견갑부에 발생한 양측성 배부 탄성섬유종 - 증례 보고 -

서울보훈병원 정형외과

이우승 · 김택선 · 김영배* · 강종우

Bilateral Elastofibroma Dorsi of the Shoulder - Case Report -

Woo-Seung Lee, M.D., Taik-Seon Kim, M.D., Young-Bae Kim, M.D.*, Jong-Woo Kang, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Seoul Veterans Hospital, Seoul, Korea

We report a case of an 86-year-old man diagnosed with bilateral elastofibroma dorsi who was managed conservatively after a two year follow-up. An elastofibroma dorsi is a benign, slow-growing tumor that is most often located in the inferior periscapular area in elderly patients. It should be considered to differentiate them from other soft tissue tumors located at the inferior periscapular region. Increased awareness of these characteristics will decrease the incidence of a misdiagnosis of elastofibroma dorsi as a malignancy and avoid unnecessary surgery.

Key Words: Shoulder, Bilateral, Elastofibroma dorsi

배부 탄성섬유종(Elastofibroma dorsi)은 주로 고령의 환자에서 견갑골 하각의 주변부에 발생하며 천천히 자라는 양성 종양이다^{2,7)}. 발생 빈도에 대한 보고는 다양하지만, 전산화 단층 촬영을이용한 연구에서 약 2%, 그리고 부검 연구에서는 13%에서 17%까지 높이 보고 되고 있다^{1,7)}. 이에 대한 수술적 치료가 필요한 경우는 극히 제한적이나, 이 종양에 대한 인식의 부족과 고령의 환자 및 일반인들의 종양에 대한 두려움으로 불필요한

수술적 치료가 시행되기도 한다^{2.8)}. 그러므로 고령 의 환자에서 견갑골 하각의 주변부에 발생한 연부 조직 종양을 치료할 때에는 반드시 배부 탄성섬유 종을 감별 진단하여야 한다.

저자들은 타 부위 종양 치료 과거력이 있는 86 세의 고령 남자 환자에서 견갑부에 양측성으로 발 생한 배부 탄성섬유종을 경험하고 이를 문헌 고찰 과 함께 보고하는 바이다.

※통신저자: 김 영 배*

서울시 강동구 둔촌동 6-2, 서울보훈병원 정형외과

Tel: 02) 2225-1352, Fax: 02) 487-0754, E-Mail: drortho@korea.com

증 례

86세 남자 환자가 2개월 전 우연히 발견한 양측 건갑부의 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 내원 7년 전 후두암을 진단 받고 수술적 치료를 시행 받았으며, 내원 1년 전 위암을 진단 받아 내시경적 점막 절제술 및 점막하 종양 제거술을 시행 받은 병력이 있었다. 종양에 대한 특이한 가족력은 없었으며, 당뇨나 고혈압 등의 전신 질환은 없었고, 체중 65 kg, 신장 162 cm의 정상적인체구에 최근 체중 변화나 전신적인 증상은 없었다고 하였다.

병력 청취상 통증은 호소하지 않았고, 종괴의 크기는 서서히 커진다고 하였으나 정확한 크기의 변화는 기억하지 못하였다. 이학적 검사상 양측 견갑골 하각 직하방에 둥근 모양의 종괴가 관찰되었고, 크기는 좌측 7×5 cm, 우측 8×5 cm 이었다. 촉지상 종괴는 부드러웠고 가동성이 있었으며 압통은 없었다(Fig. 1). 견관절부 관절운동범위는 정상이었으며, 견관절의 움직임에 따라 중립위에서 종괴가 견갑골 하부로 소실되고 외전 시에는 나타나는 양상을 보였다.

단순 방사선 검사에서는 특이 소견이 관찰되지 않았으나, 초음파 영상 검사(HDI5000, Philips (r), Netherland)에서 양측 견갑골 하부 근육층 사이에 양측에 각각 $7 \times 2 \times 5$ cm 크기의 주변 조직과 불분명한 경계를 이루는 비균질성 음영 (heterogeous echogenecity)의 종괴가 관찰되



Fig.1. The photograph shows the soft tissue masses near the inferior angle of both scapula.

었고, 그 내부에는 불규칙한 저 음영 병소가 관찰되었다(Fig. 2). 양측 종괴들은 자기공명영상 검사(1.5 T, GE Healthcare (r), WI, USA)에서 각각 견갑골 하부의 전거근 및 광배근 사이에위치하였으며, 7×3 cm 크기로, 주변 조직과 경계가 불분명한 불규칙한 형태이었고, 내부는 T1및 T2 강조 영상 모두에서 중간 신호 강도를 나타내면서 조영제 증강 영상에서 증강되는 소견을보였다(Fig. 3A,B,C).

확진을 위하여 초음파를 이용한 침 생검(Needle Biopsy)을 시행하였다. 18G needle을 사용하여 검체를 얻지 못하여, 2차 시도에서는 14G needle을 사용하였다. 병리 소견상 Hematoxillin-Eosin 염색에서 세포는 거의 보이지 않았고, 풍부한 교원질(Collagen)과 지방 사이로 구슬 형태의 탄성섬유들이 혼재되어 있었으며, 변연부는 불규칙하였다(Fig. 4). 또한 Verhoeffs Elastin 염색에서 양성반응을 보여, 구슬 형태의 탄성섬유들이 염주모양의 배열을 보였다(Fig. 5).

양측성 배부 탄성섬유종으로 진단한 후 환자에게 보존적 치료를 시행할 것을 설명하였다. 현재 2년째 경과 관찰 중이며 종괴가 커지거나, 압통이 발생하는 등의 악성화 소견은 보이지 않고 있다.

고 찰

탄성섬유종은 교원질(Collagen) 및 지방 결체 조직의 기질에 탄성섬유의 증식을 특징으로 하고

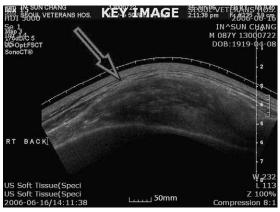
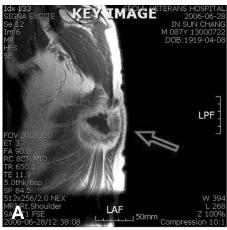
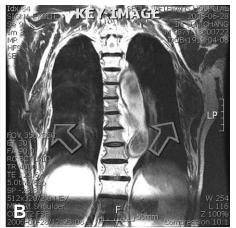


Fig. 2. The ultrasound scan shows the layered structure of elastofibroma dorsi.





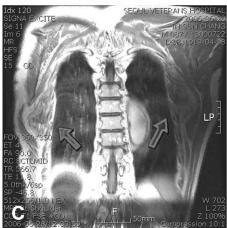


Fig. 3. A T1-weighted sagittal image, (B) T2-weighted coronal image, and (C) Coronal image with enhancement; The mass on the posterolateral aspect of the shoulder near the inferior angle of both the shoulder. On T1-weighted and T2-weighted sequences, the mass produced intermediate signal intensity nearly identical to that of the muscle. Post-gadolinium enhancement was observed.

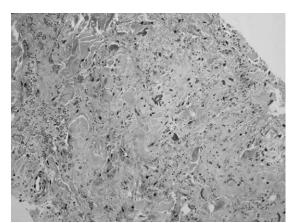


Fig. 4. Histologic feature of elastofibroma dorsi on Hematoxilin-Eosin staining; a hypocelluar nodule with irregular borders consisting of eosinophilic collagen fibers arranged in a rudimentary connective meshwork interlaced with globules of fatty tissue. ($\times 200$)

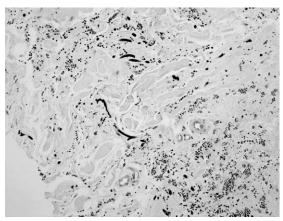


Fig. 5. Histologic feature of elastofibroma dorsi on Verhoeff's Elastin staining; Elastic fibers like fragmented globules arranged in a linear pattern or rosary bead-like pattern.($\times 200$)

피막을 형성하지 않는(non-encapsulated) 종괴 로, 1961년 Jarvi와 Saxen⁷⁾에 의해 처음 보고 되었다. 주로 배부의 견갑골의 하각부에 인접하여 내측으로 흉곽부 및 전거근, 외측으로 능형근 및 광배근의 사이에서 결체조직에 전형적으로 발생하 여 배부 탄성섬유종(Elastofibroma dorsi)이라 고 부르기도 한다. 주로 노인 그리고 여성 환자들 에서 많이 발생하며, 발생 빈도는 부검 연구에서 13%에서 17%^{1.7)}까지 보고되기도 하며, 양측성 탄성섬유종의 경우도 많아서100, 국내에서 발표된 정형외과 영역의 논문들^{6,8)}에서 5예 중 2예가 양 측성이었다. 이와 같이 높은 탄성섬유종의 발생 빈도에도 불구하고 많은 발표가 없는 것은 이에 대 한 인식의 부족이나, 이학적 검사의 어려움, 노년 에서 발생하는 종양의 특성으로 기타 악성종양과 의 감별 진단의 어려움 등에 기인하는 것으로 사료 된다. 또한 이학적 검사상 견갑골 하각의 인접부에 촉지되는 종괴 외에는 특별한 임상증상을 나타내 지는 않으며, 해부학적 특징상 종괴가 견관절 거상 혹은 외전시 현저해지지만 팔을 내린 중립위에서 견갑골 아래로 사라지는 양상을 보여. 종괴의 크기 가 작고 증상이 없으면 발견이 어려워 실제 빈도보 다 낮게 보고되는 것으로 사료된다8. 또한 본 증례 에서처럼 고령의 환자가 활동성이 떨어지며 주위 근육이 위축되면 이전부터 근육 하에 존재하던 종 괴가 잘 촉지되어 발견되는 경우도 있다.

단순 방사선 촬영에서는 종괴로 인하여 견갑골 하각 하부에 연부조직의 음영과 이로 인한하각의 거상 외에는 일반적으로 특이한 소견이 없다. 초 음파 검사에서는 주변과 경계가 불분명한 종괴 내 부에 고음영 및 저음영의 선들이 주위의 근육 및 흉곽과 평행하게 교대로 진행하는 섬유성 배열을 보인다3). 자기공명 영상검사는 배부 탄성섬유종의 진단에 중요한 요소이며, 강8등은 연령, 발생 위 치. 방사선학적 소견만으로도 술 전 진단이 가능하 다고 하였다. 종괴의 변연부는 불분명할 수 있고, 내부는 비균질성으로 T1 및 T2 강조 영상에서 저 신호 강도인 섬유 조직과 T1 강조 영상에서는 고 신호 강도인 지방 조직의 교대 배열의 양상을 보이 며, 특징적으로 지방 조직과 섬유 조직이 흉곽 및 주위의 근육과 평행하게 교대로 배열한다⁹. STIR (Subsequent short-TI Inversion-Recovery)

이미지에서는 저신호 강도와 고신호 강도가 모자이크 패턴의 양상을 보이며 Gadolinium을 이용한 조영 증강 영상에서는 중간 이상으로 증강되는 소견을 보인다.

확진을 위한 조직 검사를 위하여 Domanski 등 한은 침 생검만으로도 충분히 진단할 수 있다고 하였고, 특징적인 병리소견으로 콜라젠 섬유조직의 배경에 분절된 탄성섬유가 작은 구형 혹은 물방울 형태로 널리 산재해 있으며, 유사 분열상 (Mitotic figure)는 드물며, Elastin 염색을 시행하면 탄성섬유는 밀집된 중앙부와 함께 변연부에서 불규칙한 톱니모양을 보인다고 하였다. 저자들의 경우 양측성 종괴에 대한 이학적 검사 및 방사선학적 검사상 악성종양의 가능성은 낮다고 생각하였으나, 환자가 후두암 및 위암의 병력이 있어이의 전이를 배제하기 위하여 침 생검을 시행하였다. 18G를 이용한 생검에서는 조직을 얻는데 실패하여 다시 14G를 이용한 침 생검을 시행하였다.

일반적으로 무증상의 종괴가 있는 경우 크기가 5 cm 이상일 경우에도 비수술적 치료를 권유 받으며, 통증 및 견관절의 기능장애를 유발할 경우수술의 적응증이 되지만, 수술을 시행할 경우에도 변연부 절제술만으로 충분하므로 과도한 절제를 피하여야 한다고 하였다²⁾. 술 후 1 예의 재발이보고가 있으나 악성종양으로의 변환이나 전이에 대한 보고는 없다⁵⁾. 저자들의 경우에는 수술을 시행하지 않고 2년간 추시 관찰을 시행하였고, 종괴의 크기의 변화나 2차적 변화는 관찰되지 않았다.

견갑부에 발생하는 탄성섬유종의 빈도는 문헌고 찰에 의하면 비교적 흔하므로 노인의 견갑골 하각 주변부에 발생한 종괴의 감별진단시에는 반드시 배부 탄성섬유종을 고려하여야 한다. 또한 이학적 소견, 방사선학적 검사 및 침 생검을 통하여 진단 할 수 있으며, 이에 대하여 통증 및 견관절 운동 이 제한 되는 경우를 제외하고 일반적으로 수술적 치료가 필요하지 않을 것으로 사료된다.

REFERENCES

1) Brandser EA, Goree JC, El-Khoury GY: Elastofibroma dorsi. Prevalence in an elderly patient population as revealed by CT. AJR, 171:

- 977-980, 1998.
- 2) Daigeler A, Vogt PM, Busch K, et al: Elastofibroma dorsi. Differential diagnosis in chest wall tumours. World J Surg Oncol, 5:15, 2007.
- 3) Dalal A, Miller TT, Kenan S: Sonographic detection of elastofibroma dorsi. J Clin Ultrasound, 31: 375-378, 2003.
- 4) Domanski HA, Carlen B, Sloth M, Rydholm A: Elastofibroma dorsi has distinct cytomorphologic features, making diagnostic surgical biopsy unnecessary. Cytomorphologic study with clinical, radiologic, and electron microscopic correlations. Diagn Cytopathol, 29: 327-333, 2003.
- 5) Fibla J, Molins L, Marco V, Perez J, Vidal G: Bilateral elastofibroma dorsi. Joint Bone Spine. 74: 194-196, 2007.

- 6) Hwang IH, Kim JW, Kyun OS, Park HB: Elastofibroma dorsi as a cause of snapping scapula. J Korean Shoulder Elbow Soc, 8: 154-157, 2005.
- 7) **Jarvi OH, Saxen E:** Elastofibroma dorsi. Acta Pathol Microbiol Scand, 51: 83-84, 1961.
- 8) Kang HG, Cho HS, Park WS, Lee JH, Kim H-S: Elastofibroma scapulae. J Korean Bone Joint Tumor Soc, 12: 118-124, 2006.
- 9) Malghem J, Baudrez V, Lecouvet F, Lebon C, Maldague B, Vande Berg B: Imaging study findings in elastofibroma dorsi. Joint Bone Spine, 71: 536-541, 2004.
- 10) Nagamine N, Nohara Y, Ito E: Elastofibroma in Okinawa. A clinicopathologic study of 170 cases. Cancer, 50:1794-1805, 1982.

초 록

86세의 고령의 남자 환자에서 발생한 견관절부 양측성 배부 탄성섬유종을 침 생검으로 확진하고 2년간 경과 관찰한 경험을 보고하고자 한다. 배부 탄성섬유종은 주로 고령의 환자에서 견갑골 하각 주변부에서 발생하는 양성 종양으로, 저자에 따라 발생 빈도에 대한 보고가 다양하다. 이에 대한 수술적 치료는 일반적으로 필요하지 않으며, 제한적인 경우에서도 변연부 절제술만으로 충분하다. 노인의 견갑골 하각 주변부에 발생한 종괴의 감별진단 시에는 반드시 배부 탄성섬유종을 포함하여야 하며, 이로 인하여 불필요한 수술적 치료는 피해야 한다.

색인 단어: 견갑부, 양측성, 배부 탄성섬유종