또한 비중격 식피술 후 비강 내에 가피가 광범위하게 형성되는 경우가 많은데,⁹⁾ 본 증례의 환자들은 수술 후 비강 내 가피 형성으로 인한 불편함을 호소하지 않았다. 비강 내 여러 점막에서 이상을 보이는 HHT 환자와 달리 병변의 범위가 작고 특정 비중격 점막에 국한되어 있기에 수술 방법이 보다 쉽고 대체되는 이식편의 범위도 작아 더 나은 수술적 결과를 기대해 볼 수 있다.

비록 적은 증례이기는 하나, HHT가 아닌 재발성 비출혈의 환자에서 비중격 식피술의 효과를 보였다. 특히, 다양한 보존적 치료에도 반응이 없으며 비중격에서 재발성 비출혈의 원인이 되는 병변이 보다 명확한 경우 비중격 식피술을 시행해 볼 수 있다고 생각한다.

Acknowledgments

None

Author Contribution

Conceptualization: Yong Ju Jang. Data curation: Yeong Ju Lee. Formal analysis: Yeong Ju Lee. Investigation: Yeong Ju Lee. Methodology: Yeong Ju Lee, Yong Ju Jang. Supervision: Yong Ju Jang. Validation: Yong Ju Jang. Visualization: Yeong Ju Lee. Writing—original draft: Yeong Ju Lee. Writing—review & editing: Yong Ju Jang.

ORCIDs

Yeong Ju Lee <https://orcid.org/0000-0003-1701-6263>

Yong Ju Jang <https://orcid.org/0000-0001-7631-0388>

REFERENCES

- 1) Nouraei SA, Maani T, Hajioff D, Saleh HA, Mackay IS. Outcome of endoscopic sphenopalatine artery occlusion for intractable epistaxis: A 10-year experience. *Laryngoscope* 2007;117(8):1452-6.
- 2) Christensen NP, Smith DS, Barnwell SL, Wax MK. Arterial embolization in the management of posterior epistaxis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;133(5):748-53.
- 3) Johnson N, Faria J, Behar P. A comparison of bipolar electrocautery and chemical cautery for control of pediatric recurrent anterior epistaxis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2015;153(5):851-6.
- 4) Abdelkader M, Leong SC, White PS. Endoscopic control of the sphenopalatine artery for epistaxis: Long-term results. *J Laryngol Otol* 2007;121(8):759-62.
- 5) Viehweg TL, Roberson JB, Hudson JW. Epistaxis: Diagnosis and treatment. *J Oral Maxillofac Surg* 2006;64(3):511-8.
- 6) Woolford TJ, Jones NS. Endoscopic ligation of anterior ethmoidal artery in treatment of epistaxis. *J Laryngol Otol* 2000;114(11):858-60.
- 7) Tseng EY, Narducci CA, Willing SJ, Sillers MJ. Angiographic embolization for epistaxis: A review of 114 cases. *Laryngoscope* 1998;108(4 Pt 1):615-9.
- 8) Lee JJ, Lee E, Ryu G, Seo MY, Hong SD, Kim HY, et al. Efficacy of endoscopic electrocauterization for recurrent posterior epistaxis. *J Rhinol* 2018;25(2):75-9.
- 9) Fiorella ML, Ross D, Henderson KJ, White RI Jr. Outcome of septal dermoplasty in patients with hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Laryngoscope* 2005;115(2):301-5.
- 10) Guttmacher AE, Marchuk DA, White RI Jr. Hereditary hemorrhagic telangiectasia. *N Engl J Med* 1995;333(14):918-24.
- 11) Shovlin CL, Guttmacher AE, Buscarini E, Faughnan ME, Hyland RH, Westermann CJ, et al. Diagnostic criteria for hereditary hemorrhagic telangiectasia (Rendu-Osler-Weber syndrome). *Am J Med Genet* 2000;91(1):66-7.
- 12) İsmi O, Vayisoğlu Y, Özcan C, Görür K, Ünal M. Endoscopic sphenopalatine artery ligation in posterior epistaxis: Retrospective analysis of 30 patients. *Turk Arch Otorhinolaryngol* 2016;54(2):47-52.
- 13) Shukla PA, Chan N, Duffis EJ, Eloy JA, Prestigiacomo CJ, Gandhi CD. Current treatment strategies for epistaxis: A multidisciplinary approach. *J Neurointerv Surg* 2013;5(2):151-6.
- 14) Voegels RL, Thomé DC, Iturralde PP, Butugan O. Endoscopic ligation of the sphenopalatine artery for severe posterior epistaxis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2001;124(4):464-7.
- 15) Levine CG, Ross DA, Henderson KJ, Leder SB, White RI Jr. Long-term complications of septal dermoplasty in patients with hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;138(6):721-4.

1) Nouraei SA, Maani T, Hajioff D, Saleh HA, Mackay IS. Outcome of