

1

혈관경화제를 이용한 구강 내 혈관기형의 치료: case series

가천대 길병원 구강악안면외과

심우철, 양석환, 조진용

ORCID ID

Woo-Chul Shim,  <https://orcid.org/0000-0003-4674-8535>Seog-Hwan Yang,  <https://orcid.org/0000-0003-3379-8445>Jin-Yong Cho,  <https://orcid.org/0000-0001-7945-3923>

ABSTRACT

Sclerotherapy for Oral Vascular Malformation : case series

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Gachon University Gil Medical Center

Woo-Chul Shim, Seog-Hwan Yang, Jin-Yong Cho

Vascular malformations are structural abnormalities in blood vessels with normal endothelial cell turnover, and are known as one of vascular abnormalities along with hemangiomas. Vascular malformations can occur anywhere in the body and are relatively rare in the oral cavity. It presents symptoms such as bleeding, pain, and swelling, and can cause functional and aesthetic problems. Treatment methods for vascular malformations include surgical excision, Nd:YAG and CO2 laser therapy, embolization and sclerotherapy. In this study, three cases of vascular malformations in the soft tissues of the oral cavity were identified. We report three cases who were simply treated using sclerotherapy with a review of the literature. Sclerotherapy using a sclerosant showed successful results, and known complications were not observed. In properly selected patients with vascular malformation, sclerotherapy can be considered as the first treatment.

Key words : Vascular Malformation, Oral Soft Tissue, Sclerotherapy

Corresponding Author

Jin-Yong Cho, DDS, MS, Professor

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Gachon University Gil Medical Center, 34, Namdong-daero 774 beon-gil, Namdong-gu, 21565, Incheon, Republic of Korea

Tel : 032-460-3372 / E-mail : omslips@gilhospital.com

I. 서론

혈관기형은 정상 내피 세포 회전을 가진 혈관에 구조적 이상이 발생한 것으로 혈관종과 함께 대표적인 혈관이상으로 알려져 있다. 혈관기형이 발생한 부위의 혈관 유형에 따라 모세혈관기형, 정맥기형, 림프기형 또는 동정맥기형으로 분류할 수 있다¹⁾. 또한, 혈역학적 특징에 따라 저유속 또는 고유속으로 분류할 수 있으며 저유속형 기형에는 림프 및 정맥기형이, 고유속형 기형에는 동정맥기형이 포함된다²⁾.

혈관기형은 출생 시 약 1~1.5%에서 발견되며, 혈관종과는 다르게 자발적으로 퇴행하지 않는다³⁾. 신체 어느 부위에 서나 발생할 수 있으나, 주로 사지에 호발하고, 두정부의 혈관기형은 비교적 드물게 나타난다. 두정부에서는 구강 내에서 가장 흔하게 발생하며, 혀의 전방 2/3, 구개, 치은 및 협측 점막에서 호발하는 것으로 알려져 있다. 구강의 혈관기형은 출혈, 통증, 부종, 기도폐쇄, 저작 및 연하곤란, 언어문제 등을 유발할 수 있다³⁾.

혈관기형은 임상적으로 병변부가 부드럽고 압축 가능한 부종 형태로 나타나며, 정맥기형에서는 보라색 또는 푸른색의 부종을, 동정맥기형에서는 박동성 파동을 특징으로 한다⁴⁾. 병변의 범위와 양상을 확인하기 위한 진단 영상 검사로는 조영 증강 컴퓨터 단층 촬영(Enhanced Head and Neck CT)이 유용하다⁵⁾. CT에서 확장되어 있고 구불구불한 혈관이 조영 증강되어 나타나는 것이 특징적이다. 그 밖에 일반 방사선 촬영, 자기공명영상(MRI), 혈관 조영술, 혈류 초음파

촬영술, 적혈구 스캔 등과 같은 영상 검사가 있다⁶⁾. 혈관기형의 치료 방법에는 외과적 절제, Nd : YAG 및 CO₂ 레이저 요법, 색전술 및 경화요법 등이 알려져 있으며 각각의 장단점을 가지고 있다.

본 연구에서는 구강내 연조직에 발생한 혈관기형에 대해 혈관경화제를 이용하여 간단하게 치료한 증례를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

CASE 1

75세 여성이 하악 우측 구치부 협측 전정부위의 불편감을 주소로 내원하였다. 자발통은 없으나 울통불통한 이물감과 압박 시 통증을 호소하였다. 육안 검사상 하악 우측 견치에서 하악 우측 제2대구치에 이르는 협측 점막에 1.5 X 3 cm 정도의 크기로 푸르스름하고 융기된 병소가 관찰되었다(Fig. 1a). 촉진 시 박동성 파동은 느껴지지 않았고 압박에 의해 병소 색깔이 연해지는 변화가 관찰되었다. 임상적으로 혈관 기형으로 잠정 진단하고 영양혈관의 존재 여부와 혈관기형의 유형을 분류하기 위해 조영 증강 CT를 촬영하였다. CT에서 구불구불한 혈관이 조영 증강되어 관찰되었고(Fig. 2), 영양혈관은 관찰되지 않아 정맥기형으로 분류하였다. 혈관 경화제 주사 치료를 위해 병소 주위를 Povidone-

Table 1. Clinical characteristics of the lesion and details of sclerotherapy

Case	Age	Gender	Location	Size	Imaging test	Sclerosing agent	Number of injection
1	75	Female	Mandibular right buccal vestibule	1.5 X 3 cm	Contrast-enhanced computed tomography	1.5% fibrovein 1ml	2 times
2	12	Male	Dorsum of tongue	0.5 X 0.5 cm	Contrast-enhanced computed tomography	1.5% fibrovein 0.5 ml	1 time
3	39	Male	Dorsum of tongue	1 X 2 cm	Contrast-enhanced computed tomography	1.5% fibrovein 1ml	1 time



Figure. 1. (a) First visit (b) One month after sclerosant injection treatment (c) Two months after sclerosant injection treatment

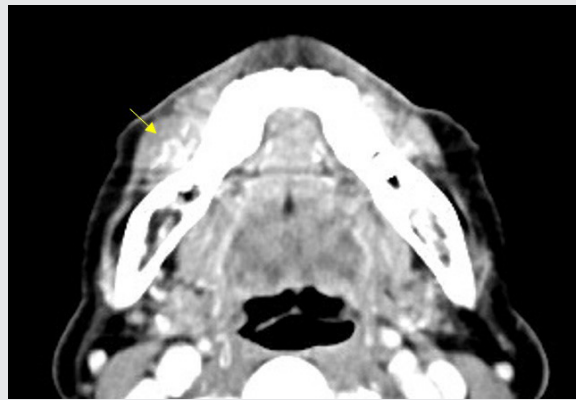


Figure. 2. Contrast-enhanced CT scan image demonstrates a venous malformation with tortuous enhancing vessels in the mandibular right buccal vestibule. (arrow)

iodine 용액으로 소독하고 방포하였다. 혈관 경화제인 3% sodium tetradecyl sulfate (Fibrovein, STD Pharmaceutical Products Ltd, Hereford, UK) 1ml에 주사용 생리식염수 1ml를 혼합하여 1.5% 농도의 주사액 2ml를 제조하였다. 병소 주위의 국소마취는 시행하지 않았으며 주사침 자입시 통증을 줄이고 병소에서 발생하는 출혈을 최소화하기 위해 30G needle을 사용하였다. 병소의 가장 풍성한 중앙부위에 주사침을 자입한 후 경화제를 천천히 주입하였다. 병소는 점막 직하방에 위치해 있어 주사침의 자입 깊이는 2~3mm가 넘지 않도록 하였다. 이 증례에서는 하악 우측 견치에서 구치에 이르는 협측 전정부위에 병소가 위치해 있었으므로 #44, 45, 46 치아에 해당하는 병소 부위에 각각 약 0.3 ml 씩 총 1ml 주사액을 주입하였다. 혈관 경화제 주사 치료 1

개월 경과 후 병소의 크기와 용기 정도는 감소하였으나 육안 검사상 병소가 잔존하여 혈관 경화제를 같은 농도와 용량으로 병소 내 주사하였다(Fig. 1b). 두번째 주사 치료 1개월 경과 후 병소의 완벽한 치유가 확인되어 치료를 종료하였다(Fig. 1c).

CASE 2

12세 남성이 식사 중 발생한 혀 배부의 출혈을 주소로 내원하였다(Fig. 3a). 혀의 배부 정중앙에서 0.5 X 0.5 cm 크기의 용기된 병소가 관찰되었고, 박동성이 없는 소량의 출혈이 천천히 흐르는 양상이었다. 2% 에피네프린이 함유된 리도카인 국소마취제를 주사하고 압박 지혈을 시행하였

다. 혈관 기형으로 잠정 진단하고 조영 증강 CT를 촬영하였다. CT에서 혀의 배부 조영 증강된 원형의 병변이 관찰되었다(Fig. 4). 영양혈관은 관찰되지 않아 정맥기형으로 분류하였다. 1주일 경과 후 병소는 지혈된 상태였으며 푸르스름한 색깔을 가진 융기된 형태로 관찰되었다(Fig. 3b). 3% sodium tetradecyl sulfate (Fibrovein, STD Pharmaceutical Products Ltd, Hereford, UK) 1ml에 주사용 생리식염수 1ml를 혼합하여 1.5% 농도의 주사액 2ml를 제조하였고, 그 중 0.5ml를 병소의 중앙부위에 주사하였다. 주사치료 2주 후 융기된 병소는 scab 형태로 변화한 후 탈락하였고 가피가 형성되어 2차 치유 과정인 상태로 확인되었다(Fig. 3c). 주사 치료 1개월 경과 후 병소의 완벽한 치유가 관찰되어 치료를 종료하였다.

CASE 3

39세 남성이 혀 배부가 부어 있다는 주소로 내원하였다. 육안상 혀의 배부 중앙에서 좌측으로 1 X 2 cm 크기, 푸르스름한 색깔의 융기된 병소가 관찰되었고 촉진 시 파동성은 느껴지지 않았으며 출혈이나 통증은 없었다(Fig. 5a). 임상적으로 혈관 기형으로 잠정 진단하고 조영 증강 CT를 촬영하였다. CT에서 혀의 배부에서 상하로 주행하는 조영 증강된 혈관이 관찰되었다(Fig. 6). 영양혈관은 관찰되지 않아 정맥기형으로 분류하였다. 3% sodium tetradecyl sulfate

(Fibrovein, STD Pharmaceutical Products Ltd, Hereford, UK) 1ml에 주사용 생리식염수 1ml를 혼합하여 1.5% 농도의 주사액 2ml를 제조하였고, 그 중 1ml를 병소의 중앙 부위에 주사하였다. 주사치료 2주 경과 후 주사했던 부위에서 촉진 시 딱딱함이 느껴졌고 색깔은 없어졌다. 주사치료 1개월 경과 후 융기된 병소가 완전히 해소되어 치료를 종료하였다(Fig. 5b).

III. 고찰

Mulliken과 Glowacki는 1982년에 혈관이상을 혈관종과 혈관기형으로 나누어 혈관이상 분류 시스템의 기틀을 만들었다⁷⁾. 이후 2014년 International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA)의 발표에 따라 혈관기형에 대한 분류와 이해가 크게 발전하였다¹⁾. 혈관기형은 모세혈관기형, 동정맥기형, 정맥기형, 림프관기형, 혼합형 혈관기형으로 분류한다. 혈관기형은 선천적으로 형성되거나 증상의 발현은 다양한 연령대에서 발생할 수 있다⁸⁾. 본 연구에서 환자의 연령은 12세, 39세, 75세로 다양하게 나타났다. 병소의 위치는 혀 2층레, 하악 협측 전정 1층레이며 머리와 목 부위 중에서 혀에 가장 호발한다고 보고한 Susanne의 보고와 일치한다³⁾.

진단적 검사로 일반 방사선 촬영, 조영 증강 컴퓨터 단층



Figure. 3. (a) First visit (b) Before injection treatment (c) One month after sclerosant injection treatment

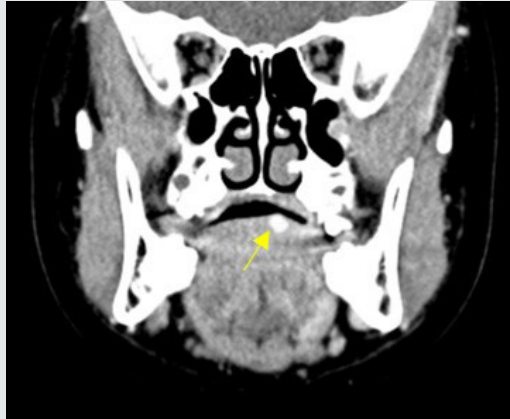


Figure. 4. Contrast-enhanced CT scan image demonstrates a venous malformation with enhancing round shaped venous lesion in the dorsum of the tongue. (arrow)

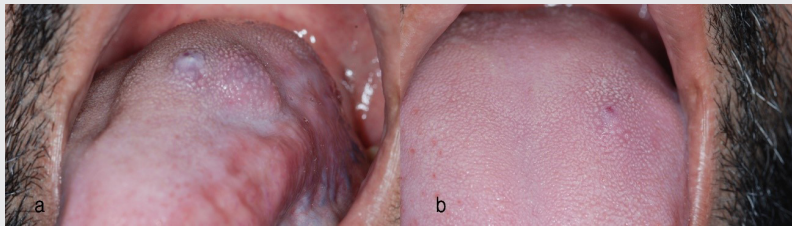


Figure. 5. (a) First visit (b) one month after sclerosant injection treatment

촬영 스캔(Enhanced Head and Neck CT), 자기공명영상(MRI) 또는 혈관 조영술로 혈관기형을 진단할 수 있다⁸⁾. 본 연구에서는 조영 증강 컴퓨터 단층 촬영 검사만 시행하였다. 이는 혈관 조영술처럼 고유속의 단락이나, 측부 순환을 직접 확인하거나 구별하는데 정확한 정보를 제공할 수 없다는 단점이 있다. 그러나, 골침윤 정도를 확인하는데 유리하고, 병변의 크기, 위치, 깊이, 범위에 대한 정보를 저비용, 비침습적인 방법으로 비교적 간단하게 얻을 수 있다는 장점이 있다⁹⁾. 본 연구에서 치료한 3명의 증례의 경우, 경화요법을 시행하기 위한 병변의 위치와 크기를 확인하는 위해 조영증강 컴퓨터 단층 촬영술을 촬영하였고 시술을 위한 충분

한 정보를 얻을 수 있었다.

혈관기형의 치료 방법에는 외과적 절제, Nd : YAG 및 CO₂ 레이저 요법, 색전술 및 경화요법이 있다. 이러한 다양한 치료는 혈관기형 병변의 크기, 위치, 관련 합병증에 따라 다르다. 작고 안정적인 기형은 치료가 필요하지 않을 수 있으나, 기능적인 장애나 외형적인 문제가 있는 병변은 치료를 시행하여야 한다. 외과적 절제술은 병변이 크고 깊은 경우에 인접 혈관에 대한 색전술과 함께 적용할 수 있다. 치료 기간이 짧고 즉각적으로 확실한 효과를 얻을 수 있어 최선의 치료법으로 간주되고 있다. 그러나 기술적인 난이도가 높고 남아있는 측부 혈관의 형성으로 재발의 가능성이



Figure. 6. Contrast-enhanced CT scan image demonstrates a venous malformation with longitudinal enhancing vessels in the dorsum of the tongue. (arrow)

있으며, 미용상이나 기능적인 문제를 초래할 수 있는 단점이 있다^{5,9)}.

아직 두경부 영역, 특히 구강내 연조직에서의 혈관기형의 표준 치료법이 확립되어 있지는 않으나, Joeng 등은 두경부 혈관기형의 초기치료로 경화요법을 먼저 시행하고, 효과가 없는 경우에 색전술 및 외과적 절제술의 병합요법을 사용하는 방법을 제시하였다⁸⁾. 경화요법은 혈관기형 내부로 경화제를 주입하는 것으로, 약물에 의해 혈액 내 단백질을 변성시키고, 혈관 내벽에 혈전을 형성하여 폐쇄를 유도한다. 다만, 이 약물이 혈관기형의 중심부(핵)에 정확히 도달한 경우에만 충분한 치료 효과를 얻을 수 있다¹⁰⁾. 일반적으로 사용하는 혈관경화제는 에탄올(Ethanol)과 폴리도카놀(polidocanol), 테트라데실황산나트륨(sodium tetradecyl sulfate; STS) 및 블레오마이신(bleomycin) 등이 있다. 이 중 에탄올 경화요법이 다른 약제에 비해 상대적으로 낮은 재발율을 보이는 것으로 알려져 있다³⁾. 그러나 에탄올은 피

부 괴사, 신경 손상 등과 같은 비교적 심각한 합병증이 발생할 수 있는 위험성이 있다. 폴리도카놀과 테트라데실황산나트륨(STS)은 에탄올에 비해 더 안전하고 덜 공격적인 경화제로 소개되어 있다. 폴리도카놀은 주입되는 혈관 주변의 섬유증을 유발하는 내피 자극제이다.

STS는 표면 활성 물질로 정맥 내부 내벽 지질에 작용하여 염증성 파괴를 일으킨다. 그로 인해 섬유증이 발행하면서 병소를 치료하는 기전을 가지고 있으며 현재 가장 널리 쓰이는 혈관경화제 중 하나이다. STS는 0.1%-3% 농도로 사용할 수 있다. 제조사에 따르면 주사 치료 사이의 간격은 7일 이상을, 최대 용량은 1ml를 권장하고 있다^{3,9)}. Min 등은 구강 내 혈관기형 병변에 1% STS 1ml를 일주일 간격으로, 최대 2회 주입하여 치료한 2개의 사례를 보고 하였다¹¹⁾. Choi 등도 1% STS를 병변의 크기에 따라 0.2-1.5ml를 주입하여 치료한 3개의 사례를 보고 하였다. STS는 다른 경화제와 마찬가지로 드물게 통증, 궤양, 부종, 아나필락시스 반응을 유

발할 수 있다⁹⁾.

본 연구에서는 3명의 환자 모두 1.5% STS (Fibrovein, STD Pharmaceutical Products Ltd, Hereford, UK) 0.5-1.0ml 를 1-2회 적용하여 치료하였다. 제조사에 따르면, 5mm 이상의 직경의 가진 혈관기형에서 1-3%의 농도가 추천된다. 낮은 농도를 사용하면 치료 효과가 부족할 수 있고, 높은 농도를 사용하면 통증, 괴사 및 색소 침착과 같은 부작용이 발생할 수 있다. 따라서 본 증례에서는 1.5% 농도의 STS를 사용하였다. 3개의 증례 모두 기능적이나 미용적 측면에서 만족할 만한 결과를 나타냈고, 특별한 합병증은 발견되지 않았다. 2명의 환자는 1회 주사로 치료를 종료하였고 1명의 환자는 1개월 간격으로 2회 주사하였다. 가장 효과적인 치료 간격은 아직 알려지지 않았다. 본 증례들에서는 주사치료 이후 2주까지 병소가 점진적으로 감소하는 것이 관찰되었다. 따라서 다회 주사치료를 요하는 경우에는 충분한 경과관찰기간을 가진 후 더 이상 병소 크기의 변화가 없을 때 추가 주사하는 것이 안전한 것으로 생각된다. 또한 본 증례들의 치료 종결 이후 경과 기간이 각각 6개월, 1년 8개월, 9개월로 짧은 편이며 재발 여부 또는 재치료 필요

성에 대한 조사가 결여되어 있다. 따라서, 가장 효과적인 경화제 주사 치료를 위한 주사액의 농도와 주사치료의 간격에 대한 연구와 장기 추적 결과에 대한 연구가 추가적으로 필요할 것으로 보인다.

혈관 경화제를 이용한 혈관 기형의 치료는 외과적 절제술이나 레이저 요법에 비하여 비교적 간단하고 비침습적인 방법으로 좋은 결과를 얻을 수 있어 구강 내 혈관 기형에서 합리적인 치료법으로 고려할 수 있다. 다만 경화요법은 병변을 완전히 제거할 수 있는 확실한 치료법은 아니라는 한계가 있으므로 임상가는 진단적 영상검사를 통해 치료 방법을 선택해야 한다^{10,11)}.

IV. 결론

구강 내 혈관기형의 치료 방법은 병변의 크기, 위치 및 관련 합병증에 따라 선택해야 한다. 크기가 비교적 작고 국소적이며 중심부에 접근이 가능한 병변은 혈관경화제를 주입하는 경화요법을 첫 번째 치료법으로 고려할 수 있다.

참 고 문 헌

1. Dasgupta R, Fishman SJ. ISSVA classification. *Semin Pediatr Surg* 2014;23:158-161.
2. Ethunandan M, Mellor TK. Haemangiomas and vascular malformations of the maxillofacial region—a review. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2006;44:263-272.
3. Wiegand S, Tiburtius J, Zimmermann AP, Guldner C, Eivazi B, Werner JA. Localization and treatment of lingual venous and arteriovenous malformations. *Vasc Med* 2014;19:49-53.
4. Colletti G, Valassina D, Bertossi D, Melchiorre F, Vercellio G, Brusati R. Contemporary management of vascular malformations. *J Oral Maxillofac Surg* 2014;72:510-528.
5. Noh Y, Ryu G, Kim HY. A Case of Arteriovenous Malformation of the Nasal Tip. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2020;63:123-128.
6. Gallant SC, Chewning RH, Orbach DB, Trenor CC, 3rd, Cunningham MJ. Contemporary Management of Vascular Anomalies of the Head and Neck—Part 1: Vascular Malformations: A Review. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2021;147:197-206.
7. Mulliken JB, Glowacki J. Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg* 1982;69:412-422.
8. Jeong HS, Kim MB, Bae CH, Byun HS. Diagnosis and Treatment of Extracranial Arteriovenous Malformations in the Head and Neck Region. *Korean J Otolaryngol - Head Neck Surg* 2005;48:1136-1142.
9. Choi BE, Kim Y, Leem DH, Baek JA, Ko SO. Utility of sodium tetradecyl sulfate sclerotherapy from benign oral vascular lesion. *Maxillofac Plast Reconstr Surg* 2016;38:1-4.
10. Saito N, Sasaki S, Furukawa H, Mol W, Saito A, Yamamoto Y. Percutaneous sclerotherapy for arteriovenous malformations of the face in the outpatient clinic. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2010;30(3):149-152.
11. Min HG, Kim SG, Oh JS, You JS. Sclerotherapy using 1% sodium tetradecyl sulfate to treat a vascular malformation: a report of two cases. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2015;41:322-326.