CASE REPORT

수부 원위 지골에서 발생한 골내 표피 봉입 낭종 1예

황성욱

순천향대학교 의과대학 병리학교실

A Case of Digital Intraosseous Epidermoid Inclusion Cyst of the Distal Phalanx

Seong-Wook Hwang

Department of Pathology, Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

Intraosseous epidermoid inclusion cyst is a very rare cystic lesion of the bone, that has been reported primarily in middle-aged men. A congenital etiology has been proposed, although post-traumatic or iatrogenic events remain the most prevalent hypotheses. A 61-year-old woman visited Soonchunhyang University Gumi Hospital complaining of painful swelling of her right middle finger. Radiologic findings of the lesion showed a well-defined, lytic, expansile lesion originating at the tip of the distal phalanx. Preoperative imaging suggested benign cartilage tumors such as enchondroma or acute osteomyelitis. Intralesional curettage, culture, and biopsy were performed. Histopathological analysis demonstrated stratified squamous epithelium with keratinized cellular debris, consistent with a diagnosis of digital intraosseous epidermoid inclusion cyst. We present a case of an epidermoid inclusion cyst originating at the tip of the distal phalanx of the right middle finger.

Keywords: Intraosseous epidermoid inclusion cyst; Distal phalanx; Hand

서론

표피 봉입 낭종(epidermoid inclusion cyst)은 피부에서 가장 흔히 발생하는 양성 병변으로서, 진피 또는 피하조직에서 유동성 결절로 발견된다[1]. 조직학적 소견상 편평 상피(squamous epithelium)로 둘러싸인 낭종(cyst) 내에 각질성 세포 탈락물들(keratinous cellular debris)로 채워져 있다.

골내 표피 봉입 낭종(intraosseous epidermoid inclusion cyst)은 상대적으로 매우 드문 병변으로서 주로 두개골(skull)이나 수부 원위 지골(distal phalanx)에서 보고된다[2]. 주로 외상이나 수술적 처치와 관련되어 중년의 남성에서 호발하는 경향이 있으며, 선천적 원인이 관련된다는 일부 보고도 있다. 통상의 골내 표피 봉입 낭종의 방사선 소견은 경계가 비교적 선명하고, 둥근 형태의 팽창성, 용해성 병변이다[3,4]. 그러나 조직병리학적 검사 없이 임상양상 및 방사선 소견만으로 확진하기는 매우 어려우며, 오진으로 인한 불필요

한 치료나 수술이 시행되기도 한다[5].

저자는 우측 수부 중지 원위 지골에서 발생한 골내 표피 봉입 낭종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

61세 여자 환자가 2개월 전부터 발생한 우측 수부 중지 원위부의 통증 및 종창을 주소로 내원하였다. 환자는 통증 발생 시점에서 집안일을 하다가 발병 부위를 다친 병력이 있었으나 단순 타박상으로 간주하고 별다른 치료나 검사를 시행하지 않았다.

이학적 검사상 우측 수부 중지 원위 지골 부위에 약 1.5 cm 크기의 발적과 압통이 있었고, 신경 상태 및 관절운동 범위는 정상 소견을 보였다. 과거력상 고혈압으로 인한 약물복용 이외에 특이 소견은 없었다. 혈액검사 결과 erythrocyte sedimentation rate 37 mm/hr, C-reactive protein 0.81 mg/dL로 약간 증가된 상태였고, 백혈구 수

Correspondence to: Seong-Wook Hwang

Department of Pathology, Soonchunhyang University Gumi Hospital, 179 1(il)gongdan-ro, Gumi 39371, Korea
Tel: +82-54-468-9422, Fax: +82-54-463-7504, E-mail: g77887@schmc.ac.kr

Received: Apr. 20, 2021 / Accepted after revision: Jun. 22, 2021

© 2021 Soonchunhyang Medical Research Institute

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>).

Fig. 1. Preoperative anteroposterior radiograph of right middle finger demonstrated an expansile and lytic lesion originating at the tip of the distal phalanx.

치 4,490/mL, 혈색소 12.3 g/dL, 적혈구 용적률 36.1%, 혈소판 147,000/mL로 측정되었다. 혈청생화학검사항 알부민 4.5 g/dL, 총 빌리루빈 0.6 mg/dL, aspartate aminotransferase, alanine aminotransferase는 32 U/L, 55 U/L, blood urea nitrogen, creatinine은 18.8 mg/dL, 0.9 mg/dL로 측정되었다.

단순방사선검사에서 우측 수부 중지 원위 지골에 비교적 경계가 좋은 팽창성(expansile) 및 골 용해성(osteolytic) 병변이 관찰되었고 피질골의 파괴 소견도 일부 관찰되었다. 병변 내 석회화, 주변부 골막 반응, 경화성 골 병변 등은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 수술 전 임상양상 및 방사선 소견들을 근거로 급성 골수염(acute osteomyelitis) 혹은 내연골종(enchondroma) 의심하에 확진을 위해서 절개 생검을 계획하고 수술을 실시하였다.

리도카인(lidocaine)으로 국소마취를 한 상태에서 우측 중지 원위 지골의 radial side로 mid-lateral incision을 시행한 후 병변 내 소파술(intralesional curettage), 배양(culture) 및 조직 생검(biopsy)을 실시하였다. 골이식(bone grafting)은 병변의 크기가 비교적 작아서 보류하였다. 본 증례의 경우 환자의 증상 및 방사선검사 소견상 급성 골수염, 내연골종, 감염, 기타 종양 등의 감별이 치료방침의 결정에 중요했으므로 확진을 위해서 우선적으로 병변 내 소파술을 시행하였다.

Fig. 2. Microscopic finding shows ruptured stratified squamous epithelial cyst with laminated and desquamated keratin layers without skin appendages or hair follicles (H&E, $\times 100$).

수술 소견상 비교적 경계가 좋고 피막에 둘러싸인 회백색의 낭종이 관찰되었고, 뼈 부분을 포함한 주변 조직으로의 침윤 소견은 보이지 않았다. 낭종은 외과적 절제과정에서 주변 조직과 쉽게 박리되었으며 피막 내부에는 회백색의 치즈양 물질을 함유하고 있었다.

병리조직학적 소견상 중층 편평 상피세포(stratified squamous epithelium)로 둘러싸인 낭종과 각질성의 탈락물들(keratinous debris)이 관찰되었고, 다른 피부 부속기관이나 모낭, 연골조직 등은 보이지 않아서 골내 표피 봉입 낭종(intraosseous epidermoid inclusion cyst)으로 진단되었다(Fig. 2). 수술 후 특이 소견 관찰되지 않아서 항생제 처방 후 퇴원하였고, 추적관찰 기간 동안 낭종의 재발이나 감염 등의 합병증은 발생하지 않았다.

이 증례연구의 출판을 위해 환자로부터 의학정보의 연구자료 이용 동의를 얻었다.

고 찰

표피 봉입 낭종(epidermoid inclusion cyst)은 피부에서 발생하는 가장 흔한 양성 종양이다. 진피 혹은 피하조직에 위치하는 결절로 관찰되며 병변 부위에 개구부가 존재하기도 한다[6]. 중층 편평 상피세포로 이루어진 낭종벽을 가지고 그 내부에 회백색의 치즈양 혹은 비누양의 각질층 세포성 탈락물들(keratinous cellular debris)로 구성되어 있다.

발생 기전은 명확하지 않지만, 외상 등 후천적 원인으로 외배엽성 조직이 비정상적으로 피부나 골내로 감입되어서 발생한다고 알려져 있다[7]. 본 증례의 경우도 문진을 통해 병변 부위에 외상의 과거력을 확인할 수 있었다. 또한 선천적 원인으로도 유발될 수 있는데, 발생학적으로 신경구나 표피주름이 폐쇄되는 과정에서 외배엽

조직이 이식되어 발생한다는 견해도 있다.

골내 표피 봉입 낭종은 두개골(주로 parietal bone과 temporal bone)과 수지골에서 주로 발생하며, 특히 외상의 위험이 높은 무지(thumb)나 중지(middle finger)에서 많이 보고된다. 그 외에 경골(tibia), 척골(ulna), 대퇴골(femur), 흉골(sternum) 등에서도 발생할 수 있다[8].

임상적으로 30~50대의 연령에서 주로 발생하고 여성에 비해 남성에서 3배 이상 많이 발생하는데, 이는 외상 등 후천적인 원인과 관련이 있다고 알려져 있다. 크기는 통상 1~2 cm 정도이고, 증상으로는 무통성의 결절, 통증, 종창, 발적, 조갑 변형 및 골절 등 다양한 양상을 보인다.

방사선 소견상 비교적 경계가 좋고 팽창성의 골용해성 소견을 보인다. 피질골의 파괴 및 미란 소견도 관찰된다[9]. 그러나 확진을 위해서는 조직 생검을 통한 병리학적 검사가 필수적이다. 수술 중 동결절편검사는 신속히 악성 여부를 감별할 수 있어서 치료방침을 결정하는 데 도움이 될 수 있다. 드물게는 세침흡입검사를 시행하기도 한다[10]. 본 증례의 경우도 발적과 통증을 동반하였고 방사선 소견상 경계가 좋고 팽창성의 골용해성 소견을 보였기 때문에 골수염, 내연골종, 감염, 기타 종양 등의 감별 및 치료방침 결정을 위해서 병변 내 소파술을 먼저 시행하였다.

수부에서 발생한 골내 표피 봉입 낭종의 감별 진단을 위해서는 급성 골수염 등의 염증성 질환부터 양성 및 악성 골연부 종양을 모두 고려해야 한다. 지골의 장축과 관련한 발병 위치가 감별 진단을 하는 데 유용한 정보를 준다. 지골의 근위부에서는 내연골종(en-chondroma), 골내윤활막낭(intraosseous synovial cyst) 등이 호발하고, 원위부에서는 통풍(gout), 건초거대세포종(giant cell tumor of tendon sheath), 거대세포수복육아종(giant cell reparative granuloma), 단순골낭종(simple bone cyst), 동맥류뼈낭종(aneurysmal bone cyst), 유골골종(osteoid osteoma), 그리고 표피봉입낭종(epidermoid inclusion cyst) 등이 잘 발생한다[9].

내연골종(enchondroma)은 수부에서 발생하는 가장 흔한 양성 의 골 종양인데, 근위 지골, 중수골, 중위 지골에서 호발하고 골내 표피 봉입 낭종과 같이 원위 지골에서 발생하는 경우는 드물다. 단순방사선검사에서 경계가 명확한 골용해 병소로 관찰되며 특징적으로 점상 석회화를 관찰할 수 있다[3,4]. 거대 세포종(giant cell tumor)은 양성이나 국소적으로 침윤 양상을 보이는 종양으로서 내연골종과 같이 중수골과 근위 지골에서 호발하며, 단순방사선 소견상 불명확한 경계를 갖는 골용해성 병변으로 나타난다[8]. 수부에서 발생하는 원발성 악성 골연부 종양은 극히 드물고, 그 중 연골육종(chondrosarcoma)이 상대적으로 호발한다. 주로 60대 이상 고령의 환자에서 발생하며 골내 표피 봉입 낭종과 달리 근위 지골이나 중수골에서 흔히 발생한다[11]. 전이성 종양도 감별 진단에 포함하여야 하는데, 원발성 종양으로는 폐암이 대부분을 차지하고 그 외

에 신장암, 유방암 등이 원인이 될 수 있다[8].

골내 표피 봉입 낭종의 치료는 병변 내 소파술(intralesional curettage)을 포함한 외과적 단순절제술(surgical simple excision)만으로 대부분 완치가 가능하며, 골이식(bone grafting)은 병변의 크기가 큰 경우나 다른 적응증에 해당할 때 고려할 수 있다[12,13]. 조직학적 검사 없이 임상적 및 방사선 소견만으로 골내 표피 봉입 낭종의 진단은 매우 어려우며, 오진으로 인하여 항생제 남용이나 수지 절단 등의 부적절 치료를 시행한 경우도 있다[1,3,5]. 본 증례의 경우 정확한 진단 및 치료방침 결정을 위해서 병변 내 소파술을 먼저 시행하였고, 장기간 항생제 남용 및 절단(amputation) 등의 불필요한 치료를 예방할 수 있었다.

외상의 과거력이 있는 수부 원위 지골에서 발적 및 통증을 동반한 골용해성 병변이 관찰될 경우 골내 표피 봉입 낭종(intraosseous epidermoid inclusion cyst)을 감별 진단에 포함해야 하며, 과도한 수술적 처치를 예방하기 위해서 임상적 검사나 방사선학적 검사와 함께 조직병리학적 진단을 통한 확진이 선행되어야 한다.

REFERENCES

1. Carroll RE. Epidermoid (epithelial) cyst of the hand skeleton. *Am J Surg* 1953;85:327-34.
2. Lerner MR, Southwick WO. Keratin cysts in phalangeal bones: report of an unusual case. *J Bone Joint Surg Am* 1968;50:365-72.
3. Musharrafieh RS, Tawil AN, Saghih SS, Macari G, Atiyeh BS. Epidermoid cyst of the thumb. *Orthopedics* 2002;25:862-3.
4. Wang BY, Eisler J, Springfield D, Klein MJ. Intraosseous epidermoid inclusion cyst in a great toe: a case report and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 2003;127:e298-300.
5. Lincoski CJ, Bush DC, Millon SJ. Epidermoid cysts in the hand. *J Hand Surg Eur Vol* 2009;34:792-6.
6. Schajowicz F, Aiello CL, Slullitel I. Cystic and pseudocystic lesions of the terminal phalanx with special reference to epidermoid cysts. *Clin Orthop Relat Res* 1970;68:84-92.
7. Lucas GL. Epidermoid inclusion cysts of the hand. *J South Orthop Assoc* 1999;8:188-92.
8. McGraw P, Bonvento B, Moholkar K. Phalangeal intraosseous epidermoid cyst. *Acta Orthop Belg* 2004;70:365-7.
9. Ruchelsman DE, Laino DK, Chhor KS, Steiner GC, Kenan S. Digital intraosseous epidermoid inclusion cyst of the distal phalanx. *J Hand Microsurg* 2010;2:24-7.
10. Handa U, Kumar S, Mohan H. Aspiration cytology of epidermoid cyst of terminal phalanx. *Diagn Cytopathol* 2002;26:266-7.
11. Libson E, Bloom RA, Husband JE, Stoker DJ. Metastatic tumours of bones of the hand and foot: a comparative review and report of 43 additional cases. *Skeletal Radiol* 1987;16:387-92.
12. Patel K, Bhuiya T, Chen S, Kenan S, Kahn L. Epidermal inclusion cyst of phalanx: a case report and review of the literature. *Skeletal Radiol* 2006;35:861-3.
13. Hamad AT, Kumar A, Anand Kumar C. Intraosseous epidermoid cyst of the finger phalanx: a case report. *J Orthop Surg (Hong Kong)* 2006;14:340-2.