

비호발 부위에서 발생한 거대 임파절 과형성

— 3예 보고 —

인제의대 서울백병원 병리과

안 해 경 · 고 일 향

서 론

거대임파절과형성(giant lymph node hyperplasia) 혹은 Castleman병은 Castleman등이 1956년에 처음 발표할 때는 종격동에 국한된 임파조직의 증식으로 특이한 Hassal 소체처럼 보이는 배중심(germinal center)과 현저한 혈관증식을 특징으로한다고 기술하였다¹⁾. 그 후 이 병변은 다른 여러 이름으로 보고되었는데 Table 1과 같다. Keller등이 1971년에 81예를 분석하면서 이 병변을 조직학적 구성에 따라 초자-혈관형(hyaline-vascular type)과 형질세포형(plasma cell type)으로

분류하였고, 이들 중 80-90%가 초자-혈관형이었으며 71%가 종격동에서 발생한 것으로 보고하였다²⁾. 그 후 드물게 종격동 이외에서 발생한 보고들이 있었는데 이들은 장간막 임파절^{3,7)}과 다른 말초임파절에서³⁻⁶⁾ 발생했으며 후두⁷⁾에서 발생한 예도 있고 최근에는 다발성으로⁸⁻¹⁰⁾ 발생한 예들의 보고가 증가되고 있다.

저자들은 1986년과 1987년에 장간막 임파절에서 발생한 거대임파절과형성의 형질세포형 1예와 각각 경부와 서혜부 임파절에서 발생한 초자-혈관형 2예를 경험하여 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Table 1. Alternative names of giant lymph node hyperplasia

Names	Year	Authors
Primary hemangiolymphoma of hemal nodes	1921	Symmers
Giant hemolymph node	1950	Pemberton, et al
Benign htymoma	1952	Thorburn, et al
Hyperplasia of lymph nodes	1954	Castleman
Localized mediastinal lymph node hyperplasia	1965	Castleman
Lymph nodel hemartoma	1958	Abell
Tumor-like proliferation of lymphoid tissue	1957	Cohen
Giant intra-thoracic lymph nodes	1959	mason
Follicular lympho-reticuloam	1961	zetterargn
Angiofollicular mediastinal lymph node hyperplasia	1963	Harrison, et al
Angiomatous lymphoid hamartom	1966	Tung, et al
Giant lymph ndeo hyperplasia	1972	Keller, et al

*본 논문의 요지는 1988년 5월 22일 대한병리학회 제12차 춘계학술대회에서 전시 발표 하였다.

증례

1. 임상소견

증례 1 : 환자는 54세 남자로 1년반전부터 지속된 소화불량, 변비, 현기증을 주소로 내원하였다. 환자의 과거력과 가족력에는 특이 소견이 없었고 이학적소견상 복



Fig. 1. Case 1 : Abdominal CT shows a solid intraperitoneal mass at left upper abdomen.

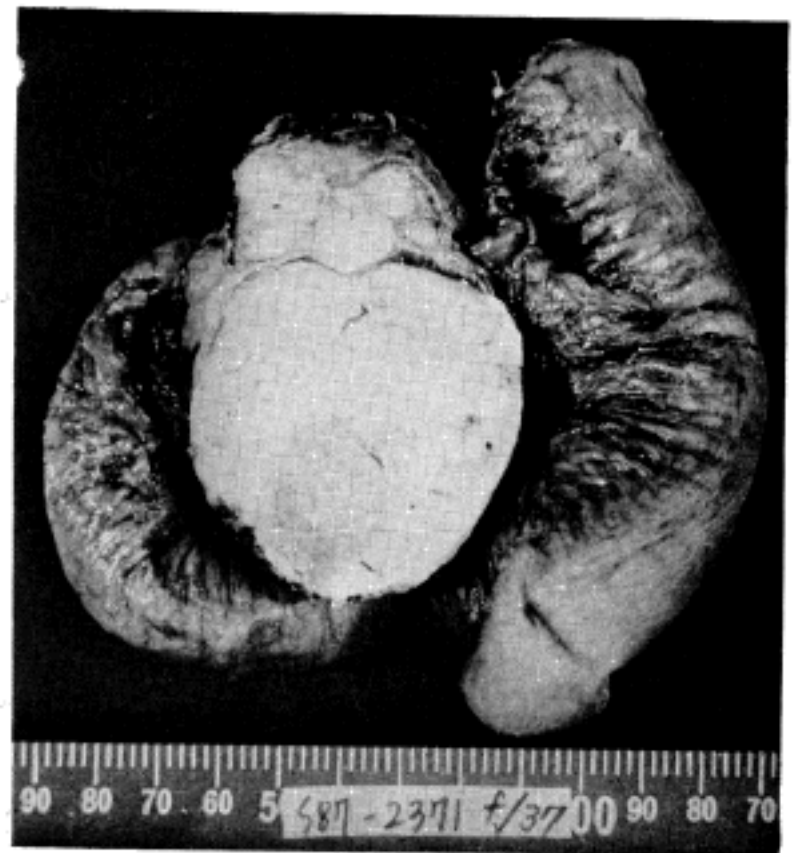


Fig. 2. Case 1 : A well circumscribed yellowish pink soft mass, 5cm, and similar smaller masses adjacently.

Table 2. Pathologic findings

	Case 1	Case 2	Case 3
Type	plasma cell	hyaline vascular	hyaline vascular
Gross findings			
number of the removed node	3	1	3
size of the node	6x4x4cm, 1cm in dia. x2	4x3x2cm	6x3x4cm, 1.5cm and 1cm in dia.
demarcation	well	well	well
cut surface	yellowish yellowish brown	yellowish brown	yellowish brown
necrosis or hemorrhage	—	—	—
Micro. findings			
proliferation of 1ym. follicle	marked	marked	marked
germal center	large, hyperplastic	smaller	intermediate
proliferation of hyalinized vessel	minimal marked	marked	marked
vessel in germinal center ('lolly pop')	minimal ma	marked	intermediate
plasma cell infiltration in the interfollicular area	marked	minimal	minimal

부 좌상부에 직경 5cm의 촉진시 약간 움직이는 종괴가 있었다. 말초 혈액검사상 혈색소 8.1g/dl, 적혈구용적 25%, 백혈구 5700/mm³(분엽중성구 78%, 림프구 11%, 단구 9%, 호산구 2%), 혈소판 160,000/mm³으로 빈혈이 있는 이외의 다른 수치는 정상이었다. 생화학 검사상 총단백 6.0g/dl, 알부민 2.9g/dl로 글로부린증가는 없는 것으로 생각되었다. 복부단층촬영상, 복부 좌

상부에 4×5×7cm의 실질성 종괴가 있었다(Fig. 1). 환자는 개복술로 종괴를 포함한 소장의 부분절제를 시행하였다.

증례 2 : 27세 여자환자가 2년 반동안 지속된 좌측 서혜부 종괴를 주소로 내원하였다. 처음 종괴가 만져졌을 때는 첫임신 3개월째였다. 과거력이나 가족력에 특이소견은 없었고, 체중감소 결핵 Allergy등의 소견은 없었

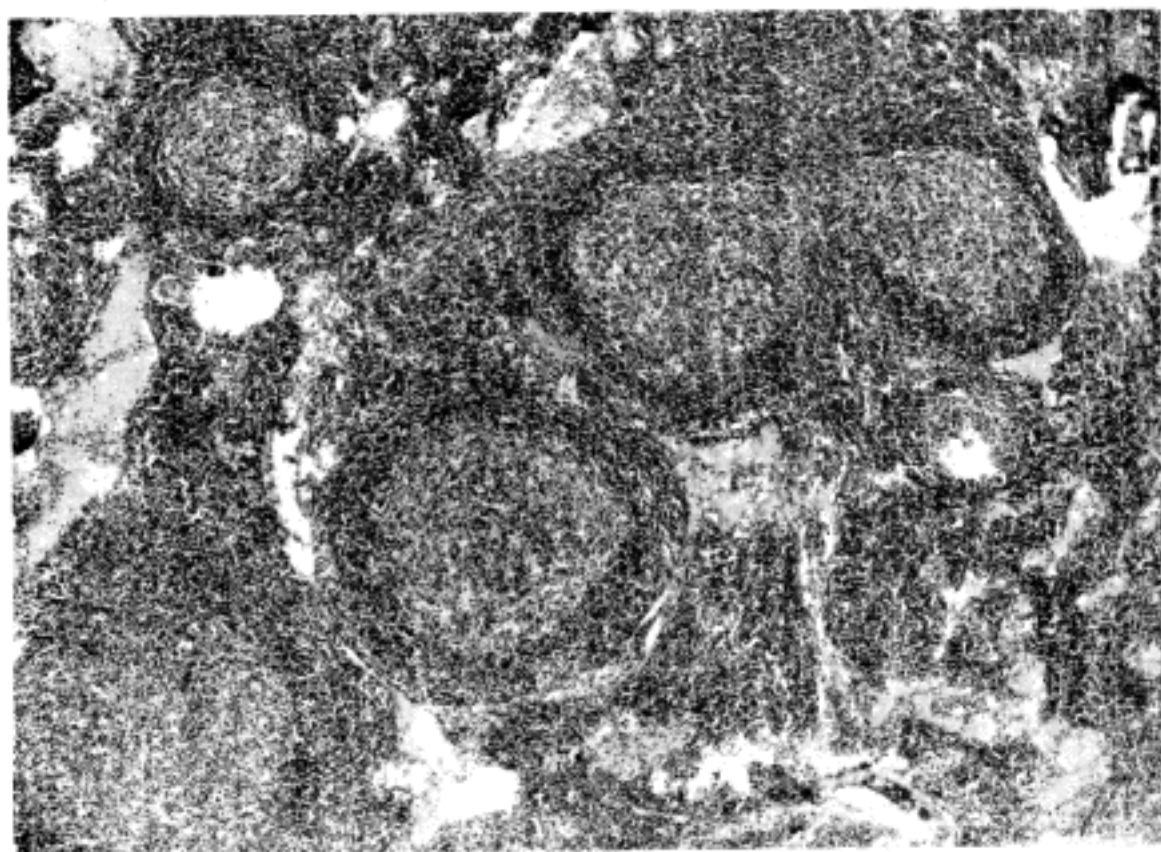


Fig. 3. Case 1 : Proliferating lymphoid follicles with prominent germinal center (Hematoxylin & eosin, x40).

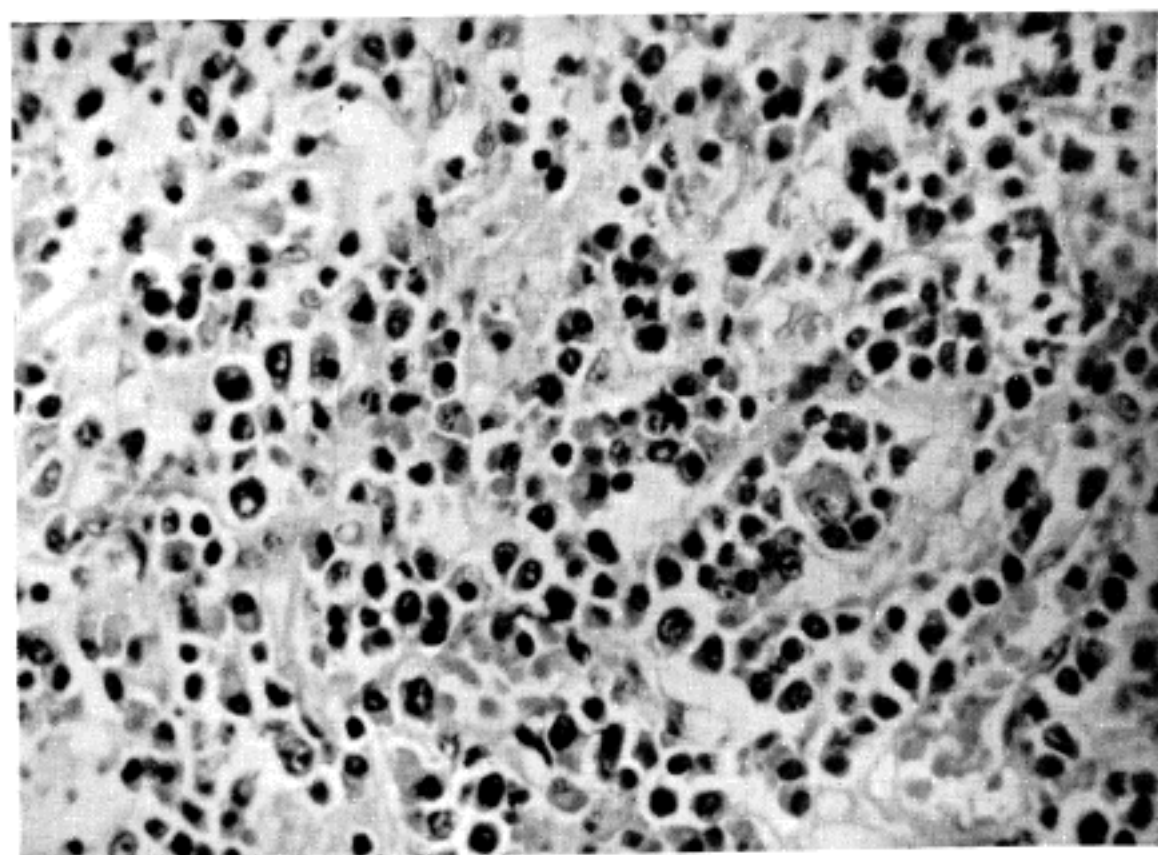


Fig. 4. Case 1 : Massive infiltration of plasma cells in the interfollicular area (Hematoxylin & eosin, x400).

으며 이학적 검사상, 다른 이상소견도 발견되지 않았다. 말초혈액검사에서 혈색소 12.5 g/dl, 적혈구용적 40%, 백혈구 5,500/mm³(분엽중성구 80%, 림프구 14%, 단구 2%, 호산구 1%, 호염기구 2%)로 정상범위였고, 적혈구침강속도 40 mm/hr로 증가되어있었다. 생화학적 및 뇨검사도 정상범위였다. 서혜부종괴에서 절제적 생검을 시행하였다.

증례 3 : 29세 여자환자로 2년동안 지속된 좌경부 쇄골상부에 만져지는 종괴를 주소로 내원하였다. 3년전에 폐결핵진단을 받고 결핵약을 현재까지 복용하고 있었으며 그외의 과거력이나 가족력에 다른 특이사항은 없었다. 말초혈액검사에서 혈색소 13.8 g/dl, 적혈구용적 40%, 백혈구 5,500/mm³(분엽중성구 63%, 림프구 31%, 단구 4%, 호산구 2%), 혈소판 150,000/mm³,

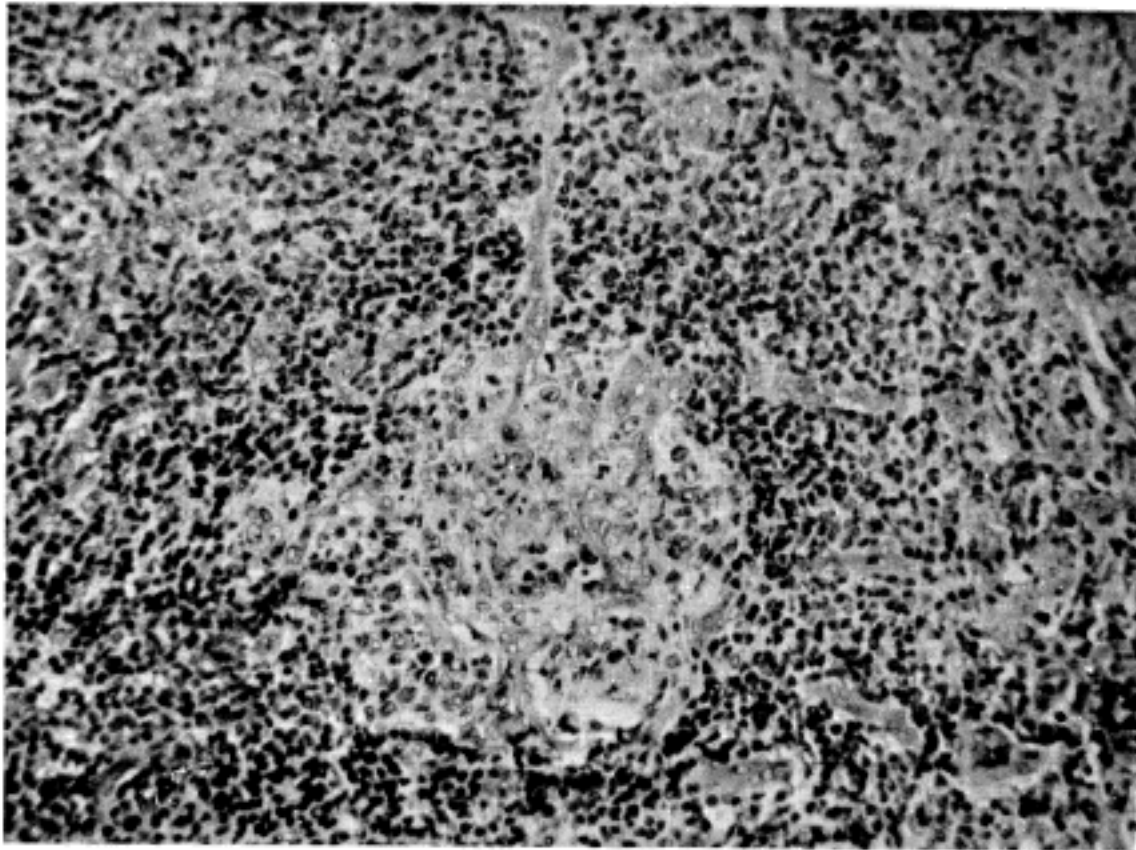


Fig. 5. Case 2 : Abundant hyalinized vesiculature in the interfollicular area and characteristic 'lollypop' appearing capillary in the germinal center (Hematoxylin & eosin, x200).

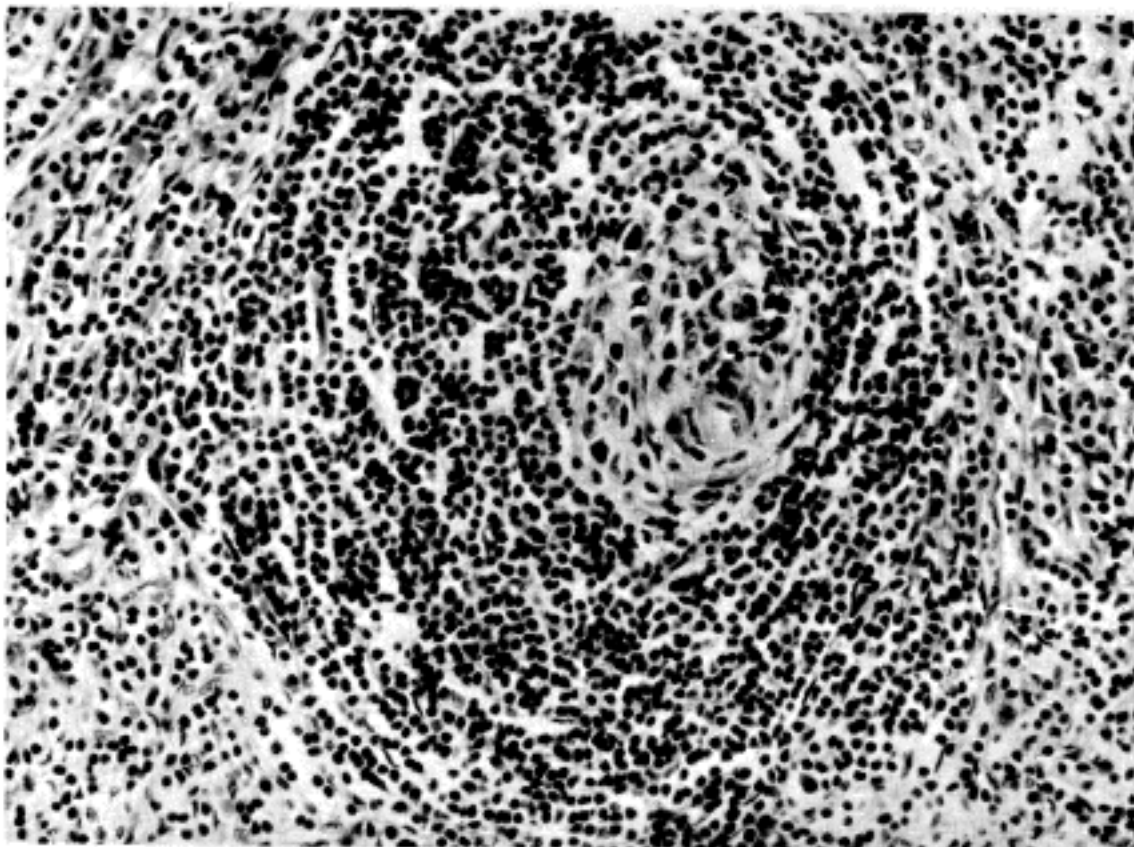


Fig. 6. Case 3 : A lymph follicle with prominent capillaries in the germinal center and concentric layering of small lymphocytes (Hematoxylin & eosin, x200).

적혈구침강속도 2 mm/hr로 정상범위였으며 다른 검사 소견도 정상범위였다. 환자는 종괴부위에서 흡입세포검사를 하고 양성 임파구 증식병변이라고 진단 받은 후 종괴절제술을 시행하였다.

2. 병리학적 소견

육안적 소견: 임파절들은 크기가 다양하게 커져있었고 각각은 주위와 경계가 잘 지워져 있었으며 피막에 싸여있었고 단면은 전체적으로 황갈색을 보였고 피사나 출혈은 없었다(Fig. 2, Table 2).

광학현미경적 소견: 종괴는 증식된 임파조직으로 여포(lymphoid follicle)의 증식이 현저하고 증례 1에서는 여포사이에 많은 형질세포의 침윤이 있었고(Fig. 3,4) 증례 2, 3에서는 여포사이에 초자질에 의해서 둘러싸인 혈관의 증식이 현저했다(Fig. 5,6).

고 안

거대임파절과형성은 원인이나 발병기전에 대해서 정확히 알려지지 않고있다. 처음 Castleman 등¹⁾이 보고할 때는 염증에 의한 반응성의 임파절 비후증상으로 보았고, Keller 등⁴⁾은 luetic lymphadenitis, post-vaccinal lymphadenitis¹¹⁾, infectious mononucleosis¹²⁾와 관련된 일종의 염증성 반응으로 보았지만 그 후 Zettergren 등³⁾은 이 병변에서 관찰되는 배중심이 염증성 과정의 임파절에서 발견되는 것과는 다르고 종격동에 빈발하며 제한된 임파절만 증식하는 것은 염증성 과정과 일치하지 않으므로 일종의 신생물로 생각해서 follicular lymphoreticuloma라고 명명하기를 주장하였고 Tung 등²⁾도 일종의 과오종으로 생각하였다. 또 최근 Mufarrij 등¹³⁾에 의해서 형질세포형에서는 형질세포와 면역아세포(immunoblast)등이 면역형광법(immunofluorescence)과 면역화학법(immunochemistry)으로 polyclonal한 결과를 보였으므로 확인되지 않은 자극에의해서 B-cell증식이 증가된 것으로 추정하였다. Frizzera 등^{10,14)}도 여러장소에 다발성으로 발생한 예들을 분석하면서 B-cell의 전신적 반응과정으로 생각하였다.

초자-혈관형과 형질세포형은 각각 다른 임상증상을 가진다⁴⁾. 초자-혈관형은 대개는 임상증상이 없거나 종괴에 의한 압박증상을 나타내지만 Gava 등¹⁵⁾은 조직학적으로 초자-혈관형을 보이는 다발성에서 높은 냉응집

소치(cold agglutinin titer), polyclonal gammopathy, 신경병(neuropathy), 양측성 울혈유두(bilateral papilledema)등을 발견보고하였다. 형질세포형은 여러 장소에 다발성으로 발생하는 경우가 많이 보고되어 있으며^{8,10,13)}이들은 불응성 빈혈(refractory anemia), 적혈구 침강속도의 증가, 알부민저하, 글로부린증가, 발열, 성장저하^{15,20)}, 간기능과 신기능저하, 혈소판감소등¹⁶⁾의 임상증상을 동반하는 경우가 많았으며, Burgert 등¹⁷⁾은 불응성 빈혈의 원인이 항적혈구조혈인자(antierythropoietic factor)에 의한다고 보고하였다. 따라서 본 증례 1에서 보인 빈혈과, 증례 2에서 적혈구침강속도가 증가된 소견은 질환과의 관계여부를 고려해보아야 하겠다. 또한 다발성 형질세포형에서 중추신경계를 침범한 예¹⁸⁾가 있었으며, 이 질환에서 쥐(murine)혹은 인간 백혈구의 악성 임파종에서 발견되는 virus like particle을 발견한 보고¹⁹⁾도 있으며, 1985년에 Frizzer 등¹⁴⁾은 거대 임파절과형성의 조직학적 소견을 보이면서 여러장소에 다발적으로 발생하고 앞에 기술한 전신적 증상을 보이며 중증감염과 악성종양등으로 예후가 나쁜 15예를 보고하였다. 따라서 다발성이고 형질세포인 경우는 조직학적으로 전형적 거대임파절과형성의 소견을 보이더라도 계속 세심한 검토가 반드시 필요하다.

결 론

저자들은 거대임파절과형성의 비교적 드문 발생장소인 장간막에 빈혈을 동반한 형질세포형 1예와 각각 경부와 서혜부에서 발생한 초자-혈관형 2예를 경험하고 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Castleman B, Iverson L, Menendez V: Localized mediastinal lymph node hyperplasia resembling thymoma. *Cancer* 9:822-830, 1956
- 2) TUNG KSK, McCormack LJ: Angiomatous lymphoid hamartoma: Report of five cases with a review of the literature. *Cancer* 20:525-536, 1967
- 3) Zettergren L: Probably neoplastic proliferation of lymphoid tissue (follicular lymph-reticuloma). *Acta Pathol Microbiol Scand* 51:113-126, 1961
- 4) Keller AR, Hochholzer L, Castleman B: Hyaline

- vascular and plasma cell types of giant lymph node hyperplasia of the mediastinum and other locations. *Cancer* 29:670-683, 1972
- 5) 박해원 : A case report of giant retroperitoneal lymph node hyperplasia 대한방사선학회지 제21권 제 4 호 : 661-664, 1985
- 6) 김형중, 김경희, 정우희 외 : 거대임파절과 형성1에 대한내과학회잡지 제29권 제 5 호 : 715-719, 1985
- 7) Clivic ARW, Waggoner LG, Krabbenhoft KL: Lymphoid hamartoma of larynx. *Laryngoscope* 74: 1381-1338, 1964
- 8) Bartoli E, Massarelli G, Soggia G, Tanda F: Multicentric giant lymph node hyperplasia. A hyper-immune syndrome with a rapidly progressive course. *Am J Clin Pathol* 73:423-428, 1980
- 9) Arthur R, Richard SS: Multicentric giant lymph node hyperplasia. *Am J Clin Pathol* 69:86-90, 1978
- 10) Frizzera C, Massarelli G, et al: A systemic lymphoproliferative disorder with morphologic feature of Castleman's disease-Pathologic findings in 15 patients. *Am J Surg Pathol* 7:211-231, 1983
- 11) Hartsock RJ: Post vaccineal lymphadenitis. *Cancer* 21:632-649, 1968
- 12) Nosanchuk JS, Schnitzer B: Follicular hyperplasia in lymph nodes from patients with rheumatoid arthritis. *Cancer* 24:343-354, 1969
- 13) Mufarrij A, Fazzini E, Feiner MD: Giant lymph node hyperplasia. An immunopathologic and ultrastructural study of a case of multicentric plasma cell variant. *Arch Pathol Lab Med* 106:92-95, 1982
- 14) Frizzera G, Peterson BA, Bayrd ED, Goldman A: A systemic lymphoproliferative disorder with morphologic feature of Castleman's disease: Clinical findings and clinico-pathologic correlation in 15 patient. *J Clin Oncol* 3:1202-1216, 1985
- 15) Neehout RC, Larson W, Manser P: Mesenteric lymphoid hamartoma associated with chronic hypoferrremia, anemia, growth failure and hyperglobulinemia. *N Engl J Med* 280:922-925, 1969
- 16) Couch WD: Giant lymph node hyperplasia associated with thrombotic thrombocytopenic purpura. *Am J Clin Pathol* 74:340-344, 1980
- 17) E, Omer Buerkert JR, Gerald SG, Edgar G. Harrison JR, et al: Intra-abdominal, Angiofollicular lymph node hyperplasia (plasma cell variant) with an Antierythropoietic factor. *Mayo Clin Proc* 50:542-546, 1975
- 18) Michael WS, Frizzera G: Castleman's disease, plasma-cell type-Diagnosis of central nervous system involvement by cerebrospinal fluid cytology. *Acta cytol* 30:481-486, 1986
- 19) Fisher ER, Sieracki JC, Goldenberg DM: Identity and nature of isolated lymphoid tumors (so-called nodal hyperplasia, hamartoma). *Cancer* 25:1286-1300, 1970
- 20) Lee SL, Rosner F, Rivero I: Refractory anemia with abnormal iron metabolism; It's remission after resection of hyperplastic mediastinal lymph nodes. *N Engl J Med* 272:761-766, 1965

— Abstract —

Three Cases of Giant Lymph Node Hyperplasia in Unusual Location

Ahn Hye Kyung, M.D. and Ill Hyang Ko, M.D.

Dept. of Pathology, Seoul Paik Hospital,
Inje Medical College

Giant lymph node hyperplasia (Castleman's disease) was first described by Castleman and associates. In the first accounts of giant lymph node hyperplasia, the lesions were described as solitary and localized to the mediastinum.

Recently, we have experienced three cases of Castleman's disease, first of which is a 54 year old male with plasma cell type in the mesentery, second is 27 year old female with hyaline vascular type in the inguinal region and third is a 29 year old female with hyaline vascular type in neck.

Key Words: Giant lymph node hyperplasia, Unusual location