

## 이개에 발생한 동정맥기형 3례

부산대학교 의과대학 이비인후과학교실  
서정출·김재욱·고의경·전경명

### Three Cases of Arteriovenous Malformation of the Auricle

Jung Chul Suh, M.D., Jae Wook Kim, M.D.,  
Eui Kyung Goh, M.D., Kyong Myong Chon, M.D.

*Department of Otolaryngology, College of Medicine,  
Pusan National University*

= Abstract =

Arteriovenous malformations, having direct communication between artery and vein without capillary connections, mainly locates in intracranial portion, lungs and kidneys. It has been reported that arteriovenous malformations develop mainly from trauma and that congenital arteriovenous malformations are rare in the head and neck. Acquired arteriovenous malformations mainly develops from trauma and usually have only one arteriovenous shunt, but congenital arteriovenous malformations have several arteriovenous shunts.

Authors have experienced two cases of congenital arteriovenous malformations and one case of traumatic arteriovenous malformation of auricle and reported these cases with a brief literatures review.

KEY WORDS : Arteriovenous Malformations · Auricle.

## 서 론

동정맥기형은 모세혈관의 연결없이 동맥과 정맥이 직접 교통되어 형성되는 것으로 주로 두개내, 폐, 신장 등에 호발한다. 1757년 Hunter가 본종의 증상과 병태생리에 대하여 처음으로 보고하였으며, 선천성과 후천성으로 대별되며 선천성으로 발생한 동정맥기형은 여러개의 동정맥문합을 가지지만 후천성 동정맥기형은 한개의 동정맥문합을 가지는 것으로 알려져 있다. 두경부영역에서는 주로 외상에 의해 발생하며, 선천성으로 발생하는 경우는 드문 것으로 알려져 있다. 본교실에서는 최근 이개에

발생한 선천성 동정맥기형 2례와 외상에 의하여 이개에 발생한 것으로 생각되는 후천성 동정맥기형 1례를 수술적으로 치험하였기에 보고하고자 한다.

## 증 례

증 례 : 1

환 자 : 정○봉, 남자, 34세

초진일 : 1988년 11월 24일

주 소 : 좌측 이주전방의 박동성 종물

현병력 : 내원 2년전에 좌측 안면에 외상을

받은 이후로 8개월전에 좌측 이주전방에서 암적색 박동성 종물을 발견하였으나 치료없이 지나다가 2개월전부터 간헐적인 동통이 발생하여 개인 의원에서 혈관종으로 진단받고 본원 이비인후과에 내원하였다. 내원당시 경도의 동통을 호소하였으나 그 외 특기할 증상은 없었다.

과거력 및 가족력: 특기 사항 없음.

이학적 소견: 진신상태는 양호한 편이었으며 국소소견상 좌측 이주전방에 직경이 약 1.5cm의 암적색 박동성 동통성 종물외에는 고막, 비, 구강, 인두, 후두 및 경부에는 이상소견이 없었다.

임상검사소견: 흉부 X-선 소견, 유양동 X-선 소견, Stenver's view 등에서는 특별한 소견이 없었고 좌측 경동맥 혈관조영술(transfemoral carotid angiography, TFCA)을 실시한 결과 좌측 이개부위에 천측두동맥(superficial temporal artery)과 후이개동맥(posterior auricular artery) 및 안면동맥(facial artery)에 의하여 혈류를 공급받으며 모세혈관과의 교통없이 직접 정맥으로 배출되는 종물의 소견을 보였다(Fig. 1).

수술소견: 이상의 소견으로 이개에 발생한

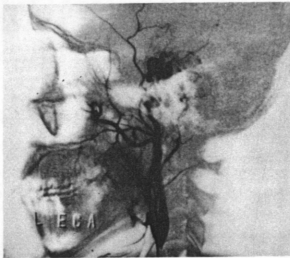


Fig. 1. Lateral view of left transfemoral carotid angiography(TFCA) demonstrate arteriovenous malformation involving superficial temporal, posterior auricular, and facial arteries.

후천성 동정맥기형으로 진단하고 진신 마취하 좌측 이개 전방에서 약 4cm 정도의 수직절개를 가한 후 종류에 혈류 공급을 하는 두개의 동맥을 확인하고 각각 약 1cm 원위부에서 절단하여 결찰하고 종류를 제거하였다.

술후경과: 합병증 없이 술후 7일째 발사하였으며 술후 8일째 퇴원하였다.

병리조직소견: 다양한 크기의 동맥과 정맥이 관찰되며 동맥내막이 두꺼워져 있었고 혈관내에는 혈전이 관찰되었다(Fig. 2).

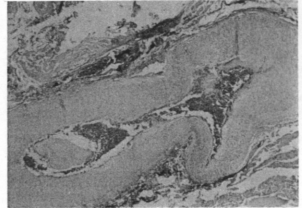


Fig. 2. Microscopic finding of AVMs reveals various size of artery & vein, thickened intima and thrombus formation in the lumen of the vessels. H & E stain(left 40x)

증례: 2

환자: 박○권, 남자, 19세

초진일: 1990년 5월 30일

주소: 우측이개의 박동성 종물 및 우측 측두골 부근의 모반

현병력: 출생시에 이미 우측 이개 상부에 1×2cm의 종물이 인지되었으며 처음에는 측두골 부근에서 점차 이개쪽으로 종물이 커져 왔으나 특별한 치료는 받은 적이 없었다. 6년전부터는 간헐적인 출혈과 동통이 발생하여 1990년 5월초 마산 모 병원을 거쳐 본원 이비인후과를 내원하였다.

과거력 및 가족력: 특기 사항 없음.

이학적 소견: 진신상태는 양호한 편이었으며 우측이개에 3×1.5cm의 박동성 동통성 종

류와 전방에 3×4cm의 모반이외에는 고막, 비, 구강, 후두, 인두 등에는 특이소견 없었다.

임상검사소견 : 흉부 X-선 소견, 유양동 X-선 소견, Stenver's view 등에서는 특별한 소견이 없었으나 우측 경동맥혈관 조영술을 실시한 결과 우측 이개의 종류는 천측두동맥과 후이개동맥에 의하여 혈류를 공급받으며 모세혈관과의 교통없이 직접 정맥으로 배출되는 소견을 보였다(Fig. 3).

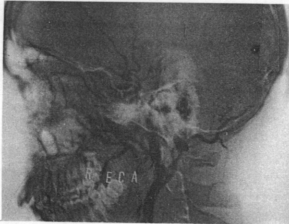


Fig. 3. Lateral view of right transfemoral carotid angiography(TFCA) demonstrates arteriovenous malformation involving superficial temporal, posterior auricular arteries.

수술소견 : 이상의 소견으로 이개에 발생한 선천성 동정맥기형으로 진단하고 전신 마취하에 우측 이개 전방, 이주(tragus)에서 이륜(helix)에 평행하게 약 3.5cm 정도의 수직절개를 가한 후 박리를 하여 종류에 혈류 공급을 하는 두개의 동맥을 확인하고 두개의 혈관을 종류의 약 1cm 원위부에서 절단하여 결찰하고 종류를 제거하였다.

술후경과 : 술후 8일째 발사하였으며 술후 11일째 수술창상의 감염이 있어 재봉합하고 술후 16일째 퇴원하였다.

병리조직소견 : 종례 1과 비슷한 소견으로 동맥과 정맥으로 보이는 인접부위에 서로 연결된 동정맥 기형의 소견을 보였다(Fig. 4).

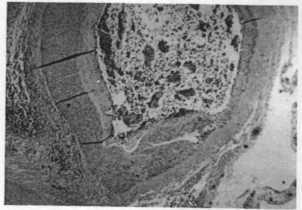


Fig. 4. Microscopic finding of AVMs reveals various size of artery & vein, thickened intima and thrombus formation in the lumen of the vessels. H & E stain(left 40×)

### 증 례 : 3

환 자 : 최○희, 여자, 12세

초진일 : 1991년 7월 9일

주 소 : 우측이개의 박동성 종창

현병력 : 상기 환자는 5년전부터 우측이개가 서서히 커지면서 박동성 발적, 종창이 있어 개인 의원을 거쳐 본원 이비인후과로 전원되었으며 전원당시 특기할 귀증상은 없었다.

과거력 및 가족력 : 특별한 소견 없음.

이학적 소견 : 전신상태는 양호한 편이었으며 우측이개 전체에 박동성의 종창과 적자색의 색소침착이 있었다(Fig. 5). 우측 이개의 장축은 6.5cm이었고 좌측 이개는 5cm이었다. 비, 구강, 후두, 인두 등에는 특이소견 없었다.

임상검사소견 : 흉부 X-선 소견, 유양동 X-선 소견, Stenver's view 등에서는 특이 소견 없었으나 술전 우측 경동맥혈관 조영술에서 우측이개의 종류에 우측 천측두 동맥과 후이개동맥 및 후두동맥에 의하여 혈류를 공급받으며 모세혈관과 연결 없이 동맥에서 직접 정맥으로 배출되는 소견을 보였으며(Fig. 6), MRI를 촬영한 결과 우측이개부위의 종대 및 signal-void로 나타나는 혈관 음영의 이상 위치 이외에 두개내 병변은 없었다(Fig. 7).

수술소견 : 이상의 소견으로 선천성 동정맥

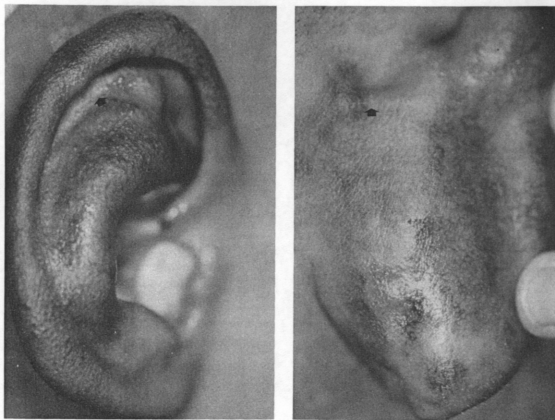


Fig. 5. Anterior and posterior surface of right auricle reveal enlargement and reddish-violet hyperpigmentation. Arrows indicate pulsating dilating arteries.



Fig. 6. Preoperative A-P and lateral views of right transfemoral carotid angiography(TFCA) demonstrate arteriovenous malformation involving superficial temporal, posterior auricular, and occipital arteries.



Fig. 7. Postoperative A-P view of right trans-femoral carotid angiography(TFCA) demonstrates blind ends of arteriovenous malformation involving superficial temporal, posterior auricular, and occipital arteries.

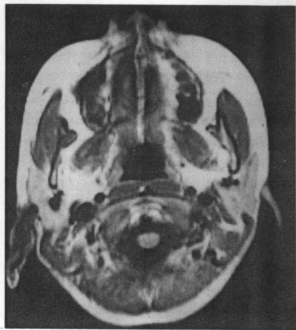


Fig. 8. MRI finding reveals enlargement of right auricle & abnormal location of signal-voided vessel.

기형으로 진단하고 전신 마취하에서 우측 이개 하부의 변연을 따라 전, 후방으로 평행하게 약 3.5cm 정도의 절개를 가하고 박리를 하여 정맥을 먼저 절찰한 후 종류에 혈류 공급을 하는 세개의 동맥을 확인하고 세개의 혈관을 약 1 cm 원위부에서 절단하고 절찰하였다.

슬후경과 : 슬후 8일째까지 우측이개의 크기는 줄어들지 않았으나 이개의 피부색은 호전되었으며 슬후 8일째 발사하였다. 슬후 13일째 슬후 우측 경동맥 혈관조영술을 실시한 결과 우측 이개의 종류에 우측 천측두동맥과 후이개동맥 및 후두동맥의 맹단만 관찰될 뿐 슬전의 이상소견은 관찰되지 않았다(Fig. 8).

## 고 찰

동정맥기형은 동맥과 정맥이 모세혈관의 연결없이 직접 교통되는 것으로 1757년 Hunter<sup>9)</sup>에 의해 최초로 보고된 이래 이러한 소견을 나타내는 질환에 대하여 많은 명칭이 사용되어 왔다. Shafer<sup>10)</sup>는 arteriovenous fistula or arteriovenous malformation이라는 명칭을 사용하

였고 Desprez등<sup>5)</sup>은 해면상 혈관종과 congenital arteriovenous malformation과의 조직학적 차이는 종양내의 대혈관에 탄성섬유층(내탄성판이나 외탄성판)의 유무에 있다고 하며, 탄성섬유층이 있는 것은 동정맥기형이라고 하였다. 그 외 congenital arteriovenous malformation도 arteriovenous aneurysms, aneurysm by anastomosis, plexiform angioma, cavernous angioma라고 불리기도 한다.

원인은 선천성과 후천성으로 대별하고 후천성의 경우는 통상 외상, 수술, 악성종양 및 동맥류에 의해 일어나며<sup>13)</sup>, 동정맥문합이 1개인 경우가 많은 반면, 한편 선천성의 경우는 태생기에 혈관내피원기의 동맥과 정맥으로의 분화과정의 실패에 기인하며<sup>8)</sup> 여러개의 동정맥문합을 갖고 있는 경우가 많다<sup>20)</sup>. 두개내를 제외한 두경부영역에서는 선천성의 보고가 압도적이다. Devine<sup>6)</sup>은 선천성인 것인지 후천성인 것인지를 감별점으로서, 선천성인 것은 동정맥문합이 여러 곳에서 보이거나 후천성의 것은 하나이며, 후천성의 경우 전신적인 영향이 크다고 주장하고 있다. 본 증례에서도 선천성이라고

생각되는 증례 2와 증례 3의 경우는 2개 이상의 동정맥문합이 보이고, 전신적인 영향 즉, 혈압, 맥박수의 변화, 심확대, 심부전등의 전신적인 실험관계 이상 소견은 보이지 않는 것으로 보아 Devine<sup>6)</sup>의 보고와 유사하였다. 선천성인 경우 그 증상은 생후 얼마동안 발현하지 않을 때가 많고, 화상이나 감염, 호르몬 변화 등의 혈류역학에 변화를 일으키는 인자에 의하여 처음으로 증상이 나타나는 것으로 생각하고 있다<sup>13)</sup>.

동정맥기형의 혈류역학에 대해서 Devine<sup>6)</sup>은 그림 9와 같이 동정맥기형의 혈류와 정상순환 사이에는 말초동맥저항에 큰 차이가 있다고 하였다. 즉 동정맥기형이 shunt라는 점을 생각하면 그 말초혈관저항이 정상순환에 비해 낮아지게 되어 혈류는 동정맥문합쪽에 우선적으로 흐르며, 그 결과 적절한 말초의 순환과 혈압의 유지를 위해 심박출량과 순환혈류량의 증가를 초래하게 된다. 이 순환혈류량의 증가는 동정맥문합부의 혈압과 정상순환의 혈압이 동등하게 될때까지 계속되어 심확대, 심부전, 혈압의 변화등의 소견을 나타내게 된다. 그러

나 저자들이 경험한 3례에 있어서는 심확대 및 심부전의 증상인 간종대, 빈맥, 호흡곤란등이 나타나지 않았다. 이는 동정맥문합 자체가 전신 혈류에 영향을 줄 만큼 크지 않았기 때문이라고 여겨진다.

두경부영역의 호발혈관으로서 선천성의 경우 외경동맥과 내상악동맥이 많으며 외상성의 경우는 천측두동맥과 추골동맥이 많다<sup>14)</sup>. 증상은 발생부위에 따라 다르지만 특징적인 것은 박동을 동반한 부드러운 종물이며 그 부위에 잡음(bruit)을 확인할 수 있다. 그의 열감, 쾌양, 출혈, 혈종, 동통, 감염 및 정맥의 확장등이 있고, 귀 가까운 부위에서는 이명<sup>1)</sup>, 악동맥영역에서는 구강내출혈, 치은출혈, 안동맥영역에서는 안구출혈, 시력장애 등의 증상이 발생할 수 있다. 진단은 수반된 이학적 소견 및 혈관조영술에 의해 확진할 수 있으며 혈관조영술상 혈관농축상이 특징적인 소견이지만 혈관종으로 나타나기도 한다. 동정맥의 문합에 의해 확장된 수입동맥과 수출동맥을 확인하는 것이 중요하며, 그의 병변부위로 빠른 조영제의 유입이나 정맥의 조기조영 등도 중요한 소

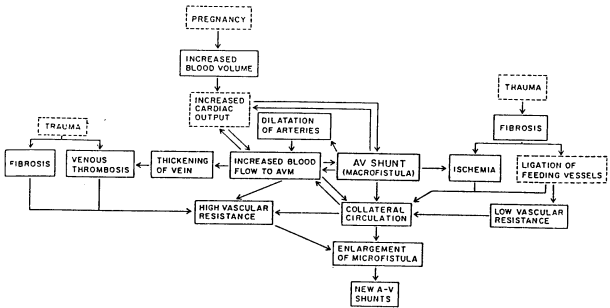


Fig. 9. Hemodynamic factors in congenital AV shunts(macrofistulae). A variety of extrinsic(dashed boxes) and intrinsic and interdependent factors contribute to enlargement and/or recurrent A-V malformations(central box). (Adopted from Ref. 10)

견이다. 저자들이 경험한 3례에 있어서도 혈관 농축상은 물론 병변부로의 빠른 조영제의 유입, 정맥의 조기조영조건, 확장된 수입동맥과 수출동맥이 확인되어 동정맥문합이라고 진단할 수 있었다. 그의 진단법으로서는 high-resolution CT, MRI, thermography, ultrasonography 및 심박출량의 측정도 필요하다. 동정맥문합의 병리조건은 Petrovsky와 Milonov<sup>17)</sup>의 동물실험 model에 의하면 혈류상태의 변화에 의한 형태학적인 변화로 동맥은 정맥에 정맥은 동맥과 유사한 형태로 변해간다고 보고하였다.

동정맥문합은 자연적 소실은 드물며 외과적인 치료가 원칙이다<sup>18)</sup>. 치료에는 적출술, 수입동맥의 결찰, 전기소작술<sup>4,7,8,21)</sup> 및 동맥내색전술 등이 이용된다. 동맥내색전술에는 polyvinyl alcohol foam or ivalon, gelatin sponge or gel-foam, autogenous muscle등이 사용되며 증상의 완화와 혈류감소를 가져와 수술을 용이하게 하며 적출불가능한 종류도 적출을 가능하게 해준다<sup>2,17,20)</sup>. 수술방법은 병변부와 교통하는 동맥과 정맥부위를 모두 결찰하여 병변부를 적출하는 것이 원칙이며<sup>18)</sup>, 근위단과 원위단을 결찰하거나 수입동맥만을 결찰할 경우에는 측부 혈행로를 증가시켜 종류의 증대가 일어날 수 있다. 이는 동정맥문합이 형태학적 특성으로서 동정맥문합 자체로 혈관조영에서 나타난 굵은 fistula인 macrofistula 외에 microfistula를 가지고 있기 때문이라고 한다<sup>3,4,18,21)</sup>. Kuhne과 Helmeke<sup>11)</sup>는 간, 그리고 신장의 출혈혈관에 Etibloc으로 전색시키면 지혈에 유효하다는 점에 착안하여 두경부영역의 혈관성 종양의 치료에 응용하여 좋은 성적을 얻었다고 보고하였다. 矢野<sup>22)</sup>은 방사선 요법이 microfistula의 감소를 가져올 수 있다고 보고하였다. 이상 기술한 바와 같이 본질환의 치료에는 많은 방법이 보고되고 있으나 결국 완전한 치료는 이 질환의 해부학적 특성으로 보아서 수술요법이라고 생각되었다.

## 결 론

저자들은 최근 이개에 발생한 선천성 동정맥기형 2례와 외상에 의하여 이개에 발생한 것으로 생각되는 후천성 동정맥기형 1례를 수술적으로 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

## References

- 1) 박영철, 최은창, 소병헌 등 : 천측두동정맥기형에 의한 타각적이명 치험 1례. 한이인지 31 : 473~475, 1988.
- 2) Bennett JE, Zook EG : Treatment of arteriovenous fistulas in cavernous hemangiomas of face by muscle embolization. Plast Reconstr Surg 50 : 84~87, 1972.
- 3) Coleman CJ : Diagnosis and treatment of congenital arteriovenous fistulas of the head and neck. Am J Surg 126 : 557~565, 1973.
- 4) Coursley G, Ivins JC, Barker NW : Congenital arteriovenous fistulas in the extremities. An analysis of sixty-nine cases. Angiology 7 : 201~209, 1956.
- 5) Desprez JD, Krehn CL, Vlaston C, et al : Congenital arteriovenous malformation of the head and neck. Am J Surg 136 : 424~429, 1978.
- 6) Devine KD : Congenital arterio-venous fistula of the head and neck. Plast Reconstr Surg 23 : 273~285, 1959.
- 7) Gardner AMN, Stewart IA : Treatment of arteriovenous malformation by endarterial electrocoagulation. Br J Surg 59 : 146~168, 1972.
- 8) Gomes MM, Bernatz PE : Arteriovenous fistulae ; a review and ten year experience at the Mayo clinic. Mayo Clin Proc 45 : 81~102, 1970.
- 9) Hunter W : The history of an aneurysm of the aorta with some remarks on

- aneurysms in general. *Med Obs Soc Phys* 1 : 323~358, 1757.(cited from 13)
- 10) Hurwitz DJ, Kerber CW : Hemodynamic considerations in the treatment of arteriovenous malformations of the face and scalp. *Plast Reconstr Surg* 67 : 421~432, 1981.
  - 11) Kuhne D, Helmke K : Embolization with "Ethibloc" of vascular tumors and arteriovenous malformations in the head and neck. *Neuroradiology* 23 : 253~258, 1982.
  - 12) Leikensohn JR, Epstein LI, Vasconez LO, et al : Superselective embolization and surgery of noninvoluting hemangiomas and A-V malformations. *Plast Reconstr Surg* 68 : 143~152, 1981.
  - 13) Malan E, Azzolini A : A congenital arterio-venous malformations of the face and scalp. *J Cardiovasc Surg* 9 : 109~140, 1968.
  - 14) 松岡明裕, 稲木勝英, 原田 宏一, 也 : 右頸下部に発生した動静脈瘻 症例. *耳鼻臨床* 82 : 257~263, 1989.
  - 15) Olcott C, Newton TH, Stoney RJ, et al : Intra-arterial embolization in the management of arteriovenous malformations. *Surgery* 79 : 3~12, 1976.
  - 16) 大浦武彦 : 血管腫について. *成形外科* 17 : 393~398, 1974(cited from 13)
  - 17) Petrovsky BV, Milonov OB : 〈Arteriallization〉 and 〈venization〉 of vessels involved in traumatic arteriovenous fistulae ; aetiology and pathogenesis. *J Cardiovasc Surg* 8 : 396~407, 1967.
  - 18) Rappaport I, Rappaport J : Congenital arteriovenous fistula of the maxillofacial region. *Am J Surg* 134 : 39~48, 1977.
  - 19) Shafer WG : A text book of oral pathology(ed. 3rd). pp. 142~149, WB Saunders Co, Philadelphia, 1972(cited from 13)
  - 20) Stucker FJ : Extracranial arteriovenous fistulas. *Laryngoscope* 84 : 970~975, 1974.
  - 21) Szilagyi DE, Elliott JP, DeRusso FJ, et al : Peripheral congenital arteriovenous fistulas. *Surgery* 57 : 61~81, 1965.
  - 22) 失野 純, 牛島 達次郎, 船坂 宗太郎, 也 : 頬部に生じた arterio-venous malformation の一例. *日耳鼻* 84 : 1439~1446, 1978.