

## 호산구증가증을 동반한 혈관임파양 증식증

서울대학교병원 구강악안면외과

변영남 · 김종철 · 정필훈 · 윤영호

### RECURRED ANGIOLYMPHOID HYPERPLASIA WITH EOSINOPHILIA

Young-Nam Byun, Jong-Chul Kim, Pill-Hoon Choung, Young-Ho Yoon

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Seoul National University Hospital

*Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE) is a benign subcutaneous lesion that primarily affects head and neck region. It is characterized by single or multiple nodules in the subcutaneous tissue associated with eosinophilia in the peripheral blood.*

*Kimura's disease, originally reported by Kimura et al., is similar lesion with ALHE in the clinical and histopathological aspects. There has been considerable controversy about the relation between Kimura's disease and ALHE. In Korea, 26 cases of Kimura's disease and ALHE have been reported since 1975.*

*We present a case of recurred ALHE occurring on the left cheek in a 58-year-old woman. Including this case, we summarized all cases that were reported as Kimura's disease or ALHE in Korea through literature review. We also give an outline of clinical and histopathological characteristics of cases reported in Korea.*

*Key word : ALHE, Kimura's disease, eosinophilia*

#### I. 서 론

‘호산구증가증을 동반한 혈관임파양 증식증 (Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia : 이하 ALHE로 약칭하기로 한다.)’은 주로 두경부 영역에서 종창을 나타내는 드문 피하 양성 질환이다. 이 질환은 1969년 지속적인 피하 소결절이 나타나는 9명의 환자에 대해

보고한 Wells와 Whimster의 보고서에서 처음으로 기술되었다.<sup>1)</sup> 이후 여러 보고들에서 이 질환의 임상증상 및 조직학적 양상에 대한 연구가 이루어졌고, 이제는 그 실체가 어느 정도 밝혀져 이 질환에 당면한 외과의는 반드시 그 임상증상 및 치료방침에 대해 정확히 알고 있어야 하게 되었다.

ALHE는 근래까지 1948년 Kimura 등<sup>2)</sup>에

의해 보고된 'Kimura's disease'와 같은 질환으로 생각되었다. 그러나, 최근의 연구들은 양자를 임상적으로나 조직학적으로 다른 질환으로 제안하고 있다.<sup>4,5,13,17,18,27)</sup>

ALHE의 재발은 가끔 보고되고 있으나, 악성질환으로의 변환은 보고되지 않고 있다.

이에 저자는 본 대학병원에 내원한 58세 여자 환자의 좌측 협부에 재발된 ALHE에 대한 치험례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이고 한국에서 지금까지 보고한 모든 증례를 모아 통계처리하여 보고하는 바이다.

## II. 증 례

환자 : 이 ○ ○

주소 : 좌측 협부의 무통성 병소

본 증례의 환자는 58세의 여자 환자로 92년 8월부터 좌측 협부에 동통을 동반하지 않은 단단한 종괴가 촉지되어 개인 의원을 방문하였다가 의뢰되어, 92년 10월 본원 구강악안면외과를 내원하여 생검을 실시하였다. 생검 결과 염증성 증식으로 확인되었으나, 생검 실시후 환자가 내원하지 않아 치료가 진행되지 못했다. 이후 93년 6월 환자가 재내원하여 수술을 권유하였으나, 환자 사정으로 인해 수술이 이루어지지 못했다. 다시 94년 7월 환자가 내원하여, 명확한 진단은 이루어지지 않은 채 골수염, 기생충 감염, 양성종양 등을 의심하는 상태에서 94년 7월 13일에 배상형성술(杯狀形成術; saucerization) 및 반흔제거를 전신마취하에 시행하였다. 수술 당시 생검을 시행하여, ALHE로 판명되었다. 이후 환자를 추적관찰하여 95년 9월 11일 절개생검을 실시하였는데, 이때 결과는 '전형적이지는 않으나 ALHE에 부합' 되는 것으로 나왔다.

95년 12월 경부터 환자의 좌측 협부의 피부상에 적색반(reddish mucule)이 나타나기 시작하여 그 크기가 계속 커지는 양상을 보여 환자가 다시 내원하게 되었다. 96년 3월 2일 수술을 위해 입원했을 당시 적색반은 압시법(diascopy)에 반응하지 않았으며, 그 직경은 1.5cm 가량 되었고, 종괴의 크기는 3×4.0×4.5

cm 정도 되었다.

환자는 불안장애(anxiety disorder)로 과거 개인 정신과의원에서 2년간 약을 복용한 병력이 있으며, 94년과 96년 수술을 위해 본과에 입원했을 때, 수면장애 및 섬망(delirium) 증상을 보여 본원 정신과로 의뢰되어 Haloperidol, Clotiazepam, Lorazepam을 사용한 약물치료를 받았다.

환자는 정신과적 문제를 제외하고는 병력상 별다른 소견을 보이지 않았으며, 음주는 가끔씩 하나 흡연은 하지 않는다고 대답하였다. 가족 병력상에도 특이한 소견은 없었다.

### 1. 일반이학적 소견

96년에 입원했을 때, 술전 시행한 일반혈액검사상 감별혈구계산(differential blood count) 항목에서 호산구가 10% (WBC : 4,100)로 증가되어 있었고 그 외 혈액응고검사, 요검사, 일반화학검사, 혈청검사 등에서는 모두 정상소견을 보였다. 흉부방사선상에서는 특이소견이 없었고, 심전도 검사에서는 비특이성 T-파 이상(nonspecific T wave abnormality)을 보였으나 내과와 상의한 결과 수술 위험도가 그리 높지 않다고 판단되어 전신마취하에 수술을 시행하였다.

술후 시행한 일반혈액검사상에서는 호산구 증가증이 사라졌으며, 수술 직후에는 혈액소수치가 술중 및 술후 출혈로 인해 8.6g/dl 까지 떨어져 충전적혈구(packed RBC) 2 pints를 수혈하였다. 핵의학과 검사 중 혈중 Ig-E (PRIST) 수준은 608으로 정상수준보다 60배 가까이 높았다. 술전 시행한 bone scan상에서는 활동성 골 병소가 발견되지 않았다.

### 2. 방사선학적 소견

92년 10월 21일에 촬영한 파노라마 사진상에서는 좌측 하악골체 치조골 부위에 비교적 불명확한 경계를 가진 방사선투과성 병소가 관찰되고 종괴의 연장된 음영이 보여 악성종양을 의심했었다. 94년 7월 5일 수술전에 촬영한 파노라마 사진에서는 92년에 촬영한 사진과 비교해 볼 때, 병소가 전방으로 성장하여

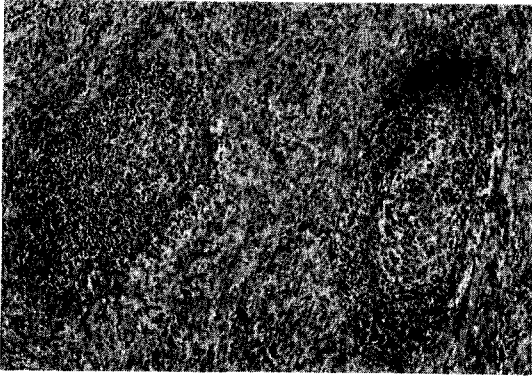


사진 1. 병소의 현미경 사진( $\times 40$ )으로 반응 중심(germinal center)의 형성을 보여 주고 있다.

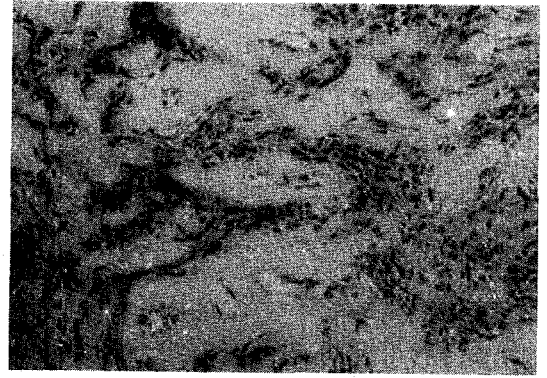


사진 2. 병소의 현미경 사진( $\times 100$ )으로 초자 양 변성을 나타내고 있다.

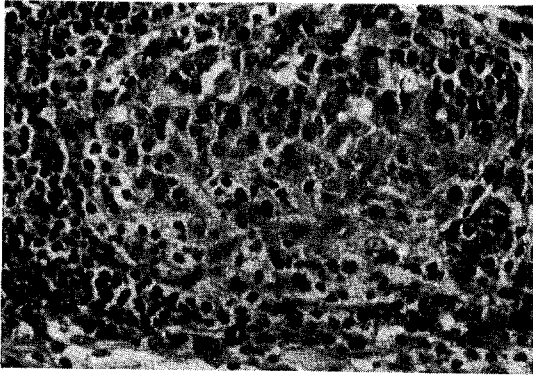


사진 3. 병소의 현미경 사진( $\times 400$ )으로 둥근 핵을 가진 유포피성 혹은 유조직구성 내피세포들의 다층 증식(proliferating plump epithelioid or histiocytoid endothelial cells with rounded nuclei)과 림프구와 형질세포의 혈관주변 침윤 양상(perivascular lymphocyte and plasma cell infiltration)등의 조직학적 소견을 보인다.

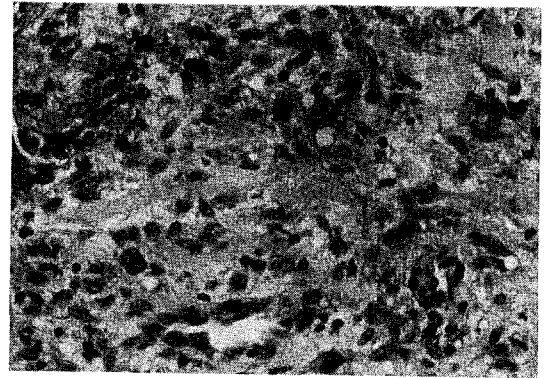


사진 4. 병소의 현미경 사진( $\times 400$ )으로 호산 성을 띠는 풍부한 세포질(abundant acidophilic cytoplasm), 세포질내 공포 (intracytoplasmic vacuole), 혈관의 무성한 증식(exuberant proliferation of blood vessels) 등의 조직학적 소견을 보인다.

#34 치아까지 진행되었으며 하방으로도 커져 이공(mental foramen) 가까이까지 이르고 있으나 경계는 비교적 명확했다. 또한 연조직 음영도 92년에 비해 크게 증가되었다. 94년 7월 18일 수술후에 촬영한 사진에서는 뚜렷한 병적 변화가 관찰되지 않았다. 95년 9월에 촬영한 사진상에는 보다 뚜렷해진 치조제가 관찰되었고, #34 치아의 원심부의 골 밀도가 증가된

소견을 보이며 수술 부위의 연조직이 두터워 보이는 양상이 나타났다.

96년 3월 4일 다시 수술을 위해 입원했을 당시 촬영한 파노라마 사진상에서는 95년과 비교했을 때 골조직의 변화는 관찰되지 않았으나, 협측 연조직의 크기는 커져 있는 양상을 보였다. CT상에서는 좌측 하악골에 인접하여 외측으로 균질한 연조직 종괴가 관찰되었다. 이 종괴는

광경근과 지방조직을 지나 피부까지 침투한 양상을 보였다. 종괴의 형태는 난원형이며 근육과 비슷한 밀도를 보였다. 경계는 불규칙하나, 주위 지방조직과는 대체로 구별이 용이했다.

Cornelius<sup>3)</sup> 등에 의하면 ALHE는 혈관조영촬영에서 경계가 잘 이루어진 혈관이 풍부한 종괴로 보이며, 대비-증강(contrast-enhancement)하여 촬영한 전산화단층촬영에서는 밝게 강화된 피하 종괴로 보인다고 한다. 본 증례에서는 혈관조영촬영은 하지 않았으나, 전산화단층촬영 소견은 문헌과 큰 차이가 나지 않는 것으로 생각된다.

### 3. 수술 및 술후 소견

수술은 구내 점막을 포함하여 종괴 전체를 절제하였으며, 절제된 조직중 주 종괴는 크기 4.0×3.7×3.2cm의 연조직 덩어리로 피부를 포함하고 있었으며, 표면은 갈색을 띠고 절단면은 연황색의 단단한 분엽성 구조를 보였다. 절제로 인해 생긴 결손부는 제 2형 이개유돌 피판(auriculomastoid flap Type II)을 이용하여 재건하였다.

종괴는 3×4.5cm 크기로 절제하였으며, 피판은 이개 후부에서 4×5cm 크기로 흉쇄 유돌근과 연결하여 준비하여, 미리 형성해 높은 피하 통로를 거쳐 결손부로 이동하였다. 이동된 피판을 주위 피부와 봉합하고, 이개 후부의 절개부는 양쪽을 전진시켜 2-0 nylon과 staple을 사용하여 직접적으로 봉합하였다.

술후 피판의 색조는 원위부가 다소 푸른 빛을 띠었으나, 수술부위에 압박을 가하지 않고 술후 1일째부터 고압산소요법을 시행하고 하루 3차례의 창상소독을 시행한 결과, 술후 7일째부터는 완전히 정상적인 색조를 되찾았다. 그후 술후 11일째에 부분적으로 발사(stitch-out)하고, 술후 12일만에 퇴원시켜 외래에서 계속관리하였다.

### 4. 조직병리학적 소견

본 증례의 병소는 진피에서 피하조직에 걸쳐 있었으며, 생검은 6차례 실시되었다. 92년 10월

21일 환자가 처음 내원하였을 때 실시한 생검은 염증성 증식으로 판독되었다. 환자가 재내원하여, 94년 7월 13일 수술 당시 떼어낸 조직의 병리검사 결과는 ALHE로 나왔으며, 이후 94년 8월 9일 외래에서 국소마취하에 소수술을 실시하였을 때는 '이물반응이 동반된 육아조직'으로 판독되었다.

95년 9월 11일 실시한 생검에서는 ALHE에 부합되는 소견을 보였으며, 96년에 입원하여 수술전에 실시한 생검과 수술중 제거한 조직의 병리검사 결과는 ALHE로 판독되었다.

판독 결과가 항상 동일하지 못했던 이유는 이 증례의 병리조직학적 소견이 특징적이지 못했기 때문인 것으로 사료되나, 반응 중심(germinal center)의 형성, 초자양 변성, 유조직 구성 또는 유표피성 내피세포와 혈관의 증식 및 혈관 주위로 림프구와 형질세포가 침윤되는 양상 등은 관찰할 수 있었다.

## III. 총괄 및 고안

ALHE는 원인이 불명확한 드문 양성질환이다. 이 질환은 진피 및 피하조직과 인접 림프절에 단독 또는 다수의 혈관종성 구진 또는 소결절 형태로 나타나며, 크기는 다양하지만 평균 직경 1cm정도 된다.<sup>4)</sup> 많은 유사한 증례들이 inflammatory angiomatous nodule, pseudopyogenic granuloma, atypical pyogenic granuloma, papular angioplasty, subcutaneous angioblastic lymphoid hyperplasia with eosinophilia, nodular angioblastic hyperplasia with eosinophilia and folliculosis, intravenous atypical vascular proliferation, histiocytoid hemangioma, epithelioid hemangioma 등의 다양한 명칭으로 보고되어 왔다.<sup>5)</sup> 호발하는 영역은 주로 두경부<sup>6)</sup>이며, 특히 외이와 외이도 주변에 많이 발생하는 경향을 보인다.<sup>7,8)</sup> 그러나, 안와, 누선, 구강 점막,<sup>9)</sup> 혀,<sup>10)</sup> 팔, 음경<sup>10)</sup>, 서혜부<sup>11)</sup> 등에 발생한 사례도 보고된 적이 있다. ALHE는 30대에서 50대의 여성에서 호발하는 것으로 알려져 있으며,<sup>11)</sup> 서양인에서 많이 발견된다. 대부분이 본 증례와 같이 무증상을 보이나,

때때로 소양감을 나타내거나 조그만 자극에 출혈을 보이는 경우도 있다고 한다.<sup>12)</sup>

ALHE는 초기에는 기무라씨 병(Kimura's disease)과 동일한 병변으로 생각되었었다. 그러나, 최근의 임상병리학적 연구들은 양자가 별개의 임상적, 조직학적 양상을 띠는 분리된 병변이라고 제안하고 있다. 양자를 구별할 수 있는 기준을 표로 정리하면 다음과 같다.

지금까지 국내에서는 1975년 김 등<sup>31)</sup>에 의해 최초로 보고된 이후로, ALHE와 기무라씨 병에 대해 26례의 증례보고가 있다. 이들의 임상적 소견을 정리한 표를 표 1에 제시하였으며, 연령분포(표 3), 부위별 분포(표 4) 조직병리학적 소견 분류(표 5)을 정리하였다.

본 증례를 포함하여 지금까지 국내에서 보고된 증례를 보고자가 밝힌 진단명에 따라 분류하면, 각각 기무라씨 병 7례, ALHE 5례, 기무라씨 병과 ALHE를 동일한 질환으로 취급한 경우가 14례, 기무라씨 병 유사증례가 1례이다. 얼마 전까지도 ALHE와 기무라씨 병을 동일 질환으로 생각했었으며, 사실상 명백한 진단 기준은 아직도 마련되어 있지 않은 상태이므로, 국내에서 보고된 증례들의 정확한 진단명은 확인할 수 없었다. 그러나, 이 등<sup>40)</sup>(1990)의 보고 이후의 증례는 나름대로의 진단 기준(표 2)으로 진단명을 정했으므로, 신뢰할 수 있을 것으로 사료된다.

국내에서 보고된 증례들에서, 성비(性比)는 22:5(남:22, 여:5)였고, 병소가 발현된 연령군은 10대에서 30대에 걸친 연령군이 70.4%로 대부분을 차지했으며, 두경부에 81.5%가 발생하였다.(표 3)

병소는 5:4의 비율로 다발성 병소가 단발성 병소보다 많았으며, 2cm 이상의 병소가 70.4%를 차지했고, 평균 유병 기간은 42.7개월(3.6년)이었다. 총 27례 중 16례에서 재발되어, 재발율은 59.3%로 비교적 높게 나타났다.

ALHE는 병리조직학적으로 피하와 진피에 모두 발생할 수 있고, 혈관증식과 염증세포 침윤을 특징으로 한다. 1985년 Olsen 등<sup>6)</sup>에 의해 보고된 서구의 증례에서는 피하형이 54%, 진피형이 25%, 진피-피하형이 21%로 나타

났고, AV shunt가 42%, 유표피성 내피세포의 증식이 29%, 혈전 형성이 20%의 증례에서 보였다. 국내 보고예의 경우(표 5)에는 피하형이 33.3%, 진피형은 25.9%, 진피-피하형이 40.8%로 진피-피하형이 약간 높게 나타났으며, AV shunt나 혈전 형성에 대한 보고는 없었고, 유표피성 내피세포의 증식(85.2%)과 염증세포의 미만성 침윤(100%)는 매우 높은 비율로 보고되었다.

ALHE의 발생 원인은 명확하게 밝혀져 있지 않은 상태이다. 하지만 여러 연구들이 ALHE의 병인에 대해 언급하고 있다.

Katoh 등은 ALHE에서 증식한 혈관에는 혈관주위세포(pericyte)가 결여되어 있는 경우가 많아, 이것이 혈관신생에 중요한 역할을 하는 것으로 보인다고 보고했다.<sup>14)</sup> Moy 등은 ALHE가 estrogen과 progesterone 수용체의 존재 하에 성호르몬에 반응하여 발생하는 종양이라고 제안했다. 그들은 이의 근거로 임신 중이거나 경구 피임약을 복용하는 환자들에서, 임신기간이 끝나거나 피임약 복용을 중단했을 때 병소가 없어진 예를 들고 있다.<sup>15)</sup> Sundaresan 등은 병소내 IgE 수준은 ALHE와 기무라씨 병에서 뿐만 아니라, 결핵, AIDS와 관련된 림프절종대, 호치킨씨 병 등에서 모두 높게 나타났기 때문에 이 두 질환에 특이적인 소견은 아닌 것으로 보고했다.<sup>16)</sup>

Googe 등<sup>17)</sup>과 Urabe 등<sup>18)</sup>은 ALHE는 진성의 혈관유래 종양일 가능성이 높고, 기무라씨 병은 전신적 면역반응의 국소적 표현일 가능성을 제시하고 있다. Hallam 등<sup>19)</sup>과 Akosa 등<sup>20)</sup>은 이런 견해에 동의하지 않고 ALHE는 다양한 자극에 대한 국소적 아토피(atopy)성 반응이라고 주장했다. 이렇게 여러 보고들이 있으나, 아직까지 ALHE의 병인은 정확히 밝혀지지 않은 상태이다.

ALHE는 둥근 핵을 가진 유표피성 혹은 유조직구성 내피세포들의 다층 증식(proliferating plump epitheloid or histiocytoid endothelial cells with rounded nuclei), 호산성을 띠는 풍부한 세포질(abundant acidophilic cytoplasm), 세포질내 공포(intracytoplasmic va-

표 1. ALHE의 보고자와 그들 환자의 임상병리 소견

중재번호	보고자	연도	성별/연령	병소 부위	크기	갯수	유병기간(mo)	소양감	압통	림프절 병변	호산구중 기증(%)	재발 유무	진단명	치료
1	김명렬 등	1975	M/26	cheek, Lt	>2	S	10	-	-	-	+ (27)	+	Kimura's Ds.	RT
2	배원길 등	1977	M/12	mandibular, Lt	>2	S	96	-	+	-	+ (23)	+	Kimura's Ds.	SE
3	배원길 등	1977	M/26	cheek, Lt	>2	S	5	+	-	-	+ (27)	+	Kimura's Ds. SE, RT, ST	
4	배원길 등	1977	F/30	parotid, Rt	>2	S	4	-	+	-	+ (6)	+	Kimura's Ds. 와 유사증례	SE
5	곽동환 등	1979	M/18	cervical, Rt	>2	M	10	-	+	-	-	+	Kimura's Ds. ALHE	SE, RT, ST
6	허용철 등	1981	M/43	preauricular, Lt	>2	M	228	+	-	-	+ (12)	+	unclassified*	SE
7	임계석	1982	M/46	submandibular, Both	>2	M	6	-	-	-	+ (13)	-	unclassified*	SE
8	송규상 등	1983	F/28	elbow, Rt	>2	M	5	-	-	-	+ (43)	+	unclassified*	SE
9	송규상 등	1983	M/39	inguinal, Lt	>2	S	96	-	-	+	+ (30)	-	unclassified*	SE
10	안공환 등	1984	M/13	infraauricular, Rt	>2	S	24	-	-	+	+ (54)	+	unclassified*	SE
11	안공환 등	1984	M/57	submandibular, Rt	>2	S	48	-	-	+	+ (15)	+	unclassified*	SE
12	안공환 등	1984	M/16	cheek, Both	>2	M	36	-	-	+	+ (8)	+	unclassified*	SE
13	안공환 등	1984	M/13	eyelid, postauricular, Both. mandibular, Lt et al.	>2	M	120	-	+	+	+ (66)	-	unclassified*	ST
14	안공환 등	1984	M/43	mandibular	>2	S	NC	-	-	+	NC	-	unclassified*	SE
15	안공환 등	1984	M/36	Rt. Mandibular, chin, neck, plam, sole, forearm et al.	>2	M	36	+	-	-	+ (12)	+	unclassified*	ST
16	안공환 등	1984	F/23	forearm, lower extremity, cervical area	>2	M	24	+	-	+	+ (24)	-	unclassified*	SE
17	최성우 등	1985	M/29	forehead, Lt	>2	M	120	+	-	-	+ (9)	+	unclassified*	RT, ED
18	목혜수 등	1985	M/17	auricle, Rt	>2	S	36	-	+	-	+ (19)	-	unclassified*	SE
19	곽은희 등	1988	F/38	auricle, Rt	>2	M	7	+	-	-	-	-	unclassified*	ST, ED
20	조규중 등	1989	M/32	postauricular, Rt	>2	M	48	+	+	-	+	+	unclassified*	SE, ST
21	이호관 등	1990	M/44	penile shaft	<2	S	36	-	-	+	+ (33.3)	-	Kimura's Ds.	ST
22	전수일 등	1992	M/19	inguinal, Both	>2	M	14	-	-	-	+ (39.2)	-	Kimura's Ds.	RT, ST
23	전수일 등	1992	M/35	postauricular, Rt	>2	S	10	+	-	-	+ (13.3)	-	Kimura's Ds.	ST
24	전수일 등	1992	M/41	frontal, Lt. postauricle, Lt.	<2	M	30	+	+	-	+ (19.3)	+	ALHE	SE, ST
25	전수일 등	1992	M/57	preauricle, Rt	<2	M	22	+	+	-	+ (64)	+	ALHE	CT, SE
26	전수일 등	1992	M/34	auricle, Rt	<2	M	3	+	-	-	-	-	ALHE	CT
27	본 증례	1996	F/58	cheek, Lt	>2	S	43	-	-	-	+ (10)	+	ALHE	SE

(S : solitary, M : multiple, SE : surgical excision, ST : steroid therapy, RT : radiation therapy, CT : cryotherapy, ED : electrodesiccation, NC : not check, unclassified\* : ALHE와 Kimura's Ds.를 동일한 병변으로 생각한 경우.)

표 2. ALHE와 기무라씨 병의 비교

ALHE	Present Case	Kimura's disease
중년의 여성에서 호발	○	젊은 남성에서 호발
림프절 병발이 드뭄	○	림프절 병발이 흔함
혈청 IgE수준이 정상		○ 혈청 IgE수준이 상승
호산구증가가증이 약하거나 중등도로 나타남.	○	특징적인 호산구증가증 보임
조직병리학적 소견 유표피성 내피세포의 다층증식	○	조직병리학적 소견 단층으로 구성된 high endothelial venule이 나타남.
보다 다양한 세포침윤 양상	○	림프소포의 형성과 림프구 침윤의 지배적 소견
섬유화진행이 드뭄	○	섬유화가 일찍 나타남
구진 또는 소결절 형태		○ 큰 결절 또는 종창 형태
피부가 홍반을 나타내거나 갈색을 띤.	○	병소의 피부면은 정상.
병소의 위치가 얇음.	○	병소의 위치가 깊음.

(Driesch et al.<sup>13)</sup>과 Chun SI. et al<sup>5)</sup>에서 재인용하여 편집하였음.)

표 3. 병소가 발현된 연령군

연령군	증례수	백분율
0~9	2	7.4
10~19	6	22.2
20~29	7	25.9
30~39	6	22.2
40~49	2	7.4
50~59	3	11.2
미상	1	3.7

표 4. 병소의 부위별 분류

Face and scalp	21
Neck	1(1)
Trunk	0
Extremities(upper and lower)	2(1)
Miscellaneous	3
Total	27

( ) : combined case.

표 5. 병소의 조직병리학적 소견에 따른 분류

	Dermal (n=7)	Subcutaneous (n=9)	Dermal & Subcu. (n=11)
Vascular proliferation	6	6	9
Endothelial cell proliferation	7	7	9
Diffuse inflammatory cell infiltration	7	9	11
Tissue eosinophilia	5	9	9
Lymphoid follicle	0	9	9

cuole),<sup>13)</sup> 혈관의 무성한 증식(exuberant proliferation of blood vessels), 림프구와 형질세포의 혈관주변 침윤 양상(perivascular lymphocyte and plasma cell infiltration), germinal center의 형성<sup>26)</sup> 등의 특징적인 조직학적 소견을 보인다.

ALHE는 양성이며, 때로는 자발적으로 사라지기도 한다.<sup>21)</sup> 그러나 대부분은 천천히 성장하는 종양으로 지속적으로 존재한다. 이 질환에서 악성으로의 변환은 보고된 적 없다.<sup>21,22)</sup> ALHE는 생검 전에 진단하기가 어려우며, 흔히 악성종양으로 오인될 수 있다. ALHE와 혼란을 일으킬 수 있는 질환에는 카포시육종(Kaposi's sarcoma), 악성 림프종(malignant lymphoma), 혈관육종(angiosarcoma), 화농성 육아종(pyogenic granuloma), 혈관종(hemangioma), 피부섬유종(dermatofibroma), 미쿨리쯔 병(Mikulicz's disease), 모반(nevus), 각화증(keratosis), 곤충 자상(insect bite), 악성 혈관내피종(malignant angioendothelioma), 사구종양(絲球腫瘍; glomus tumor) 등이 있다.<sup>3,21)</sup>

ALHE의 치료방법에는 외과적 절제, 스테로이드(steroid) 치료, 한랭수술(cryosurgery), 전기건조법(electrodessication), 방사선요법, 레이저(Laser)치료, 소파술(curettage) 등이 있다.<sup>23)</sup> 가장 적절한(optimal) 치료법으로 결론난 것은 아직 없으나, 대다수의 증례는 외과적 절제로 치료되고 있다.

레이저치료<sup>24)</sup>는 작은 병소는 증발(vaporization)시키고, 비교적 큰 병소는 절제하는 것으로 이루어져 있는데, 출혈량이 적고 조직손상이

작다는 면에서 근래에 각광받고 있지만, 예후는 아직까지 불확실한 것으로 보인다. 스테로이드 치료는 국소적 적용시에는 효과가 없고,<sup>22)</sup> 전신적 사용시 일시적인 효과만을 보이는 것으로 알려져 있다.

전기건조법과 소파술로 치료한 증례에서는 종종 급속한 재발이 관찰된다.<sup>23)</sup> 방사선요법은 탁월한 효과를 나타내기는 하지만 발암작용 등의 심각한 부작용이 초래될 수 있으므로, 특히 젊은 환자에게는 추천되지 않는다. ALHE가 중추 및 말초혈관장애 개선제인 pentoxifylline으로 치료되었다는 보고도 있다.<sup>25)</sup> 이 저자는 pentoxifylline의 항혈소판 작용 및 항염작용이 ALHE의 진행을 억제한 것으로 설명하고 있다.

ALHE를 외과적으로 절제할 때는 좁은 변연을 두고 단순히 병소만을 떼어내는데, 외과적 절제 후에 가장 재발율이 낮은 것으로 알려져 있다.<sup>23)</sup> 결론적으로 현재까지는 외과적 절제가 최선의 선택(the choice of treatment)으로 여겨지고 있다고 볼 수 있다.

#### IV. 결 론

ALHE는 임상외과가 생검을 하지 않은 상태에서 직면했을 때, 악성 종양과 혼돈할 수 있는 질환이다. 이로 인하여 불필요한 처치 및 검사를 하게 될 경우가 생길 수 있고, 때에 따라서는 환자에게 과도한 치료계획을 세울 가능성이 있으므로 임상외과는 반드시 그 임상증상 및 치료방법에 대해 정확히 알고 있어야 하겠다.

본 증례는 첫 수술시 임상진단이 정확히 내



러지지 않은 상태에서 피하 병소와 병합된 골 병소를 같이 제거하였으나, 재발이 일어나 다시 외과적 절제를 시행한 예이다. 이후 환자를 계속 추적관찰하여 예후를 지켜 보아야 할 것이나, 현재로서는 좋은 예후를 기대할 수 있을 것으로 사료된다.

### 참 고 문 헌

1. Wells, G. C., Whimster, I. W. ; Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *British Journal of Dermatology*. 81 : 1-15, 1969.
2. Kimura, T., Yoshima, S., Ishkawa, E. ; Abnormal granulation combined with hyperplastic change of lymphoid tissue. *Transactions of the Japanese Pathological Society*. 37 : 179-180, 1948.
3. Cornelius, R. S., Biddinger, P. W., Gluckman, J. L. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the head and neck. *American Journal of Neuroradiology*. 16(4 Suppl) : 916-8, 1995 Apr.
4. Kung, I. T., Gibson, J. B., Bannatyne, P. M. ; Kimura's disease : A clinicopathological study of 21 cases and its distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Pathology*, 16 : 39-4, 1984.
5. Chun SI., Ji HG., Department of Dermatology, Yonsei University College of Medicine, Seoul Korea. ; Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia : clinical and histopathologic differences. *Journal of the American Academy of Dermatology*. 27(6 Pt 1) : 95408, 1992 Dec.
6. Olsen, T. G., Helwig, E.B. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. : A clinicopathological study of 116 patient. *Journal of the American Academy of Dermatology*. 12 : 781-796, 1985.
7. Vallis, R. C., Davies, D. G. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of head and neck. *Journal of Laryngology & Otology*. 102 : 100-101, 1988.
8. Sharp, J. F., Rodgers, M. J. C., MacGregor, F. B., Meeham, C. T., Mcharen, K. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Journal of Laryngology & Otology*. 104 : 977-979, 1990.
9. Misselevich, I., Podoshin, L., Fradis, M., Boss, J. H. ; Angiolymphomatoid hyperplasia with eosinophilia of the oral mucous membrane. *Ear, Nose & Throat Journal*. 74(2) : 122-5, 1995 Feb.
10. de Vicente Rodriguez JC., Santos Oller JM., Junquera Gutierrez LM., Lopez Arranz JS., ; Atypical histiocytic granuloma of the tongue : case report. *British Journal of Oral & Maxillofacial Surgery*. 29(5) : 350-2, 1991 Oct.
11. Razquin, S., Mayayo, E., Citores, MA., Al-eosinophilia of the tongue : report of case and review of the literature. [Review] *Human Pathology*. 22(8) : 837-9, 1991 Aug.
12. 하웅철, 양영환, 박해승, 김종하 ; 두경부에 발생한 Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia(Kimura's disease)의 치험례. *대한구강악안면외과학회지*. Vol.7 : 119-126, 1981.
13. von den Driesch, P., Gruschwitz, M., Schell, H., Sterry, W. ; Distribution of adhesion molecules, IgE, and CD23 in a case of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. [Review] *Journal of the American Academy of Dermatology*. 26(5 Pt 2) : 799-804, 1992 May.
14. Katoh, N., Hirano, S., Kishimoto, S., Yasuno, H., ; Microcirculatory segments identified with monoclonal antibody against alpha-smooth muscle actin : comparison between Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Acta*

- Dermato-Venereologica. 75(1) : 15-8, 1995 Jan.
15. Moy, R. L., Luftman, D. B., Nguyen, Q. H., Amenta, J. S. ; Estrogen receptors and the response to sex hormones in angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Archives of Dermatology. 128(6) : 825-8, 1992 Jun.
  16. Sundaresan, M., Rhodes, T., Akosa, AB. ; Immunoglobulin heavy chain patterns in reactive lymphadenopathy. Journal of Clinical Pathology. 44(9) : 753-5, 1991 Sep.
  17. Googe, P. B., Harris, N. L., Mihm, M. C. ; Kimura's disease and Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. : Two distinct histopathological entities. Journal of Cutaneous Pathology, 14 : 263-271, 1987.
  18. Urabe, A., Tsuneyoshi, M., Enjoji, M. ; Epithelioid haemangioma versus Kimura's disease, a comparative clinicopathological study. American Journal of Surgical Pathology, 11(10) : 758-766, 1987.
  19. Hallam, L. A., Mckinley, G. A., Wright, A. M. A. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia : possible etiological role for immunization. Journal of Clinical Pathology, 42 : 944-949, 1989.
  20. Akosa, A. B., Ali, M. H., Khoo, C. T. K., Evans, D. M. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia associated with tetanus toxoid vaccination. Histopathology, 16 : 589-593, 1990.
  21. Ingrams, D. R., Stafford, N. D., Creagh T. M. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Journal of Laryngology & Otolology. 109(3) : 262-4, 1995 Mar.
  22. Bunse, T., Kuhn, A., Groth, W., Mahrle, G. ; [Therapeutic problem. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia]. [German] : Hautarzt. 44(4) : 225-8, 1993 Apr.
  23. Cheney, M. L., Googe, P., Bhatt, S., Hibberd, P. L. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (histiocytoid hemangioma) : evaluation of treatment options. Annals of Otolaryngology & Rhinology. 102(4 Pt 1) : 303-8, 1993 Apr.
  24. Metze, D., Neumann, R., Chott, A. ; [Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Histologic study and successful therapy with the argon laser]. [German] Hautarzt. 42(2) : 101-6, 1991 Feb.
  25. Person, J. R. ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia may respond to pentoxifylline. Journal of the American Academy of Dermatology. 31(1) : 117-8, 1994 Jul.
  26. 임재석 ; 호산구증가증을 수반하는 Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (Kimura's disease)의 치험례. 대한구강외과학회지. Vol.8 No.2 : 37-39, 1982.
  27. Rosai, J., Gold, J., Landry, R. ; The histiocytoid hemangiomas. Human Pathology, 10 : 707-730, 1979.
  28. Sandbank, J., Zelikovski, A., Haddad, M., Sternberg E ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (epithelioid hemangioma). Journal of Cardiovascular Surgery. 32(3) : 370-2, 1991 May-Jun.
  29. Regezi, J. A., Sciubba, J. ; Oral Pathology. W. A. Saunders Co., 2nd Ed., p.305-6, 1993.
  30. Shafer, W. G., Hine, M. K., Levy, B. M. ; A Textbook of Oral Pathology. W. A. Saunders Co., 4th Ed., p.32, 1983.
  31. 김명렬, 이유신, 강형재 ; Kimura씨 병의 1례. 대한피부과학회지. Vol. 13 : 243-246, 1975.
  32. 배원길, 배수동, 허영수 ; Kimura씨 병. 高醫. Vol. 1 : 109-114, 1977.
  33. 광동환, 오수명, 주홍재, 양문호 ; Kimura씨 병 증례. 경희의대논문집. Vol.4 : 41-44, 1979.
  34. 송규상, 안대영 ; 호산구 증다증을 동반한 혈관임과양 증식증. 대한병리학회지. Vol.

- 17(3) : 315-319, 1983.
35. 안금환, 이정빈, 이현순, 지제근, 함의근, 안효섭, 이창효, 임창윤 ; 기무라병의 병리학적 연구. 서울의대학술지. Vol.25(4) : 501-510, 1984.
  36. 최성우, 김태윤, 김형욱, 김정옥 ; Kimura병 1례. 대한피부과학회지. Vol.23 : 248-250, 1985.
  37. 목혜수, 권경술, 정태안 ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia 1례. 대한피부과학회지. Vol.23 : 526-529, 1985.
  38. 곽은희, 이정용, 서재일 ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia 1례. 대한피부과학회지. Vol.26 : 125-129, 1988.
  39. 조규종, 이병진, 최도영 ; Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia 1례. 대한피부과학회지. Vol.27 : 53-58, 1989.
  40. Lee HG., Kim BS., Lee AY., Department of Dermatology, College of Medicine, SNU, Seoul, Korea. ; A case of Kimura's disease with an unusual location and clinical manifestation. Annals of Dermatology. 2 : 145-8, 1990.
  41. Kim BH., Sithian N., Cucolo GF., ; Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia(Kimura disease) : report of a case. Archives of Surgery. 110 : 1246-8, 1975.