

A Case of Symmetrical Lipomatosis of the Tongue and a Literature Review¹

혀에 발생한 대칭성 지방종증 1예와 문헌 고찰¹

Byoung Je Kim, MD¹, Eun Joo Lee, MD¹, Soo Hyun Yeo, MD¹, Hyuk Won Chang, MD¹, Sang Hyon Kim, MD², Sung Il Sohn, MD³, Sang Kwon Lee, MD¹

Departments of ¹Radiology, ²Internal Medicine, ³Neurology, Keimyung University College of Medicine, Dongsan Medical Center, Daegu, Korea

Symmetrical lipomatosis of the tongue is an extremely rare condition. To date, few cases have been reported in the literature. Symmetrical lipomatosis remains controversial as to whether it is identical to benign symmetrical lipomatosis or not. We present an extremely rare case of symmetrical lipomatosis of the tongue in a 77-year-old male. We reviewed the literature and discussed the clinical characteristics as well as the role of imaging studies of this disease.

Index terms

Lipomatosis
Tongue

Received May 12, 2013; Accepted June 26, 2013

Corresponding author: Hyuk Won Chang, MD
 Department of Radiology, Keimyung University College of Medicine, Dongsan Medical Center, 56 Dalseong-ro, Jung-gu, Daegu 700-712, Korea.
 Tel. 82-53-250-7767 Fax. 82-53-250-7766
 E-mail: radiol73@gmail.com

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

양성 대칭성 지방종증(benign symmetrical lipomatosis)은 Brodie (1846)에 의해 처음 보고되었고 Parmar와 Blackburn (1)이 '두부, 경부, 그리고 체간 상부에 발병하는 미만성의 다발성 대칭성 지방의 축적'이라고 정의하였다. 설부에 국한된 양성 대칭성 지방종증은 매우 드물며 Pubmed와 Koreamed에서 검색한 결과, 1944년 Desmond (2)가 처음 보고하였고, 국내에서도 2007년과 2011년 두 차례 보고되었으며 지금까지 총 16예 내외의 보고만 확인되었다. 본 병원에서도 혀에 발생한 대칭성 지방종증 환자를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례 보고

77세 남자 환자가 약 3개월 전부터 발생한 연하 곤란을 주소로 내원하였다. 호흡곤란과 통증은 호소하지 않았고, 신체검사상 혀가 미만성으로 커져 있었고 궤양성 병변은 관찰되지 않았으며 윤기가 나는 노란 빛깔을 띠었다(Fig. 1A). 경부와 상부 체간에서는 병변이 보이지 않았다. 내원 3년 전 대장암으로 수

술 받고 항암 치료를 하였으며 고혈압과 당뇨가 있었으며 음주는 하지 않았고 50갑년의 흡연력이 있었다.

경부전산화단층촬영(computed tomography; CT)에서 혀는 대칭적으로 커져 있고 지방과 같은 감쇠도를 보였고 주위로의 침습 소견이나 임파선의 비대는 보이지 않았다. 또한 조영제를 주입하고 90초 후 영상에서 조영증강은 잘 되지 않았다(Fig. 1B, C).

1년 2개월 후 3 Tesla scanner를 이용하여 자기공명영상(magnetic resonance image; MRI) 추적 검사를 시행하였고 protocol은 다음과 같다: spin-echo T1 weighted image [T1WI; repetition time/echo time (TR/TE), 400/10]와 fast spin-echo T2 weighted image (T2WI; 4000/111.5)를 얻었고, 3 Tesla scanner를 사용할 경우 주자장의 균일도가 좋아져 지방 성분의 공명 주파수에 맞춘 선택적 고주파 펄스가 효과적으로 지방 성분의 신호를 선택적으로 억제할 수 있기 때문에 frequency selective fat saturation 기법을 선택하여 fat suppressed T1WI and T2WI images를 얻었다. 혀의 크기는 변화가 없었으며 T1WI, T2WI 모두 지방과 동일한 신호 강도를 보이며 fat suppressed T1WI and T2WI에서 신호 강도의 감쇠를 보였다. 균질한 신호 강도를 보이며 여전히 주위로의 침습소견이나 임

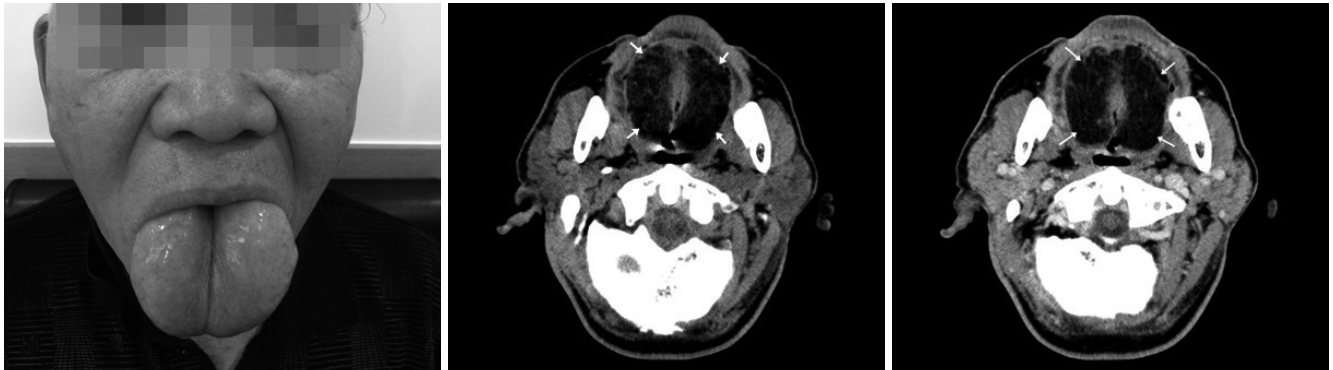


Fig. 1. Photograph and axial CT.
A. A 77-year-old man with symmetrical enlarged tongue.
B. Non-enhanced CT shows diffuse low densities of the tongue tissue (arrows).
C. Contrast enhanced CT shows no evidence of definite contrast enhancement in the fatty tongue tissue (arrows).

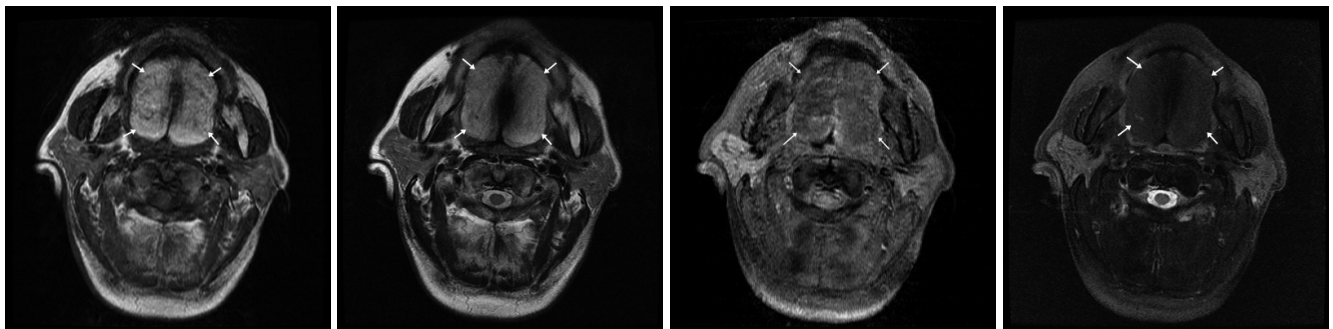


Fig. 2. MRI of the tongue.
A, B. T1 weighted image (T1WI) (**A**) and T2 weighted image (T2WI) (**B**) show the most of lingual muscles are replaced by the fatty tissue (arrows).
C, D. Fat suppressed T1WI and T2WI show diffuse low signal intensity of the tongue (arrows).

파선의 비대는 보이지 않았다(Fig. 2).

이후 환자는 증상의 호전은 없었으나 수술은 원하지 않았고 조직학적 진단은 하지 않았다.

고찰

지방종증은 피막이 없는 지방종이 다발성으로 신체의 여러 장기를 침범하는 것으로 정의되며 구강 내에서는 드물게 발생한다(3).

설부의 종양은 대부분 악성 종양이며 설암은 구강암 중 가장 흔하다. 설부의 지방종은 구강 내 발생하는 종양 중에서도 4.4%를 차지하며 대개 협점막, 설배부, 구강저에 발생한다(4).

양성 대칭성 지방종증(benign symmetrical lipomatosis; BSL)은 Otto Wilhelm Madelung과 Launois and Bensaude에 의해 연구되어 Madelung's disease 또는 Launois-Bensaude syndrome이라고도 불리며 두경부와 상체에 피막화 되지 않은 대칭적인 지방의 축적이 특징이다. 1/25000의 발병률을 보이며

남성에서 여성보다 15배 이상 많고 대개 30~60세에 발병한다. 발생기전은 아직 알려지지 않았으나 과도한 음주를 하는 환자에게서 흔하게 발생한다(5). 양성 대칭성 지방종증 환자에게서 혀를 침범한 경우는 매우 드물며, 오직 4예의 증례 보고에서만 찾을 수 있었다.

설부에 국한된 양성 대칭성 지방종증(symmetrical lipomatosis of tongue; SLT)은 오직 혀만을 침범하는 지방종증을 특징으로 한다. 본원 증례를 포함한 17예에서 한 명을 제외하고 모두 남성에서 발병하였고 50세 이상의 고령이었으며 음주와의 관련성은 적어 보였다. SLT는 동양인에게서 더 많이 발생한다고 알려져 있었으나(6), 지금까지의 증례 보고를 분석한 결과 동양인은 본원 증례를 포함하여 8예로 동양인에게서 더 많이 발생한다고 단정지를 만한 근거는 찾을 수 없었다. 또한 8예 모두가 한국과 일본에서 보고된 증례로 의학 연구가 활발한 동양 국가에서만 이루어졌다는 점에서 인종 간의 발생률은 조금 더 연구가 필요할 것으로 생각된다.

일부 증례 보고에서는 BSL과 SLT는 다른 질환이라고 보았

으나 대부분 같은 질환으로 생각하였다. BSL과 SLT의 임상적 특징들을 비교해 보았을 때 조직학적 소견은 비슷하나 본 증례와 같이 경부와 상체 등의 다른 부위는 이환되지 않고 50세 이상의 고령에서 호발하며 음주와의 연관성이 적다는 점에서 서로 다른 질환이라 생각된다.

MRI는 지방 종괴를 감별 진단하는 매우 유용한 검사이며 특히 지방종의 진단에 있어 특이성이 매우 높다. 지방종과 분화도가 좋은 지방육종의 감별진단에서 지방육종을 시사하는 MRI 소견은 두꺼운 격벽이 있을 때, 병변의 비지방조직에 결절이 있거나 비지방조직의 비율이 25% 이상일 경우이다(6). 본원의 증례는 조직학적 진단을 하지 않았지만 MRI에서 허는 T1, T2 강조 영상 모두 균질한 지방 신호 강도를 보이고 두꺼워진 격벽은 보이지 않았고 주위로의 침습 소견이나 임파선의 비대는 보이지 않았으며, CT에서 조영증강을 하였을 때 혈관분포과다는 보이지 않아 충분히 영상 소견만으로 설부에 국한된 양성 대칭성 지방종증을 진단할 수 있었다. 이 질환이 악성 질환이 아니라는 점과 환자의 불편함이 침습적인 진단을 할 만큼 크지 않았다는 점에서 이 증례에서는 조직학적 진단보다 영상의학적 진단이 주가 되어야 할 것으로 생각된다.

호흡 곤란과 심한 연하 곤란을 호소하는 경우에는 혀의 부분 절제술을 시행하여 조직학적 진단과 혀의 크기를 줄여 줌으로써 환자의 증상을 완화 시킬 수 있다. 그리고 수술을 시행하기 전에는 수술 후의 혀의 기능과 크기를 고려하여 수술을 결정해야 한다(7).

SLT는 보고된 증례 수가 너무 적어 아직 BSL과 같은 질환인지 아닌지도 확실하지 않다. 더 많은 연구와 증례 보고를 통하

여 BSL과의 연관성과 차이점에 대해 CT와 MRI의 영상학적 소견을 포함한 더 많은 연구가 필요할 것이다.

참고문헌

1. Parmar C, Blackburn C. Madelung's disease: an uncommon disorder of unknown aetiology? *Br J Oral Maxillofac Surg* 1996;34:467-470
2. Desmond AM. A case of lipomatosis of the tongue. *Br J Surg* 1947;35:210
3. Weiss SW, Goldblum JR, Enzinger FM. *Enzinger and Weiss's soft tissue tumors*, 4th ed. St. Louis: Mosby, 2001
4. Ogawa A, Nakamura H, Takahashi H. Benign symmetric lipomatosis of the tongue: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1988;46:502-504
5. Hwang BE, Lee EJ, Park HS, Hong KH. A case of symmetrical lipomatosis of the tongue. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54:719-721
6. Kransdorf MJ, Bancroft LW, Peterson JJ, Murphey MD, Foster WC, Temple HT. Imaging of fatty tumors: distinction of lipoma and well-differentiated liposarcoma. *Radiology* 2002;224:99-104
7. Vasileiadis I, Mastorakis G, Ieromonachou P, Logothetis I. Symmetrical lipomatosis of the tongue-a rare cause of macroglossia: diagnosis, surgical treatment, and literature review. *Laryngoscope* 2013;123:422-425

혀에 발생한 대칭성 지방종증 1예와 문헌 고찰¹

김병제¹ · 이은주¹ · 여수현¹ · 장혁원¹ · 김상현² · 손성일³ · 이상권¹

설부에 국한된 양성 대칭성 지방종증(symmetrical lipomatosis of tongue)은 오직 혀만을 침범하는 지방종증을 특징으로 하는 매우 드문 질환으로 보고된 증례 수가 너무 적어 아직 양성 대칭성 지방종증(benign symmetrical lipomatosis)과 같은 질환인지 아닌지 확실하지 않다. 저자들은 77세 남자의 설부에 국한된 양성 대칭성 지방종증을 경험하였기에 임상적 특징과 영상학적 진단에 대하여 보고하고자 한다.

계명대학교 의과대학 동산의료원 ¹영상의학과학교실, ²내과학교실, ³신경과학교실