

A Case of Intraosseous Hemangioma of the Maxilla Bone

Joo Hyun Jung, Byoung Seo Jeong, Seon Tae Kim and Il Gyu Kang

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Gachon University School of Medicine, Gil Medical Center, Incheon, Korea

상악골에 발생한 골내 혈관종 1예

정주현 · 정병서 · 김선태 · 강일규

가천대학교 길병원 이비인후과학교실

Received March 21, 2012

Revised July 30, 2012

Accepted August 16, 2012

Address for correspondence

Il Gyu Kang, MD
Department of Otolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Gachon University
School of Medicine,
Gil Medical Center,
21 Namdong-dearo, 774beon-gil,
Incheon 405-760, Korea
Tel +82-32-460-3324
Fax +82-32-467-9044
E-mail eyik@naver.com

Intraosseous hemangioma is a rare tumor, occurring especially in the maxilla. Because hemangioma is a benign tumor with increased vascularity, some authors call it hamartoma. This tumor originates and expands into bony structures. We experienced a female patient with intraosseous hemangioma of the right maxilla. The tumor was completely removed through a gingivobuccal incision and the feeding vessel was embolized. We report this case regarding the radiologic work-up, differential diagnosis, pathology and treatment with a brief review of the literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2013;56:45-7

Key Words Maxilla · Vascular neoplasm.

서론

골내 혈관종(intraosseous hemangioma)은 혈관증식이 풍부한 양성종양으로 과오종(hamartoma)으로 불리기도 한다.^{1,2)} 골내 혈관종은 골성 구조에서 기원하여 골성 구조로 증식하는 종양으로 대부분 외상 없이 발생하지만 드물게는 외상 후 발생하는 경우도 있다.³⁾ 상악골에서 기원하는 골내 혈관종은 매우 드물며, 소수의 환자들만 보고되어 있다. 골내 혈관종의 방사선학적 소견은 별집모양, 비누거품 모양 등의 전형적인 소견 외에 매우 다양한 형태를 보이며 발치 혹은 조직검사에 의해서 대량 출혈을 일으킬 수 있으므로 병변에 술기를 시행하기 전 충분히 파악하는 것이 중요하다.^{1,4)} 이에 저자들은 비폐색을 주소로 내원한 환자에서 상악골에 발생한 골내 혈관종을 수술로 치험한 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 병리학적 진단 및 치료에 대하여 보고하고자 한다.

증례

31세 여자 환자가 내원 1주일 전부터 발생한 우측 비폐색 주소로 본원에 내원하였다. 환자는 다른 비과적 증상은 호소하지 않았으며, 이학적 검사상 우측 비강 내에 종물과 함께 화농성 비루가 동반되어 있었다. 컴퓨터단층촬영상 양측 전두동 및 접형동은 정상 소견을 보이고 있었으나 양측의 사골동은 부분적으로 연조직 음영을 보이고 있었다. 좌측 상악동은 전체가 연조직 음영으로 채워져 있었으며, 우측 상악동은 부분적으로 연조직 음영을 보였으며 별집모양의 골음영 병변을 보이고 있었다. 양측 부비동개구연합(osteomeatal unit)은 폐색 소견을 보였다(Fig. 1).

환자는 비용을 동반한 만성 부비동염이 의심되어 양측 부비동 내시경 수술을 시행받았다. 좌측 부비동 수술시 특별한 이상이 없었으나, 우측 부비동개구연합 수술시 우측 상악동에서 기원한 것으로 보이는 종물에서 대량의 출혈이 발생하여 일부

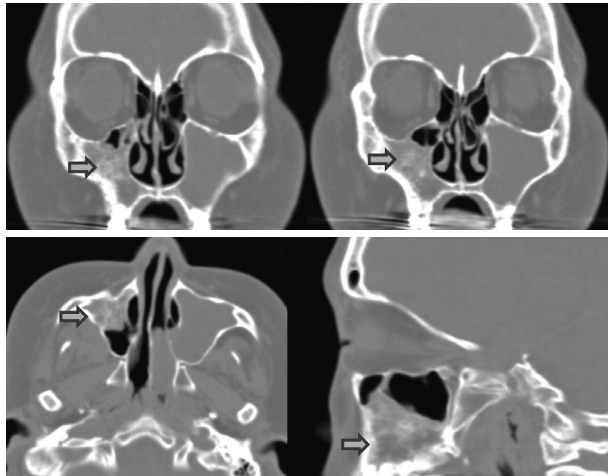


Fig. 1. Coronal, axial and sagittal CT image shows honey comb shaped bony lesion in the right maxillary sinus (arrow).

조직만 채취하고 비강충전을 시행하여 지혈한 다음 수술을 마쳤다. 혈관종 의심하에 1차 수술 다음날 혈관조영술 시행하였다. 저자들은 혈관 조영술을 시행하였으며, 종양의 주 공급 혈관은 내상악동맥이었다. 카테터를 이용하여 우측 내상악동맥 색전술을 시행하고 색전술 시행 다음날 2차 수술을 시행하였다. 전벽의 종물을 완전 절제하기 위하여 잇몸볼주름 절개(gingivobuccal incision)를 통해 접근하기로 결정하였다. 잇몸볼주름을 통해 상악골을 노출시킨 후 상악골 전벽에 발생한 종양을 모두 제거하였다. 조직검사상 좌측 부비동에서 채취한 조직은 만성 염증으로 진단되었으며, 우측 상악동에서 채취한 조직은 혈관종으로 진단되었다(Fig. 2). 최종 조직학적 진단은 상악골에서 기원한 골내 혈관종으로 확인되었으며, 수술 후 2년간 현재까지 재발 소견이나 증상 없이 경과관찰 하고 있다(Fig. 3).

고 찰

골내 혈관종은 매우 드문 종양으로 전체 골성 종양의 1% 이하로 발생하며 가장 흔하게 발생하는 부위는 두개관(calvaria)과 척추(vertebral column)이고 그 외에 협골(zygoma), 안와(orbit), 사골(ethmoid), 상악골(maxilla) 등에서 발생하는 것으로 알려져 있다. 이 중 상악골(maxilla)에서 기원한 혈관종은 특히 드물어 지금까지 국내외에서 모두 7예가 보고되었다.⁵⁾

이 종양은 보통 무통성으로 서서히 증식하며 안면의 변형을 일으킬 수 있다.⁶⁾ 종양이 치조능선(alveolar ridge)을 침범하였을 경우에는 잇몸의 출혈이나 치아가 빠지는 증상이 발생할 수 있으며, 비출혈이나 비폐색, 복시, 감각이상, 안구돌출, 부비동염 증상을 보일 수 있다.⁶⁾ 골내 혈관종은 상악동의 종물로 나타날 수 있으나 주변 골로 확장되거나 주변 골구조를 파괴할 수도 있다.⁷⁾ 또한 혈관종은 조직검사로 인하여 심한 출혈이 발생

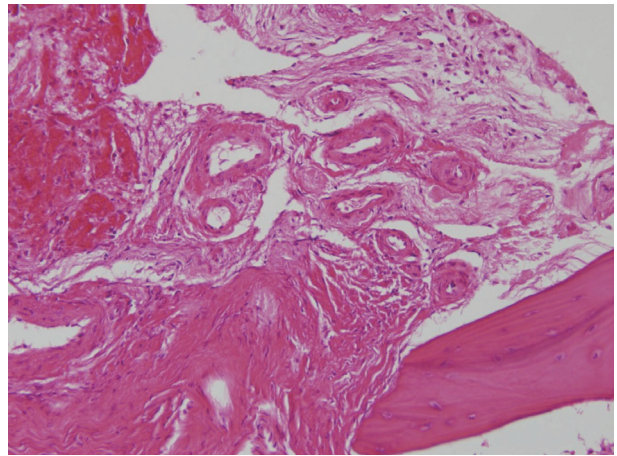


Fig. 2. Pathologic finding (Hematoxylin and Eosin, ×200). Photograph shows bone trabeculae with cavernous endothelial lined blood vessels surrounded by a fibrous stroma.

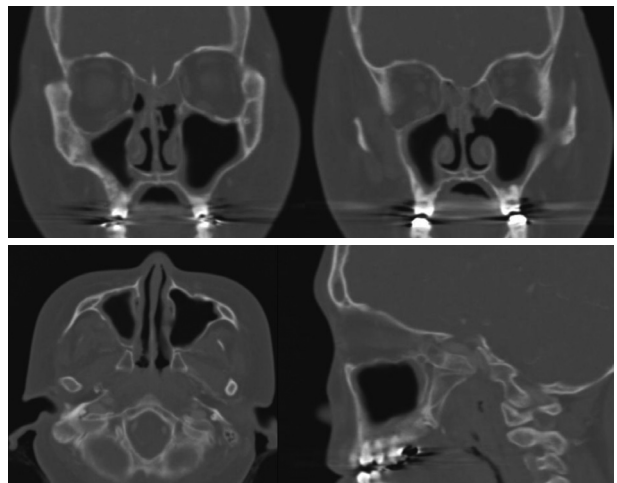


Fig. 3. Coronal, axial and sagittal CT image after second operation.

할 수 있기 때문에 다른 상악골의 병변과 반드시 감별되어야 한다.⁸⁾ 감별되어야 할 질환으로는 뼈 돌출증(exostosis), 호산구성 육아종(eosinophilic granuloma), 섬유형성이상증(fibrous dysplasia), 다발 골수종(multiple myeloma), 유피낭종(dermoid cyst), 유골골종(osteoid osteoma) 등이 있다.⁹⁾

골내 혈관종의 특징적인 방사선학적 소견으로는 벌집모양, 비누거품 모양, 방사형의 골용해성 병변과 다수의 해면공만에 의해 구분되는 벌집모양의 골미란이 있다. 상악동에서 그 형태는 더욱 다양하며, 치원성 혹은 치성 병변이 동반될 수 있다.¹⁰⁾ 실제 병변의 확장된 정도는 단순 방사선 검사에서 저평가될 가능성이 있으므로 병변을 진단할 때 컴퓨터단층촬영(CT)이 필수적인 검사이다.^{7,11)} 몇몇 저자들은 골내 혈관종처럼 혈관이 풍부한 병변을 평가할 때 자기공명영상검사(MRI)가 매우 유용하다고 주장하기도 하였다.¹²⁾

두정부 영역에서 골내 혈관종은 심한 출혈을 일으킬 수 있기

때문에 안구, 코, 기도 등의 중요 구조물 가까이 있을 경우에는 더 적극적으로 치료해야 한다. 또 다른 치료의 적응증은 미용적인 요인과 기계적인 요인이 될 수 있다.⁶⁾ 술 전에 혈관조영술을 시행하여 주공급동맥의 색전술을 시행하는 것은 수술시 출혈을 줄여줌으로써 좋은 시야를 확보할 수 있다. 색전술은 수술이 시행되기 전 48시간 이내에 시행되어야만 종양으로의 결순환을 막을 수 있다.¹³⁾ 수술적 절제가 혈관종의 가장 좋은 치료로 알려져 있으나 증상이 없거나 미미한 골내 혈관종의 경우 수술적 절제가 필요하지 않다. 작은 골내 혈관종의 경우에는 바늘 흡인이 시도될 수 있다.⁶⁾ 일부 저자들은 혈관종의 치료로 방사선 치료가 가장 좋다고 주장하지만 방사선 치료는 조직괴사, 뼈 혹은 치아의 발달장애, 방사선에 의한 육종, 방사선 치료에 의한 혈관종 등의 합병증이 발생할 수 있다는 것을 유의해야 한다.⁶⁾

대부분 종양의 절제 및 골격의 재건술이 시행되거나 보존적으로 소파술이 시행되며 충전을 통한 지혈이 시행된다.^{6,14)} 종양을 제거한 뒤 발생한 비교적 작은 수술부위의 결손은 유경피판 또는 피부이식을 통해 재건될 수 있으나 큰 결손의 경우 대부분 안면골, 늑골 또는 합성물질이 필요하다.¹⁵⁾ 상악골에서 기원한 혈관종은 매우 드문 경우로 국내에는 보고된 바가 없어 상악골에 발생한 혈관종 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Koybasi S, Saydam L, Kutluay L. Intraosseous hemangioma of the zygoma. *Am J Otolaryngol* 2003;24(3):194-7.
- 2) Moore SL, Chun JK, Mitre SA, Som PM. Intraosseous hemangioma of the zygoma: CT and MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2001; 22(7):1383-5.
- 3) Marshak G. Hemangioma of the zygomatic bone. *Arch Otolaryngol* 1980;106(9):581-2.
- 4) Taylor BG, Etheredge SN. Hemangiomas of the mandible and maxilla presenting as surgical emergencies. *Am J Surg* 1964;108:574-7.
- 5) Ghosh LM, Samanta A, Nandy T, Das S. Haemangioma of the maxilla. *J Laryngol Otol* 1988;102(8):725-6.
- 6) Stassi J, Rao VM, Lowry L. Hemangioma of bone arising in the maxilla. *Skeletal Radiol* 1984;12(3):187-91.
- 7) Freeman JL, Shemen LJ, Alberti PW, Holgate R, Pritzker KP, Noyek AM. Ossifying capillary hemangioma of the maxillary and ethmoid sinuses - a case report. *J Otolaryngol* 1981;10(6):481-92.
- 8) Goyal N, Jones M, Sandison A, Clarke PM. Maxillary haemangioma. *J Laryngol Otol* 2006;120(2):e14.
- 9) Cheng NC, Lai DM, Hsie MH, Liao SL, Chen YB. Intraosseous hemangiomas of the facial bone. *Plast Reconstr Surg* 2006;117(7): 2366-72.
- 10) Lund BA, Dahlin DC. Hemangiomas of the mandible and maxilla. *J Oral Surg Anesth Hosp Dent Serv* 1964;22:234-42.
- 11) Ali A, Campbell HD. Central cavernous haemangioma of an edentulous maxilla. *Br J Oral Surg* 1983;21(1):63-8.
- 12) Sweet C, Silbergleit R, Mehta B. Primary intraosseous hemangioma of the orbit: CT and MR appearance. *AJNR Am J Neuroradiol* 1997; 18(2):379-81.
- 13) Zou ZJ, Wu YT, Sun GX, Zhu XP, Meng XZ, He ZQ. Clinical application of angiography of oral and maxillofacial hemangiomas. Clinical analysis of seventy cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1983;55(5):437-47.
- 14) Valentini V, Nicolai G, Lorè B, Aboh IV. Intraosseous hemangiomas. *J Craniofac Surg* 2008;19(6):1459-64.
- 15) Zins JE, Türegün MC, Hosn W, Bauer TW. Reconstruction of intraosseous hemangiomas of the midface using split calvarial bone grafts. *Plast Reconstr Surg* 2006;117(3):948-53; discussion 954.