

상완골 골연골종으로 인한 상완동맥 파열

공창배 • 이광열 • 조상현 • 송원석[✉] • 조완형 • 전대근 • 이수용

원자력병원 정형외과

Rupture of a Brachial Artery Caused by a Humeral Osteochondroma

Chang-Bae Kong, M.D., Kwang-Youl Lee, M.D., Sang-Hyun Cho, M.D., Won Seok Song, M.D.[✉],
Wan-Hyeong Cho, M.D., Dae-Geun Jeon, M.D., and Soo-Yong Lee, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Seoul, Korea

Pseudoaneurysm resulting from vascular impingement by an osteochondroma is extremely rare. The authors report on the case of a 16-year-old male who had a brachial artery pseudoaneurysm and vessel rupture associated with a humeral osteochondroma. This case suggests that pseudoaneurysm should be considered for the differential diagnosis in patients with soft tissue masses and a cuspidal osteochondroma located near the neurovascular bundle and recommends Doppler sonography or angiography.

Key words: pseudoaneurysm, osteochondroma, brachial artery, vascular grafting

골연골종은 장관골에 발생하는 흔한 양성 골종양 중 하나로 대부분은 증상이 없이 종괴가 축적되어 우연히 발견되는 경우가 많다. 증상은 일반적으로 경미하지만, 돌출된 종양 위로의 반복적인 자극에 의한 점액낭염으로 통증을 호소하는 경우가 있다. 골연골종에 의한 가상동맥류, 천공, 정맥 폐색, 혈전증, 구획증후군 등의 합병증이 보고되고 있으나, 대개 하지에서 발생한다.¹⁾ 저자들은 근위 상완골의 골연골종에 의해 발생한 상완동맥의 가상동맥류 및 동맥 파열을 보이는 16세 남자 환자에 대한 증례를 경험하였기에 보고하고자 한다.

증례보고

16세 남자가 2일전 악화된 좌측 액와부의 부종과 압통을 주소로 내원하였다. 두 달 전부터 특별한 외상력 없이 좌측 팔을 들어올릴 때 악화되는 통증이 시작되었으며 이에 타 병원에서 단순 방사선 촬영, 전산화 단층 촬영, 자기공명영상 검사를 시행하였고,

좌측 상완골 근위부의 골연골종이 있으며 연부조직 종괴는 연부 조직 육종이 의심된다는 진단을 받은 상태였다. 그러던 중 상기 증상으로 연부조직 종양 의심하에 본원으로 조직 검사를 위해 내원하였고, 당시 진찰상 완관절 이하 부위에서 저림을 호소하였으나 맥박 및 근력은 정상이었다. 비흡연자였으며, 이전에 혈액 응고 장애 또는 혈액 종양 등의 병력은 없었다. 내원 중 시행한 검사에서도 혈소판 이상 및 혈액 응고 장애는 발견되지 않았으며, 유전성 골종양 및 혈전증에 대한 가족력도 없었다.

단순 방사선 검사 및 전산화 단층 촬영에서 근위 상완골 내측으로 돌출된 골연골종이 관찰되었고, 이는 넓은 기저부를 가지고 뾰족한 모양으로 액와부를 향하는 모양이었다(Fig. 1). 자기공명영상 검사에서 연부조직 종괴는 골연골종에 인접하여 위치하고 있었으며, T1, T2에서 고신호 강도를 보였다. 조영 증강 영상에서는 종괴 내부에 원형의 조영 증강이 잘 되는 부위와 그 주변으로 조영 증강되지 않는 부위로 구분되는 양상을 보였다(Fig. 2).

연부조직 종양에 대한 절개 생검을 위해 약 4 cm 가량의 종결개를 가하자 이두근 심부근막 아래로 혈종이 관찰되어 혈종 제거술을 시행하였다. 이에 종괴는 혈종으로 인한 것임을 확인하고 절개를 연장하여 골연골종 제거술을 시행하려 하였다. 이렇게 수술 부위를 넓혔더니, 갑작스럽게 심한 출혈이 발생하여 동맥혈관 손상이 의심되어 상완동맥을 노출하였고, 약 3 cm 가량의 종

Received November 11, 2012 Revised May 3, 2013 Accepted June 5, 2013

[✉]Correspondence to: Won Seok Song, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Korea Cancer Center Hospital, 75 Nowon-ro, Nowon-gu, Seoul 139-706, Korea

TEL: +82-2-970-1244 FAX: +82-2-970-2403 E-mail: wssongmd@gmail.com

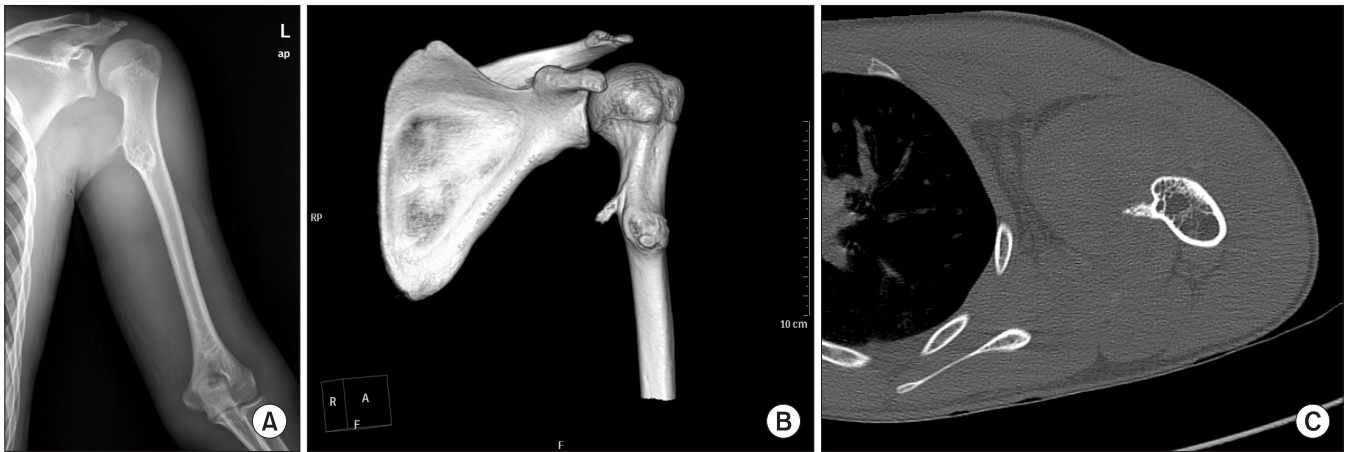


Figure 1. (A) Plain radiograph shows a left proximal humeral osteochondroma. (B) Three-dimensional reconstructed computed tomography (CT) image shows a medially protruded humeral osteochondroma. (C) Axial CT image demonstrates that this osteochondroma has a sharp beak toward the brachial neurovascular bundle.

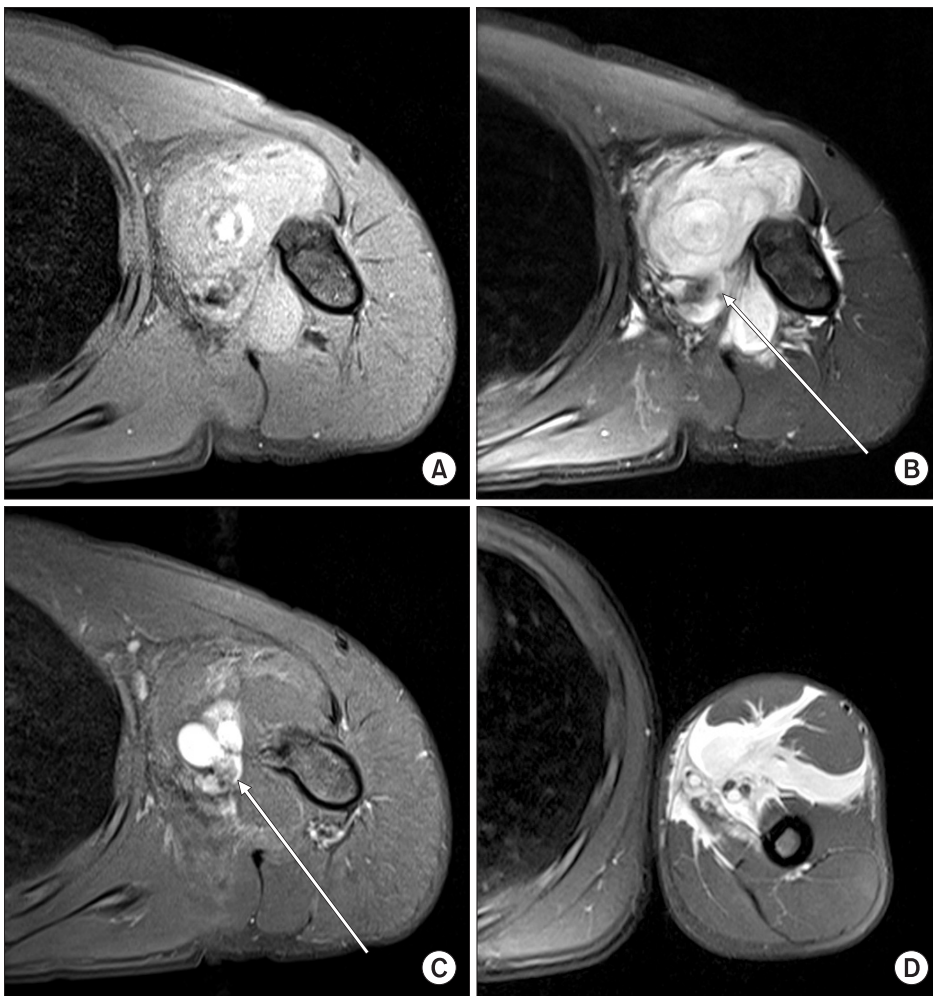


Figure 2. (A) The shoulder T1 and (B) T2-weighted magnetic resonance (MR) axial images demonstrate soft tissue mass. (C) Enhance T1-weighted MR axial image shows pseudoaneurysm (arrow) arising from the compressed brachial artery which demonstrate a strong enhancement. (D) T2-weighted MR shows that this soft tissue mass has high signal intensity along the intermuscular septum.

방향 열상이 있는 것을 확인하였다. 이에 혈관 전문의와의 협진을 통해 일차적 혈관 봉합을 시행하였다. 지혈된 후 골연골모를 포함한 골연골종 제거술을 시행하였다(Fig. 3). 이후 일차 봉합을

시행한 상완동맥의 직경이 많이 감소되어 있음을 확인하였고, 이에 혈류의 적절성을 판단하기 위해 수술장에서 초음파를 시행하였다. 요골동맥의 혈류가 심하게 감소되어 있음을 확인한 후 원

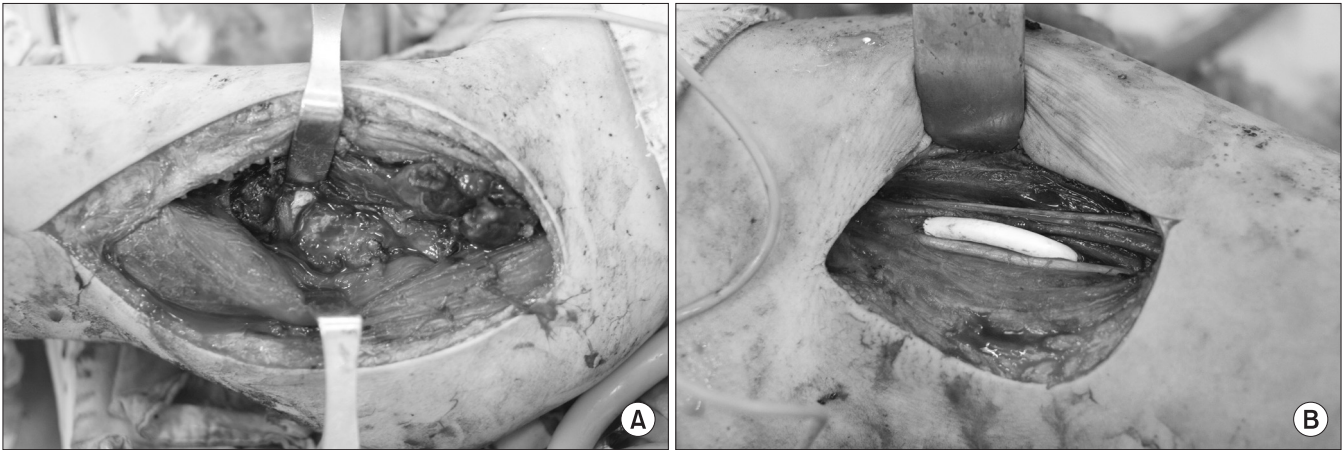


Figure 3. (A) Intra-operative picture showing left brachial artery with associated pseudoaneurysm and hematoma. (B) The picture shows that additional incision and artificial vessel graft were performed.



Figure 4. (A, B) Post-operative plain radiographs show excised osteochondroma in the proximal medial meta-diaphysis of the left humerus. (C) Two months later after the operation, doppler ultrasonography shows vascular access dysfunction at the axillary artery and proximal arm.

위부로의 혈류가 부적절하다고 판단하여 인조 혈관을 이용한 복원을 시행하기로 결정하였다. 혈관 수복을 위한 수술공간 및 시야의 확보를 위해 추가적 절개가 필요하여 액와 주름으로부터 상완골 내과 방향으로 추가 절개를 시행하였고, 손상된 상완동맥에 대하여 인조혈관을 이용한 혈관 이식술을 시행하였다(Fig. 3). 이후 수술장에서 초음파를 이용하여 전완 및 수부의 재관류를 확인한 후 수술을 종료하였다. 수술 2개월 후 시행한 도플러 초음파상 혈관통로 기능부전(vascular access dysfunction)을 보였으나, 이학적 검사상 요골동맥의 맥박은 정상적으로 촉진되었으며, 술 후 추시 6개월까지 별다른 증상 없이 정상 생활 중이다(Fig. 4).

고 찰

골연골종은 증상이 없는 경우가 대부분이지만, 반복적인 자극으로 인한 점액낭염이나 통증을 동반한 부종이 발생할 수 있고 주변 혈관이나 신경을 압박하면서 증상이 발생할 수도 있다.¹⁾ 골연골종과 연관된 혈관 합병증은 매우 드물지만 가성동맥류, 동맥 천공, 말초 허혈, 혈전증 등 다양한 형태로 발생할 수 있다.²⁾ Vas-

seur와 Fabre³⁾의 보고에 의하면 혈관 합병증은 대부분 20대 초반의 젊은 연령에서 발생하며, 이는 골연골종의 연골모가 골화되면서 생기는 날카로운 말단에 의해 주변 혈관이 손상을 받아서 발생하며 가장 주된 증상은 가성동맥류에 의한 심한 부종이라 하였다. 본 증례 역시 16세의 젊은 연령에서 골화된 연골모의 자극에 의해 가성동맥류가 발생하였고, 이후 이것이 파열되면서 혈종을 형성하였다고 생각된다.

외상의 병력이나 출혈 성향 없이 나타난 혈종은 종종 연부조직 종양과의 감별을 요하는 경우가 종종 있다.⁴⁾ Bilotta 등⁵⁾은 이의 감별을 위해 동맥류가 전형적으로 발생할만한 위치인지, 동맥 포착(arterial encasement)이 되어 있는지, 그리고 동맥류에 의한 인접 골의 침식(erosion)이 있는지 여부를 살펴볼 것을 권유하였다. 또한 방사선학적으로 연부조직 육종이나 혈종을 감별하는 데 있어 자기공명영상 검사가 가장 중요한 영상학적 검사방법으로 알려져 있다. 혈종은 시간이 경과함에 따라 다른 양상으로 나타나게 되는데 생성 1주 이내의 급성기에는 T1 강조 영상에서 저-중간신호 강도, T2 강조 영상에서 저신호 강도로 나타나며 1주 이후 아 급성기에는 T1 강조 영상에서 고신호 강도로 바뀌게 된다. 이러

한 급성기 혈종은 여러 양성 혹은 악성 종양의 소견과 유사하며 종양과 혈종이 동반할 수도 있어 이들 간의 구분이 어렵다.⁶⁾ 다만 Hermann 등⁷⁾은 T1 강조 영상에서의 균질한 음영으로 나타나던 것이 T2 강조 영상에서 비균질하게 바뀌는 것과 병소 내에 저신호 강도의 격벽이 있는 것을 악성 종양을 시사하는 소견이라 하였으며 그밖에 종양괴사, 뼈나 신경혈관 구조물의 침범, 변연부의 불규칙성 등도 악성 종양일 가능성을 시사하는 소견들이라 하였다. 그러나, 이러한 소견들은 양성과 악성 병소를 구분할 수 있는 신뢰할만한 기준은 되지 못하며 본 연구에서도 T1, T2 강조 영상 모두에서 고신호 강도를 보이고 종양괴사나 변연부의 불규칙성 등을 나타내어 쉽게 감별할 수 없었다.

Eschelmann 등¹⁾에 의하면 혈관 합병증은 슬와동맥에 가장 많이 발생한다 하였는데, 이는 골연골종의 호발 부위라는 점과 슬와동맥이 근위부로는 대퇴내전근의 건막성열공(aponeurotic hiatus) 및 상슬부동맥에, 원위부로는 하슬부동맥과 가자미근의 기시부에 의해 움직임이 제한된 해부학적 특성에 기인한다고 하였다. 반면 본 증례와 같은 상지에서의 혈관 합병증은 매우 드물어, 이 부위에 혈관 합병증이 발생한 환자는 국내문헌에서는 찾아볼 수 없었고, 국외 논문에만 드물게 보고되고 있었는데,^{8,9)} 이는 상완동맥의 움직임을 제한할만한 해부학적 특성이 없어서일 것이라고 저자들은 판단하였다.

혈관 합병증을 진단하기 위해서 전통적으로 혈관 조영술이 시행되어 왔으며, 그 외에도 초음파, 컴퓨터 단층 촬영, 자기공명영상 등이 사용되고 있다.⁷⁾ 자기공명영상은 혈관 및 골, 연부조직의 상태를 동시에 확인할 수 있다는 장점이 있고, 초음파는 비교적 저렴한 비용으로 혈류 속도를 측정할 수 있어 혈전증과 혈관 압박을 진단할 수 있다.¹⁰⁾ 본 증례에서는 수술 중 도플러 초음파로 인조 혈관 이식 후의 관류 상태를 점검하였으며, 추시에서도 혈액 순환의 개선 정도를 파악할 수 있었다. 추시 결과 6개월간 골종양이나 혈관합병증의 재발 소견은 보이지 않았으나 수술 후 2개월 후 이식 혈관으로의 관류가 실패한 소견을 보였다. 그러나 측부동맥들의 발달로 원위부 혈액 순환에는 이상이 없었다.

본 증례처럼 골연골종 환자가 갑자기 나타난 부종 및 저림 등의 증상을 호소할 경우 혈관 합병증의 가능성을 의심하는 자세가 중요하다고 생각한다. 본 증례를 경험한 이후 저자들은 뾰족한 골연골종이 혈관 근처에 있다고 의심되는 경우 전산화 단층 촬영 검사를 시행하여 혈관 손상 여부를 확인하고 있다. 저자들은 혈

관 근처에 끝이 뾰족한 골연골종을 가진 환자가 연부조직 종괴를 보이는 경우 가성동맥류를 감별 진단하고 이를 위해 도플러 초음파나 혈관조영술을 시행할 것을 권고하는 바이다.

참고문헌

1. Eschelmann DJ, Gardiner GA Jr, Deely DM. Osteochondroma: an unusual cause of vascular disease in young adults. *J Vasc Interv Radiol.* 1995;6:605-13.
2. Scotti C, Marone EM, Brasca LE, et al. Pseudoaneurysm overlying an osteochondroma: a noteworthy complication. *J Orthop Traumatol.* 2010;11:251-5.
3. Vasseur MA, Fabre O. Vascular complications of osteochondromas. *J Vasc Surg.* 2000;31:532-8.
4. Kim YJ, Baek WK, Kim JY, et al. Pseudoaneurysm of the popliteal artery mimicking tumorous condition. *J Korean Surg Soc.* 2011;80 Suppl 1:S71-4.
5. Bilotta W, Walker H, McDonald DJ, Sundaram M. Case report 651: thrombosed, leaking popliteal aneurysm. *Skeletal Radiol.* 1991;20:71-2.
6. Mann HA, Hilton A, Goddard NJ, Smith MA, Holloway B, Lee CA. Synovial sarcoma mimicking haemophilic pseudotumour. *Sarcoma.* 2006;2006:27212.
7. Hermann G, Abdelwahab IE, Miller TT, Klein MJ, Lewis MM. Tumour and tumour-like conditions of the soft tissue: magnetic resonance imaging features differentiating benign from malignant masses. *Br J Radiol.* 1992;65:14-20.
8. Tobias AM, Chang B. A rare brachial artery pseudoaneurysm 13 years after excision of a humeral osteochondroma. *Ann Plast Surg.* 2004;52:419-22.
9. Gerrand CH. False aneurysm and brachial plexus palsy complicating a proximal humeral exostosis. *J Hand Surg Br.* 1997;22:413-5.
10. Longo JM, Rodríguez-Cabello J, Bilbao JI, Aquerreta JD, Ruza M, Mansilla F. Popliteal vein thrombosis and popliteal artery compression complicating fibular osteochondroma: ultrasound diagnosis. *J Clin Ultrasound.* 1990;18:507-9.

상완골 골연골종으로 인한 상완동맥 파열

공창배 • 이광열 • 조상현 • 송원석[✉] • 조완형 • 전대근 • 이수용

원자력병원 정형외과

골연골종이 유발하는 혈관의 압박으로 인해 발생하는 가성동맥류는 매우 드문 질환이다. 저자들은 근위 상완골의 골연골종에 의해 발생한 상완 동맥의 가성동맥류 및 동맥 파열을 보이는 증례를 경험하였기에 보고하고자 한다. 이 증례를 통해 혈관 근처에 말단이 뻗어있는 골연골종을 갖고 있는 환자가 연부조직의 종괴를 보이는 경우 가성동맥류를 감별 진단하고 이를 위해 도플러 초음파나 혈관 조영술을 시행할 것을 권고하는 바이다.

색인단어: 가성동맥류, 골연골종, 상완동맥, 혈관 이식

접수일 2012년 11월 11일 수정일 2013년 5월 3일 게재확정일 2013년 6월 5일

[✉]책임저자 송원석

서울시 노원구 노원로 75, 원자력병원 정형외과

TEL 02-970-1244, FAX 02-970-2403, E-mail wssongmd@gmail.com