

A Case of Symmetrical Lipomatosis of the Tongue

Byung Eon Hwang¹, Eun Jung Lee¹, Ho Sung Park² and Ki Hwan Hong¹

¹Departments of Otolaryngology Head & Neck Surgery, ²Pathology, School of Medicine, Chonbuk National University, Jeonju, Korea

혀에 발생한 대칭성 지방종증 1예

황병언¹ · 이은정¹ · 박호성² · 홍기환¹

전북대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실, ¹ 병리학교실²

Received April 19, 2011

Revised July 4, 2011

Accepted July 7, 2011

Address for correspondence

Ki Hwan Hong, MD, PhD

Department of Otolaryngology Head

& Neck Surgery, School of Medicine,

Chonbuk National University,

20 Geonji-ro, Deokjin-gu,

Jeonju 561-712, Korea

Tel +82-63-250-1980

Fax +82-63-250-1986

E-mail khhong@chonbuk.ac.kr

Benign symmetric lipomatosis (BSL) is a pathologic condition characterized by symmetric and diffuse growth of mature adipose tissue. It usually affects the posterior neck and upper trunk. However, BSL involving the tongue is extremely rare condition. A 70-year-old man visited our clinic and complained of his swollen tongue with intermittent burning pain. The tongue lesion was treated by surgical excision and was confirmed with BSL. During a one-year follow-up period, there was no recurrence. We report this rare case of BSL on tongue with a previous literature review. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:719-21

Key Words Lipomatosis · Multiple symmetric · Tongue.

서 론

양성 대칭성 지방종증(benign symmetric lipomatosis, BSL)은 1846년 Brodie에 의해 처음 보고되었다. 이후 Launois와 Bensaude 등이 '미만성의 다발성 대칭성 지방의 축적 symmetric diffuse growth of mature adipose tissue'이라고 정의하였다. 이는 경부와 체간 등에서 흔히 발견되나, 설부에 국한되어 발생한 양성 대칭성 지방종증은 매우 드물며, Desmond¹⁾가 1944년 처음 보고하였다. 국내에서는 2007년에 단 한 차례 보고된 적이 있으며,²⁾ 영문 검색에서도 8예의 보고만 확인되었다.^{1,3-5)} 본 병원에서는 혀에 발생한 대칭성 지방종증 환자를 수술적으로 치료 후 1년간 재발 없이 치료된 환자를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

70세 남자 환자가 약 2개월 전부터 발생한 혀의 통증과 혀에 발생한 종물을 주소로 내원하였다. 호흡 곤란과 연하장애

는 호소하지 않았으며, 신체검사상 혀의 변연부를 따라 양측으로 약 1 cm 크기의 부드러운 종물이 다발성으로 만져졌으며, 궤양성 병변은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 과거력상 1년 전 폐결핵을 진단받고 약물을 복용한 적이 있었으며, 50갑년의 흡연력과 빈번한 음주력(소주, 하루에 1병 이상, 1주일에 3회 이상)이 있었다. 경부 전산화단층촬영상 대칭적으로 혀의 변연부를 따라 조영 증강되지 않는 저음영의 둥근 다발성 종물이 관찰되었다(Fig. 2). 종물에서 절개 생검을 시행하여 지방종으로 진단되었으며 수술적 절제를 권유하여 전신 마취하에 구강 내로 혀의 양측 종물 절제술을 시행하였다. 수술은 혀의 변연부를 따라 절개를 시행하였고 혀의 점막하에서 종물이 발견되었다. Metzger Scissor를 사용하여 종물을 박리하였고, 수술 소견상 피막에 둘러싸인 노란색의 종물들이 파괴모양으로 연결되어 있었다. 앞쪽에서는 혀의 근육층까지의 침범은 관찰되지 않아 잘 박리되었지만, 혀의 뒤쪽에서는 근육층 내로 깊게 침윤한 소견이 관찰되어 박리가 어려워 완전 절제하지 못하고 가능한 많은 부분을 절제하고자 하였으며 최소한의 혀의 근육층과 함께 종물의 90% 정도를 절제할 수

있었다(Figs. 3 and 4). 또한 수술 중 설동맥과 설신경은 확인되지 않았다. 조직검사에서 혀의 근육층에 성숙한 지방 조직의 증식이 관찰되어 다발성 지방종으로 확진되었다(Fig. 5). 술 후 혀의 운동 장애, 감각 이상은 관찰되지 않았으며, 종창 소견 없이 적절한 크기로 회복되어 술 후 2일째 퇴원하였다. 술 후 1년간 외래 경과 관찰 중이며, 수술 후 음주는 지속하였으나 현재까지 재발 소견은 보이지 않고 있다.

고찰

지방종은 가장 빈발하는 말초성 간엽성 종양(peripheral benign mesenchymal tumor)이지만 구강 내에는 드물게 발생한다. 구강 내 발생하는 종양 중에서도 4.4%의 드문 발병률을 보이고 있다. 대개 단발성이고, 증상이 없으며, 가장 흔히 발생하는 부위는 혀점막, 설배부, 구강저 등이다.⁶⁾ 양성 대칭성 지방종증(benign symmetric lipomatosis, BSL)은 1888년

에 Otto Wilhelm Madelung라는 독일 외과의사에 의해 세 부적인 사항들이 정립되어 Madelung's disease라고도 불린다. 또한, 1898년에 Launois and Bensaude에 의해 65증례가 발표되어 Launois-Bensaude syndrome이라고도 불린다. 이는 두경부와 상체에 피막화 되지 않은 대칭적인 지방의 축적이 관찰되는 질환으로 1/25,000의 발병률을 보이는 질환이다. 남성에서의 발병률이 여성보다 15배 이상 많은 것으로 보



Fig. 1. Preoperative photo shows bilateral multiple masses along the lateral surface of the tongue.

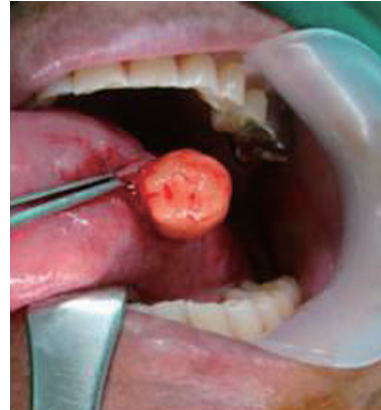


Fig. 3. Intraoperative photo shows well capsulized yellowish mass on lateral border of tongue (Lt).

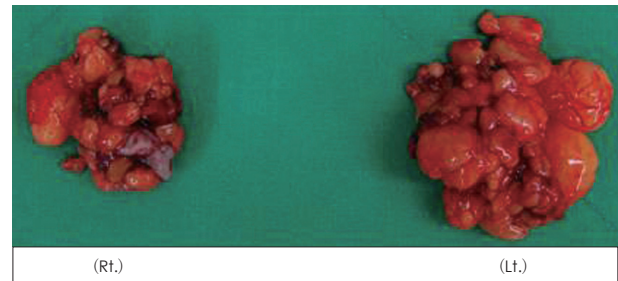


Fig. 4. Postoperative surgical specimens show in the shape of bunch of grapes by multiple lipoma.

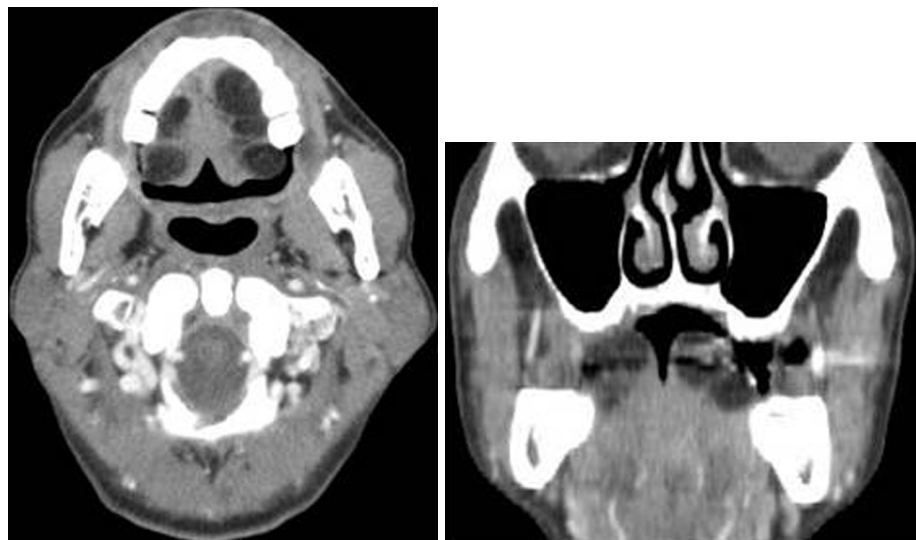


Fig. 2. Neck CT scans show non-enhanced, fat density round masses on tongue. CT: computed tomography.

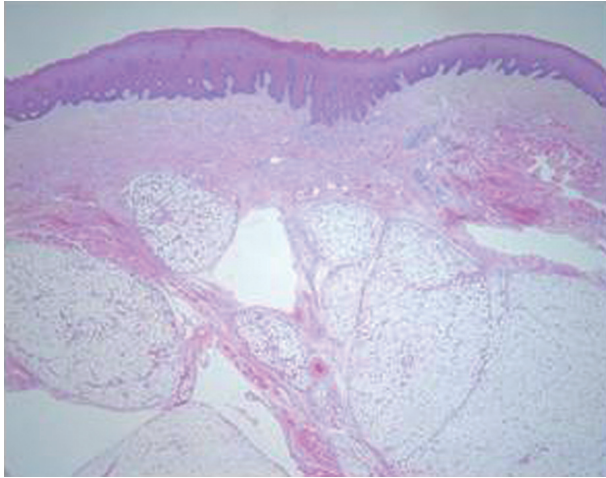


Fig. 5. Sections reveal mass-forming proliferation of the mature adipose tissue in the muscle fascicles of the tongue (H&E, ×20).

고되고 있으며, 대개 30~60세에 발병된다. 발생 원인은 아직 명확하게 밝혀져 있지 않으나 90% 이상의 환자에서 과한 음주와 관련된 것으로 알려져 있다. BSL 환자에서 카테콜라민에 의해 비정상적인 지방 형성이 관찰되었다는 보고도 있다.^{7,8)} 또한 일부 학자들은 미토콘드리아의 대사 장애, 미토콘드리아의 DNA 돌연변이를 확인하기도 하였다.^{9,10)} 치료에 있어서는 종물로 인한 호흡곤란 등의 증상이나 미용 문제로 인한 수술이 시행되어 왔고, 최근에는 포스파티딜 콜린 주사요법이 시도되어 효과를 보았다는 보고가 있다. 그러나 다른 저자는 이 치료에 대해 부정적인 의견을 제시하였다.¹¹⁾ 실질적으로 수술적 치료에 있어서 주변으로의 침윤 소견이 보인다면 본 증례에서처럼 완전 절제는 어렵다. 완전 절제가 어려운 침습적 지방종의 재발률은 62.5%까지 높게 보고되고 있다.¹²⁾ 따라서, BSL의 치료는 수술을 통한 가능한 많은 종물의 절제가 좋을 것으로 생각된다.

BSL이 혀에 국한되어 발생한 경우는 현재까지 8증례만을 확인할 수 있었다.¹⁻⁵⁾ 혀에 국한되어 발생한 경우에 있어서 BSL과 동일 질환으로 고려해야 할 지에 대해서는 논란이 많다. 조직학적 소견은 BSL과 유사하나 본 증례에서처럼 경부 등의

다른 부위에 이환되지 않고 60세 이상의 고령 아시아인에게 호발하는 임상적 소견은 서로 다른 질환일 수 있음을 시사한다.¹⁻⁵⁾

혀에 국한되어 발생한 대칭성 지방종증의 경우 보고된 증례 수가 너무 적어 BSL과의 비교를 통한 파악이 전부이다. 더 많은 연구를 통해 혀에 국한된 대칭성 지방종증의 특징과 BSL과의 연관성이나 차이점에 대한 연구가 필요할 것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) Desmond AM. A case of lipomatosis of the tongue. *Br J Surg* 1947; 35(138):210.
- 2) Kim JR, Lee JY. Benign symmetric lipomatosis of tongue: report of a case. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2007;33(6):690-3.
- 3) Calvo-García N, Prieto-Prado M, Alonso-Orcajo N, Junquera-Gutiérrez LM. Symmetric lipomatosis of the tongue: report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999;87(5):610-2.
- 4) Katou F, Shirai N, Motegi K, Satoh R, Satoh S. Symmetrical lipomatosis of the tongue presenting as macroglossia. Report of two cases. *J Craniomaxillofac Surg* 1993;21(7):298-301.
- 5) Murakami H, Tamasawa N. Images in clinical medicine. Lipomatosis of the tongue. *N Engl J Med* 2009;360(26):e33.
- 6) Dattilo DJ, Ige JT, Nwana EJ. Intraoral lipoma of the tongue and submandibular space: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1996;54(7):915-7.
- 7) Bancroft LW, Kransdorf MJ, Peterson JJ, O'Connor MI. Benign fatty tumors: classification, clinical course, imaging appearance, and treatment. *Skeletal Radiol* 2006;35(10):719-33.
- 8) González-García R, Rodríguez-Campo FJ, Sastre-Pérez J, Muñoz-Guerra MF. Benign symmetric lipomatosis (Madelung's disease): case reports and current management. *Aesthetic Plast Surg* 2004; 28(2):108-12; discussion 113.
- 9) Berkovic SF, Andermann F, Shoubridge EA, Carpenter S, Robitaille Y, Andermann E, et al. Mitochondrial dysfunction in multiple symmetric lipomatosis. *Ann Neurol* 1991;29(5):566-9.
- 10) Klopstock T, Naumann M, Seibel P, Shalke B, Reiners K, Reichmann H. Mitochondrial DNA mutations in multiple symmetric lipomatosis. *Mol Cell Biochem* 1997;174(1-2):271-5.
- 11) Rosato L, Lazzeri D, Campana M, Vaccaro M, Campa A, Ciappi S, et al. Mesotherapy should not replace the surgical approach in the treatment of benign symmetric lipomatosis. *Aesthetic Plast Surg* 2011;35(2):278-80.
- 12) Dionne GP, Seemayer TA. Infiltrating lipomas and angiolipomas revisited. *Cancer* 1974;33(3):732-8.