

육아종성 유방염

박일경, 고대경, 최인석, 최원준, 윤대성, 이종욱¹, 김윤미², 김금원³

건양대학교 의과대학 외과학교실, 진단검사학교실¹, 병리학교실², 영상의학과 교실³

Granulomatous mastitis

Il-kyung Park, Dae-kyung Go, In-suk Choi, Won-jun Choi, Dae-sung Yoon, Jong-uk Lee¹, Yoon-mi Kim², Kum-won Kim³

Department of Surgery, Laboratory Medicine¹, Pathology², Radiology³

College of Medicine, Konyang University Hospital, Daejeon, Korea

Abstract: Granulomatous Mastitis (GM) is a rare chronic inflammatory lesion of the breast that clinically simulate carcinoma. The purpose of this report is to review the clinicopathological features of this clinical entity in a series of 5 cases that were diagnosed at our institute. Mammography, ultrasonography, and fine needle aspiration were performed in all cases. The treatment of choice for granulomatous mastitis is unclear. Of the 5 cases, one case underwent steroid therapy, two cases underwent anti-tuberculosis medication, and the

others underwent only excision. There were no complications for the 5 cases during the follow-up periods. Therefore, the diagnosis and treatment of granulomatous mastitis should be determined on a case by case basis, by the clinician considering the various case results that have been reported on.

(J Breast Cancer 2005;8: 64-68)

Key Words Granulomatous mastitis

중심 단어 육아종성 유방염

서 론

육아종성 유방염은 유방의 염증성 양성질환으로 임상에서 매우 드물게 발견되며, 발병원인은 잘 알려져 있지 않다. 크게 소엽성 (lobular) 과 결핵성으로 나누고 전자의 경우, 대개 젊은 여성에서 잘 생기며 종물촉지를 주소로 병원에 오게 되는 경우가 많은데 액와부 림프절이 축지되는 경우도 많아 유방암과의 감별이 중요하다. 진단과 치료법 역시 확실한 것이 없는데, 현재까지는 삼중법 (Triple method: 임상증상, 유방촬영술, 조직검사)을 통한 진단법과 절제술을 동반한 스테로이드 치료가 유용한 것으로 알려져 있다. 저자들은 다양한 진단과정과 치료법을 보인 각기 다른 다섯 증례의 육아종성 유방염 환자를 경험하게 되어 이를 보고하고자 한다 (Table I).

증 례

증례 1

29세 여자 환자로 2개월 전에 발견된 유륜 주위 누공 분

책임저자 : 윤대성

대전광역시 서구 가수원동 685번지 건양대학교병원 외과

Tel : 042-600-9297, Fax : 042-543-8956, E-mail : dsyoonmd@kyu.ac.kr

접수일 : 2005년 2월 23일 : 게재승인일 : 2005년 6월 7일

본 논문은 2004년 대한외과학회과 추계학술대회(서울 인터컨티넨탈 호텔)에서

포스터 발표되었음

비물을 동반한 종괴를 주소로 외래를 방문하였다. 이학적 소견상 좌측 유방 내·상부에 3 × 2 cm 크기의 경계가 불분명한 종괴가 있었고, 액와부 림프절이 축지되었다 (Fig 1). 유방 초음파에서 좌측 내·상부에 불규칙한 양상의 1 × 1 cm 크기의 저 음영 병변이 관찰되었으며 3 × 2 cm으로 광범위하게 피부가 두꺼워진 곳이 있었는데 유방염과 악성병변을 감별하기 어려운 소견이었다. 술전 세침흡입검사에서는 만성 유방염 소견이 관찰되었다. 유방 부분절제술 시행 결과 육아종 반응을 동반한 농양을 보였고, acid-fast bacilli검사와 polymerase chain reaction 검사는 음성이었으나 결핵의 가능성을 완전히 배제할 수 없는 소견이었다. 수술 후 항생제 투여에도 상처부합부의 치유가 잘 되지 않고 분비물의 유출이 지속되어 결핵 의심 하에 항결핵제 투여후 염증성 병변이 소실되어 완치 판정하였다.

증례 2

44세 여자 환자로 내원 1개월 전부터 좌측 유방종괴가

축지되어 외래를 방문하였다. 이학적 소견상 좌측 유방 내·하부에 4 × 3 cm 크기의 경계가 불분명한 종괴가 만져졌고 액와부 림프절이 축지되었다. 유방촬영술에서는 외상부에서 불규칙한 국소적 비대칭성 병변과 함께, 반응성 또는 악성을 감별할 수 없는 액와부 림프절 종창이 보였으며, 유방 초음파에서는 3.2 × 3.5 cm의 비균질성의 저에코성 종괴가 보였다. 술전 세침흡입검사 결과에서는 만성 유방염 소견만이 관찰되었다. 육아종성 유방염으로 진단하고 2주간 스테로이드를 투여했으나 반응이 없고 부작용이 심하여, 유방 부분 절제술을 시행하였다. 조직 검사 결과 화농병변이 동반된 만성 육아종성 염증소견이 보였고, 주 병변이 소엽에 중심을 두고 있어 육아종성 소엽성 유방염을 확진하였다 (Fig 2). 유방 부분 절제술 후 재발 없이 완치되었다.

증례 3

36세 여자 환자로 내원 3개월 전 발견된 우측 유방 유륜

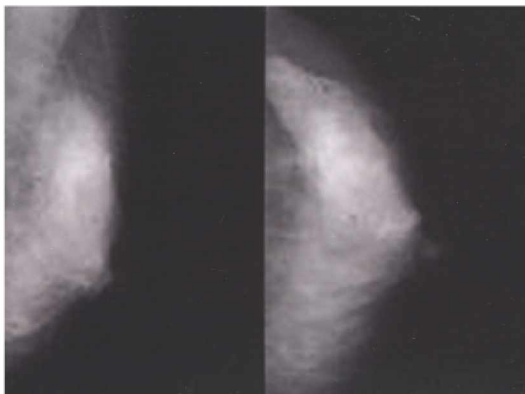


Fig 1. Mammographic finding of case1 - Obscured margined asymmetric increased density is seen in left upper outer quadrant.

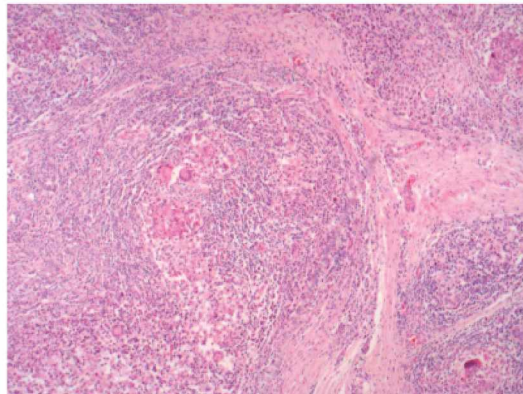


Fig 2. Pathologic finding of case 2 - Chronic inflammation is seen mainly centered on lobules with multifocal granuloma formation (H & E stain, × 100).

Table 1. Clinical characteristics of 5 cases of granulomatous mastitis.

| Age/Sex | Multi-para | Symptom | Axillary LN | Pathology | Caseous necrosis | AFB | Tb-PCR | Tx |
|---------|------------|------------------------------|-------------|--|------------------|-----|--------|---------------------|
| 29/F | - | Exudate, mass | + | Granulomatous mastitis with abscess | - | - | - | Excision Tb Med |
| 44/F | + | Mass | + | Granulomatous mastitis with gangrenous change | - | - | - | Steroid Excision |
| 36/F | + | Periareolar fistula, exudate | - | Granulomatous mastitis | - | - | - | Excision Tb med. |
| 31/F | - | Mass | - | Granulomatous mastitis with chronic inflammation | - | - | - | Steroid |
| 40/F | + | Mass | - | Granulomatous mastitis with abscess | - | - | - | Excision |

F = Female ; LN = Lymph node ; AFB = Acid fast bacilli ; Tb = Tuberculosis ; PCR = Polymerase chain reaction ; Tx = Treatment ; Med = Medication.



Fig 3. Sonoguide biopsy finding of case 3 - Sonoguide biopsy is done for the several irregular shaped hypoechoic lesions with periductal increased echogenicities in left UIQ (10 o'clock-12 o'clock directions).



Fig 4. Sonographic finding of case 4 - Irregular hypoechoic nodule, 1.0 x 0.8 x 0.7 cm is seen with surrounding skin thickening in right 12 o'clock, 1 cm from a nipple.

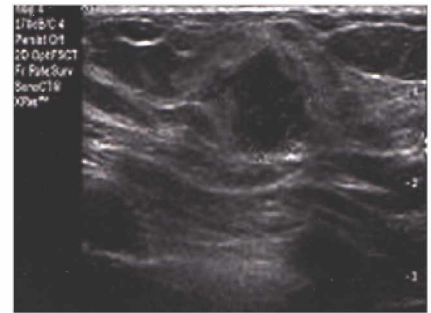


Fig 5. Sonographic finding of case 5 - Spiculated heterogeneous hypoechoic nodule, 1.5x1.1 cm is seen with ductal extension in left 9 o'clock, 2 cm from a nipple.

주위에 생긴 누공과 삼출액에 대하여 개인병원에서 절개배농술을 시행했으나 이후에도 증상이 계속되어 외래를 방문하였다. 이학적 소견상 우측 유방 유륜에서 1cm 떨어진 곳에 누공이 있었고 지속적인 삼출액이 동반되었으며 액와부 림프절은 촉진되지 않았다. 유방촬영술에서 우측 유륜 아래부위에 국소적인 피부의 비후를 보였고 유방 초음파에서는 불규칙한 모양의 저에코성 결절을 중심으로 주변 10 x 8 x 7 cm 크기의 비후된 피부와 배농후 소견으로 의심되는 염증성 소견들이 관찰되었다. 술전 세침흡입검사 결과에서는 육아종 형성이 동반된 만성 유방염 소견이 관찰되었다 (Fig 3). 유방 부분절제술 시행후 조직학적 소견상 화농성 염증소견과 함께 국소적 육아종 소견이 보였으나 acid-fast bacilli 검사와 polymerase chain reaction 검사는 음성이었다. 절제술을 시행하였으나 증상이 계속되어 임상적으로 결핵성 육아종성 유방염 의심하에 항결핵제를 투여하였고 이후 재발 없이 완치되었다.

증례 4

31세 여자 환자로 내원 2개월 전부터 좌측 유방에서 만져지기 시작한 종괴에 대하여 개인병원에서 침생검 검사 후 치료하였으나 증상의 호전이 없어 외래를 방문하였다. 좌측 유방 외상부에 3 x 2 cm의 경계가 불분명한 종괴가 촉진되었고 액와부 림프절 비대 소견은 없었다. 유방 초음파상 불규칙한 모양의 3.1 x 2.5 x 1.1 cm 크기의 저에코성 병변이 관찰되었다 (Fig 4). 세침흡입검사 결과 육아종을 형성한 급만성 염증소견이 보였고 acid-fast bacilli 검사와 polymerase chain reaction 검사는 음성이었다. 육아종성 소엽성 유방염 의심하에 스테로이드로 치료하여 재발 없이 외래 관찰 중이다.

증례 5

40세 여자 환자로 내원 일주일 전 좌측 유방에서 만져지기 시작한 종괴를 주소로 외래를 방문하였다. 좌측 유방 외하부에 2 x 1 cm의 경계가 불분명하면서 유동적인 종괴가 만져졌고 액와부 림프절은 촉진되지 않았다. 유방촬영술에서 좌측 유방 외 하부에 경계가 불분명한 2 x 1.5 cm의 고음영 결절상 종괴가 보였고 유방 초음파에서는 2.5 x 1.2 cm, 1 x 0.5 cm의 두개의 불규칙한 침상소견을 보였다 (Fig 5). 술전 시행한 세침흡입 검사 및 이어서 시행한 절제술 결과 모두에서 국소적으로 육아종을 보이는 만성 염증소견이 관찰되었고 acid-fast bacilli 검사와 polymerase chain reaction 검사는 음성이었다. 좌측 유방 내상부에서 비슷한 조직학적 소견을 보이는 병변이 재발하여 이에 대한 추가적 절제술 시행 후 완치되었다.

고 찰

육아종성 유방염은 유방의 드문 염증성 질환으로 그 원인으로는 결핵, 유육종증 (sarcooidosis), 이물질 반응, 그리고 진균이나 기생충에 의한 감염 등이 있다. 이 모든 원인이 아닌 경우에 한해서 특발성 (idiopathic) 이라는 진단을 할 수 있다. (1) 육아종성 소엽성 유방염은 Kessler와 Wolloch에 의해 1972년에 처음으로 언급된 질환으로, (2)cobalt 방사선 치료를 받은 2명의 환자를 통해 처음 보고되었다. 자가면역성 질환으로 추측되었으며, 명확한 원인이 밝혀지지는 않았으나 세균성 감염, 화학물질에 대한 국소 반응 또는 피임약 복용이나 임신 및 수유 등과의 관련성도 보고되었다. (3,4)

비교적 부드럽게 촉진되는 종괴의 형태로 발견되는 것이 대부분이나, 본 증례와 같이 삼출액을 동반한다든지, 유륜 주위 누공 또는 액와부 림프절 촉진을 주소로 발견되는 경

우도 있다. 유두수축이나 홍벽과의 고착으로 인해 악성 유방질환과 오인되는 경우도 많은데 유방촬영, 초음파, 세침 흡입검사 결과 모두를 통해서도 감별이 힘든 경우가 있다.⁽⁶⁾ 심지어는 위양성으로 나온 조직검사 결과로 인하여 유방전절제술까지 시행받은 경우도 보고된 바 있다.⁽⁷⁾

임상에서 진단하기 위해서 흔히 삼중법을 적용하게 되는데 임상증상, 유방촬영, 조직검사결과를 조합한 후, 임상가의 분석을 통해 이루어진다. 언급한 바와 같이 특발성의 경우는 모든 알려진 유방의 염증성 또는 비염증성 질환을 감별한 뒤에야 진단이 가능한데, 유방암 외에 만성적 유방염을 유발하는 조건들을 예로 들면 유관의 확장증, Wegener 육아종, 유육종증, 조직구증, 그리고 결핵등을 감별해야 한다.⁽⁸⁾ 본 증례에서는, 모두 유방촬영술과 유방조음파를 시행하였고, 세침흡입검사를 통해 진단되었다. 유방촬영의 대표적 소견으로는 반대쪽 유방과 비교하여 불균형적으로 증가된 밀도를 들 수 있고, 초음파적 소견으로는 단일 또는 다발적으로 보이는 저음영의 관상(tubular)과 결절상(modular)의 구조가 대표적이다.⁽⁹⁾ 두 검사소견 모두 유방암과 뚜렷하게 감별하기 힘들고, 정상 변이로 볼 수도 있다.⁽¹⁰⁾

따라서 세침흡입을 통한 세포학적 결정이 중요한데, 대략적인 공통 양상만이 알려져 있을뿐 확실한 세포학적 진단 기준은 없다.⁽¹¹⁾ 결핵과 같은 만성적 염증 질환과 큰 차이가 없기 때문에 판단의 어려움이 있고, 조직에서 시행한 acid-fast bacilli 검사의 민감도가 너무 낮은 것도 문제점이다. Acid-fast bacilli 검사 양성인 예는 10% 미만으로 알려져 있는데 저자의 경우에는 한 증례에서도 양성을 확인할 수 없었다. 폐 이외 부분에서 결핵감염을 밝히는 것은 어려운 일인데, Branje 등⁽¹²⁾이 폐 이외에서 결핵감염이 의심된 51명의 환자에서 시행한 polymerase chain reaction 검사에서도 32% 만이 양성이었고 저자의 경우에는 다섯 증례 모두가 음성이었다. 도발조건상 피사의 소견 없이 호중구가 집중적으로 보이면서 단일 상피모양조직구가 보여도 육아종성 유방염을 진단할 수 있다.⁽¹³⁾ 본 증례의 경우 한 명은 육아종성 소엽성 유방염을 진단할 수 있었으나, 나머지 경우에는 결핵성 유방염과의 감별이 어려웠다. 이들의 경우 확진은 어렵고, 임상적 판단으로 시도한 치료에 대한 반응을 통해 역으로 진단할 수 있었다. 이는 삼중법을 이용해 모든 검사를 시행해도 육아종성 유방염의 진단이 힘들다는 것을 보여준다.

치료법 역시 확실한 것이 없는데, 가장 선택적으로 받아들여지는 방법은 외과적 절제술이다. 단지 치료로서의 의미뿐만 아니라 절제를 통해 완전한 조직을 얻음으로써 진단에 도움이 된다는 의미도 있다.⁽¹⁴⁾ De Hertogh 등⁽¹⁵⁾

은 육아종성 유방염의 치료에 처음으로 스테로이드 요법을 시도하였는데 수술 전이나 수술 후 병변의 수축을 목적으로 사용하는 방법도 효과적이라고 알려져 있다.⁽¹⁶⁾ 그러나 스테로이드 치료는 균 감염, 특히 결핵이 배제되어야 하며, 전신 감염의 증거가 없어야 치료를 시작할 수 있다. 증례 4의 경우, 단순 종괴를 보이고 세침검사에서도 결핵이나 다른 질환의 의심 없이 육아종성 소엽성 유방염이 의심되어 스테로이드를 처방하여 치료하였다. 그에 반해 삼출액 분비 및 누공 등의 심각한 증상을 보이면서 결핵성 육아종성 유방염이 의심되던 증례 1과 3의 두 환자는 절제술과 결핵 약 투여를 병행함으로써 치료가 가능하였다. 단순 종괴를 주소로 내원했던 증례 2의 환자는 세침검사에서는 육아종성 결핵성 유방염과 감별을 요하는 소견이었으나, 임상적 판단으로 육아종성 소엽성 유방염이 더 의심되어 스테로이드를 투여했지만 호전이 없어 절제술을 시행한 뒤 완치되었다. 증례 5의 경우는 종괴를 주소로 내원하여 시행한 초음파와 세침검사서 육아종 및 농양 소견이 보여 육아종성 소엽성 유방염 의심하에 절제술을 시행한 경우로, 다른 부위에 재발하였으나 다시 절제함으로써 치료가 가능하였다. 그 외에도 스테로이드 치료에 반응하지 않는다는지, 부작용이 생긴 경우에서 methotrexate를 사용하여 좋은 결과를 얻었다는 보고도 있다.⁽¹⁷⁾

육아종성 유방염은 아직 분명한 치료법이 없다. 외과적 절제술을 시행했을 경우 완치되는 경우도 있으나, 재발성 염증이나 농양 같은 합병증이 나타나기도 한다. 스테로이드 치료가 도움이 되는 것으로 알려져 있으나, 제한적으로 쓰이고 있다. 우리나라의 경우 결핵성 유방염이 전체 수술 받은 유방질환 중 3% 정도를 차지하는 것으로 알려져 있다. 따라서 결핵의 감별이 중요한데, 본 증례들의 결과처럼 acid-fast bacilli 검사와 polymerase chain reaction 검사의 민감도 한계로 확진이 힘든 상황이다. 검사 결과로 확인이 어렵다면 임상적 소견으로 경험적 치료를 한 후, 그 반응 여부로 진단을 내려야 한다. 따라서 임상가는 임상적 양상, 영상학적 검사, 그리고 조직학적 결과를 조합하여, 증례별로 적합한 치료법을 찾아야 할 것이다.

REFERENCES

- 1 Bani-Hani KE, Yaghan RJ, Matalka IL. Idiopathic granulomatous mastitis : time to avoid unnecessary mastectomies. Breast J 2004;10:318-22.
- 2 Kessler E, Wolloch Y. Granulomatous mastitis : a lesion clinically simulating carcinoma. Am J Clin Pathol 1972;58:642-6.
- 3 Cohen C. Granulomatous mastitis : A review of 5 cases. S

Afr med J 1977;52:14-6.

4 Sakurai T, Oura S, Tanino H. A case of granulomatous mastitis mimicking breast carcinoma. *Breast Cancer* 2002;9:265-8.

5 Tavassoli FA. *Pathology of the breast*, 2nd ed. New York:McGraw-Hill; 1999.

6 Cakir B, Tuncbilek N, Karakas HM, Unlu E, Ozyilmaz F. Granulomatous mastitis mimicking breast carcinoma. *Breast J* 2002;8:251-2.

7 Imoto S, Kitaya T, Kodama T, Hasebe T, Mukai K. Idiopathic granulomatous mastitis : case report and review of the literature. *Jpn J Clin Oncol* 1997;27:274-7.

8 Erhan Y, Veral A, Kara E. Clinicopathologic study of a rare clinical entity mimicking breast carcinoma:idiopathic granulomatous mastitis. *Breast* 2000;9:52-6.

9 Yilmaz E, Lebe B, Usal C, Balci P. Mammographic and sonographic findings in the diagnosis of idiopathic granulomatous mastitis. *Eur Radiol* 2001;11:2236-40.

10 Han BK, Choe YH, Park JM, Moon WK, Ko YH, Yang JH, et al. Granulomatous mastitis: mammographic and sono-

graphic appearance. *Am J Roentgenol* 1999;173:317-20.

11 Martinez-Parra D, Nevado-Santos M. Utility of fine-needle aspiration in the diagnosis of granulomatous lesions of the breast. *Diagn Cytopathol* 1997;17:108-14.

12 Branie M, Pellegrin JL, Maugein J. Contribution of PCR in the diagnosis of extrapulmonary tuberculosis. *Med Mal Infect* 2005;35:17-22.

13 Anastasiadis P, Koutlaki N, Liberis V. Cytomorphologic features of nonspecific granulomatous mastitis diagnosed by imprint cytology. *Acta Cytol* 2001;45:887-9.

14 Koelmeyer TD, MacCormick DE. Granulomatous mastitis. *Aust N Z J Surg* 1976;46:173-6.

15 DeHertogh DA, Rossof AH, Harris AA, Economon SG. Prednisone management of Granulomatous mastitis. *N Engl J Med* 1980 2;303:799-800.

16 Miliauskas JR, Pieterse A S, Williams R S. *Aust N Z J Surg* 1995;65:139-41.

17 R Khanna1, G V Prasanna1, P Gupta1. Mammary tuberculosis: report on 52 cases. *Postgrad Med J* 2002;78:422-4.