

## 2개월 영아에서 발생한 비강내 소엽성 모세혈관종

서울대학교 의과대학 이비인후과학교실

강용석 · 강 영 · 한두희

### A Case of 2-Month-Old Infant with Lobular Capillary Hemangioma

Yong Seok Kang, MD, Young Kang, MD and Doo Hee Han, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

Lobular capillary hemangioma (LCH) in the nasal cavity, previously known as pyogenic granuloma, is an extremely rare benign vascular tumor in infants. LCH is a rapidly growing lesion that has a bleeding tendency due to its excessive vascularity. The authors experienced a case of LCH of the nasal cavity in a 2-month-old infant that was totally resected via the endoscopic approach after preoperative embolization. Therefore, we report this case with a brief review of the literature.

**KEY WORDS:** Hemangioma · Hemangioma, lobular capillary · Embolization, therapeutic · Intranasal surgery.

## 서 론

소엽성 모세혈관종(lobular capillary hemangioma)은 대개 피부와 점막에 발생하며 빠르게 성장하고 쉽게 출혈하는 경향을 가진 양성 혈관성 질환으로 두정부 영역에서는 주로 두정부의 피부, 구순부, 구강 점막 등에 발생하며, 비강 내에는 상대적으로 드물게 발생한다.<sup>1)</sup> 모든 연령층에서 발생 가능하나 30대에서 흔하다고 알려져 있고 1세 미만의 영아에서는 거의 보고된 바가 없다.<sup>2)</sup> 이와 같은 혈관성 병변이 의심되면 혈관이 풍부한 병변의 특성상 조직검사는 대량 출혈 위험이 있어 시행하지 않는 것이 좋고, 전산화단층촬영 또는 자기공명영상, 경우에 따라 혈관 조영술을 통해 종양의 해부학적 위치, 범위, 혈관분포 및 주위 조직과의 관계를 확인해야 하며 수술을 계획한 경우 출혈을 최소화하기 위한 술전 색전술이 필요한 경우가 있다.<sup>3)</sup> 지금까지 여러 문헌에서 비강 내에 발생한 소엽성 모세혈관종에 대한 증례를 보고하였으

나, 1세 미만의 영아에서는 매우 드물었다. 최근 저자들은 2개월 영아의 좌측 비강내 소엽성 모세혈관종에 대해 술전 색전술을 시행한 후 내시경을 이용하여 성공적으로 치료하였고, 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

특별한 주산기 문제없이 만삭 정상체중(3.5 kg)으로 태어나 외상이나 다른 기형 등의 과거력이 없는 만 2개월 남아가 1개월 전부터 발생한 좌측 코막힘과 함께 숨쉴 때 소리가 거칠어지는 증상을 주소로 내원하였다. 당시 환아는 코골이가 급격히 증가하고, 구강섭취가 감소하였으나 비출혈, 농성비루 등의 증상은 호소하지 않았고, 국소적인 발열, 발적, 기타 전신 증상은 없었다. 신체검진에서 안면이나 외비의 이상은 관찰되지 않았으나(Fig. 1A), 비내시경 소견에서 좌측 비강을 가득 채우는 비강내 종물이 관찰되었다(Fig. 1B). 이에 외

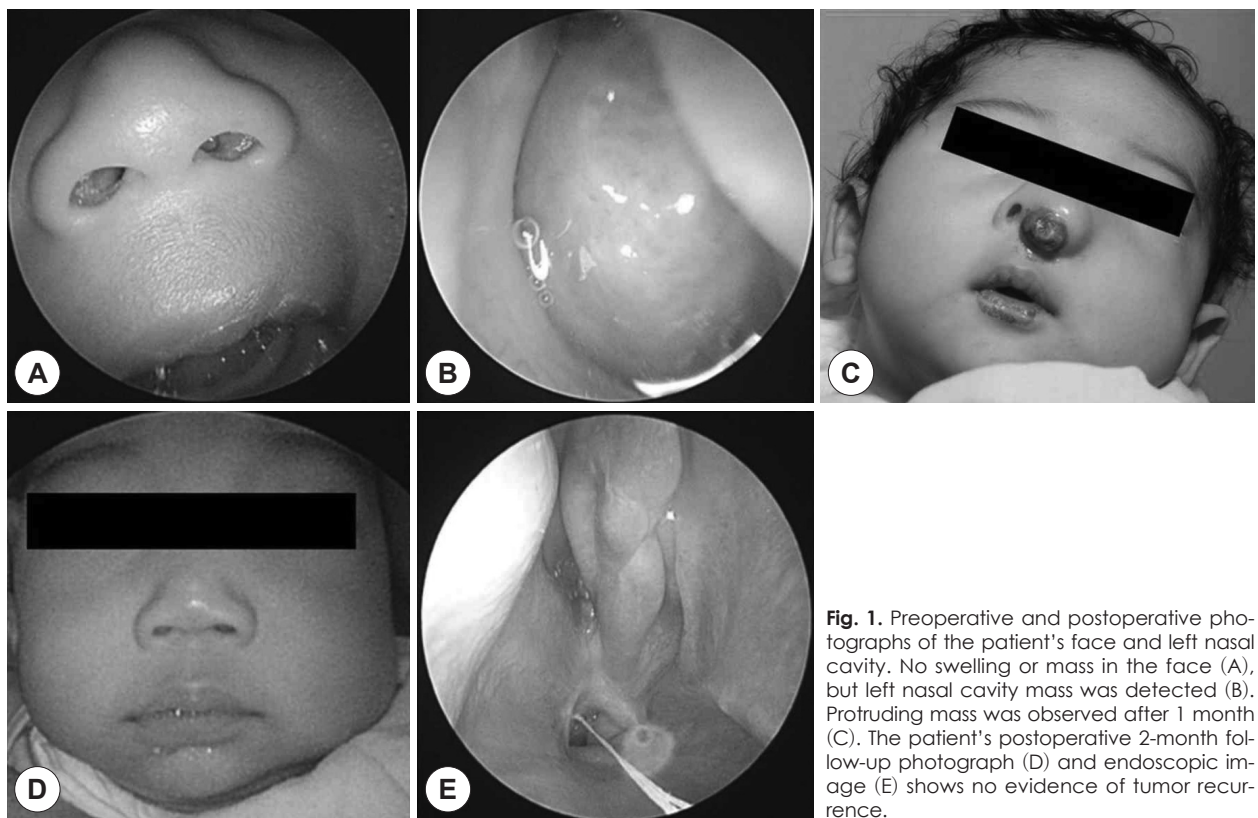
논문접수일: 2017년 8월 16일 / 수정완료일: 2017년 9월 13일 / 심사완료일: 2017년 9월 19일

교신저자: 한두희, 03080 서울 종로구 대학로 101 서울대학교 의과대학 이비인후과학교실

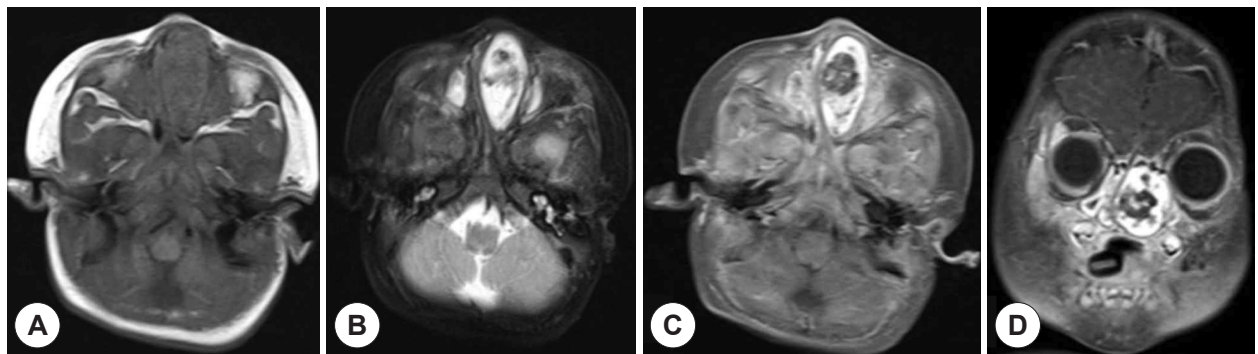
Tel: +82-2-2072- 4038, Fax: +82-2-766-2447, E-mail: handh@snu.ac.kr

래에서 방사선 노출을 최소화하기 위해 자기공명영상을 계획하였다. 예정된 자기공명영상촬영을 기다리던 중, 환아는 좌측 비출혈을 주소로 응급실에 내원하였고 당시 혈색소 수치는 8.2 g/dL였다. 환아는 응급실에서 자기공명영상을 시행하였고 자기공명영상에서 약 4×2.4 cm 크기의 T1에서 저신호강도, T2에서 고신호강도, 조영증강 T1 영상에서 조영증강 소견을 보이는 좌측 비강내 종양이 관찰되었고(Fig. 2), 감별진단으로 기형종, 혈관종을 생각하였다. 이후 수술일정을 기다리던 중 환아는 2주일 사이에 2회 반복되는 좌측 비출혈로 응급실 내원하였고 마지막 응급실 내원시 혈색소

수치는 7.2 g/dL였다. 이에 좌측 비강내 혈관종 의심하에 응급수술을 결정하였으며 수술 직전 환아의 비강 밖으로 돌출되는 종양이 관찰되었다(Fig. 1C). 전산화단층촬영을 시행하였고 종양의 크기가 5.2×3 cm으로 이전에 비해 증가한 것을 확인하였다(Fig. 3). 수술 전 출혈을 최소화하기 위해 수술 당일 오전 전신마취하 혈관조영술을 시행하였고 좌측 비강에 과혈관성 종괴를 확인하고 좌측 내상악동맥(left internal maxillary artery)의 원위부를 정밀선택(superselection)한 후, polyvinyl alcohol particle(PVA) 150~250  $\mu$ m을 사용하여 색전술을 시행하고 이후 좌측 내상악동맥을 통한 혈관공급이



**Fig. 1.** Preoperative and postoperative photographs of the patient's face and left nasal cavity. No swelling or mass in the face (A), but left nasal cavity mass was detected (B). Protruding mass was observed after 1 month (C). The patient's postoperative 2-month follow-up photograph (D) and endoscopic image (E) shows no evidence of tumor recurrence.

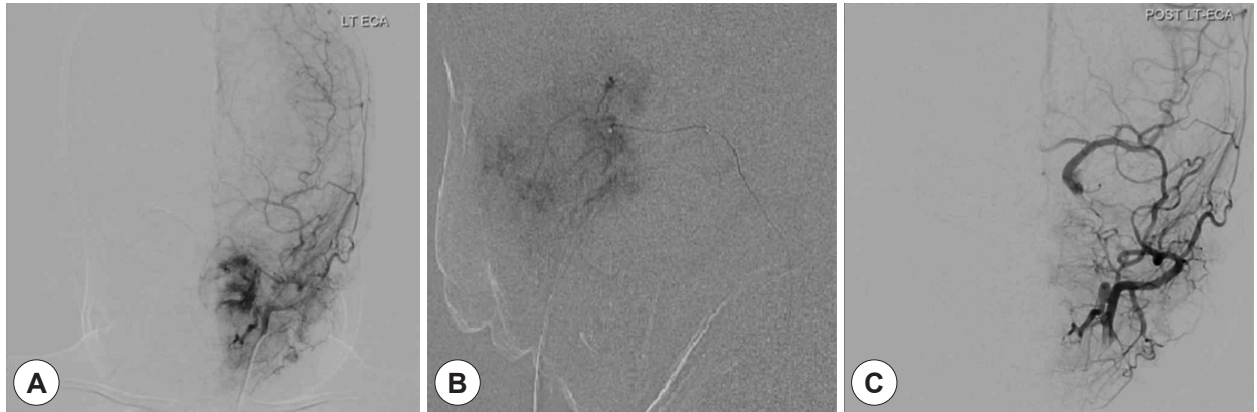
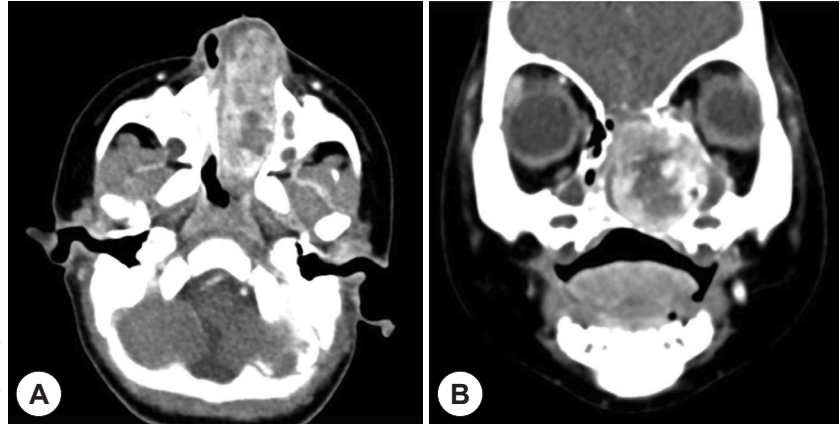


**Fig. 2.** MRI reveals that 4×2.4 cm sized T1 low signal (A), T2 high signal (B), enhancing T1 axial (C) and coronal (D) mass in left nasal cavity.

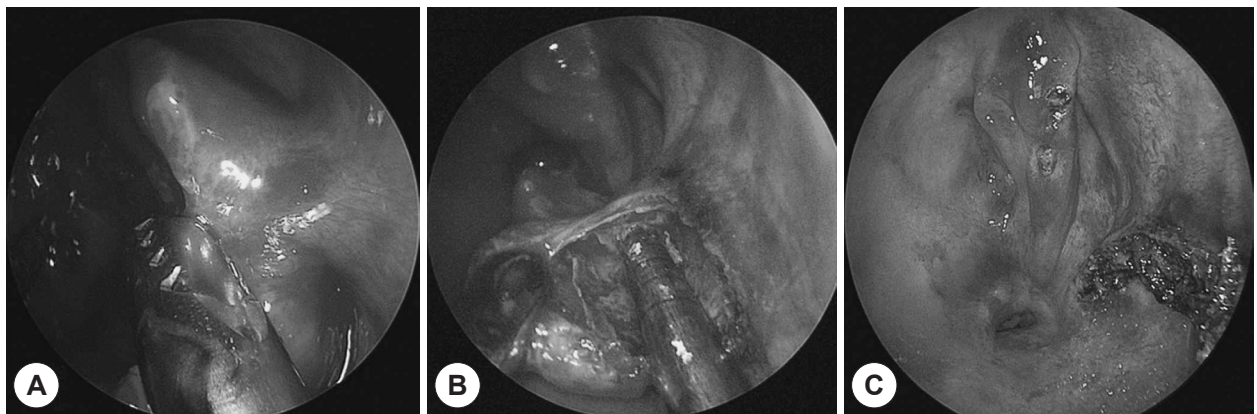
되지 않는 것을 확인하였다(Fig. 4). 시술 중 환아에서 혈전 색전 문제나 신경학적 이상은 발생하지 않았다. 이후 환아는 바로 수술장으로 이동하여 내시경적 종괴제거술을 시행하였다. 수술 중 심한 출혈 소견없이 미세절삭기(microdebrider)를 이용해서 내부 용적감소술을 시행하였으며, 이후 종양의

기시부를 확인한 후 종양에 대한 완전 절제를 시행하였다(Fig. 5). 종양의 기시부는 좌측 하비갑개에 해당하였고, 조직검사 결과 혈관 주위세포들과 망상 섬유질들로 둘러싸인 모세혈관 크기의 많은 혈관이 서로 소엽성으로 모인 모양을 보이고, 면역조직화학검사에서 CD-31에 양성, glucose

**Fig. 3.** Preoperative CT [Axial (A) and coronal (B) image] shows increased size (5.2×3 cm) of well-defined heterogeneous enhancing mass in the left nasal cavity.

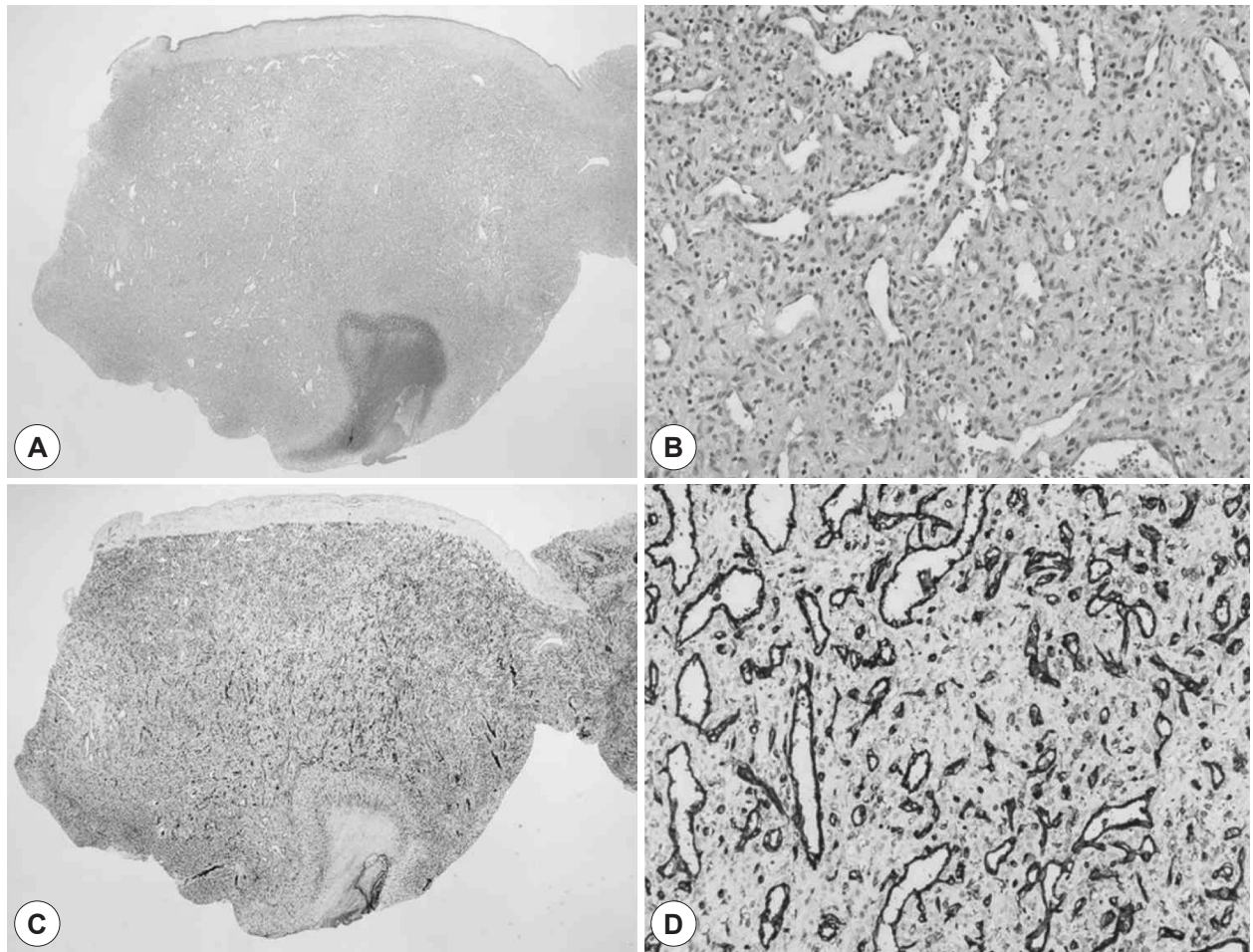


**Fig. 4.** Preoperative transfemoral cerebral angiogram (TFCA) and tumor embolization. The picture (A) is pre-procedure image which shows hypervascular lesion on the left nasal cavity. The picture (B) is the photo under the procedure which contrast media and embolization material is mixed and injected at the same time. The picture (C) is post-procedure image and shows devascularization of the tumor.



**Fig. 5.** Intraoperative endoscopic photographs. During the operation, the mass is well encapsulated and internal decompression performed using microdebrider (A). Tumor and origin site are totally resected (B). After the operation, grossly no tumor is observed (C).





**Fig. 6.** Histopathologic findings of the excised mass. Thin epidermis at top with variable ulceration and lobular pattern (A) of vascular proliferation with inflammation and edema resembling granulation tissue (B) are noted. Immunohistochemical staining for CD31 reveals positivity in the endothelium of the vessels (C), (D) [original magnification  $\times 12.5$  (A), (C) and  $\times 400$  (B and D)].

transporter protein isoform 1(GLUT1)에 음성 소견을 보여 소엽성 모세혈관종(lobular capillary hemangioma)에 합당한 소견을 보였다(Fig. 6). 환아의 수술 직전 혈색소수치는 10.2 g/dL이었고 수술 중 추정 혈액 손실은 300 mL, 수술중 혈색소수치는 7.5 g/dL로 적혈구 수혈 1팩을 시행하였고 수술 다음날 혈색소수치는 13.3 g/dL이었다. 환아는 수술 3일 후 특별한 합병증 없이 퇴원하였고, 수술 2개월째 특이소견은 없었으며(Fig. 1D and E), 현재 외래 추적 관찰 1년째로 재발소견은 관찰되지 않고 있다.

## 고 찰

소엽성 모세혈관종은 피부와 점막에서 발생하는 양성 혈관증식성 종양으로 1897년 Poncet 등이 처음으로 인간 포도상구균감염증으로 보고하였고, 1904년 Hartzell이 화농성 육

아종으로 명명한 후 오랫동안 사용되었다가 1980년 Mills 등이 다시 조직소견을 검토한 후 모세혈관의 뚜렷한 소엽성 증식을 확인하고 소엽성 모세혈관종으로 부를 것을 제안하였다.<sup>4)</sup> 본 증례에서는 조직검사 결과 혈관 주위세포들과 망상섬유질들로 둘러싸인 모세혈관 크기의 많은 혈관이 서로 소엽성으로 모인 양상을 확인하였고, 면역조직화학검사에서 혈관형성면역표지자인 CD-31에 특이적으로 양성 소견을 나타냈으며, GLUT1 염색에서 음성 소견을 보여 다른 혈관종과도 감별할 수 있었다.<sup>5)</sup>

소엽성 모세혈관종의 발생 기전은 정확히 규명되어 있지 않으나 혈관내피세포가 조절되지 않는 과분열과 증식을 일으키는 것으로 생각되며 외상성 요인과 호르몬 유발 요인이 관련된다는 가설이 있다.<sup>6)</sup> 에스트로겐과 프로게스테론의 순환 농도와 연관이 있다는 보고도 있고,<sup>7)</sup> 임신과 관련하여 발생한 경우도 있다.<sup>8)</sup> 소엽성 모세혈관종은 모든 연령층에서

발생가능하다고 알려져 있으나 60%가 11세에서 40세 사이에 발생하며 30대에서 발생이 가장 흔하고 본 증례와 같이 1세 미만의 영아에서 비강내 발생은 매우 드물다.<sup>9)</sup> 발생부위는 전신에 나타날 수 있으나 구강내 점막이 가장 호발부위이고 본 증례와 같은 비강내 발생은 상대적으로 드물다. 비강에서 발생한 경우 대부분 혈관 분포가 많은 비중격 전방 또는 증례에서와 같이 하비갑개에서 발생하는 경우도 있다.<sup>10)</sup> 주로 호소하는 증상은 비출혈과 코막힘이며, 크기는 수 mm에서 수 cm으로 다양하다.<sup>11)</sup>

비내시경 검사에서 적색의 혈관증식성 종물의 형태로 관찰되는 경우 소엽성 모세혈관종을 의심할 수 있고, 비내시경 검사, 전산화단층촬영, 자기공명영상촬영, 혈관조영검사 등을 통하여 수술 전 추정할 수 있으며, 확진은 수술 후 조직검사를 통해서 가능하다. 전산화단층촬영에서는 조영증강을 보이는 종괴로 관찰되며 자기공명영상에서는 T2 영상에서 고신호강도, T1영상에서 저신호강도를 보이고 조영증강 T1 영상에서 조영증강 소견을 보이며, 혈관조영술에서 종양내 모세소엽 증강이 관찰된다.<sup>12)</sup> 감별진단으로 다른 혈관증식성 병변으로 혈관종, 혈관 섬유종, 혈관성 폴립, 기질화 혈종, 부신경절종, 혈관주위세포종, 혈관 육종, 악성 혈관내피종 등을 생각할 수 있다. 비강내 소엽성 모세혈관종의 치료는 병변의 완전한 절제로 가능하며 크기가 클 경우 완전 절제가 어려운 경우가 있어 이러한 경우 재발의 원인이 되고, 재발시에는 재절제로 치유되는 경우가 많다고 알려져 있다.<sup>5)</sup> 또한, 수술시 대량 출혈이 예상되는 경우 혈관조영술 및 수술 전 색전술을 시행하는 것이 수술 중 출혈을 줄이고 수술 시야를 확보하는데 도움이 되며, 색전술에 사용되는 재료로는 본 증례에서와 같이 polyvinyl alcohol(PVA)를 사용하거나 gelfoam, histoacryl, microcoil 등을 사용할 수 있다.<sup>13)</sup>

저자들은 상당한 크기의 혈관성 종양을 가진 만 2개월 영아에서도 전신마취하 혈관조영술 및 색전술을 시행한 이후 안전하게 비내시경 수술을 통해 혈관종을 제거하였기에 문

헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

**중심 단어 :** 혈관종 · 소엽성 모세혈관종 · 색전술 · 비내시경수술.

## REFERENCES

- 1) Mills SE, Cooper PH, Fechner RE. Lobular capillary hemangioma: the underlying lesion of pyogenic granuloma. A study of 73 cases from the oral and nasal mucous membranes. *Am J Surg Pathol* 1980;4(5):470-9.
- 2) el-Sayed Y, al-Serhani A. Lobular capillary haemangioma (pyogenic granuloma) of the nose. *J Laryngol Otol* 1997;111(10):941-5.
- 3) Lee JY, Koh ES. A case of cavernous hemangioma originating from the posterior end of inferior turbinate misdiagnosed as the nasopharyngeal anagiofibroma. *J Rhinol* 2007;14(1):60-4.
- 4) Kim NY, Choi SM, Kim CH. Lobular capillary hemangioma (Pyogenic Granuloma). *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1994;37(6):1293-7.
- 5) van Vugt LJ, van der Vleuten CJM, Flucke U, Blokx WAM. The utility of GLUT1 as a diagnostic marker in cutaneous vascular anomalies: A review of literature and recommendations for daily practice. *Pathol Res Pract* 2017;213(6):591-7.
- 6) Park SK, Cho HW, Jang SH, Park CK. Clinical study of lobular capillary hemangioma in nasal cavity. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43(4):402-5.
- 7) Lance E, Schatz C, Nach R, Thomas P. Pyogenic granuloma gravidarum of the nasal fossa: CT features. *J Comput Assist Tomogr* 1992;16(4):663-4.
- 8) Kim KJ, Kim TY, Kim YH, Jang TY. A case of giant nasal lobular capillary hemangioma during pregnancy. *J Rhinol* 2011;18(2):142-5.
- 9) Leyden JJ, Master GH. Oral cavity pyogenic granuloma. *Arch Dermatol* 1973;108(2):226-8.
- 10) Park MJ, Ko B, Han EM, Sohn JH. A case of multiple lobular capillary hemangiomas of the nasal septum. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2015;58(6):421-4.
- 11) Katori H, Tsukuda M. Lobular capillary hemangioma of the nasal cavity in child. *Auris Nasus Larynx* 2005;32(2):185-8.
- 12) Kim JH, Park SW, Kim SC, Lim MK, Jang TY, Kim YJ, et al. Computed tomography and magnetic resonance imaging findings of nasal cavity hemangiomas according to histological type. *Korean J Radiol* 2015;16(3):566-74.
- 13) Chang DS, Choi MS, Lee HY, Cho CS, Park SG, Park NS, et al. Clinical study of the intranasal hemangioma. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2015;58(5):324-9.