

욕창부에 생긴 육아조직성 종괴형성(욕창종)

- 1예 보고 -

서울대학교 의과대학 병리학교실

한 혜 승 · 김 용 일 · 서 정 욱

Decubitoma: A Pseudosarcoma in Decubitus

- Report of a case -

Hye Seung Han, M.D., Yong Il Kim, M.D. and Jeong Wook Seo, M.D.

Department of Pathology, Seoul National University College of Medicine

Decubitus ulcer is often seen in the skin and underlying tissue of debilitated or immobilized patients as the result of prolonged pressure and impaired circulation. It manifests chiefly as an ulcer over bony prominences, but tumefaction is an extremely unusual presentation. A 53-year old male, a paralytic of the lower extremity for 18 years, developed a recurrent decubital ulcer despite repeated surgical repair, from which a rapidly growing, large fungating mass grew within a month. The last resected mass was bosselated and measured 15×9×3 cm with a major area of cicatrix-like induration, interdigitated with skeletal muscle bundles at the central area. Microscopically, the mass was composed of an upper half of active granulation tissue layer and a deeper half of dense, poorly cellular, fibrocollagenous bundles admixed with florid proliferation of atypical fibroblasts, but the absence of mitosis and the multifocal admixture of active inflammatory process-granulation tissue formation seemed to help exclude genuine fibromatosis, nodular fasciitis or proliferative myositis. We assume that this rapidly growing pseudofibromatosis is an additional manifestation of a prolonged decubitus ulcer, possibly related to the modified reparative process of decubitus ulcer following repeated excisions, for which we propose a term of decubitoma. (*Korean J Pathol* 1996; 30: 1060~1064)

Key Words: Decubitus ulcer, Granulation tissue, Decubitoma, Pseudosarcoma

욕창은 교통사고나, 뇌졸중, 신경학적 이상, 하지 마비, 또는 수술후 거동이 불편한 상태에서 둔부, 고관절, 요추전골 부위 등 지속적으로 체중의 압력을

받는 부위에 주로 궤양 형태로 나타나며 전신적인 건강상태가 중요한 요인으로 작용한다. 욕창이 생기는 빈도는 병원 입원환자의 3~11%를 차지하고¹ 그 합병증으로는 골수염과 패혈증이 있다. 욕창환자에서는 혈청 알부민치가 대개 낮은데 이는 영양실조뿐 아니라 삼출로 인한 혈청내 단백질 소실을 반영한다. 이런 저단백혈증은 섬유모세포의 증식, proteoglycan

접 수: 1996년 3월 7일, 게재승인: 1996년 6월 7일
주 소: 서울시 종로구 연건동 28, 우편번호 110-744
서울대학교 의과대학 병리학교실, 김용일

과 교원섬유생성, 창상 수복을 감소시킨다고 알려져 있다^{2,3}. 육창 발생 초기에는 통증이 없어서 그 발생을 모르고 지내다가 점차 병변부의 경계가 분명해지고 황회색의 괴사로 변하면서 통증이나 이차성 감염이 생길때 인지된다. 이 케양성 병변은 대개 피부 밑으로 퍼져 근막, 건, 근육과 뼈를 침습하여 커지게 되지만 종괴를 형성하는 경우는 알려져 있지 않다. 저자들은 오랜 기간 동안 육창성케양의 잦은 외과적 제거와 육창의 재발 끝에 짧은 시간내에 급속히 성장한 종괴로서 임상적으로 악성종양을 의심케 한 1예를 보고하고자 한다.

증례: 53세 남자가 18년 전에 광산 낙산사고로 흉추 압박골절이 생겨 척수병증(myelopathy) 상태가 되어 배꼽 이하 부위의 감각소실, 배뇨나 배변 불능, 하지의 심부 건반사 소실 등으로 휠체어에 의존하면서 지내왔다. 입원 13개월 전부터 3일간 고열이 발생하던 우측 둔부 주름 부위에 3 cm 정도의 케양이 생겨 외부병원에서 절제한 후 일차봉합을 하여 거의 다 나은 상태로 퇴원하였다. 한달 반 후 같은 부위에 5 cm 크기의 케양이 재발하여 다시 절제하고 일차봉합을 한 후에는 0.5~1 cm 정도의 누공만 남겨 놓고 거의 나은 듯 보였다. 입원 70여일전 수술부의 케양이 10 cm로 커져 다시 입원하였는데 이때 처음으로 밥송이 크기만한 종괴 두개가 발견되어 네차례에 걸쳐 절제후 봉합을 반복하였으나 종괴는 더욱 커졌다. 두 달 후에는 종괴가 더욱 커지면서 육창성 케양면에서 돌출되어 보였다(Fig. 1). 그후 케양부위를 포함하여 광범위하게 종괴를 절제한 후 대

둔근 이식과 대퇴근막장근 이식을 이용하여 케양부위를 덮는 수술을 받았다. 당시의 수술소견상 좌골이 파괴되어 있었고 삼출물이 흘러나왔다. 피부와 연부조직의 절손은 19.5×13 cm였으며 피부결손부에서 다결절성의 연한 갈색 종괴가 보였는데 이들은 폴립처럼 보였고 결절의 표면은 매끄러웠으며 부분적으로 괴사부위도 관찰되었다. 당시 절제된 종괴의 단면은 미만성으로 연한 황갈색이면서 섬유성이었고 부분적으로 점액성이었으며 종괴-피하조직간의 경계는 분명치 않았다. 절제된 종괴는 현미경적으로 육아조직으로 구성되어 있었다고 하며 좌골은 만성 골수염상을 보였다. 수술한지 4일째 되는 날 대퇴근막장근이식 경계부위에 염증변화가 관찰되었고 9일째 대퇴근막장근이식 경계부위에 커다란 종괴가 관찰되었으며 그 주위에서는 작은 종괴들도 관찰되었다.

환자는 수술후 13일째 종괴 표면의 염증반응과 괴사 때문에 서울대학교병원으로 전원되었다. 좌골골수의 반복 세균배양검사서 연쇄상 구균 group D와 녹농균이 자랐다. 혈액검사상 헤모글로빈 9.6 g/dL, 백혈구 10,700/mm³였으며 혈중 총단백 6.2 g/dl, 알부민 2.7 g/dl이었다. 입원 보름후 시행한 자기공명영상 사진에서는 우측 대둔근, 대퇴내갈래근, 좌골구멍근과 피하조직에 걸쳐 불규칙한 경계의 저신호 병변이 관찰되었으며 우측좌골까지 침범하고 있었다. 종괴부는 불균등한 증강을 보였다. 임상상을 바탕으로 악성종양을 의심하고 광범위 절제술과 배상형성술(saucerization) 및 근피관막 조직이식을 하였다.

절제된 조직은 15×9×3 cm 크기의 큰 종괴로서 표면은 분홍빛이면서 울퉁불퉁했고 노르스름한 섬유

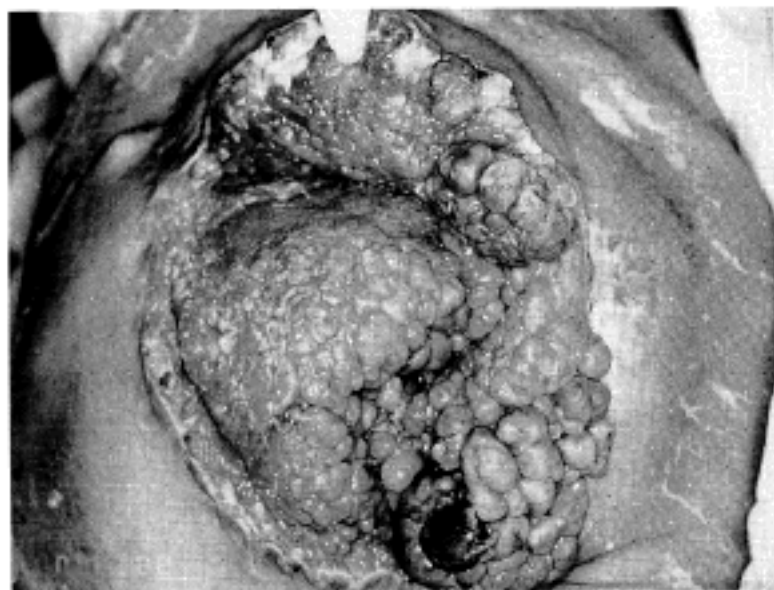


Fig. 1. Preoperative view of the firstly recognized nodular lesion in the right buttock. It shows a 10 cm, ill-defined, nodular surface of the growing mass.

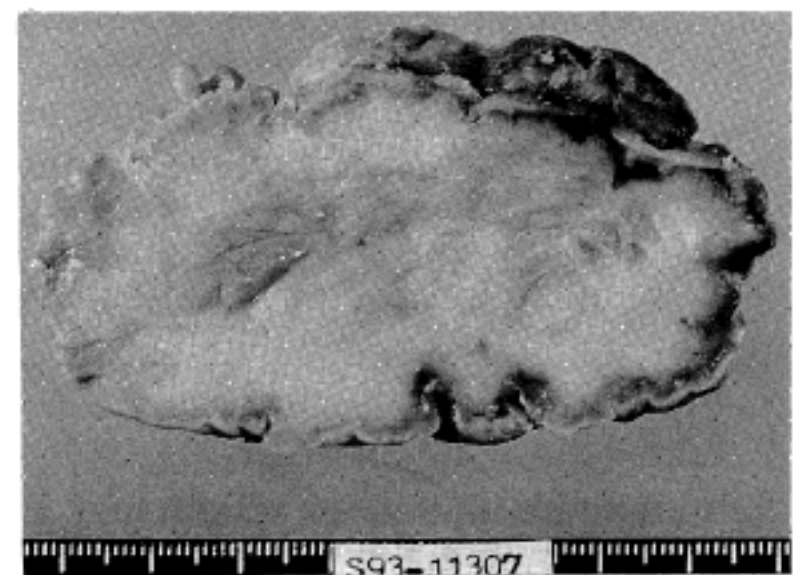


Fig. 2. Transverse section of the removed mass measuring 15×9×5 cm. It shows pinkish, irregularly variegated outer margin with scar-like induration of the deeper portion which is intermingled with skeletal muscle in the center.

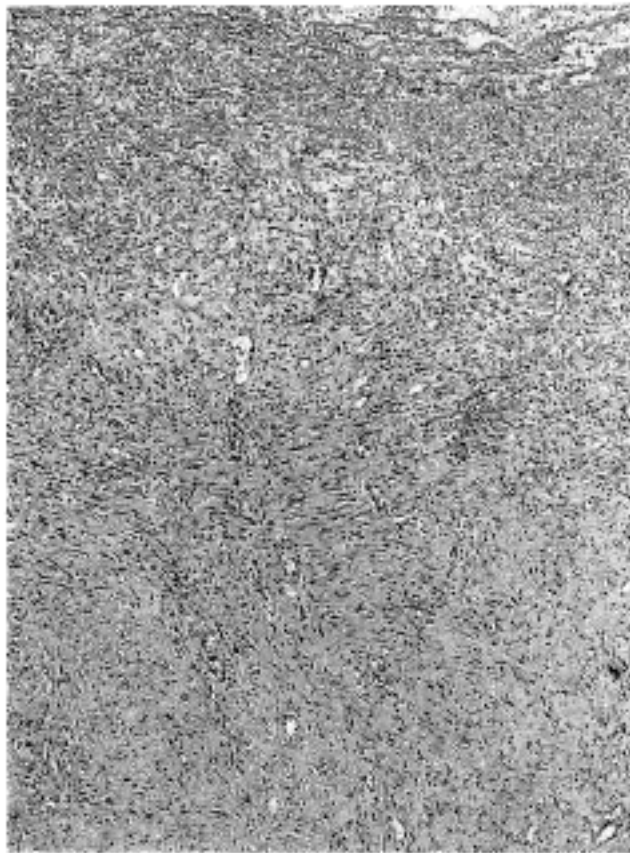


Fig. 3. Photomicrographs of the upper portion of the mass. The superficial active granulation tissue transforms into a more dense fibrocollagenous tissue in the bottom.

소성 삼출물로 덮여 있었다. 단면은 전반적으로 황백색이며 점액성으로 보이는 부위가 군데 군데 관찰되었다. 종괴는 상당히 단단하였고 심부의 근육 사이로 섬유성 조직이 파고 들어가 있었다(Fig. 2). 종괴의 상층부는 분홍빛이고 점액성이었으며 현미경적으로 부종이 심하고 혈관확장을 동반한 혈관증식과 심한 섬유모세포의 증식을 보이는 염증성 육아조직으로 이루어져 있었고(Fig. 3) 부분적으로는 중성구가 모여 있는 부위도 있었다. 섬유모세포는 풍부한 세포질과 크고 농염된 핵을 지닌 다형성세포로 되어 있었고 핵소체가 뚜렷하게 보여 일견 악성간엽성종양을 의심케 하였으나 유사분열은 보이지 않았다(Fig. 4). 육아조직 사이에는 대식세포, 중성구, 호산구, 림프구 등이 관찰되었고 세포잔체가 섞여 있었다. 표면에서 아래로 내려갈수록 교원섬유 침착이 점점 많아지며 섬유모세포는 보다 방추상으로 보였고 혈관 숫자도 감소하여 섬유다발상 배열을 보이기도 하였으며 주위의 지방조직과 근섬유 사이의 침윤상을 보였다(Fig. 5). 일부 근섬유는 교원섬유로 둘러싸여 있었으며 심한 위축-재생상을 보였다. 일부 지방조직은 지방괴사를 보였고 교원섬유화가 심한 부위에서는 석회화를 동반하였다. 혈철소를 함유하고 있는 대식세포들이 산재하였고 이물거대세포를 포함한 이물육아종이 관찰되었다.

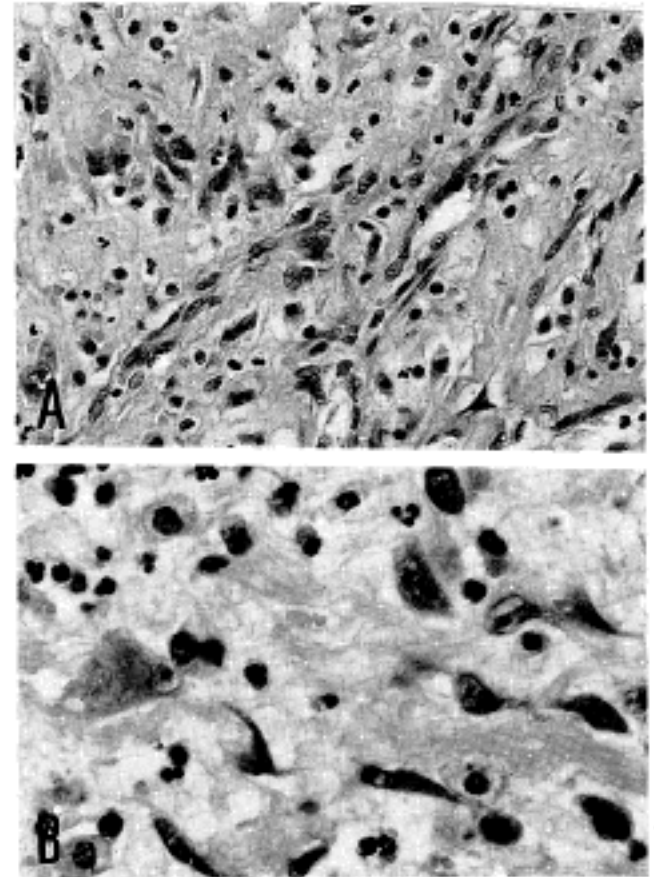


Fig. 4. High power view of Fig 3. A: Numerous capillaries and young fibroblastic proliferation are admixed with inflammatory infiltrates. B: The fibroblasts in the inflamed superficial granulation tissue appear bizarre, mimicking malignant mesenchymal cells.

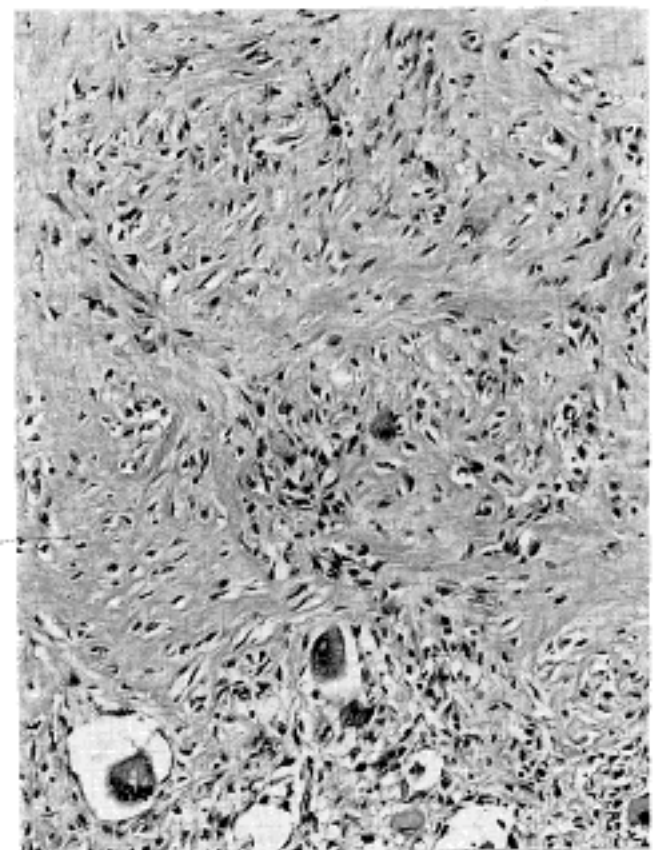


Fig. 5. Fasciculating bundles of fibroblasts and large amount of collagen laydown reveal active ingrowth extending into the degenerating skeletal muscle at the bottom.

고찰: 본 증례의 가장 큰 특징은 욕창부의 반복된 절제후 욕창 발생 1년 이내에 여러번에 걸쳐 큰 종괴를 형성한 점이다. 대부분의 욕창환자 처럼 혈청내 알부민치가 떨어져 있어서 피부 결손부위가 궤양성병변으로 존속하는 지연성 수복과정을 거칠 것이라는 예상과는 대조적으로 오히려 종괴를 만든 것이다. 이러한 종괴형성기전은 분명치 않으나 병력 및 병리학적 소견을 바탕으로 아래와 같은 가능성을 추정할 수 있다.

첫째는 욕창성 괴양부의 외과적 절제에 의한 keloid 성 교원섬유의 침착 가능성이다. 그러나 현미경적으로 keloid의 특징인 종창된 결체조직의 침착을 보이지 않는다는 점 임상적으로 keloid 병력이 없는 것으로 구별이 가능하다.

두번째는 종괴가 짧은 기간중에 급속히 성장하여 임상적으로 피부상피의 편평상피암종이나 간엽성 악성종양의 발생 즉 Marjolin ulcer를 의심케 하였으나⁴ 현미경적으로 종괴의 대부분은 섬유성 조직일 뿐 아니라 세포성분이 반응성이며 악성종양의 발생을 뒷받침하는 조직학적 근거가 없었다.

세번째로는 증식성 근막염이나 증식성 근염을 들 수 있다. 성글게 산재되어 있는 다형성의 포동포동한 간엽성세포의 증식과 섬유침착 및 염증성 조직반응이 이 종괴를 구성하고 있어서 증식성 근막염을 의심케 하였으나 과세포성인 부위가 없을 뿐 아니라 상당히 넓은 부위의 육아조직과 활동성 염증부위가 혼재하고 있었으며, 그리고 넓은 부위의 교원섬유증 병변의 존재를 설명할 수 없다⁵.

네번째 가능성은 드물지만 욕창의 드문 조직반응으로서 간엽성조직의 증식을 주로 한 염증성 가성종양이다. 본증례에서 보인 종괴는 비교적 균일한 방추상 모양의 섬유모세포의 증식과 풍부한 교원섬유의 침착, 소량의 혈철소 침착, 림프구, 형질세포 및 단핵구 등 만성 염증세포의 침윤이 전종괴에 걸쳐 산재해 있고 육아조직으로 된 부위가 섞여 있는 점은 염증성 가성종양을 의심케 하였지만 교원섬유성 결절의 존재는 염증성 가성종양으로 설명될 수 없다.

다섯번째로 Montgomery 등이 제의한 비정형 욕창성 섬유증 (atypical decubital fibroplasia)을 들 수 있다⁶. 이들은 오랜 침상 또는 휠체어 생활을 해온 환자에서 자신의 체중에 의하여 지속적 압력을 받은 부위가 근막염에서 처럼 큰 신경절세포에 유사한 섬유모세포의 증식을 보인 비정형 욕창성 섬유증 28예를 보고하였다. 이 병변은 임상적으로는 욕창성 궤양환자에 비해 상대적으로 오랜기간 동안에 생기고

피부 궤양을 동반하지 않으며, 섬유소양 괴사에 의해 지도상 병변대가 형성되고, 현저한 점액양 기질을 갖는다는 점에서 일부 구별이 가능하다. 그러나 이들은 비정형 욕창성 섬유증식증이 욕창성 궤양의 심부성 변이일 가능성도 있다고 주석을 달고 있다. Perosio 등도 Montgomery 등이 제의한 비정형 욕창성 섬유증과 비슷한 조직상을 보이는 6예를 허혈성 근막염(ischemic fasciitis)라는 용어로 보고하였으며⁷, 그 발생기전은 욕창성 궤양과 유사하지만 허혈성 손상의 정도가 심하지 않고 간헐적이기 때문에 궤양을 형성하지 않은 것으로 추정하였다.

본 증례의 종괴는 크게 두 부분 즉 육아조직 형성이 활발한 표층부와 그 아래의 넓은 결절성이고 섬유종증 처럼 보이는 부위로 구성되어 있었다. 이들 간의 점차적 이행이 있는 점으로 미루어 보아 이 환자의 욕창성 창상 치유과정에서 육아조직 생성이 억제되기 보다는 반복된 외과적 수술에 의하여 과잉생성된 것 즉 변조된 수복성 변화를 유도한 것이라고 해석할 수 있다. 바꾸어 말해서 국소허혈에 의해 생긴 욕창성 병변이 반복된 욕창제거수술로 인해 육아조직 과잉생성을 유발하고 또한 궤양화된 표면으로부터의 지속된 염증성 자극에 의하여 육아조직이 과잉생성되고 일부 구성세포가 반응성 세포이형성을 일으킨 종괴성 수복과정이라고 생각된다. 따라서 증식성 근염이나 근막염 및 가성 종양성증식을 담은 부위가 반흔성 증식부와 혼재하게 되는 것이다.

결국 이 환자에서는 뼈의 돌출부위가 지속적 압력을 받아 욕창성 궤양의 형태로 발현하였지만 국소적 허혈상태와 반복되는 절제로 변조된 육아조직상의 수복성 증식이 반흔성/증식성 근막염상의 종괴로 자라 이런 가성종양을 형성하게 된 것이라고 여겨진다. 이런 경우 욕창종(decubitoma)이라고 명명하여 임상적으로 악성종양과 혼선이 오지 않도록 유념해 둘 필요가 있다.

참 고 문 헌

1. Allman RM, Laprade CA, Noel LB, et al. Pressure sores among hospitalized patients. *Ann Intern Med* 1986; 105: 337-42.
2. Ruberg RL. Role of nutrition in wound healing. *Surg Clin North Am* 1984; 64: 705-14.
3. Rhoads JE, Alexander CE. Nutritional problems of surgical patients. *Ann NY Acad Sci* 1955; 63: 268-75.
4. Fishman JR, Parker MG. Malignancy and chronic wounds; Marjolin's ulcer. *J Burn Care Rehabil* 1991; 12: 218-23.

5. Enzinger FM, Weiss SW. Soft Tissue Tumors. 2nd ed. CV Mosby 1988; 136-63.
 6. Montgomery EA, Meis JM, Mitchell MS, Enzinger FM. Atypical decubital fibroplasia: A distinctive fibroblastic pseudotumor occurring in debilitated patients. *Am J Surg Pathol* 1992; 16: 708-15.
 7. Perosio PM, Weiss SW. Ischemic fasciitis; A juxta-skeletal fibroblastic proliferation with a predilection for elderly patients. *Modern Pathology* 1993; 6: 69-72.
-