

서혜부 및 대퇴상 전내측부에 발생한

피하혈관임파양조직 이상비대증

— 치험 1 예 —

고려대학교 의과대학 정형외과학교실

라 춘 균 · 박 상 원 · 이 흥 건

— Abstract —

Subcutaneous Angiolymphoid Hyperplasia of the Inguinal Region and Anteromedial Side of the Proximal Thigh

— A case report —

Chun Kyun Rha, M.D., Sang Won Park, M.D. and Hong Kun Lee M.D.

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Korea University, Seoul, Korea

Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia is an uncommon disease characterized by eosinophilia, proliferation of the capillary vessels and lymphoid tissue and infiltration of the inflammatory cell, especially eosinophils.

The etiology of the disease are obscure, but probably trauma, lower grade infection, nervous factor & hormonal status etc.

The predilection sites are face, ears, scalf & neck, but rarely reported in the extremities.

We experienced a case of subcutaneous angiolymphoid hyperplasia of the inguinal region and anteromedial side of the proximal thigh in a 10 year-old man who complained pain and tenderness on the above region. The patient was treated by excision with satisfactory result.

Key words : Subcutaneous Angiolymphoid Hyperplasia (Kimura)

1. 서 론

Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia은 혈액 검사상 대부분 호산구(eosinophil)가 나타나거나 종종 국소림프조직 증식을 제외하고는 전신적으로 특이한 소견이 없으면서 피하조직의 혈관임파양조직 이상비대증이 특징적으로 나타나는 희유한 병으로서 1948년 일본의 Kimura⁶⁾ 등에 의해서 처음으로 "Unusual granulation combined with hyperplastic change of lymphatic tissue"로 발표된 이래 여러 학자들에 의해서 여러가지 이름으로 발표되었는데 그 원

인에 대해서는 아직 확실한 발표가 없다. 1962년 중국의 Chang²⁾ 등은 조직학적 자료는 없었지만 비슷한 병에 대하여 50예를 발표한 바 있고 1966년 영국의 Kawada⁵⁾ 등은 조직학적 자료와 함께 95예를 발표하였으며 이것은 1969년 영국의 Wells & Whimster⁸⁾에 의해서 발표된 9예와 비슷한 조직학적 특징을 나타냈다. 서양에서 보다는 동양에서 많이 발표된 것과는 달리 한국에서는 저자가 아는 바로는 아직 보고가 없는 것으로 알려져 있다. 고려대학교 의과대학 정형외과학교실에서는 최근 좌측 서혜부 및 대퇴상 전내측부에 발생하여 근막까지 침범한 혈관 임파양조직 이상비대증 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

2. 증 례

환 자 : 김 O O, 남자, 10 세, 학생

주 소 : 좌측 서혜부 및 대퇴상 전내측부에 주먹크기의 결절이 만져지면서 약간의 동통 및 압통을 호소하였다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없음.

현병력 : 3 개월전에 좌측 서혜부에서 동통 및 압통이 없는 모지 크기의 결절이 촉진되었으나 내원 1 개월전부터 차츰 커지면서 내원당시에는 소아 주먹만한 크기의 결절을 촉진할 수 있었고 그후 차츰 동통 및 압통을 느끼기 시작했다.

이학적 소견 : 영양상태는 중정도였고 좌측 서혜부 및 대퇴상 전내측부에서 소아 주먹크기의 결절이 촉진되었으나 움직이지는 않았다. 그외 비장이나 림파선의 부종은 나타나지 않았다.

검사소견 : 혈액검사상 호산구가 5 %로 증가된 것이외는 다른 소견은 정상범위이었으며 대변검사에서도 이상소견을 관찰할 수 없었다. 흉부 엑스선 소견도 정상이었다.

수술소견 : 피부절개후 피하조직에서부터 근막까지 침범한 6cm × 6cm × 0.5cm의 결절을 발견할 수 있었고 결절은 여러개의 단편(fragmentation)을 이루었으며 지방조직, 연부조직 및 임파조직으로 이루어져 있었다. 침범된 근막은 내전근막이었으며 내전근막은 약간의 괴사(necrosis)를 보였다.

조직학적 소견 : 모세혈관의 심한 증식과 공포핵(vesicular nuclei)과 호산구성 세포질(eosinophilic cytoplasm)을 갖고 있는 망상내피세포(endothelial cell)의 증식을 동반하며 부위에 따라서는 이들 세포의 cluster를 볼 수가 있다. 간질(stroma)은 특히 호산구 림파구(lymphocytes), 조직구(histiocytes) 및 비만세포(mast cell)들의 심한 침윤을 보이며 여러 부위에서 림파구의 집중현상과 lymphoid follicle의 형성도 볼 수 있었다(Fig. 1,2,3).

3. 고 찰

Subcutaneous lymphoid hyperplasia은 Kimura's disease, Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia, Eosinophilic ly-

Fig. 1. 혈관의 증식과 내피세포들의 증식을 볼 수 있으며 이들 세포들의 cluster를 볼 수 있다. eosinophil, histiocyte 등의 침윤을 전 부위에서 보여준다.

Fig. 2. 내피세포들의 cluster를 보여주며 eosinophil, histiocyte, plasma cell 등의 침윤을 보여준다.

Fig. 3. 혈관의 증식과 내피세포들의 증식이 있으며 이들 세포의 cluster를 볼 수 있다. 한 부위에서 lymphocyte의 collection을 보여 주며 광범위한 eosinophils의 침윤이 있다.

mpthofolliculosis of the skin, Pseudopyogenic granuloma, 또는 Subcutaneous lymphoid hyperplasia with eosinophilia 등 여러 이름으로 불리워지는데 그 이유는 임상적으로 또는 병리조직학적으로 여러 형태로 나타나기 때문이며 1969년 Wells⁸⁾ 등은 호산구 증식증(eosinophilia) 외에는 전신적으로 특이한 소견이 없으면서 주로 두부나 경부에서 발생한다고 하였으며 침범부위는 피하이며 때로는 근막 및 근육까지도 침범한다고 하였다. 한편 일본의 Kawada⁵⁾ 및 Fujita⁴⁾ 등은 신체의 다른 부위에서도 발생한다고 하였으며 1969년 Edward³⁾ 등은 2mm~1cm 크기의 papular nodule을 외에도, 꺾불, 꺾뿔, 이마 등에서 14예를 보고하였는데 병리조직학적으로 Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia와 비슷함을 발표하였다. 본 중에서는 다른 사람의 보고와는 특이하게 좌측 서혜부 및 대퇴상 전내측부위에 발생하며 피하 및 근막까지 침범하였다. Kawada 및 Fujita⁴⁾ 등은 발생연령이 청소년시대부터 시작한다고 하였으며 남자에서 많이 발생한다고 발표한 반면 Wells⁸⁾ 등은 성별 발생빈도가 같다고 하였다. 한편 Carmen¹⁾은 주로 성인에서 발생한다고 하였으며 침범 부위는 papular하고 nodular하다고 하였다. 본 중에서는 10세로서 소아기였으며 남자에서 발생하였다. 결절의 크기에 대하여 Wells⁸⁾ 등은 1~10cm라고 보고하였으며 저자의 경우 6cm×6cm×0.5cm였다. Edward³⁾ 등은 발생원인에 대하여 불분명하지만 외상, 염증, 호르몬 작용, 신경성이라고 발표한 반면 Wells⁸⁾ 등은 일본에서 95예, 중국에서 50예나 발표된 것에 대하여 지리적 요소 및 기생충 또는 곤충의 물림등이 원인이 된다고 추측하였으나 일본의 한 조사반은 기생충이 원인이 되지는 않는다고 발표하였다. 저자의 경우도 곤충에 물렸다는 병력이나 대변검사 소견상 이상 소견이 없었다. Wells⁸⁾ 등은 그가 발표한 9예중 4예는 다발성으로 발생한다고 하였으며 절제술까지의 병력 기간은 수개월에서 4년이라고 발표했는데 혈액검사상 호산구 증식을 7예에서 나타났다고 보고하였다. 1963년 Summerly⁷⁾ 등은 56세 여성에서 발생한 Subcutaneous lymphoid hyperplasia을 12년간 추적조사 발표하였는데 동통이 없는 결절이 처음 나타나서 소양감을 동반했다고 발표하였으며 결국 턱, 볼, 뺨근근육 등에서 1cm 직경의 결절을 촉진할 수 있었다고 보고하였다. 한편 혈액검사상 호산구는 22%나 증가되었다고 하였다. 저자의 경우 동통이 없는 주먹 크기의 결절이 차츰 동통을 동반했고 혈액검사상 호산구는 5%로 증가하였다. 이 병의 조직학적 변화에 대하여 Wells⁸⁾ 등은 초기에는 혈관 내피

세포층에 주로 이상비대증이 오며 나중에는 주로 임파양 조직에 이상비대증이 온다고 하였는데 후에 기술한 것이 Kimura's disease에 해당한다고 하였다. 한편 Carmen¹⁾은 1974년 각각 다른 이름으로 발표된 47예에 대하여 발생부위 및 병리조직학적 특징을 구분 발표하였다. 치료법을 고찰해 보면 Wells⁸⁾ 등은 9예중 3예는 단순 절제술로 좋은 결과를 얻었다고 하였으며, 3예는 절제술후 실패하여 엑스선 치료를 받은 결과 좋은 효과를 얻었다고 보고하였고 Edward³⁾도 3예에서 엑스선 치료로 좋은 결과를 얻었다고 보고하였다. 본 중에서는 절제술을 시행하고 현재 약 3개월 경과까지 재발을 관찰할 수 없으나 차후 지속적인 관찰이 요할 것으로 생각된다. 감별해야 할 질환으로는 Eosinophilic granuloma, Lymphocytoma & follicular lymphoma, Atypical granuloma pyogenicum, Angiomatous lymphoid hamartoma, persistent reaction to the insect bites 등을 들 수 있다.

4. 결 론

저자들은 최근 10세 남자에서 좌측 서혜부 및 대퇴상 전내측부에 발생한 “혈관 임파양조직 이상비대증” 1예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Carmen Castro, M.D. and R.K. Winkelmann, M.D. : *Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia in the skin. Cancer* 34:1969-1705, 1974.
2. Chang, T. and Chen, C. (1962) : *Eosinophilic granuloma of Lymph nodes and soft tissue. China med. J.*, 81:344.
3. Edward Wilson Jones and Stanley S. Bleehen : *Inflammatory Angiomatous Nodules with abnormal Blood vessels occurring about the ears and Scalp (Pseudo or a typical pyogenic granuloma) Br. J. Derm.* (1969) 81, 804.
4. Fujita, K. (1963) : *A Syndrome Composed of soft tissue tumors, lymphadenopathy & Eosinophilia. Jap. J. Derm.*, 73, 367.
5. Kawada, A.K., Takawashi, H. and Anzai, T. : *Eosinophilic Folliculosis of the skin (Kimura's disease) Jap. J. Derm.*, 76, 61.
6. Kimura, T., Yoshimura, S. and Ishikawa, E. (1948) :

- Unusual Granulation Combined with Hyperplastic change of lymphatic tissue. Trans. Soc. Path. Jap., 37, 179.*
7. Summerly, R. and Wells, G.C. (1963) : *Subcutaneous lymphoid Hyperplasia with eosinophilia. Proc. R. Soc. Med., 56, 728.*
8. Wells, G.C. and Whimster, I.W. (1969) : *Subcutaneous Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia. Br. J. Derm., 81, 1-15. 1969.*