臨床耳鼻：第8卷·第1號·1997
Clin. Otol. pp 140~145
Vol. 8, No. 1, 1997

임신중에 발생한 혈관섬유종 2례

한림대학교 의과대학 이비인후과학교실
김현웅·소상훈·정인교·임현준

=Abstract=

Two Cases of Angiofibroma in the Nasal Cavity of the Pregnant Woman

Hyun Ung Kim, M.D., Sang Hoon So, M.D.,
Yin Gyo Jung, M.D., Hyun Joon Lim, M.D.
Department of Otorhinolaryngology, College of Medicine, Hallym University

Angiofibroma is a uncommon, non-metastasizing, highly vascular, benign tumor, but clinically considered as a malignancy because of invasiveness to surrounding structures, bleeding tendency during surgery and high recurrence rate. It occurs usually in the posterolateral wall of nasopharynx in adolescent males. It occurs rarely in females, especially in pregnant woman.

Recently we experienced two rare cases of angiofibroma occurred in the nasal cavity of 25 years and 27 years pregnant woman.

KEY WORDS : Angiofibroma · Pregnant woman

서 론

혈관섬유종은 이비인후과 영역에서 발생하는 종양중 비교적 드문 종양으로 주로 비인강 내에서 발생하며, 영양혈관이 풍부하고 조직학적으로 혈관조직과 결체조직성분이 혼합되어 있는 양성 종양이나, 주위조직으로 침윤을 잘하며 경계가 불분명하고, 적출시의 과다한 출혈, 불완전한 적출시 높은 재발율 등으로 임상적으로는 악성종양으로 취급되고 있다. 청년기의 남자에서 주로 발생하며, 여성의 경우에 발생한 보고는 아주 희귀하다.

저자들은 최근 임신중에 발생한 혈관섬유종 2례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

증례1

환 자 : 김○덕, 27세, 여자
초진년월일 : 1996년 2월 24일
주 소 : 잦은 비출혈, 점진적 우측 비폐색
가족력 : 특이사항 없음.
과거력 : 특이사항 없음.
현병력 : LMP가 1995년 5월 9일이었고 EDC

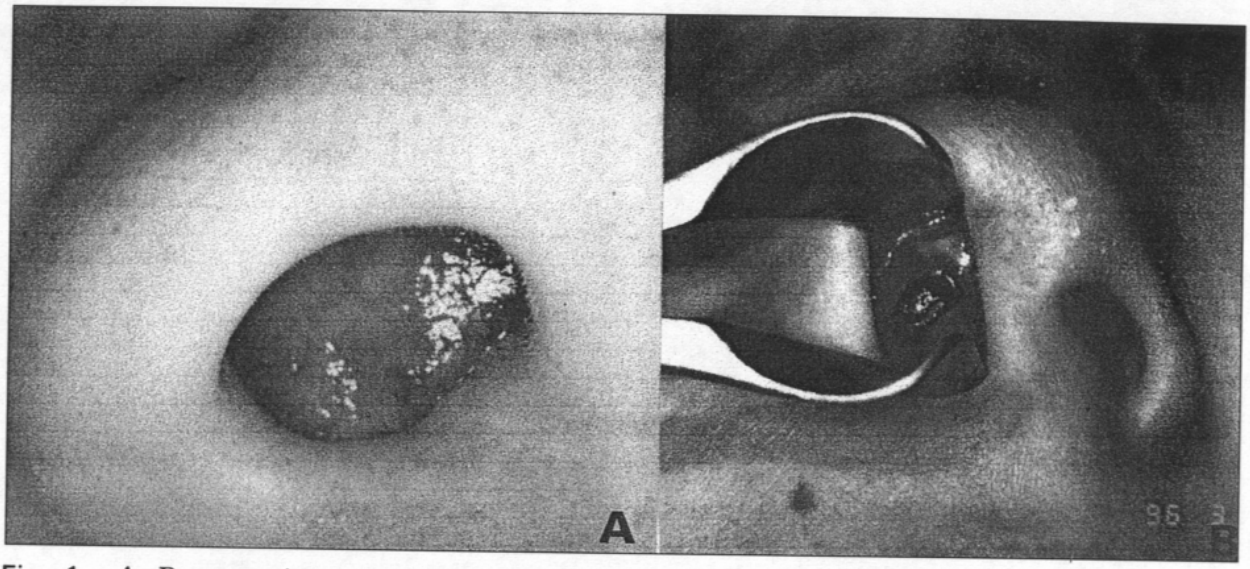

Fig. 1. A. Preoperative gross appearance of case 1 at pregnancy
B. Preoperative gross appearance of case 1 after delievery

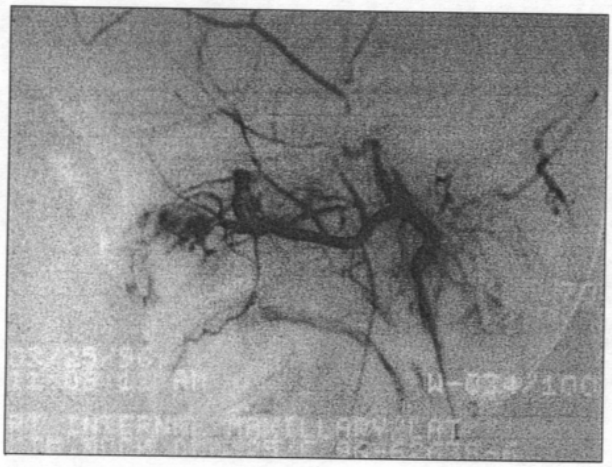

Fig. 2. The lateral view of angiography of case 1 showed feeding vessel to a elliptical mass in capillary space (arrow : sphenopalatine br. of internal maxillary artery)

Fig. 3. Preoperative frontal view of case 1 showed a mass limited anterior nasal cavity

가 1996년 3월 16일인 임산부로서 임신 6개월부터 반복적인 비출혈과 함께 서서히 비폐색이 진행되어 인근병원에서 간헐적인 치료를 받던 중, 내원 3일전부터 다시 비출혈이 시작되어 본원에 내원하여 혈관종 의증으로 진단받았으나, 출산을 앞두고 있어 보존적 치료후 3월 6일 38주만에 자궁내 태아성장지연으로 제왕절개술을 시행받은 후, 외래에서 시행한 조직검사 결과 혈관섬유종으로 진단되어 수술을 위하여 입원하였다.

전신소견 : 특이사항 없음.

국소소견 : 우측 전비강은 만지면 쉽게 출혈하는 적갈색의 종물로 가득차 있었으며 (Fig. 1A) 후비강 및 비인강은 특이소견 없었다. 비강내 종물로 인하여 경도의 외비기형을 동반하고 있었으며 분만후 종물의 크기는 분만전보다 약간 감소되어 있었다 (Fig. 1B).

임상검사소견 : 특이사항 없음.

방사선학적 소견 : 부비동 단층촬영 소견상에서는 우측비강을 꽉 채우고있는 3×3 cm의 종물이 관찰되었고 (Fig. 3) 종물에 의하여 골미란 소견 및 비중격이 좌측으로 만곡되어 있었으며 조영시 조영증강이 잘되었다. 우측상악동 내벽이 약간의 미란소견을 보였으나 상악동내에는 특이소견 없었다. 공급혈관을 알아보

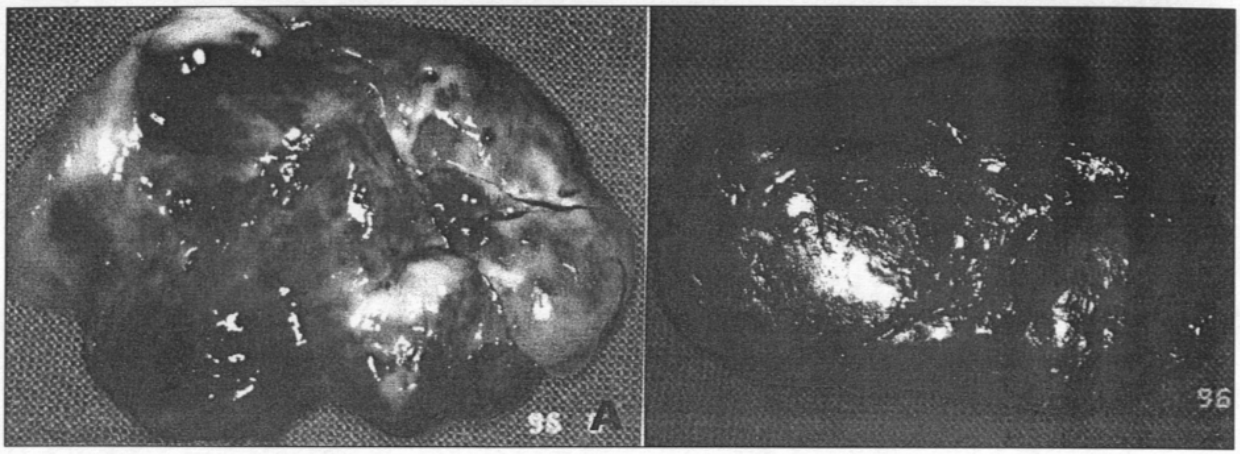

Fig. 4. A. A reddish-white mass of case 1, 4×2×1 cm size
B. A reddish-white mass of case 2, 4×3×0.6 cm size

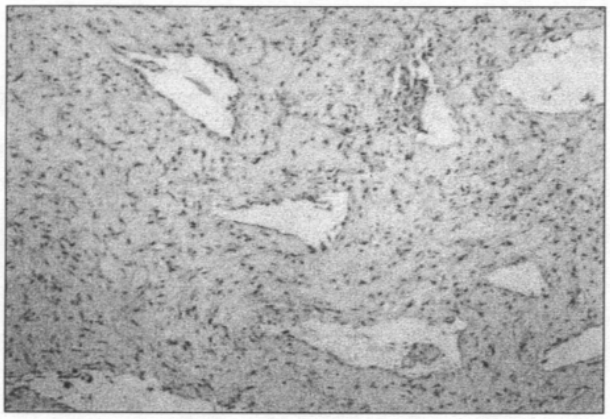

Fig. 5. Microscopic finding of the removed mass, showing many blood vessels of various shapes and sizes and fibroblastic stroma (H & E, ×100)

기 위해 실시한 혈관촬영술 결과 종물은 주로 내상악동맥의 접형구개분지로부터 공급받고 있었으며 (Fig. 2), 수술시 출혈을 줄이기 위하여 색전술을 먼저 시행하였다. 색전은 350~500 μm크기의 gelfoam을 이용하여 고선택적 색전술을 시행하였다.

수술소견 : 전신마취하에 우측 중비갑개의 전하방에 기원하고 있는 4×3 cm크기의 종물을 비강을 통해 snare로 제거할 수 있었으며 중비갑개 일부를 같이 제거하였고 출혈은 거의 없었다.

병리조직학적 소견 : 4×2×1 cm크기의 탄력성있고 표면이 평활한 홍백색의 종물로서 (Fig. 4A) 절단면은 분홍색의 출혈성 소견이었다. 조직학적으로 다양한 크기의 충혈된 혈관이 섬유아세포가 풍부한 기질내에 산재되어 있었다 (Fig. 5).

수술후 경과 : 수술후 3일에 팩킹을 제거하였으며, 출혈이나 기타 합병증 없이 퇴원하였다.

증례 2

환 자 : 송○경, 25세, 여자

초진년월일 : 1996년 6월 4일

주소 : 점진적 우측 비폐색 및 비출혈

가족력 : 특이사항 없음

과거력 : 특이사항 없음

현병력 : LMP가 95년 9월 22일이었고 EDC가 96년 6월 29일인 임산부로서 임신 9개월부터 점진적인 비폐색과 비출혈이 있어 인근병원에서 치료중 이학적 검사상 우측비강내 종물이 발견되어 본원으로 전원되었으나, 출산을 앞둔 관계로 보존적 치료후 96년 6월 27일 40주만에 제왕절개술로 정상아를 분만한 후 수술을 위하여 입원하였다.

전신소견 : 특이소견 없음.

국소소견 : 붉은색의 종물이 우측 전비강 앞까지 돌출되고 접촉시 쉽게 출혈하는 경향이 있었으며 종물로 인하여 경도의 외비기형을 보였으나, 출산후 종물은 어느 정도 줄어서 외비기형은 없어지고 종물 또한 비강안으로 사라졌다. 후비강 및 비인강은 특이소견 없었다.

임상검사소견 : 특이소견 없음.

방사선학적 소견 : 부비동단층촬영상 우측 비강에 3×3 cm크기의 경계가 분명한 연조직 종물이 보였으며 중비갑개와 하비갑개, 그리고 비골의 일부가 종물에 의해 미란되어 있었다. 혈관촬영술결과 내상악동맥의 접형구개분지 및 기타 소분지에서 공급받고 있는 종물을 확인할 수 있었고 내상악동맥의 완전폐쇄가 이루어졌으나 안면동맥으로부터 종물로의 측부혈관이 관찰되었다.

수술소견 : 국소마취하에 우측 비중격의 전상부에 기원하고 전비강을 채우고 있는 4×2.5 cm크기의 종물을 비강을 통해 snare로 제거한 후 비중격의 점막을 제거 하였으며 출혈은 200 cc정도였다.

병리조직학적 소견 : 4×3×0.6 cm 크기의 분홍색과 회색이 혼합된 결절성 종물로서 (Fig. 4B) 절단면은 암적색과 분홍색이 혼합되어 있었다. 조직학적으로 혈관조직과 섬유성결체조직이 혼합된 형태였다.

수술후 경과 : 수술후 이틀째 팩킹을 제거하고 퇴원하였으며 출혈이나 기타 합병증은 없었다.

고 안

혈관섬유종은 섬유종, 유년기 섬유종 또는 출혈성 섬유종 등으로 불리우며, 기원전 4세기에 Hippocrates가 처음 출혈성 비용을 기술하였으며, 1847년 Chelius가 '사춘기 연령에서 발생하는 어떤 섬유성 비강 용종' 이라고 표현한 이후 명명법에 많은 논란이 있었으나, 1906년 Chaveau에 의해 처음으로 juvenile angiofibroma라고 명명되었다[13]. 주로 성장기 남자의 비인강에서 발생하며, 비인강 이외의 다른 부위에서 발생한 혈관섬유종은 극히 희귀하여 상악동과 전비강, 구강등에서 발생한 수례[1][8][9][10]가 보고되어 있을뿐이다.

본 종양은 남성에 발생하는 것이 특징적이나 Timerman이 13세 여아 1례를 발표했으며[5], 그 후 여성에서 발생한 몇몇 보고가 있다. Apestol과 Frazell은 여성에게서 진단이 확진된 경우 성염색체 검사와 부인과적인 조사가 수행되어야 한다고 했으며 Reddy가 경험한 1례는 성염색체상으로는 여자였으나 자궁과 2차 성징이 없었다. Hick와 Nelson은 혈관섬유종이 여성에게서 의심될 경우는 화농성육아종, 혈관종, 점액종과 감별진단이 필요한데 이중에서 화농성육아종은 임신중 gingiva나 비강 등의 점막에 생길수있고 분만후 자연히 소실되는경우가 많으며 표면에 궤양이 있고 조직학적으로 섬유기질대신 다수의 염증세포와 부종이 보이는 것이 혈관섬유종과 감별할 수 있는 점이다.

발생 기전 및 원인에 대해서는 현재까지 정설이 없고 여러 가지 가설이 제시되어 Girgis 등은 비크롬 친화성 부신경절 세포의 과잉성장에 의한 것이라고 하였으며[6], Bruce는 성호르몬의 불균형, 즉 프로게스테론의 과잉생성 또는 안드로겐의 활성부족에 기인한다고 하였는데[4], 본 논문의 두례에서와 같이 임신중에 크기가 커져 있던 종물이 분만후 작아진 것은 위의 가설을 뒷받침하는 것으로 볼 수 있다. 이에 반하여 Henderson 등[7]은 뇨중 17-OH corticosteroid와 17-ketosteroid 등이 정상이라 하여 내분비설을 부인하였다.

병리조직학적 소견은 피복이 없이 경계가 비교적 불분명하고 육안적으로 홍백 내지 회백색조를 띄는 표면이 불규칙한 탄력성 조직으로서 기저면이 넓다. 조직소견상으로는 혈관성분과 섬유기질로 대별할 수 있는데 대부분에서 섬유기질이 우세하고 혈관성분은 크기, 형태 및 분포가 일정치 않다. 혈관벽은 내피세포로 되어있고 내강은 적혈구로 차 있으며 기질은 교원성 섬유기질로 되어있다. 결체조직은 기질에 삽입되어 있고 성상세포가 특징적이다. 왕성히 성장하는 예에서는 혈관요소가 매우 우세하고 후에는 섬유조직이 우세해지면서 혈관요소는 퇴화한다.

혈관섬유종은 문진 및 이학적 소견으로 의심할 수도 있으며 전산화단층촬영은 종양의 위치확인, 주위조직과의 관계 및 다른조직으로

의 침윤 등을 알 수 있으며, 수술전 에스트로젠요법을 시행할 경우 순차적으로 촬영하여 수술에 가장 적합한 시기를 결정하는데 도움이 된다. 최종확진은 생검으로 가능하나 치료전 생검은 출혈 등의 위험이 따르고, 생검후 염증반응으로 인하여 수술시 박리나 점막보존 등에 어려움이 있으므로 이러한 점들을 고려하여 시행하여야 한다.

본 종양의 치료에는 여러 가지 방법이 시도되었다. 그 중 외경동맥결찰술 및 색전술, 화학요법, 호르몬요법, 수술이 주로 이용되었으며[2] 그 외에도 한냉수술법 (cryo-surgery), 전기소작법 (eletrocoagulation), 국소화학부식치료법 및 자연소실을 기다리는 방법 등이 있다[11].

외경동맥결찰술은 종양의 공급혈관을 결찰하는 방법으로 Bruce[4]는 종양의 재발시 동맥촬영술을 위해서나 측부 순환의 가능성을 감소시키기 위하여 외경동맥의 영구적 폐쇄가 좋다고 하였고, 종양의 영양혈관들은 주로 동측, 외경동맥이며, 외경동맥 중에서 특히 내상악동맥, 상인두동맥 등이 주 공급원이기 때문에 외경동맥의 결찰로 출혈량의 감소를 기대할 수 있다고 하였다. 그러나 외경동맥결찰에 의한 수술시 출혈량의 감소에 대해서는 논란이 많아, 최근에는 초선택적색전술을 시행하는 예가 많아졌다.

수술적 제거가 가장 좋은 치료법으로, 완전한 제거를 위해서는 기저부위를 충분히 노출시켜 수술시야를 넓혀야 하며 가능한한 수술시간을 줄여 출혈량을 감소시키는 것이 필요하다. Bremer등[3]이 1945년부터 1983년까지 관찰한 150례에 따르면 최근의 치료방법으로는 술전 색전술을 시행한 후 저혈합 마취하에서 수술을 시행하는 것이 가장 많이 사용되는 것으로 알려져있다. 본 예에서는 초선택적색전술 이후 모두 비내법으로 종물을 성공적으로 적출할수 있었다.

수술후 합병증은 출혈, 설부종, 구개열공, 개방성비염, 아관긴급 등이 있고 예후는 비교적 좋은 편이나 두개강내 확장이나 두개저 침윤으로 인한 합병증으로 사망했다는 보고가 있으며 치료후 재발가능성이 있어 추적관찰이 필요하다[12].

호르몬 요법은 에스트로젠을 3~4주간 투여하는데 이것은 종양의 기질내의 콜라겐의 양을 증가시켜 혈관 분포의 변화 및 혈관 벽의 두께의 증가를 초래하여 종양의 크기 및 혈관분포를 감소시킨다[2]. 그러나 에스트로젠의 장기간 투여로 인해 성장기골판에 이차적인 영향을 미쳐 호르몬요법은 일차적 치료목적보다는 수술시 출혈을 줄이기위해 stilbestrol을 단기간 투여하는 경우가 많다.

결 론

저자들은 이비인후과 영역에서 희귀한 임신중에 발병한 혈관섬유종 2례를 술전 색전술후 비내법으로 수술하여 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Reference

1) 김정중 · 김광수 : 임신중에 발병한 전비강 혈관섬유종 1례. 한이인지 *25 : 209~212, 1982*

2) 민양기 · 김재희 · 김이석 : 비인강 혈관섬유종의 임상적 고찰. 한이인지 *27 : 584~591, 1984*

3) Bremer JW, Neel HB, DeSnato LW, et al : *Angiofibroma; treatment trends in 150 patinets during 40 yrs. Laryngoscope 96 : 1321~1329, 1996*

4) Bruce WJ : *Surgical treatment of juvenile angiofibroma. Laryngoscope 83 : 707~711, 1973*

5) Fimerman WB : *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma in the female. Arch Otolaryngol 54 : 620, 1951*

6) Girgis IH, Fahmy SA : *Nasopharyngeal fibroma : Its histopatholgical nature. J La-*

ryngol Otol 87 : 1107~1112, 1973

7) Henderson GP : *Further experience in treatment of juvenile nasopharygeal an giofibroma. Larygoscope 79 : 561~568, 1959*

8) Kabot TE, Goldman ME, Bergman S, et al : *Juvenile nasopharyngeal angiofibroma : Unusual presentation in the oral cavity. Oral Surg 59 : 453~457, 1985*

9) Kitano M, Landini G, Mimura T : *Juvenile angiofibroma of the maxillary sinus. Int J Oral Maxilofac Surg 21 : 230~232, 1992*

10) Reddy BK : *Juvenile oral angiofibroma in a female. J Oral Surg 37 : 338~341, 1979*

11) Standefer J, Holt GR, Brown WE, et al : *Combined intracranial & extracraacranial excision of nasopharyngeal angiofibroma. Laryngoscope 93 : 772~779, 1983*

12) Sarpa JR, Novelly NJ : *Extranasopharyngeal angiofibroma. Otolaryngol Head & Neck Surg (6) : 693~697, 1989*

13) Witt TR, Shah HP, Sternberg SS : *Juvenile nasopharyngel angiofibroma. A 30 year clinical review. Am J Surg 146 : 521~525, 1983*