

## CASE REPORT

# 흉벽에 발생한 거대 해면상 혈관종: 흉벽에서 드물게 발생하는 양성종양

송인학<sup>1</sup>, 이승진<sup>1</sup>, 이석열<sup>1</sup>, 정진현<sup>2</sup>

순천향대학교 의과대학 천안병원 <sup>1</sup>흉부외과, <sup>2</sup>마취통증의학과

## Huge Cavernous Hemangioma of the Chest Wall: A Rarely Arising Benign Tumor of Chest Wall

In-Hag Song<sup>1</sup>, Seung Jin Lee<sup>1</sup>, Seock Yeol Lee<sup>1</sup>, Jinhun Chung<sup>2</sup>

Departments of <sup>1</sup>Thoracic and Cardiovascular Surgery and <sup>2</sup>Anesthesiology and Pain Medicine, Soonchunhyang University Cheonan Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

A 35-year-old female complaining of a painful huge right posterior chest wall mass was admitted. Chest computed tomography showed the pleural invasion of mass and deformed ribs. Suspected diagnosis was hemangioma. Entire mass was removed carefully and pleural biopsy was performed. The operation was finished after bleeding control and chest tube insertion. The mass was diagnosed as a cavernous hemangioma histopathologically. Cavernous hemangioma of chest wall is a rare benign vascular tumor. Surgical operation of hemangioma demands meticulous bleeding control because of risk of hemorrhage.

**Keywords:** Cavernous hemangioma; Neoplasms; Thoracic wall

### 서 론

혈관종은 비교적 흔히 발생하는 종양이지만, 흉벽에서 발생하는 경우는 매우 드물다[1,2]. 골격근에서 발생하는 혈관종은 전체 양성 혈관종의 약 0.7%로[2], 주로 상지나 하지의 근육을 침범하며 흉벽을 침범하는 경우는 드물다[3]. 저자들은 오른쪽 후부 흉벽(right posterior chest wall)을 침범한 해면상 혈관종(cavernous hemangioma) 환자의 수술을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

### 증 례

35세 여자 환자가 우측 등에 발생한 종괴를 주소로 순천향대학교 천안병원에 내원하였다. 20여 년 전부터 종괴가 있었지만 크기

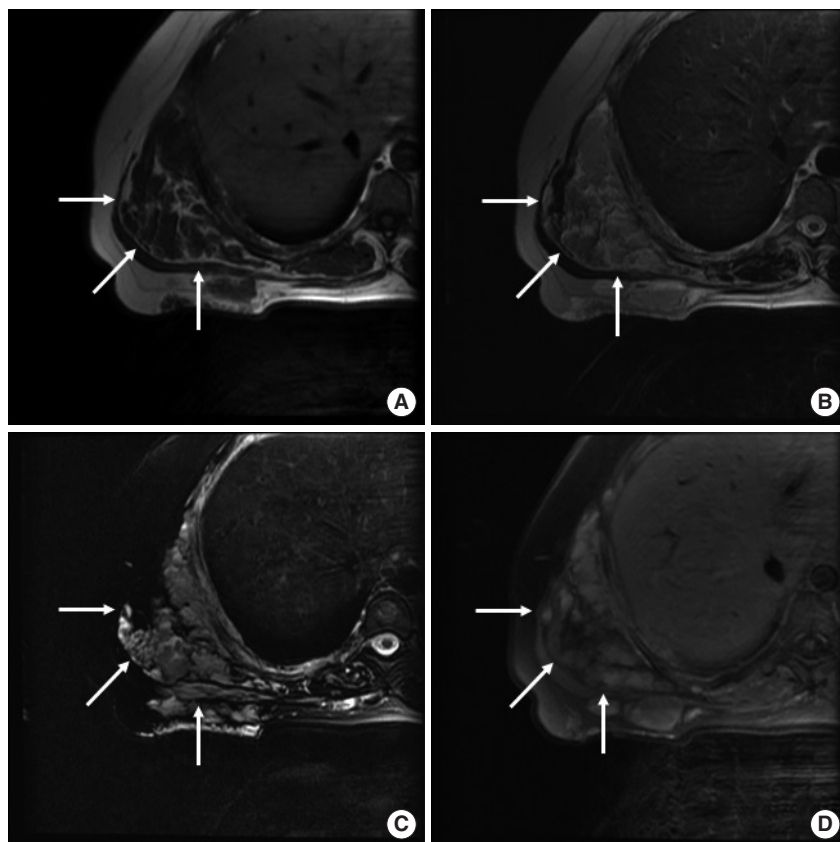
가 작았고 특별한 증상이 없었기 때문에 검사나 치료를 받지 않고 지내왔다. 그러나 성장과 함께 조금씩 커지던 종괴가 내원 1년 전부터 갑자기 빠르게 성장하기 시작하면서 불편함과 통증을 느끼기 시작하여 종괴에 대한 검사와 치료를 위해 본원에 내원하였다. 내원 당시 이학적 검사상 종괴는 우측 견갑골 바로 아래에서 15 cm 정도의 크기로 부드럽게 만져졌다. 종괴 외의 액와 림프절 종창의 소견은 없었다. 외래에서 시행한 단순흉부촬영상 우측 흉벽에 다발성 석회화와 함께 우측 늑골에 다발성 변형이 관찰되었다. 흉부 전산화 단층촬영상 우측 흉벽에 연부조직 수준의 감쇠(soft tissue attenuation)를 보이는 불균질한 종괴가 관찰되었고, 그 내부에는 다수의 석회화 결절들이 포함되어 있었다. 종괴는 피하부터 흉막까지 침범하고 있었고, 늑골의 변형소견도 함께 관찰되었다(Fig. 1). 자기공명촬영에서는 우측 흉벽에 포도송이 모양의 결절들이 응집되어 있는 것이 보였다. 이 병변은 T1W에서는 저신호강도(low signal

Correspondence to: Seung Jin Lee  
Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Soonchunhyang University Cheonan Hospital, 31 Suncheonhyang 6-gil, Dongnam-gu, Cheonan 31151, Korea  
Tel: +82-41-570-2190, Fax: +82-41-570-2848, E-mail: tcvslee@gmail.com  
Received: Sep. 1, 2018 / Accepted after revision: Oct. 8, 2018

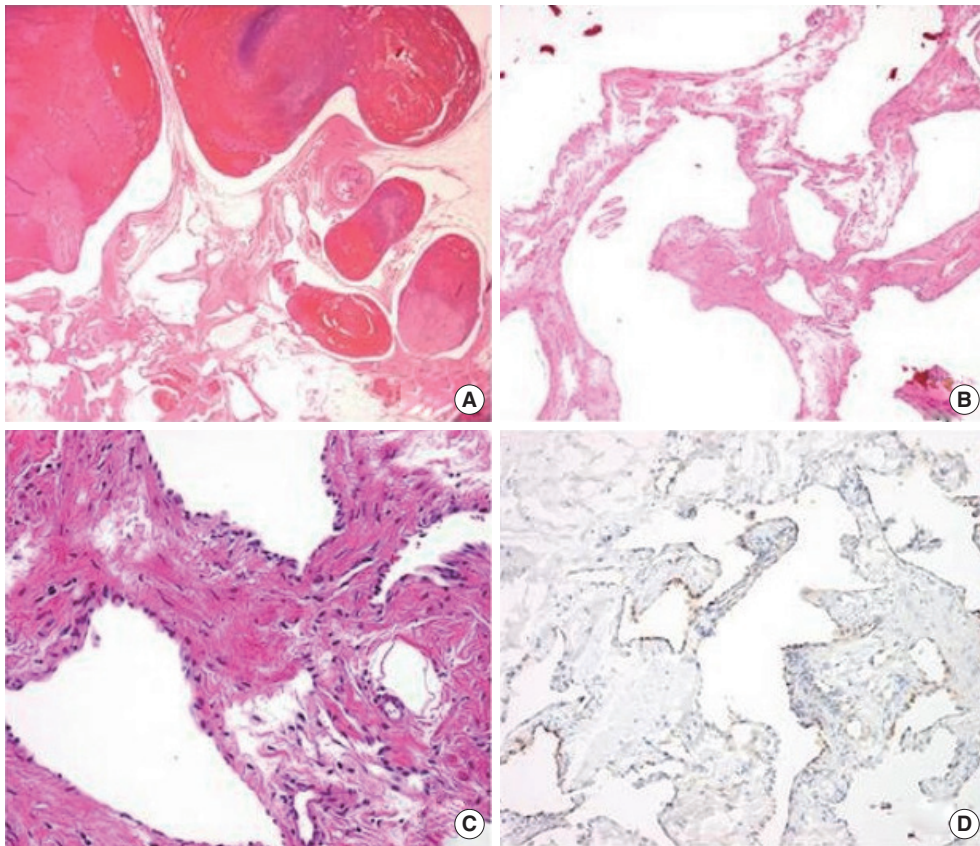
© 2018 Soonchunhyang Medical Research Institute  
This is an Open Access article distributed under the terms of the  
Creative Commons Attribution Non-Commercial License  
(<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>).



**Fig. 1.** (A-C) Chest computed tomography shows a large mass lesion with soft tissue attenuation on the right chest wall (asterisk). Multiple calcifications (white arrow) are seen inside the mass and pleural invasion (white arrowhead) of the mass is also observed.



**Fig. 2.** Magnetic resonance imaging shows grape cluster like lesion with low signal T1-weighted (A) and high signal T2-weighted (B, C) and enhancement on post-contrast T1-weighted with gadolinium (D) (arrows).



**Fig. 3.** Histological examination (hematoxylin and eosin stained section) reveals dilated vessels with thrombus, and the vessel wall lined by flat cuboid cell (A: H&E, ×40; B: H&E, ×100; C: H&E, ×200). Immunohistochemical staining with vascular marker (CD31, ×100) shows positive finding (D).

intensity)로, T2W에서는 고신호강도(high signal intensity)로 관찰되었고, Gd T1W에서는 조영증강을 보이고 있었다. 흉막과 늑골 침범의 가능성은 불분명하였으나 배제할 수는 없었다(Fig. 2). 종괴는 전산화 단층촬영과 자기공명촬영상 혈관종으로 의심되었고, 환자의 불편함과 흉막과 늑골의 병변에 대한 확인이 필요해 종괴의 제거와 흉막과 늑골에 대한 생검을 위해 수술을 시행하였다.

수술은 전신마취하에 좌측 횡와위에서 종괴 위에 피부절개를 가하여 시행하였다. 명확한 캡슐이 없는 커다란 종괴가 근육층에 존재하고 있었는데, 근육 사이사이로 침윤되어 있는 모습이었으며, 혈관질이 매우 발달되어 있었다. 종괴 내에 다수의 석회화 결절들도 포함되어 있었다. 종괴를 정상조직과 최대한 분리하여 절제하였다. 절제한 종괴의 크기는 약 13 cm × 10 cm였다. 종괴를 절제한 후 조직검사를 위해 늑골을 부분 절제하였고, 이어 두꺼워져 있는 흉막 생검을 시행하였다. 신선 냉동조직검사상 흉막에 침범소견이 확인되었다. 그러나 침범된 흉막 전체를 제거하는 것은 불가능하며, 흉벽만 광범위하게 절제하는 것은 의미가 없었기 때문에 흉벽의 광범위 절제는 시행하지 않았다. 흉강 내에 흉관을 넣은 후 생검 부위와 종괴 절제부위를 지혈하고 수술창을 닫았다. 수술을 마치고 환

자를 양와위로 체위 변경하였는데 갑자기 흉관을 통해서 다량의 출혈이 있었다. 다시 수술창을 열고 살펴보니 흉막 생검 부위와 흉관을 삽입한 곳에서 많은 양의 출혈이 관찰되었다. 심박동수와 혈압 등 생징후가 불안정했고, 혈색소 수치가 수술 전 11 g/dL에서 6 g/dL까지 감소하였다. 출혈은 전기소작술로는 지혈되지 않았고 출혈 부위를 봉합 결찰한 후에야 지혈되어 수술을 마칠 수 있었다.

병리조직검사상 저배율에서 혈전으로 가득 차 있는 확장된 혈관들이 보였고 혈전이 없는 혈관들은 서로 복잡한 터널을 이루고 있었다. 납작한 입방형의 세포들이 혈관벽을 둘러싸고 있었고, 면역조직학적 염색을 시행한 결과 CD31, CD34, factor VIII-related antigen 등 vascular marker에 모두 양성소견을 보여 종괴는 해면상 혈관종으로 진단되었다(Fig. 3). 늑골에는 병리학적 이상이 없었으나, 흉막에는 혈관종이 침범되어 있었다.

수술 후에 흉막 병변 등에 대해 방사선 치료를 고려하였으나 환자의 젊은 나이와 방사선 치료에 따르는 합병증 등을 고려하여 외래 추적관찰하면서 이후 치료방침을 정하기로 하고 수술 후 15일째 퇴원하였다.



## 고 찰

혈관종은 혈관으로부터 발생하는 종양으로 조직학적으로 모세혈관종(capillary hemangioma), 해면상 혈관종(cavernous hemangioma), 정맥 혈관종(venous hemangioma), 동-정맥 혈관종(arteriovenous hemangioma), 혼합 혈관종(mixed hemangioma)의 다섯 가지 아형(subtype)으로 나눌 수 있다[1]. 본 증례의 환자는 해면상 혈관종으로 진단되었는데, 해면상 혈관종은 대개 출생 시에 나타나지만, 정상적인 신체성장과 보조를 맞추기 위한 경우를 제외하고는 일반적으로 성장하지 않아 많은 경우에서 성인기에 성장이 일어난다[4]. 영아기의 일반적인 혈관종과는 다르게 성인에서의 해면상 혈관종은 자발적으로 퇴화되지 않는다[5]. 근육 내에서 발생하는 경우 특징적으로 통증을 동반하면서 커지는 종괴로 나타나며, 종괴가 심부조직에 위치하기 때문에 대개 피부 변화를 일으키지 않는다[6]. 해면상 혈관종은 섬유성 증격에 의해 분리된 얇은 벽으로 둘러싸인 혈액으로 가득 찬 혈관공간으로 보이며, 광범위한 섬유증을 동반하며 때때로 정맥석(phleboliths)이 동반되기도 한다[4]. 작은 해면상 혈관종들은 대부분 캡슐에 싸여 있지만, 커다란 종양은 명확한 캡슐이 없으며 국소적으로 침윤하는 경향을 보인다[7]. 본 증례 환자의 경우도 종괴가 환자의 성장과 함께 서서히 커지다가 내원 1년 전부터 급격히 커지면서 통증이 동반되었고, 바깥으로 드러나는 피부색의 변화는 없었다. 수술 시에 종괴는 캡슐 없이 주변 조직들 사이사이로 침윤되어 있었으며, 혈관질이 매우 발달해 있었다.

단순흉부촬영에서 연부조직 종괴가 보이며, 경우에 따라 주변의 뼈를 압박하여 생긴 뼈의 미란이 관찰되기도 한다[8]. 흉부 전산화 단층촬영은 해면상 혈관종을 진단하는 데 매우 유용한 검사방법으로 주변 조직으로의 침범이 관찰되며 정맥석을 약 25%에서 확인할 수 있다[3]. 종괴 내의 지방, 섬유질, 그리고 혈관조직 성분들 때문에 흉부 전산화 단층촬영에서 낮은 수준의 감쇠(low level of attenuation)를 보이는 불균질한 종괴로 보인다[8]. 자기공명촬영에서는 T1과 T2 강조영상에서 특징적으로 종괴 내에 고신호강도를 보이는 지역이 관찰된다. T1 강조영상에서 근육 내의 해면상 혈관종은 경계가 불분명하고 골격근과 같은 신호강도를 보이며, 해면상 또는 낭성 공간에 고여있는 혈액으로 인해 고신호강도를 보이는 희미한 또는 조잡한 선상지역이 보인다. T2 강조영상에서는 종괴의 경계가 명확하며 주변 피하지방층과 비교하여 고신호강도를 보인다[8]. 본 증례에서는 단순흉부촬영상 우측 늑골의 변형과 우측 흉벽에 다발성 석회화가 관찰되었고, 전산화 단층촬영에서는 연부조직 수준의 감쇠를 보이는 불균질한 종괴가 관찰되었고, 그 내부에는 다수의 석회화 결절들이 포함되어 있었다. 자기공명촬영상 T2 강조영상에서 고신호강도를 보였다.

앞서 언급했다시피 혈관종은 자발적으로 퇴행되지 않으며, 시간

이 흐를수록 주변 구조물들에 가해지는 압력으로 인해 국소적인 조직 파괴현상이 발생할 수도 있다[6]. 따라서 근육 내에 발생한 혈관종의 확실한 표준치료는 절제면에 종양세포가 없는 깨끗한 절제면(clear resection margin)을 갖는 완전절제술(complete resection)이다[2]. 크기가 큰 혈관종의 경우 수술 시 과도한 출혈 등과 같은 합병증을 줄일 목적으로 수술 전에 색전술을 시행하는 것이 필요할 수 있다[1]. 그러나 근육 내 혈관종은 근육들 사이로 국소적인 침윤을 보이는 경향이 있으며, 명확한 캡슐이 없기 때문에 clear resection margin을 결정하는 것이 어려운데, 불완전절제를 시행했을 경우 재발률이 50% 이상이라고 보고되고 있다[2]. 하지만 완전절제술이 항상 가능한 것은 아니며, 수술 전에 색전술을 시행했다고 하더라도 수술로 인해 상당한 출혈이 발생할 수 있다[9]. Clear resection margin을 찾는 것이 어렵고, 수술 후 재발률이 높기 때문에 근육 내 혈관종이 있는 모든 환자들은 종양의 위치(tumor location), 수술 접근성(surgical accessibility), 침습의 깊이(depth of invasion), 환자의 연령 및 미용 요인(cosmetic factor) 등을 고려하여 개별적으로 치료가 이루어져야 한다[3]. 본 증례의 환자의 경우 종괴가 캡슐에 싸여 있지 않고 근육 사이사이로 파고 들어있었고, 흉막에 광범위하게 병변이 있어 완전절제가 어려운 상황이었다. 이러한 상황을 고려하여 저자들은 완전절제를 시행하지 않았는데, 본 증례와 비슷한 예로 Cohen 등[10]은 종격동에 발생한 혈관종의 경우 무리한 광범위 절제는 권장하지 않는다고 하였고, Matsuoka 등[2]도 늑골과 척추를 침범한 근육 내 혈관종이 너무 커서 완전절제가 어려운 환자에서 수술을 시행하지 않고 경과관찰하였다고 보고했다. 특히 Matsuoka 등[2]에 의하면 근육 내 혈관종이 악성 변화를 하거나 전이된 예가 보고된 적이 없다고 하였으며, 그들이 경과관찰한 환자가 3년간 변화가 없었다고 보고했다. 이러한 점에 비추어 저자들은 완전절제가 어려운 환자에서는 무리하게 광범위한 절제를 하는 것은 좋지 않다고 생각한다. 그러나 잔존 조직에 의한 재발가능성이 있으므로 주기적인 추적관찰은 필요하다. 또한 전이된 흉막에서 생검을 시행한 경우 또는 흉막에 병변이 있는 상태에서 흉관을 삽입한 경우 이 부위에서 대량출혈의 가능성이 있으므로 이에 대해 면밀히 살펴보고 출혈소견이 확인된 경우 철저히 지혈하는 것이 수술 후 대량출혈을 막는 데 매우 중요하다고 생각한다.

흉벽에서 발생하는 해면상 혈관종은 매우 드물게 발생하는 질환이며, 확실한 표준치료는 완전절제이다. 그러나 완전절제가 어려운 경우 무리하게 절제하는 것은 좋지 않으며, 이 경우 잔존 조직에 대한 주기적인 추적관찰이 필요하다. 또한 혈관종의 흉막전이와 있어 생검을 시행한 경우에는 수술 후 대량출혈을 막기 위해 철저한 지혈이 꼭 필요하다.

## REFERENCES

1. Dzian A, Hamzik J. Intercostal hemangioma of the chest wall. *Kardiochir Torakochirurgia Pol* 2016;13:58-60.
2. Matsuoka K, Ueda M, Miyamoto Y. Giant intramuscular haemangioma of the chest wall with osteolytic change. *Eur J Cardiothorac Surg* 2012;41:1202-3.
3. Griffó S, Stassano P, De Luca G, Di Tommaso L, Monaco M, Spiezia S. Intramuscular hemangioma of the chest wall: an unusual tumor. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2007;134:1368-9.
4. Kinoshita S, Kyoda S, Tsuboi K, Son K, Usuba T, Nakasato Y, et al. Huge cavernous hemangioma arising in a male breast. *Breast Cancer* 2005;12:231-3.
5. Mulliken JB, Fishman SJ, Burrows PE. Vascular anomalies. *Curr Probl Surg* 2000;37:517-84.
6. Melman L, Johnson FE. Intramuscular cavernous hemangioma. *Am J Surg* 2008;195:816-7.
7. Phalen GS. Massive cavernous hemangiomas of the chest wall. *Am J Surg* 1954;87:534-44.
8. Tateishi U, Gladish GW, Kusumoto M, Hasegawa T, Yokoyama R, Tsuchiya R, et al. Chest wall tumors: radiologic findings and pathologic correlation: part 2. malignant tumors. *Radiographics* 2003;23:1491-508.
9. Cohen AJ, Youkey JR, Clagett GP, Huggins M, Nadalo L, d'Avis JC. Intramuscular hemangioma. *JAMA* 1983;249:2680-2.
10. Cohen AJ, Sbaschnig RJ, Hochholzer L, Lough FC, Albus RA. Mediastinal hemangiomas. *Ann Thorac Surg* 1987;43:656-9.