

자동차 정비공에서 발생한 수부 소지구 부위의 외상후 동정맥혈관종

Posttraumatic Arteriovenous Hemangioma of the Hypothenar Eminence in a Car Mechanic

남광우 · 강상민 · 신성진 · 서규범

제주대학교 의학전문대학원 정형외과학교실

동정맥혈관종은 주로 사지와 두피에서 발생하며, 여성과 아이들에게서 흔하게 보고되고 있다. 그러나 외상후 동정맥혈관종에 대한 보고는 매우 드물며, 신경학적 증상이 동반된 수부 소지구 부위에 발생한 외상후 동정맥혈관종에 대해서는 보고된 바가 없다. 이에 저자들은 반복적인 외상후 수부 소지구 부위에서 동정맥혈관종이 발생한 52세 남자 환자에서 수술적 제거술을 시행하고 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

색인단어: 소지구, 외상후 동정맥혈관종

혈관종(hemangioma)은 흔한 양성 종양 중의 하나로, 혈관 구조가 있는 신체의 어느 장기에서나 발생할 수 있다. 동정맥혈관종(arteriovenous hemangioma)은 양성의 경과와 다양한 성장형(type)을 보이는 혈관성 과오종(hamartoma)으로 생각되고 있으며, 출생 시부터 존재하여 성장하며 서서히 자라는 경우와 자발적으로 발생하는 경우가 있다.¹⁾ 동정맥혈관종은 주로 사지와 두피(scalp)에서 발생하며, 여성과 아이들에게서 흔하게 보고되고 있다.²⁾

외상후 동정맥혈관종은 외상후 정상적이지 않은 혈관 치유 과정에 의한 산물의 하나로 여겨지고 있는 후천적 양성 종양이다.³⁾ 외상후 동정맥혈관종에 대한 보고는 매우 드물며, 신경학적 증상이 동반된 수부 소지구 부위에 발생한 외상후 동정맥혈관종에 대해서는 보고된 바가 없다. 이에 저자들은 반복적인 외상후 수부 소지구 부위에서 동정맥혈관종이 발생한 52세 남자 환자에서 수술적 제거술을 시행하고 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

52세 남자로 좌측 수부 소지구 부위의 종괴와 제4, 5 수지의 저린 증상을 주소로 내원하였다(Fig. 1). 종괴는 약 1년 전부터 만져졌고 이후 크기가 점점 커졌으며, 약 3개월 전부터는 제4, 5 수지의

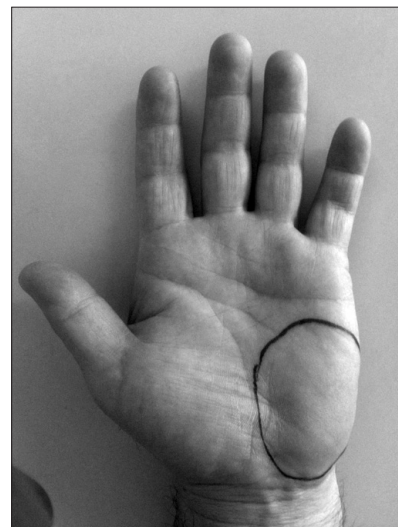


Figure 1. Clinical photograph shows an enlarged mass of the hypothenar eminence of the left hand.

접수일 2012년 4월 10일 수정일 2012년 8월 18일

게재확정일 2012년 10월 4일

교신저자 서규범

제주시 아란 13길 15, 제주대학교병원 정형외과학교실

TEL 064-717-1690, FAX 064-717-1131

E-mail cbnuoskbs@jejunu.ac.kr

저린 증상이 발생하기 시작하여 내원 시에는 감각 저하가 동반되어 있었다. 환자는 약 10년 전부터 자동차 정비공으로 일을 하며 좌측 손바닥으로 타이어나 쇠붙이 등을 문지르고 치는 일이 많았다고 하였다.

진찰 소견상 좌측 소지구 부위에서 압통이 없는 박동성 종괴가 촉진되었고, 제4, 5 수지의 저린 증상 및 건촉과 비교하여 약 30% 정도의 감각 저하가 있었으며, 골간근의 위축으로 인한 근력 약화가 관찰되었다. 단순 방사선 사진상 특이소견은 없었으며, 초음파 소견상 동맥혈류를 포함한 혈관성 종괴가 확인되었고(Fig. 2), 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 검사상 소지구

부위에서 분엽화되어 있는 고유량 혈관성 종괴($50 \times 33 \times 12$ mm)가 명확히 관찰되었다. 종괴는 척골관(Guyon's canal)을 침범하며 척골신경과 혈관을 압박하고 있었다. 종괴는 T1 강조영상에서 근육보다 약간 높은 균일한 신호강도를 보이고, T2 강조영상에서는 고신호 강도를 보이면서 저신호 강도의 중격과 같은 구조물들과 신호 소실 부위들이 관찰되었으며, 조영증강 T1 강조영상에서 종괴는 균일하게 조영증강을 보였으나 중격과 같은 구조물들은 조영증강되지 않는 것이 관찰되었다(Fig. 3). 근전도 및 신경전도속도 검사에서는 좌측 수근관절 수준에서 척골 신경병증 소견을 보이고 있었다.

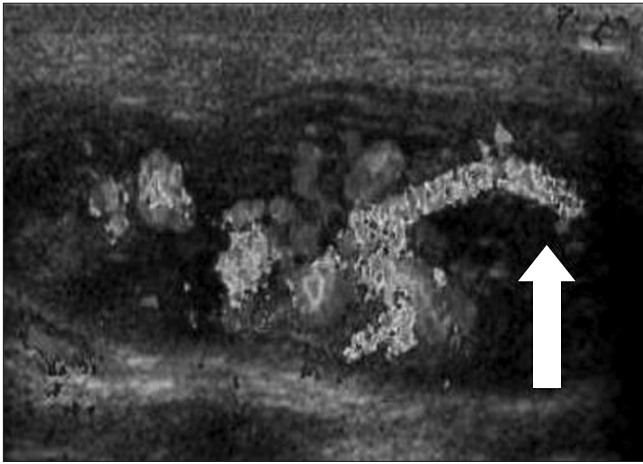


Figure 2. Color Doppler sonographic image showed a vascular mass including arterial blood flow of ulnar artery in the region of the hypothenar eminence (white arrow: ulnar artery).

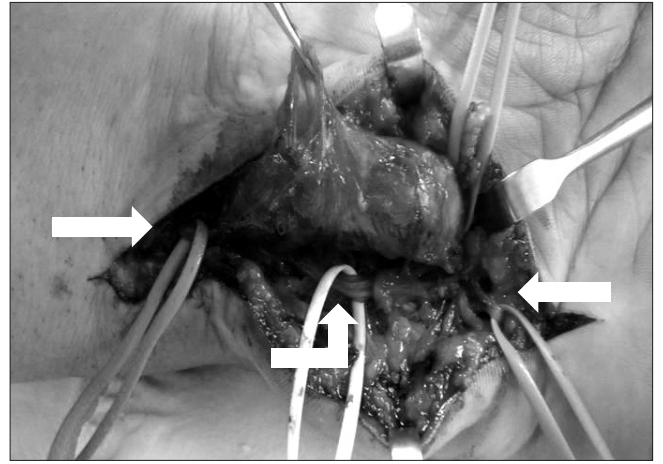


Figure 4. Intraoperative photograph showed a mass originated from the ulnar artery and compressed the ulnar nerve (white arrows: ulnar artery, right angled arrow: ulnar nerve).

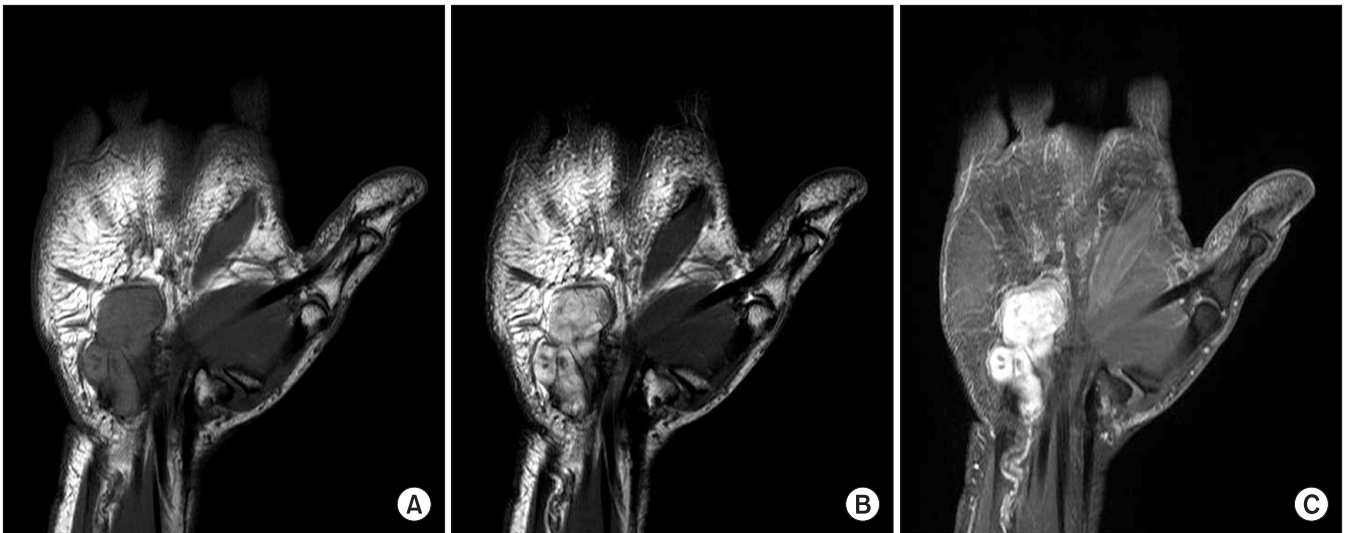


Figure 3. (A, B) Coronal T1 and T2-weighted magnetic resonance images show that homogeneous low signal intensity in hypothenar eminence of the left hand on T1-weighted image, which is converted to heterogeneous high signal intensity at T2-weighted image. (C) Coronal T1-weighted enhanced magnetic resonance image shows well-defined enhancement and septum-like structures with low signal intensity of the hypothenar eminence. Magnetic resonance images show a vascular mass that is lobulated in the region of the hypothenar mass.

환자는 점점 크기가 커지는 소지구 부위의 종괴와 제4, 5 수지의 저린 증상 및 근력약화가 일상생활 및 자동차 정비에 지장이 있을 정도로 악화되어 수술적 치료를 결정하였다. 수술 소견상 좌측 소지구 부위에서 척골동맥에서 기원한 종괴(50×30×20 mm)가 척골신경을 압박하며 유착되어 있는 것을 관찰할 수 있었다(Fig. 4). 종괴는 척골동맥이 확장된 형태로 형성되어 있었고, 원위부에서는 척골동맥뿐만 아니라 정맥과의 연결도 확인할 수 있었다. 유착된 척골신경이 손상되지 않도록 조심스럽게 종괴의 근위부와 원위부를 절찰하여 종괴를 완전히 제거하였고(Fig. 5), 척골동맥의 결손 부위에 대해서는 동측의 수배부 정맥을 박리한 후 채취하여 문합(anastomosis)을 시행하였다(Fig. 6). 제거된 종괴의 조직검사상 다양한 크기와 모양을 가진 다수의 혈관들이 관찰되었고, 밴 기슨 염색법(van Gieson stain)을 통해 동맥 내 탄력층의 존재를 확인하여 동정맥혈관종을 확진하였다(Fig. 7).

수술 후 2주째 봉합사 및 부목을 제거하고 능동적 및 수동적 관

절운동을 시작하였다. 점차 좌측 제4, 5 수지의 저린 증상 및 근력의 호전을 보여 수술 후 3개월째 직업으로의 복귀가 가능하였다. 수술 후 4개월째 시행한 혈관 컴퓨터단층촬영술(computed tomography angiography)상 이전 종괴의 혈관 주위에 이상 혈류 소견은 없었으며, 수술 후 1년 추시상 혈관종의 재발은 없었다(Fig. 8).

고 찰

혈관종은 인체 내 모든 조직에서 발생할 수 있는 흔한 양성 종양 중의 하나이다. 혈관종의 발생 빈도는 전 양성 종양의 7%로 알려져 있으며, 조직학적으로 그 기원이 불분명하나 과오종(hamartoma) 또는 신생종(neoplasm)으로 생각되고 있다.⁴⁾ 혈관종은 조직학적으로 해면형(cavernous), 모세혈관형(capillary), 정맥형(venous), 동정맥형(arteriovenous), 혼재형(mixed)으로 분류된다.



Figure 5. A 5×3 cm sized vascular mass was completely excised.



Figure 6. The deficit of the ulnar artery was grafted using dorsal metacarpal vein of the ipsilateral hand.

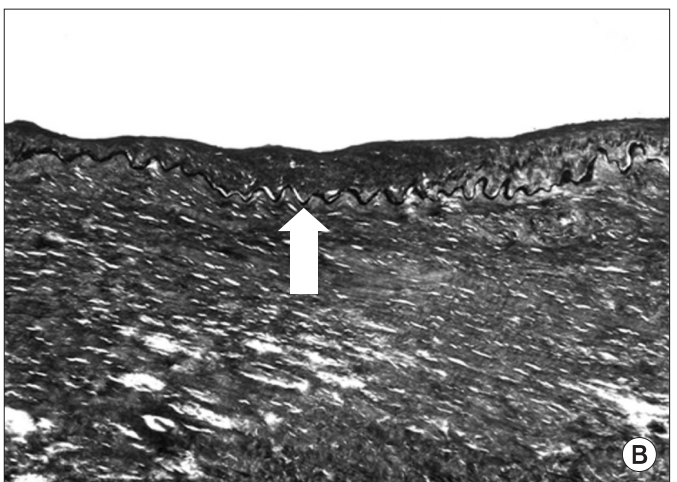
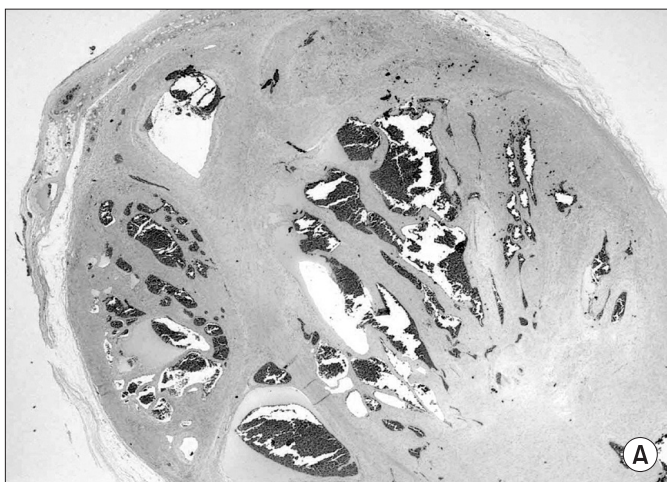


Figure 7. (A) Photomicrograph shows that the lesion is composed of an overgrowth of crowded blood vessels of various size and shape (H&E stain, ×10). (B) Elastic laminae and fibers (white arrow) in the arteries are clearly demonstrated (van Gieson stain, ×100).

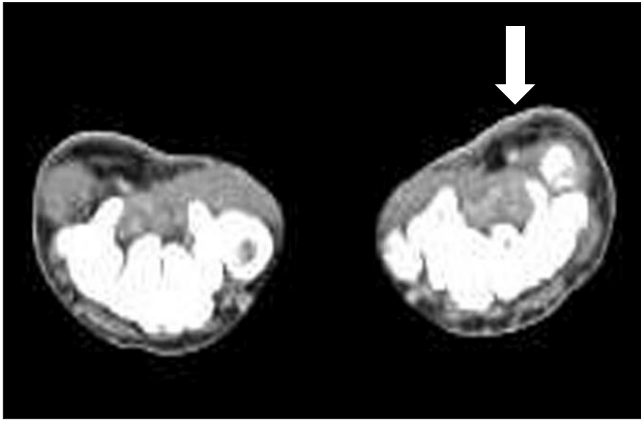


Figure 8. Axial computed tomographic image obtained four months after surgery demonstrates complete removal of the lesion without regrowth and no abnormal blood flow of ulnar artery in the region of the hypothenar eminence (white arrow).

모세혈관형은 작은 혈관으로 구성되며 이 혈관의 과도한 확장에 따라 해면형으로 불리게되며, 해면형보다 두꺼운 혈관벽이 존재 시 정맥형으로, 동맥혈관의 존재 시 동정맥형으로 불리게 된다.⁴⁾ 또한 1996년 국제 혈관 기형 연구회(International Society for the Study of Vascular Anomalies)에서 혈관의 이상(vascular anomalies)을 혈관종(hemangioma)과 혈관성 기형(vascular malformation)으로 분류하였으며, 치료적 접근을 위해 혈류 속도에 따라 저혈류성(slow-flow type)과 고혈류성(fast-flow type)으로 분류하였다(Table 1). 혈관종은 출생 시에는 없다가 생후 1개월 때 발생하여 급속히 증식하여 안정화 기간을 거치고 이후 서서히 보통은 완전하게 소멸된다고 하였으며, 혈관성 기형은 출생 시부터 존재하고 신체 성장과 함께 크기가 증가하며 자연 소실은 없다고 하였다.⁵⁾

동정맥혈관종은 선천적 양성 종양으로 정상적으로 동맥에서 모세혈관을 거쳐 정맥으로 흘러야 할 혈류가 중간에 모세혈관을 거치지 않고 동맥에서 정맥으로 직접 흐르게 되어 생기는 비정상적인 혈관의 집합체로, 태아 모세혈관계가 남아있는 것으로 여겨지고 있다.^{6,7)} 그러나 외상후 동정맥혈관종은 후천적 양성 종양으로 외상후 정상적이지 않은 이상 치유 과정의 산물로, 인접한 동맥과 정맥 구조물의 손상 이후 발생하는 비정상적인 혈종의 치유 과정을 통해 모세혈관계를 우회하는 동맥과 정맥의 문합에 의한 모세혈관계의 우회 현상으로 초래되거나 혈관종 내 혈관조직의 증식으로 유발될 수 있다.³⁾ 이에 저자들은 종괴가 이전에 존재하지 않다가 약 1년 전부터 갑자기 만져졌고 이후 반복적인 외상으로 인해 크기가 커진 점으로 보아 외상 후에 발생한 혈관종으로 판단하였으며, 조직검사를 다양한 크기와 모양을 가진 다수의 혈관들이 관찰되고 동맥 내 탄력층의 존재를 확인하여 동정맥혈관종을 확진하였다.

외상후 동정맥혈관종은 매우 드물게 보고되고 있는 종양으로, Perumal과 Francisco⁸⁾는 발뒤꿈치 부위에 발생한 동정맥혈관종에

Table 1. Classification of Vascular Anomalies

Vascular tumor	Vascular malformation
Infantile hemangioma	Slow-flow vascular malformation
Congenital hemangioma (RICH and NICH)	Capillary malformation
	Venous malformation
Tufted angioma	Lymphatic malformation
Kaposiform hemangioendothelioma	Fast-flow vascular malformation
Spindle cell hemangioendothelioma	Arterial malformation
Other, rare hemangioendothelioma	Arteriovenous fistula
Dermatologic acquired vascular tumor	Arteriovenous malformation
	Complex-combined vascular malformation

RICH, rapidly involuting congenital hemangioma; NICH, noninvoluting congenital hemangioma.

대해 보고하였고, 동정맥혈관종에 대한 보고는 아니나 Pollard⁹⁾는 지속적인 외상후 수지구 부위에 발생한 동정맥 기형을 동반한 재발성 혈관종에 대해 보고하였다. 그러나 본 증례처럼 소지구 부위에서 척골 신경을 압박하고 있는 외상후 동정맥혈관종에 대해서는 보고된 바가 없었다. Nazzi 등¹⁾은 전완부에서 요골신경 가지를 압박하고 있는 근육 내 동정맥혈관종에 대해 보고하였으나 외상성이 아닌 선천적 동정맥혈관종에 대한 보고였다.

혈관종의 치료는 수술적 절제술, 경피적 경화술, 스테로이드 투입, 방사선 조사 등이 시행되어 왔다.¹⁾ 이 중에서 수술적 절제술은 지금까지 혈관종의 주된 치료로 사용되어 왔다. 혈관종은 산재된 혈관 덩어리가 침윤성으로 존재하여 재발을 방지하기 위해서는 광범위 절제술이 필요하다. Hiroyasu 등¹⁰⁾은 발적과 압통을 동반한 좌측 제3 수지의 동정맥혈관종에서 수술적 제거를 시행하여 빠른 증상 회복으로 환자의 만족도가 높고 빠르게 일상생활로 복귀할 수 있었다고 하였다. 본 증례에서도 제4, 5 수지의 저린 증상과 감각 저하 및 근력 약화를 호소하는 환자를 대상으로 수술적 완전 절제를 통하여 빠른 증상 회복 및 직업으로의 복귀가 가능하였다. 하지만 병변의 위치나 깊이, 접근 방법 및 주위 조직의 기능 손상으로 인해 완전 절제가 힘든 경우가 있으므로 주의가 요구되며, 수술적 계획(surgical planning)을 세우고 병변의 범위와 주위 조직과의 관계 파악을 위해서는 MRI가 필수적이다. 또한, 본 증례와 같이 분지가 아닌 본래의 동맥 자체가 혈관종이 되어 있어 절제하게 되면 혈류 유지가 안될 경우 정맥 이식과 같은 미세수술에 대한 준비도 필요할 것으로 판단된다.

외상후 발생한 동정맥혈관종에서 신경학적 증상이 있는 환자 에게 수술적 완전 절제술은 환자의 만족도를 높이고 빠르게 직업으로 복귀할 수 있으며, 영구적인 혈관벽 손상을 막고 재발 방지에도 우수하여 효과적인 치료법 중의 하나라고 생각된다.

참고문헌

1. Nazi V, Messina G, Dones I, Ferroli P, Broggi G. Surgical removal of intramuscular arteriovenous hemangioma of the upper left forearm compressing radial nerve branches. *J Neurosurg.* 2008;108:808-11.
2. Pulidori M, Capuano C, Mouchaty H, Cioffi F, Di Lorenzo N. Intramuscular thrombosed arteriovenous hemangioma of the upper right arm mimicking a neuroma of the ulnar nerve: case report. *Neurosurgery.* 2004;54:770-1.
3. Acharya G, Merritt WH, Theogaraj SD. Hemangioendotheliomas of the hand: case reports. *J Hand Surg Am.* 1980;5:181-2.
4. Enzinger FM, Weiss SW. *Soft tissue tumors.* 4th ed. St Louis: Mosby; 2001. 837-87.
5. Legiehn GM, Heran MK. Venous malformations: classification, development, diagnosis, and interventional radiologic management. *Radiol Clin North Am.* 2008;46:545-97.
6. Allen PW, Enzinger FM. Hemangioma of skeletal muscle. An analysis of 89 cases. *Cancer.* 1972;29:8-22.
7. Cohen JM, Weinreb JC, Redman HC. Arteriovenous malformations of the extremities: MR imaging. *Radiology.* 1986;158:475-9.
8. Perumal V, Francisco CJ. Arteriovenous hemangioma of the foot--a case report. *Foot Ankle Surg.* 2010;16:e61-2.
9. Pollard MA. Vascular tumors of the hand: a report of 3 cases. *Hospital Physician.* 2003;3:57-61.
10. Hiroyasu N, Yukio S, Masayoshi U, Masahide I, Mitsunori O, Ryoji U. A case with arteriovenous hemangioma that occurred in the finger. *Okinawa Med J.* 2003;41:62-4.

Posttraumatic Arteriovenous Hemangioma of the Hypothenar Eminence in a Car Mechanic

Kwang Woo Nam, M.D., Sang Min Kang, M.D., Sung Jin Shin, M.D., and Kyu Bum Seo, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Jeju National University, Jeju, Korea

Arteriovenous hemangiomas are found mainly in the limbs and scalp, and are common in women and children. However, there have been very limited reports concerning posttraumatic arteriovenous hemangioma, and none was reported in the medical literature regarding posttraumatic arteriovenous hemangioma of hypothenar eminence causing neurologic symptoms. We report a case of arteriovenous hemangioma of hypothenar eminence after recurrent trauma that was successfully treated by an excision of the mass and vein graft.

Key words: hypothenar eminence, posttraumatic arteriovenous hemangioma

Received April 10, 2012 **Revised** August 18, 2012 **Accepted** October 4, 2012

Correspondence to: Kyu Bum Seo, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Jeju National University Hospital, 15 Aran 13-gil, Jeju 690-767, Korea

TEL: +82-64-717-1690 **FAX:** +82-64-717-1131 **E-mail:** cbnuoskbs@jejunu.ac.kr