

A Case of Subcutaneous Cavernous Hemangioma Presenting as a Nasolabial Fold Mass

Jang Yul Byun, Kyu Hun Kim, Dong Wook Park and Jae Yong Lee

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon, Korea

비순부 종물 형태로 발현된 피하 해면상 혈관종 1예

변장열 · 김규훈 · 박동욱 · 이재용

순천향대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received March 5, 2010
Revised May 3, 2010
Accepted May 13, 2010

Address for correspondence

Jae Yong Lee, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Soonchunhyang University
College of Medicine, 1174 Jung-dong,
Wonmi-gu, Bucheon 420-767, Korea
Tel +82-32-621-5448
Fax +82-32-621-5016
E-mail jyent@schbc.ac.kr

Hemangiomas are the most common vascular tumor of the head and neck region, but rarely involve the sinusal cavity. The majority of these lesions present as a benign tumor of the skin and mucosa. Moreover, most nasal hemangiomas occur in the nasal septum or vestibule. The authors experienced a case of subcutaneous cavernous hemangioma that occurred from right nasolabial fold in a 40-year-old man, which was successfully treated by sublabial approach. We expected the tumor as a radicular or nasolabial cyst because of its location, clinical feature, and radiologic findings. However, the final pathologic diagnosis was cavernous hemangioma. We present the clinical characteristics, radiologic findings, and treatment of a subcutaneous hemangioma with a review of the literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:386-9

Key Words Cavernous hemangioma · Subcutaneous · Nasolabial fold.

서 론

혈관종은 신생아 시기에 가장 흔하게 발생하는 양성종양으로 주로 피부나 점막에서 발현되며 특별한 치료 없이 대부분 12세 이전에 자연 퇴화한다. 두경부 영역에서는 흔하게 발생하지만, 비부비동에서는 비교적 드물게 나타난다.^{1,2)} 또한 모세상 혈관종이 비강 내에서는 가장 흔한 것으로 보고되어 있다.^{1,3)}

최근 저자들은 특별한 원인 없이 비순 부위(nasolabial fold)에서 빠른 속도로 증가한 종물을 구순하 접근법을 통하여 제거한 후 조직검사에서 해면상 혈관종으로 확진된 환자를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

40세 남자 환자가 우측 비순 부위의 종창을 주소로 내원하였다. 안면부의 외상이나 수술 등의 과거력은 없었다. 환

자는 3개월 전부터 특별한 원인 없이 비순 부위의 종창이 시작되었으며, 우측 코막힘, 농성 비루, 비출혈 등의 증상은 없었고, 국소적인 발열이나 발적, 기타 전신 증상은 관찰되지 않았다. 진찰 소견에서 우측 비순 부위에 3×2 cm 크기의 부드러운 종괴가 촉진되었으나 압통이나 혈관성 박동 등의 소견은 관찰되지 않았다. 외견상 우측 비순부의 종물로 인하여 안면부 및 비공의 좌우 비대칭 소견과 잇몸의 종창을 보였으며(Fig. 1), 내시경을 이용한 비강 관찰에서 우측 비강저의 경미한 종창을 확인할 수 있었다.

병변의 위치와 범위를 확인하기 위하여 비부비동 전산화 단층촬영을 시행하였으며, 우측 비순 부위의 피하조직 내에 약 3×2 cm 크기의 경계가 비교적 분명한 연부조직 음영을 보이는 병변이 관찰되었다. 약간의 조영증강 소견을 보였으며, 주변 골조직으로의 확장 또는 미란은 보이지 않았고, 종물 내 석회화 음영은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 환자의 병력과 방사선학적 소견을 종합하여 보았을 때 비순낭(nasolabial cyst)과 치근낭(radicular cyst) 등의 치성

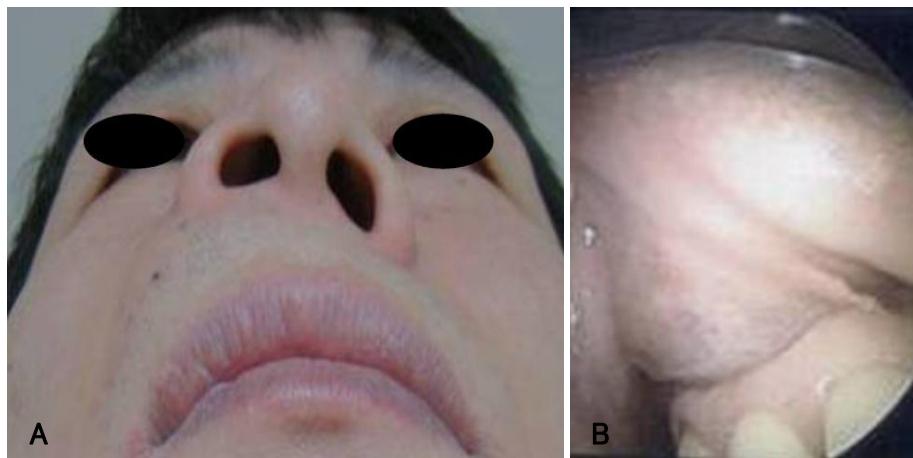


Fig. 1. Photographs of the patient's face. Swelling owing to the right nasolabial mass and asymmetry of both nostrils can be observed (A). Endoscopic examination shows right sublabial mass (B).



Fig. 2. Contrast-enhanced axial computed tomography shows an intermediate-enhancing soft tissue mass in the right nasolabial fold without invasion to the surrounding bony or soft tissue.

낭(odontogenic cyst)이 의심되었다.

구순하 접근법을 이용한 종물의 전적출술을 계획하고 전신마취하에 치은협구에 절개를 가한 후 종물의 벽을 따라서 박리를 진행하였다. 종물은 피부 및 구강 또는 비강 점막과의 유착 없이 결체조직 내에 존재하고 있어 비교적 용이하게 제거되었으며 소량의 출혈이 있었으나 쉽게 지혈되었다. 제거된 종물은 표면이 매끈한 형태였으며 촉진상 부드러운 소견을 보였다(Fig. 3). 조직학적으로 점막하 조직내로 심하게 확장된 혈관들이 응집되어 있어 해면상 혈관종으로 최종 진단되었다(Fig. 4). 술 후 6개월간의 추적 관찰에서 재발 소견은 보이지 않고 있다(Fig. 5).

고 찰

혈관종은 대부분 신생아 시기에 발생해 일정한 시기가 지나면 자연 소실되는 가장 흔한 선천성 양성종양이다. 신체



Fig. 3. Gross finding of the lesion shows a $2.5 \times 2.0 \times 1.5$ cm-sized reddish soft mass.

의 모든 부위에서 발생할 수 있으나 50% 이상이 두경부 영역에서 발생한다.^{4,5)} 피하 해면상 혈관종의 발생부위는 수부, 경부, 두부 및 안면부 등으로 보고되어 있으며, 피하에 부드러운 비박동성의 종물로 발견된다.⁶⁻⁸⁾ 혈관종은 주로 5세 전까지 자연 퇴행되며 12세까지도 자연퇴행이 가능하지만 그 이후까지 존재하는 혈관종은 자연퇴행을 기대하기 어렵다.^{9,10)}

병리 조직학적 소견에서 모세상, 해면상, 혼합형으로 분류되며,^{4,10,11)} 소아에서는 모세상, 성인에서는 주로 해면상 혈관종의 형태로 나타난다. 임상적으로 해면상 혈관종은 모세상 혈관종과 구분하기 힘들지만, 해면상 혈관종은 조직학적으로 큰 정맥관이나 동양혈관(sinusoidal blood space)으로 구성되어 있으며 좀 더 심층에서 발생하고 내측에 탄력섬유와 탄성판이 거의 존재하지 않아 모세상 혈관종과 감별할 수 있다.¹²⁾ 부비강 내의 혈관종은 대부분 모세상 혈관종이 많으며 주로 비증격이나 비전정에 호발한다. 해면상 혈관종은 드물지만 비갑개에서 기원한 경우에는 해면상 혈

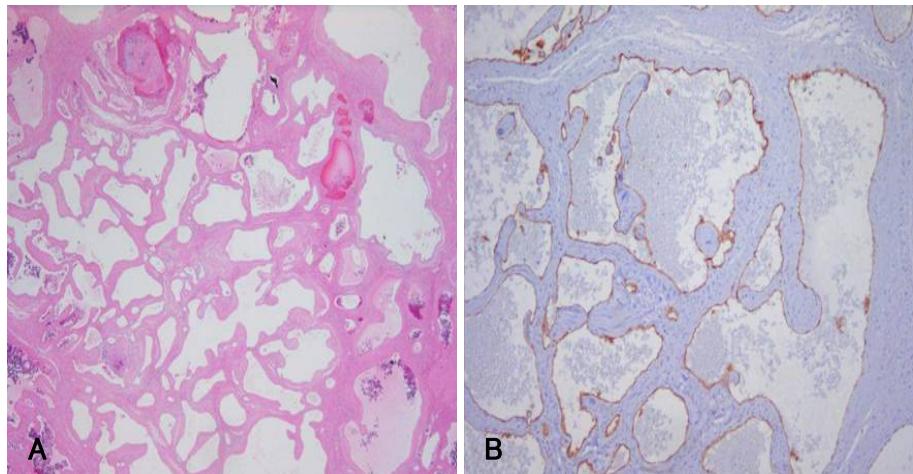


Fig. 4. Photomicrographs show dilated blood vessels with thin walls (hematoxylin and eosin stain, original magnification $\times 20$)(A). Immunohistochemical staining for CD31 reveals positive findings in the endothelium of the vessels (original magnification $\times 100$)(B).



Fig. 5. Postoperative picture of the patient. Symmetry of both nasolabial fold and nostrils can be observed.

관종이 가장 많은 것으로 보고되어 있다.^{2,3)}

확실한 발생 기전은 밝혀져 있지 않으나 주로 선천적 요인에 의한 것으로 알려져 있으며, 그 외 혈관 형성과정에서 과오종 혹은 혈류역학적 이상, 국소 외상에 의해서도 발생할 수 있다.^{4,10,13)} 해면상 혈관종은 비교적 성장이 늦어 오랜 기간에 걸쳐서 발생하며 통통이 있는 경우가 많은데,^{2,3,10)} 본 중례에서는 비순 부위에 특별한 원인 없이 종창이 발생하여 비교적 빠른 성장 속도를 보였으며 통증은 호소하지 않았다.

진단을 위해서는 병력 청취와 문진, 철저한 이학적 검사가 필요하며, 종양의 존재와 범위를 파악하기 위해 전산화 단층촬영, 자기공명 영상촬영, 혈관조영술 등이 사용되고 있다.^{11,13)} 임상적으로 관찰되는 해면상 혈관종은 부드럽고 경계가 불분명하고 암박 시 창백해지는 보라색 병변으로 관찰된다.^{3,5)} 본 중례의 경우 육안으로 관찰하기 어려운 부위에 발생하여 위와 같은 증상은 관찰하지 못하였다. 전산화단층 촬영에서는 혈관성 종양을 시사하는 조영증강이 관찰되며,

혈관종의 모양, 크기, 주변조직과의 관계 및 주변혈관으로의 침범 여부를 평가할 수 있다.⁵⁾ 자기공명 영상촬영은 풍부한 혈액으로 인하여 T2 강조영상에서 전체적으로 고신호 강도를 보이고 T1 강조영상에서는 근육과 비슷한 강도를 보여 가장 도움이 되는 방사선검사이다.^{13,14)} 하지만 본 중례에서는 비순 낭종이 의심되었기 때문에 자기공명 영像是 시행하지 않았다.

비강 내 혈관종의 경우 반전성유두종, 혈관섬유종, 기질화 혈종, 육종 등 악성종양과의 감별진단이 필요하다.³⁾ 본 중례에서는 비순에 발생한 위치적인 면과 낭성 병변으로 인해 치성낭과의 감별이 필요하였다.

치료방법의 선택에 있어 고려해야 할 사항은 환자의 연령, 혈관종의 발생부위 및 크기, 조직학적 특성 등이다.^{4,9)} 퇴행의 단계나 속도가 일정하지 않아 적절한 치료방법 결정이 쉽지 않지만, 소아의 경우는 대부분 자연적으로 소실되기 때문에 주기적인 추적관찰이 중요하다. 하지만 성인의 경우는 자연퇴행이 드물기 때문에 수술적 치료가 필요한 경우가 대부분이다.^{5,10)}

수술적 치료는 다량의 출혈 위험성이 있어 방사선학적 검사 및 혈관조영술 등을 통해 종물의 정확한 위치와 주변조직과의 관계, 혈관 분포 등에 관한 정보를 확인한 후 시행되어야 안전한 제거가 가능하며, 재발을 방지하기 위해서는 병변의 완전한 제거가 가장 중요하다.^{3,11,15)} 본 중례의 경우 혈관종의 가능성에 대해 고려하지 못하였기 때문에 혈관조영술은 시행하지 못했으나, 술 중 출혈은 미미한 정도였다.

본 중례에서의 혈관종은 기준에 보고되었던 비부비동 혈관종과는 상이한 양상을 보였다. 비교적 빠른 속도로 크기가 증가하였고, 피부나 점막에서 발생하는 혈관종과는 달리 피하 결체조직에 위치하는 종물 형태로 나타났으며, 흔

히 보이는 전산화단층촬영에서의 조영증강 소견도 뚜렷하지 않았다. 결론적으로 비순부 피하에 발생한 종물의 감별 진단에 있어 혈관종의 가능성도 배제하지 않아야 할 것으로 생각되며, 일반적인 혈관종의 임상양상과 다른 피하 해면상 혈관종을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Palacios E, Daroca PJ Jr. Nasal cavernous hemangioma. Ear Nose Throat J 2007;86(6):326, 328.
- 2) Jammal H, Barakat F, Hadi U. Maxillary sinus cavernous hemangioma: a rare entity. Acta Otolaryngol 2004;124(3):331-3.
- 3) Han KH, Kim NG, Kim WH, Son WS. A case of cavernous hemangioma originated from the middle turbinate. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2005;48(7):940-2.
- 4) Pitanguy I, Machado BH, Radwanski HN, Amorim NF. Surgical treatment of hemangiomas of the nose. Ann Plast Surg 1996;36(6):586-92; discussion 592-3.
- 5) Shpitzer T, Noyek AM, Witterick I, Kassel T, Ichise M, Gullane P, et al. Noncutaneous cavernous hemangiomas of the head and neck. Am J Otolaryngol 1997;18(6):367-74.
- 6) Troughton AH, Paxton RM. Direct puncture venography in subcutaneous cavernous haemangiomas. Clin Radiol 1992;45(4):250-3.
- 7) Palmieri TJ. Subcutaneous hemangiomas of the hand. J Hand Surg Am 1983;8(2):201-4.
- 8) Winter PF, Lapke J, Wineck R. Subcutaneous cavernous hemangioma visualized on an indium-111-octreotide scan. J Nucl Med. 1996;37(9):1516-7.
- 9) Waner M, Suen JY, Dinehart S. Treatment of hemangiomas of the head and neck. Laryngoscope 1992;102(10):1123-32.
- 10) Moon JH, Hwang DJ, Kim JS, No HS, Lee SE, Kim SH, et al. Clinical study of the hemangioma of the head and neck in adult. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2000;43(8):878-82.
- 11) Bartlett JA, Riding KH, Salkeld LJ. Management of hemangiomas of the head and neck in children. J Otolaryngol 1998;17(2):111-20.
- 12) Kang CY, Cho SI, Do NY, Lee JH. A case of maxillary venous hemangioma with invasion to hard palate and nasal cavity. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2007;50(10):954-7.
- 13) Yeo CK. Cavernous hemangioma of the masseter muscle. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2006;49(6):669-71.
- 14) Cho JH, Kim MS, Joo YH, Sun DI. Two cases of cavernous hemangioma of the submandibular gland. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2008;51(10):935-7.
- 15) Lim SC, Kim SH, Cho JS, Lee CW. A case of hemangioma in maxilla. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1989;32(4):723-6.