



## 이개 상부의 재발성 결절성 근막염

김동조<sup>1</sup> · 최성욱<sup>1</sup> · 황청수<sup>2</sup> · 이현민<sup>1</sup>

부산대학교 의과대학 양산부산대학교병원 이비인후과학교실,<sup>1</sup>  
부산대학교 의과대학 양산부산대학교병원 병리학교실<sup>2</sup>

### A Case of Recurred Nodular Fasciitis in Supraauricular Region

Dong-Jo Kim<sup>1</sup>, Seong-Wook Choi<sup>1</sup>, Chung-Su Hwang<sup>2</sup>, Hyun-Min Lee<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University College of Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

<sup>2</sup>Department of Pathology, Pusan National University College of Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

#### ABSTRACT

Nodular fasciitis is a benign proliferative disease of fibroblasts and myofibroblasts in the subcutaneous tissues. It is confused with sarcoma because of its rapid growth, mitotic activity and high cellularity. It is thought to be reactive hyperplasia rather than a true tumor, but the exact cause of the nodular fasciitis is unknown. Nodular fasciitis rarely occurs in the auricular region. To our knowledge, less than 20 cases in ear have been reported to date. Furthermore, until now there have been no reports of such a case in supraauricular region. We report a case of recurred nodular fasciitis that occurred in a supraauricular region with a literature review.

**KEY WORDS:** Benign neoplasm; Ear auricle; Fasciitis; Recurrence.

#### 서론

결절성 근막염은 피하연부조직에서 발생하는 섬유아세포와 근섬유아세포의 양성 증식성 병변으로 빠른 성장과 세포분열, 과밀한 세포충실도 등의 임상양상과 조직소견이 연부조직 육종과 유사한 양상을 나타내기 때문에 가육종성 근막염(pseudosarcomatous fasciitis)으로도 불린다.<sup>1,2)</sup> 결절성 근막염은 아직 정확한 발생기원이 밝혀지지 않았으며, 이것은 실제 종양이라기보다 반응성 증식성 질환으로 인식되어 왔다.<sup>3)</sup> 결절성 근막염은 주로 성인의 상하지에서 호발하며, 특히

전완(forearm)에서 많이 발생하며, 귀 주변 영역에서는 상대적으로 드물게 발생한다.<sup>4)</sup> 국소적 완전 절제가 치료의 기본이며 매우 드물게 재발하는 경우도 있다. 저자들은 아직 국내에 보고가 없는 이개 상부에 발생한 재발성 결절성 근막염을 국소적 완전 절제를 통해 치유하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

#### 증례

특별한 기저질환이나 가족력이 없고 두개 및 안면부의 외

Received: July 8, 2022 / Revised: August 16, 2022 / Accepted: September 18, 2022

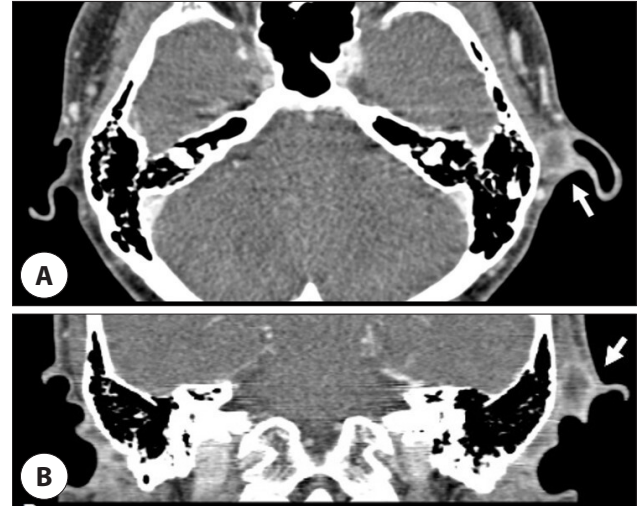
Corresponding author: Hyun-Min Lee, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University College of Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan 50612, Korea

Tel: +82-55-360-2132, Fax: +82-55-360-2162, E-mail: enthmllee@gmail.com

Copyright © 2022. The Busan, Ulsan, Gyeongnam Branch of Korean Society of Otolaryngology-Head and Neck Surgery.

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

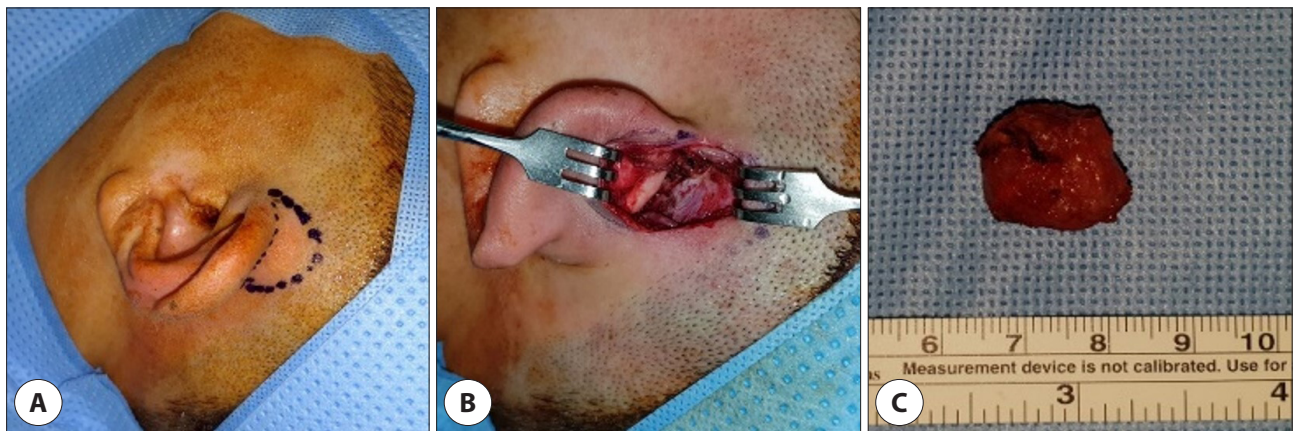
상이나 피부질환의 병력도 없는 29세 남성이, 내원 2달 전부터 발생한 좌측 이개 상부의 종물을 주소로 본원 이비인후과에 내원하였다. 신체 검진상 좌측 이개 상부의 1.5×1.5 cm의 딱딱하고 가동성 없는 무통성의 종괴가 만져졌으며, 두개 안면부 및 경부 진찰 소견상 다른 부위의 림프절 종대 등의 이상 소견은 없었다(Fig. 1A). 측두골 컴퓨터단층촬영검사상 좌측 이개 상부에 균일한 조영 증강을 보이는, 주위와 경계가 명확한 1.5×1.5 cm 크기의 종물이 확인되었다(Fig. 2). 주위 조직 침범이나 림프절 비대 등의 병적 소견은 없었다. 상기 소견으로 피하조직 기원의 양성 종양 의심하에 수술적 제거를 시행하기로 하였다. 전신마취하에 수술용 미세 현미경을 사용하여 확대된 시야에서 수술을 진행하였다. 종물의 바로 위에서 약 3 cm 길이로 피부를 절개한 후, 피부와 종물을 박리하여 피부를 보존한 채로 종물을 주변 결합조직, 근막, 이개 연골과 박리하고 완전 절제하였으며, 수술 중 소견상 종물과 이주연골과의 유착은 없었다(Fig. 1B, C). 제거한 종물을 병리학적으로 관찰한 결과, 저배율에서 병변은 대체로 침윤성 성장을 하고 있었으며, 고배율에서 병변은 다양한 세포충실성(cellularity)을 가지는 방추세포(spindle cell)의 짧은 다발형태(short fascicular)의 증식으로 이루어져 있고, 점액모양(myxoid) 또는 아교성(collagenous) 간질을 가지고 있었다. 비록 방추세포들은 경미한(mild) 정도의 핵이상(nuclear atypia)을 보이고, 일부 방추세포들은 핵소체(nucleoli)를 보이기도 하지만, 육종(sarcoma)을 시사하는 비정상 세포 분열(atypical mitoses)은 관찰되지 않았다. 또한 여러 부분에서 적혈구의 혈관 외 유출(extravasation)과 염증세포의 침윤이 관찰되었다. 거의 모든 방추세포들은 smooth muscle actin(SMA) 면



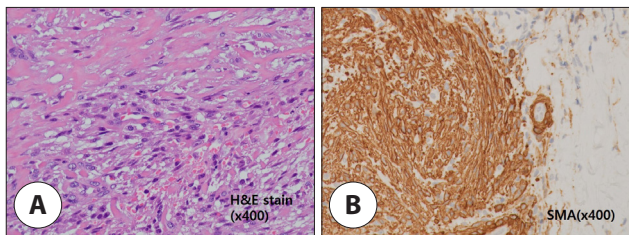
**Fig. 2.** Preoperative contrast enhanced temporal bone computed tomography (CT) findings. On axial scan (A) and coronal scan (B). It shows 1.5×1.5 cm sized, oval, cystic mass with peripheral enhancement at left supraauricular area (white arrows).

역염색에 대해서 tram-track 형태로 양성을 보였다(Fig. 3). 이러한 소견들을 종합한 결과 이개 상부에 발생한 종물은 결절 근막염(nodular fasciitis)으로 확인되었다. 수술 이후 5일째 퇴원하고, 술 후 7일째에 봉합사를 제거하였다. 술 후 2개월까지 통증이나 부종 감염 출혈과 같은 부작용이나 재발소견 없이 경과관찰하였으며, 특이소견이 보이면 재내원하기로 경과관찰을 종결하였다.

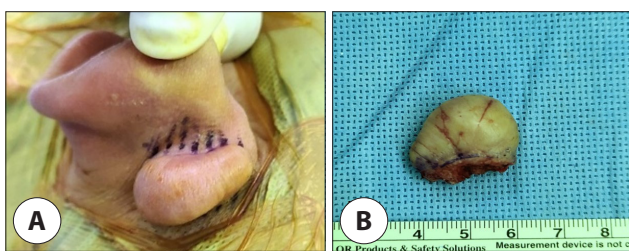
환자는 수술 36개월 후 절개연 부위에 약 2.6 cm 크기의 종물이 다시 발생하여 내원하였다(Fig. 4A). 환자는 이통이나 출혈 등 다른 증상을 호소하지는 않았으나 마스크 착용 등의 불편을 호소하였다. 환자와 의논하여 해당 병변의 재발이나 수



**Fig. 1.** Preoperative local findings of supraauricular mass (A), intraoperative findings after removing supraauricular mass (B) and dissected supraauricular mass (C). It shows 1.5×1.5 cm sized hard round mass at the left supraauricular region. In operation field, the mass did not have severe adhesion with the surrounding tissues.



**Fig. 3.** Histopathologic photographs. Spindle cell had mild nuclear atypia and some spindle cells showed nucleoli. However, there were no atypical mitoses which suggest sarcoma. A: Multifocal area of the lesion showed red blood cell extravasation and inflammatory cell infiltration (H&E stain, ×400). B: Spindle cells were positive for SMA with tram-track pattern which indicate that the spindle cells show fibroblastic or myofibroblastic differentiation (SMA, ×400). SMA: smooth muscle actin.



**Fig. 4.** The supraauricular mass grew again in the same location after 36 months from initial surgery. It shows 2.6×2.1 cm sized hard, round mass at the same region. Preoperative local findings of recurrent supraauricular mass (A) and dissected supraauricular mass (B).

술 부위의 비후성 상처 또는 켈로이드 병변을 의심하고 수술적 제거를 다시 시행하기로 하였다. 전신마취하에서 미세수술 현미경을 사용하여 종물절제술을 다시 시행하였으며, 첫 번째 수술과 비교 시 피부와 종물의 유착이 있었고 재발성임을 고려하여 종물을 덮고 있는 피부를 포함하여 종물을 완전 절제하였다(Fig. 4B, C). 현미경 하 잔여조직 및 출혈이 없음을 확인하고 일차 봉합을 시행하였다. 병리조직학적 검사상 주변 조직과 경계가 불분명한 점액성 기질에 다양한 세포충실성을 가지는 방추세포들의 침습적인 증식 소견을 보였으며, 염증세포 침윤과 적혈구의 혈관 외 유출을 보였다. 상기 소견을 종합하였을 때 최종적으로 재발한 결절성 근막염으로 진단되었으며, 이전의 수술과 마찬가지로 술 후 관리를 시행하였으며 수술 후 4개월째 특이 소견 없이 경과관찰 중이다.

### 고찰

결절성 근막염은 1955년 Konwaler에 의해 최초로 보고되었으며 두경부 영역에서 증례는 비교적 흔하지만 귀 부위의 증례는 전체 결절성 근막염 중 1.5% 정도로 드물다.<sup>4)</sup> 국내

에서는 후 이개부와 이주부 그리고 이개하부에서 발생한 결절성 근막염이 보고된 바 있다.<sup>5,6)</sup> 종물의 빠른 성장과 조직학적 유사성으로 인해 육종 등의 악성 종양으로 오인될 수 있는 양성 반응성 질환으로, 섬유종증(fibromatosis), 피부섬유종(dermatofibroma), 지방종(lipoma), 신경종(neuroma), 신경섬유종(neurofibroma), 신경집종(neurilemmoma), 화농성육아종(pyogenic granuloma)과 같은 양성 질환과 임상적으로 유사성을 보이며, 섬유육종(fibrosarcoma), 점액모양지방육종(myxoid liposarcoma), 점액섬유육종(myxofibrosarcoma)과 같은 악성 종양과의 유사성도 보여 상기 질환들과의 감별 진단이 반드시 필요하다.<sup>3,4)</sup>

결절성 근막염은 반응성 과정이나 염증성 과정의 질환으로 추정되나 아직까지 명확한 발생기전이 밝혀지지는 않았다.<sup>3)</sup> 국소적 외상이 가능한 하나의 원인으로 알려져 있으나 일부만이 선행하는 외상력을 가지고 있다.<sup>7)</sup> 본 증례에서는 외상력은 없었지만 안경 착용과, COVID-19 팬데믹 기간 중 방역을 위한 마스크 착용이 물리적 자극으로 작용해 병변의 재발을 유발한 것으로 추정해 볼 수 있다.

결절성 근막염은 조직학적으로 악성종양과 유사성을 보이며 영상의학적 검사상에서도 악성종양과 감별진단이 어려운 경우가 많다. 전산화단층촬영과 자기공명영상에서 경계가 명확한 연조직성 종괴가 피하에서 관찰되는 경우가 흔하다. 근육층 내로의 침범을 동반한 종괴는 크기가 더 크고 경계가 불명확한 특성을 보인다.<sup>8,9)</sup> Magnetic resonance(MR) 영상에서 신호강도는 다양하게 나타나는데 이는 세포충실도, 콜라겐의 양, 세포질의 양 등의 차이에서 기인한다.<sup>10)</sup> MR 영상에서는 T1 강조영상에서 근육과 동등신호강도, T2 강조영상에서 고신호 강도를 나타내는 소견이 가장 흔하다.<sup>11)</sup> 영상의학적 검사상의 특징이 비전형적이기 때문에 영상의학적 검사만으로는 진단이 어려워 진단을 위해서는 반드시 조직학적검사가 필요하다.

결절성 근막염은 조직학적으로 초기에는 무질서하게 배열된 세포충실도가 높은 다양한 크기의 방추 모양 섬유모세포의 증식을 보인다. 이 때 기질은 섬유점액질이 주를 이룬다. 후기에는 세포충실도가 감소하며 콜라겐이 풍부한 기질이 특징적으로 관찰된다.<sup>12)</sup> 면역조직화학검사상 alpha-SMA vimentin, KP1(anti-CD68) 염색에 양성, S-100, nuclear beta-catenin, desmin 염색에 음성 반응을 보인다.<sup>13)</sup> 결절성 근막염과 악성 종양을 감별하기 위해서는 세포충실성, 성장 양식, 핵의 비정형성을 전반적으로 평가할 필요가 있다. 결절성 근막염은 반응성 병소이기 때문에 일반적인 종양에 비

해서 세포충실성이 떨어지고 무작위적인 배열로 증식하는 경향을 보인다. 또한 적혈구의 혈관 밖 유출(red blood cell extravasation)과 염증세포의 침윤이 동반되어 종양에 비해서 전반적으로 이질적으로(heterogenous) 보이는 경향이 있다.<sup>14)</sup> 악성 종양의 핵의 이형성은 크기와 모양이 다양해지면서 과염색증(hyperchromasia)을 동반하는 반면, 결절성 근막염의 핵의 이형성은 크기와 모양이 다양해지더라도 과염색증보다는 핵이 더욱 연하게 염색되면서 핵소체가 더욱 두드러지는 경향이 있다. 악성 종양은 결절성 근막염에 비해서 세포분열을 더욱 쉽게 관찰할 수 있다. 세포분열이 활발한 결절성 근막염도 흔한데 이런 경우에는 비정형 세포분열의 유무를 확인하는 것이 악성 종양과의 감별에 도움이 된다. 비정형 세포분열이 발견된다면 결절성 근막염보다는 악성 종양일 가능성이 상당히 높다.<sup>15)</sup>

치료는 수술적인 절제가 주된 방법이다. 완전 절제 이후 재발은 1%-2%에서 관찰되는데 이개 부위에서의 재발은 9.3% 정도로 높게 나타난다. 이는 외이부의 해부학적 구조의 복잡성으로 인해 불완전 절제의 가능성이 높아 재발률이 상대적으로 높은 것으로 추정되고 있다.<sup>4)</sup> 그러나 재발하는 경우 중 진단이 잘못된 경우도 있어 재발 시 초기진단을 다시 하는 것이 필요할 수 있다. 또한 피부와 종괴를 박리하여 종괴만을 제거하는 것은 피부에 남은 잔여조직에 의해 재발 가능성이 있으므로, 유착된 피부의 일부를 포함하여 절제하는 것이 재발의 위험을 줄여줄 수 있을 것이다. 그러나 자발적으로 퇴행하는 경우도 있어 경과관찰이나 병변부의 스테로이드 주입술을 권유하는 경우도 있고, 수술 전 악성종양과의 감별이 어려워 너무 광범위한 절제는 피해야 한다는 의견도 존재한다.<sup>3,4)</sup>

본 증례는 이개 상부에서 발생한 결절성 근막염이 재발한 사례이다. 이개 상부는 안경이나 마스크 착용 시 지속적인 물리적 압력이 가해지는 부위이다. 이러한 자극은 결절성 근막염의 재발 가능성을 높이는 요인이 될 수 있어 수술적 방법의 선정에 고려가 필요하다. 향후 이개 상부의 결절성 근막염 치료 시에는 다른 부위에 비해 재발 가능성이 높은 점을 고려하여 최초 수술 시 피부를 함께 제거하는 술식이 고려되어야 할 것이다.

## 결론

결절성 근막염은 조직학적으로 악성종양과 유사한 특성을 지녀 감별이 필요한 병변이다. 상지 및 체부에서 주로 발생하지만 두경부 영역 및 이개 부위에서 발생가능한 종양으로, 세

침흡인검사 및 절제 생검 등을 통해 정확한 진단이 선행되어야 올바른 치료를 시행할 수 있다. 재발가능성을 고려하여 완전 절제가 필요하며, 특히 이개 주위의 병변은 해부학적 구조상 잔여조직이 남을 가능성이 높으므로 유착된 피부를 포함한 완전절제술을 고려하여야 한다.

## Acknowledgements

Not applicable.

## Funding Information

Not applicable.

## Conflicts of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

## ORCID

Dong-Jo Kim, <https://orcid.org/0000-0001-7367-256X>

Seong-Wook Choi, <https://orcid.org/0000-0002-2459-462X>

Chung-Su Hwang, <https://orcid.org/0000-0001-9520-0301>

Hyun-Min Lee, <https://orcid.org/0000-0001-6306-5256>

## Author Contribution

Conceptualization: Kim DJ, Lee HM.

Data curation: Choi SW, Hwang CS.

Formal analysis: Lee HM.

Methodology: Kim DJ, Lee HM.

Software: Choi SW, Hwang CS.

Validation: Kim DJ.

Investigation: Choi SW.

Writing - original draft: Kim DJ.

Writing - review & editing: Kim DJ, Choi SW, Hwang CS, Lee HM.

## Ethics Approval

Research was conducted according to all ethical standards. This study was approved by the Institutional Review Board (IRB) of the Pusan National University Yangsan Hospital, Korea (approval No. 05-2022-135). Informed consent for publication of the images was obtained from the patient.

## References

1. DiNardo LJ, Wetmore RF, Potsic WP. Nodular fasciitis of the head and neck in children: a deceptive lesion. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1991;117(9):1001-2.
2. Konwaler BE, Keasbey L, Kaplan L. Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis (fasciitis). *Am J Clin Pathol* 1955;25(3):241-52.
3. Nishi SPE, Brey NV, Sanchez RL. Dermal nodular fasciitis: three case reports of the head and neck and literature review. *J Cutan Pathol* 2006;33(5):378-82.
4. Thompson LDR, Fanburg-Smith JC, Wenig BM. Nodular fasciitis of the external ear region: a clinicopathologic study of 50 cases. *Ann Diagn Pathol* 2001;5(4):191-8.
5. Yoon TM, Kim RY, Cho SY, Lee JS. Two cases of nodular fasciitis in external ear region. *Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg* 2011;54(10):711-4.
6. Ahn J, Kim S, Park Y. Nodular fasciitis of external auditory canal. *J Pathol Transl Med* 2016;50(5):394-6.
7. Haas AF. Nodular fasciitis of the forehead. *Dermatol Surg* 1999;25(2):140-2.
8. Shin JH, Lee HK, Cho KJ, Han MH, Na DG, Choi CG, et al. Nodular fasciitis of the head and neck: radiographic findings. *Clin Imaging* 2003;27(1):31-7.
9. Toledo AS, Rodriguez J, Cuasay NS, Koch DB, Ray CG 3rd, Langer BG, et al. Nodular fasciitis of the facial region: CT characteristics. *J Comput Assist Tomogr* 1988;12(5):898-9.
10. Wang X, De Schepper A, Vanhoenacker F, De Raeye H, Gielen J, Aparisi F, et al. Nodular fasciitis: correlation of MRI findings and histopathology. *Skeletal Radiol* 2002;31(3):155-61.
11. Kim ST, Kim HJ, Park SW, Baek CH, Byun HS, Kim YM. Nodular fasciitis in the head and neck: CT and MR imaging findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2005;26(10):2617-23.
12. Sapi Z, Lippai Z, Papp G, Hegyi L, Sapi J, Dezso K, et al. Nodular fasciitis: a comprehensive, time-correlated investigation of 17 cases. *Mod Pathol* 2021;34(12):2192-9.
13. Byun YS, Lim SJ, Lee YC. A case of nodular fasciitis presenting as a mass in neck. *J Clinical Otolaryngol* 2015;26(2):317-21.
14. Naidu A, Lerman MA. Clinical pathologic conference case 3: nodular fasciitis. *Head Neck Pathol* 2011;5(3):276-80.
15. Allison DB, Wakely PE Jr, Siddiqui MT, Ali SZ. Nodular fasciitis: a frequent diagnostic pitfall on fine-needle aspiration. *Cancer Cytopathol* 2017;125(1):20-9.