online©ML Comm
Case Report Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:448-51 / DOI 10.3342/kjorl-hns.2010.53.7.448
pISSN 2092-5859 / eISSN 2092-6529

A Case of Lobular Capillary Hemangioma with Epidural Abscess

Kyu-Sup Cho[1], Dae-Woon Kang[1], Chang-Hun Lee[2] and Hwan-Jung Roh[1]

[1]Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, [2]Pathology, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea

경막외 농양을 동반한 소엽성 모세관 혈관종 1예

조규섭[1] · 강대운[1] · 이창훈[2] · 노환중[1]

부산대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실,[1] 병리과학교실[2]

Received Febrary 23, 2010
Revised May 31, 2010
Accepted June 11, 2010

Address for correspondence
Hwan-Jung Roh, MD
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
Pusan National University School of Medicine,
Beomeo-ri, Mulgeum-eup,
Yangsan 626-770, Korea
Tel +82-55-360-1440
Fax +82-55-360-2930
E-mail rohhj@pusan.ac.kr

Lobular capillary hemangioma (LCH), also known as pyogenic granuloma, is a benign capillary proliferation with a microscopically distinctive lobular architecture that affects the skin and mucous membrane of the oral cavity and nasal region. LCH commonly involves the nasal cavity as a small hypervascular lesion arising from the anterior third of the septum or the lateral wall. Its diagnosis may be difficult in those rare instances of a large LCH that entirely fills the nasal cavity, which can be confused with more aggressive neoplasms such as hemangiopericytoma or angiosarcoma. We report an intriguing case of LCH associated with epidural hematoma presenting as a huge expansile lesion involving the anterior skull base and orbit.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:448-51

Key Words Pyogenic granuloma · Nasal cavity · Epidural abscess.

서 론

소엽성 모세관 혈관종은 두경부에 발생하는 양성 종양으로 대부분 구순부, 설부 및 구강점막부에 잘 발생하며 비강에서의 발생은 상대적으로 드물다.[1)] 급속하게 성장하여 비폐색을 일으키기 쉽고, 간헐적인 비출혈을 일으키는 경우가 많으며, 특별한 증상 없이 우연히 발견된 경우도 있다. 모든 연령층에서 발생가능하나 30대에 흔하며 여성에서는 특히 가임여성에 호발한다.[2)] 원인은 외상설과 호르몬설 등이 있으나 정확히 밝혀져 있지 않으며 편측성 비출혈로 인하여 임상적 진단 시 악성종양으로 오인되기도 한다.[3)] 비강에 발생한 소엽성 모세관 혈관종은 국내외 문헌에 보고 된 적이 있지만 종양이 뇌의 전두엽을 침범하고 경막외 농양을 형성한 경우는 아직까지 보고된 바가 없다.

최근 저자들은 우연히 발견된 우측 비강내 종물을 주소로 내원한 환자에서 사골판(cribriform plate)에 미란성 변화와 전두엽에 경막외 농양을 동반한 소엽성 모세관 혈관종 1예를 체험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

36세 여자가 내원 10일 전부터 비폐색, 비루가 있어 개인 의원 방문 후 비강내 종물이 발견되어 본원에 의뢰되었다. 과거력에서 수년 전부터 저인산염혈증으로 인한 골연화증 진단을 받고 치료 중이었으며, 가족력, 사회력에서 특이 소견은 없었다. 이학적 검사에서 혈종을 동반한 혈관성 종괴가 우측 비강내를 가득 채우고 있었으며 표면은 비교적 둥글고 부드러웠다(Fig. 1A). 내원 당일 외래에서 부비동 전산화단층촬영을 시행하고 조직검사를 하였다. 조직검사 후 비출혈이 지속되어 Merocel®(Medtronic Xomed, Jacksonville, FL, USA)을 삽입하여 압박 지혈하였다. 조직 검사 결과 모호한 혈관 형성을 가진 비정형세포와 출혈 성향을 가지는 혈관성 종물 소견이었다. 부비동 전산화단층촬영에서 우측 비강을 가득 채우고 사골판과 볏돌기(crista galli)

 Copyright ⓒ 2010 Korean Society of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery

그리고 지판(lamina papyracea)에 미란성 변화를 일으키고 안구를 밀고 있는 종물이 관찰되었다(Fig. 1B and C). 부비동 자기공명영상촬영에서 우측 비강에 T2 영상에서 혼합된 양상의 비 균일성의 중간 조영강도를 보이면서 gadolinium으로 조영 증가가 잘되는 종양 병변이 비강을 가득 채우고 전두부로 두개내 침범을 보이는 소견과 함께 우측 전두엽의 경막외 농양 및 부종 소견이 관찰되었지만 두통이나 고열, 혈성 비루 등의 증상은 없었다(Fig. 2). 수술 전에 시행한 혈관 조영술(Fig. 3)에서 종양은 접형구개동맥과 전사골동맥으로 혈액 공급을 받고 있었으며, 전 사골

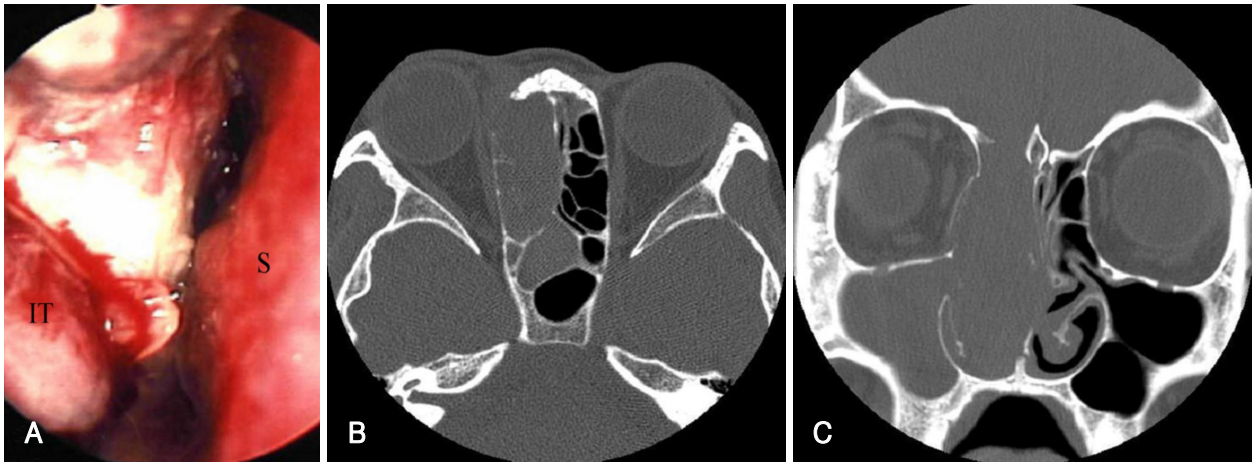

Fig. 1. Preoperative endoscopic and paranasal CT findings. Endoscopic finding of right nasal cavity shows a reddish polypoid mass located between the nasal septum and inferior turbinate (A). Axial (B) and coronal (C) CT images show soft tissue density mass like lesion in the right nasal cavity. The mass is protruded toward right orbit and accompanied by erosive change of cribriform plate, crita galli and lamina papyracea. S: septum, IT: inferior turbinate.

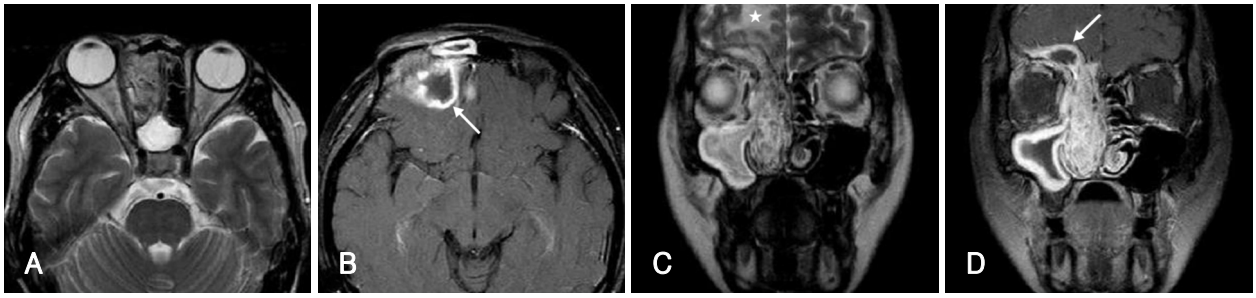

Fig. 2. Preoperative paranasal MRI findings show a well enhanced mass in right ethmoid and frontal sinus with mixed heterogenous intermediate signal intensity at T2 weighted image (T2WI). The mass is extended intracranially into frontal lobe and combined with epidural abscess (arrow) and edema (asterisk) in right frontal lobe. Axial T2WI (A). Axial gadolinium-enhanced T1WI (B). Coronal T2WI (C). Coronal gadolinium-enhanced T1WI (D).

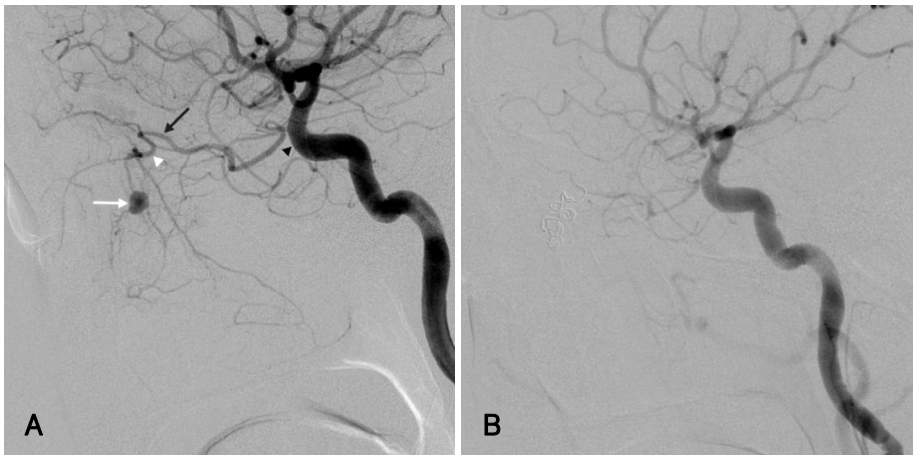

Fig. 3. Right internal carotid angiogram. Pre-embolization angiogram shows tumor staining is feeded by anterior ethmoidal branch (white arrowhead) of right ophthalmic artery (black arrow) from internal carotid artery (black arrowhead). Pseudoaneurysm (white arrow) arising from anterior ethmoidal branch is noted (A). Post-embolization angiogram shows tumor staining is much decreased and pseudoaneurysm is not detected (B).

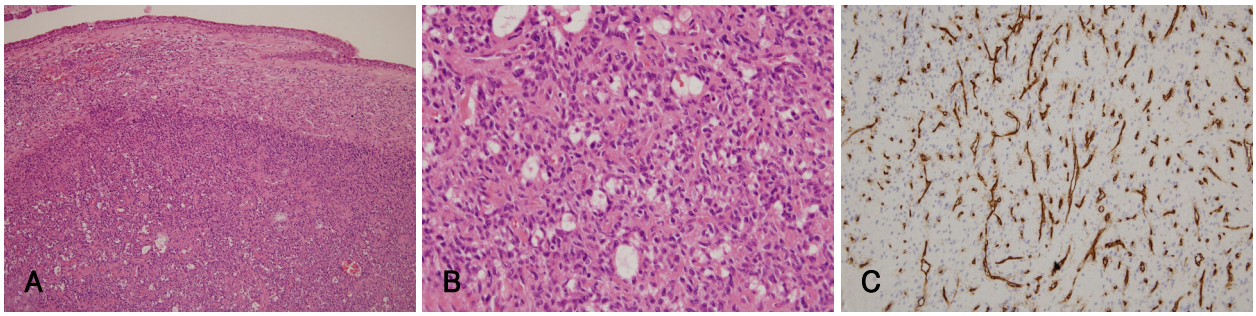

Fig. 4. Histopathologic findings of lobular capillary hemangioma. There are lobular arrangement and anastomosing networks of capillary vessels in a fibrous stroma beneath surface squamous epithelium (H&E, ×100)(A). The lobular mass is composed of proliferation of small capillaries and endothelial cells (H&E, ×400)(B). Immunohistochemical stain shows diffuse intense staining of tumor cells for endothelial cell marker CD 34 (×200)(C).

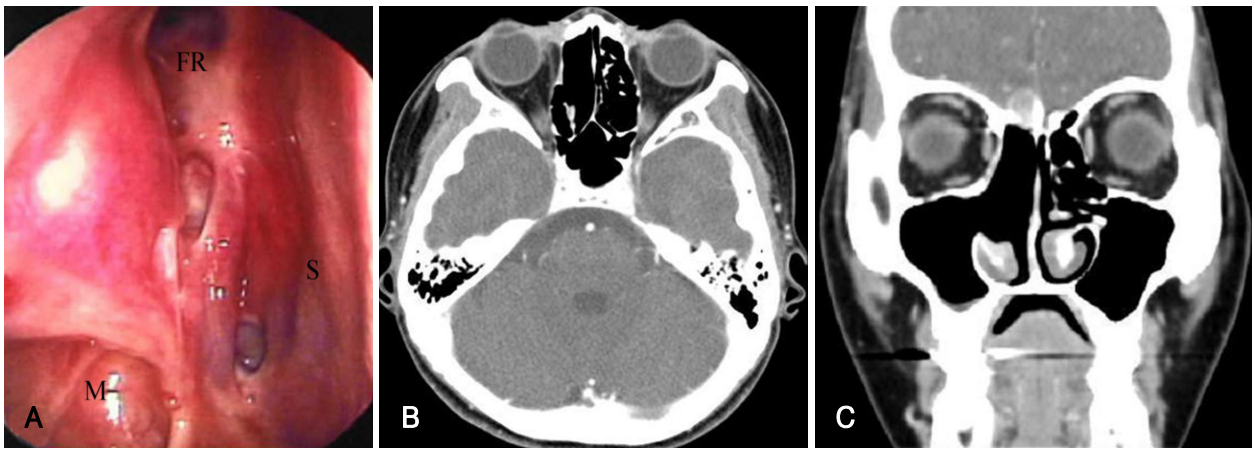

Fig. 5. Endoscopic and paranasal CT finding at 18 months after operation. Endoscopic finding shows no evidence of recurrence (A). Axial (B) and coronal (C) CT images show remnant mass with nodular enhancement in right anterior skull base. FR: frontal recess, M: maxillary sinus, S: nasal septum.

동맥에 가성 동맥류가 있어 색전술을 시행 후 전신마하 내시경적 종양 적출술을 시행하였다. 수술 시 출혈은 심하지 않았으며 전두동은 농양으로 차 있었고 점막은 염증으로 심한 부종 소견을 보였다. 전두동 개구부의 후방부에 사골판의 미란으로 인해 경질막이 노출된 공간에 농양이 차 있는 경막외 농양이 관찰되었다. 우측 비강내의 종물은 완전 제거하였으나 전두동 개구부 직후방의 두개저를 침범한 일부 종양은 두개내 합병증 발생 가능성으로 완전히 제거하지 못하였다. 수술로 제거된 종괴는 섬유성 기질을 배경으로 수많은 모세혈관 크기의 혈관들이 소엽성으로 배열되어 있었다. 혈관을 형성하는 종양세포들에서 세포학적 비정형성이나 세포분열은 관찰되지 않았다. 면역조직화학염색에서 종양세포들은 CD34에 강양성을 보여 소엽성 모세관 혈관종으로 진단되었다(Fig. 4). 경막외 농양 치료 목적으로 3주간 항생제 정맥투여 후 퇴원하였다. 수술 후 18개월간의 외래관찰 중 비강내 재발 소견은 관찰되지 않았고 부비동 전산화단층촬영에서 경막외 농양은 호전되었으며, 두개저에 잔여 종양으로 의심되는 병변이 관찰되었지만(Fig. 5) 환자가 특별한 증상을 호소하지 않아 추가 치료 없이 경과관찰 중이다.

고 찰

소엽성 모세관 혈관종은 예전에는 화농성 육아종으로 불리던 피부와 점막에 드물게 나타나는 검붉은 색의 융기된 병변으로 비강에서의 발생은 드물어 유두종 혹은 비용종으로 오진하기 쉽고 크기가 큰 경우 편측성 비출혈 등과 같은 임상적 특징으로 악성 종양 또는 혈관 섬유종 등과 감별 진단이 필요하다.[3] 본 증례에서도 이학적 검사와 영상 소견에서 혈관성 종물이 의심되어 출혈의 위험성이 있었지만 악성 종양의 가능성을 배제하기 위해 외래에서 조직검사를 시행하였다. 소엽성 모세관 혈관종은 모든 연령층에서 발생 가능하나 18세 미만에서는 남성, 18~39세 사이에서는 여성에서 많이 나타나며, 39세 이상에서는 성별의 차이가 없

다.[4] 증상으로는 병변이 위치하는 부위의 종물, 출혈, 통증의 순서이며,[4] 일반적으로 급속하게 성장하고 경도의 외상에도 쉽게 출혈한다.[5] 진단은 임상적 양상과 전산화단층촬영 등이 특징적이지 않아 조직학적 소견으로 확진이 가능하지만 비교적 경계가 잘 구분되고 현저한 조영 증가를 보이며 주위 골을 침식하지는 않고 밀고 있는 양상으로 인해 인접한 골의 재배치를 야기할 수도 있다.[6,7] 조직학적으로는 점액섬유종의 기질(fibromyxoid stroma)에 엽상 혈관종이 흩어져 있는 특징을 나타내는데, 염증세포의 침윤, 육아 조직, 점막 표면 궤양 등을 동반하기도 한다.[8] 치료는 병변의 기저부를 완전히 절제하고, 전기 소작 또는 약물 소작을 시행하는 것이 좋고, 완전히 제거하지 않으면 재발한다.[9] 본 증례는 급속히 성장하는 소엽성 모세관 혈관종에 의해 골파괴성 변화가 발생하였고 이로 인해 종양이 뇌의 전두엽으로 침범하여 발생한 염증성 이차병변으로 인해 경막외 농양이 발생한 것으로 생각되며 경막외 농양으로 인해 전두엽의 부종성 병변을 동반하였으나 뇌막 자극 증상이나 특이 신경 증상은 나타나지 않았다. 수술 당시 사골동 상방의 두개저를 침범한 일부 종양은 환자의 연령과 광범위한 수술로 인한 합병증, 이환율 등을 고려하여 신경외과와 협진을 시행하지 않아 완전히 제거하지 못하고 아직 남아 있지만 환자가 특별한 증상을 호소하고 있지 않아 경과관찰 중에 있다. 결론적으로 비강내 소엽성 모세관 혈관종은 드물고 임상적, 방사선학적으로 특징적인 소견이 없어 비용종이나 악성 종양과 감별 진단이 필요하며, 일반적으로 골 침범이 없지만 두개저를 침범하여 두개내 합병증이 발생할 수도 있으므로 주의를 기울여야 할 것으로 생각된다.

Acknowledgments

This work was supported by clinical research grant from Pusan National University Yangsan Hospital 2009.

REFERENCES

1) el-Sayed Y, al-Serhani A. Lobular capillary haemangioma (pyogenic granuloma) of the nose. J Laryngol Otol 1997;111(10):941-5.
2) Mills SE, Cooper PH, Fechner RE. Lobular capillary hemangioma: the underlying lesion of pyogenic granuloma. A study of 73 cases from the oral and nasal mucous membranes. Am J Surg Pathol 1980;4(5):470-9.
3) Park SK, Cho HW, Jang SH, Park CK. Clinical study of lobular capillary hemangioma in nasal cavity. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2000;43(4):402-5.
4) Fechner RE, Cooper PH, Mills SE. Pyogenic granuloma of the larynx and trachea. A causal and pathologic misnomer for granulation tissue. Arch Otolaryngol 1981;107(1):30-2.
5) Nichols GE, Gaffey MJ, Mills SE, Weiss LM. Lobular capillary hemangioma. An immunohistochemical study including steroid hormone receptor status. Am J Clin Pathol 1992;97(6):770-5.
6) Dillon WP, Som PM, Rosenau W. Hemangioma of the nasal vault: MR and CT features. Radiology 1991;180(3):761-5.
7) Lance E, Schatz C, Nach R, Thomas P. Pyogenic granuloma gravidarum of the nasal fossa: CT features. J Comput Assist Tomogr 1992;16(4):663-4.
8) Lee GS, Kwak DH, Kim SW, Lee JD. A case of lobular capillary hemangioma on the nasal septum. J Clinical Otolaryngol 1999;10(2):277-9.
9) Moon SG, Park NB, Kim YS, Kim CG. The pyogenic granuloma on the nasal septum. -2 cases- Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1970;13(4):47-9.