

사지에 발생한 혈관종의 수술적 치료 후 재발에 대한 분석

Analysis of the Recurrence after Surgical Treatment of the Hemangioma in the Extremities

김영신 • 최희락 • 이준모 • 이형석* • 김정렬

전북대학교 의학전문대학원 정형외과학교실, *남원의료원 정형외과

목적: 사지에 발생한 혈관종의 수술적 치료 후 재발에 대한 위험인자를 분석하고 체간에 발생한 경우와 비교분석 하고자 하였다.

대상 및 방법: 1998년 7월부터 2009년 9월까지 본원에서 사지의 혈관종을 치료받은 120예를 대상으로 하였고 같은 기간 체간에 발생하여 수술적 치료를 시행한 53예를 비교 군으로 하였다. 종양의 호발연령, 발생부위, 위치, 크기, 조직학적 형태를 분석하였고 로지스틱 회귀 분석을 통해 각각의 인자와 재발과의 상관관계를 분석하였다.

결과: 재발율은 사지에서 11.7%였고, 체간에서 9.4%였다. 재발의 위험 인자 중 호발 연령, 위치, 크기, 조직학적 형태에 따른 통계학적 의의는 없었다. 그러나 발생 부위가 통계학적으로 의미있는 결과를 보였으며($p=0.058$), 특히 사지에서는 수부, 전완부, 족부등 말단부, 체간에서는 두경부에서 호발하였다.

결론: 사지에 발생한 혈관종에 대한 재발은 수부, 전완부, 족부와 같이 완전 절제가 어려운 부위에서 흔히 발생하였다. 따라서 혈관종의 수술적 치료시 완전절제가 이루어 지지 않았을 경우는 재발에 대한 주의 깊은 추시가 요구된다.

색인단어: 사지, 체간, 혈관종, 수술적 치료, 재발

서 론

혈관종은 정상 또는 비정상적인 혈관의 증식으로 인해 발생하는 양성 종양이며, 모든 양성 종양의 7%를 차지하는 것으로 알려진 흔한 연부조직 종양 중 하나이다.¹⁾ 발생원인은 정확히 밝혀지지는 않았으나 신생종(neoplasm)이나 과오종으로 생각되고 있다.^{1,2-4)} 혈관종에 대한 명명은 다양하며 조직학적으로 혈관의 종류에 따라 모세혈관형(capillary), 해면형(cavernous), 정맥형(venous), 동정맥형(arteriovenous), 혼재형(mixed)으로 분류된다. 모세혈관형은 작은 혈관으로 구성되며 이 혈관의 과도한 확장에 따라 해면형으로 불리게 되며 해면형보다 두꺼운 혈관벽이 존재시 정맥형으로, 동정맥형의 존재시 동정맥형으로 불리게 된다.^{1,5)}

혈관종의 치료에 있어 무증상의 병변은 관찰할 수 있지만 증상이 있고 작거나 한정적인 병변은 수술적 치료를 시행할 수 있다. 심부에 위치한 혈관종은 침윤성이 있고 제거하기 힘들며 이러

한 경우 색전술, 경화술, 방사선 치료를 시행할 수 있다.⁶⁾ 병소내 또는 변연부 절제만으로도 재발율이나 치료결과에 있어 좋은 결과가 보고된 바 있으나 재발은 5%에서 30%까지 다양하게 보고되고 있다.¹⁻³⁾ 혈관종이 비교적 흔한 종양임에도 불구하고 그 치료가 정확히 정립되지 않았으며 수술적 치료에 대한 결과나 재발에 대한 연구보고는 드물다.^{6,7)} 이에 사지에 발생한 혈관종의 수술적 치료 결과와 재발에 대한 위험인자를 분석하고 체간에 발생한 경우와 비교분석 하고자 한다.

대상 및 방법

1998년 7월부터 2009년 9월까지 본원에서 사지의 혈관종을 치료 받고 1년 이상 추시가 가능했던 120예를 대상으로 하였다. 남자가 47예, 여자가 73예였다. 수술적 치료는 병소내 절제술 65예, 변연부 절제술 42예, 광범위 절제술(Fig. 1, 2)이 13예에서 시행되었다. 같은 기간에 체간에 발생하여 수술적 치료를 시행한 53예를 비교 군으로 하였으며 남자가 24예, 여자가 29예였고 수술적 치료는 병소내 절제술 28예, 변연부 절제술 25예 시행되었다. 각 예에 대하여 발생 당시 연령, 성별, 발생부위, 위치, 크기, 술전 방사선학적 소견, 조직학적 소견, 재발, 술 후 경과 등을 조사하였다. 재발과

접수일 2010년 9월 1일 심사수정일 2010년 10월 12일 게재확정일 2010년 11월 3일
교신저자 김정렬

전북 전주시 덕진구 금암동 634-18, 전북대학교 의학전문대학원 정형외과학교실

TEL 063-250-1767, FAX 063-271-6538

E-mail jrkeem@chonbuk.ac.kr

대한골관절종양학회지 : 제16권 제2호 2010 Copyrights © 2010 by The Korean Bone and Joint Tumor Society

"This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited."



Figure 1. 19-year-old man presented with painful swelling on left calf area. MRI shows low signal intensity in soleus muscle on T1 weighted image (A, D) and high signal intensity on T2 weighted image (B, E) and irregular slightly high signal enhancement in the mass (C, F).

각각의 위험인자와의 상관관계를 알아보기 위해 Logistic regression test를 통하여 통계적으로 분석하였고, 유의 수준 0.05이하에서 검정하였다.

결 과

1. 성별 및 연령

총 120예 중 남자가 47예, 여자가 73예로 남녀 비는 1 : 1.55로 여자에서 호발하는 양상을 보였다. 진단 당시의 평균 연령은 26.9세(1-76세)이었으며 20대가 32명으로 가장 많았고, 10대가 29명, 30대가 19명, 10세 이하가 17명, 50대가 9명, 40대가 8명, 60대가 4명, 70대가 2명이었다. 체간의 경우 총 53예 중 남자가 24예, 여자가 29예로 남녀비는 1 : 1.21였으며 진단 당시의 평균 연령은 30.4세(1-67세)이었고, 30대가 11명, 10대가 9명, 10세 이전이 9명, 20대가 8명, 40대가 7명으로 50세까지 비교적 고른 분포를 보였다(Table 1).

2. 발생부위, 위치 및 크기

종양의 발생 부위는 상지가 76예, 하지가 34예였다. 상지에서는 수부 44예, 전완부 19예, 주관절부 5예, 상완부 8예였다. 하지에서는 족부 17예, 하퇴부 11예, 슬관절부 5예, 대퇴부 11예였다(Table 2).

표재층이 84예, 심부층이 36예 였고 평균 크기는 3.16 cm였다.

표재층의 경우 5 cm 미만이 74% (78/102)였고, 심부층의 경우 5 cm 이상이 33% (12/36)였다.

체간의 경우 두경부가 45예로 가장 많았으며 등이 3예, 둔부가 1예였다. 표재층이 40예, 심부층 11예였다. 평균 크기는 2.96 cm였다. 표재층의 경우 5 cm 미만이 82% (33/40)였고, 심부층의 경우 5 cm 이상이 36% (4/11)였다(Table 3).

3. 골 침범(Bone involvement)

사지에 발생한 경우 6예에서 골 침범이 있었으며, 체간에서는 골 침범을 일으킨 예는 없었다. 골 침범의 양상은 골막 반응(perios-teal reaction)은 3예였고 상완골 2예, 비골 1예에서 발생하였으며, 골미란(bone erosion)은 2예에서 발생하였으며 척골 1예, 근위 지골 1예에서 발생하였다. 전완부 심부에서 척골 주위 근육내 혈관종 1예에서 척골의 각변형이 동반되었다.

4. 조직학적 분류

조직학적 분류는 해면형(cavernous)이 84예, 모세혈관형(capillary)이 14예, 정맥형(venous)이 10예였고, 동정맥형(arteriovenous)이 8예, 방추상 세포형(spindle cell) 2예, 혼재형(mixed)이 2예였다. 체간의 경우 해면형(cavernous)이 38예, 정맥형(venous)이 8예, 모세혈관형(capillary)이 4예였고, 동정맥형(arteriovenous)이 3예였다

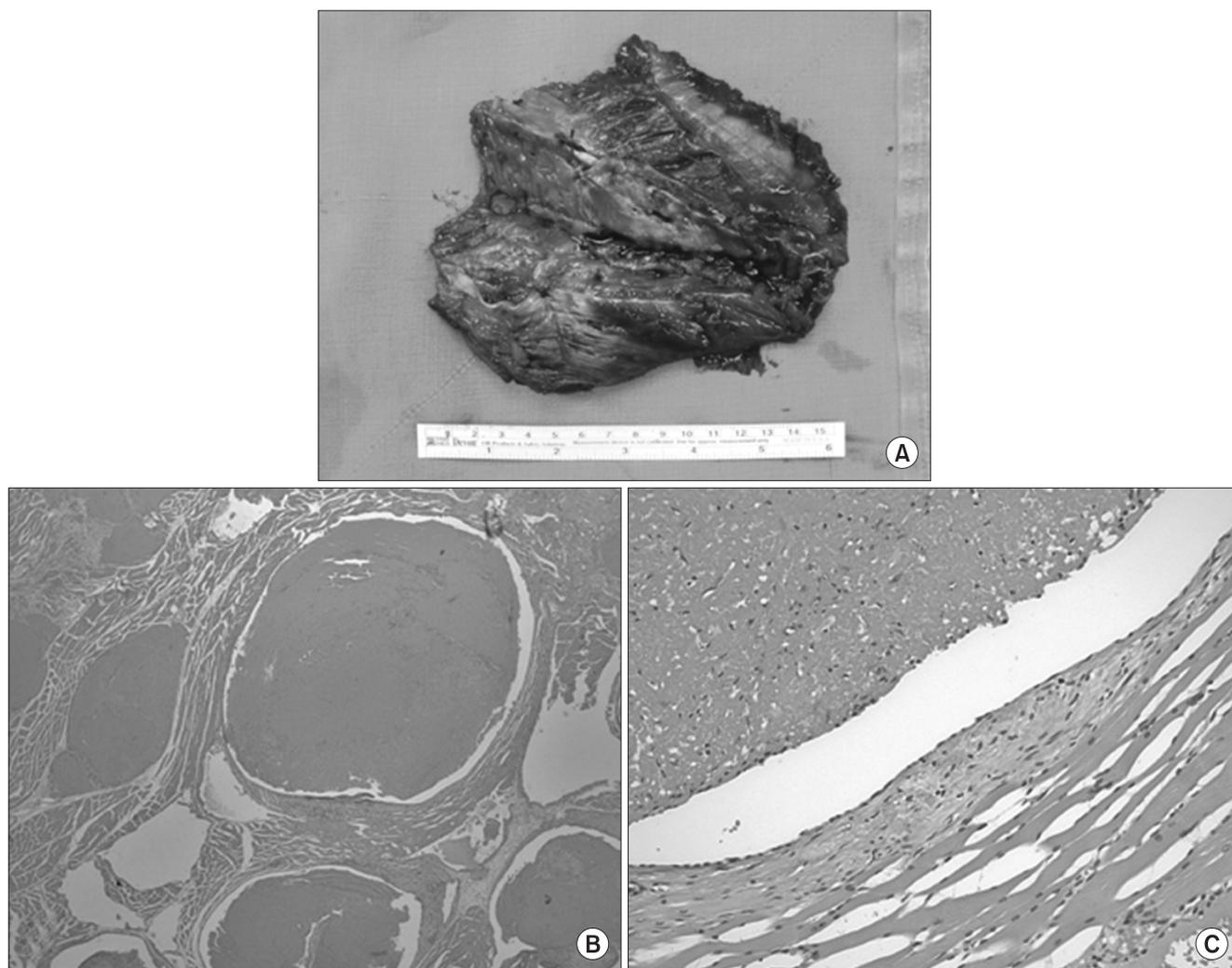


Figure 2. The gross specimen after wide resection shows large masses consisting of congeries of venous vessels (A). The histologic diagnosis was made venous type of intramuscular hemangioma. Skeletal muscle fibers are separated by proliferating vessel. Organized thrombus is within the vacuolar lumen (H&E stain, $\times 40$) (B). The vessels are lined by bland, markedly attenuated endothelial cells (H&E stain, $\times 200$) (C).

Table 1. Age and Sex Distribution

Year	Extremity (M/F)	Trunk (M/F)
1-10	17 (8/9)	9 (3/6)
11-20	29 (16/13)	9 (6/3)
21-30	32 (12/20)	8 (4/4)
31-40	19 (4/15)	11 (4/7)
41-50	8 (3/5)	7 (3/4)
51-60	9 (2/7)	3 (2/1)
61-70	4 (1/3)	4 (2/2)
71-80	2 (1/1)	0
Total	120 (47/73)	53 (24/29)

Table 2. Location

Extremity		Trunk	
Location	No.	Location	No.
Hand	44	Head and neck	45
Forearm	19	Buttock	1
Upper arm	8	Back	3
Elbow	5		
Thigh	11		
Knee	5		
Lower leg	11		
Foot	17		

Table 3. Site and Size

	Extremity (Superficial/Deep)	Trunk (Superficial/Deep)
<5 cm	102 (78/24)	40 (33/7)
5-10	13 (4/9)	8 (7/1)
10-20	3 (1/2)	3 (0/3)
>20	2 (1/1)	0

Table 4. Histologic Types

Pathologic type	Extremity	Trunk
Capillary	14	4
Cavernous	84	38
Venous	10	8
Arteriovenous	8	3
Mixed	2	0
Spindle cell	2	0

(Table 4).

5. 재발

재발율은 사지에서는 11.7% (14/120)였고, 체간에서는 9.4% (5/53)였으며, 부위로는 수부 15.9% (7/44), 전완부 15.8% (3/19), 족부 23.5% (4/17)에서 발생하였다. 재발과 각각의 위험인자와의 통계적인 상관관계는 발생연령($p=0.124$), 성별($p=0.291$), 위치($p=0.235$), 크기($p=0.157$), 조직학적 소견($p=0.236$)와 의미 있는 상관관계는 없었으며 발생부위($p=0.058$)가 통계적으로 가장 의미 있는 상관관계를 보였다(Table 5).

고 찰

연부조직 혈관종이 흔한 종양임에도 불구하고 그 치료결과나 재발에 대한 연구는 드문 실정이다. Coffin⁹⁾은 병소내 또는 변연부 절제가 재발을이나 치료결과에 있어 좋은 결과를 보였다고 보고하였으며, Tang 등⁹⁾은 89명에서 병소내 또는 변연부 절제를 통해 통증 소실, 기능적 회복, 재발에 있어 좋은 결과를 보고한 바 있다. 국내의 연구에서는 Lee 등¹⁰⁾은 109명의 수술적 치료에서 12%의 재발율을 보고하였고, 다른 연구 결과에서는 71명에서 5.6%의 재발율과 낮은 합병증을 보고하였다.¹¹⁾

혈관종의 치료는 수술적 절제술, 경피적 경화술, 스테로이드 투입, 방사선 조사등이 시행되어져 왔다.^{6,11)} 특히 심부에 위치한 혈관종은 침윤성이 있고 제거하기 힘들며 이러한 경우 색전술, 경화술, 방사선 치료를 시행할 수 있다. 수술적 절제 이외에 가장 많은 논의가 있었던 경피적 경화술은 알레르기 반응등 부작용이 있으며 통증 및 종창의 증상감소에는 효과가 있지만 그 효과는 한

Table 5. Correlation between Recurrence and Risk Factors

Risk factors	p-value (Logistic regression test)
Age (<30/>30)	0.124
Sex (M/F)	0.291
Location (Peripheral/Central)	0.058
Site (Superficial/Deep)	0.235
Size (<5 cm/>5 cm)	0.157
Pathology	0.236

시적인 것으로 보고된 바 있다. 하지만 절제술이 바로 시행되기에 종양의 크기가 광범위한 경우 경화술로 인하여 크기 감소와 함께 수술시 출혈의 감소로 절제술을 용이하게 할 수 있으며, 어린 환자에 있어 수술적 치료의 시기를 늦출 수 있는 효과를 가져온다고 보고된 바 있다.¹¹⁾

사지의 혈관종은 어느 연령대나 발생할 수 있지만 주로 젊은 연령대에 호발한다고 하였다.^{10,12-14)} 본 연구에서도 80% (97/120)가 30대 이전에 발생하여 기존 연구와 유사한 양상을 보였고 남녀비는 1 : 1.55로 여자에서 더 호발하는 것으로 나타났다. 체간의 경우는 사지에 비하여 비교적 고령대의 발생을 보였고 남녀비는 1 : 1.21로 여자에서 약간 많았다.

종양의 발생 부위 및 크기에 있어 사지에서는 표재층의 경우 5 cm 미만이 74% (78/102)였고, 심부층의 경우 5 cm 이상이 33% (12/36)이었고 체간에서는 표재층의 경우 5 cm 미만이 82% (33/40)였고, 심부층의 경우 5 cm 이상이 36% (4/11)로 더 심층에 발생할 수록 더 큰 양상을 보였다. .

조직학적으로 골격근에 발생한 혈관종은 해면형이 가장 많은 것으로 알려져 있다.¹⁸⁾ 본 연구에서도 해면형(cavernous)이 84예로 가장 많았지만 재발과는 상관관계가 없었다.

저자들의 연구에서 재발은 사지에서는 11.7% (14/120)였고, 체간에서는 9.4% (5/53)였다. 부위로는 수부, 전완부, 족부로 주로 원위부의 해부학적 구조물들이 밀집된 곳에 발생하였다, 또한 골침범이 있었던 6예 중 2예에서 재발하였으며 3차, 4차 골병변에 대한 재수술적 치료가 필요하였다. 재발의 위험인자중 발생부위가 통계학적으로 가장 의미있는 결과를 보였으며 특히 사지에서는 수부, 전완부, 족부 등에서는 주변 신경 혈관과 인접하여 혈관종의 완전 절제가 불가능하였던 경우가 많아 높은 재발율을 나타낸 것으로 생각된다. 또한 재발은 젊은 연령과 상대적인 연관성이 있었지만 나이, 성별, 위치, 크기, 조직학적 소견과 통계적으로 의미 있는 연관성은 없었다.

혈관종의 수술적 절제시 광범위 절제연은 수술시 출혈을 줄일 수 있고 재발의 위험이 적은 장점이 있는 반면 술후 상당한 기능장애를 일으킬 수 있는 단점이 있다. 병소내 절제술이나 변연부 절제술은 술후 기능 장애를 최소화할 수 있으나, 수술시 많은 출혈이 예상되고 불완전 절제나 재발을 일으킬 수 있는 위험이

높다. 혈관종은 산재된 혈관덩어리가 침윤성으로 존재하여 재발을 막기 위해서는 완전 절제가 요구된다. 하지만 수족부나 전완부에서 신경과 혈관에 인접하여 발생한 경우에는 완전 절제가 불가능하며, 광범위 절제를 시행한 경우에는 술 후 기능장애가 심각하게 발생할 수 있다. 따라서 술전 발생 부위와 신경, 혈관 침범 여부, 술 후 기능 손상의 가능성과 환자의 나이 등을 고려하여 수술적 절제연에 대한 신중한 계획과 병소내 절제술 또는 변연부 절제술을 시행할 때는 완전한 절제가 될 수 있도록 세심한 주의가 요구된다.

결 론

사지에 발생한 혈관종의 재발은 수술시 불완전 절제와 깊은 관련이 있을 것으로 생각된다. 특히 사지 말단부인 경우, 신경, 혈관을 침범한 경우, 병소내 절제와 관련된 불완전 절제시 향후 재발 가능성이 높으므로 수술시 병소내 절제술 또는 변연부 절제술을 시행하더라도 가능한 종양의 완전 절제를 시행해야 할 것으로 생각된다.

참고문헌

- Enzinger FM, Weiss SW. Soft tissue tumors. 5th ed. St Louis: Mosby; 2008. 837-87.
- Allen PW, Enzinger FM. Hemangioma of skeletal muscle: an analysis of 89 cases. *Cancer*. 1972;29:8-22.
- Hajdu SI. Pathology of soft tissue tumors. Philadelphia: Lea and Febiger; 1979. 367-82.
- Goidanich IF, Campanacci M. Vascular hamartoma and infantile angioectatic osteohyperplasia of the extremities. *J Bone Joint Surg Am*. 1962;44:815-42.
- Beham A, Fletcher CD. Intramuscular angioma: a clinicopathological analysis of 74 cases. *Histopathology*. 1991;18:53-9.
- Bellina JH. Cavernous hemangioma of left axilla and breast. A new surgical approach with the carbon dioxide laser. *J Reprod Med*. 1982;27:146-8.
- Horowitz SM, Epstein RE, Dalinka MK, Ayala G. Knee pain in a 20-year-old women, *Clin Orthop*. 1996;329:337-8.
- Coffin CM. Vascular tumors. In: Coffin CM, Dehner LP, O'Shea A, ed. Baltimore: William and Wilkins; 1997. 40-79.
- Tang P, Francis JH, Mark CG, Justin C, Henry JM. Surgical treatment of hemangiomas of soft tissue. *Clin Orthop*. 2002; 399:205-10.
- Lee HK, Lee SH, Kim HS, Lee DH, Yang MS. Hemangioma in soft tissue of trunk and extremities. *J Korean Bone Joint Tumor Soc*. 1996;2:178-85.
- 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.
- Connors JJ, Khan G. Hemangiomas of the striated muscle. *South Med J*. 1977;70:1423-4.
- Rosai J. Vascular neoplasm. *Am J Surg Pathol*. 1986;10:26-31.
- Enneking WF, Campanacci M. Bone and soft tissue tumors. 2nd ed. New York: Springer-Verlag; 2000. 1051-81.

Analysis of the Recurrence after Surgical Treatment of the Hemangioma in the Extremities

Young Sin Kim, M.D., Hee Lack Choi, M.D., Jun Mo Lee, M.D., Ph.D.,
Hyung Seok Lee, M.D.*, and Jung Ryul Kim, M.D. Ph.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Medical School, Research Institute of Clinical Medicine, Chonbuk National University, Jeonju,
**Namwon Medical Center, Namwon, Korea*

Purpose: To analyse the risk factors for recurrence of hemangiomas in extremities after surgical treatment and to compare with those of trunk.

Materials and Methods: 120 cases of hemangioma with surgical treatments from June 1998 to September 2009 were analysed. 53 cases with surgical treatment on trunk in the same period were set to be the control group. We analyze several factors: age, location, site, size, histologic types and correlation between recurrence and each risk factor using logistic regression analysis.

Results: Recurrence rate was 11.7% in extremities and 9.4% in trunk. There were no correlation between recurrence and age, site, size, histologic type. But, there was statically significant correlation between recurrence rate and location, especially hand, forearm, feet in extremities and head and neck in trunk.

Conclusion: Recurrence after surgical treatment of hemangioma is highly prevalent in anatomical location such as, hand, foot and forearm those are difficult to achieve complete resection because of close to neurovascular structures. Careful observation should be needed owing to incomplete resection can occurs recurrence.

Key words: extremity, trunk, hemangioma, surgical treatment, recurrence

Received September 1, 2010 **Revised** October 12, 2010 **Accepted** November 3, 2010

Correspondence to: Jung Ryul Kim, M.D., Ph.D.

Department of Orthopedic Surgery, Chonbuk National University, Medical School, 634-18, Geumam-dong, Dugjin-gu, Jeonju 561-712, Korea

TEL: +82-63-250-1767 **FAX:** +82-63-271-6538 **E-mail:** jrkeem@chonbuk.ac.kr