

선천성 동정맥루의 치험 1례

한양대학교 의과대학 정형외과학교실

김광희 · 이광석 · 이천원

=Abstract=

A Case Report of Congenital Arteriovenous Fistula

Kwang Hoe Kim, M.D., Kwang Suk Lee, M.D. and Cheon Won Lee, M.D.

Dept. of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Hanyang University, Seoul, Korea

The altered hemodynamics of arteriovenous fistula lead to overvascularization with trophic hypertrophy of a part or ulceration and tissue necrosis following local circulatory decompensation.

A twenty years old female had been suffered from chronic ulcerative dermatitis on the dorsal aspect of left foot and multiple hemangioma on her left great toe. The ligation of main communicating vessel and excision of fistula masses were performed in the surgical treatment.

The ulceration on the dorsal aspect of left foot was healed completely and the size of hemangioma was reduced.

Key words: Congenital arteriovenous fistula

서 론

선천성 동정맥루는 우회성 동맥류(cirroid aneurysm) 또는 동정맥류(arteriovenous aneurysm), 그리고 해면양 혈관종(cavernous angioma)이라고도 불리우며 선천성으로 동맥과 정맥이 비정상적으로 직접교통(abnormal direct communication)이 되는 것을 말한다. 이러한 선천성 동정맥루는 주로 하지에서 잘 발생하며 다발적이고 광범위하게 발생하는 것이 특징이다.

본 한양대학교 의과대학 정형외과학교실에서는 좌 족배부에 피부궤양을 동반한 선천성 동정맥루 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 분석

환자: 성○화, 성별: 여자, 연령: 20세

주소: 13년전 좌족배부에 경미한 외상을 받은 이후 우연히 발생한 만성피부궤양을 주소로 내원하였다.

과거력: 4년전 모 종합병원에서 피부궤양부위에 피부부식술을 시행하였으나 치유되지 않았고 본원에 입원하기 한달전에 모 종합병원에서 궤양부위에 피부생

검을 시행하였으나 생검조직의 병리학적 소견은 정상이었다고 한다.

가족력: 가족력에는 특기할 사항이 없었다.

이학적 소견: 좌측하지말단의 전면부와 족배부에 걸쳐 피하에 정맥확장이 보였으며 좌족배부에는 1.5cm×1cm 크기의 피부궤양이 있었고 주위의 피부색은 암갈색이었다. 또한 좌족모지 내측에는 혈관종(hemangioma)을 볼 수 있었다(Fig. 1-a, b). 좌족관절 전면부에서 4cm×5cm 크기의 종피와 종근부위에서 진전(thrill)이 촉진되었으며 청진상에도 종근부위에서 bruit가 들렸으며 종근부위를 압박하였을때 혈압은 130/80mmHg 이었고 맥박수는 64번/min 이었으며 종근부위에 압박을 가하지 않았을때는 혈압이 110/70mmHg이었고 맥박수는 72번/min 이었다. 양측하지의 actual length는 우측이 79cm이었고 좌측은 82cm이었으며 하지의 둘레는 족관절의 내과골 상방 3cm 부위에서 우측이 20cm이었고, 좌측은 22cm이었다. 혈액검사 및 혈액 gas 분석검사: 혈액검사항 모두 정상이었고 우측하지 정맥혈의 Ph가 7.301, PO₂가 38.9mmHg, PCO₂가 48.6mmHg, O₂ saturation이 78.7%으로 정상소견을 보인 반면에 좌측하지 정맥혈의 Ph는 7.392, PCO₂는 36.7mmHg로 약간 감소된 소견을 보였고 PO₂는 94.8mmHg,

O₂ saturation은 96.26%로 정상보다 증가된 소견을 보였다(Table 1).

수술방법 및 수술소견 : 육안 소견상 피하에 소혈관의 증식이 보였고, 족관절 주위에서 동정맥루의 형성을 볼 수 있었으며 이것이 관절낭을 침범하여 골과피를 일으킨 것을 볼 수 있었다.

그외에 전경골동맥과 심비골혈관등에도 다발성으로 동정맥루가 형성되어 있었다(Fig. 4).

광범위하게 분포되어 있는 동정맥루를 제거하였고 동시에 족배동맥과 전경골동맥 및 정맥에 대한 결찰술

Fig. 1-a. 좌측 족배부에 1.5cm×1cm 크기의 피부궤양상과 족모지의 혈관종을 볼 수 있음.

Fig. 2. 좌측 족관절 전면부에 연부조직의 종창을 볼 수 있고 외측부에서 연부조직내 정맥석(phlebolith)을 볼 수 있음.

Fig. 1-b. 좌측 족모지 내측에 혈관종을 볼 수 있음.

Tble. 1. 수술전·후 혈액 검사 소견

검사	수술	수술전		수술후	
	부위	Rt.	Lt.	Rt.	Lt.
Ph		7.301	7.392	7.375	7.414
PCO ₂ (mmHg)		38.9	36.7	38.0	42.0
PO ₂ (mmHg)		48.6	94.8	50.0	63.0
O ₂ saturation(%)		78.7	96.2	80.0	85.5

엑스선 소견 : 흉부전후면상 소견은 정상이었으며 좌측 관절 전후면과 측면단순촬영상 소견은 좌측관절 전면부에 연부조직의 종창을 볼 수 있었고, 족관절 외측부에 연부조직 내에 난형인 소두크기의 정맥석(Phlebolith)을 볼 수 있었다(Fig. 2).

혈관조영상 소견 : 좌측배부 및 좌측관절 부위에서 다발성 동정맥루의 형성소견을 보였고 혈관의 곡절(tortuosity) 및 정맥혈의 조기유출이 보였다(Fig. 3).

Fig. 3. 좌측 족배부 및 좌측 족관절 부위에 다발성 동정맥루 형성과 혈관의 곡절 및 정맥혈의 조기유출이 보임.

Fig. 4. 전경골 동맥에 발생한 동정맥루의 arterial opening을 볼 수 있음.

Fig. 6. 좌측 족배부 및 좌측 족관절 부위에 동정맥루가 감소된 것과 전경골동맥의 혈행이 차단된 것을 볼 수 있음.

Fig. 5. 절개된 동정맥루와 절찰되어 절제된 전경골동맥을 볼 수 있음.

과 절제술을 시행하였다(Fig.5). 혈관조영상 족배부에서 관찰된 동정맥루에 대해서는 족배부의 피부궤양상 때문에 더이상 진사(exploration) 및 절개술을 시행하지 않았다.

생검소견: 동정맥기형형성(arteriovenous-malformation) 및 혈전이 관찰되었다.

추후관찰: 수술후 8시간 경과후 혈압은 130/80mmHg 이었고 맥박수는 82번/min 이었고, 좌족배부에 청진상 잡음이 소실되었으며 촉진상 진전이 소실되었다.

수술후 족배부에 피부궤양의 크기가 점차로 감소되는 것을 관찰할 수 있었으며 10일 후에는 완전히 치유되었으며, 8주 후에는 좌족모지에 있던 혈관종의 크기가 상당히 축소된 것을 볼 수 있었다. 12개월 추시관찰에서 이학적 소견상 좌족배부의 만성피부궤양은 완전치유되었으며 부종은 소실되었고, 자각증상도 없었다.

혈액 gas 분석검사 소견상 Ph가 7.414, PCO₂가 42.0 mmHg로 수술전보다 증가되었으며 PO₂는 63mmHg, O₂ saturation은 84.5%로 수술전 보다 감소된것을 보였다.

혈관조영상 소견상 좌족배부 및 좌족관절 부위에서 다발성으로 보였던 동정맥루가 감소되었고 전경골동맥의 혈행이 차단된 것이 보였다(Fig.6). 또한 수술시

좌측배부의 피부폐양 때문에 좌측배부에 형성되어 있는 동정맥루에 대해서는 수술후 결과가 좋았기에 2차 수술은 시행하지 않았다.

고 찰

1757년 Hunter⁴⁾에 의해 최초로 이 질환에 관하여 기술된 이래, 1843년 Norris⁵⁾는 이중동맥결찰술에 의해 동정맥루를 치료한 예를 보고하였다.

또한 그는 이 질환은 거의 다발성으로 나타난다고 하였으며 동정맥루의 호발부위는 사지이며 특히 하지에 호발한다고 보고하였다.

Leonard⁶⁾는 선천성 동정맥루는 원시동맥과 정맥(premordial arteries and veins) 사이에 내피폐쇄(endothelial closure)가 되지 않아 intervening capillary bed 없이 다발성의 arteriovenous shunt complex가 형성되는 것이라 하였다.

Gomes⁶⁾는 동정맥루는 동맥과 정맥사이의 direct communication이 생기는 것으로써 이는 미세혈행에 있어서는 정상기능으로 작용하지만 그 direct communication이 생긴 위치나 크기에 따라 혈액학상 변화를 유발하여 병적인 상태로 이행된다고 보고하였다.

또한 Nicoladoni⁷⁾는 최초로 동정맥루 근위동맥을 압박하면 맥박수가 감소한다는 것을 기술하였고 Branham¹⁾에 의하여 후천성 동정맥에서도 이와같은 현상이 나타나는 것이 확인되었으며, Gunderman³⁾은 이와같은 후천성 동정맥루에 있어서 direct communication을 결찰하면 혈압이 증가한다는 것을 기술하였는데 본 환자에 있어서도 동정맥루 부위를 압박시 맥박수가 72/min에서 64/min으로 감소되었고, 혈압은 110/70mm Hg에서 130/80mmHg으로 증가하는 것을 볼 수 있었다. 이 질환의 정확한 진단은 수술시나 또는 부검을 할 경우 해부학적으로 증명이 되며, 동정맥루의 높은 산소포화도를 측정하거나, fistula 근위부의 증가된 혈행 속도, 순환혈액량의 증가, Branham씨 징후, 지속성 동정맥조영술(serial arteriophlebography), 전기진동요화술(oscillography), 계수형혈량측정술(digital plethysmography), 동맥음표사술(phonoarteriography), 피부온도증가 등으로 확인할 수 있다고 하였는데 본 환자에 있어서도 혈액 gas 분석결과상 낮은 PCO₂와 높은 산소포화도를 보였고 혈관조영상 다발성 동정맥루가 보였고 정맥혈의 조기유출이 관찰되었다. 치료방법에 있어서는 Leonard와 Vassos⁵⁾는 모든 병발부위조직의 Enbloc excision과 필요하다면 main blood vessel을 포함해서 절제술을 시행하며, 만일 측부혈행로

(collateral channels)가 불충분하면 사지보존을 위하여는 bridging vein이나 동맥이식술(arterial graft)을 시행하는 것이 필요하다고 하였으며 적출술의 성공여부를 일차적으로 주동맥의 연속성의 보존 혹은 재건에 달려 있다고 하였다. 또한 Edomondo²⁾등은 정확한 동맥조영술이 가능한 경우에는 fistula의 구심성동맥의 결찰술과 절제술을 시행한다고 하였으며, 이와같은 수술들은 특히 광범위하고 직접접근이 불가능한 심층의 소혈관의 동정맥루 경우와 같이 근처수술이 불가능한 경우에 시행할 수 있다고 보고하였는데 본 환자에 있어서도 전경관동맥의 결찰 및 주동맥을 포함한 광범위한 절제술을 시행하였다.

결 론

본 한양대학병원 정형외과 교실에서는 20세 여자 환자 좌측하지에 발생한 선천성 동정맥루에 대해 광범위한 절제술 및 결찰술을 시행하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Branham, H.H.: *Aneurysmal Varix of the Femoral Artery and Vein Following a Gunshot Wound*, *Int. J. Surg.*, 3: 250-251, 1890.
- 2) Edmondo Malan, Andrea Sala, Emilio Tardito: *Cited in Henry Haimovici: Arteriovenous Fistulas. Vascular Surgery Principle & Techniques. 1st Ed., McGraw-Hill Book Company, 533-550, 1976.*
- 3) Gunderman, W.: *Cited in Allen, E.V., Barker, N.W., and Hines, E.A., Jr.: Peripheral Vascular Diseases. 3rd Ed., Philadelphia, W.B. Saunders Company, 476, 1962.*
- 4) Hunter, W.: *The History of An Aneurysm of the Aorta with Some Remarks on Aneurysms in General*, *Med. Obs. Soc. Phys.*, 1: 323-357, 1757.
- 5) Lecnad, F.C., and Vassos, G.A. Jr.: *Congenital Arteriovenous Fistulation of the Lower Limb*, *New Eng. J. Med.*, 245, 885-888, 1951.
- 6) Manuel M.R. Gomes and Philip E. Bernatz: *Arteriovenous Fistulas. A review and Ten-year Experience at the Mayo Clinic*, *Mayo Clin. Proc.*, 45: 81-102, 1970.

- 7) Nicoladoni, C.: *Phlebarteriectasie der rechten oberen Extremität*, *Arch. Klin. Chir.*, 18 : 252—274, 1875.
- 8) Norman, M. Rich, and Frank, C. Spencer: *Arteriovenous Fistulas. Vascular Trauma*, 1st Ed., *W.B. Saunders Company*, 191—232, 1978.
- 9) Norris. G.: *Varicose Aneurysm at the Bend of the Arm; Ligature of the Artery above and below the Sac; Secondary Hemorrhages with a Return of the Aneurismal Thrill on the Tenth Day, Cure.* *Amer. J. Med. Sci.*, 5 : 17, 1843.