

스테로이드 요법으로 완치된 염증성 가종양 1예*

가톨릭대학교 의과대학 내과학교실

방승호 · 김치홍 · 권순석 · 김영균
김관형 · 문화식 · 송정섭 · 박성학

= Abstract =

A Case of Inflammatory Pseudotumor Completely Resolved by Steroid Therapy

Seung Ho Bang, M.D., Chi Hong Kim, M.D., Soon Seog Kwon, M.D., Young Kyoon Kim, M.D.
Kwan Hyoung Kim, M.D., Hwa Sik Moon, M.D., Jeong Sup Song, M.D. and Sung Hak Park, M.D.

Department of Internal Medicine, Catholic University Medical College, Seoul, Korea

Inflammatory pseudotumor, also known as plasma cell granuloma, is a rare, benign tumor that affects at all ages and frequently involves the lung, gastrointestinal tract, and salivary gland. They are the most common, isolated, primary lesion of the lung in children less than 16 years of age, and usually present as circumscribed, peripheral, parenchymal tumors, which may be static or increase slowly in size without causing symptoms. Surgical excision is the treatment of choice because of the location and benign nature of this lesion. The prognosis after resection is excellent. Adjuvant therapeutic modalities include radiation and steroid therapy. Recently, we experienced a case of inflammatory pseudotumor of the lung, the diagnosis of which was made by percutaneous fine needle aspiration cytology examination. We tried steroid and the lesions of the lung was completely resolved.

We report this case with a review of literatures.

Key Words: Inflammatory pseudotumor, Steroid

서 론

염증성 가종양(Inflammatory pseudotumor)은 폐, 소화기, 타액선 등을 침범하는 드문 양성 종양으로 모든 연령에서 나타날 수 있으나 주로 16세 이하 어린이에서 호발하며, 폐에서 독립된 일차적 병변으로 나타난다¹⁾. 방사선 소견상 국한성으로 말초에 발생하는 폐 실질내 종양으로 대부분 특이한 증상을 나타내지 않으며 크기는 서서히 자라거나 정체되어 있다¹⁾. 조직학적으로는 성숙된 형질세포와 새망내계 세포들의 증식과 함께 주위 육

아조직의 간질로 지지되어 있는 특성을 갖고 있다^{1~3)}.

병명은 보고자에 따라 다양하여 Plasma cell granuloma, Xanthomatous pseudotumor, Histiocytoma, Fibrous xanthoma, Pseudotumor, Postinflammatory pseudotumor, Fibroxanthoma 등으로 불리운다³⁾.

이 종양의 치료방법은 외과적 절제이며 그 예후는 매우 좋은 것으로 알려져 있고 그의 방사선치료 및 스테로이드 요법이 드물게 보고되고 있다⁴⁾. 저자들은 최근 폐에 발생한 다발성의 염증성 가종양을 외과적 절제없이 저용량의 스테로이드를 투여하여 완전관해의 치료결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

*본 논문은 1993년도 가톨릭 중앙의료원 학술연구구성비로 이루어 졌음.

증 례

환 자 : 김○권, 남자, 58세.

주 소 : 경미한 객담.

현병력 : 환자는 내원 2개월전부터 오한, 미열, 객담 등 상기도 감염 증세가 있어 인근 병원을 방문하여 시행한 흉부 X-선 및 흉부 전산화 단층 촬영 결과 다발성 폐종양의 소견보여 이의 정밀한 조사를 위하여 입원하였다. 입원당시 기침, 객담, 발열등의 상기도 감염증상이나 체중감소의 소견은 보이지 않았다.

과거력 : 40여년전 폐결핵으로 항결핵제를 복용한 일 이 있으며 흡연경력은 없었다.

가족력 : 특이사항 없음.

이학적 소견 : 환자의 발육이나 전신상태는 비교적 양호하였고 특별한 증상을 호소하지 않았으며 입원 당시 체온 36.5°C, 맥박 분당 72회, 호흡수 분당 18회, 혈압 130/80 mmHg였다. 두경부에 특이 소견은 없었으며, 흉부 청진상 심잡음이나 비정상적인 호흡음은 들리지 않았고 부부, 사지, 신경학적 검사상 이상소견은 없었다.

검사실 소견 : 혈액검사상 혈색소 12.7 gm/dl, 혈구 용적 37%, 백혈구 9,300/mm³, 혈소판 353,000/mm³였고 백혈구중 호산구는 10%(총 1,199/mm³)로 증가된 소견을 보이고 있었다. 그 외 혈청학적 검사나 요 검사는 정상소견을 보였다. 결핵 피부반응 검사는 양성으로 나타났으며 대변검사상 간 디스토마는 양성으로 나타났으나 피부반응검사는 음성으로 나타났다. 혈청 IgE는 100 IU/mL, CEA 4.1 ng/ml로 나왔고 폐기능 검사 및 알레르기 피부반응 검사는 정상적인 소견을 보였다.

방사선학적 소견 : 입원당시 시행한 흉부 X-선상 좌측 폐 하엽에 6.0×3.3 cm, 3.0×2.5 cm, 상엽에 2.8×2.4 cm, 우측폐 하엽에 3.2×2.5 cm, 1.6×1.2 cm 등 다양한 크기의 비교적 경계가 명확한 등근 종괴음영이 보였으며 종괴내의 분엽이나 석회화, 공동소견은 보이지 않았다(Fig. 1). 입원전 외래에서 시행한 적혈구를 이용한 폐 동위원소 촬영에서 혈관종의 소견은 발견할 수 없었다.

기타 검사소견 : 전이성 폐종양 추정하에 원인질환을 찾기위한 검사로 위 내시경 및 골주사, 복부 전산화 단층촬영을 시행하였으나 특이한 소견은 발견되지 않았다.

조직학적 소견 : 환자는 전이성 폐종양이나 만성 육아 증성 질환 추정하에 입원 제 3병일과 7병일에 전산화 단층 촬영을 이용한 경피적 세침 흡인생검을 좌측폐 하엽의 종괴에서 시행하였다(Fig. 2). 3병일에 시행한 생검의 현미경 소견상 소수의 폐포세포, 폐포 대식세포 및

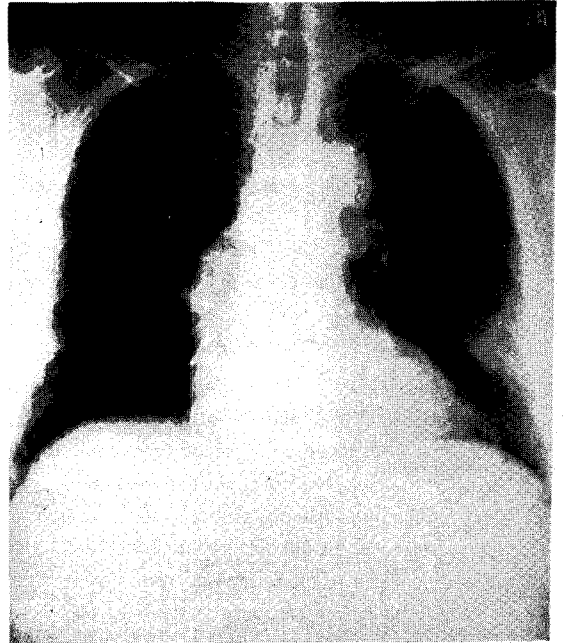


Fig. 1. Chest PA on admission showed well defined, various sized, multiple increased densities on both lung fields.

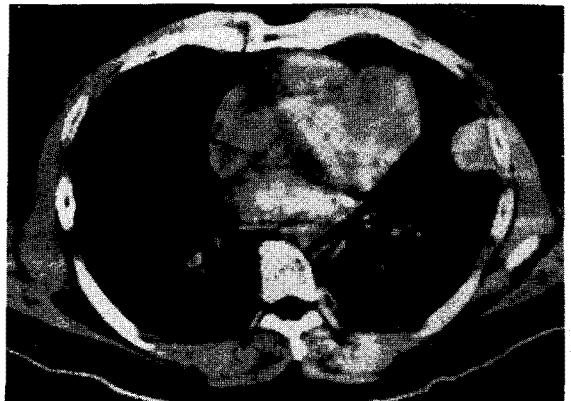


Fig. 2. Chest CT also showed well defined homogenous increased density adjacent to the pleura on LLL. CT-guided fine needle aspiration biopsy was done at this site.

적혈구 등이 관찰되었고(Fig. 3), 7병일에 시행한 검사에서는 소수의 조직세포가 독립적으로 또는 덩어리를 형성하며 상피세포와 혼합되어 있는 양상을 나타내어 만성 육아종성 염증과 일치되는 소견을 나타내었다(Fig. 4).

치료 및 경과 : 염증성 가종양 진단하에 Prednisolone 15 mg 투여하며 퇴원하였고 7일째 10 mg으로 감량하였다. Prednisolone 투여 21일후에 시행한 흉부 X-선 결과 좌측 폐하엽의 종괴는 3.8×2.5 cm, 우측 폐하엽의 종괴는 2.2×2.0 cm으로 크기가 감소된 소견을 보였다(Fig. 5). 28일째 7.5 mg으로 감량 투여하여 하였으며, Prednisolone 투여 45일후에 시행한 흉부 X-선 결과 입

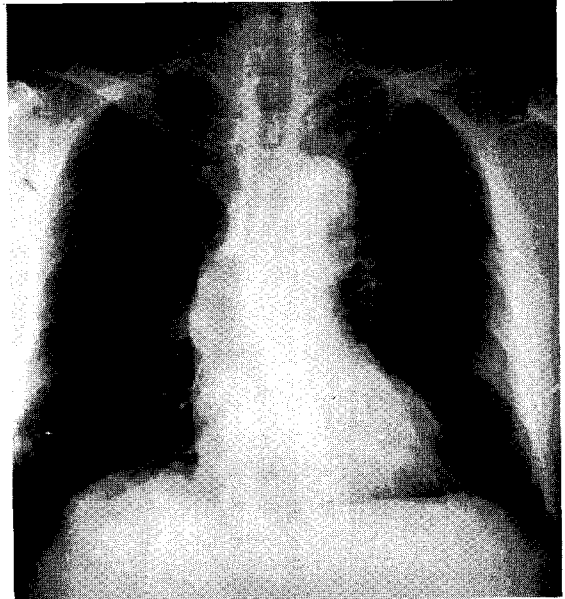


Fig. 5. Follow up chest PA, checked at 3 weeks after the initiation of steroid therapy, showed much regressed size of multiple nodules compared to the initial film.

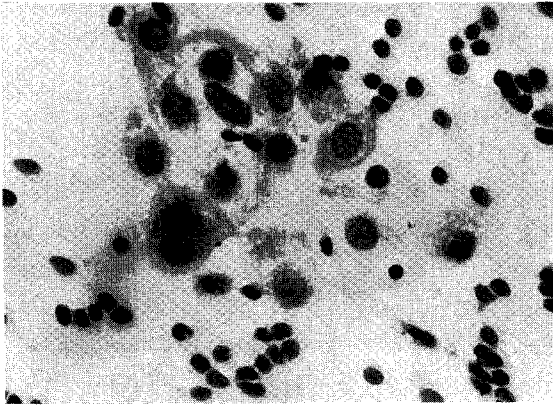


Fig. 3. Initial fine needle aspiration cytology showed a few alveolar cells, alveolar macrophages and red blood cells. (×400)

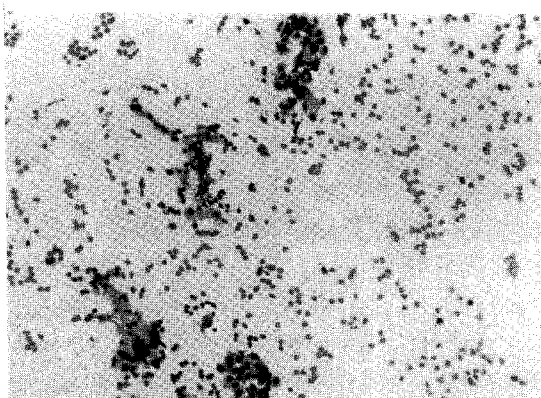


Fig. 4. Second fine needle aspiration cytology revealed admixture of histiocytes and alveolar epithelial cells, scattered and clustered, consistent with chronic granulomatous inflammation. (×100)

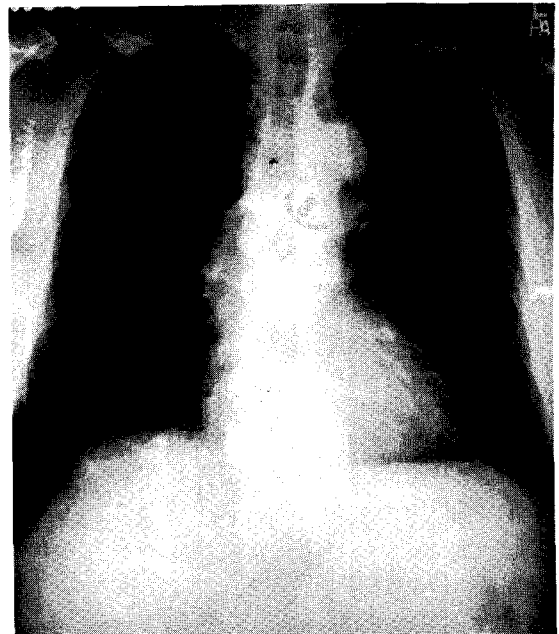


Fig. 6. Follow up chest PA, checked at 12 weeks after the initiation of steroid therapy, revealed a complete disappearance of initially noted multiple masses and nodules.

원당시 보였던 종괴음영들이 완전히 사라져 정상적인 흉부 X-선 소견을 보였다(Fig. 6).

고 찰

폐에 발생하는 염증성 가종양은 형질세포, 조직세포, 비만세포, 임파구, 거대세포, 포말세포, 섬유 모세포 등 다양한 염증세포와 간엽세포로 구성된 육아종으로 비교적 드문 질환으로 알려져 있다¹⁾. 이 질환은 1939년 Brunn이 형질세포 육아종이라 명하여 처음으로 기술하였고, 1964년 Bonaccorsi 등이 비특이성 염증으로 인한 비신생물이며 과립성 특징에 의해 후염증성 가종양(Postinflammatory pseudotumor)이라 보고하였다²⁾.

이 질환의 발생빈도는 전체 폐와 기관지 종양중 약 0.7%를 차지하며³⁾, 대개 폐, 기도 등에 발생하지만 간, 위장, 대장, 후복막, 복막강, 난소, 척수막 등에도 발생할 수 있다⁴⁾. 주로 젊은 연령층에서, 특히 2/3 이상이 30세이하에서 호발하는 것으로 알려져 있고⁵⁾, 16세 이하에서는 폐의 독립된 종양 형태의 병소중 가장 많은 비율을 차지하는 것으로 알려져 있으며⁶⁾, 남녀 성별에 따른 빈도의 차이는 없는 것으로 알려져 있다^{3,5)}.

염증성 가종양의 원인은 정확히 알려져 있지는 않지만 전신적 질환이나 혈장 단백 불균형 또는 비특이적 염증반응과 관계된다고 알려져 있고, 많은 환자에서 진단전 호흡기 감염의 과거력을 갖고 있는 것으로 보아 만성 염증성 경과에 의해 병변이 발생하는 것이 아닌가 생각되고 있다⁸⁾.

대부분의 환자에서 무증상인 경우가 가장 많고¹⁾ 증상이 있는 경우에는 경한 기침, 객담, 흉통, 발열, 객혈등이 나타날 수 있다^{2,5)}. 이학적 검사상 특징적인 소견은 없고 종양의 크기와 관계 있다고 알려져 있다^{1,2,7)}. 혈청학적 검사나 tuberculin, histoplasmosis, coccidioidomycosis, blastomycosis에 대한 피부반응 검사 등의 검사실 소견은 대부분 진단적 가치가 없는 것으로 보고되고 있으나¹⁾ IgE, A, M 등이 증가하는 고감마글로블린혈증, 적혈구 침강속도의 증가, 혈소판 증가증 등의 소견이 나타날 수 있는 것으로 알려져 있다⁸⁾.

이 질환은 단순 흉부사진상에서 우연히 발견되는 수가 대부분으로 사진상 독립된 국한성의 원형 또는 난형의 결절성 음영으로 나타난다¹⁾. 주로 흉막에 가까운 폐실질내에 나타나며 크기는 다양하다. 또 양폐에서 균등히

발견되지만 하엽에 좀 더 많이 발생하는 것으로 알려져 있고⁹⁾, 흉막 삼출액이 동반되는 경우는 매우 드문 것으로 보고되고 있다⁸⁾.

종양의 육안적 소견은 황백색 또는 적갈색으로 촉감은 단단하며 출혈이나 괴사 또는 미세한 석회 침착을 보이기도 한다^{1,5)}. 조직학적으로는 성숙된 형질세포가 구성세포의 대부분을 차지하고 있고 섬유아세포나 교양질, 초자물질사이에 Russel body가 책구조나 마차바퀴 모양으로 산재하고 있는 것이 특징적이다¹⁾. 조직학적 특징에 따라 조직성 폐렴형, 섬유성 조직구종형, 임파형 질세포형으로 나눌 수 있다¹⁰⁾.

경피적 세침 흡인 생검에 의한 조직소견은 형질세포가 많이 발견되지 않고 만성 염증세포와 조직편이 혼합되어 있는 비특이적인 소견을 나타내고 있어 이 방법만으로 염증성 가종양이라 확진할 수는 없으나, 이 방법으로 악성 종양의 가능성을 배제할 수 있고 다른 양성 종양과 구별되는 조직소견을 보이고 있으므로 흉부 X-선 사진과 함께 고려한다면 염증성 가종양을 진단할 수 있고 이 경우 개흉절제 등의 관혈적 방법을 사용하지 않는 것을 정당화할 수 있는 것으로 알려져 있다¹¹⁾. 본 증례의 경우 양측 폐에 다발성으로 결절이 존재하여 전이성 폐암을 의심하였고, 수술적으로 모든 결절의 절제가 불가능하다고 생각되어 흉부 전산화 단층촬영 유도하에 경피적 세침 흡인 생검을 시행한 결과 전술한 바와 같은 조직소견을 보여 비전형적이기는 하나 염증성 가종양이라 진단하는데 큰 무리는 없을 것으로 생각된다.

감별을 요하는 질환으로 가성 및 악성 임파종, 경화성 혈관종, 기형종, 조직구 증식종 등이 있다¹²⁾.

이 질환의 자연적 경과에는 다양하여 자연적으로 소실되거나 수년간 정체되어 있는 경우가 대부분이며 계속 자라나 폐문이나 종격동을 침범하는 경우도 있다⁸⁾. 염증성 가종양이 악성변화를 일으킨 보고는 없으며 전이를 일으키거나 주위구조물로 침범하는 경우도 매우 드문 것으로 알려져 있다¹³⁾.

치료방법으로는 수술에 의한 병변의 완전한 제거가 가장 좋은 방법으로 알려져 있으며, 재발되는 경우는 거의 없어 좋은 예후를 나타내나, 완전히 제거가 되지 않았거나 제거가 불가능할 경우 보조적 치료요법으로 방사선 치료¹⁴⁾나 스테로이드 요법 등⁸⁾이 보고 되고 있다. 염증성 가종양의 치료에 스테로이드를 사용한 경우를 살펴보면 수술후 재발한 종괴를 스테로이드로 치료하여 좋은

경과를 얻은 예와 후두에 발생한 종양을 스테로이드 요법만으로 완치된 예가 보고되고 있다⁸⁾.

본 증례는 폐에 발생한 다발성 종괴를 경피적 세침 흡인 생검에 의한 조직소견과 흉부 X-선 소견을 고려하여 염증성 가종양이라 진단하였고, 수술적 치료없이 스테로이드 요법만으로 완전히 관해되었으며, 6개월 이상의 추적 검사상 재발의 소견이 없었던 증례로 향후 정기적 검사를 통하여 계속 관찰할 예정이다.

요 약

저자들은 최근 폐에 발생한 다발성 결절을 전산화 단층 유도하 경피적 세침 생검으로 진단하고, 스테로이드 요법으로 완치된 염증성 가종양 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Bahadori M, Liebow AA: Plasma cell granulomas of the lung. *Cancer* 31:191, 1973
- 2) Strutynsky N, Balthazer EJ, Klein RM: Inflammatory pseudotumor of the lung. *Br J Radiol* 47:94, 1974
- 3) Golbert SV, Pletner SD: On pulmonary pseudotumors. *Neoplasma* 14:189, 1967
- 4) 류지윤, 우중수, 조광현 : 혈장세포 육아종 1예. 대한흉부외과학회지 20:821, 1987
- 5) Fisher ER, Beyer FD: Postinflammatory tumor of

the lung. *Dis chest* 36:43, 1959

- 6) Umiker WO, Iverson L: Postinflammatory tumors of the lung: Report of four cases stimulating xanthoma, fibroma, or plasma cell tumor. *J Thorac Sur* 28:55, 1954
- 7) Jun Soga, Kenkichi Saito, Nobuo Suzuki, Tetsuro Sakai: Plasma cell granuloma of the stomach, A report of a case and review of the literature. *Cancer* 25:618, 1970
- 8) Doski JJ, Priebe CJ, Driessnack JM, Smith T, Kane P, Romaro J: Corticosteroids in the management of unresected plasma cell granuloma (Inflammatory pseudotumor) of the lung. *J Ped Sur* 26:1064, 1991
- 9) 정덕용, 한병선, 장동철, 임승평, 홍장수, 이영 : 혈장세포 육아종 2예. 대한흉부외과학회지 18:487, 1985
- 10) Osamu M, Tanliu NS, Kenney RM, Mark EJ: Inflammatory pseudotumors of the lung. *Hum Pathol* 19:807, 1988
- 11) Thunnissen FBJM, Arends JW, Buchholtz RTF, Velde GT: Fine needle aspiration cytology of inflammatory pseudotumor of the lung (plasma cell granuloma). *Acta Cytol* 33:917, 1989
- 12) 광영태, 박주철, 유세영 : 혈장세포 육아종 1예. 대한흉부외과학회지 14:225, 1981
- 13) Leslie S, Geoffrey B, Glen T, James D, Graham F: Inflammatory pseudotumors in children. *J Ped Sur* 23:755, 1988
- 14) Imperato JP, Folkman J, Sagerman RH, Cassady JR: Treatment of plasma cell granuloma of the lung with radiation therapy. *Cancer* 57:2127, 1986