

발한성 혈관종 1예

이화여자대학교 의과대학 피부과학교실
김현옥 · 함정희 · 국홍일

= Abstract =

A Case of Sudoriparous Angioma

Hyun Ok Kim, Jeong Hee Hahm, Hong Il Kook

Department of Dermatology, College of Medicine, Ewha Womans University

Sudoriparous angioma or eccrine angiomatous hamartoma is an unusual form of angioma with pain and hyperhidrosis over the lesion in clinically, and a hamartoma in which histologically, eccrine sweat apparatus and vascular elements is present in the same lesion. We present a case of typical sudoriparous angioma occurring on the left ankle area in a 17-year-old female patient.

서 론

發汗性 血管腫(Sudoriparous angioma)은 疼痛과 發汗을 동반하는 軟性的의 色素性 血管腫으로 Beier(1895)¹⁾에 의해 처음 보고되었다. 본 질환은 Domonkos와 Suarez(1967)²⁾에 의하여 Sudoriparous-angioma로 명명되었고 Hyman등(1968)³⁾은 에크린 血管腫性 過誤腫(Eccrine angiomatous hamartoma)으로 명명하였다. 국내에서는 안등(1981)⁴⁾이 조직학적으로 발한성 혈관종과 동일한 소견을 보였으나 임상적으로 발한이 증가되지는 않았던 에크린 혈관종성 과오종 1예를 보고한 이래 9예가 보고되었다⁵⁾⁻¹¹⁾. 저자들은 17세된 여자 환자의 좌측 발목부위에 발생한 전형적인 발한성 혈관종 1예를 경험하여 비교적 희귀한 증례로 사료되어 보고하는 바이다.

증 례

환자: 남 ○○, 17세, 여자.
초진일: 1988년 8월 11일.

주 소: 좌측 발목부위에 多汗症과 疼痛을 동반한 多發性 血管腫性 結節板이 있었음.

과거력 및 가족력: 특기사항 없음.

현병력 및 피부소견: 7세경 좌측 발목부위에 豌豆 크기의 紫褐色 結節이 발생하여 점차 그 수와 크기가 증가하여 내원 당시에는 다발성 결절들이 모여 6×10 cm 크기의 혈관종성 결절판을 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 주위의 온도가 높아지거나 운동을 하고 난 후에는 병변부위의 의복이 젖을 정도의 심한 다한증이 있었다. 가열된 白熱燈에 약 5분간 노출시켜 발한을 유도하여 땀방울들이 맺히는 것을 육안으로 관찰할 수 있었으며(Fig. 2), 이때 동통도 동반되었다.

일반진찰 소견: 환자의 건강상태는 양호하였고 兩側 下肢는 정상 발육 소견을 보였으나 혈관종성 결절판이 있는 좌측 발목이 우측 발목보다 13mm 더 굵었다.

일반검사 소견: 혈액 검사, 소변 검사 및 간기능 검사는 정상범위였다.

X-선 검사 소견: 胸部, 上部 胃腸管 및 大腸 X-선 검사는 정상범위였으며 좌측 발목부위의 X-선 검사상 後側 軟組織의 瀰漫性 浮腫외의 골격상 이상소견은



Fig. 1. Painful and hyperhidrotic violaceous multiple nodular plaques on the posterolateral aspect of the left ankle.

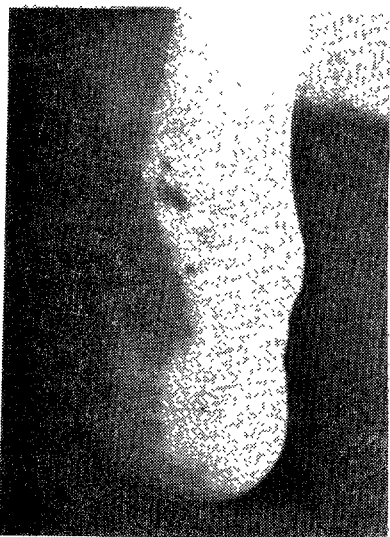


Fig. 2. Localized hyperhidrosis over the lesion site after exposure to hot temperature.

없었다. 末梢 血管 造腺術상 動靜脈 畸形은 발견되지 않았다.

전분-요오드 검사: 가열된 백열등으로 양쪽 발목 부위에 발한을 유도한뒤 시행한 전분-요오드 검사에서 병변부위만 紫色으로 변색을 보이는 양성반응을 나타내었다(Fig. 3).

병리조직소견: 上皮層은 輕度의 過角化症, 棘細胞症



Fig. 3. Starch-Iodine test: positive reaction of violaceous color change in the lesion site of the left ankle.

및 乳頭腫症 소견을 보였으며 基底層에 멜라닌 색소의 과침착을 볼 수 있었다 中下部 眞皮에는 에크린 汗腺의 汗管 및 分泌腺이 많이 증식되어 있었고, 인접하여 血管이 擴張되고 血管壁이 肥厚된 血管腫性 病變이 관찰되었다(Fig. 4, 5, 6).

치 료: 환자의 사정상 치료는 행하지 못 하였다.

고 찰

조직학적으로 毛細血管의 증식과 혈관의 비후 그리고 에크린 汗腺, 平滑筋 및 纖維組織의 過增殖을 특징으로 하는 疼痛性, 發汗性 軟性 血管腫이 Beier(1985)¹⁾에 의해 처음 보고된 이래 Domonkos와 Suarez(1967)²⁾는 靑色을 띠는 직경 12~20mm 크기의 半球狀의 軟性 血管腫으로 조그만 자극에도 쉽게 염주상의 발한을 보이는 것을 관찰하고 발한성 혈관종이라 명명하였다. Hyman등(1968)³⁾은 출생시 좌측 하지와 경부에 발생한 2개의 혈관종이 한 병소내에 에크린 汗腺과 血管腫性 구성인자가 상호유기적 관계를 가지면서 존재하는 것을 관찰하여 에크린 혈관종성 과오종이라고 보고하였다. 국내에서는 안등(1981)⁴⁾이 發汗이 동반되지 않고 병리조직학적으로 에크린 혈관종성 과오종의 특징을 나타낸 1예를 보고하면서 발한성 혈관종과 에크린 혈관종성 과오종은 동일한 질환으로 사료된다고 하였다.

Zeller와 Goldmann(1971)¹²⁾은 모낭구조도 함께 증식한 副檢例을 보고하면서 正常 機關 形成 시기에 성숙되는 上皮 및 間葉組織 상호간의 올바른 分化와 기관



Fig. 4. Eccrine gland hyperplasia portion and vascular proliferation and hypertrophy portion are adjacently located in deep dermis(H & E, 40 \times).

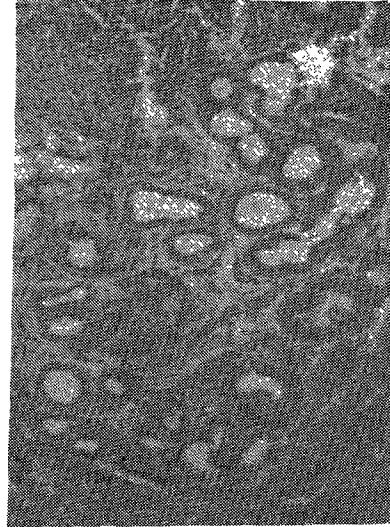


Fig. 6. High power view of eccrine proliferative portion shows hypertrophy and cystic dilatation of eccrine sweat gland(H & E, 100 \times).

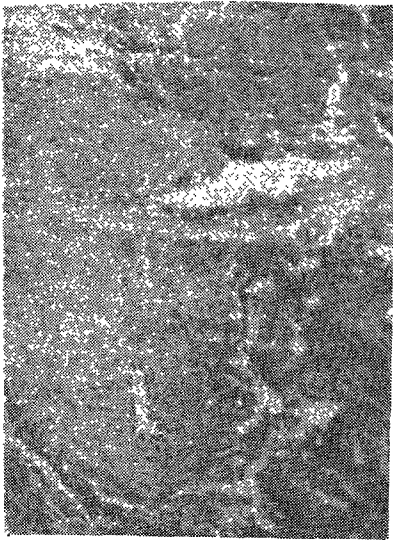


Fig. 5. High power view of vascular proliferative portion shows vessel wall thickening and dilatation of vascular canal(H & E, 100 \times).

형성의 비정상적인 유도에 기인 한다고 하였다. Hyman등³⁾은 발한성 혈관종에서 주요 구성 성분인 에크린 한선과 혈관의 증식에는 몇가지 유형이 있는데 정상 형태의 한선과 한관이 數的으로만 증가된 형, 囊腫狀 혹은 纖毛狀의 구조가 腺癌性인 형, 확장된 毛細血管이 上皮直下의 한관上瑞部位를 에워싸는 형, 모세혈관성

의 血管群이 한관과 分泌腺 부분을 에워싸는 형, 海綿狀 血管이 주로 眞皮深部와 皮下組織에 위치하는 형으로 분류할 수 있다고 했다.

本症例에서는 한관과 分泌腺의 數的 증가 뿐 아니라 분비선의 비후와 분비세포내의 과립, 낭종상 內腔확장이 있어 분비기능이 극히 항진되어 있었으며 혈관은 다양하게 증식되어 眞皮深部に 한腺의 증식과 인접하여 존재하였다. 본 질환은 비교적 드문 질환으로 歐美 문헌상에 보고된 예를 보면 대부분 症巢가 출생시나 어릴때 부터 있었고, 성별에 따른 발생빈도의 차이는 없었으며¹²⁾, 호발부위는 四肢이나 드물게는 顔面, 頸部³⁾ 및 背部¹³⁾에도 발생하였다. 병소는 대부분 單發性이나 드물게는 多發性일 때도 있었다. 국내에서 보고된 9예 중 2예⁶⁾⁷⁾만이 10세 가량의 소아기에 병변이 발생하였고 나머지는 모두 출생시부터 존재하였다. 국내의 全例에서 下肢를 침범하였으며 대개 병소는 單一結節이나 腫塊로 나타났으나 최등⁸⁾이 보고한 예는 多發性 結節을 보였다. 저자들의 예는 병소의 출현이 7세경이었고 단일결절로 시작되어 다발성 결절판으로 확대되었고 다른 임상양상은 다른 보고예와 비슷하였다. 병소의 임상증상은 局所的인 多汗症과 함께 疼痛 및 壓痛이 있을 수 있으며 본 증례에서는 병소부위에 백열등으로 5분간 가까이 한 뒤에 念珠狀의 發汗 및 疼痛이 유발되었다. 이 병소의 발한은 경우에 따라서

자극이 없어도 오며⁷⁾⁸⁾ 자극이나 압력을 가할 때²⁾¹¹⁾ 또 기온이 높거나 운동시에 더 심할 수도 있다⁶⁾. 드물게 병소 多毛症이 나타날 수 있으나⁸⁾ 본 증례에서는 관찰할 수 없었다. 감별해야 할 질환으로는 청색 고무포말 모반, 발한성 모반, 혈관종 등이 있으며 청색 고무 포말 모반¹³⁾은 靑色の 多發性 軟性 結節을 보이며 주로 體幹과 上肢에 발생하고 동통과 다한증이 없었으며 대개 胃腸管에 전체적으로 혈관종이 형성되므로 上部 胃腸管 X-선 촬영으로 감별할 수 있다. 발한성 모반¹⁴⁾은 역시 국소 다한증을 보이며 母斑 起原으로 병소부위에 血管腫이 없는 것으로 감별할 수 있다. 혈관종²⁾¹⁵⁾은 임상 양상이 본 질환과 유사하게 나타날 수 있으나 에크린 한선의 증식이 동반되지 않아 감별할 수 있다.

치료는 병소의 수가 적고 국소적인 때는 외과적 절제를 시행할 수 있으나 본 증례에서는 환자의 사정상 치료는 시행하지 못 하였다.

결 론

저자들은 17세된 여자 환자의 좌측 발목부위에 7세경 발생하여 성장함에 따라 확대되어 온 발한성 혈관종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

References

- 1) Beier E : Ueber einen Fall von Naevus Subcutaneus (Birchow) mit hochgradiger Hyperplasie der knaueldrusen. Arch Dermatol Syphilol 1985 31 : 337(cited from ref)
- 2) Domankos AN, Suarez LS : Sudoriparous angioma. Arch Dermatol 1967 : 96 : 552

- 3) Hyman AB, Harris H, Brownstein MH : Eccrine angiomatous hamartoma. NY State J Med 1968 : 68 : 2083
- 4) 안규중 · 김광중 · 이유신 : 에크린 혈관종성 파오종 1예. 대피지 1981 : 4 : 527
- 5) 안규중 · 김계정 · 이유신 : Eccrine-pilar angiomatous hamartoma 1예. 제 34차 대한피부과학회 춘계학술대회 초록집 1982
- 6) 김성화 · 김상원 : Sudoriparous angioma 1예. 제 34차 대한피부과학회 춘계학술대회 초록집 1982
- 7) 차명훈 · 김계옥 · 이근우 등 : Eccrine angiomatous hamartoma 1예. 제 34차 대한피부과학회 춘계학술대회 초록집 1982
- 8) 최국주 · 조경환 · 허 동 등 : Sudoriparous angioma 2예. 대피지 1982 : 6 : 957
- 9) 김상태 · 김덕화 · 정수화 등 : Eccrine angiomatous hamartoma 1예. 대피지 1982 : 4 : 623
- 10) 정인에 · 정병수 · 최규철 : Sudoriparous angioma 1예. 제 39차 대한피부과학회 춘계학술대회 초록집 1987
- 11) 이재철 · 박진주 · 정은정 등 : 에크린 혈관종성 파오종 1예. 대피지 1988 : 26 : 255
- 12) Zeller DJ, Goldman RL : Eccrine-pilar angiomatous hamartoma. Dermatologica 1971 : 143 : 100
- 13) Fine RM, Derbes VJ, Clark Jr, WH : Blue rubber bleb nevus. Arch Dermatol 1961 : 84 : 802
- 14) Goldman M : Ephihidrosis(local hyperhidrosis) nevus sudoriferous. Arch Dermatol 1967 : 96 : 67
- 15) Domankos AN, Arnold HL, Odom RB : Andrew's Disease of the Skin. 7th ed, WB Saunders Co, Philadelphia 1982 : pp737-750