

# A Case of Reconstruction of Surgical Defect after Removal of Intraosseous Hemangiomas on Nasal Dorsum

Yeon Hoo Kim, Sung Il Cho, Ji Eun Lee, and Ji Yun Choi

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Chosun University, Gwangju, Korea

## 골내 혈관종 제거 후 발생한 비배부 결손 재건 1예

김연후 · 조성일 · 이지은 · 최지윤

조선대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

Received January 17, 2015

Revised May 12, 2015

Accepted May 27, 2015

Address for correspondence

Ji Yun Choi, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

School of Medicine,

Chosun University,

365 Pilmun-daero, Dong-gu,

Gwangju 61453, Korea

Tel +82-62-220-3200

Fax +82-62-225-2702

E-mail happyent@naver.com

Intraosseous hemangioma arising from nasal bone is rare and has not been reported in the Korean literature. Hemangioma of the bone accounts for 0.7% of all bone tumors. The craniofacial region is a rare site of involvement, with mandible, zygoma, and maxilla being the most frequently affected areas. A 63-year-old male patient presented with complaints of a protruding mass on the nasal dorsum that began 10 years ago. Computed tomography demonstrated a round mass with honeycomb appearance involving the nasal bone. An en bloc excision of the mass and nasal reconstruction was performed. Histopathological examination showed increased number of large cystically-dilated vessels with thin wall lying between thin trabeculae of lamellar bone in marrow space. During a one-year follow-up, the patient had no recurrence and cosmetic results were excellent. A case report of an intraosseous hemangioma arising on the nasal bone is described, together with a discussion of the relevant literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2016;59(2):145-9

**Key Words** Nasal bone · Primary intraosseous vascular malformation · Rhinoplasty.

## 서 론

골내 혈관종(intraosseous hemangioma)은 골성 구조에서 기원하여 혈관성 구조로 증식하는 종양으로 그 원인은 알려져 있지 않으며, 외상과 관련이 있다는 보고가 있다.<sup>1)</sup> 혈관종식이 풍부한 양성종양으로 과오종(hamartoma) 또는 혈관기형으로 불리기도 한다.<sup>2)</sup> 모든 골성 종양의 0.7%를 차지하며, 주로 척추와 두개에 발생하지만 두개안면골에서는 매우 드문 것으로 되어 있다.<sup>3)</sup> 안면골에서는 하악골, 협골, 상악골, 전두골과 비강 내 발생이 보고되고 있다. 특히 비골에 발생한 골내 혈관종은 매우 드물며 국내에 아직 보고된 바가 없다.<sup>4,5)</sup> 이 질환은 1845년 Toynbee<sup>6)</sup>에 의해 처음 기술된 드문 양성종양으로 조직학적으로 진단이 되므로 숙련된 병리의사가 아니면 다른 골성 종양과 감별이 쉽지 않다. 하지만 영상학적인 특징들을 숙지하고 있다면 이 질환에 대한 진단을 내리는 데 도움

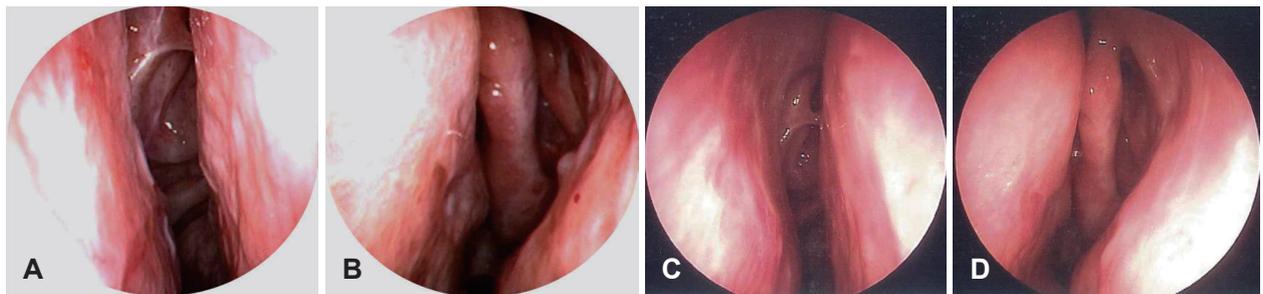
이 된다. 저자들은 비배부에 발생한 골내 혈관종을 체험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

63세 남자 환자가 약 10여 년 전부터 서서히 증가하는 비배부의 무통성의 종괴와 그에 따른 외비변형을 주소로 내원하였다. 종물 외에 다른 코와 관련된 증상은 호소하지 않았다. 외형상 비배부에 돌출한 약 3 cm 가량의 불규칙한 경계를 가지는 단단한 종괴 소견을 보였으며, 비내시경상 특이소견은 보이지 않았다(Figs. 1 and 2). 환자는 내원 12년 전 동일 부위의 종괴로 비강 내 접근을 통한 절제술을 시행한 과거력이 있었으나 조직검사 결과는 기억하지 못했다. 외래 내원 후 시행한 부비동 전산화단층촬영상 비골을 중심으로 하여 별집 모양의 주변부와 경계가 분명한 조영 증강된 약 3×2 cm 크기



**Fig. 1.** Pre- (above) and post-operative (below) facial photos. Preoperative photography shows protruding and irregular round mass on the nasal dorsum (A, B, and C) and postoperative photography shows well-reconstructed nasal dorsum (D, E, and F).

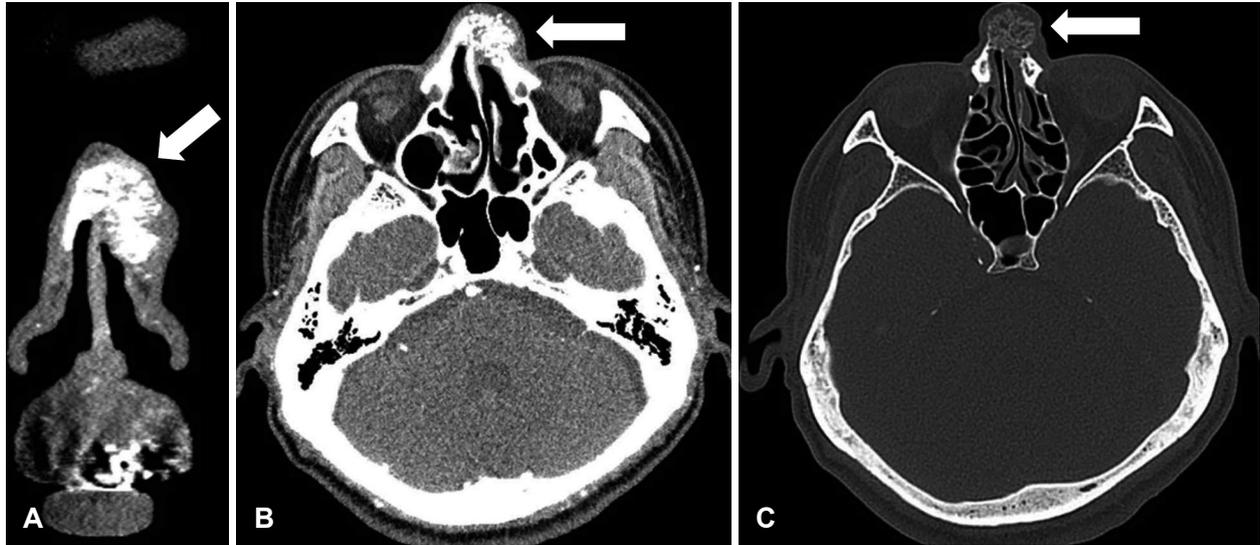


**Fig. 2.** Pre- and post-operative nasal cavity photos. Preoperative endoscopic view show no visible mass in the nasal cavity (A and B). Postoperative endoscopic view show no interval changes (C and D).

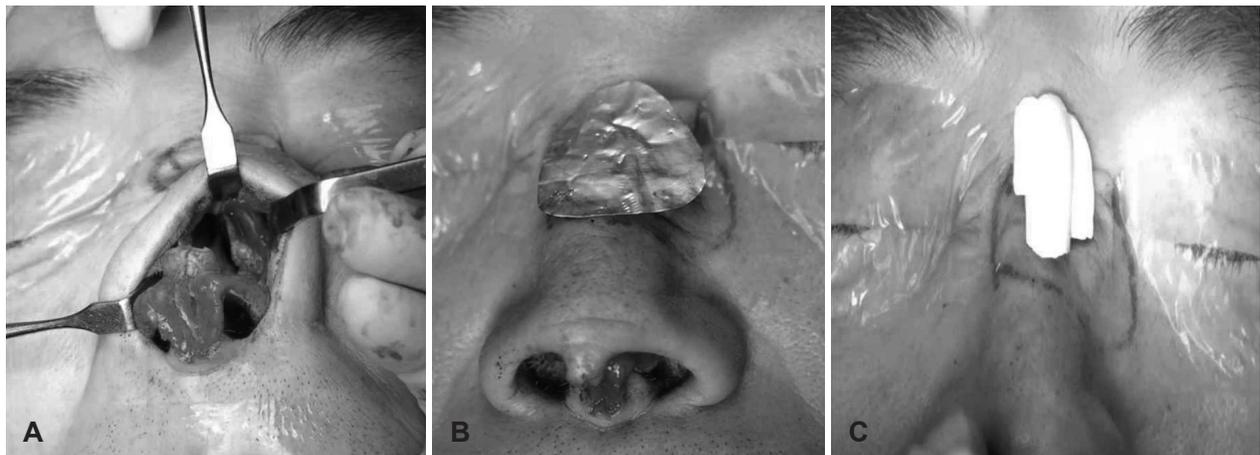
의 종괴가 관찰되었다(Fig. 3). 이전 수술의 조직검사 결과와 영상학적 소견을 고려하여 골종으로 판단하였으며, 전신마취 하에 종괴 절제술 및 절제 후 결손이 우려되는 비삼각의 재건을 계획하였다.

전신마취 하에 통상적인 비성형 외비접근법으로 수술을 진행하였으며, 비배부의 종괴를 노출시킨 후 절골도와 메스, 드릴을 이용하여 종괴를 포함하여 비골, 비중격의 상부(사골의 수직판), 상비인연골의 일부를 절제하였다. 결손부위를 재건

하기 위해서 알루미늄 포일로 결손부위의 크기를 잰 후 이식물의 노출을 막고 이식물의 지지를 위해 우측 귀에서 얻은 귓바퀴연골과 피부를 포함한 복합조직이식과 비중격 연골을 이용하여 비배부의 안쪽 부분을 재건하고, 비근부를 덮어주었다. 함몰된 부위는 Gore-tex sheet를 여러 겹으로 디자인하여 함몰된 부위를 채워주었다. 우측 귀의 공여부는 결손부위가 커 일차봉합이 불가능한 상태로 좌측 귀의 후방에서 피부 이식물을 채취하여 우측 귀의 결손부위를 메꿔주었다. 마지막



**Fig. 3.** Pre-operative computed tomography images. Preoperative coronal (enhanced view) (A). Preoperative axial (enhanced view) CT scan demonstrated 2.5×2 cm sized round lesion (white arrow) arising from the nasal bone. Honeycomb-shaped high bony density lesion on the nasal dorsum can be observed (B and C).



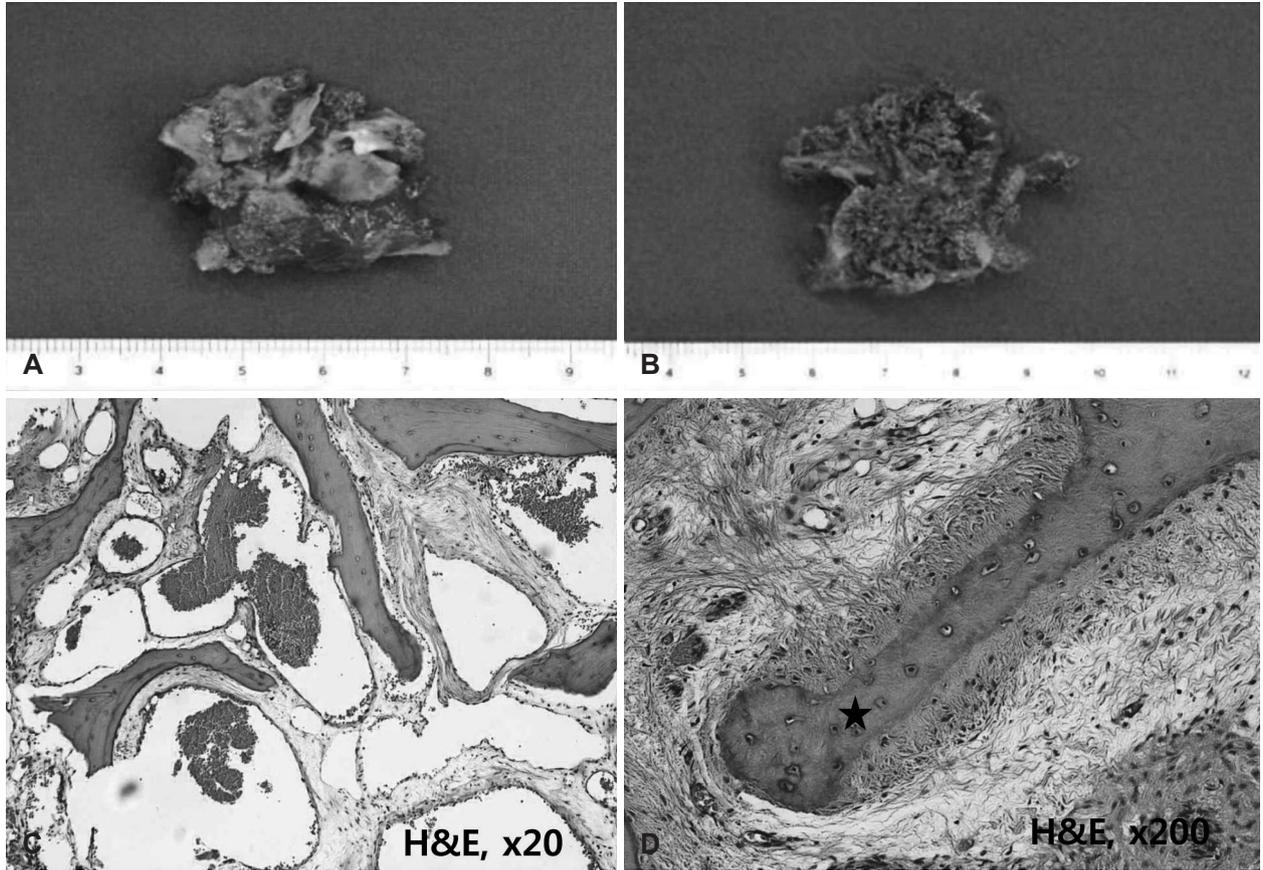
**Fig. 4.** Intraoperative photos. Bone and cartilage defect can be observed (A). Check the defect size using aluminum foil (B). Dorsal augmentation using Gore-tex (C).

으로 좌측 귀는 일차봉합을 시행하였다. 제거된 종괴는 3×2 cm 크기로 단단한 골성 양상의 불규칙한 종괴였고 내부에 벌집 모양의 공간이 존재하였다. 수술 중 심한 출혈 소견은 보이지 않았다(Fig. 4).

병리조직학적 검사상 정상적인 골소주(trabeculae) 및 내피 세포들로 둘러싸여 있는 혈관 통로들이 존재하고 있었고, 최종 조직학적 진단은 골내 혈관종으로 확인되었다(Fig. 5). 수술 시행 2일째 비강 내 패킹을 제거하였으며 5일째 퇴원하여 외래에서 봉합사를 제거하였다. 수술 후 1년이 지난 현재까지 외래 관찰 중이며 특별한 합병증 및 재발의 소견은 보이지 않고 있다.

## 고 찰

일반적으로 혈관종이 어릴 때 발생하는 반면 골내 혈관종은 40~50대에 주로 발생한다.<sup>7,8)</sup> 대부분의 혈관종이 연조직에서 기인한 반면 혈관기형(vascular malformation)은 골성 구조를 침범할 수 있기 때문에 몇몇 저자는 골내 혈관종을 혈관기형 또는 과오종(hamartomas)으로 분류하도록 제안하기도 하였다.<sup>4)</sup> 남자에 비해 여자에게서 3배 정도 많이 발생하며, 고립된 병변으로 좌측에 더 흔하게 발생한다.<sup>9)</sup> 조직학적으로 골내 혈관종은 내부의 혈관망에 따라 정맥(venous)형, 해면체(cavernous)형, 모세혈관(capillary)형으로 나뉘는데, 해면체형은 가장 흔한 형태로 주로 두개골에 발생하며<sup>10,11)</sup> 본 증례의 경우 해면체형이었다. 비강이나 비골에서 발생한 골내 혈관



**Fig. 5.** Gross and microscopic histopathologic appearances of the surgical specimen. A 3.5×3 cm sized dark- reddish bony mass with honeycomb appearance can be observed (A and B). There are increased number of large cystically dilated vessels with thin wall lying between thin trabeculae of lamellar bone in marrow space (H&E stain, ×20) (C). In mid power field, areas of reactive new bone formation (black star) are recognized (H&E stain, ×200) (D).

종은 현재까지 국의 문헌에서 9종레 보고가 되어 있다.<sup>12-14)</sup> 저자들은 본 증례의 종괴가 부드럽고 경계가 불분명하고 압박 시 창백해지는 보라색 병변을 보이는 해면상 혈관종의 특징 보다는 비교적 단단하고, 압박 시 잘 눌리지 않으며, CT 상 골내 혈관종에 합당한 내부 거품 모양과 부분적 골용해 소견을 보였기에, 초기 병리 진단 결과 해면상 혈관종으로 나왔으나 병리과에 재심을 의뢰하여 정확한 진단을 도출하였다.

골내 혈관종을 진단하기 위한 영상학적 검사는 전산화단층촬영(computed tomography, CT)이나 자기공명영상검사(magnetic resonance imaging, MRI)가 이용되며, 특히 CT는 bone window에서 종양의 위치와 범위 등을 더 잘 보여주므로 수술을 계획하고 진단하는 데 더 유용하다. MRI는 주변 조직으로의 침범된 범위를 확인하는 데 도움이 된다. 이 질환의 특징적인 CT 소견으로는 내부에 벌집 모양, 비누거품 모양의 음영을 보이고 부분적인 골미란과 방사 형태의 태양광선 모양의(sun burst appearance) 음영을 보인다.<sup>6,7)</sup> 특히 이러한 방사형태의 골소주는 두개골이나 협골 등에서 발생하는 골내 혈관종에서 특징적이다. 본 증례에서도 종괴 내부에 벌집

또는 비누거품 모양의 골 용해 부위가 관찰되었으나 방사형태의 골 소주는 뚜렷하지 않았다(Fig. 2). T1 강조 자기공명영상에서 골내 혈관종은 비균질의 신호강도를 보이고, 병변의 지방함유 정도나 혈액의 저류에 따라 고신호 강도부터 저신호 강도까지 다양하게 나타난다. T2 강조 자기공명영상에서 골내 혈관종은 고신호 강도를 보인다. 본 증례에서는 CT상의 특징적인 소견으로 골내 혈관종을 의심할 수 있는 상황이었어서 MRI를 추가로 촬영하지 않았다.

수술 중 출혈을 최소화하고 좋은 수술 시야를 확보하기 위해 수술 전 혈관조영술 및 색전술이 시행될 수 있으나 아직까지 논란의 여지가 있다. 크기가 큰 종괴일 경우 혈관조영술 및 색전술을 술 전에 시행할 수 있으나, 작은 종양일 경우에는 혈관의 발달이 미약하거나 거의 확인할 수 없을 정도인 경우도 있기 때문에 반드시 시행할 필요는 없어 보인다. 색전술을 계획한다면 적어도 수술이 시행되기 48시간 이내에 시행해야 종양으로의 결순환을 막을 수 있다. 외래에서 시행하는 절제생검은 다량 출혈의 위험성이 있으므로 조심해야 한다. 본 증례에서는 수술 전 전산화단층촬영상 약간의 조영 증강만 관

찰되어 색전술을 계획하지는 않았고, 실제 수술 중에도 출혈 양이 많지 않았다.

치료는 병변의 완전 절제이지만 해부학적으로 완전한 제거가 힘든 경우에는 잔존하는 병변에 방사선 치료를 할 수 있다.<sup>3)</sup> 그러나 방사선 치료는 조직괴사, 뼈 혹은 치아의 발달장애, 방사선에 의한 육종, 방사선 치료에 의한 혈관종 등의 합병증이 발생할 수 있으므로 신중히 고려되어야 한다. 다른 치료방법으로는 경화요법(sclerotherapy)과 색전술(embolization)이 고식적인(palliative) 치료로서 고려될 수 있다.<sup>4)</sup> 현재까지 보고된 증례 및 우리의 증례에서는 재발의 증거는 없었으나, 추적관찰의 기간이 짧아 이 질환의 정확한 예후를 알기는 어렵다.

대부분 종양의 절제 및 결손부위의 재건술이 시행되며 종양을 제거한 뒤 발생한 비교적 작은 수술부위의 결손은 유경피판 또는 피부이식을 통해 재건할 수 있고, 큰 결손의 경우 안면골, 늑골 또는 합성물질을 이용한 재건이 필요하다.<sup>14)</sup>

Zins 등<sup>14)</sup>은 비골에 발생한 골내 혈관종을 외비 피부에 직접 절개를 가하여 종괴를 절제 후 두개골을 이용하여 콧등의 재건을 시행하였고, Yu 등<sup>15)</sup>은 외비접근법을 통해 종괴를 절제 후 비중격 연골을 이용하여 결손부를 재건하였다고 보고하였다. 이들 모두 재발이나 합병증 없이 좋은 결과를 보였다. 본 증례는 콧등에 발생한 종괴로 인한 미용적 불만족을 주소로 내원한 환자로 외비접근법을 이용하여 종괴를 절제 후 동시에 미용적 재건술을 시행하였다. 종괴를 절제 후 비골이 거의 남아 있지 않고 결손부위가 넓었으며 비강 내로 연결되어 있어 비강 내 점막부와 비골 및 연골부의 재건이 필요하였다. 비강 내 점막부, 비골 및 연골부의 재건을 위해 귀의 후방에서 연골과 피부를 포함한 복합조직이식편을 채취하여 결손부를 재건하고, 미용적 개선을 위하여 고어텍스를 이용한 용비술을 시행하였으며, 수술 후 만족할 만한 결과를 얻었다.

본 증례에서처럼 서서히 자라는 팽창성 골성 종괴가 비배부에 관찰되었을 때 감별해야 할 질환으로는 골종(osteoma), 섬유형성 이상증(fibrous dysplasia), 골화성 섬유종(ossifying fibroma), 수막종(meningioma), 유피낭종(dermoid tumor), 다발성골수종(multiple myeloma), 조직단핵구증(Langerhans cell histiocytosis) 등이 있다. 전형적인 영상학적 특징들이 이러한 종양들을 감별하는 데 도움을 주며, 수술 후 현미조직검사상 정상적인 골소주(trabeculae) 및 내피세포들로 둘러싸

여 있는 혈관 내강이 보이면 감별 진단에 도움이 된다.

요약하면, 비배부에 발생한 골내 혈관종은 매우 드물며 CT 소견이 진단에 도움이 되지만 정확한 진단은 조직검사를 시행하여야 한다. 완벽한 수술적 절제가 가장 효과적인 치료로서 본 증례에서는 외비 성형술 접근법으로 종양을 노출시킨 후 완전절제가 가능하였고, 안면의 종양의 제거 후 비배부의 미용적 재건이 필요하였다. 술 후 재발소견 없이 미용적으로 좋은 결과를 보이고 있어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) Marshak G. Hemangioma of the zygomatic bone. Arch Otolaryngol 1980;106(9):581-2.
- 2) Koybasi S, Saydam L, Kutluay L. Intraosseous hemangioma of the zygoma. Am J Otolaryngol 2003;24(3):194-7.
- 3) Peterson DL, Murk SE, Story JL. Multifocal cavernous hemangioma of the skull: report of a case and review of the literature. Neurosurgery 1992;30(5):778-81; discussion 782.
- 4) 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.
- 5) Fahmy FF, Back G, Smith CE, Hosni A. Osseous haemangioma of inferior turbinate. J Laryngol Otol 2001;115(5):417-8.
- 6) Toynbee J. An account of two vascular tumours developed in the substance of bone. Lancet 1845;2:676.
- 7) Sherman RS, Wilner D. The roentgen diagnosis of hemangioma of bone. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1961;86:1146-59.
- 8) Valentini V, Nicolai G, Lorè B, Aboh IV. Intraosseous hemangiomas. J Craniofac Surg 2008;19(6):1459-64.
- 9) Sargent EN, Reilly EB, Posnikoff J. Primary hemangioma of the skull. Case report of an unusual tumor. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1965;95(4):874-9.
- 10) Adler CP, Wold L. Haemangioma and related lesions. In: Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F, editors. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of tumours of soft tissue and bone. Lyon: IARC Press;2002. p.320-1.
- 11) Suss RA, Kumar AJ, Dorfman HD, Miller NR, Rosenbaum AE. Capillary hemangioma of the sphenoid bone. Skeletal Radiol 1984; 11(2):102-7.
- 12) Bridger MW. Haemangioma of the nasal bones. J Laryngol Otol 1976;90(2):191-200.
- 13) Neivert H, Bilchick EB. Primary hemangioma of the nasal bone. Arch Otolaryngol 1936;24(4):495-501.
- 14) 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.
- 15) Yu MS, Kim HC, Jang YJ. Removal of a nasal bone intraosseous venous malformation and primary reconstruction of the surgical defect using open rhinoplasty. Int J Oral Maxillofac Surg 2010;39 (4):394-6.