경부 종물로 발견된 정맥 내 화농성 육아종 1례

이동원 · 김정규*

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

A Case of Intravenous Pyogenic Granuloma Found as a Neck Mass

Dong Won Lee, MD, Jeong Kyu Kim, MD, PhD*

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine,
Catholic University of Daegu, Daegu, Korea

= Abstract =

Intravenous pyogenic granuloma, commonly known as intravenous lobular capillary hemangioma, is a rare benign tumor of the vein. It rarely occurs in the neck, and its character is not enough to diagnosis clinically. It could be diagnosed with preoperative radiologic examinations such as ultrasound and computed tomography and typical pathologic findings that demonstrate lobules of multiple capillaries lined with flattened endothelial cells admixed with fibromyxoid stroma. The authors report a case of a 32-year-old male who presented with a palpable neck mass for one month with a review of the literature. He was successfully treated with resection, including the tumor and normal external jugular vein, without any complications.

Key Words : Jugular vein · Lobular capillary hemangioma · Pyogenic granuloma

서론

화농성 육아종(pyogenic granuloma, PG)은 급속하게 성장하는 양성종양 중 하나로 주로 피부와 구강 점막, 비강 점막에 발생한다. 이 병변은 외상과 같은 외부 자극에 의한 가피형성과 세균 감염 등의 임상적 특징으로 화농성 육아종으로 불리나, 병리학적으로는 특징적인 혈관 증식 소견 때문에 소엽 모세혈관종(lobular capillary hemangioma)이라고도 불린다.^{1,2)} 원인은 명확히 밝혀져 있지 않으나 외상성 요인과 임신이나 경구 피임약의 복용 등

호르몬적 요인으로 생각되고 있다.³⁾

화농성 육아종이 정맥내에 발생하는 정맥 내 화농성 육아종(intravenous pyogenic granuloma, IVPG)은 매우 드물며, 외경정맥에 발견되는 경우는 특히 드물어, 국내 보고는 김 등이 발표한 1례 외에는 없다.¹⁾

저자들은 최근 경부 종물을 주소로 내원한 32세 남자 환자에서 외경정맥 내 화농성 육아종 증례를 경험하여 이를 문헌고찰과 함께 보고하고, 초음파 검사 시 주의해야 할 점을 제시하고자 한다.

증례

32세 남자 환자가 1달 전 우연히 발견된 우측 경부 종물을 주소로 타원에서 보존적 치료를 받았지만 증상이 호전되지 않아 본원 이비인후과 외래를 방문하였다. 환자는 경부 수술이나 외상 등 기타 특별한 과거력은 없었으며, 신체진찰에서 우측 경부 레벨 III 부위에 약 0.5 ~ 1 cm 크기의 매끄러운 원형의 종물이 관찰되었다. 촉진 시 특

Received: July 8, 2020

Revised: October 21, 2020

Accepted: October 25, 2020

*Corresponding author: Jeong Kyu Kim, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
School of Medicine, Catholic University of Daegu, 33
Duryugongwon-ro 17-gil, Nam-gu, Daegu 42472, Korea
Tel: +82-53-650-4071, Fax: +82-53-650-4533
E-mail: doctorjkkim@cu.ac.kr

별한 통증은 없었고, 주변 조직과 유착은 없었으며, 피부에도 이상 소견은 없었다. 그 외에 구강, 후두, 인두 진찰 결과 특이소견은 없었다. 초음파 검사 상 우측 경부 레벨 III에 7mm의 경계가 명확한 저에코 음역을 보이는 종물이 광경근과 흉쇄유돌근 사이에서 관찰되어(Fig. 1), 유피낭종(epidermoid cyst) 등의 양성 종물 의심 하에 특별히 세침흡인검사나 바늘 생검은 시행하지 않고, 국소마취 하에 진단 및 치료 목적의 절제 수술을 계획하였다. 국소마취 후 경부에 약 1.5 cm의 절개를 시행한 후 광경근을 절개해 종물을 노출하였고, 수술 장에서 외경정맥 안에 싸인 종물로 확인되어 상부 및 하부의 외경정맥을 절찰하여 종물과 함께 제거하였다(Fig. 2). 이후 절개된 광경근 및 피하조직, 피부 봉합을 하고 수술을 종료하였다. 수술 후 병리 결과상 육안적 소견으로는 외경정맥 내 0.7 cm 크기의 폴립형 종물이 관찰되었고, 현미경적 소견으로는 종양 내부에서 모세혈관이 증식하여 형성된

특징적인 소엽의 형태가 관찰이 되어 정맥내 화농성 육아종으로 최종 진단되었다(Fig. 3A, 3B). 수술 후 단기 추적 관찰 시 경부나 안면의 부종, 통증 등 이상 소견은 관찰되지 않았고, 현재 외래 추적 관찰 중이다.

고찰

IVPG는 1979년 Cooper 등이 피부에 생기는 PG와 병리학적으로 유사한 혈관안에 생긴 종물 18례를 처음 발표하였으며, 이를 정맥 내 화농성 육아종이라 명명하였다. 성별에 따른 차이는 호르몬의 혈관에 대한 효과 때문에 여성에서 호발하며, 모든 연령층에서 발생하나 주로 30대에 호발한다고 알려져 있다.^{4,5)}

IVPG는 무통성 종물이 주 증상으로 이 외 임상적으로 뚜렷한 특징이 보고된 바가 없어서 초기 진단에서 영상학적 검사가 도움이 될 수 있다.¹⁾ IVPG의 초음파적 소견은 정맥 안에 경계가 분명하고 과혈관성이 동반된 예코

Fig. 1. Ultrasonogram showing right neck level III about 7mm sized hypoechoic with well-defined margin mass on sternocleidomastoid muscle.

Fig. 2. Gross photograph right after removal of mass shows 0.7 x 1.7 cm sized soft mass in the ligated external jugular vein.

Fig. 3. Histopathologic findings. (A) Single polypoid mass and detached stalk (*) projecting into the lumen of vein (H&E stain, X10) (B) Tumor composed of lobular proliferation of multiple capillaries admixed with fibromyxoid stroma (H&E stain, X200)

음역이나 저에코 음역의 종물 소견이 특징적이며, 병리 소견과 비교해보면 에코 음역 부위는 소엽 모세혈관 부위, 저에코 음역 부위는 섬유점액 기질 부위로 알려져 있다.^{6,7)} 자기공명영상에서는 T1 강조영상에서 주변 근육과 등신호 강도를 보이고, T2 강조영상에서는 종물이 들어있는 혈관보다 등신호 또는 고신호 영상으로 보이며, 가돌리늄 조영증강 영상에서는 비균질성 조영증강이 보인다고 알려져 있다.^{4,8)}

IVPG의 병리 소견은 다른 부위의 PG와 비슷하며, 만성 염증세포가 침윤된 섬유점액기질 위에 모세혈관이 소엽상으로 증식해 있고, 고배율로 관찰 시 모세혈관들은 납작하거나 둥근 내피세포로 둘러싸여 있고, 모세혈관 사이에 콜라겐 섬유점액 기질로 구성되어 있다.^{9,10)} 혈관에 생길 수 있는 악성종물과 감별을 위해 factor VIII-연관 항원, CD34, ulex europaeus agglutinin, S-100 antibodies 등과 같은 특수한 면역조직학적 염색을 사용할 수 있다.^{7,11)}

IVPG는 혈관 육종(angiosarcoma), 정맥 내 혈전(intravenous thrombus), 정맥 내 유두모양 내막 증식증(intravascular papillary endothelial hyperplasia, Masson tumor), 혈관 내 비정형 혈관 증식증, 혈관내 근막염(intravascular fasciitis) 등과 감별이 필요하다. 혈관육종의 경우 IVPG와 육안으로는 구분이 어려운 회백색의 단단한 종물로 관찰되지만, 병리학적으로 IVPG의 특징적인 소엽화는 보이지 않고 침습적 성장 양상, 핵의 과염색증(hyperchromasia), 다형성증(pleomorphism), 과도한 유사분열(mitosis)이 특징적 감별점이다. 일반적으로 수술 중 동결절편검사는 유용하지 못하며, CD-31, CD-34, von Willebrand factor 면역

조직학 염색이 감별에 도움을 줄 수 있다.⁹⁾ 정맥 내 혈전은 주로 수술 후 일정기간 거동이 불편했던 환자에서 발생하고, 영상검사상 혈류공급이 원활하지 않는 혈관 내 종물이며, 병리결과상 축적된 섬유소(fibrin deposit)와 모세혈관이 거의 없는 종물 소견으로 구분할 수 있다. 정맥 내 유두모양내막 증식증은 혈전에 의해 주로 발생하며, IVPG의 특징인 소엽 형태는 보이지 않고, 혈관 내에 내막의 증식과 함께 혈관 내벽으로 수많은 혈전이 동반된 작은 유두모양 소견이 특징적이다.¹²⁻¹⁴⁾ 혈관 내 비정형 혈관증식증은 혈관벽 밖으로 확장하여 조직구 세포 및 내막 세포를 포함하는 것이 특징이다. 혈관내 근막염은 소엽 형태는 띄지 않고, 불규칙한 짧은 다발 모양의 침윤된 섬유모세포들이 풍부한 점액양 기질로 둘러싸여 있으며 혈관외부로 유출된 적혈구, 간질내 점액 침착 등이 특징이다.¹⁵⁾

IVPG의 치료는 둘러싸고 있는 정맥을 포함하여 종물의 완전 절제이며, 이는 다른 질환과의 감별진단을 위해서도 필요하다.¹²⁾ 세침흡입검사나 바늘 생검은 혈관에 손상을 가해 혈종이나 출혈이 일어날 수 있기 때문에 일반적으로 시행하지 않고 진단과 치료 목적의 절제술이 권유된다.¹⁶⁾ 수술 후 예후는 좋고 재발률도 높지 않은 것으로 알려져 있다.

현재까지 보고된 문헌 중 경부에 생긴 IVPG는 14례로 임상적 특징은 Table 1과 같다. 내경정맥에서 기원한 IVPG는 대부분 특별한 증상이 없었고, 외경정맥에서 기원한 IVPG는 경부 종물로 발견되었다. 이는 해부학적 위치상 외경정맥이 표층에 주행하고 있어 본 증례와 같이 크기가 작더라도 환자가 쉽게 종물을 촉진하고 자각

Table 1. Review of previously reported cases of intravenous pyrogenic granuloma found at the neck area.

Author	Case	Sex/Age	Location	Size (mm)	Symptom	Duration	US
Copper, 1979 ¹⁷⁾	6	NR	neck	NR	NR	2 months or less	NR
Ulbricht, 1980 ¹⁸⁾	1	M/12	Right neck (external jugular vein)	15	Neck mass	2 months	NR
Sarteschi, 1999 ¹⁶⁾	1	F/56	Right neck (external jugular vein)	20	Neck mass	Several months	+
Song, 2001 ¹⁵⁾	1	M/43	Left neck (external jugular vein)	10	Neck mass	1 month	NR
Maher, 2010 ¹²⁾	1	F/41	Right neck (external jugular vein)	10	Neck mass	4 weeks	+
Panchagnula, 2011 ¹⁹⁾	1	F/12	Neck (nape)	10	Firm cystic swelling	1 month	NR
Wu, 2011 ⁵⁾	1	F/38	Right neck (internal jugular vein)	5.7	No symptom	0.5 month	+
Cera, 2015 ²⁰⁾	1	M/51	Left neck (Internal jugular vein)	10 x 8.7 x 7.6	No symptom	NR	+
Kim, 2019 ¹⁾	1	M/31	Left neck (external jugular vein)	5 x 5	Neck mass	2 months	NR

NR: not recorded, US: ultrasonography

할 수 있기 때문에 사료된다.

임상적으로 본 증례와 같이 표층의 정맥 안에 있는 경우에는 혈관과 종물의 연관성을 확인하는 것이 수술 장에서도 어려울 수 있다.¹²⁾ 따라서 술 전 초음파가 유용할 수 있다. 하지만 본 증례에서는 혈관의 직경이 정상보다 커져 있거나 혈관 내에 초음파 에코의 차이를 쉽게 확인할 수 없어 혈관 안의 종물임을 초기에 의심하지 못했고, 전산화단층촬영 등 추가적인 영상학적 검사를 하지 않아 수술 중에 종물이 외경정맥 안에 들어있음이 확인이 된 증례이다. 따라서 초음파를 보더라도 표층의 종물이나 외경정맥의 경우 초음파 프로브로 누르는 압력에 의해 쉽게 허탈(collapse)되어 간과되기 쉽다는 것을 인지하고 프로브를 피부에 밀착시키는 압력을 조절해보고, 종물의 수평면(횡단면)만을 확인하는 것이 아니라 시상면도 확인해야 할 것이며, 도플러 등의 추가적 방법으로 종물을 평가하는 습관을 길러야 함을 본 증례는 시사하고 있다.

결론적으로 본 증례의 경우로 미루어 표층에 생긴 무통성의 단일 종물의 경우 초음파로 진단 시 혈관 안에 생긴 종물일 가능성을 고려하고 도플러를 확인해야 하며, 세침흡입검사나 바늘 생검 등으로 혈관에 손상을 가해 혈종이나 출혈이 일어나지 않도록 주의해야한다. 또한 종물이 표층에 있고 통증이 없으며 크기가 작더라도 필요시 전산화 단층촬영을 하여 종물의 상태에 맞는 적절한 제거 방법 계획이 필요하리라 생각된다.

References

- 1) Kim SW, Kim SY, Noh SH, Lee SH. *A Case of Intravenous Pyogenic Granuloma Originating in the External Jugular Vein. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg.* 2019;62:307-311.
- 2) Rachappa MM, Triveni MN. *Capillary Hemangioma or Pyogenic Granuloma: A Diagnostic Dilemma. Contemp Clin Dent.* 2010;1:119-122.
- 3) Fechner RE, Cooper PH, Mills SE. *Pyogenic Granuloma of the Larynx and Trachea. A Causal and Pathologic Misnomer for Granulation Tissue. Arch Otolaryngol.* 1981;107:30-32.
- 4) Loftus WK, Spurrier AJ, Voyvodic F, Neuhaus SJ, James CL. *Intravenous Lobular Capillary Haemangioma (Pyogenic Granuloma): A Case Report and a Review of Imaging Findings as Reported in the Literature. J Med Imaging Radiat Oncol.* 2018;62:217-223.
- 5) Wu Z, Cheng W, Wang S, Chen Z. *Pyogenic Granuloma in the Internal Jugular Vein. Eur Heart J.* 2011;32:772-773.
- 6) Ahn SE, Park JS, Ryu KN, Jin W, Park SY. *Intravenous Lobular Capillary Hemangioma Occurring in the Cephalic Vein of a 39-year-old Adult. J Clin Ultrasound.* 2014;42:375-378.
- 7) Maddison A, Tew K, Orell S. *Intravenous Lobular Capillary Haemangioma: Ultrasound and Histology Findings. Australas Radiol.* 2006;50:186-188.
- 8) Ghekiere O, Galant C, Vande Berg B. *Intravenous Pyogenic Granuloma or Intravenous Lobular Capillary Hemangioma. Skeletal Radiol.* 2005;34:343-346.
- 9) Pradhan S, Bazan H, Salem R, Gusberg RJ. *Intravenous Lobular Capillary Hemangioma Originating in the Iliac Veins: A Case Report. J Vasc Surg.* 2008;47:1346-1349.
- 10) Truong L, Font RL. *Intravenous Pyogenic Granuloma of the Ocular Adnexa. Report of Two Cases and Review of the Literature. Arch Ophthalmol.* 1985;103:1364-1367.
- 11) Qian LH, Hui YZ. *Intravenous Pyogenic Granuloma: Immunohistochemical Consideration--A Case Report. Vasc Surg.* 2001;35:315-319.
- 12) Maher A. *Intravenous Lobular Capillary Hemangioma. Ann Vasc Surg.* 2010;24:951.e13-e15.
- 13) Zhou H, Zhang J, Yang P, Jiang L, Zhang Y, Wang H, et al. *Intravenous lobular capillary hemangioma: report of a case and review of literature. Int J Clin Exp Pathol.* 2016;9(6):6397-6401.
- 14) Matsuzaki K, Imamura Y, Ozawa M, Nakajima T, Ikeda A, Konishi T, et al. *Intravenous Lobular Capillary Hemangioma in the Subclavian Vein. Ann Thorac Surg.* 2016;102:e427-e429.
- 15) Song MG, Kim HJ, Lee ES. *Intravenous pyogenic granuloma. Int J Dermatol.* 2001;40:57-59.
- 16) Sarteschi LM, Bonanomi G, Mosca F, Ferrari M. *External jugular vein hemangioma occurring as a lateral neck mass. J Ultrasound Med.* 1999;18:719-721.
- 17) Cooper PH, McAllister HA, Helwig EB. *Intravenous pyogenic granuloma: a study of 18 cases. Am J Surg Pathol.* 1979;3(3):221-328.
- 18) Ulbright TM, Cruz DJS. *Intravenous pyogenic granuloma. Cancer.* 1980;45:1646-1652.
- 19) Panchagnula R, Kini U. *Intravascular lobular capillary hemangioma arising in an hemangioma: a much disputed entity. Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;125(5):574-575.
- 20) Cera C, Calvagna C, Sgorlon G, Zamolo F, Pancrazio F, Adovasio R. *Internal jugular vein pyogenic capillary hemangioma: a case report. Ann Vasc Surg.* 2015;29:361.e5-7.