

An Unusual Case of Luetic Lymphadenitis as a Solitary Submandibular Mass

See Young Park, Bum Jo Jung, Young Seung Ko and Chang Ho Seong

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Inje University College of Medicine, Goyang, Korea

좌측 악하부 종괴로 나타난 매독성 림프절염 1예

박시영 · 정범조 · 고영승 · 성창호

인제대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received June 4, 2009
Revised August 26, 2009
Accepted August 27, 2009

Address for correspondence
Young Seung Ko, MD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Inje University College of Medicine,
2240 Daehwa-dong, Ilsanseo-gu,
Goyang 411-706, Korea
Tel +82-31-910-7250
Fax +82-31-910-7747
E-mail koys2000@naver.com

Syphilis, a chronic systemic infection caused by *Treponema pallidum*, is usually sexually transmitted and characterized by episodes of active disease interrupted by a latent period. After an incubation period of averaging 2–6 weeks, a primary syphilis with a firm, non-tender chancre appears, often associated with regional lymphadenopathy. Secondary syphilis shows localized or diffuse mucocutaneous lesions and generalized non-tender lymphadenopathy. In about one-third of untreated cases, the tertiary stage appears, characterized by progressive destructive mucocutaneous, musculoskeletal or parenchymal lesions, aortitis or symptomatic central nervous system diseases. Without serological testing, the precise diagnosis is very difficult. In fact, it has often been called the great imitator because it was often confused with other disease. We report a very unusual case of luetic lymphadenitis presented as a solitary submandibular mass.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52:849-51

Key Words Syphilis · Luetic lymphadenitis · Neck.

서 론

매독은 *Treponema pallidum*에 의한 전신감염으로 주된 감염경로는 매독 환자와의 성접촉, 수혈 및 매독에 감염된 산모에 의한 태아 감염이며 그 외, 환자에 의한 교상과 혈액이 상처에 접촉되어 감염되는 경우도 있다.^{1,2)} 질병의 경과에 따라 1기, 2기, 잠복기 및 3기로 나뉘며 각 시기마다 다양한 임상 증상과 증후가 나타난다.^{1,3)} 매독성 림프절염은 주로 2기 매독 때 나타나며 호발 부위는 서혜부 및 액와부이며 감돈성 서혜부 탈장, 악성 림프종 등과 감별해야 한다.⁴⁾

경부에 발생한 경우는 극히 드물어 술 후 조직검사 후에 진단할 수 있다. 저자들은 25세 남자 환자에서 좌측 악하부 절제생검 후 시행한 조직검사상 매독성 림프절염으로 확진되어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

25세 남자 환자가 2달 전 발생한 좌측 악하부 종괴를 주소로 내원하였다. 통증을 동반하였고, 2개월간 점차 크기가 커졌다고 하였다. 외래 방문 시 시행한 신체검사상 좌측 악하부에 압통을 동반한 단단하고 고정되어 있는 2.5×2.5 cm 크기의 종괴가 촉지되었다. 림프절염 추정 하에 1주일간 외래에서 항생제 치료를 하였다. 치료 후 통증은 감소하였으나, 크기는 줄지 않아 경부 전산화단층촬영을 시행하였다. 방사선 소견상 좌측 악하부에 2.5×3 cm 크기의 조영증강이 되고, 중심성 괴사가 없는 종괴가 관찰되었다 (Fig. 1). 감별해야 할 질환으로 캐슬만 병, 양성혼합종, 형질세포종, 반응성 림프절염 및 림프종 등이 제시되었다. 초음파 유도 하에 세침흡인검사를 시행하였다. 검사결과 반응성 여포상 증식 소견을 보였으며, 가장 가능성 있는 질환으로 캐슬만 병이 의심되었다. 확진을 위해 절제생검을 계

확하였다.

수술 전 시행한 혈액검사 결과 혈색소, 백혈구수, 혈소판 수 및 적혈구 침강속도는 정상이었고, venereal disease research laboratory test (VDRL)가 1 : 64로 측정되어, 환자 과거력상 4개월 전 동남아 여행시 성적 접촉이 있었다고 하였다. Treponema pallidum hemagglutination test (TPHA), fluorescent treponemal antibody-absorption (FTA-ABS) immunoglobulin M(IgM) 및 immunoglobulin G(IgG) 검사를 시행했으며, 검사결과 양성 소견을 보여 매독 치료를 위해 Benzathine penicillin 240만 단위 근육주하였다. 전신마취 하에 절제생검을 시행하였다. 좌측 하악 아래 경계에서 2 cm 하방에 곡선의 피부 절개를 시행한 후 악하선 피막과 유착된 단단한 2×3 cm 크기의 종

괴를 주위조직과 박리 및 적출하였다(Fig. 2). 조직검사 결과 나선상의 매독균은 검출되지 않았으나, 림프절 피막 및 피막주위의 과도한 섬유화, 혈관주위의 많은 형질세포 침윤, 림프구의 여포상 증식 소견을 보여 매독성 림프절염으로 진단하였다(Fig. 3). 환자는 본원 비뇨기과에서 2주, 3주째 Benzathine penicillin 240만 단위 추가 근육주하였으며, 3개월째 시행한 VDRL 1 : 32로 감소되었고, 수술 5개월이 지난 현재까지 종괴의 재발 없이 경과관찰 중이다.

고 찰

매독의 병원균인 Treponema pallidum은 1905년 Schaudinn과 Hoffmann에 의해 발견되었다.³⁾ 매독은 시기에 따라 1기, 2기, 잠복기, 3기로 나누는데 각 시기마다 다른 질환과 감별하기 어려운 많은 임상 증상과 증후가 있어서 위대한 모방자(great imitator)라고 불린다.^{2,5)} 특히 2기 및 3기 매독의 경우 본 예에서와 같이 감별진단에도 포함되지 않은 상태에서 생검 결과 매독으로 진단되기도 한다.^{2,6)}



Fig. 1. Preoperative enhanced neck CT scan. 2×3 cm sized well enhancing mass is located on the left submandibular gland (white arrow).



Fig. 2. Gross finding of the specimen. A well-defined 3×2 cm sized mass with nodular surface is shown.

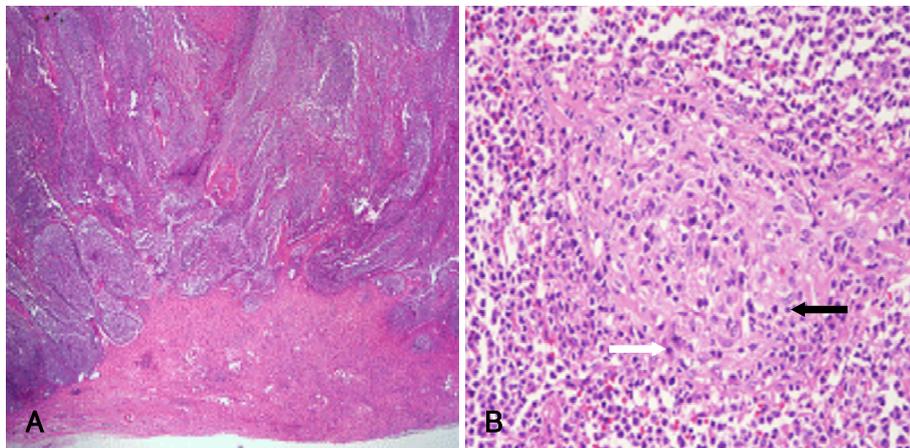


Fig. 3. Histologic finding. Tissue shows diffuse follicular hyperplasia and dense capsular fibrosis (H&E stain ×10)(A). Perivascular plasmacytosis (white arrow) and clustering of epithelioid histiocytes (black arrow) is seen (H&E stain ×100)(B).

매독의 진단을 위한 혈청학적 검사로 비 특이 항체검사는 VDRL과 rapid plasma reagin(RPR)이 있으나 많은 질환에서 위 양성을 보일 수 있어 확진을 위해 매독균에 특이도가 높은 TPHA, microhemagglutination-treponema pallidum test(MHA-TP), FTA-ABS를 사용한다. 본 증례에서 선별검사로 VDRL을 시행하였으며, TPHA와 FTA-ABS로 확진하였다.^{1,7)}

Crevel 등⁸⁾은 세침흡입검사로 진단된 1예, 절개생검 및 혈청학적 검사로 진단된 1예의 경부 림프절염을 보고하였다. Hartsock 등⁴⁾은 20예의 매독성 림프절염을 분석하였다. 20예 모두 남자였으며, 발생연령은 17~41세로 평균 25세였다. 발생 부위는 서혜부 17예, 액와부 2예 및 경부와 후두부에서 각각 1예였으며, 20예 모두에서 조직검사상 매독균이 발견되었다. 감염 수개월 후 혈관성 및 림프성 전파가 일어나는 2기 매독에서 주로 볼 수 있지만, 다른 시기에서도 나타날 수 있다.^{4,9)} 보통 단발성으로 크기는 2 cm에서 4 cm로 다양하며, 단단하고 유동성의 종괴로 통증 및 압통을 동반할 수 있다. 임상 증상은 미열, 인후통, 체중감소, 근육통 등의 전신 증상과 해당 시기 증상 및 증후 즉, 2기에는 반점, 구진 결절 등의 다양한 발진과 편평 콘딜로마를, 1기에는 굳은 궤양을 보일 수 있다.¹⁰⁾ 감염 질환으로 감돈성 서혜부 탈장, 악성 림프종 및 암종, 감염성 단핵구증, 반응성 림프절 비대, 결핵성 림프절염, 사르코이드증 등이 있다.^{4,8)}

경부 림프절에 발생하는 경우는 극히 드물고 다른 원인에 의한 림프절 비대와 별다른 임상적 차이점이 없어 수술 전 감별진단에 포함시키기는 매우 어렵다. 조직학적으로 만성 염증, 림프절 피막 및 피막주위의 과도한 섬유화, 많은 형질세포 침윤, 정맥염 및 말단 동맥염 같은 혈관의 변화, 현저한 여포상 증식 소견을 보이고 매독균이 림프절의 혈관벽과 배 중심에서 발견되면 진단할 수 있다.^{4,8,9)} 이외 비 건락성 육아종, 화농성 염증, 결핵양 반응, 림프구 감소, 조직구의 침윤 및 거대세포 형성 등의 다양한 조직 소견을 보일 수 있다. Michelson은 이런 다양한 조직 소견을 비특이성, 아급성, 증식성, 삼출성 염증반응과 결핵 양 반응의 2가지로 분류하였다.⁴⁾ 본 증례에서는 매독균이 발견되지 않았지만 피막의 과도한 섬유화를 동반한 여포상 증식과 혈

관 주위에 대량의 형질세포 침윤 소견을 보여 매독성 림프절염으로 진단할 수 있었다. 조직에서 매독균이 발견되지 않은 것은 수술 전에 benzathine penicillin을 근주하였기 때문으로 판단된다.

매독의 치료는 1기, 2기 및 조기 잠복 매독의 경우 benzathine penicillin 240만 단위 1회 근육주사를 시행하고 만기 잠복매독, 신경매독 이외의 3기 매독은 benzathine penicillin 240만 단위를 주 1회 3번 근주한다. Penicillin allergy가 있는 환자에게는 doxycycline이나 tetracycline, ceftriaxone을 사용할 수 있다.^{1,2)} Penicillin 치료 3, 6, 12개월 후 임상증세와 정량검사를 실시하여, 증상이 지속되거나 다시 발생하였을 때, 정량검사 결과 항체역가가 전과 비교하여 4배 이상 상승하였을 때, 치료 전보다 정량검사의 역가가 치료 후 1년 이내에도 4배 이하로 떨어지지 않을 때는 재치료를 시행해야 한다.¹⁾ 매독성 림프절염의 치료는 매독의 치료와 동일하며 항체검사와 세침흡입검사로 확진이 되면 불필요한 절제생검은 피할 수 있다.⁸⁾ 경부에 발생한 매독성 림프절염은 매우 드물지만 최근 매독 감염의 병력이 있는 환자에서 진행성 경부 림프절염 증상을 보인다면 의심해 볼 수 있다고 생각한다.

REFERENCES

- 1) Lukehart SA. Syphilis. In: Fauci AS, Braunwald E, Kasper DL, Hauser SL, Editors. Harrison's internal medicine. 17th eds. New York: McGraw-Hill:2008. p.1638-46.
- 2) Park JH, Kim BC, Lee KS. A case of psoriasiform syphilid. Korean J Dermatol 2000;38(12):1702-4.
- 3) Park HJ. Clinical observation and statistical consideration of syphilis (2000-2007). Korean J Dermatol 2008;46(10):1334-52.
- 4) Hartsock RJ, Halling LW, King FM. Luetic lymphadenitis: a clinical and histologic study of 20 cases. Am J Clin Pathol 1970;53(3):304-14.
- 5) Kim HO, Yu HJ, Son SJ, Yoo TY. A histopathologic study of syphilid. Korean J Dermatol 1993;31(2):197-203.
- 6) Lee IJ, Choi ES, Kim DK, Lee MG, Lee JB. Noduloulcerative syphilis. Korean J Dermatol 1992;30(2):217-220.
- 7) Jaffe HW. The laboratory diagnosis of syphilis. New concepts. Ann Intern Med 1975;83(6):846-50.
- 8) van Crevel R, Grefte JM, van Doorninck d, Sturm P. Syphilis presenting as isolated cervical lymphadenopathy: two related cases. J Infect 2009;58(1):76-8.
- 9) Facchetti F, Incardona P, Lonardi S, Fisogni S, Legrenzi L, Chioda C, et al. Nodal inflammatory pseudotumor caused by luetic infection. Am J Surg Pathol 2009;33(3):447-53.
- 10) Crissey JT, Denenholz DA. Clinical picture of infectious syphilis. Clin Dermatol 1984;2(1):39-61.