

편평세포암종으로 오인된 협부에 발생한 간질 호산구 증다증을 동반한 외상성 궤양성 육아종: 증례보고

권진일¹ · 김현우¹ · 남 웅^{1,2} · 차인호^{1,2} · 김형준¹연세대학교 치과대학 ¹구강악안면외과학교실, ²구강종양연구소**Abstract** (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2010;36:217-20)

Traumatic ulcerative granuloma misjudged as oral squamous cell carcinoma (SCC) on the buccal cheek: case report

Jin-Il Kwon¹, Hyun-woo Kim¹, Woong Nam^{1,2}, In-Ho Cha^{1,2}, Hyung Jun Kim¹¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery and ²Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University, Seoul, Korea

Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia (TUGSE) is an ulcerative lesion on oral mucosa featuring as a benign mass of self-limiting growth. It can be easily misdiagnosed as squamous cell carcinoma (SCC) due to its long healing period and elevated or rolled-up margin. A 57-year old male patient who visited our department was diagnosed as SCC according to the clinical features, results of positron emission tomography (PET) and magnetic resonance imaging (MRI) of the oral lesion. However, after performing incisional biopsy, histopathologically, there were no atypical cells, but eosinophil and CD 30+ T-cells were clustered in subcutaneous and muscle tissue. It is very significant to consider this reactive lesion in the field of oral and maxillofacial surgery because of its possibility of mistaken as malignant disease. Here, we will report a couple of cases of TUGSE with references and limit of radiographic tools used for diagnosis of head and neck cancer.

Key words: Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia (TUGSE)

(원고접수일 2010.3.28 / 1차수정일 2010.4.23 / 2차수정일 2010.5.14 / 게재확정일 2010.5.31)

I. 서 론

Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia (TUGSE)는 흔치 않은 구강 내 궤양성 병소로 만성적이며, 양성의 자기제한적인 병소이다^{1,2}. 하지만 관찰되는 임상양상은 용기되고 내측으로 함몰된 변연, 공격적인 외양과 크기로 인하여 편평세포암종으로 흔히 오인된다¹. 원인 요소는 만성적인 자극으로 인한 점막과괴로 생각하며³, 조직병리 소견으로는 호중구와 다른 염증세포가 상피층을 넘어 하방의 근육층까지 침범된 특징적 양상을 보이고^{1,2,4}, 면역검사에서 CD30+T-cell이 특징적으로 나타난다^{1,5,6}. 치료를 위하여 병소의 절제와 원인 자극요소의 제거, 주기적인 관찰이 필요하다^{1,2}. 하지만 암종으로 오인되는 특징적인 임상양상으로 인해 광범위한 수술과 재건을 계획하기도

하여 술전 절개생검술과 임상가의 주의가 필수이다. 저자들은 본원에 내원한 TUGSE 환자를 성공적으로 치료한 경험을 하였기에 이를 보고하고자 한다.

II. 증례보고

57세 남자 환자가 우측 협부에 1개월 전부터 인지한 무통성의 궤양성 병소를 주소로 본과에 내원하였다. 내원하기 전까지 특기할 만한 증상은 없었고 병소 크기의 증가를 기술했었다. 2006년 간질지속증(status epilepticus)으로 본원 신경과에서 입원치료를 받은 기왕력이 있었으며, 구강위생상태는 불량하였다. 임상검진 결과 우측 협부에 약 1.5×1.5 cm 크기의 용기되고 함몰된 변연을 가진 불규칙한 표면의 궤양성 병변을 관찰할 수 있었다.(Figs. 1, 2) 자발통은 없었고 궤양을 촉진 시 하방의 조직으로 침습되어 있음을 확인할 수 있었다. 양수와 양지를 이용한 경부의 림프절 평가 시 우측의 level IA, level II에 고정되지 않은 경부 임프절을 촉진할 수 있었다.

진단을 위해 입원하여 자기공명영상 촬영(Fig. 3), F¹⁸-fluorodeoxyglucose positron emission tomography (F¹⁸-FDG-PET) 촬영하였으며(Fig. 4), 두 가지 검사의 판독 결과 모두

김 형 준

120-752 서울시 서대문구 성산로 250

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Hyung Jun Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery

College of Dentistry, Yonsei University

250 Seongsanno, Seodaemoon Gu, Seoul, 120-752, Korea

TEL: 82-2-2228-3132 FAX: 82-2-2227-8022

E-mail: kimoms@yuhs.ac

우측 혀부의 원발성 악성종양, 우측의 전이 경부 임파절로 판독되었으며, 따라서 임상적, 방사선학적, 핵의학적으로 oral cavity cancer, right buccal mucosa, stage: T2N2bM0로 진단하였다. 수술 전 최종 확인을 위하여 절개 생검술을 시행

하였다. 병리 결과는 외상성 육아종이었으며, 정확한 진단을 위하여 좀 더 심부의 조직을 포함한 전층의 동결절편을 채득하였으나 결과는 동일하여 환자는 당일 퇴원하고 외래 통원으로 관찰하기로 하였다.

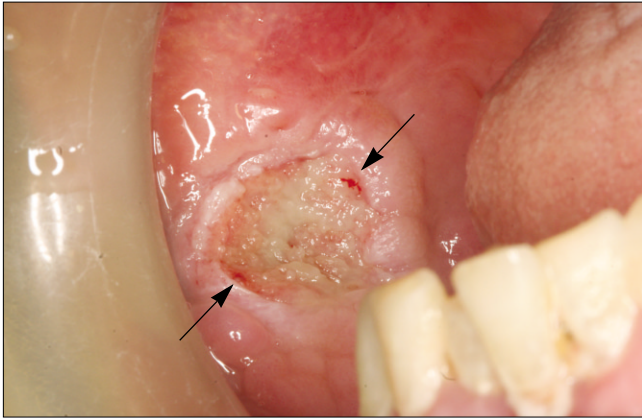


Fig. 1. Intraoral view of Rt. buccal cheek lesion showing rolled-up margin.



Fig. 2. Panoramic view showing sharp tooth cusp of #15.

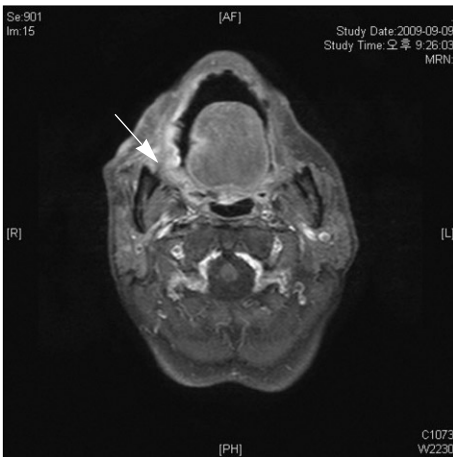


Fig. 3. Coronal and axial MRI showing soft tissue mass on right buccal cheek. (MRI: magnetic resonance imaging)

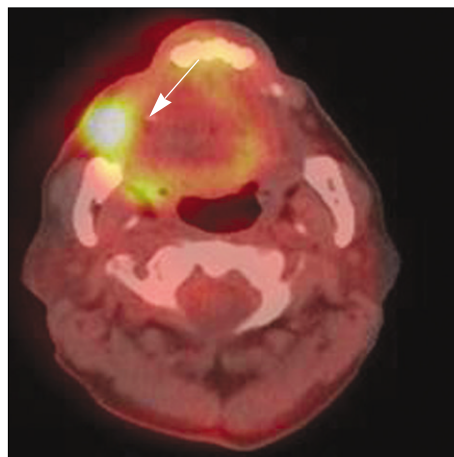
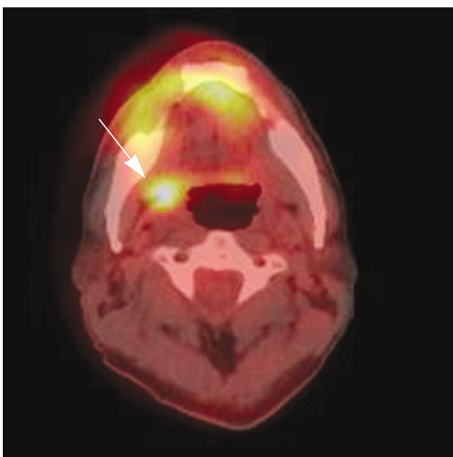


Fig. 4. F¹⁸-FDG-PET showing uptake of FDG on right buccal cheek and right submandibular area. (F¹⁸-FDG-PET: F18-fluorodeoxyglucose positron emission tomography)

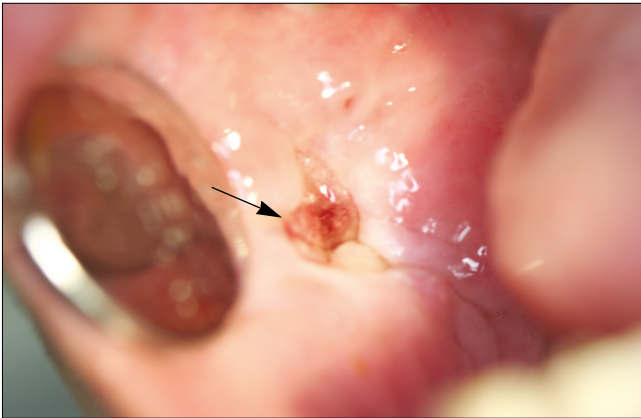


Fig. 5. Intraoral view of 1-week after incisional biopsy showing healing of lesion and decrease of mass size.



Fig. 6. Intraoral view of 1-month after incisional biopsy showing verrucous exophytic mass on primary site.

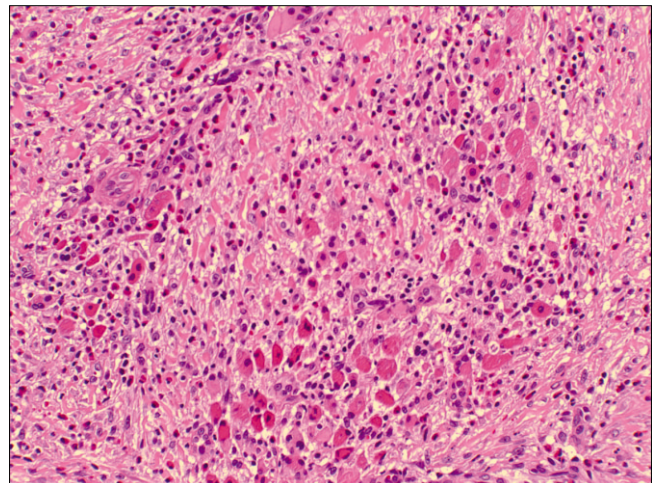
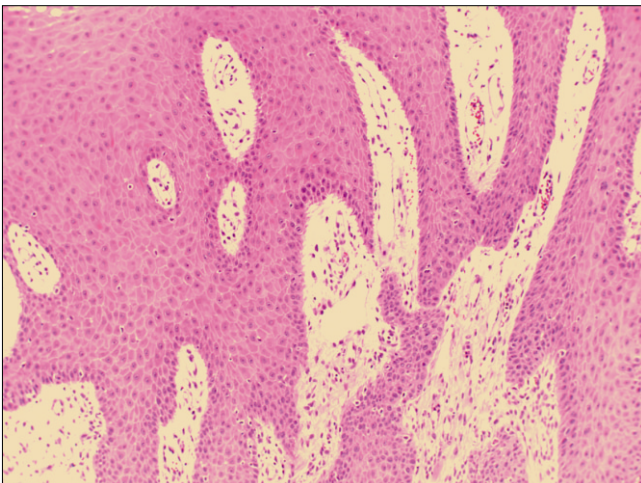


Fig. 7. Histologic section.(H&E staining, original magnification $\times 100$ (left), $\times 400$ (right))

TUGSE is characterized by infiltrated eosinophils in muscle tissue and abundant inflammatory cell on mucosa and connective tissue. But there is no basal cell dysplasia.

(TUGSE: traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia)

2000년 9월 22일 재내원 시 현저히 감소된 병소로 인하여 TUGSE임을 임상적으로 확인하였으며(Fig. 5), 원인 자극 요소로 의심되는 우측 상악 제1대구치를 발치하기로 하였다. 동년 10월 22일 다시 내원하였으나 우측 상악의 외상성 병소가 다시 생겨 절제생검술을 시행하였으며(Fig. 6), 1주일 뒤 생검 결과는 역시 외상성 육아종으로 동일하였다.

현재 환자는 본원 치주과, 보존과, 구강악안면외과에서 구강위생관리 및 발치를 시행했으며 특별한 재발 소견이 없으며 추적 관찰 중이다.

Ⅲ. 고 찰

TUGSE는 양성의 자기제한적 성장을 보이는 구강점막의

궤양성 병소로 흔히 단기간에 낫지 않는 궤양 병소라는 점과 용기되고 함몰된 변연으로 인해 편평세포암종으로 오인하기 쉽다^{1,2}. TUGSE의 진단적 어려움은 eosinophilic ulcer, Riga-Fede disease, oral traumatic granuloma, ulcerative eosinophilic granuloma 등 여러 병명으로 불리는 것으로 알 수 있다²⁷. 본 교실에 내원한 57세 남자 환자는 이러한 임상 양상 및 PET, 자기공명영상 검사에서 편평세포암종으로 진단되었으나, 절개생검 시행 시 병리조직학적으로는 비정형세포는 관찰되지 않으며, 호산구와 CD30+T-cell의 군집이 특징적으로 상피하조직, 근육조직까지 침투해 있는 것을 관찰할 수 있었다.(Fig. 7) 이러한 임상적으로 악성으로 오인될 수 있는 반응성 병소를 고찰하는 것은 구강악안면외과 영역에서 큰 의미를 갖는다고 할 수 있다.

임상양상은 용기되고 경화된 변연을 가진 궤양성 병소로 감별진단이 필요한 병소로는 편평세포암종, 매독, 결핵, 히스토플라스마증, 괴사성 세균감염증, 랑게르한스세포조직구 증식증, 홍반성 낭창 등이다². 병소의 지속기간은 대부분 몇 주 정도로 보고되고 있으나 수개월간 지속되는 증례도 보고되고 있다^{1,2}.

조직학적으로 TUGSE의 명확한 특징은 다수의 호산구가 관찰된다는 것이다^{1-4,7}. 이것은 보통의 구강 내 외상성 육아종과는 다른 특징을 지니지만⁷, 그 기전은 명확히 밝혀지지 않았다. Elzay 등⁶은 이것이 조직 자극 후 일어나는 점막과 괴에 의해 생성된 불명의 자가항원에 의한 것이라고 주장하였다. Elovic 등³은 호산구에 의한 성장인자의 생성 저해가 TUGSE의 지연된 치유의 원인요소라고 주장하였다. 최근의 임상연구, 동물실험 결과는 만성적인 자극이 TUGSE의 주된 원인요소라는 주장을 뒷받침 해준다. 또한 비정형의 단핵구는 다른 주요한 조직학적 특성이다. 이 세포를 Regezi 등⁴은 CD68+인 대식세포라 주장하였으며, El-Mofty 등은 Vimentin기를 가진 근섬유모세포라 주장하였으나 면역형광염색상 이것은 CD30+ 림프구임이 밝혀졌으며^{5,6,8}, 따라서 Ficarra 등⁵은 TUGSE를 진성의 CD+30 림프종이라고 주장하였다. TUGSE를 진성의 림프구양성종양 이라고 하기 위해서는 세포분열상의 증가, 비정형세포 수의 증가, 혈관벽으로의 침투 등이 관찰되어야 한다. 하지만 조직학적, 면역형광적 방법으로 이것을 감별진단할 수 없기 때문에 진성의 림프종과의 감별은 병리의 영역에서 논쟁의 대상이다.

TUGSE의 예후는 일반적으로 매우 좋다고 보고 되고 있다. 절개생검, 절제생검과 원인의 제거 만으로도 재발은 흔하지 않으며 자발적인 치유가 되는 것이 대부분이다^{1,2}.

그 병리조직학적인 기원, 발생원인에 대한 논쟁은 존재

하지만, 분명한 것은 TUGSE는 임상적으로 악성으로 오인될 수 있는 양성의 질환임을 알아야 하며, 따라서 치료는 반드시 보존적이어야 한다. 또한 구강암 환자에서 술전에 자기공명영상, F¹⁸-FDG-PET을 통한 영상진단이 보편화되어 있지만, 반드시 술전 생검을 통하여 병리조직학적 확인이 선행되어야 한다.

References

1. Hirshberg A, Amariglio N, Akrish S, Yahalom R, Rosenbaum H, Okon E, *et al.* Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia: a reactive lesion of the oral mucosa. *Am J Clin Pathol* 2006;126:522-9.
2. Boffano P, Gallesio C, Campisi P, Rocchia F. Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia of the retromolar region. *J Craniofac Surg* 2009;20:2150-2.
3. Elovic AE, Gallagher GT, Kabani S, Galli SJ, Weller PF, Wong DT. Lack of TGF-alpha and TGF-beta 1 synthesis by human eosinophils in chronic oral ulcers. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;81:672-81.
4. Regezi JA, Zarbo RJ, Daniels TE, Greenspan JS. Oral traumatic granuloma. Characterization of the cellular infiltrate. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993;75:723-7.
5. Ficarra G, Prignano F, Romagnoli P. Traumatic eosinophilic granuloma of the oral mucosa: a CD30+(Ki-1) lymphoproliferative disorder? *Oral Oncol* 1997;33:375-9.
6. Elzay RP. Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia (Riga-Fede's disease and traumatic eosinophilic granuloma). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1983;55:497-506.
7. Salisbury CL, Budnick SD, Li S. T-cell receptor gene rearrangement and CD30 immunoreactivity in traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia of the oral cavity. *Am J Clin Pathol* 2009;132:722-7.
8. Segura S, Romero D, Mascaro JM Jr, Colomo L, Ferrando J, Estrach T. Eosinophilic ulcer of the oral mucosa: another histological simulator of CD30+ lymphoproliferative disorders. *Br J Dermatol* 2006;155:460-3.