

## 경피적 색전술로 치료한 치명적 동정맥기형

연세대학교 의과대학 이비인후과학교실, 진단방사선과학교실\*

최은창 · 김은서 · 김시찬 · 김영호 · 김동익\*

= Abstract =

### A Case of Life-Threatening Arteriovenous Malformation Treated with Transcutaneous Embolization

Eun Chang Choi, M.D., Eun-Seo Kim, M.D., Shi Chan Kim, M.D.,  
Young-Ho Kim, M.D., Dong Ik Kim, M.D.\*

*Department of Otorhinolaryngology, Radiology,\* Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea*

Head and neck arteriovenous malformation usually forms huge mass, cause profuse bleeding or potentially compromise the airway. This bleeding is vulnerable to be uncontrollable and life-threatening. Sometimes it has a high mortality. Although surgical resection is possible in some cases, the morbidity such as a defects of soft tissue is very high and its reconstruction is very difficult. The authors report an 11 year old female patient in whom occlusion of arteriovenous malformation with glue after transcutaneous embolization made a satisfactory results. At the beginning, she was transferred for massive oral bleeding. The bleeding was persistent and it was not possible to remove the packing in spite of many times of embolizations through feeding arteries. The massive bleeding from the left upper alveolar mucosa compromised the airway and tracheotomy was done. Whenever the hypovolemic shock was occurred in a short time, blood transfusion and cardiopulmonary resuscitation were done. To embolize the vascular mass of arteriovenous malformation, as a final trial before operation, the spinal needle was administered through the left upper gingiva under the fluoroscopy. The glue was injected on the target. The bleeding was stopped and we have noticed the absence of nidus on follow-up angiography after 3 weeks.

We experienced that some cases of arteriovenous malformation in head & neck revealing the bleeding could be treated with transcutaneous embolization instead of surgical resection.

**KEY WORDS** : Head & neck arteriovenous malformation · Nidus · Transcutaneous embolization.

### 서 론

두경부에 발생하는 동정맥기형은 종괴를 형성하고 출

혈을 일으키기도 하며, 기도를 위협하기도 한다. 이 출혈은 때로 치명적이어서 이로 인하여 환자를 잃을 수 있으며 수술적 절제가 가능하다고 해도 두경부 연조직의 결손을 초래하는 등 이환율이 매우 높다. 또한 치료가 적절

하지 못할 경우 재발의 빈도도 높아진다. 저자들은 치명적 동정맥기형 레를 수술적 절제대신 경피적 색전술을 이용하여 치험하였기에 보고하는 바이다.

## 증 례

환 자: 김○이, 여자, 11세.

주 소: 좌측 치은 출혈.

과거력 및 가족력: 특기사항 없음.

현병력: 좌측 협부의 종괴로 본원 피부과를 내원하여 동정맥기형으로 진단받고 외래 추적관찰중 상기증상이 발병하여 본 과로 내원하였다.

이학적검사: 좌측 제 2상대구치(second upper molar teeth)의 치은출혈과 좌측 협부의 종괴가 관찰되었다.

방사선 검사소견: 내원당시 시행한 MRI의 T1 강조영상에서 상악골과 상악동내에 signal void의 동정맥기형 봉소(nidus)가 관찰되며 인접한 연조직내에도 혈관의 확장소견이 관찰되었다(Fig. 1).

치료 및 경과: 내원당시, 좌측 상악골과 협부에 위치한 동정맥 기형 종괴에서의 출혈로 인해 좌측 제 2상대구치 부위에서의 치은 출혈과 이로 인한 저혈성 쇼크가 발생하였다. 수액과 혈액공급 및 병소 부위의 팩킹(packings)을 시행하고 기도의 확보를 위해 기관절개술을 시행한 후 응급 혈관조영술을 시행하였다. 혈관조영

술상 좌측에는 심내막동맥, 안면횡동맥, 협동맥, 안면동맥에 의해 공급되는 nidus와 함께 주위로 확장된 정맥이 관찰되었으며, 우측은 심내막동맥, 상행구개동맥, 안면 횡동맥이 중안을 넘어 반대측의 nidus를 공급하는 것이 관찰되었다(Fig. 2). Particle을 이용한 일차 색전 후 nidus가 현저히 감소하였고 혈류의 감소로 인해, 색전술을 시행하기 전에 관찰되었던 확장된 정맥이 소실되었다.

일주일 후 팩킹을 교환하면서 대량출혈이 발생하여 수



Fig. 1. The axial view shows the signal-void nidus arteriovenous malformation in the maxillary sinus (open arrow). Note the dilatation of surrounding soft tissue(arrow).

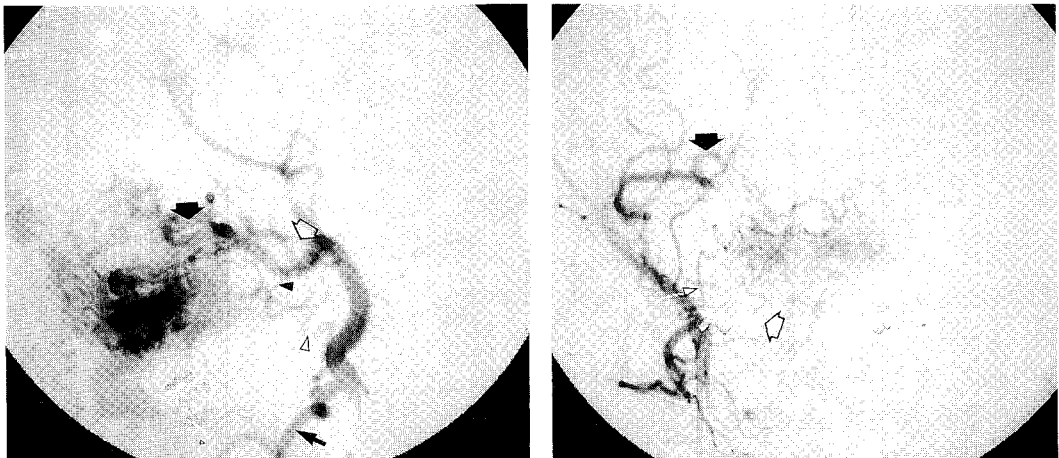


Fig. 2. The nidus is fed by left deep internal maxillary artery(arrow), transverse facial artery(open arrow), buccal artery (arrowhead), ascending palatine artery(open arrowhead) and facial artery(long arrow)(Left). The feeding vasculatures cross the midline with right deep internal maxillary artery(arrow), ascending palatine artery(open arrowhead) and transverse facial artery(open arrow)(Right).

혈 및 심폐소생술을 시행하였으며 2차 혈관조영술을 시행하였다. 이 때 심내막동맥은 관찰되지 않았으나, 안면 횡동맥의 말단부에서 새로이 형성된 많은 측부혈관(collateral vessel)들이 nidus로 공급되는 것이 관찰되었으며 이 혈관들을 대상으로 색전술을 시행하였다(Fig. 3).

그 후 돌발적인 재출혈로 두차례 더 색전술을 시행하였다. 3차 혈관조영시에는 좌측 심내막동맥, 상행구개동맥에서의 출혈이 발견되어 이들을 색전하였고, 2일 후 발생한 출혈로 인해 시행한 4차 혈관조영에서는 좌측 심

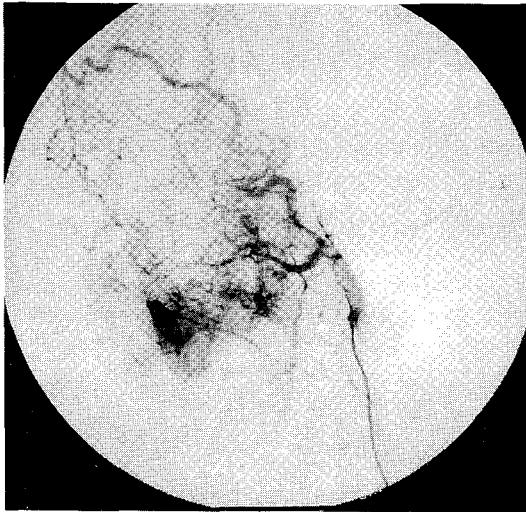


Fig. 3. The deep internal maxillary artery is not seen but lots of collateral vessels are newly developed. The embolization was performed.

내막동맥, 상행구개동맥 및 안면동맥, 그리고 우측 안면 횡동맥과 안면횡동맥과 안면동맥에 의해 다시 공급받는 nidus가 관찰되어 이 혈관들을 색전하였으나 팩킹을 제거하기는 어려웠다. 그후 외과적 절제를 고려하였으나, 대량 실험의 위험을 감안하여 형광경(fluoroscope)을 보면서 18 gauge spinal needle로 좌측 치은을 통해 nidus에 직접 glue를 주입하는 방법을 시도하였다. 주입 후 시행한 초기 동맥기에서 nidus를 전혀 관찰할 수 없고, 후기에는 혈관의 울혈소견은 관찰되나 nidus는 보이지 않았다(Fig. 4).

3주후에 추적 혈관조영술을 시행하였으며 좌측 총경동맥 조영시 nidus는 관찰되지 않았고, 우측 총경동맥에서도 nidus를 공급하였던 동맥이 더 이상 조영되지 않았다(Fig. 5). 환자는 기관 캐놀라 발거후 55일만에 퇴원하였다. 현재 경피적 색전술 시행 후 1년이 경과한 상태이며 아직까지 재발의 징후는 보이지 않고 있다.

## 고 찰

두경부에 발생하는 선천성 동정맥기형의 발생빈도는 드물지만, Pemberton등<sup>15)</sup>은 15례, Rei<sup>16)</sup>는 4례, Callander<sup>8)</sup>는 447례의 동정맥기형중 3례를 보고하였고, Malan과 Azzolini<sup>14)</sup>는 15례, Gomes등<sup>12)</sup>은 10년간 139례의 동정맥기형중 단지 11례를 선천성으로 보고하였다. Watson등<sup>18)</sup>은 1056례의 동정맥기형중 약 반수가 두경부에서 나타나 사지말단부위 다음으로 많은 부위로

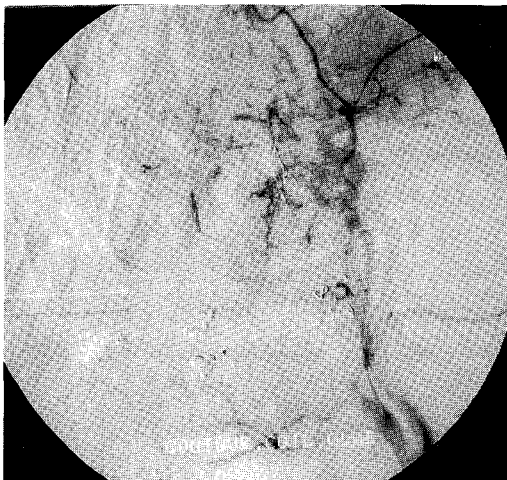


Fig. 4. The glue was administered in the nidus with 18 gauge spinal needle transcutaneously. The nidus was not seen at early arterial phase(Left). The vascular congestion is visible but nidus isn't seen.



Fig. 5. The nidus is not observed furthermore at the follow-up angiography.

보고하였다.

동정맥 기형은, 선천적인 경우 혈관종의 형태를 보이며 후천적인 경우 외상의 결과로 발생한다<sup>1)</sup>. 대개 후천성은 하나의 동맥에 의해 이환, 공급되는 반면 선천성의 경우에는 많은 혈관에 의해 공급받는 것이 일반적이다. 혈관의 발생은 다수의 내피세포가 존재하는 초기의 내피기(endothelial stage)에서 시작하여 이들 내피세포가 모세혈관으로 분화되어 망상구조를 이루는 망상기(reteform stage)를 거쳐 동맥과 정맥이 완전하게 형성되는 완전분화기(gross differentiation)로 진행되게 된다. 이 중 어느 한 시기의 발생에 장애요인이 발생하면 혈관의 기형이 일어나게 된다. 따라서 내피기 분화의 장애가 있는 경우 모세혈관상, 해면상 혈관종을 일으키며, 망상기의 이상은 소누공(microfistula)과 대누공(macrofistula)을 가진 동정맥 기형을 유발하게 된다.

동정맥 기형의 분류로는 임상적 분류와 병리학적 분류 등으로 다양하지만 혈관조영술상 세가지로 나뉘어지는데, 첫째 주로 동맥이나 동정맥에 병소가 있는 경우, 둘째 모세혈관을 포함한 작은 혈관을 침범하는 병소로 구성된 경우, 셋째 주로 정맥에 병소가 있는 경우로 나뉘어진다<sup>5)</sup>.

동정맥 기형은 양성질환이지만 미용상 안면의 모양을 변화시키고 동통이나 압통 등의 자각증상을 유발시킨다. 출혈등의 증상이 있는 경우 확실한 진단이 되지만, 그 증상이 발현되기 전에는 특별한 증상이 없는 경우가 대부분이다. 하지만 점진적으로 진행되어 종괴를 형성하게 되면 순환계의 이상을 나타내거나 출혈 등에 의해 생명을 위태롭게 하기도 한다.

동정맥 기형의 진단은 항상 특별한 검사를 필요로 하는 것은 아니지만, 동맥류 잡음이나 진전음 등의 이학적

검사이외에도 일반방사선촬영에서 정맥결석이나 골파괴를 보일 수 있고, 도플러 초음파검사, 전산화단층촬영, 자기공명영상으로 비교적 쉽게 병소의 범위와 주위조직과의 관계를 파악할 수 있다. 그러나 종괴로 가는 식식동맥의 확인과 동정맥의 비정상적인 연결을 알기 위해서는 혈관조영술이 필요하다.

동정맥 기형의 치료는 병변의 크기, 범위, 위치, 임상적 특성 그리고 환자의 연령에 따라 다르게 결정되어야 한다. 이에 수술적 절제, 외경동맥 결찰, 방사선 치료 등과 아울러 혈관 색전술을 이용한 증재적 치료가 있다. 그 외에도 레이저요법, 전기소작술, 한냉수술요법, 경화법 등의 방법이 있으나, 이러한 방법들은 주로 크기가 작고 범위가 작은 동정맥기형에서만 사용되어져 왔다.

지금까지 이루어져왔던 수술적 절제에는 많은 문제점이 있는데, 탁 등<sup>3)</sup>은 상완유리피판을 이용하여 안면부 동정맥기형의 치료를 보고하기도 하였으나, 수술도중 대량 출혈의 위험이 있어 환자에게 치명적일 수 있고, 수술 후 재건과 미용에 있어 어려움이 많으며, 완전 절제가 어려워 수술후 종괴가 빠른 속도로 재발하기도 한다. 본 증례에서는 발생 위치가 상악골과 협부로서 수술적 절제의 범위는 기본적으로 상악골 절제술과 표재 이하선 적출술이 필요할 것으로 생각되었고, 수술 전 동측 외경동맥에 대한 처지가 필요할 것으로 사료되었다. 그러나 환자가 여성이고 연령이 어리므로 수술 후의 미용 및 재건 등이 어려울 것이라는 단점이 예상되었다.

이러한 수술적 절제의 단점을 극복하기 위해 증재적 치료가 시도되어 왔는데, 1904년 Dawbarn이 두개안면 중앙 환자에서 처음으로 외경동맥을 통하여 액화 wax를 주입한 이래, 1930년 Brooks<sup>7)</sup>가 자가근육편을 이용한 색전술을 시도하였고, 1971년 Serbinenko<sup>17)</sup>는 풍선카

테터를 이용하였으며, 1978년에 djindjian<sup>9)</sup>은 초선택 색전술을 시도하였다. 국내에서는 협부<sup>14)</sup>, 하악<sup>2)</sup>과 측두부<sup>4)</sup>에 생긴 동정맥기형에서 시행한 초선택 색전술이 보고되어 있다. 이 방법은 대량 출혈이 있거나 예상되는 예에서와 같이 수술이 불가능한 경우에 효과적이고, 수술적 접근이 어려운 부위에도 시술할 수 있으며, 안면기형을 피할 수 있어 특히 소아 및 여성에 유리하다. 이와 함께 Jackson<sup>13)</sup> 및 Erdmann<sup>10)</sup>은 team approach로 술전에 초선택 색전을 시행한 후 봉소(nidus)를 수술적 절제 또는 레이저를 이용한 절제<sup>6)</sup>로 제거하는 복합요법을 주장하였으나, 이 경우에도 수술적 절제의 단점을 피할 수는 없다.

본 증례의 경우 카테터를 통해 안면동맥, 안면횡동맥, 내악동맥의 분지까지도 초선택도관이 가능하였으나, particle을 이용한 수차례의 색전에도 일시적인 호전만을 보일 뿐이어서 기존의 초선택적 색전술로는 완전한 치료가 되지 못하였다. Flandroy<sup>11)</sup>은 하악에 생긴 동정맥기형례를 대상으로 16 gauge의 카테터를 이용하여 직접 동정맥기형의 봉소(nidus)에 색전물을 주입함으로써 치료한 두례를 보고한 바 있다.

색전에 사용되는 물질은 흡수성 및 비흡수성 물질의 2가지로 나뉘어 지는데, 흡수성 색전물로는 일시적으로 혈류를 차단하는 surgical gelatin sponge(Gelfoam)<sup>4)</sup>, oxidized cellulase(Oxycel)와 microfibrillar collagen(Avitene) 등이 있다. 최근에는 비흡수성 전색물질인 polyvinyl alcohol(Ivalon)<sup>12,4)</sup> 등이 자주 사용된다. 그 외 동정맥기형의 모든 혈관과 정맥을 cast와 같은 효과로 색전하는 특성을 가진 glue와 ethibloc<sup>11)</sup> 등을 이용할 수 있는데, 본 예에서는 glue를 봉소에 직접 주입한 예이었다.

그러나 중재적 치료의 단점으로는 봉소가 남았을 경우의 빈번한 재발뿐 아니라, 주위 혈관으로 색전물이 역류하거나 목표로 하지 않은 혈관이 폐색될 위험성을 비롯하여 뇌졸중, 뇌신경마비, 시력손실 등이 발생할 수 있고, 그외에도 조직의 괴사와 그에 따라 발열이 발생할 수 있다는 점이다<sup>4)</sup>. 그 중 역류의 예방법으로는 색전물 주입중에 동측의 경정맥을 눌러 색전물질이 굳기 전까지 원하는 병소에 머무르게 하는 방법이 제안되어 있다<sup>11)</sup>.

안면의 동정맥기형 예를 치료하는 데 있어서는 여러가지 어려운 점이 많지만, 어떤 치료방법이 적용되어야 하는지를 빨리 결정하여야 하며 합당한 치료 방법이 정해

진 후에는 얼마나 신속히 치료를 시작하는 지가 치료의 원칙으로서 중요하다고 하겠다.

본 증례의 경우와 같이 기관절개가 필요할 정도의 대량출혈을 동반한 두경부 동정맥기형에서는 다음과 같은 점, 즉 (1) 연령적으로 어린 소아라는 점, (2) 수술적 접근이 어려운 부위라는 점, (3) 수술로 효과적인 지혈이 어려운 것이라는 점, (4) 결손에 따른 재건으로 인해 환자의 이환율의 증가가 예상되었던 점 등이 치료의 방법을 결정하였는데 있어 고려했던 요소였다. 또한 초선택적 도관을 이용한 십식동맥의 색전으로 치료가 가능하지 않은 경우였으며, 초선택적 색전과 함께 봉소(nidus)에 직접 색전물질을 주입함으로써, 봉소의 흡입력을 차단하여 동정맥기형을 치료하고 재발을 막고자 한 예이었다.

## 결 론

저자들의 경우 일례에 지나지 않았지만, 출혈 등의 위험증상이 있는 두경부의 동정맥기형은 기도유지와 더불어 정확한 진단을 통해 치료방법을 신속히 선택하여야 한다는 점을 다시 한 번 알 수 있었다. 저자들이 택한, 초선택 색전과 함께 시행한 경피적 색전술은 수술적 절제없이 치료할 수 있는 효과적인 방법이라고 사료되었으며, 수술적 절제에 따른 위험과 재건의 문제없이 치명적 동정맥 기형을 치료할 수 있는 한가지 방법이라고 판단되었다. 그러나 앞으로 계속적인 추적 관찰이 필요한 것으로 사료된다.

## References

- 1) 구상완 · 김동건 · 김동익 : 초선택 전색으로 치료한 안면 동정맥 기형, 대한피부과학회지 29(5) : 703-707, 1991
- 2) 이상철 · 김여갑 · 안재희 · 김현철 : 안면부에 발생된 동정맥성 기형의 일례 및 문헌고찰, 대한구강외과학회지 10(1) : 159-171, 1982
- 3) 탁관찰 · 정우창 · 이영호 : 선천성 거대 안면부 동정맥기형의 치료를 위한 유리파판술, 대한성형외과학회지 17(2) : 232-239, 1990
- 4) 박명철 · 한병기 · 탁관철 · 신극선 · 김동익 : Transarterial microembolization을 이용한 두경부 혈관종 및 동정맥기형의 치험례, 대한성형외과학회지 13(4) : 545-550, 1986

- 5) Allison DJ, Kennedy A : *Peripheral arteriovenous malformations. BMJ* 303(9) : 1191-1194, 1991
- 6) Apfelberg DB, Lane B, Marx MP : *Combined(Team) approach to hemangioma management : Arteriography with superselective embolization plus YAG laser/sapphire-tip resection. Plast Reconstr Surg* 88(1) : 71-82, 1991
- 7) Brooks B : *The treatment of traumatic arteriovenous fistula. South Med J* 23 : 100-105, 1930
- 8) Callander CL : *Study of arteriovenous fistula with an analysis of 447 cases. Johns Hopkins Med J* 19 : 259, 1920
- 9) Djindjian R, Cophignon J, Theron J, et al : *Embolization by superselective arteriography from the femoral route in neuroradiology. Review of 60 cases : I technique, indications, complications. Neuroradiology* 6 : 20-25, 1973
- 10) Erdmann MW, Davies DM, Jackson JE, Allison DJ : *Multidisciplinary approach to the management of head and neck arteriovenous malformations. Ann R Coll Surg Engl* 77 : 53-59, 1995
- 11) Flandroy P, Pruvo JP : *Treatment of mandibular arteriovenous malformations by direct transosseous puncture : Report of two cases cardiovascular intervention radiol* 17 : 222-225, 1994
- 12) Gomes MM, Bernatz PE : *Arteriovenous fistulae : A review and 10 year experience at the Mayo Clinic. Mayo Clin Proc* 45 : 81, 1970
- 13) Jackson IT, Jack CR, Aycock B, et al : *The management of interosseous arteriovenous malformation in the head and neck area. Plast Reconstr Surg* 84(1) : 47-54, 1989
- 14) Malan E, Azzolini A : *Congenital arteriovenous malformations of the face and scalp. J Cardiovasc Surg* 9 : 109, 1968
- 15) Pemberton JD, Saint JH : *Congenital arteriovenous communications. Surg Gynecol Obstet* 46 : 470, 1928
- 16) Reid M : *Abnormal arteriovenous communications acquired and congenital. Part 2. Arch Surg* 10 : 966, 1925
- 17) Serbinenko F : *Balloon catheterization and occlusion of major cerebral vessels. J Neurosurg* 41 : 125-131, 1974
- 18) Watson WL, McCarty WS : *Blood and lymph vessel tumors, a report of 1056 cases. Surg Gynecol Obstet* 17 : 569, 1940