

설 기저부에 발생한 염증성 가성종양 1예

성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 이비인후과학교실

이현섭 · 허세형 · 진성민 · 이상혁

= Abstract =

A Case of Inflammatory Pseudotumor at Tongue Base

Hyun Sub Lee, MD, Se Hyung Huh, MD, Sugn Min Jin, MD and Sang Hyuk Lee, MD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Kangbuk Samsung Hospital,
Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

Inflammatory pseudotumor is characterized by the presence of a mass that may mimic malignancy and is composed of spindle cells mixed with variable amounts of extracellular collagen, lymphocytes, and plasma cells. It is a benign tumor commonly involving lung and orbit and rarely that occurs in the head and neck. The cause and pathogenesis of inflammatory pseudotumor still remain controversial. Some bacterial infection or chronic irritation may have prompted some speculation that an initially reactive process can change into an overt neoplastic disease. It tends to affect children and young adults than old ages. We present a case of inflammatory pseudotumor involving the tongue base, in a 73-year-old patient with repeated oral bleeding that aggravated over a few days. Clinical examination showed angiomatous polyp like findings in oropharynx that easy bleeding tendency. CT images showed well defined soft tissue mass with focal enhancement. After surgery, tumor was finally diagnosed inflammatory pseudotumor by histopathologic examinations showed plasma cells and inflammatory cells in variable fibrotic tissues.

KEY WORDS : Inflammatory pseudotumor · Tongue · Oropharynx · Granuloma plasma cell.

서 론

염증성 가성종양(Inflammatory pseudotumor)은 조직학적으로 형질세포(Plasma cell)를 포함한 다양한 염증세포 및 혈관 섬유성 조직 등으로 구성된 종양 유사 병변으로, 염증성 근섬유세포종(Inflammatory myofibroblastic tumor) 또는 형질세포 육아종(Plasma cell granuloma)으로 불리기도 한다.¹⁾ 이외에도 cellular inflammatory pseudotumor, inflammatory fibrohistiocytic tumor, fibroxanthoma, histiocytoma, inflammatory fibrosarcoma 등의 많은 동의어들이 있으며 이 모두비특이적인 만성 염증성에 의한 팽창성 종괴를 형성하는 병소를 통칭하는 용어이다.²⁻⁴⁾ 호발 연령은 30대 이하

의 젊은 연령층으로 호흡기계와 소화기계에서 발생한 경우 10대에서 20대 여성에서 많은 것으로 알려져 있으나 그 외의 장기에서는 남녀 분포의 차이는 없는 것으로 알려져 있다.⁵⁾

원인은 명확하지 않아 여러 가설이 제시되고 있으며 만성 자극으로 인한 염증반응이 극적으로 진행되어 결과적으로 빠른 조직의 증식을 일으킨다는 견해가 지배적이다.⁶⁾ 이학적 검사상 육안상 불규칙한 표면을 가진 고무양 종괴의 형태로 관찰되며, 전산화 단층촬영검사서 주위의 인접 조직으로 국소적 확장을 보이며 조영 증강이 되지 않으며 일부에서 석회화 소견을 관찰할 수 있다.⁶⁾ 임상적 양상은 염증성 가성종양이 체내의 다양한 부분에서 공간점유 병변의 형태로 발생하며 국소침윤을 통한 주변조직의 파괴를 유발하기도 한다.⁷⁾ 신체 모든 부위에서 발생이 가능하며 주로 폐와 복강 내 조직의 점막 하에서 호발한다. 두경부 영역에서의 발생은 안와를 제외하고는 매우 드문 것으로 알려져 있다.⁸⁾ 저자들은 1달 전부터 발생한 객혈과 호흡곤란 및 연하장애를 주소로 내원한 73세 남자환자에서 설 기저부에 발생한 염증성 가성종양을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

논문접수일 : 2011년 5월 30일

심사완료일 : 2011년 6월 26일

책임저자 : 이상혁, 110-746 서울 종로구 평동 108

성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 이비인후과학교실

전화 : (02) 2001-2269 · 전송 : (02) 2001-2273

E-mail : entlsh@hanmail.net

증 례

73세 남자환자로 내원 1달 전부터 간헐적으로 지속된 구강 내 출혈을 주소로 본원에 응급실 통해 내원하였다. 과거력상 6년 전 식도암으로 식도절제술을 시행 받았으며, 고혈압, 당뇨 및 만성신부전증으로 혈액투석중인 환자였다. 문진상 내원 한 달 전부터 지속적으로 발생하는 소량의 구강 내 출혈로 타병원 이비인후과에서 경과관찰 하던 중, 내원 2일전부터 다량의 구강 내 출혈이 발생하여 본원 응급실 통해 내원하였다. 환자는 심한 연하장애로 내원 3일 전부터 구강을 통한 식사가 불가능한 상태였으며, 음성의 변화, 목의 이물감을 호소하고 있었다.

시행한 이학적 검사 및 후두 내시경 소견상 설 기저부에서 기원한 것으로 보이는 불규칙한 표면을 가진 암적색의 종물이 구인두 내를 가득 채우고 있었다(Fig. 1). 시행한 혈액검사

상 혈색소는 9.0 g/dL으로 감소한 것으로 나타났으며 시행한 동맥혈 가스 분석 결과 혈중 산소포화도는 정상수준으로 나타났다. 입원 후 기도폐색을 우려하여 기관절개술을 시행하였으며 입원 2일째 시행한 경부 전산화 단층촬영 결과 4×3×1.8 cm 크기의 경계가 명확한 연부 조직밀도를 보이며 조영증강 후 영상에서 국소적 저음영을 보이며 불규칙하게 조영되는 종양이 구인두 내로 돌출 되어 있는 것이 관찰되었고(Fig. 2), 양측 경부의 비정상적인 림프절 종대는 관찰되지 않았다. 입원 4일째 구강 내 접근법을 통하여 종양 절제술을 시행하였다. 수술 당시 좌측 설 기저부에서 기시한 종양은 주변과의 유착은 관찰되지 않았고 주변 구조물의 손상 없이 적출되었다(Fig. 3, 4). 수술 중 시행한 동결절편 조직검사상 염증세포만이 관찰되는 소견을 보였다. 수술 후 적출된 종양의 병리조직검사 결과 상 림프구와 형질세포 등의 염증성 세포와 함께 방추형 세포가 나선형 및 섬유다발 모양으로 배열되어 있는 염증성 가성종양

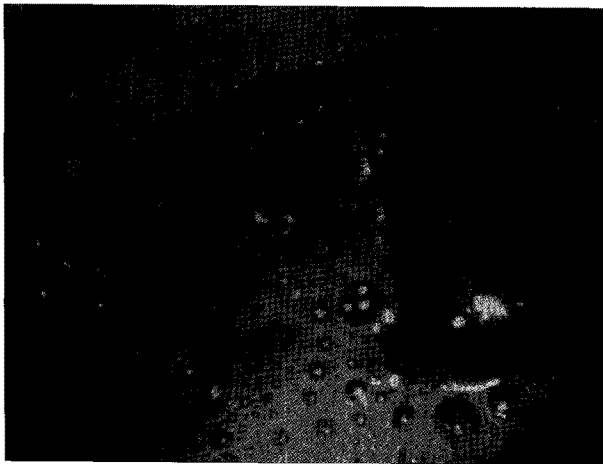


Fig. 1. Stroboscopic exam Irregular rubbery polypoid mass was occupied entire oral cavity.

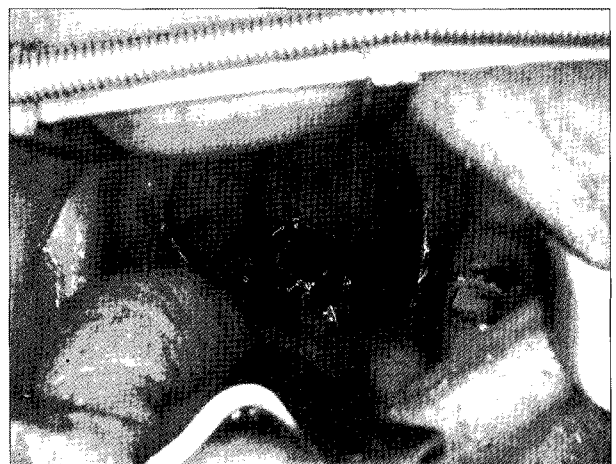


Fig. 3. Preoperative views of oral cavity. Irregular rubbery polypoid mass was occupied the tongue base and responsible for oropharyngeal obstruction.

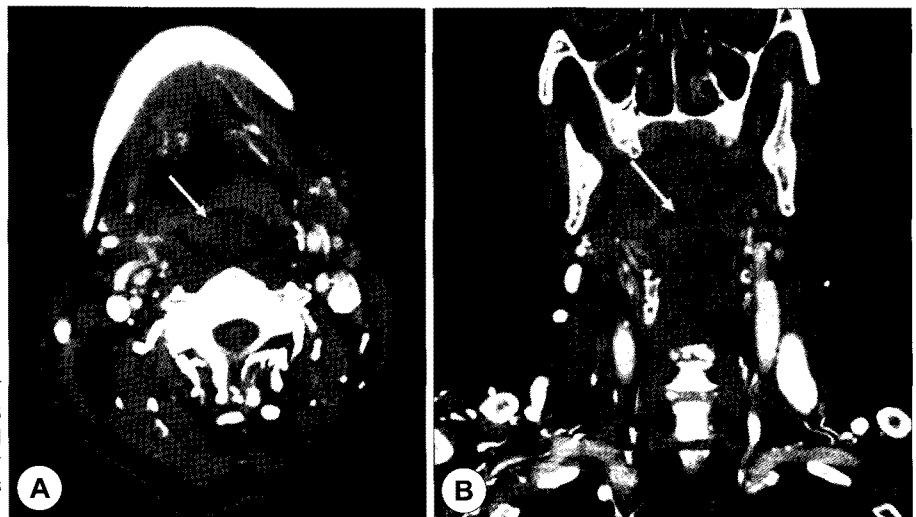


Fig. 2. Axial (A) and Coronal (B) CT scans of neck. Note the 4×3×1.8 cm mass that show well defined with focal faint enhancement soft tissue density without invasion was located in tongue base.

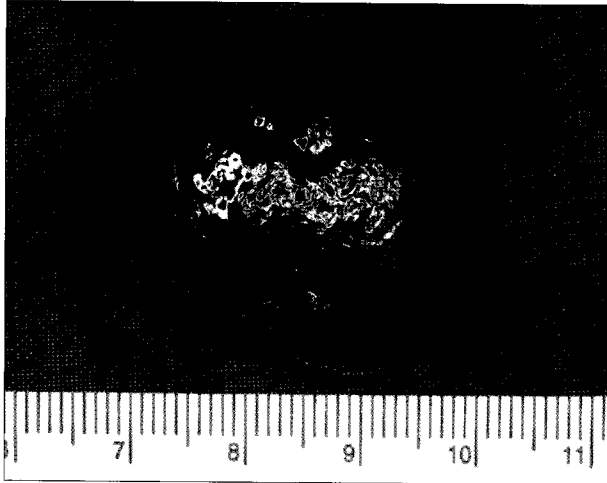


Fig. 4. Gross findings. Mass shows about 3×2.5×2.5 cm sized irregular surface with a sharply defined border with the surrounding tissue.

(Inflammatory pseudotumor)으로 진단되었다(Fig. 5). 수술 후 환자는 특별한 합병증 없이 수술 후 5일째 퇴원하였고 이후 6개월 간의 외래 경과관찰 중 재발이나 합병증의 소견은 보이지 않았다.

고 찰

염증성 가성종양은 제일 처음 1905년 Birch-Hirschfield에 의해 폐에서 발견된 후 호흡기계에서 비교적 빈번하게 발생한다고 보고되고 있다.⁹⁾ 호흡기계 이외의 장기로는 간, 후복막강 등의 소화기계와 비뇨기계 등에서도 간혹 발견이 되는 경우가 있으며 두경부 영역의 연조직에서는 안와를 제외하고는 매우 드문것으로 알려져 있다.^{11,12)} 국내에서는 안와를 제외한 두경부 영역에서는 비강, 측두골 및 중이강 내에 보고된 바 있으나 구인두 내에 발생한 염증성 가성 종양은 아직 보고된 바가 없다.^{13,14)} 여러 가지 발생 유발요인이 제시되고 있으나 여전히 정확한 원인이 규명되지 않은 염증성 병변으로 감염, 외상, 흡연, 코카인 흡입과 같은 만성 자극 등의 여러 가지가 발생의 유발 요인으로 제시되고 있으며¹⁵⁻¹⁸⁾ 최근의 세포유전학적 연구에서는 2번 염색체의 long arm과 9번 염색체의 short arm에서 전위가 있음을 발견하여, 이 병소가 염증성 기원이라기 보다는 신생물에 가깝다는 주장의 근거가 되고 있다.^{19,20)}

임상 양상으로는 다른 공간 점유 병변들에서 볼 수 있는 주변 구조물의 압박 및 전위에 의한 증상과 동통, 운동제한 등의 증상을 유발할 수 있으며 두경부 영역에서 흔한 안와의 경우 안구 동통이나 염증을 보일 수 있으며 안와를 제외한 두경부 영역에서는 주변 골의 침범을 쉽게 보인다. 조직학적으로 임파구, 형질세포, 조직구, 섬유아세포 등이 다양한 정도로 구성되

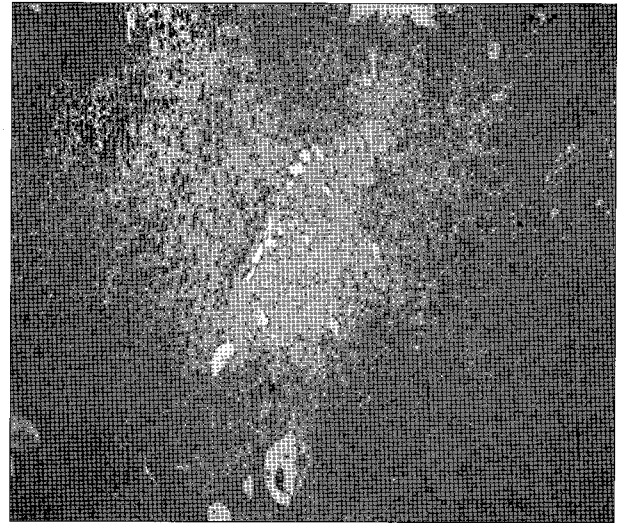


Fig. 5. Pathologic findings (H&E, ×100). The tumor shows predominantly compact fascicular spindle cell proliferation with distinctive inflammatory cells infiltration.

어 있으며 이와 함께 혈관 섬유성 조직, 섬유화, 유리질화 등이 동반된 비특이성 염증성 형태를 보인다. 면역조직화학적 연구에서는 근섬유모세포와 섬유모세포 등 간엽세포(Mesenchymal cell)에서 양성을 보이는 vimentin과 α-smooth muscle actin, muscle specific actin에는 양성 반응을 보이고, 병소가 섬유화가 진행될수록 vimentin에 우세한 표현형을 보인다.^{19,20)}

본 증례에서와 같이 구인두 내에 발생하는 경우에는 큰 혈액종성 폴립(Angiomatous polyp)과 유사하게 나타날 수 있다.²⁰⁾ 혈액검사상 적혈구가 작고 저색소성인 빈혈(Microcystic hypochromic anemia)을 보이고, 감마글로블린 수치가 증가(Hypergammaglobulinemia)하며, 적혈구 침강속도는 높은 경향을 보인다.¹¹⁾ 본 증례에서도 지속적인 출혈이 검사결과에 영향을 주었을 것으로 생각되나 저색소성 빈혈을 나타내었고 적혈구 침강속도도 상승된 소견을 보였다. 국소 재발율에 대해서는 아주 낮다는 보고부터 25%까지 다양하게 보고되고 있으며 종양의 완전 절제가 불가능한 경우 국소 재발율은 높은 것으로 알려져 있다.⁴⁾

염증성 가성종양의 치료방법으로 수술, 방사선치료 그리고 스테로이드 치료 등이 사용되고 있다.¹¹⁾ 치료의 원칙은 외과적 완전 절제로, 정상 조직을 포함한 광범위한 절제를 시행할 필요는 없으나, 국소적 침윤성 경향을 보이므로 초기에 외과적 절제를 시행 하는 것이 바람직한 것으로 알려져 있다. 스테로이드 투여는 염증성 가성종양의 급성 염증성 병변을 가라앉히고 종괴의 크기를 감소시킬 목적으로 시행할 수 있으나 확실한 치료는 되지 못하며 섬유성 병변이나 만성 병변에는 별 효과가 없는 것으로 알려져 있다. 종양의 발생위치가 절제가 불가능할 경우에 방사선 치료를 시행하기도 하였으나 일부

에서는 방사선 치료가 효과적이지 못하다는 보고도 있다.⁹⁾

이와 같이 염증성 가성종양은 비록 양성 질환에 속하나 일부에서 주위 조직을 침범 및 궤양을 형성하며 성장하는 경향이 있어 악성 종양과 같은 임상양상을 일으킬 수 있음에 악성 종양으로 오진되기도 한다.²¹⁻²³⁾ 따라서 임상양상 및 이학적 검사, 영상의학적 소견에 근거하여 염증성 가성종양에 대한 가능성을 염두에 두고 정확한 진단 및 조기에 근치 절제를 시행하여 불필요한 광범위 절제를 줄이고 환자의 조기 회복을 돕는 것이 필요하다고 생각된다.

중심 단어 : 염증성 가성종양·설·구인두·형질세포 육아종.

REFERENCES

- Pettinato G, Manivel JC, DeRosa N, Dehner LP. *Inflammatory myofibroblastic tumor (plasma cell granuloma). Clinicopathologic study of 20 cases with immunohistochemical and ultrastructural observation. Am J Clin Pathol 1990;94:538-46.*
- Wenig BM, Devaney K, Bisceglia M. *Inflammatory myofibroblastic tumor of the larynx. Cancer 1995;76:2217-29.*
- Soudi AK, Ziemba MC, Dubansky AS, Mazur M, Oliphant M, Thomas FD, et al. *Inflammatory myofibroblastic tumor in children. Cancer 1993;72:2042-8.*
- Watanabe K, Tajino T, Sekiguchi M, Suzuki T. *Inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory fibrosarcoma) of the bone. Arch Pathol Lab Med 2000;124:1514-7.*
- Biselli R, Ferlini C, Fattorossi A, Boldrini R, Bosman C. *Inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor): DNA flow cytometric analysis of nine pediatric cases. Cancer 1996;77(4):778-84.*
- Takimoto T, Kathoh T, Ohmura T, Kamide M, Nishimura T, Umeda R. *Inflammatory pseudotumour of the maxillary sinus mimicking malignancy. Rhinology 1990;28:123-7.*
- Shek AW, Wu PC, Samman N. *Inflammatory pseudotumour of the mouth and maxilla. J Clin Pathol 1996;49(2):164-7.*
- Enzinger FM, Weiss SW. *Soft tissue tumor. 2nd ed. St. Louis: C.V. Mosby Co;1988. p.414-5.*
- Tang TT, Segura AD, Oechler HW, Harb JM, Adair SE, Gregg DC, et al. *Inflammatory myofibrohistiocytic proliferation simulating sarcoma in children. Cancer 1990;65(7):1626-34.*
- Liston SL, Dehner LP, Jarvis CW, Pitzele C, Huseby TL. *Inflammatory pseudotumors in the buccal tissues of children. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1981;51:287-91.*
- Maldjian JA, Norton KI, Groisman GM, Som PM. *Inflammatory pseudotumor of the Maxillary sinus in a 15-year-old boy. Am J Neur Radiol 1994;15:784-6.*
- Hytiroglou P, Brandwein MS, Strauchen JA, Mirante JP, Urken ML, Biller HF. *Inflammatory pseudotumor of the parapharyngeal space: Case report and review of the literature. Head Neck 1992;14:230-234.*
- Cho JG, Choi CJ, Jung JH, Woo JS. *Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Nasal Cavity Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52:1005-8.*
- Kim SW, Lee JH, Lee IR, Jung MK. *A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Temporal Bone with Extraocular Muscle Palsy Korean J Otolaryngol 2002;45:1199-202.*
- Som PM, Brandwein MS, Maldjian C, Reino AJ, Lawson W. *Inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus: CT and MR findings in six cases. AJR Am J Roentgenol 1994;163:689-92.*
- Kaye AH, Hahn JF, Craciun A, Hanson M, Berlin AJ, Tubbs RR. *Intracranial extension of inflammatory pseudotumor of the orbit. J Neurosurg 1984;60:625-29.*
- Harr DL, Quencer RM, Abrams GW. *Computed tomography and ultrasound in the evaluation of orbital infection and pseudotumor. Radiology 1982;142:395-401.*
- Inui M, Tagawa T, Mori A, Yoneda J, Nomura J, Fukumori T. *Inflammatory pseudotumor in the submandibular region: Clinicopathologic study and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1993;76:333-37.*
- Sciot R, Dal Cin P, Fletcher CD, Hernandez JM, Garcia JL, Samson I, et al. *Inflammatory myofibroblastic tumor of bone: report of two cases with evidence of clonal chromosomal changes. Am J Surg Pathol 1997;21:1166-72.*
- Batsakis JG, el-Naggar AK, Luna MA, Goepfert H. *Inflammatory pseudotumor: What is it? How does it behave? Ann Otol Rhinol Laryngol 1995;104:329-31.*
- Williams SB, Foss RD, Ellis GL. *Inflammatory pseudotumors of the major salivary glands. Clinicopathologic and immunohistochemical analysis of six cases. Am J Surg Pathol 1992;16:896-902.*
- Earl PD, Lowry JC, Sloan P. *Intraoral inflammatory pseudotumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1993;76:279-83.*
- Ide F, Shimoyama T, Horie N. *Inflammatory pseudotumor in the mandibular retromolar region. J Oral Pathol Med 1998;27:508-10.*