

A Case of Spontaneous Hemorrhage of Ruptured Hemangioma Originated from Carotid Artery

Sang Hyeok Cho¹, Sung Woon Kim¹, Hee Kyung Kim² and Seung Won Lee¹

¹Departments of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, ²Pathology, Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon, Korea

경동맥에서 기원한 혈관종에서 발생한 자연 출혈 1예

조상혁¹ · 김성운¹ · 김희경² · 이승원¹

순천향대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실, ¹ 병리학교실²

Received March 6, 2012

Revised May 6, 2012

Accepted June 8, 2012

Address for correspondence

Seung Won Lee, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Soonchunhyang University College of Medicine, 170 Jomaru-ro, Wonmi-gu, Bucheon 420-767, Korea

Tel +82-32-621-5054

Fax +82-32-621-5016

E-mail lsw0922@schmc.ac.kr

There are various reasons as to why the carotid artery ruptures, which is a life-threatening problem. Although several specific conditions may predispose the carotid artery to rupture, spontaneous carotid bleeding from hemangioma rupture originating from the carotid artery wall is extremely rare. We present a case of a 56-year-old male, with a massive neck swelling without any causes. Contrast enhanced computed tomography revealed a massive hematoma in the region of the left level II, III and linear enhancement leakage from the left common carotid artery. During the emergent neck exploration, we found a few centimeters of reddish mass on the lower part of the carotid bifurcation following massive hematoma removal. This mass is the origin of the massive bleeding and we carefully dissected the mass from the carotid artery without causing any severe bleeding or other complications. The pathologic report revealed that the carotid mass is hemangioma that originates from the carotid artery wall (tunica adventitia). We report, with a literature reviews, this extremely rare case of spontaneous hemorrhage from hemangioma rupture from the carotid artery wall.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2012;55:595-8

Key Words Carotid artery · Hemangioma · Hemorrhage.

서 론

경동맥 출혈을 포함한 경부의 출혈과 혈종은 생명을 위협할 수 있는 응급한 상황으로서, 이 중 대부분은 수술이나, 시술 후에 발생한다고 보고되고 있다. 하지만 이 뿐만 아니라 방사선 치료 및 종양, 감염 등에 의해서도 발생할 수 있으며, 사망률도 3~50%까지 다양하게 보고된다.¹⁻³⁾ 이와 같이 경부의 출혈과 혈종을 일으킬 수 있는 원인들은 매우 다양하지만, 이유 없이 자연 발생하는 혈종(hematoma)은 매우 드물고,⁴⁻⁶⁾ 특히나 혈관종(hemangioma)과 같은 종양으로 인한 경동맥 출혈은 아직까지 보고되지 않고 있다. 저자들은 경동맥에서 발생한 혈관종의 자연 출혈 1예에 대하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

56세 남자 환자가 내원 1주일 전 고등어를 먹은 후 가시가 걸린 느낌과 내원 30분 전 갑자기 심해진 좌측 목이 붓는 증상과 숨쉬기 힘든 증상으로 응급실로 내원하였다. 과거력상 특별한 기저 질환 및 가족력은 없었으며, 계통적 문진 상에서는 열이나 경부 통증 등 상기 주소 이외에는 특별히 호소하는 증상은 없었다. 내원시 생명징후는 혈압이 140/100 mm Hg으로 약간 증가되어 있었고, 체온은 36°, 산소포화도는 94%로 체크되었으며, 이학적 소견상 좌측 경부 level II에 약 5×4 cm 크기의 압통과 열감을 동반하지 않는 부종이 관찰되었다. 전산화단층촬영(computer tomography, CT) 결과 좌측 총경동맥 부위에서 약 1.5 cm 길이로 선형 조영 증강을 보이는 부

분이 있었으며, 인두뒤공간(retropharyngeal space)과 악하선 공간(submandibular space), 경동맥공간(carotid space)에서 광범위하게 조영 감소되어 있는 혈종(hematoma)이 의심되는 부분들이 보이고 있었다(Fig. 1). 이에 좌측 경동맥 부위의 손상이 의심되어 응급으로 좌측 경동맥 혈관조영술을 시행하였으나, 특별한 이상 소견은 보이지 않아(Fig. 2) 수술방에서 응급으로 시험적 개방술을 시행하기로 하였다. 전신마취를 위해 근이완제 투여 후 기관삽관을 시행하기 위하여 입을 벌리는 순간 입 안으로 대량의 출혈이 나오면서, 심정지(cardiac arrest)가 발생하여 응급으로 기관절개술을 시행하였으며, 출혈에 대비하여 수술 중에 지속적인 수혈을 시행하였다. 그 후 입 안으로 혈액을 제거하며 입 안과 후인두벽을 관찰하였으나, 결손 등 특별한 이상 소견은 보이지 않았다. 이후 좌측 경부 level II에 약 7 cm 정도의 횡절개를 시행하였고, 경부 level II와 III에서 대량의 혈종이 차 있는 것을 확인할 수 있었다. Level II와 III의 혈종을 모두 제거한 후 흉쇄유돌근(sternocleidomastoid muscle)을 절친 뒤 경동맥을 노출하였고, 경동맥 분기부 0.5 cm 아래쪽 부위에서 약 1~1.5 cm 정도 크기의 모양이 불규칙한 붉은색 종양이 관찰되었다(Fig. 3A). 종양을 혈관으로부터 박리시 경동맥으로부터 출혈은 심하지 않았으며, 총경동맥 혈관벽은 얇아져 있었으나, 동맥 파열 등의 소견은 보이지 않았

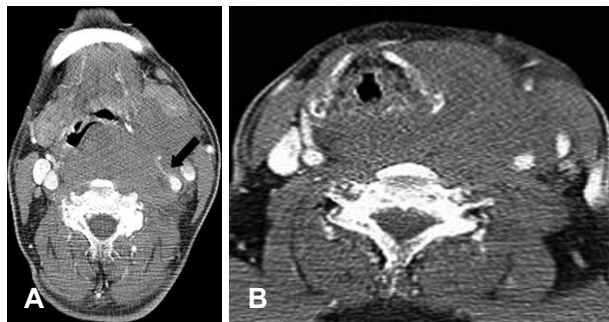


Fig. 1. Neck CT c CE. Left common carotid artery contrast linear leakage (black arrow)(A). Hematoma in left multiple neck space (B).



Fig. 2. Left common carotid angiogram. The findings do not show the specific site of bleeding focus.

다. 종양의 경동맥 내면으로의 침범 여부를 확인하기 위하여 지혈점자(vascular clamp)로 종양 주변 경동맥의 위, 아래를 임시 결찰한 뒤 좌측 총경동맥(common carotid artery)에 종절개(longitudinal incision)를 가한 후 경동맥내의 혈관 내벽을 확인하였으나, 혈관벽으로의 침범 소견은 보이지 않았다(Fig. 3B). 구강내 출혈의 원인을 찾고자 후두 뒷면, 식도, 기관 등에 누공(fistula site) 여부를 확인하였으나, 구강내 출혈이 원

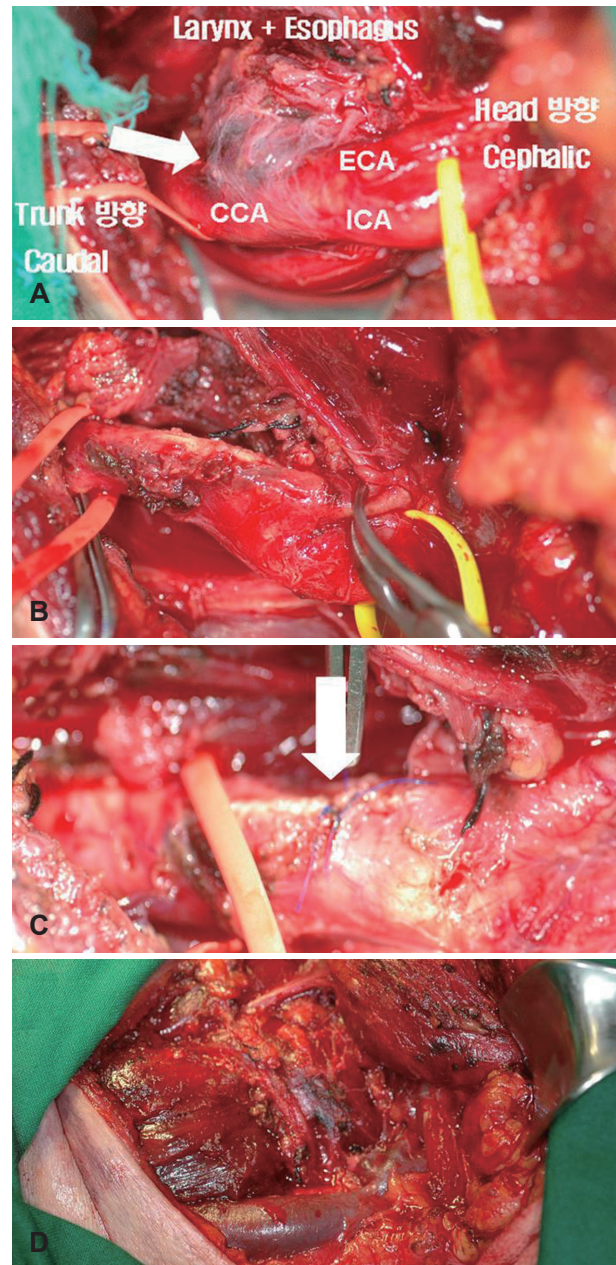


Fig. 3. Operative findings. Carotid vessel wall hemangioma (white arrow)(A). After tumor resection, clamping ECA (B). Repairing of the CCA incision region through the prolene suture (white arrow)(C). Rotation of the SCM muscle and coverage of the operation region (D). ECA: external carotid artery, CCA: common carotid artery, SCM: SternalCleidomastoid muscle, ICA: internal carotid artery.

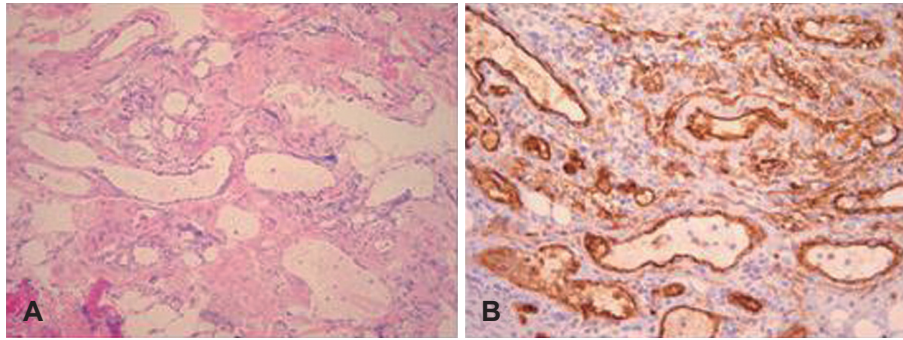


Fig. 4. Pathologic finding. Variable sized ectatic vessels are noted (H&E, $\times 100$)(A). The endothelial cells are CD34 positive ($\times 200$)(B).

인이 되는 누공은 발견되지 않았다. 경동맥 절개부위는 Prolene (Ethicon Inc., Somerville, MA, USA) 5.0실을 사용하여 봉합하였고(Fig. 3C), 술 후 경동맥 보호와 재출혈 방지를 위하여 좌측 흉쇄유돌근 근육과 이의 근막(superior based musculofascial rotation flap of sternocleidomastoid muscle)을 이용하여 종양을 제거하여 약해진 경동맥 앞부분과 후두 뒷면, 식도의 옆면을 덮어주고 수술을 종료하였다(Fig. 3D). 수술 중에 환자의 병력상 보였던 생선 가시 등의 이물질은 발견되지 않았다. 병리 조직 검사에서 종양은 확장된 혈관들로 구성되어 있었고, 내피세포에서 발현된 CD34 항원에서 양성 소견을 보이는 혈관종(hemangioma)으로 확진되었다(Fig. 4). 환자의 수술 소견과 병리소견을 종합하여 본 결과, 환자는 좌측 경동맥의 혈관외벽(tunica adventitia)에서 발생한 혈관종에서의 자연출혈로 확인할 수 있었다.

수술 중의 경동맥 절찰로 인한 술 후 뇌손상 확인을 위해 시행한 뇌 자기공명촬영(brain MRI)에서도 특별한 문제는 보이지 않았으며, 현재 환자는 퇴원 후 6개월 동안 특별한 합병증 없이 경과 관찰 중이다.

고 찰

혈관종은 혈관의 과증식으로 인하여 내피세포에 발생하는 양성 종양으로서, 특별한 원인은 현재까지 밝혀지지 않고 있다. 피부에 발생한 경우에는 쉽게 드러나기 때문에 진단이 쉽지만, 내부 장기들에 발생하는 경우에는 무증상으로 진단이 어려운 경우가 있다. 혈관종은 여러 부위에 생길 수 있으나, 두 경부에 국한되는 경우는 60% 정도이며, 또한 혈관 변형을 초래하는 경우가 많은 것으로 알려져 있다. 증상으로는 크기 증가로 인한 경부 부종 등과 피부 변색 등이 올 수 있으며 내부 침범시 연하곤란이나 애성 등을 보일 수도 있다. 치료로는 경과 관찰을 하며 자연 관해를 기다려 보는 방법과 약물 치료, 냉동 치료, 레이저 치료, 수술적 치료 등이 있으며, 각 시술에 대한 적응증과 예후는 다르다.⁷⁾

본 증례는 혈관종이 내부 장기인 경동맥에 있어서 평소 증세

가 없어 진단하기가 어려웠고, 자연 출혈로 인한 경부의 부종과 혈종으로 시험적 개방술을 시행한 이후에 진단할 수 있었다. 이런 경우 어느 정도 출혈이 되면 혈종이 만들어져 더 이상의 출혈이 중지되어 외관상 출혈이 없는 것처럼 보일 수 있으나, 주변의 기도를 압박하여 기도 유지에 영향을 줄 수 있으므로 경부 부종의 진행 여부를 세심히 관찰해야 한다.

또한 진단을 위하여 전산화단층촬영과 자기공명영상 및 혈관 조영술, 초음파(검사) 등을 시행할 수 있으며,⁸⁻¹⁰⁾ 검사를 진행하는 과정에서도 기도 확보 및 생징후 변화를 잘 관찰하여야 한다.

본 증례와 같이 혈관종 출혈에 의해 경부에 대량의 출혈이 발생한 경우에는 먼저 기도 확보를 시행한 후 수액을 보충하고 필요한 경우에는 수혈해야 하며, 수술실에서 즉각적으로 출혈이 의심되는 부위를 개방하여 원인을 확인해야 한다. 또한 수술시에는 기도 확보를 위하여 기관절개술에 대한 준비가 필요하다. 수술 중에는 경동맥 주변의 혈종 유무를 잘 관찰하고 혈종 제거시 갑작스러운 대량의 출혈이 발생할 수 있다는 점을 유념해야 한다. 출혈의 원인을 찾을 때는 추후 동맥의 절찰가능성을 염두에 두고 외경동맥에서부터 내경동맥, 총경동맥의 순으로 손상을 확인하며, 손상이 확인된 경우에는 필요시 손상 혈관의 제거 및 대복재 정맥(great saphenous vein)이나 고어텍스(Goretex[®], W. L. Gore & Associates, Inc. Flagstaff, AZ, USA) 등을 사용하여 대체할 수 있다. 뇌혈류의 감소를 막기 위하여 경동맥의 횡방향(transverse incision) 보다는 종방향(longitudinal incision)의 봉합이 추천되고 있으며, 필요시 부분적으로 경동맥의 절찰이나 절제 등도 고려되어야 하고, 처치 후에는 근육피판 조직 등을 이용하여 덮어주는 것이 필요하다.^{11,12)}

경동맥 손상 및 그에 대한 절찰을 시행한 경우 가장 흔히 동반될 수 있는 합병증은 혈관의 폐색으로 인한 뇌혈류의 장애를 초래하는 경우이다. 따라서 수술 전, 후로 혈관 조영술 및 도플러 초음파 등을 시행하여 경동맥과 그 분지들의 해부학적 위치와 뇌혈류 장애 등의 여부에 대해 살펴보아야 한다. 또한 CT나 MRI 등의 영상학적 추적 관찰을 통하여 뇌혈류 장

에 등의 합병증 여부에 대한 확인이 필요하다. 어떤 저자들은 경동맥의 봉합 혹은 인조혈관 대체시 무증상의 환자에서도 예방적으로 전신적인 항응고제를 쓰는 것을 권유하기도 하지만,^{13,14)} 안전성과 효율성에 대해서는 논란의 여지가 있다.¹⁵⁾ 따라서 경부 뿐 아니라 발생할 수 있는 뇌병변에 대해서도 추적 관찰이 필요할 것이다.

환자는 1주일 전 고등어를 먹은 후 가시가 걸린 느낌이 있었기 때문에, 초반 문진시에는 날카로운 이물에 의한 혈관 손상의 가능성에 대해서도 술 전에 고려하였으며, 조영제를 사용한 CT에서도 약 1.5 cm 길이의 선형 조영 증강을 보이는 부분에 대해서 날카로운 이물에 의한 경동맥 등 혈관의 손상을 생각해 볼 수 있었으나, 수술시 가시 등의 이물은 발견되지 않았고, 총경동맥 혈관외벽(tunica adventitia)에 발생한 혈관종의 파열에 의한 자연 출혈을 확인할 수 있었다.

본 환자의 술 전에 발생한 구강내 출혈과 이로 인한 심정지는 전신마취 과정에서 사용한 근이완제(Rocuronium®, Han Wha Pharm, Seoul, Korea)로 인하여 근긴장도가 완화되면서 경부 혈종의 압력에 의해 주변의 약한 조직을 뚫고 구강 내로 출혈이 된 것으로 사료되나, 수술 중에 구강 내 출혈의 원인이 되는 누공(fistula) 부위는 확인할 수 없었다.

본 증례를 통하여 경부의 출혈과 혈종을 일으킬 수 있는 원인으로 외상 등의 외부적 요인 뿐만 아니라 혈관종 출혈에 자연 출혈도 하나의 원인이 될 수 있음을 고려하여야 하며, 기도 확보를 위한 철저한 준비 및 대량 출혈에 대한 적극적인 대처가 필요하다. 또한 술 후 합병증의 예방을 위한 적극적인 경부 탐색술(neck exploration)과 함께 수술 후 정기적인 추적 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) Baxter WF. Survival after unplanned carotid rupture. *Laryngoscope* 1979;89(3):385-92.
- 2) Porto DP, Adams GL, Foster C. Emergency management of carotid artery rupture. *Am J Otolaryngol* 1986;7(3):213-7.
- 3) Sanders EM, Davis KR, Whelan CS, Deckers PJ. Threatened carotid artery rupture: a complication of radical neck surgery. *J Surg Oncol* 1986;33(3):190-3.
- 4) Pazardzhikliev DD, Yovchev IP, Zhelev DD. Neck hematoma caused by spontaneous common carotid artery rupture. *Laryngoscope* 2008; 118(4):684-6.
- 5) Seko Y, Yazaki Y, Uchimura H, Isobe M, Tsuchimochi H, Kurabayashi M, et al. A case of Takayasu's disease with ruptured carotid aneurysm. *Jpn Heart J* 1986;27(4):523-31.
- 6) Miyauchi M, Shionoya S. Aneurysm of the extracranial internal carotid artery caused by fibromuscular dysplasia. *Eur J Vasc Surg* 1991;5(5):587-91.
- 7) Zheng JW, Zhou GY, Wang YA, Zhang ZY. Management of head and neck hemangiomas in China. *Chin Med J (Engl)* 2008;121(11): 1037-42.
- 8) Giannoni MF, Irace L, Vicenzini E, Massa R, Gossetti B, Benedetti-Valentini F. Carotid body tumors: advantages of contrast ultrasound investigation. *J Neuroimaging* 2009;19(4):388-90.
- 9) Fox CJ, Gillespie DL, Weber MA, Cox MW, Hawksworth JS, Cryer CM, et al. Delayed evaluation of combat-related penetrating neck trauma. *J Vasc Surg* 2006;44(1):86-93.
- 10) Park MK, Baek SK, Jung EJ, Jung KY. A case of bilateral carotid body tumor. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2006;49(10): 1042-5.
- 11) Kropman RH, de Vries JP, Segers MJ. Surgical repair of a gunshot injury to the left carotid artery: case report and review of literature. *Vasc Endovascular Surg* 2008;42(2):180-3.
- 12) Upile T, Triaridis S, Kirkland P, Archer D, Searle A, Irving C, et al. The management of carotid artery rupture. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005;262(7):555-60.
- 13) Feliciano DV. Management of penetrating injuries to carotid artery. *World J Surg* 2001;25(8):1028-35.
- 14) Ditmars ML, Klein SR, Bongard FS. Diagnosis and management of zone III carotid injuries. *Injury* 1997;28(8):515-20.
- 15) Hacke W, Stinge R, Steiner T, Schuchardt V, Schwab S. Critical care of acute ischemic stroke. *Intensive Care Med* 1995;21(10):856-62.
- 1) Baxter WF. Survival after unplanned carotid rupture. *Laryngoscope*