

척골 신경 내에 발생한 혈관종

Intraneural Hemangioma of the Ulnar Nerve

김태균 • 최병산 • 강홍제 • 노성현

원광대학교 의과대학 정형외과학교실

신경 내에 혈관종은 매우 드물게 보고된다. 이에 척골 신경내에 발생한 혈관종을 현미경적 탐색술 및 절제술 후, 합병증 없이 치료됨을 경험하였기에 보고하고자 한다.

색인단어: 혈관종, 척골 신경, 말초 신경 내 혈관종

혈관종은 조직학적으로 그 기원이 불분명하나 혈관 조직의 과오종(hamartoma)이나 신생종(neoplasm)으로 여겨지고 있다. 여성에게 흔하고, 출생 시나 어린 연령에서부터 시작하며, 증식 속도는 일반적으로 신체 성장의 종료와 함께 감소하는 것이 보통이고, 근육과 골을 포함한 모든 조직에서 발생하는 흔한 종양이다.^{1,2)}

신경 조직에 발생한 혈관종 특히, 척골 신경에 발생한 혈관종의 보고는 매우 드물어 본원에서 이를 경험하였기에 보고한다.

증례보고

58세 여자 환자로 좌측 손목 수장측의 종괴로 외래 통해 내원하였다. 종괴는 약 10년 전부터 발생하여 서서히 커졌다고 한다. 이학적 검사상, 부드럽고 등그런 모양으로 크기는 2×1.5 cm 이었고, 유동성 및 압통은 없었으며, 이상 감각 및 운동 기능의 저하도 없었고, 티넬 징후(tinel sign)도 없었다. 단순 방사선 검사상 요수근 관절 부위에 점상의 석회화 소견을 보였고(Fig. 1), 컴퓨터 단층 촬영에서 요수근 관절 부위의 수장 외측으로 경계가 명확하며 내부에 비균질성 조영 증강 및 석회화 소견의 종괴가 있었으며, 종괴는 척골 동맥을 요측으로 편향시키고 있었다(Fig. 2).

전신 마취하에 탐색술을 시행한 결과, 척골 신경내에서 2×1.5

×1 cm의 암적색 종괴 소견이 관찰되었고, 척골 신경의 신경속은 종괴에 의해 양쪽으로 나뉘어 늘어나 있었다(Fig. 3A). 현미경하에 미세 수술 기구를 이용하여 신경속의 손상을 최소화하면서 박리하고, 종괴를 제거하였다(Fig. 3B). 절편된 종괴는 조직학적으로 모세혈관형과 해면형이 혼재된 혈관종 소견을 보였고, 신경속은 관찰되지 않았다(Fig. 3C). S-100 protein에 대한 면역염색결과 붉게 염색된 부분이 없이 음성으로 나타났고, 박리된 조직에 정상 신경 조직은 보이지 않았다(Fig. 4).

술 후 발생한 신경학적 증상은 없었으며, 단순 방사선 검사상



Figure 1. Plain radiographs of the left wrist of a 58-year-old woman show numerous irregular shaped phleboliths.

접수일 2010년 8월 23일 게재확정일 2011년 3월 28일

교신저자 최병산

전북 익산시 신웅동 344-2번지, 원광대학교 의과대학 정형외과학교실

TEL 063-859-1360, FAX 063-852-9329

E-mail bhinder@hanmail.net

*본 논문은 2010년도 원광대학병원의 임상연구비의 지원을 받아 이루어졌음.

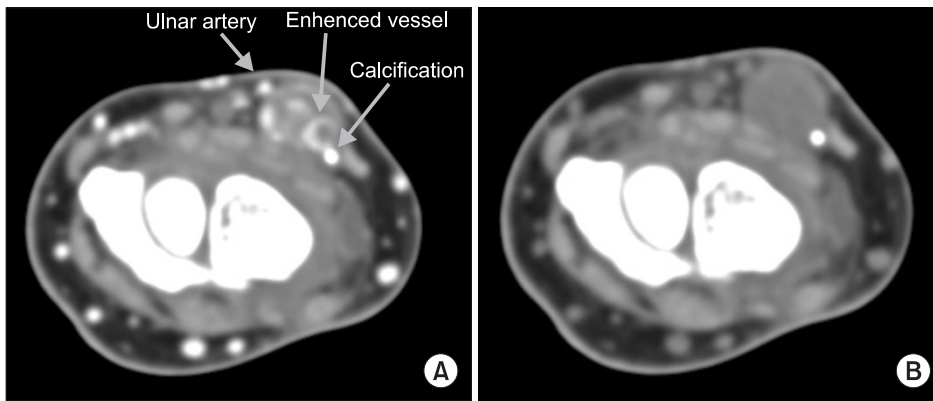


Figure 2. Enhanced computed tomographs demonstrate an oval shaped mass with enhanced vessels and calcifications adjacent to the ulnar artery.



Figure 3. Clinical photographs. (A) A well capsulated cystic mass divides ulnar nerve into halves and deviates ulnar artery radially. (B) Removed specimen. (C) The cystic mass is 2×1.5×1.5 cm in proximal-distal, mediolateral and anterioposteriorly respectively.

석회화 소견은 사라졌고, 환자는 종괴의 제거됨에 만족 하였으며, 외래 추시상 합병증은 없었다.

고 찰

연부 조직의 양성 혈관성 증식은 두 가지로 분류될 수 있는데, 하나는 모든 연부조직 종양의 약 7%를 차지하고 전 생애에 존재할 수 있으며 성장 잠재성(growth potential)이 제한적인 혈관종이 이고, 다른 하나는 태어날 때부터 발생하는 혈관의 형성이상으로 성장함에 따라 커지고 저절로 사라지지는 않는 혈관 기형이 이다.³⁾

혈관종은 대부분 두경부의 표층 연부조직에 호발하나, 간, 골격근, 활액막, 신경 등의 심층 연부조직에도 발생하는데,⁴⁾ 말초 신경 내 혈관종은 매우 드물고, 여러 종류의 혈관 증식으로 발생하는 중배엽성(mesodermal), 흑아세포성(melanoblastic) 양성 종양이다.⁵⁾

말초 신경에는 외막과 주막 및 내막의 세 층 모두에 혈관 망이 잘 형성되어 있고, 이중 외막(epineurium)은 지방조직으로 둘러 쌓여 있고 바깥 면에 세로로 달리는 혈관이 잘 발달되어 있는데, 말초 신경내 혈관종은 신경 안이나 신경 외피(sleeve)에서 발생하고, 실질적으로는 신경속 혈관(vasa nervorum)에서 기원한다.⁴⁾ 말초 신경 내 혈관종은 다양한 크기로 나타나고 국소적 통증을 보

이나, 감각이나 운동의 이상을 보이는 경우는 드물다.⁴⁾

말초 신경 내 혈관종과 감별해야 될 것으로 신경초종(Schwannoma), 사구종(glomus tumor), 혈관평활근종(angioleiomyoma) 및 신경 내 지방종(intraneural lipoma), 섬유지방 과오종(lipofibrous hamartoma), 결절낭종(ganglion cyst) 등의 양성 신경내 종양(intraneural benign tumor), 활막성육종(synovial sarcoma) 등의 악성 신경 내 종양(intraneural malignant tumors) 그리고 외상 후 혈종(posttraumatic hematoma) 등이 있다.^{1,4,6)}

혈관종의 진단 방법으로는 초음파와 자기공명 영상촬영 그리고 컴퓨터 단층촬영이 있다. 초음파는 경제적인 면이나 환자의 순응도가 좋으며, 주변의 삽입물(implant)에 의한 인위적 왜곡(artifact)이 발생할 경우, 재발이 의심되는 경우, 혈관 분포를 함께 조사할 수 있다는 유용성이 있으나 시술자에 의존적이고, 병기 측정과 진단에 기본 검사로 사용할 수 없으며, 악성과 양성의 고형종(solid tumor)을 구분할 수 없고, 근육 파열이나 혈종을 종양으로 잘 못 판단할 수 있다는 단점이 있다. 자기공명영상은 매우 유용한 방법으로 지방층을 억제하여 배열(fat suppression sequence)된 T1 & T2에서 고강도 신호(hyperintense signal)를 나타내고, T2에서 정맥 결석(phleboliths)을 보이기도 하며 영양 혈관(feeding vessel)이 보일 때도 있고, Gadolinium으로 조영 증강되는 소견을 보인다.⁴⁾ 컴퓨터 단층촬영에서는 열공(lacunar)이 있는 고형종

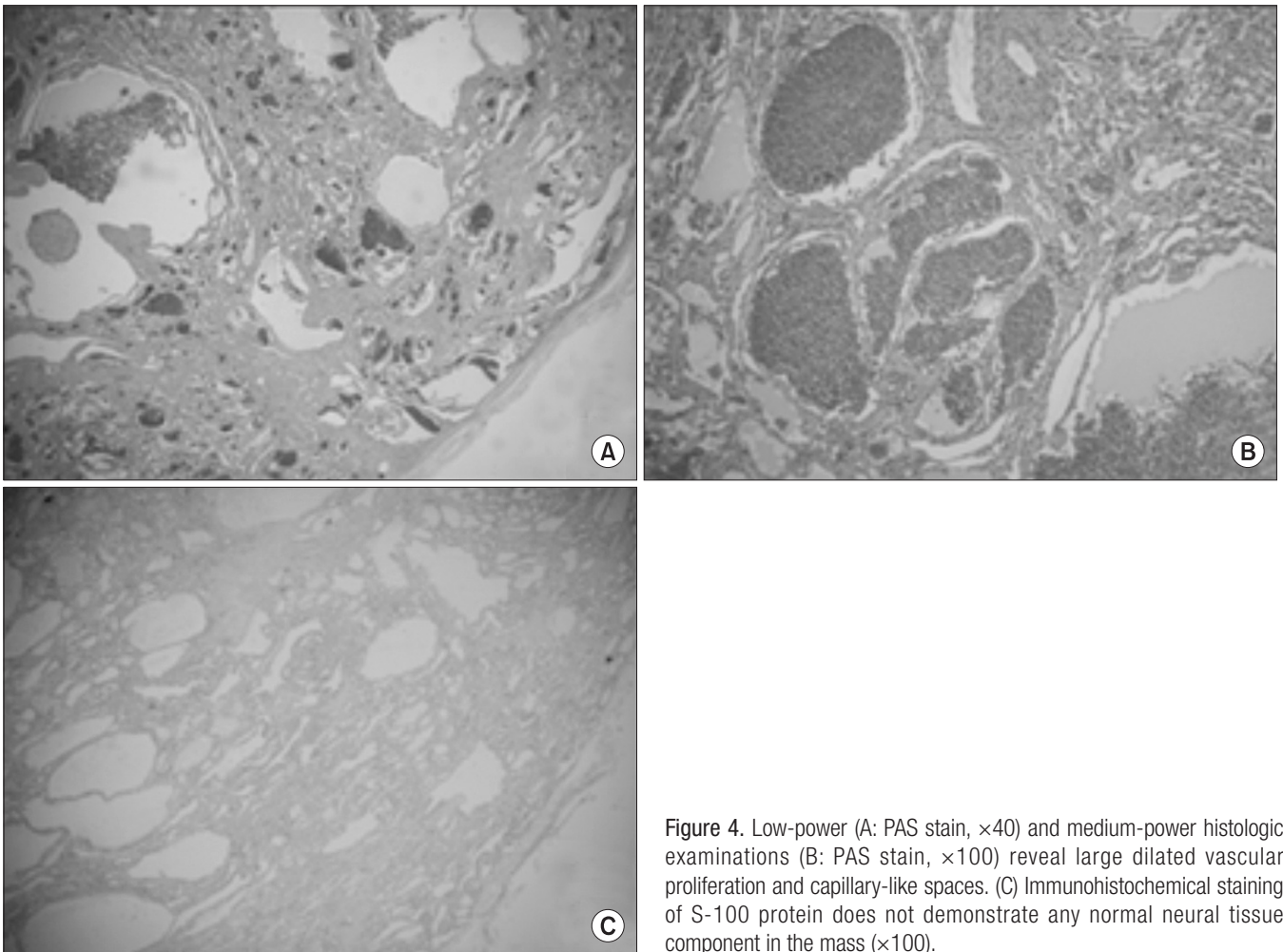


Figure 4. Low-power (A: PAS stain, $\times 40$) and medium-power histologic examinations (B: PAS stain, $\times 100$) reveal large dilated vascular proliferation and capillary-like spaces. (C) Immunohistochemical staining of S-100 protein does not demonstrate any normal neural tissue component in the mass ($\times 100$).

(solid tumor), 환형으로 조영증강(ring shaped contrast enhancement)되는 신경초종(neurilemmoma), 섬유 지방종(fibrolipoma)에서 고형, 연부 조직과 지방조직 사이의 경계를 보이는 것에 대한 구분이 가능하다.⁷⁾

Kim 등⁸⁾에 의하면 병변의 정확한 부위를 찾기 위해서 압박성 신경증을 보이는 신경 내 다발성 혈관종에서 초음파(ultrasonography)와 전기적 진단(electrodiagnosis)의 동시 사용은 매우 유용하다고 하였다.

말초 신경 내 혈관종의 치료로 미세 수술적 박리(Microsurgical dissection)는 재발을 줄이고 신경 다발(nerve fascicle)의 의인성 손상(iatrogenic injury)을 줄일 수 있는데, Kon과 Schellekens 등⁹⁾에 의하면 신경내 혈관종(intraneural hemangioma)의 미세수술기법(microsurgical technique)은 신경 다발(nerve fascicles)에 최소한의 손상을 주는 유용한 방법이나 재발의 가능성을 항상 고려해야 하고, 따라서 신경을 절제와 신경 이식술을 시행함으로써 재발을 줄일 수 있다고 하였다. 이 때 신경 재생(nerve regeneration)이 비교적 잘 일어나는 젊은 환자에서는 신경 절제 및 이식술이 유용하고, 고령의 환자에서 신경 다발 내 박리(interfascicular nerve

dissection)로 신경을 보호해야 하며 신경증상이 있으면서 재발 시에는 신경 절제 및 이식술이 유용하다고 하였다.

Mestdagh 등¹⁰⁾은 신경의 연속적인 전도성을 유지하기 위해서 현미경적 신경 다발 내 박리술(intrafascicular microscopic dissection)을 시행하여야 하며, 만약 운동 신경에 장애가 있도록 박리되었다면 신경 절제 및 이식술이 필수적이며, 단지 감각 신경에 장애가 있다면 신경 절제술만으로 충분하다고 하였다.

본 환자의 경우 술 전 신경학적 증상이 없었다는 점과 나이 그리고 처음 수술 받았다는 점 등을 고려하여 현미경적 신경 다발 내 박리술(microscopic interfascicular dissection)을 시행하였고, 술 후 18개월의 추시 상 재발은 없었다. 그러나 이후 재발 여부에 대해 추시 관찰이 필요할 것으로 생각된다.

결론

신경학적 증상이 없는 상지의 종괴시에도 신경 내 혈관종을 고려해야 되고, 말초 신경 내 혈관종의 치료 시에는 나이 및 재발 여부 고려하여 신경 다발 내 박리(interfascicular nerve dissection)를 할

것인지 신경 절제 및 이식술을 시행할 것인지 결정하여 적절한 치료를 하여야 한다.

참고문헌

1. Weiss SW, Goldman JR, Enzinger FM. Enzinger and Weiss's soft tissue tumor. St Louis. 4th ed. Mosby; 2002. 1-26.
2. Lee SH, Shin KH, Yang WI, Suh JS, Hahn SB. Surgical treatment of hemangioma in the extremities. J Korean Orthop Assoc. 2004;39:215-21.
3. Vilanova JC, Barceló J, Smirniotopoulos JG, et al. Hemangioma from head to toe: MR imaging with pathologic correlation. Radiographics. 2004;24:367-85.
4. Papagelopoulos PJ, Mavrogenis AF, Skarpidi E, Nikolaou I, Soucacos PN. A 56-year-old woman with a right arm mass. Clin Orthop Relat Res. 2008;466:2892-8.
5. Kerimoglu U, Uzumcugil A, Yilmaz G, Ayvaz M, Leblebicioğlu G, Altinok G. Intraneural hemangioma of digital nerve diagnosed with MR imaging. Skeletal Radiol. 2007;36:157-60.
6. Louis DS, Hankin FM. Benign nerve tumors of the upper extremity. Bull N Y Acad Med. 1985;61:611-20.
7. Feyerabend T, Schmitt R, Lanz U, Warmuth-Metz M. CT morphology of benign median nerve tumors. Report of three cases and a review. Acta Radiol. 1990;31:23-5.
8. Kim DH, Kang JW, Park JW. Multilevel ulnar neuropathy caused by multiple intraneural hemangiomas. Muscle Nerve. 2010;41:562-6.
9. Kon M, Schellekens PPA. Intraneural hemangioma of the ulnar nerve at the wrist. Eur J Plast Surg. 1993;16:242-4.
10. Mestdagh H, Lecomte-Houcke M, Reyford H. Intraneural haemangioma of the posterior tibial nerve. J Bone Joint Surg Br. 1990;72:323-4.

Intraneural Hemangioma of the Ulnar Nerve

Tae Kyun Kim, M.D., Byong San Choi, M.D., Hong Jae Kang, M.D., and Sung Hyun No, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine, Wonkwang University, Iksan, Korea

An intraneural hemangioma is an extremely rare condition. We report here on an intraneural hemangioma of the ulnar nerve. Microscopic exploration and excision of the lesion resulted in complete relief of the patient's symptoms.

Key words: intraneural hemangioma, ulnar nerve, microscopic excision

Received August 23, 2010 **Accepted** March 28, 2011

Correspondence to: Byong San Choi, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine, Wonkwang University, 344-2, Shinyong-dong, Iksan 570-749, Korea

TEL: +82-63-859-1360 **FAX:** +82-63-852-9329 **E-mail:** bhinder@hanmail.net