

# Kimura's Disease의 방사선치료

—증례보고 및 문헌고찰—

인제대학교 부속 서울 백병원 치료방사선과학교실

허길자 · 강승희 · 서현숙

= Abstract =

## Radiotherapy in Kimura's Disease

—Case Report and Review of Literatures—

Gil Cha Huh, M.D., Seung Hee Kang, M.D. and Hyun Suk Suh, M.D.

Department of Radiation Oncology, Inje University College of Medicine, Seoul, Korea

Kimura's disease is a rare disorder which predominantly involves the head and neck region can cause eosinophilia in peripheral blood. It has been treated with steroids, surgical excision, irradiation, cryotherapy, and laser. The lesions have a tendency to recur after steroid and surgery. We reviewed 2 patients with Kimura's disease who recurred, because they were resistant steroid therapy and surgery, and treated successfully conventional radiation therapy.

Key Words : Kimura's disease, Radiotherapy.

### 서 론

Kimura's disease는 1984년 Kimura<sup>1)</sup>에 의해 처음으로 보고되었고 주로 주경부 연부조직 및 림프절에서 발생하며 호산구 증가를 나타내는 드문 양성질환이다<sup>2-5)</sup>. 이들의 치료방법으로 스테로이드 및 외과적 절제술이 시행되고 있으나 일부환자에서는 스테로이드치료에 저항성이 있고 외과적 절제술에도 재발되는 경우가 흔하다. 이 경우 방사선치료가 효과적으로 시행될 수 있다<sup>5-7)</sup>. 본 보고에서는 스테로이드에 저항성이 있고 외과적 절제술 후 재발된 2명의 환자에서 방사선치료를 시행한 예를 보고 하고자 한다.

### 대상 및 방법

인제대학교 부속 서울 백병원에서 Kimura's disease

로 진단된 2명의 환자에 대해 방사선치료를 시행하였다.

### 증 례 1

26세의 남자환자로 양측 볼에 생긴 종괴를 주소로 입원하였다. 14년전 처음으로 발견하였고 12년전 실시한 조직 검사에서 Kimura's disease 진단받고 스테로이드 치료를 받았으나 효과가 없었다. 그후 5회의 외과적 수술을 시행받았고 이 중 본원에서 시행했던 부분절제술의 병리학적 소견상 피하 혈관림프의 과형성과 호산구증가를 보였다(Fig. 1).

2년후 양측 볼의 종괴가 재발견되어 우측 볼의 절제생검술을 시행하였고 두경부의 컴퓨터단층촬영을 시행한 결과 역시 양측 안면, 하악, 그리고 이하선을 침범하는 잔존병변의 소견보여(Fig. 2) 방사선치료를 위해 본과로 전원되었다.

본과에서의 이학적 소견상 양측 볼에서 무통성의 종괴(우측 12×7cm, 좌측 10×6cm)가 촉진되었고 양측

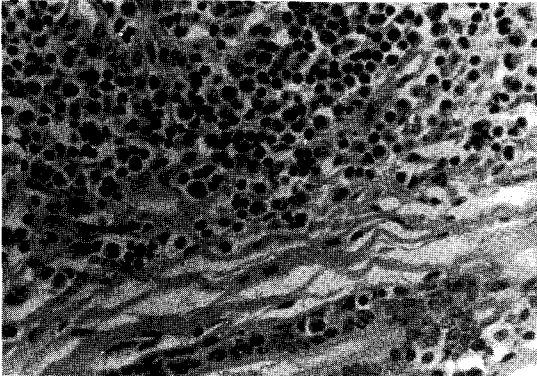


Fig. 1. Pathologic finding of Case 1 revealed lymph node infiltrated by numerous eosinophils in the mantle zone & angiolymphoid hyperplasia. (H & E, 40x10)

턱밑에 피부 및 주위 조직과의 유착이 없는 림프절이 1.5×1.5cm 크기로 촉진되었다. 말초혈액 검사상 16%로 호산구가 증가되어 있었고 혈중 IgE수치는 검사되지 않았다. 그의 소변 검사 및 흉부 X-선 촬영에서는 특이 소견 없었다.

치료는 양측 볼과 이환된 림프절에 외부방사선조사를 시행하였는데 4MV LINAC를 이용하여 총 3060cGy를 매일 180cGy씩 17회 걸쳐 조사하였다. 치료중 구강 점막의 충혈과 미란을 유발하는 구강 점막염이 동반되었고 방사선치료 종료시 시행한 이학적 검사상 양측 볼의 종괴는 우측 4cm, 좌측 2-3cm로 크기가 감소되어 있었다. 치료후 2개월 경과관찰시 시행한 컴퓨터단층촬영에서 병변의 크기가 현저히 감소되어 있었고 6개월 추적 검사상 더욱 감소된 상태를 유지하고 있었다(Fig. 2A&2B).

증 례 2

45세된 남자환자로 12년전에 발생한 우측 볼에 생긴 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 11년전 부분절제술을 시행받았고 8년전부터 간헐적으로 스테로이드 치료를 받았으나 효과가 없었다. 3년전 본원에서 부분절제술을 시행받았는데 병리학적 검사상 우측 전이개와 림프절을 침범하는 Kimura's disease의 소견을 보였다(Fig. 3).

내원당시 이학적 소견상 우측 볼에서 15×12cm 크기의 비교적 단단한 무통성의 종괴가 촉진되었고 우측 턱밑에서 유동성의 림프절이 2×2cm 크기로 촉진되었다. 말초혈액검사상 48%로 호산구가 증가되어 있었고 혈중 IgE수치는 검사되지 않았다. 그의 소변 검사 및 흉부 X-



Fig.2A. Pre-irradiation CT scan of case 1 showing ill-defined soft tissue lesion in both cheek and cervical lymph nodes.



Fig. 2B. Post-irradiation CT scan of case 1 after 2 months with markedly improvement.

선 촬영에서도 특이 소견 없었다. 두경부의 컴퓨터단층촬영에서는 우측 안면, 이하선, 측후두 두피부위 및 경부에서 종괴소견과 함께 다발성 림프절비대를 보였다.

치료는 우측 이환부위와 경부 림프절에 외부방사선조

사를 4MV LINAC을 이용하여 총 3600cGy를 매일 방사선조사 180cGy씩 20회 걸쳐 조사하였다. 치료중 방사선조사부위의 모발소실과 피부의 경미한 홍반이 동반되었다. 방사선치료 종료시 시행한 이학적 검사에서 우측의 종괴는 대부분 소실되었고 우측 턱밑의 유동성 림프절은 1cm 직경으로 크기가 감소되었다(Fig. 4A&4B). 치료후 1개월 경과 한뒤 시행한 컴퓨터단층촬영에

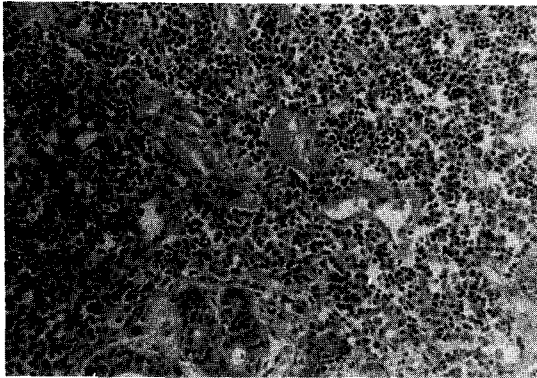


Fig. 3. Pathologic findings of Case 2 revealed massive inflammatory infiltration with lymphoid follicle formation and numerous eosinophil in the parotid gland.(H & E, 20 × 10)

서 병변이 현저히 감소되었고 6개월 추적 검사상 더욱 감소된 상태를 유지하고 있었다(Fig. 5A&5B).

## 고 찰

Kimura's disease는 림프조직의 증식을 동반한 비특이적인 육아성 변화로서<sup>1)</sup> Iizuka<sup>9)</sup> (1959)에 의해 처음으로 명명되었고 일본에서 주로 보고되었으나 그외 지역에서도 드물게 보고된바있다. 이외도 많은 명칭으로 불리워지고 있는데 각기 eosinophilic lymphoid granuloma, eosinophilic granuloma of soft tissue, subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia, pseudo or atypical pyogenic granuloma, dermal angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia, histiocytoid hemangioma, epithelioid hemangioma 등으로 명명되었다<sup>9-11)</sup>.

조직학적으로 Kimura's disease와 Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia(ALHE)를 감별해야 하는데 이에 대해서는 논란이 많은 상태이다<sup>12)</sup>. Chun등<sup>11)</sup>은 Kimura's disease는 전형적인 림프여포형성을 보이고 림프절 전이를 동반하며 말초혈액내에 호산구 증가 소견이 보이는 반면 ALHE는 혈관내피세포의 증식과 표

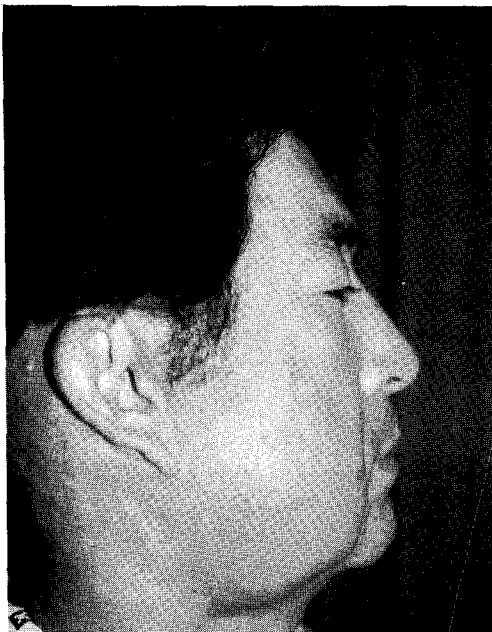


Fig. 4A. Pre-irradiation status of case 2.

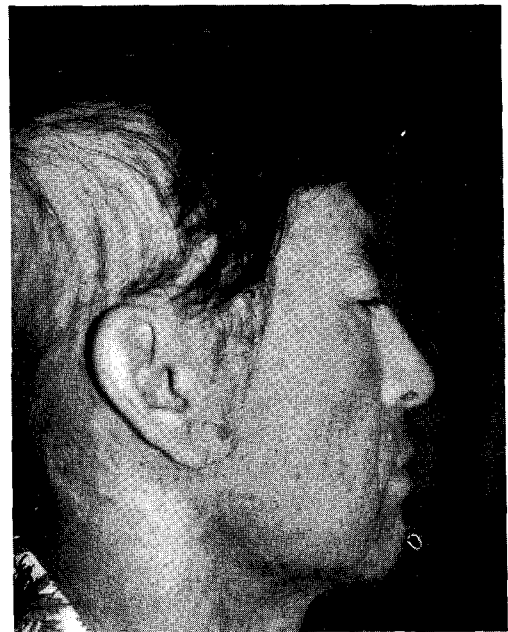


Fig. 4B. Post-irradiation status of case 2.



Fig. 5A. Pre-irradiation CT scan of case 2 revealing inhomogeneous enhancing mass in temporooccipital scalp area, parotid gland and multiple lymph nodes in cervical area.



Fig. 5B. After 1 month. Post-irradiation CT scan of case 2 revealing resolved mass in right parotid gland area and cervical lymph nodes.

재성의 구진 또는 결절이 특징적 소견이고 말초혈액내에 호산구 증가는 잘 동반되지 않는다고 보고했다.

본 질환은 주로 남자에서 이환되고(87%)<sup>6)</sup> 젊은 연령에 호발한다. 진피나 피하를 각각 또는 동시에 침범하고, 한개 혹은 여러개의 결절이 생기는 것으로 되어있다<sup>2-5,12,13</sup>

이환부위는 두경부가 흔하며 팔, 체간 부위도 보고된 바 있었으며 본 증례들은 모두 두경부에서 발생하였다.

Olsen과 Helwig<sup>10)</sup>의 보고에의하면 54%가 피하에, 25%가 진피에, 21%가 진피에, 21%가 진피와 피하에 각각 위치한다고 하였는데 본 증례들은 병소가 주로 진피에 위치해 있었다. 경도 혹은 중등도의 혈관증식, 림프성조직침윤, 림프여포형성 및 중등도 내지 심한 호산구 침윤이 주소견으로 보고되었다<sup>2-4, 14-18)</sup>. 본 질환은 임상 경과가 양성이고 자연소실이 일어나는 경우도 종종 관찰된다<sup>5)</sup>.

치료방법으로는 흔히 국소 또는 전신적 스테로이드 요법으로 효과를 보나 치료를 중단하면 대부분의 경우 재발하는 것으로 보고되어있다<sup>2,5-7,10,16)</sup>. 외과적으로 병변을 절제하여 완전관해를 얻기도 하나 대부분의 경우 병변의 혈관조직 증식으로 인해 경계를 구분하기 어려워 완전절제가 용이하지 않아 외과적 수술 절단면의 침범소견이 없더라도 환자의 1/3이 국소재발을 하는 것으로 알려져있다<sup>7)</sup>. 따라서 laser 치료를 시도하고 있는데 이 치료는 심한 혈관증식 때문에 구분하기 힘든 경계면까지 적절하게 치료를 해줄 수 있다고 한다. 국내에서도 CO<sub>2</sub> laser로 시도되어 좋은 치료효과를 보고하였다<sup>2)</sup>.

그외에 Albers는 Hydroxypolyethoxy-dodecan을 병소에 주입하여 치료한 예를 보고하였고<sup>19)</sup> Gatti등<sup>20)</sup>은 cryosurgery를 동시에 시행한 경험을 보고하였다.

방사선치료요법이 Kimura's disease에 사용되어 좋은 효과를 얻을 수 있다고 보고되어 왔으나 젊은 연령층에 시행하는 방사선조사는 후유증 발생가능성으로 인하여 활발한 사용이 기피되어 왔었다<sup>6)</sup>. 그러나 스테로이드 치료, 외과적 수술방법에도 불구하고 계속 재발하여 주위조직으로 침윤되거나 림프절로 전이되는 경우에는 방사선치료방법이 선택될 수 있다. 방사선치료방법으로는 저조사량의 조직내 방사선치료가 시도되어 80%에서는 국소관해를 얻었다고 하고<sup>7)</sup> Itami등<sup>5)</sup>은 20-30Gy의 conventional fraction에 의한 외부방사선조사를 시행하여 19명의 환자중 15명(79%)에서 국소관해를 보였다고 하였다. 본 저자들의 보고에서도 스테로이드치료와 외과적 절제술에도 불구하고 병변이 지속되는 환자 2명에서 30-36Gy의 외부방사선치료를 시행한 결과 즉각적으로 호전된 병변을 보였고 6개월 이상의 추적 검사상 병변의 완전관해를 관찰할 수 있었다.

따라서 본 증례의 치료경험을 토대로 하여 Kimura's

disease는 스테로이드치료에 반응이 없고 외과적 절제술에도 불구하고 재발된 경우에는 외부방사선치료를 시행하여 완전관해를 얻을수 있으므로 이후 전향적으로 많은 환자에서 시도되어 좋은 결과를 얻을 수 있기를 기대한다.

## 결 론

Kimura's disease로 진단된후 스테로이드 치료에 반응이 없고 외과적 절제제수술후 재발된 2명의 환자에서 방사선치료를 시행한 결과 병변의 현저한 감소를 경험하였다.

## REFERENCES

1. Kimura T, Yoshimura S, Ishikawa E: On the unusual granulation combined with hyperplasia change of lymphatic tissues. *Trans Soc Pathol Jan* 37:179-180.
2. 허수경, 김천상, 이승철: Carbon dioxide laser로 치료한 Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia 1예, *대피지* 29:130-135, 1991
3. 곽동환, 오수명, 주흥재: Kimura씨 병 증례, *경희의대논문집* 4:41-44, 1979
4. 안금환, 이정빈, 이현순: Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia, *서울의대학술지* 25:511-4, 1989
5. Itami J, Arimizu N, Miyoshi T: Radiation therapy in Kimura's disease. *Acta Oncol* 28:511-4, 1989
6. Peter MS, Hugh FB: Kimura's disease involving Parotid Gland and Cervical Nodes. *J Comput Assist Tomogr* 16:320-322, 1992
7. del Toro JJA, Rocher FP, Margues JB: Clinical and Pathologic Diagnosis: Pathologic Quiz Case 3. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 118:216-218, 1992
8. Iizuka S: Eosinophilic lymphadenitis and eosinophilic lymphoid granuloma: A proposal of the new concept of the disease of the lymph node and its surrounding tissue. *Nihon Univ. Med. J.* 18:900, 1959
9. Oslen TG, Helwig EB: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Am Acad Dermatol* 12:781-795, 1985
10. Fitz P, Eisen, Wolff: *Dermatol in General medicine*, 4th ed. McGraw-Hill Inc. Vol 1:1215-1217, 1993
11. Chun SI, Ji HG: Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Clinical and histopathologic differences: *J Am Acad Dermatol* 27:954-958, 1992
12. Goose PB, Harris NL, Mihm MC: Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Two distinct histopathological entities. *J Cutan Pathol* 14:263-271, 1987
13. Kissane JM: *Anderson's Pathology*, 8th ed. The C. V. Mosby Company, Vol 2:614, 1985
14. 최성우, 김태윤, 김형욱 등: Kimura 병 1예. *대피지* 23:248-252, 1985
15. Matusuda O, Makiguchi K, Ishibashi K: Long term effects of steroid treatment on nephrotic syndrome associated with Kimura's disease and a review of the literature. *Clin Nephrol* 37:119-123, 1992
16. Thompson JW, Colman M, Williamson C, et al: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the external ear canal. *Arch Otolaryngol* 107:316-319, 1981
17. Kuo TT, Shin LY, Chan HL: Kimura's disease: Involvement of Regional Lymph Nodes and Distinction from Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia. *Am J Surg Pathol* 12(11):843-854, 1988
18. Hui PK, Chan JKC, Ng CS: Lymphadenopathy of Kimura's disease. *Am J Surg Pathol* 13:177-186, 1989
19. Albers HJ: Angiolymphoid hyperplasia, a successfully treated case. *Z Hautkr* 61:47-49, 1986
20. Gatti JC, Cardama JE, Gil J et al.: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Med Cutan Ibero Lat Am* 15:140-144, 1987