

사지골격근에 발생한 해면상혈관종 —5예 보고—

서울적십자병원 정형외과

김정규 · 최충신 · 김용주

=Abstract=

Cavernous Hemangioma of Skeletal Muscles of the Extrimities

—5 Cases Report—

Joung Kyou Kim, M.D., Choong Shin Choi, M.D., and Yong Joo Kim, M.D.,

Department of Orthopedic Surgery, Seoul Red Cross Hospital, Seoul, Korea

The first case of hemangioma originating in the skeletal muscle was reported by Liston in 1843. Hemangioma involving the skeletal muscle is less common and the correct preoperative diagnosis is often not made even though they attain considerable size.

These tumors have remained asymptomatic and undetected by their hosts.

We experienced 5 cases of hemangioma in the skeletal muscle for 2 years since 1979 and the diagnosis were confirmed clinicopathologically.

Key Words: Hemangioma, Skeletal muscle

서 론

골격근에 발생하는 혈관종은 1943년에 Liston에 의해 처음 보고되었으며 그후 많은 학자들에 의해 연구, 보고되어 왔다. 혈관종은 혈관에서 생기는 양성 종양으로서 Kornmann은 혈관종의 발생빈도가 전 양성 종양 중 7%를 차지하고 그 중 골격근에 발생하는 빈도는 McCarthy와 Waston에 의하면 거의 0.8%라 하며 약 45%가 하지에서 발생한다 하였다.

저자들은 사지골격근에 발생하는 혈관종 5예를 경험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 분석

증 례 1: 남○우 35세권 여자로서 입원 10년 전부터 좌상박부에 촉진되는 달걀크기의 종물이 생겨 통증을 호소하여 입원하였다.

이학적 소견: 좌주관절 신전운동 제한이 있었음.

X-선 소견: 연부조직 종창이 있으면서 다수의 석회

화 소견을 보였다(Fig. 1).

수술 소견: 좌측 이두상박근 특히 단두부 내에 검붉은 혈액이 고여 있고 망종크기 만한 피낭물이 여러개 모여 있었음. 피낭속에는 회백색의 매끈한 표면을 가진 연골피(0.5×0.3×0.2cm)가 발견되었으며 이두상박근 단두부의 전장에 걸쳐 퍼져 있었다.

조직 소견: 증식하는 내피세포로 배열되어 있는 혈액동물이 근육내에 다양하게 나타나고 혈전으로 차있었다(Fig. 2,3).

Fig. 1. 석회화 음영이 보임.

Fig. 2. 조직학적 소견 $\times 100$.

Fig. 5. 수술소견 둥그런 정맥결석이 보임.

Fig. 3. 조직학적 소견 $\times 400$.

Fig. 6. 연부조직 종창이 있다.

Fig. 4. 하나의 석회화 음영이 보임.

Fig. 7. 연부조직 종창과 다수의 석회화 음영이 있다.

증례 2: 이○인 22세된 여자로서 입원 5년전부터 보행시 우측 하퇴부 후방에 통증과 종물이 있어 입원하였다.

이학적 소견: 右 하퇴부 후방에 압통이 있고 정도의 침착이 있었음.

X-선 소견: 연부조직 종창외에 족관절 10cm 상방에 석회화 음영을 나타내었음(Fig. 4).

수술 소견: 우측 비복근(gastrocnemius) 주위근과

유착되어 있는 청회색을 띠는 스펀지감을 나타내는 타원형의 피낭($5 \times 3 \times 2\text{cm}$)을 볼 수 있었다. 피낭을 절개하니 회백색의 작은 정맥결석($0.7 \times 0.5 \times 0.4\text{cm}$)이 묻혀 있었다(Fig. 5).

조직학적 소견: 커다란 혈액동이 주로 적혈구로 차 있으며 결핵조직에 의해 분리되어 있었다.

증례 3: 신○철 21세된 남자로서 입원 전 약 11년 전부터 점진적으로 종물이($9 \times 6\text{cm}$) 우측 대퇴부에 있

어 입원했다.

이학적 소견 : 우측 슬관절의 굴절운동의 제한이 있었음.

X-선 소견 : 석회화 음영이 나타나지는 않았으나 연부조직의 종창이 있었음.

수술 소견 : 우측 사두근근내에 적회색을 띄는 타원형(5×4×3cm)의 피낭을 보여 주었다. 피낭을 절개하니 정맥 결석은 나타나지 않았다.

증례 4 : 최○배 20세된 남자로서 종창이 좌측 상박부에 있었음. 좌측 주관절 신전운동제한이 있으며 압통을 호소하였고 X-선상 석회화 음영이 나타났음(Fig. 6).

증례 5 : 김○자 35세된 여자 환자로서 좌상과근에 축지되는 종물과 동통을 호소하였음(Fig. 7).

고 찰

골격근 혈관종은 젊은이에서 잘 나타나는 종양종의 하나로 90% 이상이 30세 이내에서 나타난다^{8,9}.

Waston과 McCarthy에 의하면¹⁰ 혈관종 중 0.8%만이 골격근에서 나타난다 하며 이 중 45%가 하지에 발생한다고 하였다¹⁰.

Geschickter 및 Kessbey⁹는 Johnshopkins Hospital에서 혈관종 570예를 분석하였다.

피부에 370예 심장, 간 및 내장에 135예, 중추신경계 43예, 뼈에 10예, 근육에 10예 순으로 근육에 가장 발생

빈도가 낮았다고 한다. 활액막, 관절에 발생하는 혈관종은 발견되지 않았다. 골격근 혈관종의 원인은 불명하며 여러가지 학설이 있다. 그러나 대개는 선천적 원인이라고^{8,9,17} 생각하는데 1957년 Bendeck과 Lichtenberg은 조직학적으로 볼 때 염증증상이 없이 근조직 파괴 및 지방조직 과다성장으로 이루어진 원인이 선성천이라 했다. 1935년 Mailer¹⁸에 의하면 근육의 가벼운 외상이 혈관육아조직을 증식시켜 나타난다고 했으며 17%가 종양 발생부위에 외상의 병력이 있었다고 했다¹⁸. 이 종양은 과다성장, 혈액용고 장애, 연골종, 심한 골흡수 등과 동반을 잘하며 타박상, 염증, 임신 등에 의해서 성장이 촉진된다고 했다.

혈관종의 분류는 학자에 따라 다양하지만 Boyd's 단분류법에 의하면 모세혈관형과 해면상형으로 나누고 Muscatello는 해면상형, 동맥형, 정맥형, 모세혈관형으로 나누었는데 해면상형이 가장 많았다 했다^{8,11,17}.

임상증상은 Shallow, Eger, Wagner¹⁷ 등에 의하면 60%에서 동통을 호소하고 압통(26%) 기능 장애(25%) 등을 호소하였다 한다. 저자들의 증례에서는 종창 혹은 종물을 5예(100%), 동통을 3예(60%)에서 호소하였다. 동통의 원인은 혈관종이 신경을 압박하여 나타나며 상당한 크기가 되어도 환자가 알지 못하고 증상을 호소하지 않는다⁹. 종양의 크기는 완두콩에서 배아 머리 크기까지 다양하며 경계선은 뚜렷하거나 불분명하고 하지에 발생시는 다리를 올리면 크기가 작아지고

Table 1. Frequency of hemangioma in different muscles

Muscle or muscle group	Frequency	Muscle or muscle group	Frequency
Lower Limb.		Upper limb	
Quadriceps	18.9	Forearm flexors	10.3
Calf	13.2	Triceps	4.6
Hamstrings	4.9	Biceps and Brachialis	2.9
Glutei	2.2	Pectoralis maj	1.9
Sole of foot	1.6	Thenar muscles	1.9
Peronei	0.8	Deltoid	1.4
Tibialis anterior	0.8	Palm of hand	1.4
Sartorius	0.8	Ext. carpi uln.	0.5
Psoas	0.5	Ext. poll. long.	0.3
Ext. dig. brev.	0.5	Ext. carpi rad.	0.3
Ext. hall. brev.	0.3	Teres maj.	0.3
Thigh adductors	0.3	Infraspinatus	0.3
Total	44.8	Total	26.1

다리 근위부에 압박붕대로 압박하는 커진다¹⁰⁾. 기능장애는 장단지에 종양이 생길때 흔히 나타나며 족관절의 운동 장애가 제일 많다. Davis와 Kitlowski의 보고에 의하면 발생하는 호발 부위는 아래 도표와 같다(Table 1)⁴⁾.

도표에서 보는 바와 같이 사지근 혈관종의 발생부위는 하지가 상지보다 많고 상지는 전완부가 상박부보다 많고 하지는 하퇴부보다 대퇴부가 많이 발생하고 전체적으로 대퇴부의 대퇴사두근이 모든 근육중 제일 많이 발생한다.

침범된 근육 수를 보면 단일 근육이 제일 많다(Table 2).

Table 2. No of involved musdes

근육수	%
1	66%
2	12.5%
3	3.6%
4	1.2%
5	0.3%

저자의 증례에서도 4예가 단일 근육에 침범되었고 1예에서 2개 근육에 침범되었다. 해면상 혈관종은 육안적으로 청회색, 적황색을 띄우며 말랑말랑한 감, 단단한 감, 굳은 감을 주며 가끔 작은 정맥결석이 13%가량은 분명한 막을 가진 완전 국한형(well circumscribed type)이며 5%는 부분 국한형(partially circumscribed type)이고 39%가 주위 혈관과 근육을 침범하는 산재성 형(diffuse type)이었으며 나머지는 분류하지 못했다 한다¹¹⁾. 조직학적으로는 증식되며 내피 세포로 덮여 있는 수많은 혈동으로 구성되어있고 혈전으로 차있으면서 변성된 근섬유 염증세포 및 섬유화된 동맥들이 나타나며 사이사이 결체조직이 나타난다고 하였다.

진단은 방사선 촬영이 도움이 되는데 정맥결석, 전부 조직염이나 골막작용을 볼 수 있다. Pomeranz와 Tunick는 진단에 도움을 주는 방법은 조영제를 혈관 내에 주입하여 병소를 알아낸다고 하였다. 그러나 수술전에 진단되는 경우는 8%¹⁰⁾에서 18%^{7,9,17)} 정도밖에 안된다.

정맥결석은 원형 혹은 타원형이며 다발성으로 나타난다고 했다^{7,10,16)}. 저자들의 증례에서는 4예(80%)에서 결석이 있었다. 감별진단해야할 것은 석회화된 기생충, 혈관육종, 지방종, 수액낭종증, 피부성낭종, 혈

종, 섬유종, 동정맥누공, 심재농양, 정맥염, 근원세포종, 횡문근종 등이 있다. 치료는 과거에 여러 방법을 사용했으나 효과가 적었다. 현재는 수술요법으로 완전 절제술이 가장 이상적이라 하였다^{4,15,19)}. 불완전 절제시는 반드시 재발한다고 했다^{4,5,7)}. 저자들의 증례에서도 전부 완전절제술을 시행하였다. 종양을 국소제거하기가 불가능할 정도로 광범위하게 침범되어 있는 경우는 절단술이 요한다 했다.

요 약

저자들은 사지 골격근에 발생한 해면상 혈관종 5예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Allen, P.W., and Enzinger, F.M.: *Hemangioma of Skeletal Muscle. Cancer. Vol. 29, pp. 8-22, Jan. 1972.*
- 2) Bendeck, T.E., and Lichtenberg, F.: *Cavernous Hemangioma of Striated Muscle. Review of the Literature and Report of 2 cases, Ann. Surg., 146: 1011-1015, 1957.*
- 3) Carpenter, E.B., and Strawn, L.M.: *Hemangiomatosis of the Ulna and Flexor Muscle of the Forearm with Secondary Flexor Contracture of the Wrist and Hand. A Case Report, J. Bone and Joint Surg., 45-A: 1472-1478, 1963.*
- 4) Davis, J.S., and Kitlowski, E.A.: *Primary Intramuscular Hemangiomas of Striated Muscle. Arch. Surg., 20: 39-86, 1930.*
- 5) Engelstad, B.L., Gilula L.A., and Kyriakos, M.: *Ossified Skeletal Muscle Hemangioma. Skeletal Radiol. 5: 35-40, 1980.*
- 6) Geschickter, C.F., and Keasbey, L.E.: *Tumors of Blood Vessels. Am. J. Cancer, 23: 568-591, 1935.*
- 7) Goidanich, L.F., and Campanacci, M.: *Vascular Hamartomata and Infantile Angiectatic Osteohyperplasia of the Extremities, J. Bone and Joint Surg., 44-A: 815-842, 1962.*
- 8) Jenkins, H.P., and Delaney, P.A.: *Benign Angiomatous of Skeletal Muscles. Surg.,*

- Gynec., and Obstet.*, 55 : 464—480, Oct. 1932.
- 9) Jones, K.G.: *Cavernous Hemangioma of Striated Muscle. A Review of the Literature and a Report of four Cases. J. Bone and Joint Surg.*, 35-A : 717—727, July 1953.
 - 10) Kornmann, J.E.: *Die Hemangiome. Ubersicht der Literature sowie eigene Pathologisch-anatomische Untersuchungen. Odessa, 1913 (Abstract in zentralbl. F Chir.*, 40 : 1427—1427).
 - 11) La Sorte, A.F.: *Cavernous Hemangioma of striated Muscle. Ame. J. of Surgery*, 100 : 593—593, 1960.
 - 12) Lewis, D.D.W.: *Congenital arteriovenous fistulae. Lancet* 2 : 621, 1930.
 - 13) Liston, R.: *Med. Chir. Trans.* 26 : 120, 1843.
 - 14) Lichtenstein, L.: *Aneurysmal Bone Cyst. A Path. Entity commonly Mistaken of Giant Cell Tumor and occasionally for Hemangioma and Osteogenic Sarcoma. Cancer*, 3 : 279—289, 1950.
 - 15) Pack, G.T., and Miller, T.R.: *Hemangiomas; Classification, Diagnosis, and Treatment. Angiology*, 1 : 405, 1950.
 - 16) Scott, T.E.S.: *Hemangiomata in Skeletal Muscle, British Journal of Surgery*, 44 : 496—501, 1957.
 - 17) Shallow, T.A., Eger, S.A. and Wagner, F.B.: *Primary Hemangiomaous Tumors of Skeletal Muscle. Ann. Surg.*, 119 : 700—740, 1944.
 - 18) Wakeley, P.G.: *Arch. Radiol. Electrother.*, 25 : 363, 1921.
 - 19) Watson, W.L., and McCarthy, W.D.: *Blood and Lymph Vessel Tumors; A Report of 1956 Cases. Surg., Cyne., and Obstet.*, 71 : 569—588, Nov. 1940.
 - 20) Willis, R.A.: *Pathology of Tumors*, 3rd Ed., Washington, D.C. Butterworth and Co., Ltd., 1960.