

두개 기저부를 침범한 유년형 비인두 혈관 섬유종 : 직접 천자에 의한 종양내 색전술¹

신 혜 영 · 김 선 용 · 서 정 호 · 박 기 현²

목 적 : 두개 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관 섬유종을 직접 천자하여 수술 야교를 이용한 종양내 색전술의 기술적인 방법과 효율성을 알아보고자 함.

대상 및 방법 : 두개 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관 섬유종 환자 9명을 대상으로 수술 전 종양내 색전술을 시도하였다. 환자는 모두 사춘기 연령의 10대 남자(14-16세, 평균: 15세)이었다. 시술은 전신마취 하에 방사선 투시로 확인하면서 경피적으로 하악절흔 또는 비강을 통하여 18 게이지 척수 천자 침을 이용하여 직접 종양내 동맥을 천자하여 종양내 조영술을 시행한 후 종양내의 혈관의 분포와 혈류의 속도에 따라 수술야교와 lipiodol의 혼합액(1:1-1:3)을 종양내로 직접 주입하여 색전술을 반복 시행하였다. 색전의 정도는 색전 후에 시행한 혈관 조영술에 의해 평가하였으며, 종양내 색전물질의 분포를 알기 위하여 전산화단층촬영을 1-3일 후에, 수술은 시술후 3-7일 후에 실시하였다.

결 과 : 색전술 후 혈관조영술상, 9예 중 6예에서 종양으로 분포하는 혈관들을 전부 색전시켰고 3예에서는 90% 이상 혈관 폐색이 가능하였다. 전산화 단층 촬영상으로 색전물질의 분포를 고 음영으로 관찰할 수 있었고, 수술로서 많은 출혈없이 종양 제거가 가능하였으며, 신경학적 장애를 비롯한 합병증이 관찰된 환자는 없었다.

결 론 : 두개골 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관 섬유종에서 경피적 접근을 통한 종양내 수술야교에 의한 색전술은 쉽고, 안전한 방법이며, 색전 효과가 뚜렷한 방법이라 보여진다. 또한 이 방법은 과 혈관 병소가 뇌 기저 및 부인두 부위에 있을 때 색전 치료에 효과적일 것으로 보인다.

유년형 비인두 혈관섬유종은 특징적인 과혈관성 때문에 수술 전 미세도관을 이용하여 외경동맥로부터 공급받는 종양 혈관들을 선택한 색전술을 시행함으로써 수술시 출혈을 감소시켜 용이하게 종양을 제거할 수 있었다(1-4). 그러나 두개 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관 섬유종의 경우에는 종양의 일부가 내경 동맥으로부터 공급을 같이 받기 때문에 완전한 혈관내 색전술을 실시하지 못하여왔다(3, 5-7).

이에 저자들은 외경동맥을 통한 색전술이 불가능 하였던 두개 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관 섬유종 환자를 대상으로 종양내 동맥을 경피적으로 천자한 후 수술야교에 의한 색전술을 시도하여 종양의 수술적 제거가 가능하였기에 이에 대한 기술적 방법과 결과를 알아 보고자 한다.

대상 및 방법

1993년 4월부터 1996년 9월까지 유년형 혈관섬유종환자 21명

중 두개 기저부 침습이 있었던 9명을 대상으로 하였다. 이중 1예는 수술후 재발된 환자였다. 환자들은 모두 14세에서 16세 사이의 사춘기 연령의 남자(평균 연령: 15세)이었다.

환자의 주요 증상 및 징후는 비출혈 5예, 코막힘 9예, 얼굴의 변형 2예, 중이염 혹은 이루(otorrhea) 4예 등이 었고 이학적 검사상 후비강 혹은 연성 구개에 돌출된 분홍색의 종물, 비중격의 전위 등을 보였다. 전례에서 자기공명영상에서 환자들은 사골동과 접형동, 해면정맥동을 채우고 있었으며 인접 수막에 비후와 조영 증강을 동반한 예도 있었다.

양측 내,외경동맥의 혈관 조영술상 모든예에서는 편측 또는 양측 상악동맥으로부터, 5예에서는 상인두 동맥으로부터 혈관공급을 받고 있었다. 모든예에서 내경동맥의 하위측 동맥간과 하악동맥으로부터 혈관공급을 받았다(Table 1).

5예에서는 5F 카테터를 서혜부 대퇴동맥을 통하여 삽입하고 외경동맥에 위치시킨후 상악동맥으로부터의 섭식동맥을 미세도관을 사용하여 입자형 색전물질로 종양의 일부에 대하여 색전술을 시행하였다. 종양내 색전술은 모든 환자에서 전신마취 하에 시행되었으며, 종양으로의 접근방법은 혈관 윤곽 파악영

¹ 아주대학교 의과대학 진단방사선과학교실
이 논문은 1997년 11월 3일 접수하여 1998년 2월 27일에 채택되었음.

상(roadmap image)을 통하여 18 Gauge 척수 천자 바늘을 사용하여 종양의 위치가 부인두영역(parapharyngeal space), 익구개와(ptyerygo- palatine fossa) 부위의 종양은 하악절흔(Mandibular sciatic notch)을 통하여, 해면정맥동과 접형동 부위의 종물은 비강을 통하여 천자 하였다. 종양내의 혈관조영술에의해 종양내에서 천자바늘이 섭식동맥에 삽입된 것을 확인한후 수술아교(N Butyl cyanoacrylate, NBCA : Braun Mel-sungen, Germany)와 lipiodol을 혈류의속도에 따라 다르게 혼합(수술아교 : lipiodol = 1 : 1-1 : 3)하여 천천히 15-30초 동안에 걸쳐 유출정맥이 채워지기 전 까지 주입하였으며, 종양내의 모세혈관들이 색전물로 가득 채워질 때까지 천자 부위를 달리하면서 반복하여 시도하였다(Fig. 1D, Fig 2D). 종양의 크

기에 따라 5-11회의 주입을 하였고, 시술 후 종양 색전의 정도는 혈관조영술을 실시하여 확인하였다(Figs. 1, 2).

색전물질의 범위를 확인하기 위하여 색전술 1-3일후 CT촬영을 하였고, 1주일 이내에 전 환자들은 수술하였다.

결 과

색전술 후의 혈관조영술상 6예에서 완전한 종양혈관의 폐색을 얻을 수 있었고, 3예에서는 90%이상 폐색이 가능하였다(Table 1). 신경학적인 합병증은 관찰되지 않았으나, 대부분의 환자에서 여러 차례의 경피적 천자로 인하여 안면부의 부종이 나타났다. 시술후 실시한 추적 CT 촬영에서 종양 실질이 색전

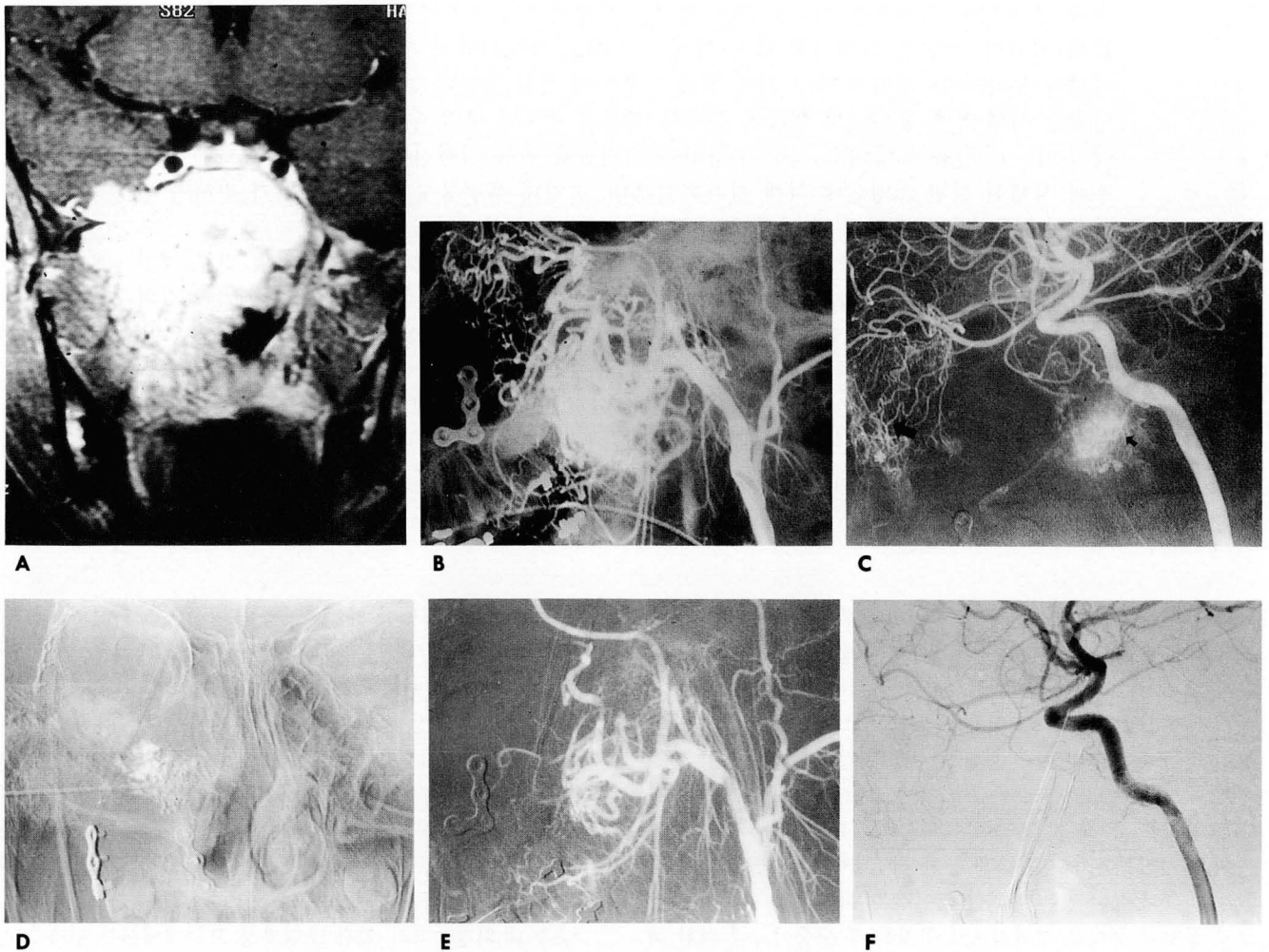


Fig. 1. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma with skull base invasion.

A. Contrast enhanced T1-weighted image shows tumor extension to the parapharyngeal space, the sphenoid bone and the middle cranial fossa.

B. External carotid angiogram shows hypervascular tumor staining supplied by the internal maxillary artery.

C. Internal carotid arteriogram shows a portion of hypervascular tumor supplied by the inferolateral trunk (a small arrow) and the mandibular branch of the internal carotid artery(a large arrow).

D. A last fluoroscopic image after Glue injection into the tumor shows successful infiltration of Glue within the tumor. The needle was introduced via mandibular sciatic notch.

E and F. Postembolization angiogram shows successful occlusion of tumor vessels from both branches of external and internal carotid artery.

물로 채워져 종양의 윤곽이 고음영으로 관찰 되었으나, 1예에서는 고음영 부위와 피사에의 한 저음영 부위가 혼재되어 보였다(Fig. 2F).

수술시 색전된 종양은 주변 조직과 경계가 명확하여 박리가 쉬웠으나, 일부분에서는 수술아교혼합물이 매우 단단하고 주변 조직과 유착이 심하여 종양을 절개하는데 어려움이 있었다. 이로 인해 종양 주변 조직으로부터 출혈이 있었으나 많은 양의 수혈은 필요하지않았다. 병리 소견에서 종양은 특징적인 비인두 혈관 섬유종의 소견을 보였고 혈관 내부와 간질에 응고된 혈액과 함께 부정형의 투명한 수술아교가 관찰되었다.

외래 추적 검사(10-32개월간)중 신경학적 장애가 있었던 환자는 없었다.

고 찰

유년형 비인두 혈관섬유종은 두경부 종양의 약 0.5% 정도를 차지하고 10대의 사춘기 남자에 호발되어 호르몬의 불균형이 발병 원인으로 생각되어지고 있다.

대부분 후비공의 상외측쪽에서 기시하여 익구개와를 넓히면서 커지는 양상을 보이거나 비인두 주위의 어느 곳에서나 발생할 수 있고, 점막하 조직을 따라 자라기 때문에 소엽상의 모양을 보인다. 비록 조직학적으로는 양성이라 할 지라도 혈관 분포가 높고 뚜렷한 피막이 없어 주변 조직으로 침습을 하면서 자라는 성질 때문에 비강, 부인두, 접형동, 사골동, 해면동 및 중두개와로 침습될 수 있다(2, 3, 8-10).

전형적인 섬유혈관종의 혈관촬영술 소견은 대부분 상악동맥

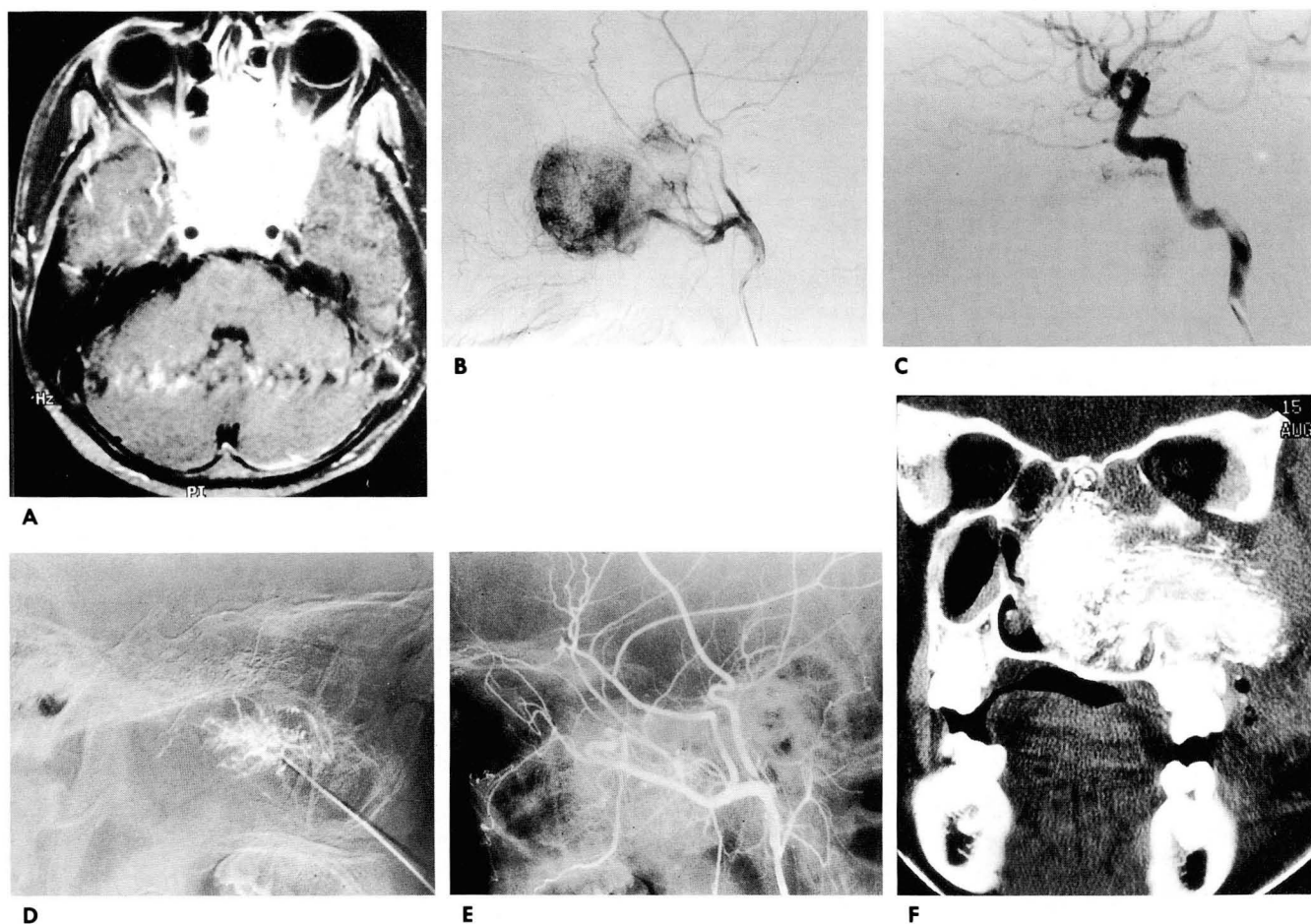


Fig. 2. Juvenile nasopharyngeal angiofibroma with cavernous sinus invasion.

A. Contrast enhanced MRI shows a highly enhancing tumor extending toward the cavernous sinus.

B. External carotid angiogram shows tumor blush fed by the internal maxillary and the ascending pharyngeal artery of the external carotid artery.

C. Internal carotid angiogram shows tumor staining supplied by the inferolateral trunk of the internal carotid artery.

D. A last hold fluoroscopic image after Glue injection into the tumor shows successful infiltration of Glue within tumor. The needle was introduced via nose.

E. External carotid arteriogram obtained after embolization shows no residual tumor blush with near total obliteration of the tumor vessels.

F. Postembolization CT : The cast of embolic material is well visualized within the entire mass.

Table 1. Summary of Direct Intratumoral Embolization in Juvenile Nasopharyngeal Angiofibromas with Skull Base Invasion.

Patients	Tumor extension	Vascular supply (ICA)	Puncture Site	Embolization(%)	Tumor removal(%)
1	CS, PPS	ILT	TN, SN	100	90
2	SS, PPS	ILT, MA	TN, SN	100	Total
3*	SS, ES	MA	TN	90	Total
4	ES, SS	ILT	TN	90	Total
5	MCF, PPS	ILT, MA	SN	100	Total
6	SS, PPS	MA	SN, TN	100	Total
7	CS, SS, PPS	ILT, MA	SN, TN	90	80
8	SS, PPS	ILT, MA	SN, TN	100	Total
9	ES, SS, PPS	ILT, MA	SN, TN	100	90

CS: cavernous sinus, PPS: parapharyngeal space, SS: sphenoid sinus, ES: ethmoid sinus, MCF: middle cranial fossa
 SN: mandibular sciatic notch, TN: Transnasal, MA: mandibular artery
 ILT: inferolateral trunk of internal carotid artery, 3*: recurred case

의 분지에서 공급을 받아 동정맥 단락과 정맥으로의 조기유출이 없는 종양 혈관이 지속되어 나타나는 특징적인 소견을 보이며 다른 외경동맥의 분지인 부 수막 동맥, 상행인두동맥 등에 의해서도 혈관 공급을 받을 수 있다. 두개 기저부 침습이 있는 경우 외경동맥 뿐 만 아니라 내경 동맥의 하악동맥, 내경동맥의 하외측방 동맥간, 피막 동맥, 또는 안동맥을 통해 받게된다(2, 3).

유년형 비인두 섬유혈관종은 특징적인 과혈관성 때문에 자라면서 출혈을 동반한 증상을 나타내고, 수술시 다량의 출혈이 있기 때문에 미세도관에 의한 섭식동맥을 선택도관하여 polyvinyl alcohol(PVA)와 같은 입자형 색전물질을 이용해 색전술을 시행한 후 수술하는 것이 일반적인 치료법으로 시행되고 있다(2, 4, 11). 그러나 두개 기저부 침습이 있는 경우 혈관내 색전술을 할 경우 내경동맥에서 분지하는 섭식동맥에 대하여 초선택도관 자체가 어려울 뿐만 아니라, 색전물이 내경동맥내로 유입되어 뇌경색의 위험성이 있어 색전술이 불완전할 수밖에 없다(5). 이런 경우 종양의 수술보다는 방사선 치료, 호르몬 치료, 전기 소작, 경화 요법 등을 실시하여왔으나 효과가 불분명하고 일시적으로 효과가 있다 하더라도 재발을 할 가능성이 많다(12-14). 수술 야고는 음이온과의 작용에 의해 혈액 혹은 이온화된 기질과 접촉하는 즉시 중합하여 조직에 유착을 일으켜 영구한 혈관 폐색의 효과가 있는 장점이 있어, 수술시 지혈목적이거나 뇌혈관기형 및 동정맥루등의 신경계의 중재적치료와 위장관의 출혈등에서 보편적으로 사용되고있다(15-18). 과혈관 병소 내의 혈류 속도에 따라 리피오투와 같은 지방성조영제와 혼합하면 중합 시간을 조절 할수 있기 때문에 병소내 혈관에만 국한하여 폐색효과를 얻을 수 있다. 미세도관을 이용하여 혈관을 통한 색전술을 시행하는 경우 섭식동맥을 초선택 도관이 어려울 경우가 있어 종양내 혈관에 국한하여 색전이 어려울 경우가 있고, 미세도관이 혈관내에서 유착될 가능성이 있으나 척추천자침을 이용하는 경우 쉽게 수술야고를 주입후 천자침을 빼어낼 수 있기 때문에 이러한 합병증을 확실히 없앨수 있다.

병변에 대해 직접천자후의 수술야고에 의한 색전술은 두개강

내와 두개강외의 부신경종, 혈관 외피세포종, 전이암과 같은 과혈관성종양 또는 혈관기형이 미세도관으로 선택도관이 어렵고 직접 천자가 가능할 때 적응대상이 되고 있다(2, 10).

Tranbabuy 등은 두개 강 내의 침습이 있는 유년형 비인두 혈관섬유종 환자 7명을 대상으로 수술 야고를 이용한 직접 종양내 색전술을 실시 하였으며 모든 환자에서 성공적으로 종양의 제거가 가능 하였으며 신경학적 장애가 남은 환자는 없었다고 보고 하였다. 이는 이들이 전에 36명의 유년형 비인두 혈관 섬유종 환자를 대상으로 실시하였던 혈관내 색전술 후 4명에서 신경학적 장애가 남았다는 보고와 좋은 대조가 된다(17).

종양의 위치가 비강, 인후부, 접, 사혈골동, 해면동등의 정중앙 구조물에 대한 천자는 매우 쉽고, 특히 저자들이 시행한 한 하악절흔을 통한 척추천자침 시도는 위험성있는 신경이나 혈관이 없어, 천자침의 방향을 조절하면 측두하와에서 구개 부위까지 안쪽으로는 익돌구개 와까지 접근이 가능하기 때문에 종양의 침습 부위를 거의 천자가 가능하다.

본 연구에서는 여러 번의 경피천자 때문에 전례에서 안면부종이 나타났는데 이는 14-16G와 같은 큰 바늘로 경로를 만든 후 내부로 보다 작은 바늘을 이용하여 glue를 주입하는 방법으로서 개선할수 있을 것이라 기대된다(19).

시술중 가장 우려하는 합병증은 종양내에서 수술야고를 주입시 내경동맥에서 기시하는 섭식동맥을 통하여 내경동맥으로 역류되는 것이나 소량의 색전물질을 방사선투시하여 조심스럽게 투입하기 때문에 가능성을 피할 수 있을 것 같다. 또한 섭식동맥이 굵어 역류가능성이 높으면 일시적으로 섭식동맥의 원위부의 내경동맥에 주입하는 동안 풍선을 위치시키면 확실히 합병증을 없앨 수 있을 것이다.

색전술 후에 수술시 간혹 종양과 주위 조직 사이에서 수술야고에 의한 유착이있어 종양을 적출하는데 약간의 어려움이 있었으나 이러한 문제점은 섭식동맥에 정확한 천자를 시행하고 가능하면 저 농도의 수술야고를 사용 함으로서 감소 시킬 수 있을것으로 고려된다.

결론적으로 비인두 혈관섬유종의 종양내 색전술의 장점은

첫째, 내경동맥내에서 미세도관의 조작과 색전물질의 주입 과정이 없기 때문에 뇌경색등의 합병증 가능성이 적다. 둘째, 혈관내에 뚜렷한 색전물질에 의해 고형화시키므로 색전 효과가 매우 우수해 수술시 출혈의 양을 줄일 수 있다. 셋째, 섭식동맥의 수가 매우 많거나, 섭식동맥에 대한 초선택도관이 어려울 때 특히 섭식동맥을 결찰을 한 환자에서 쉽게 색전술을 시행할 수 있다.

따라서 경피적 접근을 통한 종양내 수술야교를 이용한 색전술은 두개골 기저부 침습이 있는 유년형 비인두 혈관섬유종뿐만 아니라 섭식동맥이 미세도관의 접근이 어렵거나 주변에 위험한 혈관들이 분포하여 혈관을 통한 색전술이 불가능했던 과 혈관성종양이 경피적접근이 용이한 위치에 있을때 종양 제거 전 비교적 용이하고 효과적이고 안전한 방법이라고 보여진다.

참 고 문 헌

1. Deschler DG, Kaplan MJ, Boles R. Treatment of large juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 106: 278-284
2. Davis KR. Embolization of epistaxis and juvenile nasopharyngeal angiofibroma. *AJNR* 1986; 5: 953-962
3. Lasjaunias P, Picard L, Manelfe C, Moret J, Doyon D. Angiofibroma of the nasopharynx. *J Neuroradiol* 1980; 7: 73-95
4. Gracia CE, Ruffencht D, Thurel C. Preoperative embolization of nasopharyngeal angiofibroma. Report of 58 cases. *Neuroradiology* 1988; 30: 556-560
5. Lasjaunias P. Nasopharyngeal angiofibroma: Hazards fo embolization. *Radiology* 1980; 136: 119-123
6. Bernard G, Alfredo C, Dominique D. Intratumoral embolization of intracranial and extracranial tumors: Technical note. *Neurosurgery* 1994; 35: 771-774
7. Tran Ba Huy P, Borsik M, Herman P, Wassef M, Casasco A. Direct intratumoral embolization of juvenile angiofibroma. *Am J Otolaryngol* 1994; 15(6): 429-435
8. Peter MS, Hugh DC. *Head and neck imaging*. 3rd ed. St. Louis: Mosby, 1996: 600-602
9. Thomas HN, Anton NH. *Computed Tomography of the Head and Neck*. 1st ed. St. Louis: Raven, 1988: 7.6
10. Weinstein MA, Levine H, Duchesneau PM, Tucker H. Diagnosis of juvenile angiofibroma by computed tomography. *Radiology* 1978; 88: 613-618
11. Robertson GH, Price AC, Davis JM, Gulati A. Therapeutic embolization of juvenile angofibroma. *Am J Reontgenology* 1979; 133: 657-663
12. Fitzpatrick PJ, Rider WD. The radiotherapy of nasopharyngeal angiofibroma. *Radiology* 1973; 109: 171-178
13. Walkie JW, Mackay B. Nasopharyngeal angiofibroma: Light and elctron microscopic changes after stilbesterol therapy. *Laryngoscope* 1970; 80: 1109-1121
14. Smith MFW, Boles R, Work WP. Cryosurgical techniques in removal of Angiofibroma. *Laryngoscope* 1964; 74: 1071
15. Brothers MF, Kaufmann JCW, Fox AJ, Deveikis JP. N-butyl-2-cyanoacrylate-substit ute for IDCA in interventional neuroradiology: Histopatholgy and polymerization time studies. *AJNR* 1989; 10: 779-786
16. Bernstein AB, Krull R, Choi IS. Embolization with n-butyl cyanoacrylate in management of CNS lesion. *AJNR* 1989; 10: 883
17. Deburn G, Vinueln F, Fox AJ, et al. Embolization of cerebral arteriovenous malformations will bucrylate exprience in 46 cases. *J Neurosurg* 1982; 56: 615-627
18. Teng MM, Chen CC, Lirng JF, Lee LS, Chang T. N-butyl-2-cyanoacrylate for embolization of carotid aneurysm. *Neuroradiology* 1994; 36(2); 144-147
19. Casasco A, Herbreteau D, Houdart E, George B, et al. Devascularization of craniofacial tumors by percutaneous puncture. *AJNR* 15: 1233-1239, 1994

Juvenile Nasopharyngeal Angiofibroma with Skull Base Invasion : Intratumoral Direct Puncture Embolization¹

Shin Hye Young, M.D., Kim Sun Yong, M.D., Suh Jung Ho, M.D., Park Kee hyun, M.D.²

¹Department of Radiology Ajou University Hospital

²Department of ENT, Ajou University Hospital

Purpose: To demonstrate the utility and efficacy of percutaneous direct glue embolization for juvenile nasopharyngeal angiofibromas with skull base invasion.

Materials and Methods: In nine cases of juvenile nasopharyngeal angiofibromas with invasion of the skull base, embolization under general anesthesia was performed. Using an 18G spinal needle, direct puncture were made via the transnasal or mandibular sciatic notch. A glue-lipiodol mixture (1:1-1:3) was injected slowly for 15 to 30 seconds under fluoroscopic control; the number of injections depended on the size of the tumoral compartment. The results were evaluated by post-embolization angiography and the distribution of embolic materials was assessed on CT within 1-3 days. The mass was surgically removed 3 to 7 days after embolization.

Results: Postembolization angiography revealed total devascularization in six cases, and devascularization greater than 90% of the initial volume in the remaining three. The cast of the tumor was clearly demonstrated by the embolization material with increased density. Surgical removal was safely performed without significant bleeding. And no neurologic complications were observed.

Conclusion: Direct glue embolization of juvenile angiofibroma with skull base invasion appears to be a simple and safe procedure. The technique could be used for other hypervascular lesions in the base of the skull or parapharyngeal space.

Index words: Angiofibroma

Nose, neoplasms

Embolization, therapeutic

Address reprint requests to: Sun Yong, Kim, M.D., Department of Diagnostic Radiology, Ajou university, School of medicine
5, Won Chun-Dong, Paldal-Gu, Suwon, Kyunggi-Do, 442-749, Korea.
Tel. 82-331-219-5854 Fax. 82-331-219-5862