

간내 담도암으로 오인된 간의 경화성 혈관종 1예

대구 파티마병원 소화기내과, 외과*, 영상의학과[†], 병리과[‡]

박상만 · 신승민 · 서향은 · 김세환 · 김현수 · 박종훈* · 김장호[†] · 손경락[‡]

A Case of Sclerosed Hemangioma Mimicking Intrahepatic Cholangiocarcinoma

Sang Man Park, M.D., Seung Min Shin, M.D., Hyang Eun Seo, M.D.,
Se Hwan Kim, M.D., Hyun Soo Kim, M.D., Jong Hun Park, M.D.*,
Jang Ho Kim, M.D.[†], and Kyung Rak Sohn, M.D.[‡]

Departments of Gastroenterology, General Surgery*, Radiology[†] and Pathology[‡], Fatima Hospital, Daegu, Korea

Hemangioma is one of the most frequently encountered benign hepatic neoplasm which can develop secondary degeneration. Sclerosed hemangioma is a rare disease histologically characterized by large amount of collagen and elastic fibril between sclerosed small vessels. Its differential diagnosis is very difficult. It should be included in the differential diagnosis of other hepatic lesions such as hepatocellular carcinoma, intrahepatic cholangiocarcinoma, and metastatic hepatic tumor. A 77-year old male was admitted with upper abdominal discomfort. Abdominal ultrasonography revealed GB stone, dilated common bile duct with bile duct stone, and a 4.6 cm sized hyperechoic mass at segment 5 and 6 of the liver. Abdominal dynamic computed tomography demonstrated dilated intrahepatic bile ducts and a 5×5 cm sized mass which showed minimally delayed enhancement. Abdominal magnetic resonance imaging revealed the mass with low signal intensity in T1 weighted image, high signal intensity and focal low signal in T2 weighted image which showed minimal enhancement. We removed common bile duct stone with endoscopic retrograde cholangiopancreatography then decided to undergo right lower segmentectomy of liver due to possibility of cholangiocarcinoma. Histopathological examination of hepatic mass showed large amount of fibrous tissue with occasional residual vascular channels. We describe one case of sclerosed hemangioma mimicking cholangiocarcinoma. (Korean J Gastroenterol 2009;54:399-403)

Key Words: Hemangioma; Sclerosed hemangioma

서 론

간의 혈관종은 가장 흔히 발생하는 간의 원발 종양으로써 시간이 지나면서 일부분이 이차적인 변성, 즉 유리질 변화, 혈전, 경화, 괴사, 석회화 등을 보일 수 있으며 드물게는 이러한 과정의 마지막 단계인 섬유화 반흔을 형성하게 되는데

이러한 상태를 경화성 혈관종(sclerosed hemangioma)이라고 한다. 경화성 혈관종은 매우 드문 혈관종으로 조직학적으로 경화된 작은 혈관들 사이에 많은 양의 콜라겐 조직과 탄성 섬유가 있는 것이 특징이다. 혈관종은 복부전산화단층촬영 소견에서 종양 내에 혈액이 점진적으로 지연 조영되는 특징적인 소견을 가지고 있어서 다른 간내 종양과의 감별이 비

접수: 2009년 8월 5일, 승인: 2009년 8월 21일
연락처: 서향은, 701-010, 대구시 동구 신암동 576-31
대구 파티마병원 소화기내과
Tel: (053) 940-7460, Fax: (053) 953-7417
E-mail: murmpyo@yahoo.co.kr

Correspondence to: Hyang Eun Seo, M.D.
Department of Gastroenterology, Fatima Hospital, 576-31,
Shinam-dong, Dong-gu, Daegu 701-010, Korea
Tel: +82-53-940-7460, Fax: +82-53-953-7417
E-mail: murmpyo@yahoo.co.kr

교적 용이하다. 반면 경화성 혈관종은 복부전산화단층촬영 소견에서 초기 영상은 저밀도 종괴 양상을 나타내고 조영제 주입 후 지연 강조 영상에서는 비균질의 조영 증강 양상을 보이며 다른 간내 발생 종양 즉, 간세포암, 간내 담관암 및 전이성 간내 종양과 감별이 필요하다. 저자들은 간내 담도암으로 오인된 경화성 혈관종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

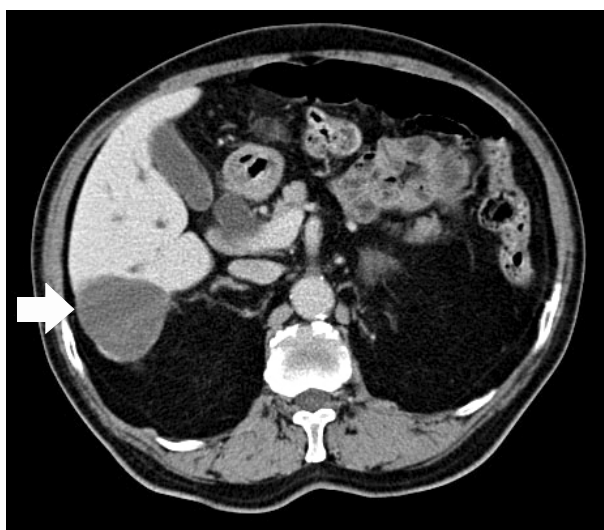


Fig. 1. Abdominal computed tomography scan revealed large, elliptical, and well margined mass in the right lower lobe of the liver with delayed partial enhancement.

증 례

77세 남자 환자가 3일간의 점점 심해지는 상복부 불편감을 주소로 내원하였다. 내원 당시 혈압은 130/80 mmHg, 맥박 70회/분, 체온 36.4°C였으며 신체 검사에서 상복부에 압통은 없었다. 말초혈액 검사에서 백혈구 6,150/uL, 혈색소 13.3 gm/dL, 혈소판 210,000/uL이었고, 혈청 생화학 검사에서 총 단백 5.9 g/dL, 알부민 3.5 g/dL로 정상이었으나 AST 229 IU/L, ALT 197 IU/L, ALP 465 IU/L, LDH 608 IU/L, 총 빌리루빈 3.93 mg/dL로 증가되어 있었고 AFP, CEA, CA19-9는 정상이었다. 내원 당시 복부 초음파 검사에서 담석, 총담관 확장 및 간 우하엽에 4.6 cm 크기의 고에코의 종괴가 관찰되었고, 복부전산화단층촬영 지연 영상에서 간 우하엽에 약간의 조영 증강이 되는 약 5 cm 크기의 종괴가 있었고 간내 담도가 확장되어 있었다(Fig. 1). 복부자기공명영상에서 간 우하엽의 종괴는 T1 강조영상에서 저신호 강도를 보이고 T2 강조영상에서 고신호 강도를 보였으며 종괴 내에 일부 저신호 강도를 보이는 부분이 있었다(Fig. 2). 조영 증강제를 사용한 검사에서는 약간의 조영 증강이 관찰되었다. 상부 위장관 내시경 검사에서 특이 소견은 관찰되지 않았고, 내시경적 역행성 췌담관 조영술로 담관 담석을 제거하였다. 간내 종괴는 과거 초음파나 복부전산화단층촬영 등을 시행한 적이 없어 과거와의 비교가 불가능하였으며 방사선으로 간내 담관암을 완전히 배제하기가 어려웠다. 아울러 담석증에 대한 담낭 절제술을 시행하기로 하였기에 담낭 절제술 및 간 우하엽 절제술을 시행하였다. 수술 후 육안 소견에서 간내 종괴는 노란색 또는 회색의 괴사를 동반하지 않은 부드러운 점액성 종괴가 바깥쪽으로 융기되어 있었고

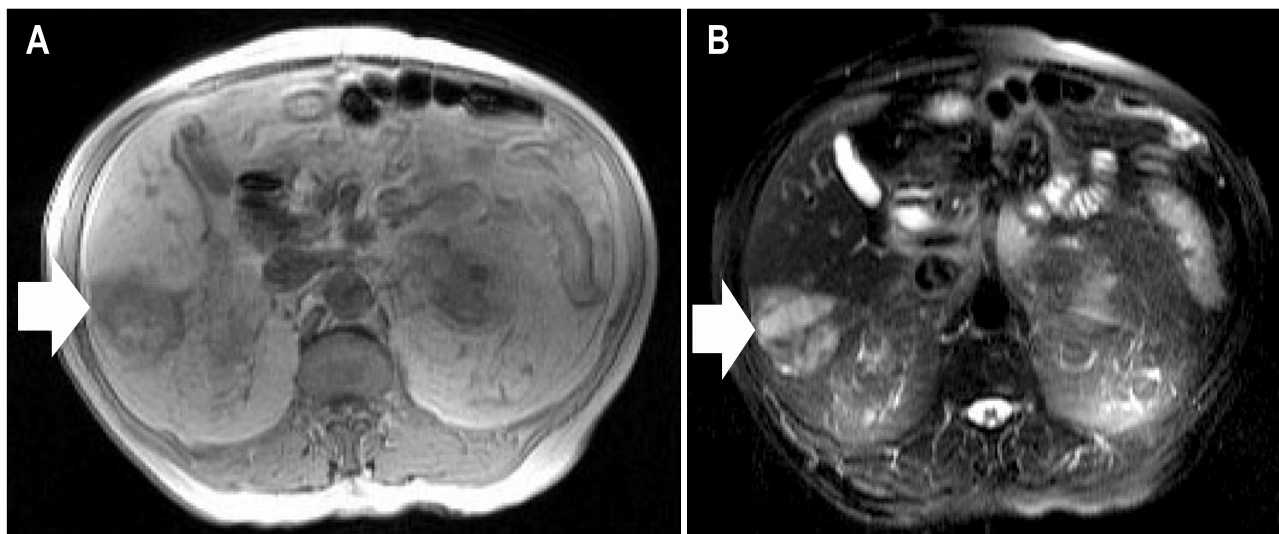


Fig. 2. Magnetic resonance imaging. (A) T1-weighted image showed a large and moderately hypointense mass. (B) T2-weighted image showed a large, and predominant hyperintense and partial hypointense mass.

(Fig. 3), 조직 검사에서 혈관주위에 elastin염색에 양성을 보이는 유리질 콜라겐 조직 및 탄성섬유의 침착과 일부에서 섬유모세포가 관찰되었다(Fig. 4). 따라서 수술 후 간내 종괴는 간내 담도암으로 오인된 간의 경화성 혈관종으로 진단하였고, 이후 환자는 특별한 증상 없이 외래에서 관찰 중이다.

고 찰

혈관종은 간에서 생기는 양성종양 중 가장 흔하고 부검에서 약 0.4-7.3% 가량이 확인되며,¹ 이 중 해면상 혈관종이 다수를 차지한다.² 환자의 대부분은 무증상이며 종괴가 큰 경우에 주위장기 압박에 의한 복통, 팽만감, 오심, 구토 등이



Fig. 3. Macroscopic view of the resected tumor showed a well demarcated pale yellow to grayish soft mass with focal brownish hemorrhage.

있을 수 있으며 드물게 혈전 등에 의해 파열되어 출혈을 일으킬 수도 있다. 혈관종의 방사선 진단은 대부분 복부전산화단층촬영이나 자기공명영상에 의해 이루어지는데 역동성 전산화단층촬영에서는 조영 전에는 저음영을 보이다가 조영제를 주입하면 종괴의 가장자리부터 결절성으로 조영이 시작되어 천천히 중심부위로 조영되고 결국에는 전체가 조영되는 소견을 보이고 지연기가 되더라도 주위 간조직보다 훨씬 고음영으로 지속된다.^{3,4} 자기공명영상 소견은 T1 강조 영상에서는 저신호 강도로 나타나고, T2 강조영상에서는 고신호 강도로 나타나며 조영증강을 시행하였을 때 복부전산화단층촬영과 마찬가지로 종괴의 가장자리부터 결절성으로 조영이 시작되어 결국에는 전체가 조영되는 소견을 보인다.⁵ 이는 무수히 작은 혈관 호수로 구성되어 있어 간동맥의 혈류를 공급받더라도 작은 혈관 내 공간이 천천히 조영제로 조영되기 때문이다.

혈관종은 퇴행성 변화를 일으킬 수 있으며 이 퇴행성 변화가 조직의 혈전과 반흔 및 섬유화를 동반하여 종괴에는 경화성 혈관종이 발생하게 되는데 이는 아주 드문 경우이다.⁶ 경화성 혈관종은 특이한 임상 증상은 없지만, 전산화단층촬영 및 자기공명영상에서 비전형적인 양상을 보이는데 역동성 전산화단층촬영 초기 조영 영상에서 저밀도의 종괴 소견으로 나타나며 지연 조영 강조 영상에서 비균질의 조영증강 양상을 보인다. 또, 자기공명영상 소견은 통상의 혈관종보다는 조금 약하게 T2 강조 영상에서 조영증강 되는 양상을 나타내는 것으로 알려져 있다.^{7,8}

저자들은 간내 경화성 혈관종에 관해 현재까지 총 11개의 영문 증례를 수집하였다(Table 1). 그 중 10개의 증례가 조영 전 복부전산화단층촬영에서 저밀도의 종괴를 나타내었

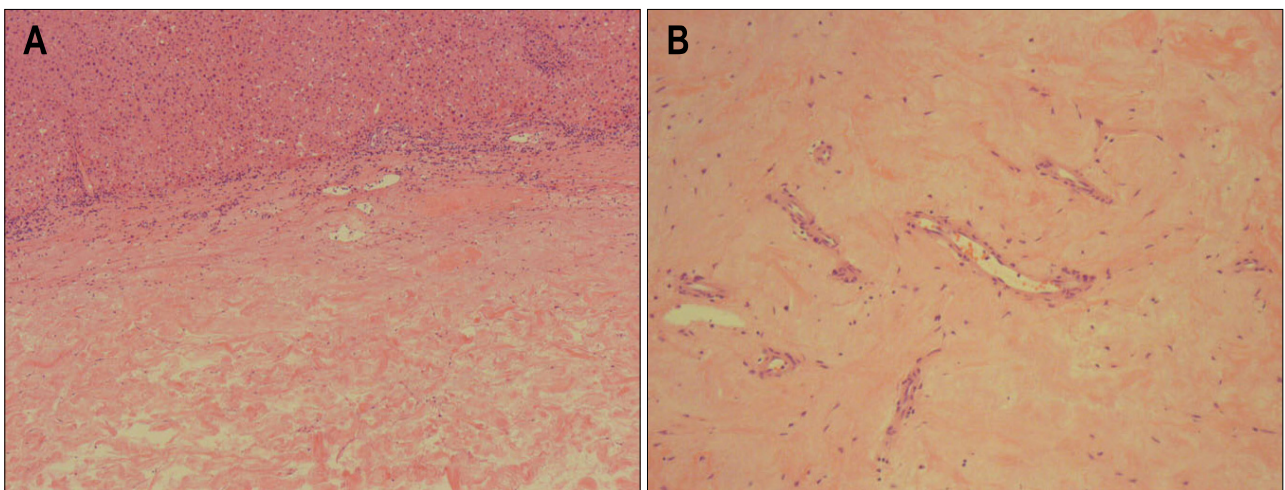


Fig. 4. Microscopic view of the resected tumor. (A) Low magnification showed a large amount of fibrous tissue with occasional residual vascular channels (H&E stain, $\times 20$). (B) Higher magnification showed dense fibrous tissue between small vascular channels lined with endothelial cells (H&E stain, $\times 100$).

Table 1. Reported Cases of Hepatic Sclerosed Hemangioma

Age	Sex	Location	Size	Plain CT	Enhanced CT	MRI (T1/T2)	Reference
NA	NA	S7	60 mm	Low	RE	NA/slightly high	7
NA	NA	S7	30 mm	Low	RE	Low/slightly high	8
40	M	S4	40 mm	NA	NA	NA/high	9
65	F	S8	26 mm	Low	RE	NA	10
67	F	S4	50 mm	NE	NA		12
41	F	S5/6	120 mm	Low	Partly filled in	NA	13
62	F	S6	50 mm	Low	RE	NA	14
72	F	S2	45 mm	Low	RE	NA	15
56	F	S6/7	20 mm	Low	NE	NA/slightly high	15
53	M	S7/8	70 mm	Low	NE	NA/slightly high	15
70	F	S5/6	100 mm	Low	RE	Low/high	16

CT, computed tomography; MRI, magnetic resonance imaging; NA, not available; NE, not enhanced; RE, ring enhanced.

으며 7개의 증례가 조영 후 복부전산화단층촬영에서 가장 자리나 일부분에서만 조영증강이 되었다. 자기공명영상에서는 T1 강조영상에서 저신호 강도를 보이고 T2 강조영상에서 고신호 강도 또는 약간의 고신호 강도를 보였다. 이러한 방사선 소견은 전형적인 혈관종과는 다른 양상으로 간세포암, 간내 담도암, 전이성 간내 종양 등 악성 종양과의 감별이 필요하다. 이번 증례의 경우에도 이와 유사한 방사선 소견을 보이고 있었으며 악성종양과의 감별이 필요한 상황이었다.

경화성 혈관종의 조직 소견은 이차성 유리화와 함께 광범위한 섬유화가 특징이며 혈관강이 극히 좁아져 있거나 막혀 있다.⁹ 특히 종괴 전반에 걸친 섬유화가 관찰되며 좀 더 진행되면 내부에 풍부한 탄력성 섬유조직을 가지게 된다. 또한 가운데가 막히고 퇴화된 혈관이 보이고 섬유조직이 그 주위를 감싸고 있는 듯한 형태를 가진다.¹⁰ 혈관종의 진단에 있어 혈관 표식자를 이용한 면역 조직 화학 염색을 이용하면 H&E와 elastic stain에 의한 것보다 훨씬 유용하다. 경화성 혈관종의 조직 소견에서 내강이 좁아져서 막힌 혈관이 존재하기 때문에 H&E stain에서 혈관을 확인하기가 어렵게 되고 이때 혈관 표식자인 CD 31, VIII-receptor Ag 등을 이용한 면역 조직 화학 염색을 시행하면 양성으로 나타나게 된다.¹¹

치료는 수술 전에 방사선으로 감별하지 못하면 조직 검사로 확인하고 특별한 합병증이 없다면 절제술 없이 경과를 관찰하여도 무방할 것으로 생각한다.

저자들은 간내 담도암으로 오인된 경화성 혈관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

- Ishak KG, Rabin L. Benign tumors of the liver. *Med Clin North Am* 1975;59:995-1013.
- Stark DD, Felder RC, Wittenberg J, et al. Magnetic resonance imaging of cavernous hemangioma of the liver: tissue-specific characterization. *Am J Roentgenol* 1985;145:213-222.
- Nelson RC, Chezmar JL. Diagnostic approach to hepatic hemangiomas. *Radiology* 1990;176:11-13.
- Semelka RC, Brown ED, Ascher SM, et al. Hepatic hemangiomas: a multi-institutional study of appearances on T2-weighted and serial gadolinium-enhanced gradient-echo MR images. *Radiology* 1994;192:401-406.
- Choi BI, Han MC, Kim CW. Small hepatocellular carcinoma versus small cavernous hemangioma: differentiation with MR imaging at 2.0 T. *Radiology* 1990;176:103-106.
- Goldman ZD. Benign tumors of the liver. In: Okuda K, Ishak KG, eds. *Neoplasm of the liver*. Volume 1. 1st ed. Tokyo: Springer-Verlag, 1987:105-125.
- Vilgrain V, Boulos L, Vullierme MP, Denys A, Terris B, Menu Y. Imaging of atypical hemangiomas of the liver with pathologic correlation. *Radiographics* 2000;20:379-397.
- Cheng HC, Tsai SH, Chiang JH, Chang CY. Hyalinized liver hemangioma mimicking malignant tumor at MR imaging (letter). *Am J Roentgenol* 1995;165:1016-1017.
- Mathieu D, Rahmouni A, Vasile N, et al. Sclerosed liver hemangioma mimicking malignant tumor at MR imaging: pathologic correlation. *J Magn Reson Imaging* 1994;4:506-508.
- Haratake J, Horie A, Nagafuchi Y. Hyalinized hemangioma of the liver. *Am J Gastroenterol* 1992;87:234-236.
- Takahashi K, Mulliken JB, Kozakewich HPW, Rogers RA, Folkman J, Ezekowitz AB. Cellular makers that distinguish the phases of hemangioma during infancy and childhood. *J Clin Invest* 1994;93:2357-2364.
- Yamashita Y, Shimada M, Taguchi K, et al. Hepatic sclerosing hemangioma mimicking a metastatic liver tumor. *Surg*

Today 2000;30:849-852.

13. Shim KS, Suh JM, Yang YS, et al. Sclerosis of hepatic cavernous hemangioma: CT findings and pathologic correlation. J Korean Med Sci 1995;10:294-297.
 14. Takayasu K, Moriyama N, Shima Y, et al. Atypical radiographic findings in hepatic cavernous hemangioma: correlation with histologic features. AJR Am J Roentgenol 1986; 146:1149-1153.
 15. Doyle DJ, Khalili K, Guindi M, Atri M. Imaging features of sclerosed hemangioma. AJR Am J Roentgenol 2007;189:67-72.
 16. Hiroki M, Toru I, Satoru I, et al. Sclerosed hemangioma of the liver: report of a case and review of the literature. Hepatology Research 2008;38:529-533.
-