KISEP Case Report
臨床耳鼻：第17卷 第2號 2006
J Clinical Otolaryngol 2006;17:288-290

이하선 종양으로 오인된 Kimura씨 병 1례

한림대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실
최동준 · 장재혁 · 김범규 · 김용복 · 박일석

A Case of Kimura's Disease Presenting as a Parotid Gland Tumor

**Dong Joon Choi, MD, Jai-Hyuk Chang, MD, Beom Gyu Kim, MD,
Yong Bok Kim, MD and Il-Seok Park, MD**
Department of Otolaryngology-Head & Neck Surgery, College of Medicine, Hallym University, Seoul, Korea

－ABSTRACT－

Kimura's disease is a rare, chronic inflammatory disease of unknown etiology that occurs mainly in young asian males. The typical clinical presentation of this condition is characterized by subcutaneous masses, predominantly in the head and neck region. It often accompanied by regional lymphadenopathy, raised serum eosinophil counts and serum immunoglobulin E levels. Kimura's disease is easily mistaken for malignant tumor. The diagnosis is confirmed by a biopsy. The optimal treatment remains controversial. The authors experienced a histopathologically confirmed Kimura's disease that was preoperatively considered as a parotid gland tumor and made a report with a review of literature. **(J Clinical Otolaryngol 2006;17:288-290)**

KEY WORD : Kimura disease.

서 론

Kimura씨 병은 1948년에 처음 발견되었으며 드문 질환으로 주로 동양인 남자에게서 호발하고 두경부 영역에 생긴 무통의 연조직 결절과 림프절염(lymphadenopathy)이 특징이다.[1] 병변이 타액선과 림프절을 침범할 경우 임상적으로 악성 질환과 혼동되는 경우가 있다.[2] 이에 저자들은 우측 이하선 부위와 경부에 생긴 종물을 주소로 내원하여 이하선 종양 의심하에 수술적 절제를 시행하고 병리 조직 검사에서 Kimura씨 병으로 진단된 환자 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

논문접수일 : 2006년 7월 11일
심사완료일 : 2006년 10월 29일
교신저자 : 박일석, 150-020 서울 영등포구 영등포동 94-200 한림대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실
전화 : (02) 2639-5480 · 전송 : (02) 2637-5480
E-mail : ispark@hallym.or.kr

증 례

52세 여자 환자가 약 1달 전부터 발생한 우측 이하선 부위와 경부의 무통성 종물을 주소로 내원하였다. 그 동안 특별한 치료 없이 지내왔으며 크기 변화는 없었다고 한다. 과거력 및 가족력은 특이 사항이 없었고 종물이외의 전신적 신체 증상의 호소는 없었다. 이학적 소견상 우측 이하선 부위에 1.5×1 cm, 우측 경부에 1×1 cm 크기의 고정적이고 무통성의 단단한 종괴가 촉진되었다. 흉부단순촬영, 심전도, 일반혈액검사, 소변검사는 모두 정상범위였으며 신기능 이상 및 단백뇨 등의 신장 이상 소견은 없었다. 경부 전산화 단층 촬영상 조영 증강을 한 경우 우측 이하선 부위에 1.3 cm 크기의 결절성 종물이 관찰되었다. 내부에 석회화나 괴사는 보이지 않았

으며 균일한 조영 증강을 보였다(Fig. 1). 술전 외래에서 시행한 세침흡인 세포검사는 검체의 부적합으로 인하여 진단이 어려웠다. 이상의 소견으로 우측 이하선에 생긴 종양 의심 하에 우측 이하선 천엽절제술을 통한 이하선 부위의 종물 제거를 시행하였으며 경부의 종물도 함께 제거하였다. 이하선 부위의 종물의 경우 경계가 명확하였고 이하선 천엽과 유착된 상태였으며 경부 종물의 경우 경계가 명확하고 주위 조직과의 유착이 있었으나 비교적 쉽게 적출하였다. 이하선 및 경부 종물의 병리 조직결과에서 악성화의 소견은 관찰되지 않았으며 혈관의 증식성 병변과 호산구의 침윤을 특징으로 하는 전형적인 Kimura씨 병의 반응성 림프구성 증식증 소견으로 진단되었다(Fig. 2). 현재 신장 이상 등의 특별한 합병증 및 재발의 증후 없이 정기적인 추적관찰 중이다.

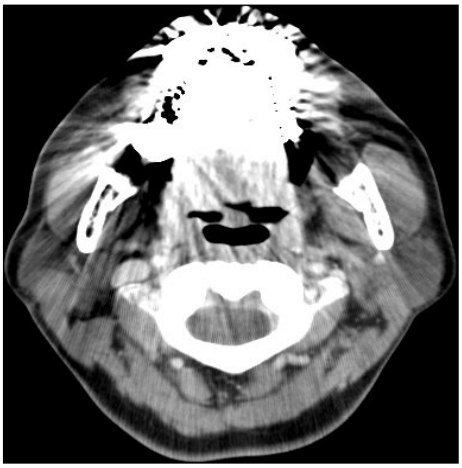

Fig. 1. Contrast enhanced CT scan (axia view) shows nodular slightly high density mass (arrow) in right parotid gland.

고 찰

Kimura씨 병은 드문 질환으로 주로 청장년층 동양인 남자에게서 호발하고 두경부에 가장 많이 발생한다.[1)2)] 진피나 피하를 각각 또는 동시에 침범하며 단발 혹은 다발성의 결절이 생기며 크기는 1 cm미만에서 10 cm에 달하는 것까지 다양하다. 두경부 이외의 구강이나 결막, 눈꺼풀, 고막, 골격근, 전립선, 신장, 말초 신경, 후두개 등에 생기기도 한다.[1)2)] 환자는 대개 무통성의 피하 종물을 주소로 내원하고 두경부에 발생하는 경우 주타액선과 경부의 심부피하조직에 발생시 임상양상이 악성종양으로 오인되는 경우도 많다.[3)] Kimura씨 병은 외상, 감염, 신경인자, 내분비, 면역학적 기전이 부분적 역할을 하는 알레르기성 만성 염증성 질환으로 알려져 있지만 아직까지 정확한 원인은 알려져 있지 않다. 정확한 항원이 밝혀진 것은 아니지만 말초성 호산구증과 혈청 IgE의 상승, 천식, 알레르기성 비염, 아토피성 피부염과의 연관성으로 보아 알레르기성 면역반응이 관여하며 Th2 cytokine이 이러한 알레르기성 반응에 역할을 하는 것으로 알려져 있다.[3)4)] Kimura씨 병과 감별해야 할 질환으로는 림프종, 타액선 종양, 전이성 림프종, Mikulicz씨 병 등이 있다.[5)6)] ALHE(angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia)는 홍반성 피부 병변과 섬유성 피하결절을 특징으로 하고 조직학적 소견과 후기 림프구 전환 단계(late lymphoid stage)가 Kimura씨 병과 유사하여 관련이 있는 것으로 생각되었으나 최근에는 서로

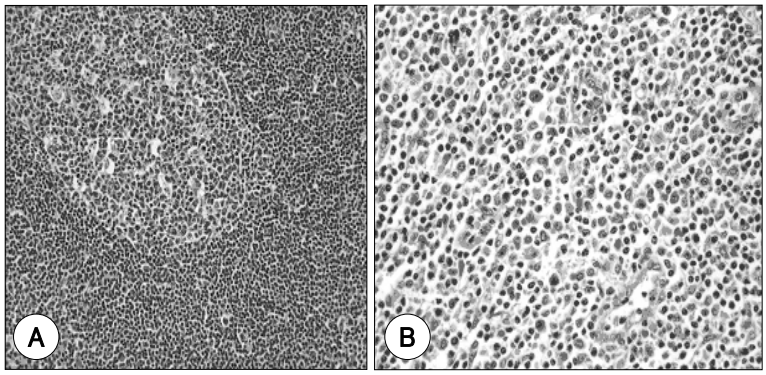

Fig. 2. Histopathologic findings. A : Focal fibrosis is noted separating hyperplastic germinal centers from areas of folliculolysis (H-E, ×200). B : A prominent eosinophilic infiltrate within the germinal center (H-E, × 400).

다른 질환으로 이해되고 있다.[5)6)] Kimura씨 병이 젊은 남자에게 호발하는 반면, ALHE는 보다 고령의 여자에게서 많이 생기고 다발성의 피부 발진이 흔하고 동반된 림프절염과 타액선 침범, 말초 호산구증이 드물다는 것이 감별점이다.[5)6)] 또한 ALHE가 상피성 혈관종의 신생물(neoplasm)인 반면 Kimura씨 병은 면역학적 요인이 작용하는 만성 염증성 질환이다.[7)] 악성 질환인 Hodgkin씨 병과는 세침 흡인 세포검사상 Reed-Sternberg 세포의 부재를 증명함으로써 감별할 수 있다.[7)] Kimura씨 병은 국소 림프절염, 타액선의 종대, 미만성 무통의 결절 등 자주 악성 질환의 임상 양상을 나타내기 때문에 감별진단을 위하여 여러 가지 검사가 필요하다.[1)2)] 저자들도 처음에는 이하선에 생긴 종양으로 진단하고 이하선 천엽절제술을 시행하였지만 술 후 조직검사에서 Kimura씨 병으로 판명된 사례였다. CT와 MRI는 Kimura씨 병의 진단에 있어 특이적이지는 않지만 침범한 부위에 종물의 형태를 보고 침범 부위의 정도를 파악할 뿐만 아니라 주위 림프절의 침범 여부를 아는 데에 유용하다.[6)] CT상 Kimura씨 병은 조영 증강 전에는 이하선과 같은 정도의 영상강도를 나타내고 조영증강시 내경동맥과 같은 정도의 영상 강도를 보이는데 이는 Kimura씨 병이 증식성 혈관을 포함하고 있기 때문이다.[6)] MRI상에서는 다양한 정도의 신호강도를 나타내지만 보통 T1 영상에서 증등도의 신호강도를, T2 영상에서 고신호강도를 나타낸다.[6)] Kimura씨 병의 진단은 어렵지만 보통 병변의 조직검사나 침범한 림프절의 절제 생검을 통해 치료 뿐만 아니라 확진할 수 있다.[1)2)] 침범 부위와 관계없이 Kimura씨 병의 조직학적 소견은 림프구 형성, 호산구의 침착, 미세농양(microabscess), 혈관의 증식성 병변을 특징으로 하고 있다.[8-10)] Kimura씨 병이 양성 경과를 나타내지만 치료에 대해선 아직 정립되지 않았다.[11)] 증상이 없는 환자에 대해서는 추적 관찰하는 방법부터 수술적 절제, 스테로이드 치료, 방사선 치료, 냉동치료, 고주파 요법, cyclosporine과 같은 화학 요법에 이르기까지 다양하다.[8)9)] 이 중 수술적 절제는 확진과 초기치료를 위한 최선의 방법으로 받아들여지지만 수술적 절제를 단독으로 사용하였을 경우 재발률이 25%에까지 이른다.[6)] 통상 사용되는 스테로이드 치료는 수술적 치료 후의 재발 병변에 사용되어지는데 그 치료 결과를 예측하기가 어렵고 스테로이드를 중단한 후에 자주 재발하는 경향이 있다.[6)] Kimura씨 병은 좀처럼 스스로 관해되지 않지만 악성 변화를 하지는 않는다.[12)13)] 따라서 Kimura씨 병을 초기 정확히 진단함으로써 환자에게 불필요한, 때로는 유해할 수도 있는 처치를 피할 수 있다. 이하선에 생긴 Kimura씨 병은 드물지만 악성질환으로 오인될 수 있으므로 정확한 진단과 적합한 치료방법이 선택되어야 할 것으로 사료된다.

중심 단어 : 기무라씨병.

REFERENCES

1) Kimura T, Yoshimura S, Ishikawa E. *On the unusual granu-lation combined with hyperplastic changes of lymphatic tissues. Trans Soc Pathol Jpn 1948;37:179.*
2) Cho MS, Kim ES, Kim HJ, Yang WI. *Kimura's disease of the epiglottis. Histopathology 1997;30:592-4.*
3) Barber J, Dawes P. *A rare cause of rash, eosinophilia and asthma in rheumatology. Rheumatol 2002;41:1329-30.*
4) Khoo BP, Chan R. *Kimura disease, two case reports and a literature review. Cutis 2002;70:57-61.*
5) Pamaraju N, Khalifa SA, Darwish A, Paulose KO, Ahmed N, Yousif H. *Kimura's disease. J Laryngol Otol 1996;110:1084-7.*
6) Messina-Doucet MT, Amstrong WB, Allison G, Pena F, ValeraKim JK. *Kimura's disease: Two case report and a literature review. Ann Otol Rhinol Laryngol 1998;107:1066-71.*
7) Li TJ, Chen XM, Wang SZ, Fan MW, Semba I, Kitano M. *Kimura's disease: A clinicopathologic study of 54 Chinese patients. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1996;5:540-55.*
8) Kuo T, Shih L, Chan H. *Kimura disease: Invovement of regional lymph nodes and distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Am J Surg Pathol 1988;12:843-54.*
9) Kung ITM, Gibson JB, Bannatyne PM. *Kimura's disease: A clinicopathological study of 21 cases and its distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Pathology 1984;16:39-44.*
10) Hui PK, Chan JKC, Ng SC, Kung ITM, Gwi E. *Lymphadenopathy of Kimura's disease. Am J Surg Pathol 1989;13:177-86.*
11) Day TA, Abreo F, Hoajsoe DK, Aarstad RF, Stucker FJ. *Treatment of Kimura's disease: A Therapeutic enigma. Otolaryngol Head Neck Surg 1995;112:333-7.*
12) Arshad AR. *Kimura's disease of parotid gland presenting as solitary parotid swelling. Head & Neck 2003;25:754-9.*
13) Gao Y, Chen Y, Yu GY. *Clinicopathologic study of parotid involvement in 21 cases of eosinophilic hyperplastic lymphogranuloma (Kimura's disease). Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2006;102:651-8.*