

만성 어깨 통증을 유발한 양측성 탄력섬유종 1예

장재훈, 김강민, 김태우, 정현광, 조윤성, 서수홍[†], 이충원

왈레스기념 침례병원 내과, 고신대학교 복음병원[†]

A Case of Bilateral Elastofibroma Causing Chronic Shoulder Pain

Jae Hoon Chang, M.D., Kang Min Kim, M.D., Tae Woo Kim, M.D., Hyun Gwang Jung, M.D.,
Yoon Sung Cho, M.D., Soo Hong Seo, M.D.[†], and Choong Won Lee M.D.

Department of Internal Medicine, Wallace Memorial Baptist Hospital,
Kosin University Gospel Hospital, Busan, Korea[†]

Abstract

Elastofibroma is a rare, benign, soft-tissue tumor that usually located at the inferior pole of the scapula. It is important to differentiate this tumor from other soft-tissue tumors such as sarcoma, fibromatosis, metastatic tumor, and lipoma. A 57-year-old female who complained of chronic both shoulder pain was admitted to our hospital with bilateral, soft tissue masses located in the subscapular region. Ultrasonography, CT and MRI images showed bilateral inhomogeneous tumors that measured 7×3×6 cm. This was compatible with elastofibroma by fine-needle aspiration biopsy. Shoulder pain was gone with decreasing size of masses after conservative treatment and avoiding workload to the shoulder. We present this case with a review of literatures.

Key words : Elastofibroma, Benign tumor.

서론

탄력섬유종은 대부분 흉곽과 견갑골 사이에 생기는 드문 연조직 양성 종양이다. 간혹 위, 유방, 팔꿈치, 겨드랑이, 종격, 좌골조면, 서혜부, 대퇴 전자부 등에서 발생이 보고되고 있다. 탄력섬유종의 확진과 육종, 섬유종증, 전이성 종양 및 지방종과의 감별진단을 위해서는 조직검사가 필요하고, 치료는 보존적인 치료와 절제술이 있다.¹⁾ 저자들은 만성적 어깨 통증을 호소하는 환자에서 양측 견갑골 하부에 발생한 드문 양성 종양 중 하나인 탄력섬유종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

증례보고

환자 : 57세, 여자

주 소 : 양측 견갑골하부 종괴, 양측 견관절 외전(Abduction)시 통증.

현병력 : 환자는 8년전 양측 견갑골하부 종괴를 발견하였고 조금씩 커지는 양상이었으며, 평소에 간헐적인 양측 어깨 통증이 있었으나 일상생활의 제한이 없어 진료 받은 적은 없었다. 최근 양측 견관절 외전시 통증이 심해지는 것 같아 내원하였다.

가족력 및 과거력 : 복용중인 약물은 없었다.

직업력 : 재봉사로 15년간 근무하였다.

사회력 : 흡연력은 없었다.

이학적 검사 : 입원당시 활력징후는 정상이었다. 이학적 검사에서 압통을 동반하지 않은 7×5 cm크기의 단단한 종괴가 양측 견갑골하부에서 만져졌다 (Fig. 1). 정상

교신저자 : 이 충 원

주소 : 부산광역시 금정구 남산동 374-75번지

왈레스기념 침례병원 류마티스내과

TEL : 051) 580-1257, FAX : 051)580-1186

E-mail : choong@wmbh.co.kr

적인 중립 자세에서는 통증은 없었고, 양팔의 외전시 견갑골 부위의 불편감과 어깨 통증이 발생하였다. 방사통은 나타나지 않았으며 운동장애는 없었다. 견관절의 압통은 나타나지 않았다. Empty can 검사, Neer Hawkin 검사, 상완 내전 (Arm adduction) 검사에서 모두 음성으로 나타났다. 양측 상지 신경학적 검사에서 이상소견은 없었다.



Fig. 1. Movable egg-sized soft masses are palpated below the inferior pole of both scapulas (arrows).

검사실 소견 : 일반혈액검사에서 백혈구 5,300/mm³, 혈색소 12.5 g/dL, 혈소판 244,000/mm³, 적혈구 침강속도 13 mm/hr이었고, 일반화학검사에서 크레아티닌 0.7 mg/dL, 총단백 7.5 g/dL, 알부민 4.5 g/dL, AST 25 U/L, ALT 16 U/L, alkaline phosphatase 196 IU/L, C-반응 단백 0.04 mg/L이었다. 암표지자 검사에서 알파태아단백 2.9 ng/mL, 암종배아항원 1.6 ng/mL, CA 19-9항원 1.1 ng/mL로 모두 정상이었다.

방사선 소견 : 단순흉부촬영에서 특이소견은 없었다. 양측 견갑골의 통증을 조사하기 위해 견관절의 초음파와 자기공명영상을 시행하였으며 이상소견은 보이지 않았다. 흉부 전산화단층촬영에서 양측 종괴 모두 7×3×6 cm크기의 종양이 발견 되었으며, 근육과 같은 음영을 보였고, 조영증강영상에서도 음영의 변화는 없었다. 자기공명영상의 T1과 T2영상에서 모두 낮은 신호강도의 종양이 관찰되었다 (Fig. 2). 흉부초음파영상에서 종양내부에 흉벽을 따라 주행하는 띠모양의 고에코와 저에코음영이 반복되는 층을 확인 할 수 있었다 (Fig 3).

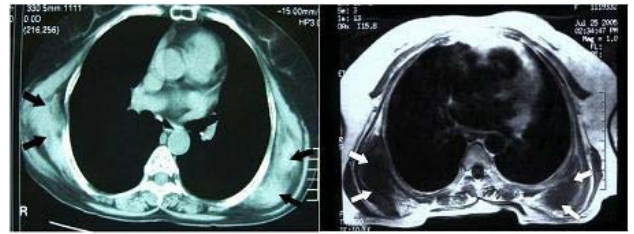


Fig. 2A.

Fig. 2B.

Fig. 2. CT image shows ill-defined bilateral inhomogeneous masses with a muscle-like density (A, arrows), and T1-weighted MRI image shows bilateral hypointense, heterogeneous masses between chest wall and inferior pole of scapulas (B, arrows).

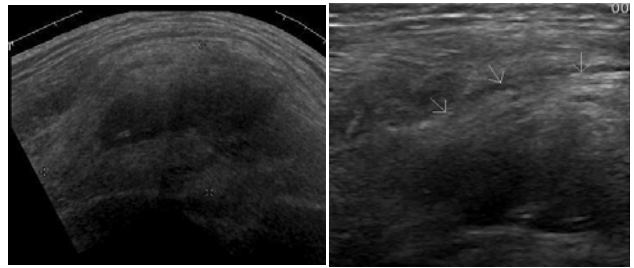


Fig. 3A.

Fig. 3B.

Fig. 3. Longitudinal scan of ultrasonography shows an ill defined 7X 6 cm sized relatively anisoechoic mass (A) and the typical layers of alternating pattern of hyperechoic and hyoechoic lines that are roughly parallel to the chest wall is seen in mass (B).

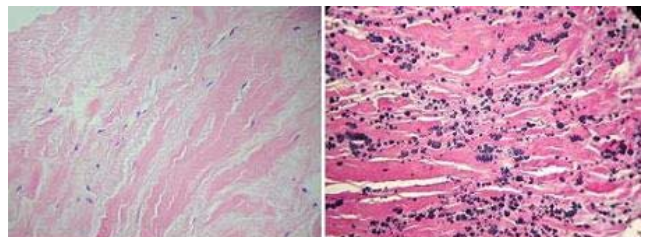


Fig. 4A.

Fig. 4B.

Fig. 4. H&E stain (×400) shows predominantly collagenous stroma containing abnormal, linear elastic fibers (A), and Verhoeff's elastic stain (×400) shows numerous globules with irregularly serrated outline (B).

종양 생검 소견 : 육종, 섬유종증, 전이성 종양 및 지방종과 감별을 위해 흉부 전산화단층촬영하 미세침흡인생검술을 시행하였다. H&E염색에서 호산성을 띄는 교원섬

유사이에 선상배열을 하고 있는 탄력섬유가 산재되어 있었고, Verhoeff교원염색에서 검게 염색되는 탄력섬유가 선상 또는 과립상 및 불규칙한 톱니모양의 경계를 보였다(Fig 4).

치료 및 경과 : 방사선 소견 및 미세침흡인생검 소견으로 탄력섬유종으로 진단되었다. 압박증상, 운동장애가 없어 비스테로이드 항염증제로 보존적인 치료를 시행하였으며, 이후 통증은 소실되었다. 물리치료로 견관절에 온찜질과 운동요법을 시행하였으나 특별한 의미를 두기 힘들어 단기간만 시행하였다. 재봉사 직업을 중단 후 1년간 추적 관찰한 결과 초음파 검사에서 종양의 크기는 감소하였고, 통증의 재발은 없었다.

고 찰

탄력섬유종은 드물게 발생하는 양성 연조직 종양으로 1961년 Jarvi와 Saxen이 처음 보고하였다.²⁾ 60세 이상의 성인에서 흔하며 남 : 여 비율은 1 : 2로 여자가 더 흔하다. 호발부위는 견갑골하부이나 그 외에 위, 유방, 팔꿈치, 겨드랑이, 종격, 좌골조면, 서혜부, 대퇴 전자부 등에서도 발생이 보고되고 있다. 양측성이 60%이다. 환자의 50%에서 무증상이며, 중증 통증은 흔하지 않다.³⁾

발생 기전에 대한 정설은 아직 없으며, 초기에는 외상이나 물리적 자극을 주요한 원인으로 생각하여 견갑골과 늑골의 기계적 마찰에 의한 탄력섬유의 과증식과 이차성 반응으로 생각되었다. 하지만, 외상이 없거나 직업력에 부합되지 않는 문헌들이 보고되고 있다. Erin 등은 탄력섬유종에서 1번 염색체 단완의 반복적인 이상과 유전불안정이 두드러진다고 보고하였으며,⁴⁾ Hisaoka와 Hashimoto는 면역학적으로 CD34 발현 중간엽세포가 섬유성 증식을 일으켜 탄력섬유종을 발생시킨다고 보고하였다.⁵⁾

흉부 전산화단층촬영 및 자기공명영상 진단에 도움을 준다. 흉부 전산화단층촬영 소견에서 종양은 경계가 불분명하고 주로 불균질하며 근육과 같은 음영을 보여 근접 근육과 구분 짓기 어렵고, 조영증강영상에서도 음영의 변화는 없다. 자기공명영상 소견에서 종양은 T1과 T2영상 모두 주변 근육과 유사한 저강도 신호를 보인

다.⁶⁾

흉벽에 발생하는 종양 중 가장 흔한 것은 지방종이나 그 외에, 육종, 탄력섬유종, 섬유종증 및 전이성 종양 등이 발생한다.¹⁾ 탄력섬유종은 전산화단층촬영 및 자기공명영상만으로는 이들 질환과 감별 할 수 없으며, 조직검사가 필요하다. 미세침흡인생검술은 육종을 완전히 배제할 수 없기 때문에 개방 생검이 추천된다.⁷⁾ 하지만, Domanski 등은 미세침흡인생검술과 방사선소견으로 탄력섬유종을 진단 할 수 있고 육종과 감별할 수 있어, 개방 생검이 불필요하다고 보고하여 논란의 여지가 있다.⁸⁾ 병리학적 소견은 H&E염색에서 호산성을 띄는 교원섬유 사이에 선상 또는 염주모양의 탄력섬유가 산재되어 있으며, Verhoeff교원염색에서 검게 염색되는 탄력섬유가 선상 또는 과립상 및 톱니모양의 경계를 보인다.⁸⁾

증상이 없고 종양의 크기가 5 cm미만인 경우 보존적인 치료를 권장한다. 압박증상, 운동장애, 일상생활에 지장을 주는 통증이 있는 경우 절제술의 적응증이 된다.¹⁾ 종양의 크기가 5 cm이상인 경우 육종의 가능성이 증가하고, 탄력섬유종에 육종이 동반된 경우도 보고되고 있으며, 미세침흡인생검술로 육종을 완전히 배제할 수 없기 때문에 절제술이 추천된다.⁹⁾ 그러나, 방사선 소견과 조직검사로 탄력섬유종을 진단할 수 있고, 육종과 감별 할 수 있기 때문에 절제술의 적응증으로써 논란의 여지가 있다고 보고되고 있다.⁸⁾ 국내에 보고된 문헌에서는 모두 절제술을 시행하였다.¹⁰⁾

예후는 악성으로 진행은 보고 된 바 없으며, 절제술 후 1예에서만 재발이 보고되었다.²⁾

본 증례는 57세 여자에서 진단된 양측성 견갑골하부의 탄력섬유종으로써 물리적 자극을 피하고 비스테로이드 항염증제와 보존적인 치료로 1년간 추적 관찰한 결과 종양의 크기가 감소하였고, 어깨 통증은 소실되었으며, 증상의 재발은 나타나지 않은 탄력섬유종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

REFERENCE

1. Schafmayer C, Kahlke V, Leuschner I, Pai M, Tepel J. Elastofibroma dorsi as differential diagnosis in tumors of the thoracic wall. Ann Thorac Surg 2
2. Jarvi OH, Saxen AE. Elastofibroma dorse. Acta Pathol

- Microbiol Scand 1961;51:83-4.
3. Nagamine N, Nohara Y, Ito E. Elastofibroma in Okinawa. A clinicopathologic study of 170cases. Cancer 1982;50:1794-805.
 4. McComb EN, Feely MG, Neff JR, Johansson S, Nelson M, Bridge JA. Cytogenetic instability, predominantly involving chromosome 1, is characteristic of elastofibroma. Cancer Genet Cytogenet 2001;126:68-72.
 5. Hisaoka M, Hashimoto H. Elastofibroma: Clonal fibrous proliferation with predominant CD34-positive cells. Virchows Arch 2006;448:195-9.
 6. Malghem J, Baudrez V, Lecouvet F, Lebon C, Maldague B, Vande Berg B. Imaging study findings in elastofibroma dorsi. Joint Bone Spine 2004;71:536-41.
 7. Hoeber I, Spillane AJ, Fisher C, Thomas JM. Accuracy of biopsy techniques for limb and limb girdle soft tissue tumors. Ann Surg Oncol 2001;8:80-7.
 8. 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 correlation. Diagn Cytopathol 2003;29:327-33.
 9. Alberghini M, Pignatti G, Zanella L, Bacchini P, Maltarello MC, Maraldi NM, Bertoni E. Elastofibroma associated with high grade leiomyosarcoma of the soft tissues: a light and ultrastructural study of one case. J Submicrosc Cyto Pathol 2003;35:43-8.
 10. 최창우, 염욱, 김현조, 손진성, 장원호, 이동화. 견갑골 직하부에 발생한 양측성 탄력섬유종. 대한흉부외과학회지 2006;39:343-5.