

Spinal Capillary Hemangioma Involving the Lumbar Epidural and Paraspinal Spaces: A Case Report

요추경막외 공간과 척추주위 공간에서 발생한 척추 모세혈관종: 증례 보고

Bongguk Yim, MD¹, Young-Jun Lee, MD¹, Dong Woo Park, MD², Ji Young Lee, MD¹,
Chan Kum Park, MD³, Seung Sam Paik, MD³

Departments of ¹Radiology, ³Pathology, Hanyang University Medical Center, Hanyang University College of Medicine, Seoul, Korea
²Department of Radiology, Hanyang University Guri Hospital, Hanyang University College of Medicine, Seoul, Korea

Spinal capillary hemangiomas in the epidural space are extremely rare; however, a preoperative radiological diagnosis is very important because of the risk of massive intraoperative hemorrhage. We report a case of a spinal capillary hemangioma involving the lumbar epidural and paraspinal spaces.

Index terms

Capillary Hemangioma
Epidural Space
Paraspinal Space
Rare Disease

Received November 22, 2014

Accepted March 1, 2015

Corresponding author: Young-Jun Lee, MD

Department of Radiology, Hanyang University Medical Center, Hanyang University College of Medicine, 222-1 Wangsimni-ro, Seongdong-gu, Seoul 133-817, Korea.
Tel. 82-2-2290-9153 Fax. 82-2-2290-2111
E-mail: yjleeee@hanyang.ac.kr

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

서론

모세혈관종(capillary hemangioma)은 그물처럼 얽힌 비정상적인 모세혈관과 혈관내피세포 증식에 의해 형성되는 양성 혈관 종양이다. 모세혈관종의 빈도는 약 0.5%로 보고되고 있으며 주로 피부, 연조직, 그리고 골에서 발생한다. 그러나 척수와 그 주변부위의 모세혈관종은 상대적으로 매우 드문 질환으로 보고되고 있다(1-3). 이 공간에서 발생할 수 있는 다른 종양과 구분이 쉽지 않다는 점과 수술 시 과도한 출혈을 방지하기 위해 수술 전 색전술이 필요할 수 있다는 점에서 영상의학적 소견이 매우 중요하다고 할 수 있다(4). 따라서 병리학적으로 확진된 요추경막외 공간과 척추주위 공간을 침범한 척추 모세혈관종 증례를 보고하고자 한다.

증례 보고

54세 남자 환자가 약 2주 전부터 생긴 보행장애를 주소로 내원하였다. 내원 당시 신경학적 검사 소견상 하지의 감각 이상은

없었으나 도수근력검사(manual muscle testing)에서 양쪽 발목에서 4, 양쪽 발가락에서 3 정도로 근력 감소가 관찰되었다.

내원 당시 촬영한 자기공명영상(MRI) 검사에서 요추 2번과 3번 사이의 경막외 공간과 왼쪽 신경공, 척추주위 공간을 침범하는 병변이 발견되었다. 병변은 척추관(spinal canal) 내에서 경막낭(dural sac)을 좌후방에서 둘러싸면서 압박하고 있었으며 왼쪽 신경공을 통해 척추주위 공간으로 침범해 나가고 있었다(Fig. 1). 병변의 크기에 비해 인접 골 변화는 뚜렷하지 않았고 정도의 좌측 신경공 확장이 관찰되었다. 병변은 T2 강조영상에서 대체로 높은 신호강도를 보이고 있었으며 내부에 출혈에 의한 것으로 의심되는 낮은 신호부위와 낭성 변화로 생각되는 고신호 부위가 포함되어 비균질한 신호강도를 보였다(Fig. 1A). T1 강조영상에서 대체로 주변 근육과 비슷한 정도의 낮은 신호강도를 보였고(Fig. 1B), 조영증강 후에는 출혈과 낭성변화 부위를 제외하고는 강한 조영증강을 보였다(Fig. 1C). 이 종괴는 좌측 척추주위 공간으로 자라나와 요근(psoas muscle)을 침범하고 있었으며 일부에서 경계가 좋지 않은 침윤성 소견을 나타내었다(Fig. 1C).

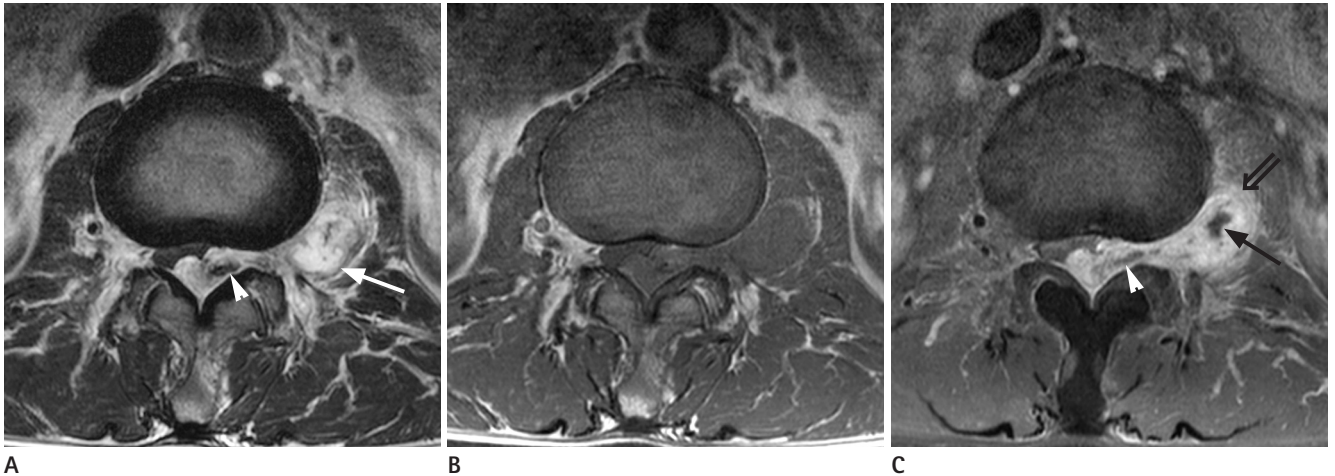


Fig. 1. Lumbar MRI of a 54-year-old man presenting lower extremity weakness. A Dumbbell-shaped mass involving both epidural and paraspinal space is noted. On T2-weighted axial image **(A)**, hemorrhagic and cystic portion of the mass are shown as a low signal intensity area (arrowhead) and a high signal intensity area (arrow), respectively. On pre-contrast axial T1-weighted image **(B)**, the mass is generally iso-intense to adjacent muscle with some heterogeneity. On post-contrast axial T1-weighted image **(C)**, the mass enhances well with areas of non-enhancement suggesting hemorrhagic (arrowhead) and cystic portion (arrow). At anterior aspect of paraspinal mass, partially infiltrative portion is noted (double arrow).

환자는 앞서 언급한 하지 근력 감소로 인하여 응급 종괴제거술 및 요추 2, 3번 척추후궁절제술을 시행 받았다. 수술 당시 요추 2번과 3번 사이에 경막에 부착되어 있는 붉은색의 종양이 있었다. 좌측 요근으로의 침범이 있었으나 경막을 절개하여 내부를 확인하였을 때 경막 내부나 주변 신경을 침범한 증거는 없었다. 종양을 대부분 제거하였으나 이 과정에서 3.5 L 이상의 출혈이 발생하여 좌측 요근을 침범한 병변은 완전히 제거하지는 못하였다.

조직현미경검사에서 다양한 크기의 혈관이 증식되어 있고, 납작한 한 층의 혈관내피세포가 보였다. 이 세포를 따라 증식하는 혈관세포에 특이적인 표지자인 CD34에 양성을 보이는 모세혈관종과 일치하는 소견이 보였다(Fig. 2).

수술 후, 그리고 외래 추적검사상 환자의 허리통증과 근력감소는 호전되었고, 보행은 오래 걸었을 때 묵직함 호소 외에 특별한 합병증은 호소하지 않았다. 수술 한 달 후 전산화단층촬영(CT)을 시행하였으며 수술 후 변화 소견이 남아 있는 상태로 잔류 종양 여부를 파악하기 위해 추적 자기공명영상검사를 시행할 예정이다.

고찰

혈관종은 혈관구성에 따라서 모세혈관(capillary), 해면상(cavernous), 동정맥성(arteriovenous), 정맥성(venous) 혈관종으로 나눌 수 있다. 이 중에서 모세혈관종은 드문 양성 과오종성기형(hamartomatous malformation) 중의 하나이다. 척추의 골내 혈관종은 부검연구에서 11% 정도로 척추에서 발견될 정도로

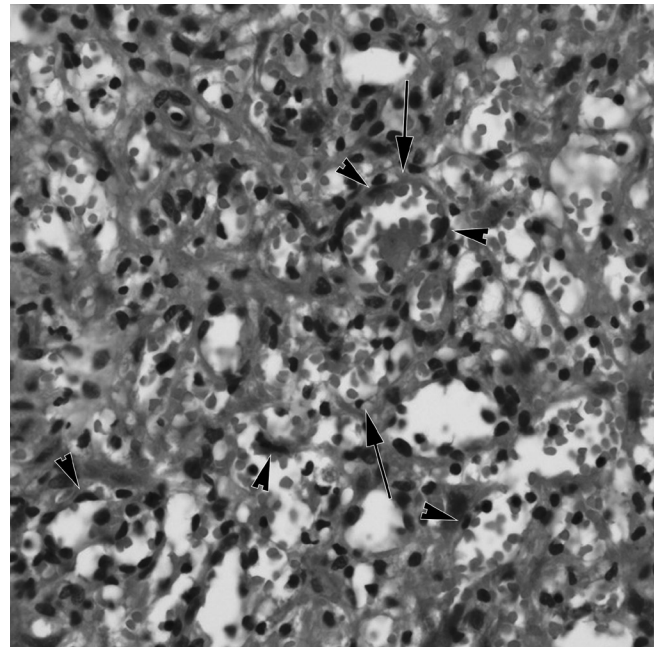


Fig. 2. A photograph show numerous, tightly packed, capillary size vessels (arrows) that were lined by a single layer of cytologically benign endothelial cells (arrowheads) (H&E, × 400 section).

흔하지만 대부분 해면상 혈관종이다. 모세혈관종은 흔히 피부, 연부조직, 골에서 생기는 것으로 알려져 있으며 척추체 이외의 공간, 즉 척수내/척수외, 경막내/경막외 공간에서 발생하는 모세혈관종은 매우 드문 것으로 보고되고 있다(2, 3). 이 중 본 증례와 같이 경막외 공간에 발생한 모세혈관종은 2014년 현재까지 9증례만이 보고되었다(3, 5). 나이는 17개월에서 59세까지 다양하였고 성별 또한 남성 4명, 여성 5명으로 비슷한 빈도로 발

생하였다.

현재까지 발표된 척추 모세혈관종의 영상의학적 소견은 경계가 비교적 좋은 종괴로, T1에서 중등신호강도, T2 고신호강도, 강하고 균질한 조영증강을 보인다는 점이다(1, 6). 반면에 본 증례는 출혈과 낭성 변화로 인한 비균질한 조영증강을 보였고, 비교적 경계가 좋지 않고 주변으로 침윤하는 양상으로서 혈관종으로서의 전형적이지 않은 소견을 보였다. Caruso 등(7)과 Jo 등(8)이 보고한 바에 따르면, 혈관종 내 출혈은 혈관 기형에 의한 정맥압 상승에 의해서 발생할 수 있고, 출혈에 의하여 급성 신경학적 증상을 야기한 증례를 발표하였다. Choi 등(3)은 주위 조직과 경계가 좋지 않았었던 한 증례를 보고한 바가 있으며 이는 종괴가 주변 조직으로 과혈류, 출혈 혹은 부종을 일으켰기 때문이라고 설명하고 있다.

Tekin 등(5)은 유출 정맥(drainning vein) 혹은 병변 내 무신호(signal void)가 감별 진단에 도움이 될 것이라고 보고한 바 있다. 그러나 본 증례에서는 그런 소견은 보이지 않았다. 모세혈관종은 신경주위조직이나 혈관 등 주변으로의 침범이 가능한 것으로 알려져 있고 이러한 점이 악성종양으로 오인하게 하는 요인이라는 점이 보고된 바 있다(9). 본 증례에서 종괴가 좌측요근에 침범된 것은 비전형적인 소견이지만 모세혈관종이 양성병변임에도 불구하고 악성종양처럼 오인할 수 있다는 점에서 의의가 있다.

본 증례와 같이 척추경막외 공간과 신경공, 척추주위 공간을 동시에 침범하는 종괴가 있을 때 감별해야 할 다른 종양으로는 척추 신경근에서 발생하는 신경초종(schwannoma), 신경섬유종(neurofibroma), 그리고 악성말초신경초종(malignant peripheral nerve sheat tumor) 등이 있다. 이 가운데 악성말초신경종양은 양성종양과 구분되는 점으로 신호강도가 비균질하고, 5 cm 이상의 크기인 경우가 많고, 경계가 불분명하고, 혈관분포가 풍부하여 조영증강이 잘 되며, 빠르게 자란다는 점이 보고된 바 있다(10). 본 증례 또한 신호강도가 비균질하고, 장경 5.0 cm로 크기가 컸으며, 경계가 비교적 불명확하게 침습적인 소견을 보이며, 조영증강이 매우 잘 되어 악성말초신경초종과 매우 유사하였다. 악성말초신경초종의 약 50% 정도는 신경섬유종증에 이환된 환자에서 발생하며, 석회화를 간혹 잘 동반한다는 점 등이 본 증례와는 차이를 보이는 점이지만 모든 환자에게서 보이는 소견이 아니고 특징적인 소견이 아니다(10).

모세혈관종과 병리적으로 감별해야 할 질환으로는 카포시형 혈관내피종(kaposiform hemangioblastoma), 과상피양 혈관내피종(epithelioid hemangioma)이 있다. 카포시형 혈관내피종은 방추형세포(spindling of cells)나 사구체형구조(glomeruloid structures)가 동반되지 않아 병리학적으로 감별될 수 있었다. 한

편 상피양 혈관내피종은 종양세포들이 혈관을 따라 주위 간조직으로 침윤성으로 성장하는 양상을 보이며 다양한 정도의 섬유화와 국소적인 칼슘 침착을 초래하나 본 증례에서는 나타나지 않았다.

척추에 발생한 모세혈관종은 빈도가 매우 드물어 자연 경과가 잘 알려지지 않았다(6). 수술로 완전 제거가 된다면 재발 가능성은 낮을 것으로 생각되나 이에 대해서는 앞으로 추가적인 연구가 되어야 할 부분으로 보인다.

모세혈관종은 수술 시 출혈위험이 있으므로 수술 전 색전술을 통해 출혈 위험을 낮출 수 있는 것으로 알려져 있다(4). 본 환자의 경우에는 수술 전 영상진단에서 모세혈관종이 포함되지 않았고 환자의 신경학적 증상이 갑자기 진행하여 응급으로 수술이 진행되어서 색전술은 시행하지 못하였다.

혈관분포정도가 높은 모세혈관종은 상대적으로 수술 시 출혈위험이 높으며 주변조직으로의 침범이 있는 경우 제거에 어려움이 있을 수 있으므로 수술 전 영상의학적 진단의 중요도가 더욱 높다. 따라서 척추경막외 종괴에서 강한 조영증강과 내부의 출혈, 그리고 신경공을 통해 주변으로 확장되고 침윤하는 양상의 소견을 보인다면 드물기는 하지만 모세혈관종을 감별진단에 포함하는 것이 필요하다.

REFERENCES

1. Choi BY, Chang KH, Choe G, Han MH, Park SW, Yu IK, et al. Spinal intradural extramedullary capillary hemangioma: MR imaging findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2001;22:799-802
2. Kasukurthi R, Ray WZ, Blackburn SL, Lusic EA, Santiago P. Intramedullary capillary hemangioma of the thoracic spine: case report and review of the literature. *Rare Tumors* 2009; 1:e10
3. Gencpinar P, Açıkbaş SC, Nur BG, Karaali K, Arslan M, Gurer El, et al. Epidural capillary hemangioma: a review of the literature. *Clin Neurol Neurosurg* 2014;126:99-102
4. Nowak DA, Widenka DC. Spinal intradural capillary haemangioma: a review. *Eur Spine J* 2001;10:464-472
5. Tekin T, Bayrakli F, Simsek H, Colak A, Kutlay M, Demircan MN. Lumbar epidural capillary hemangioma presenting as lumbar disc herniation disease: case report. *Spine (Phila Pa 1976)* 2008;33:E795-E797
6. Shin JH, Lee HK, Jeon SR, Park SH. Spinal intradural capillary hemangioma: MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol*

- 2000;21:954-956
7. Caruso G, Galarza M, Borghesi I, Pozzati E, Vitale M. Acute presentation of spinal epidural cavernous angiomas: case report. *Neurosurgery* 2007;60:E575-E576; discussion E576
 8. Jo BJ, Lee SH, Chung SE, Paeng SS, Kim HS, Yoon SW, et al. Pure epidural cavernous hemangioma of the cervical spine that presented with an acute sensory deficit caused by hemorrhage. *Yonsei Med J* 2006;47:877-880
 9. Calonje E, Mentzel T, Fletcher CD. Pseudomalignant perineurial invasion in cellular ('infantile') capillary haemangiomas. *Histopathology* 1995;26:159-164
 10. Kivrak AS, Koc O, Emlik D, Kiresi D, Odev K, Kalkan E. Differential diagnosis of dumbbell lesions associated with spinal neural foraminal widening: imaging features. *Eur J Radiol* 2009;71:29-41

요추경막외 공간과 척추주위 공간에서 발생한 척추 모세혈관종: 증례 보고

임봉국¹ · 이영준¹ · 박동우² · 이지영¹ · 박찬금³ · 백승삼³

척추경막외 공간에서 발생한 모세혈관종은 매우 드문 질환이지만 수술 중에 다량의 출혈 위험이 있다는 점에서 수술 전에 영상의학적으로 진단하는 것이 중요하다. 저자들은 요추경막외 공간에서 발생하여 척추주위 공간으로 자라난 척추 모세혈관종 환자를 보고하고자 한다.

한양대학교 의과대학 한양대학교의료원 ¹영상의학과, ³병리과, ²한양대학교 의과대학 구리병원 영상의학과