

□ 증 례 □

대량객혈을 보인 기관 혈관종 1예

대림성모병원 내과, 해부병리과*, 가톨릭대학교 의과대학 내과학교실**

소순찬, 광경근, 박해규, 김종형, 신현민, 유두열, 이덕기, 신 윤,
김석은, 박영희*, 송정섭**, 박성학**

= Abstract =

A Case of Tracheal Hemangioma Manifested Massive Hemoptysis

Soon Chan So, M.D., Kyung Kunn Kwack, M.D., Hae Kyu Park, M.D.,
Jong Hyung Kim, M.D., Hyun Min Shin, M.D., Doo Yuel Lyu, M.D.,
Duck Kee Lee, M.D., Yuoon Shin, M.D., Seok Eun Kim, M.D.,
Young Hye Park, M.D.*, Jeong Sup Song, M.D.**,
Sung Hak Park, M.D.**

Department of Internal Medicine and Pathology, Daerim Saint Mary's Hospital, Seoul, Korea

Department of Internal Medicine, The Catholic University of Korea,

*College of Medicine**, Seoul, Korea*

Hemangioma is benign tumor that represent an fail in development of the vascular system, network or retiform stage. As with hemangioma elsewhere, spontaneous regression may occur. Histologically capillary hemangioma has a diagnostic lobular arrangement of capillaries and almost all of them are located in nasal or oral mucous membranes. But, as we know, there is no report of hemangioma located in the trachea in Korea, so we report a case of tracheal hemangioma which was manifested massive hemoptysis. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 1999, 47 : 704-708)

Key words : Tracheal hemangioma, Laser therapy.

Address for correspondence :

Soon Chan So, M.D.

Daerim Saint Mary's Hospital, Department of Internal Medicine.

978-13, Daerim-Dong, Yongdungpo-Gu, Seoul, 150-070, Korea.

Phone : 02-829-9274, 011-290-2776 Fax : 02-829-9229 E-mail : netsgo@h3716

서 론

혈관종(hemangioma)은 혈관조직이 있는 신체의 어느 부위에서나 발생할 수 있는 양성종양으로 과오종의 증식이나 원인모를 자극에 의한 혈관내피세포의 증식으로 발생한다. 혈관종은 두경부(60%)의 피부와 피하조직에 가장 흔하게 발생하며, 흉부(25%), 사지(15%)¹⁾순으로 발생하고 호흡기의 혈관종은 성문하부(subglottic region)에 가장 흔하며 90%가 모세관성 조직학적 특징을 보이고, 기관하부엔 드물게 발생하며 모세관성보다는 해면상의 특징을 보인다²⁻⁵⁾. 이는 신생아와 소아기에 흔한 선천성 병변(0.54/1,000 live birth)으로 소수에선 급성장하여 생명을 위협하기도 하지만 대개 7세 이전에 자발적으로 소멸되고 성인에서는 드문 질환으로 알려져 있다. 저자들은 32세 성인에서 객혈을 초증상으로 보인 기관혈관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 신○경. 32세. 여자

주 소 : 500cc 가량의 대량 객혈

현병력 : 본 환자는 평소 건강히 지내던 분으로 내원 2개월전부터 소량의 객혈이 간헐적으로 있다가 내원 당일 대량객혈을 주소로 본원 내과에 입원하였다.

과거력 : 특이사항 없음

가족력 : 특이사항 없음

이학적 소견 : 입원당시 혈압은 110/70mmHg, 맥박수는 분당 78회, 호흡수는 분당 20회, 체온은 36.6℃였다. 의식은 명료하였으며 전신외관상 병적인 증후는 보이지 않았으며 결막은 약간 창백하였고 경부림프선은 촉진되지 않았다. 흉부소견상 호흡음이나 심장박동음은 정상이었다. 복부촉진상 압통은 없었으며 간, 비장비대도 없었다.

검사실 소견 : 말초혈액검사상 혈색소 12.6g/dl, 혈구용적 37.4%, 백혈구 7100/mm³, 혈소판 246,000/mm³이었으며, 적혈구침강속도는 3mm/hr이었다. 혈

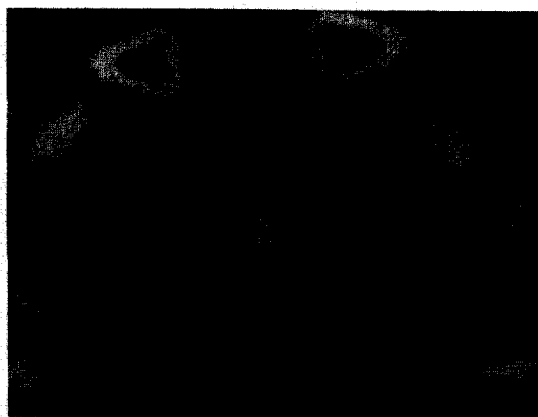


Fig. 1. Computed tomographic scan of the mediastinum showing the about 1cm sized irregular contoured mass(←) on the posterolateral side of the trachea.

청 생화학검사상 BUN/creatinine 16.3/0.7mg/dl, AST/ALT 18/27 IU/L로 정상범위였으며, 소변검사와 혈액응고검사는 정상범위였고, 객담항산균검사 및 결핵균에 대한 객담의 PCR(polymerase chain reaction)검사는 모두 음성이었다. 동맥혈가스분석에서는 PH가 7.44, PaCO₂가 37mmHg, PaO₂가 95mmHg, HCO₃⁻가 22mEq/L였고, 폐기능검사에서는 FVC 2.76(예측치의 94%), FEV₁ 2.51(예측치의 95%)였다.

방사선학적 검사 : 내원당시 흉부 방사선촬영상 특이 소견은 없었으며, 흉부 전산화단층촬영(Fig. 1)에서는 기관내강 후측면으로 돌출하는 약 1cm 크기의 불규칙한 윤곽의 종괴가 관찰되었으며, 병적으로 커진 림프절은 보이지 않았다.

기관지 내시경 검사 : 입원 2일째 실시하였는데 성대하방 7cm, 기관분기부 상방 5cm정도의 기관 좌후측면에 약 1cm크기의 매끄러운 표면을 갖는 종괴가 관찰되었으며 일부에서는 출혈소견도 관찰되었고(Fig. 2-A), 조직생검을 실시하였다.

병리 조직학적 검사 : 현미경적 소견상 혈관내피세포의 증식과 함께 얇은 벽을 갖는 빈번한 관강을 갖는 모세관성 혈관종의 형상을 보였다(Fig. 3-A, Fig. 3

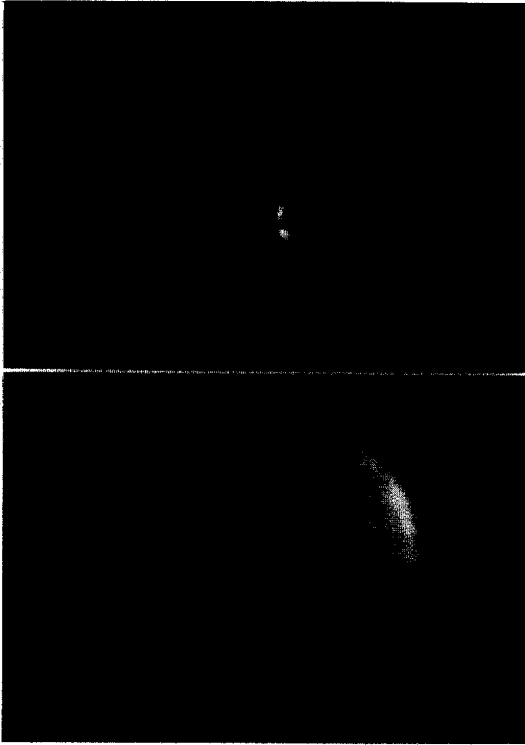


Fig. 2. Bronchoscopic view at the trachea shows 1cm sized polypoid mass at the posterior side of the lower trachea before treatment(A). After Nd:YAG laser treatment(B).

-B).

결과 및 치료 : 입원기간중에도 소량의 객혈이 반복되어 4병일째에 Nd:YAG레이저 절제술을 시행하였고 그후 객혈은 호소하지 않았으며, 추적 기관지 내시경검사상(Fig. 2-B) 종괴제거후 출혈소견은 보이지 않았고 환자는 퇴원후에도 더 이상의 객혈없이 외래에서 통원 가료중이다.

고 찰

폐에 발생하는 양성종양은 악성종양인 경우보다 훨씬 드물며 폐종양의 1-5%를 차지한다. 특히 원발성 기관종양은 드문데 그러한 병변의 90%는 성인에선 악

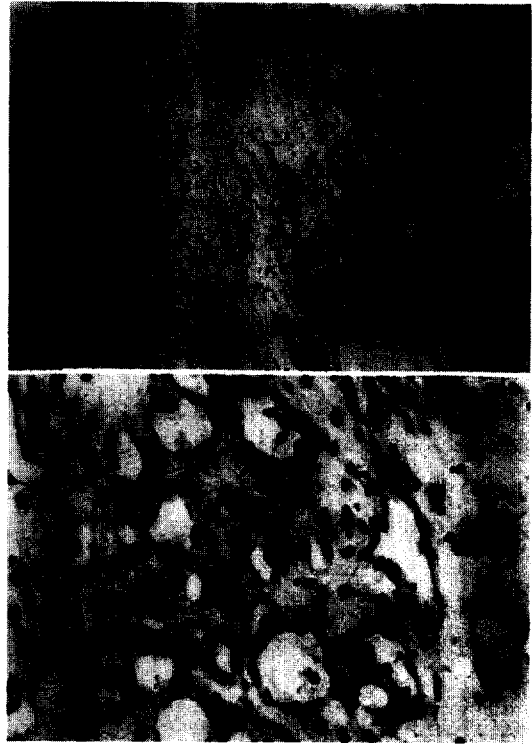


Fig. 3. Bronchoscopic biopsy demonstrating proliferation of endothelial cells with lobular arrangement of capillaries.

A, (H&E $\times 100$). B, (H&E $\times 400$).

성이지만, 소아기에서 발생하는 종양의 90%가 양성이며 편평세포성 유두종과 혈관종이 주류를 이룬다. 상기도에 발생하는 혈관종은 설기저(tongue base), 성문상(supraglottis), 성문하(subglottis), 기관, 종격동등에 올 수 있다. 기관 혈관종은 대개 고립된 병변이지만, 신체 다른 부위에 병발될 수 있고 소아기에서는 가장 흔한 기관내 종양이며 여자에서 남자보다 2배정도 많고 성인에서는 드물다. 대부분 기관상부에서 발생하거나, 후두에서 발생되어 하부 쪽으로 확장된다. 조직학적으로는 양성질환이고, 모세관성과 해면상으로 분류되는데 해면상 형태가 많다^{3,5,6}. 모세관성 혈관종은 부드럽고 압력을 가할 시 하얗게 변하며 대부분이 자발적으로 소멸되는데 해면상 혈관종은 얇은 벽, 큰 해면상 혈관공간 때문에 파열되기 쉬워 모세관

성보다 객혈의 위험도가 증가한다. 임상증상으로는 자각증상이 없는 경우가 많고 기침, 호흡곤란, 천명음, 재발하는 객혈, 기도폐쇄등이 올 수 있다. 혈관종의 경과와 발생초기 첫 수년 안에 급성장 하는 증식기를 거치지만, 이후 5-8년안에 자연적으로 소멸된다^{7,8}. 혈관종의 50% 이상은 5세이전에 완전히 소멸되며, 70% 이상이 7세이전에 소멸되고, 10-12세이전에 남아있는 병변이 서서히 소멸된다^{7,8}. 그렇지만 1세이전에 자연히 소멸되는 경우는 거의 없고, 성인까지 지속되는 경우는 극히 드물다.

피부에 발생한 혈관종은 대부분 특별한 치료 없이 경과관찰하는데 비하여, 기관 혈관종은 10-20%에서 자발적인 퇴축이 일어나기 전에 기도폐쇄를 일으켜 사망할 수 있으므로 기관절개술이나 크기감소를 위한 수술이 필요하기도한다. 보존적 치료에는 색전술, 방사선치료, 화학요법, 전신적 스테로이드(steroid)요법, 레이저(laser)절제술, interferon-alpha 투여등이 있다^{9,10,12}. 이중 색전술, 화학요법, 방사선치료는 모두 제한된 효과가 증명되었고¹¹ 특히 혈관종은 방사선 감수성이 있어 어린이에게 저용량의 방사선조사시 속발성 악성종양의 위험도가 증가하여 현재 거의 이용되지 않고 있다. 전신적 스테로이드요법과 레이저를 이용한 절제술은 매우 효과적이라고 알려져왔고^{13,14} 현재 가장 광범위하게 이용되고 있다. 스테로이드는 증식하는 내피세포의 세포질 내에서 estradiol-17 beta receptors를 차단함으로써 효과를 보인다고 여겨지며 보고된 반응도는 일정치 않은데 Enjolras et al¹²은 환자의 30%에서는 반응하고, 40%는 반응이 미온적이며, 30%는 반응하지 않는다고 보고하고있다. 그러나 prednisolone에 반응한다면 1-2주안에 효과가 나타난다. 레이저치료에는 현재 Nd : YAG(neodymium : yttrium-aluminum-garnet)레이저와 CO₂레이저를 이용하는데 임상 의들에게 최소한의 침습적이고, 안전하고 올바르게 사용시 합병증도 거의 일으키지 않는 효과적인 방법으로 제공되어왔다. Interferon-alpha 치료는 작용기전이 아직 밝혀지지 않았지만 증식기에 혈관종내의 내피세포의 성장에 억제효과를

가지는 것으로 추정되며 전통적인 치료가 실패시 생명을 위협하는 혈관종의 치료에 효과적이라고 최근에 보고되고 있다⁸. 수술적 절제술은 1949년에 Sharp¹⁵에 의해 처음으로 기술되었는데 내강폐쇄, 잘 조절되지 않는 출혈 또는 감염에 선택할 수 있는 방법이다.

요 약

저자들은 대량객혈을 주소로 입원한 32세 여자 환자에서 기관하부에 종괴를 발견하고, 종괴자체로 인한 호흡곤란이나 기도폐쇄 소견없이 단지 재발하는 객혈이 문제되어 기관내로 내시경적 처치가 가능하고 광선응고효과가 뛰어난 Nd : YAG레이저를 사용하여 치유한 기관 혈관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Fishman SJ, Mulliken JB. Hemangiomas and vascular malformations of infancy and childhood. *Pediatr Clin North Am* 1993;40:1177-200.
2. Bowyer JJ, Sheppard M. Capillary hemangioma presenting as a lung pseudocyst. *Arch Dis Child* 1990;65:1162-4.
3. Galliani CA, Beatty JF, Grosfeld JL. Cavernous hemangioma of the lung in an infant. *Pediatr Pathol* 1992;12:105-11.
4. Paul KP, Borner C, Muller KM, Vogt-Moykopf I. Capillary hemangioma of the right main bronchus treated by sleeve resection in infancy. *Am Rev Respir Dis* 1991;143:876-9.
5. Wodenhouse GE. Hemangioma of the lung. *J Thorac Surg* 1948;17:408-15.
6. Bowers RE, Graham EA, Tomlison KM. The natural history of Strawberry nevus. *Arch Dermatol* 1960;82:667-80.
7. Stals S, Hamilton S, Spira M. Hemangiomas,

- lymphangiomas and vascular malformations of the head and neck. *Otolaryngol Clin North Am* 1986;19:769-96.
8. Ezekowitz RAB, Mulliken JB, Folkman J. Interferon alpha-2a therapy for life threatening hemangiomas of infancy. *N Engl J Med* 1992; 326:1456-63.
9. Bartlett JA, Riding KH, Salkeld LI. Management of hemangiomas of the head and neck in children. *J Otolaryngol* 1988;17:111-20.
10. Rebeiz E, April MM, Bohigian RK, Shapshay SM. Nd-YAG laser treatment of venous malformations of the head and neck : an update. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1991;105:655-61.
11. Hellmam JR, Myer CM, Prenger EC. Therapeutic alternatives in the treatment of life-threatening vasoformative tumors. *Am J Otolaryngol* 1992; 13:48-53.
12. Enjolras O, Riche MC, Merland JJ, Escande JP. Management of alarming head and neck hemangioma in infancy : a review of 25 cases. *Pediatrics* 1990;85:491-8.
13. Healy G, McGill T, Friedman EM. Carbon dioxide laser in subglottic hemangioma. An update. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1984;93:370-3.
14. Hawkins DB, Crackett DM, Kahlstrom EJ, MacLaughlin EF. Corticosteroid management of airway hemangiomas : long-term follow-up. *Laryngoscope* 1984;94:633-7.
15. Sharp HS. Hemangioma of the trachea in an infant, successful removal. *J Laryngol Otol* 1949; 63:413-4.
-