

# Kimura병으로 오인된 경부에 발생한 Hodgkin 림프종 1예

부산대학교병원 이비인후과,<sup>1</sup> 의생명연구원<sup>2</sup>  
김재욱<sup>1</sup> · 김선린<sup>1</sup> · 김덕수<sup>1</sup> · 장전엽<sup>1,2</sup>

## Hodgkin lymphoma Presenting as Cervical Lymphadenopathy Mimicking Kimura Disease : A Case Report

Jae-Wook Kim, MD<sup>1</sup>, Seon-lin Kim, MD<sup>1</sup>, Deok-Soo Kim, MD<sup>1</sup> and Jeon Yeob Jang, MD, PhD<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery; <sup>2</sup>Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, Busan, Korea

### — ABSTRACT —

Cervical lymph node enlargement has been major challenges for head and neck physicians that are necessary to differentiate from various diseases, including inflammatory lymphadenopathy, malignant lymphoma, and metastatic tumor. Kimura disease is a rare, chronic inflammatory disorder of unknown cause. It is frequently associated with cervical lymphadenopathy and is possibly misdiagnosed with malignant tumor, especially lymphoma. The role of conventional fine needle aspiration biopsy (FNAB) appears to be limited in making the differential diagnosis between Kimura disease and malignant lymphoma. Here, we report a 68-year-old man presenting with a growing neck mass mimicking Kimura disease, which was finally diagnosed as Hodgkin lymphoma. Our results highlight that surgical excision biopsy should be considered for uncertain chronic inflammatory lymphadenopathy. (J Clinical Otolaryngol 2016;27:397-400)

**KEY WORDS** : Cervical lymphadenopathy · Kimura disease · Hodgkin lymphoma · Fine needle aspiration.

## 서 론

두경부 영역은 타액선, 갑상선, 경부 림프절, 연부 결합조직 등으로 구성되어 있으며, 특히 림프절이 잘 발달되어 있어서 악성 림프종이나 전이성 종양이 드물지 않게 관찰된다.<sup>1)</sup> Kimura병은 피하조직, 특히 두경부 영역

에 흔히 발생하는 비교적 드문 만성 염증성 질환으로서 종양과 유사한 형태로 관찰되어 악성종양과의 감별이 필요하다.<sup>2)</sup> 두경부 종괴에 대한 세침흡인 세포검사는 양성 병변의 세포학적 특징을 잘 인식하고 진단하면 안전하고 간편하며 신속하게 진단을 내림으로서 환자를 치료할 수 있는 일차적 검사로 널리 이용되고 있다.<sup>3)</sup> 하지만 악성 림프종 등 일부 질환에서는 진단 오진율이 높은 편이며 이 때는 절제 생검이 고려되어야 한다.<sup>4,5)</sup> 저자들은 전산화단층촬영 및 세침흡인 세포검사를 통해 Kimura병으로 오인되었다가 절제 생검을 통해 최종적으로 Hodgkin 림프종으로 진단받은 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

논문접수일 : 2016년 9월 12일  
논문수정일 : 2016년 10월 26일  
심사완료일 : 2016년 11월 22일  
교신저자 : 장전엽, 49241 부산광역시 서구 구덕로 179  
부산대학교병원 이비인후과  
전화 : (051) 240-7336 · 전송 : (051) 246-8668  
E-mail : manup1377@gmail.com

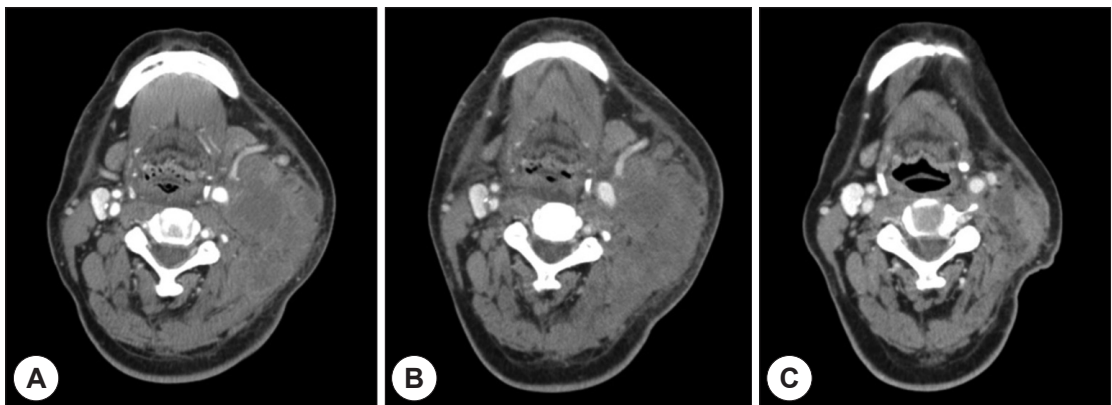
## 증례

68세 남자 환자가 2개월 전부터 발생한 좌측 경부종괴를 주소로 본원에 내원하였다. 과거력 상 타병원에서 조직 검사 및 경부 전산화단층촬영 검사 결과 결핵성 림프절염 의심하에 항결핵제를 복용하였으나, 이후 좌측 경부 종괴의 크기가 증가하면서 피부 발진이 발생하여 항결핵제 복용을 중단한 상태로 본원에 의뢰되었다. 진찰 소견 상 좌측 경부 level II~V에 걸쳐 광범위한 종괴가 축적되었으나, 인후 부위 내시경 검사 결과는 정상이었다. 전산화단층촬영 검사 결과 좌측 경부 level Ib, II~V에 걸쳐 괴사성 림프절이 관찰되었고, 좌측 흉쇄유돌근 주위와 전흉벽의 피하지방층에 연조직염이 동반되어 있는 것으로 사료되었다(Fig. 1A). 초음파 유도하 세침흡인 검사 결과 결핵균은 검출되지 않았으며 활동성 만성염증 소견으로 Kimura병의 의심 된다는 판독이었으며, 혈청 IgE 검사를 통해 확인하라는 권고를 받았다. 이후 시행한 혈액검사 결과 혈청 IgE가 1423 IU/mL로 매우 증가해 있는 소견이었으며, 그 외 CRP가 2.71 mg/dL로, ESR이 51 mm/hr로 증가한 소견이었다. 그 외 시행한 자가면역 질환과 관계된 혈액 검사 결과 WBC, ANCA, FANA, Anti-SSA, Anti-SSB, C3, IgA, IgM, C4, IgA는 정상 범위를 크게 벗어나지 않았다.

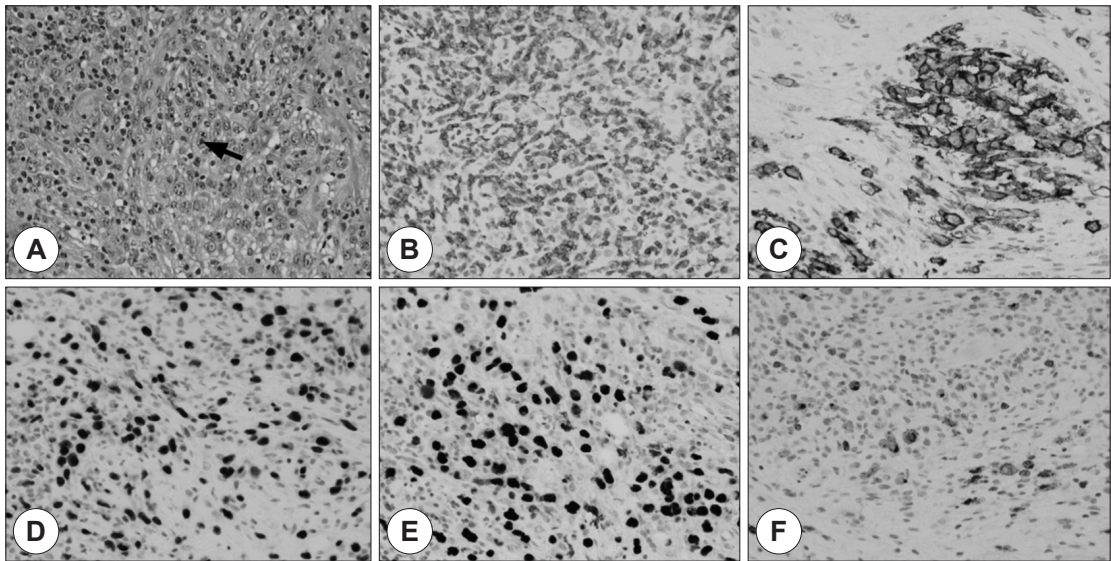
환자 외래 경과관찰 중 경부종괴의 크기 증가에 따라 심한 경부 통증을 호소하였다. 경부 전산화단층촬영 결

과 경부종괴의 크기가 커져있고 병변 부위가 연속적으로 확장되어있는 소견이 관찰되었다. 상기 소견들을 바탕으로 경부의 국소적으로 진행된 Kimura병으로 진단 하에 본원에 입원하여 prednisolone을 kg당 0.5 mg을 기준으로 하루 35 mg로 투약하며 진통제로 통증 치료를 병행하였다. 하지만 1주 후 시행한 경부 전산화단층촬영 결과 경부종괴 크기는 조금 줄어들었으나 대부분은 변화없이 유지되고 있는 소견이었다(Fig. 1B). 스테로이드 치료에 반응이 충분하지 않아 다른 악성 병변에 대한 감별진단을 위해 좌측 경부 절제 생검을 시행하였다. 좌측 절제 생검 조직검사 결과, 작은 림프구들과 광범위한 괴사조직들 사이에 비정형적인 세포들이 상당히 크고 대체로 난형모양으로 세포 공포형성이 심하고 핵소체가 뚜렷이 보이는 핵을 가지고 있었다(Fig. 2A). 그리고 일부에서는 한 세포에 두 개의 핵이 있는 것처럼 보이는 Reed-Sternberg(RS) 세포(Fig. 2A)가 관찰되었는데, 이는 Hodgkin 림프종의 주요한 병리조직 상의 특징이었다. 다른 염색 사진을 보면 CD3 양성(Fig. 2B), RS 세포에서 CD30이 양성(Fig. 2C), PAX5 양성(Fig. 2D), Epstein-Barr virus 양성(Fig. 2E), 그리고 RS 세포에서 perinuclear dot pattern으로 CD15가 양성을 보이는 중요한 염색 특징(Fig. 2F)이 확인되었다.

절제 생검 조직검사 소견을 바탕으로 Hodgkin 림프종 진단 하에 스테로이드를 중단하고 혈액종양내과로 전과하여 항암치료(ABVD : Adriamycin, bleomycin, vinblastine, decarbazine)를 시작하면서 좌측 종괴의 크기는



**Fig. 1.** Axial view of computed tomography. A : First visit of outpatient clinic. B : A week later after high-dose steroid medication. C : Three months after chemotherapy. ABVD : Adriamycin, bleomycin, vinblastine, decarbazine.



**Fig. 2.** H&E and immunohistochemical staining images of pathologic specimen after excisional biopsy for cervical lymph node. A : Atypical cells among a wide range of necrotic tissue and small lymphocytes, are observed that are quite large, ovoid and form severe vacuolization. RS cell (arrow) was observed as the two nuclei in a cell (H&E, 400×). B : CD3-positive (400×). C : CD300-positive (400×). D : PAX5-positive (400×). E : Epstein-Barr virus-positive (400×). F : CD15-positive. This important feature is observed that CD15 is stained as peri-nuclear dot pattern in RS cell (400×).

감소하였다(Fig. 1C). 약 3개월 후 시행한 경부 전산화단층촬영 결과 좌측 경부 level Ib, II~V에 걸쳐 퍼져있던 괴사성 림프절의 크기는 현저히 감소하였고, 좌측 흉쇄유돌근 주위와 전흉벽의 피하지방층의 연조직염도 감소했음을 확인하였다. 환자는 혈액종양내과에서 항암치료를 시행하며 경과 관찰 중이다.

## 고 찰

두경부 영역의 악성 림프종은 많은 경우에서 무통성 경부종물을 주소로 내원하는데 악성 림프종은 두경부에서 호발하는 비상피성암 중에서 가장 흔하다. 악성 림프종은 조직병리학적으로 호지킨 림프종과 비호지킨 림프종으로 나눈다.<sup>6)</sup> 호지킨 림프종은 대부분의 환자에서 증상이 없는 림프절 병변이 나타나는 치유 가능한 악성종양이다.<sup>12)</sup> 흔한 발병되는 림프절은 경부, 쇄골상부, 종격동 림프절이다. 중앙형성 헤르페스 바이러스인 Epstein-Barr virus(EBV)가 호지킨 림프종의 형성과 연관이 있다고 알려져 있다.<sup>7)</sup>

호지킨 림프종은 가장 흔한 유병률을 가진 고전적 호

지킨 림프종과 드문 유병률을 가진 림프구 우세형 호지킨 림프종 군으로 나눌수 있다. 고전적 호지킨 림프종은 병리적으로는 Rye분류(1966)로 4형, 즉 림프구우세형(LP : lymphocytic predominance), 경절경화증(NS : nodular sclerosis), 혼합세포형(MC : mixed cellularity), 림프구감소형(LD : lymphocytic depletion)으로 분류된다.<sup>8)</sup> 호지킨 림프종의 치료방법으로 복합화학요법이 발전 되어 왔고, 화학요법과 방사선치료의 병합요법이 치료에 도입되면서 점차 좋은 치료성적을 얻고 있다.<sup>6)</sup>

호지킨 림프종의 진단의 첫걸음은 조직검사로만 가능하다.<sup>8)</sup> 고전적 호지킨 림프종의 특징적인 병리소견은 정상적인 반응성 림프구와 호산구, 대식세포에 둘러 쌓인 악성 다핵수의 거대 Reed-Sternberg 세포의 존재이다.<sup>8)</sup> 경부 림프절병증 환자의 진단을 위해서 시행되는 세침흡인 검사는, 신속하고 가격대비 성능이 좋은 안전한 조직검사 방법이다.<sup>3)</sup> 이 검사는 입원환자 및 외래환자 모두에서 손쉽게, 즉시 시행될수 있다. 세침흡인검사를 통한 전이암의 진단율은 82~96%이다.<sup>9)</sup> 하지만 호지킨 림프종은 소수의 세포로 구성된 독특한 악성 종양이고, 이로 인해 불충분한 조직검사는 검체 내에 악성종양세포

를 포함하지 않을 수 있다.<sup>10)</sup> 이러한 점을 고려하여 호지킨 림프종과 비호지킨 림프종에서의 세침흡인 검사의 가장 중요한 한계점은 부적절한 검체와 높은 위음성 진단율이다.<sup>9)</sup> 이번 증례에서도 세침흡인검사서 호지킨 림프종을 의심할 소견은 검출되지 않았다.

무통성 경부 종괴를 주소로 내원한 환자에서 양성질환임에도 불구하고 악성종양으로 흔히 오인되는 질병 중 하나는 Kimura병이다. Kimura병은 병인이 밝혀지지 않은 드문 만성, 양성 질환으로 주로 경부에 발생하는 다수의 피하결절 및 종괴, 림프절염, 말초 호산구 증식증(peripheral eosinophilia), 혈청 IgE 값의 상승을 특징으로 하는 질환이다.<sup>11)</sup> Kimura병의 병리학적 소견은 반응성 배종심(reactive germinal centers)의 여포 증식과 잘 형성된 mantle zones, 확산되어 있는 모세관 세정맥을 따라 분포하는 호산구 모낭염, 호산구가 풍부한 미소농양, 그리고 배종심의 괴사이다.<sup>5)</sup> 호지킨 림프종이나 혈관 면역 모세포 림프절형 T세포 림프종(angioimmunoblastic lymphadenopathy-like T-cell lymphoma)과 같은 악성 림프종에서도 다량의 호산구들이 보일수 있다. 이러한 호산구를 배경으로 Reed-Sternberg cells와 비전형적인 단핵구세포가 보이면 호지킨 림프종을 진단하지만, 세침흡인 검사 상 Reed-Sternberg cell과 비전형적인 단핵구세포가 보이지 않는다면 Kimura병과 구분하기가 어렵다.<sup>4)</sup>

이러한 상황들을 고려하여, 명확한 진단을 위한 절제 생검이 필요하다. 절제 생검은 진단적 가치뿐만 아니라 Kimura병의 치료적인 의의도 가진다.<sup>1,5)</sup> 본 증례의 경우에서도 세침흡인검사서 Kimura병으로 오인된 경우로, 절제 생검을 통하여 호지킨 림프종으로 정확한 진단을 내릴 수 있었다.

## 결 론

무통성 경부종괴로 내원한 환자에서 세침흡인 검사 상 Kimura병의 병리학적 소견이 확인되었더라도, 세침흡인 세포검사상의 불충분한 검체 채취의 한계점 및 다른 조건에 의해 오인될 수 있는 여지가 있는 세포학적인

특징을 고려하여, 정확한 감별 진단이 필요한 경우 절제 생검을 적극적으로 고려하는 것이 바람직하겠다.

중심 단어 : 경부림프절병증 · 기무라병 · 호지킨 림프종 · 세침흡인 검사.

본 논문은 2016년도 부산대학교병원 임상연구비 지원에 의해 이루어졌음.

## REFERENCES

- 1) Kim JW, Jeon YS, Ko KJ, Kim KT, Choi JS, Kim YM. Kimura's Disease as Unusual Cause of Head and Neck Masses. *Korean J Otolaryngol* 2005; (48):511-5.
- 2) Guimaraes CS, Moulton-Levy N, Sapadin A, Vidal C. Kimura's Disease. *Case Rep Med* 2009;(2009):424053.
- 3) Thomas JO, Adeyi D, Amanguno H. Fine-needle aspiration in the management of peripheral lymphadenopathy in a developing country. *Diagn Cytopathol* 1999;(21):159-62.
- 4) Chow LT, Yuen RW, Tsui WM, Ma TK, Chow WH, Chan SK. Cytologic features of Kimura's disease in fine-needle aspirates. A study of eight cases. *Am J Clin Pathol* 1994; (102):316-21.
- 5) Rodrigues G, Ravi B. Synchronous Kimura lesions at two different sites-a diagnostic dilemma! *Quant Imaging Med Surg* 2016;(6):214-7.
- 6) Tae K, Lee HS, Seo IS, Lee YS, Cho SH, Choi JH, et al. Hodgkin's and Non-Hodgkin's Lymphoma of Head and Neck. *Korean J Otolaryngol* 2003;(46):324-30.
- 7) Goknar N, Cakir E, Cakir FB, Kasapcopur O, Yegen G, Gedik AH, et al. A Difficult Case of Hodgkin Lymphoma with Differential Diagnosis of Tuberculosis and Sarcoidosis. *Hematol Rep* 2015;(7):5644.
- 8) Ansell SM. Hodgkin lymphoma: 2016 update on diagnosis, risk-stratification, and management. *Am J Hematol* 2016; (91):434-42.
- 9) Shahrzad Mohseni MAS, Zhamak Khorgami, Shahriar Alinejad1, Ali Ghorbani, Ali Ghafouri. *Peripheral lymphadenopathy\_approach and diagnostic tools. Iran J Med Sci* 2014;(39):2.
- 10) Foss HD, Marafioti T, Stein H. Hodgkin lymphoma. *Classification and pathogenesis. Pathologe* 2000;(21):113-23.
- 11) Biradar A, Patil AV, Kotennavar MS, Venkatachalaiah M. Kimura's Disease: a Case Report. *Indian J Surg* 2013;(75):430-1.
- 12) Kim SK, Choi SM, Yoon SW, Kim DH. A case of Hodgkin's disease of the epiglottis. *J Clinical Otolaryngol* 2007; 18(1):111-3.