□ 증 례 □

기관지경으로 진단한 기관지내 과오종 1예

원자력병원 내과

차중직 · 이정애 · 김영환 · 이진오 · 강태웅

흉부외과

조 재 일 · 심 영 목

해부병리과

조 경 자 · 장 자 준

= Abstract =

A Case of Endobronchial Hamartoma Diagnosed by Fiberoptic Bronchoscopy

Joong Jik Cha, M.D., Jung Ae Lee, M.D., Young Whan Kim, M.D.

Jhin Oh Lee, M.D. and Tae Woong Kang, M.D.

Department of Internal Medicine, Korea Cancer Center Hospital, Seoul, Korea

Jae Il Zo, M.D. and Young Mok Shim, M.D.

Department of Thoracic Surgery

Kyung Ja Cho, M.D. and Ja June Jang, M.D.

Department of Pathology

Pulmonary hamartoma is known as one of the most common benign tumors of the lung. Most of the pulmonary hamartomas are located in the lung parenchymie, but rarely they originate endobronchially. Most of the endobronchial hamartomas are diagnosed after surgery, because preoperative tissue diagnosis is not easy. But sometimes preoperative diagnosis by fiberoptic bronchoscopic biopsy is possible. And recently 2 cases of endobronchial hamartomas diagnosed preoperatively by bronchoscopy have been reported in Korea.

We reported a case of endobronchial hamartoma diagnosed preoperatively by fiberoptic bronchoscopy in 64-year old female patient with a review of the literature.

서 론

폐과오종은 양성종양 중에는 상당한 빈도를 차지하지만 전체 폐종양중 빈도는 낮은 편이다¹⁾. 대부분 특별한 선행증상 없이 건강진단 등 우연히 촬영한 단순흉부 X-선상에서 발견되는 경우가 많으며, 특히 원발성 폐암과의 감별진단이 용이치 않으므로 임상적으로 중요한 의의

를 갖는다. 대부분의 과오종은 폐실질의 주변부에 위치하며 기관지내 과오종은 특히 희귀하여 국내에서는 지금까지 단지 8례만이 보고되어 있을 뿐이며¹⁻⁸⁾ 이중 최근에 보고된 2례만이 수술전 기관지경으로 진단되었다^{6,8)}.

저자들은 최근에 기침을 주소로 내원한 64세 여자환자에서 굴곡성기관지경하 생검으로 확인하여 수술을 시행한 과오종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Fig. 1. Chest PA shows consolidation of the anterior segment of right upper lobe.

Fig. 2. Chest CT shows lobulated mass at the right hilum.

증 례

환 자 : 정○순, 64세, 여자.

주 소 : 가래를 동반한 기침.

현병력 : 내원 1개월 전부터 전신쇠약 및 가래를 동반한 기침이 시작되어 인천시내 종합병원에선 흉부 X-선 및 흉부전산화단층촬영을 시행하고 폐종양 의심하에 본

Fig. 3. Fiberoptic bronchoscopy shows pinkish, smooth-surfaced round mass nearly completely obstructing right upper lobe bronchus.

Fig. 4. Surgically removed right upper lobe showing lobulated mass obstructing right upper lobe bronchus.

원으로 전원되었다. 내원 10일 전부터는 두통이 심하였으며 경한 흉통 및 호흡 곤란을 호소하였다. 유의한 체중감소는 보이지 않았다.

과거력 : 30년전 충수돌기절제술을 시행한 것 이외에는 특이사항 없었으며 흡연은 하지 않았음.

가족력 : 특이사항 없음.

이학적 소견 : 약간 비대한 체격이었으며 입원당시 혈압은 120/70, 맥박은 분당 85회, 호흡은 분당 22회, 체온은 36.7°C였다. 경정맥 울혈은 보이지 않았고 흉부청진상 특이한 소견은 없었으며, 복부 촉진상 간장이나 비장은 촉진되지 않았고, 사지에 부종이나 곤봉지는 관찰

되지 않았다.

검사 소견 : 말초혈액검사와 소변검사 및 일반화학검사는 모두 정상이었으며, 객담 도말 검사상 항산성균은 발견되지 않았다. 흉부 X-선사진상 폐 우상엽 전부분절에 음영이 증가되어 있었으며 그 부위에 폐용적이 감소된 소견을 보였다(Fig. 1). 흉부전산화 단층촬영상 5×

4 cm크기의 분엽화된 종괴가 우측 폐문상부에서 관찰되었으며, 좌상부 기관주위부에 임파절 종대로 보이는 저음영의 종괴가 의심스러웠고, 기관은 우측으로 편위된 소견을 보였다(Fig. 2). 굴곡성기관지경 검사상 우상엽 기관지가 분홍색의 활면을 가진 구형 종괴에 의하여 거의 막혀 있었으며 종괴는 유동적이고 생검시 매우 딱딱

Fig. 5. Bronchoscopic biopsy reveals unusual fibromyxoid connective tissue and adipose tissue which are not present in the normal bronchial mucosa (H&E, $\times 40$).

Fig. 6. Photomicrograph of the endobronchial mass showing epithelial-lined cleft-like spaces, islands of hyaline cartilage and fibromyxoid stroma admixed with adipose tissue (H&E, $\times 40$).

한 느낌을 주었다(Fig. 3).

치료 및 경과: 굴곡성 기관지경 검사시 시행한 조직검 사상 과오종에 합당한 소견을 보여 우상엽 절제술을 시행하였으며, 수술후 경과는 양호하고 퇴원후 외래를 통해서 경과관찰 중이다.

수술 소견: 우상엽절제술을 시행하였다. 늑막은 부분적 유착과 섬유화 소견을 보였고 폐단면상 잘 경계되어 지고 다분엽 상태의 기관지내 종괴가 우상엽기관지에서 돌출되어 있었으며 최대반경은 2cm이었다(Fig. 4). 종괴의 단면은 회백색이었고 고무와 같은 경도이었으며 약간의 연골부분이 혼입되어 있었다. 폐실질의 하부는 심한 기관지 확장을 보이고 있었다.

병리조직 소견: 기관지경하 조직검사의 광학현미경 소견상 정상 기관지점막에서는 관찰되지 않는 섬유성점액양의 결합조직과 지방조직의 혼합형태를 보였다(Fig. 5). 수술에 의하여 적출된 종괴의 광학현미경 검사에서는 지방조직과 혼합된 섬유성 점액양의 기질, 초자양연골 및 상피세포로 싸여진 열구상의 공간이 관찰되었다(Fig. 6).

고 안

과오종(hamartoma)은 “어떤 장기의 정상적으로 존재하는 조직성분들이 비정상적으로 배합되어 생기는 종양과 같은 기형”을 말하며 이러한 이상은 조직의 양, 배열 및 분화정도에 있어서 변화된 형태를 보이며 간, 비장, 유방 및 폐등 거의 모든 장기에서 나타날 수 있다고 1904년 Albrecht에 의하여 정의되었다⁹⁾.

폐에 발생하는 종양은 대부분 악성이며 양성종양은 비교적 드물지만 폐과오종은 폐의 양성종양 중 육아종 다음으로 발생빈도가 높다. McDonald 등은 전인구군에서 과오종의 발생빈도를 0.25%로 보고하였으며 남녀비는 2:1내지 4:1로 남자에 흔하다고 보고하였다¹⁾. 발생연령은 40세에서 60세사이에 가장 많이 발생하는 것으로 알려져 있다¹⁰⁾. 그러나 폐의 과오종은 대부분 폐실질내에서 발생하며 기관지내에 발생하는 과오종은 드문 것으로 알려져 있고 1972년까지 전세계적으로 58례가 보고되었다¹⁰⁾. Bateson에 의하면 전체 폐과오종중 기관지내에 발생하는 과오종이 19.5%를 차지한다고 한 반면¹¹⁾ Arrigoni등은 3%라고 보고하였고¹²⁾ 국내의 보고에서는 20.8%가 기관지내에 발생하였다¹³⁾.

Bateson에 의하면 폐에서 발생한 과오종은 섬유성 결합조직이 원발성 종양조직이고 연골 및 지방조직등 다른 결합조직은 이차적으로 형성된 것으로, 폐의 과오종은 기관지벽의 섬유성 결합조직 종양이고 상피는 기관지 점막 표면상피의 붕괴에 의하여 생긴 것으로 섬유세포와 연골세포사이 점진적인 이행이 있다고 하였으며 전자현미경으로 증명하였다¹⁴⁾.

폐과오종의 임상증상은 종양의 위치와 크기에 따라 차이가 있으나 폐실질에 발생하는 과오종은 아무 증상이 없이 우연히 흉부 X-선촬영에서 고립성 폐결절의 양상으로 발견되는 경우가 대부분인 반면, 기관지내 과오종의 경우에는 기관지 폐쇄로 인한 기관지확장, 무기폐, 폐염 등에 의한 기침, 각혈, 호흡곤란, 흉통, 발열 등의 임상증상을 나타내는 경우가 많다¹⁵⁾.

기관지내 과오종의 흉부 X-선 소견은 무기폐가 50%로 가장 많으며 폐침윤 38.5%, 폐문종괴 19.2%순이다¹⁵⁾. 폐과오종의 크기는 0.5~30 cm이고 중앙부위에 튀긴 옥수수나 같은 석회침착(popcorn calcification)이 3~75%에서 나타나고^{16,17)} 주로 폐말초부위에 비교적 크기가 작은 단발성 동전형 병변으로 단순 흉부 X-선 사진에서 우연히 발견되기 때문에 다른 폐종양, 특히 원발성 폐암과의 감별진단이 용이치 않으므로 임상적으로 중요한 의미를 갖는다. 그 밖에 종격동내의 기형종, 기관지선종, 지방종 등의 양성종양과 감별진단을 요하며 특히 부분적으로 석회침착한 결핵성 육아종과는 감별진단이 매우 어렵다¹⁷⁾.

기관지경 검사는 기관지내 과오종의 진단에 가장 유용한 검사이나 육안적으로 폐암과 감별진단이 힘들고 적절 한 조직을 얻을 수 있는 경우가 드물어 기관지내 과오종은 수술전 확진하는 경우가 매우 드물기 때문에 보통은 개흉술을 요한다¹⁸⁾. 국내의 보고에서도 수술전 기관지경하 생검으로 진단한 기관지내 과오종은 2례에 불과하며^{6,8)} 대부분의 기관지내 과오종은 수술후 확진되었다.

기관지내 과오종의 발생부위는 좌측이 54.5%, 우측이 45.5%이고 좌하엽기관지에 가장 많이 발생한다¹⁹⁾. 종괴의 육안적인 소견에서 분홍, 황색 또는 적청색을 나타내며 표면은 활면, 분엽, 유두의 양상을 나타내고 경도는 연골, 지방, 결합조직의 상대 배합량에 따라 차이가 많다¹⁵⁾. 현미경 소견상 과오종의 96%가 연골성분으로 구성되어 있으며 드물게는 연골성분이 소성점액성 간질과 지방조직내에 점차 쇠퇴하면서 연골점액성 조직의

아주 작은 섬 모양으로 표현된다. 성숙지방이 주성분인 경우도 있고 점액성 결합조직이 현저한 경우도 있다¹²⁾.

폐과오종과 악성종양과의 관계에 대해서는 과오종 절제술후 12개월내에 2예에서 폐암이 발생하였다는 보고가 있고¹⁶⁾, Hayward등은 12예의 악성변화를 보고하였으나²⁰⁾ 연골성과오종이 악성변화를 하는 것인지 폐암과 과오종이 공존하는 것인지 논란이 많으며 과오종의 악성변화는 드문 것으로 되어있다^{20,21)}.

치료는 대개 수술적 처치로서 보통 설상절제술(wedge resection)을 시행하며 폐암과의 감별이 곤란하거나 폐실질 깊숙히 있는 것은 분엽절제술이나 폐엽절제술이 필요하다. 만약 폐쇄부위 아래쪽의 폐조직이 불가역적 손상을 입은 경우라면 일측폐절제술이 필요한 경우도 있다¹⁵⁾. 본 예에서는 과오종이 우상엽기관지를 완전히 폐쇄시켜 우상엽의 심한 염증을 초래하여 우상엽절제술을 시행하였다.

결 론

저자들은 가래를 동반한 기침을 주소로 내원한 64세 여자 환자에서 굴곡성 기관지경하 생검으로 기관지내 과오종을 진단한 후 우상엽절제술을 시행한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- McDonald JR, Harrington SW, Clagett OT: Hamartoma (often called chondroma) of the lung. J Thorac Surg 14:128, 1945
- 김대형, 최수중, 이정호, 유영선, 유희성, 박효숙: Endobronchial Hamartoma 치험 1예. 대한흉부외과학회지 9:94, 1976
- 김경우, 이홍균: 폐실질 및 기관지에 발생한 과오종; 3예 보고. 대한흉부외과학회지 14:345, 1981
- 김영호, 김수성, 김공수: 기관지내 발생한 과오종; 치험 1예. 대한흉부외과학회지 16:161, 1983
- 김송명: 기관지내에 발생한 과오종 치험 1예. 대한흉부외과학회지 16:146, 1983
- 이성구, 이민교, 김홍근, 김태화, 이동후, 박성수, 이정희, 이중달: 기관지경으로 확진한 기관지내 연골성 과오종 1예. 결핵 및 호흡기질환 33:178, 1986
- 이상도, 김영환, 한성구, 김건열, 한용철: 기관지내 과오종; 증례보고. 대한내과학회지 35:84, 1988
- 박종훈, 김형중, 안철민, 김성규, 이원영, 이두연, 정현주: 기관지내 연골성 과오종 1예보고. 대한의학협회지 82:897, 1989
- Albrecht E: Ueber Hamartome, Verh Deutsch Ges Path 7:153, 1904
- Sibala: Endobronchial hamartoma. Chest 62:631, 1972
- Bateson EM: Relationship between intrapulmonary and endobronchial cartilage containing tumors (so called hamartoma). Thorax 20:447, 1965
- Arrigoni MG, Woolner LB, Bernatz PE, Miller WE, Fontana RS: Benign tumors of the lung; A ten-year surgical experience. J Thorac Cardiovasc Surg 60: 589, 1970
- 조규석, 박주철, 유세영: 폐과오종(Collective Reviews). 대한흉부외과학회지 18:470, 1985
- Bateson EM: So-called hamartoma of the lung: A true neoplasm of fibrous connective tissue of the bronchi. Cancer 31:1458, 1973
- Dovenbarger WV, Elstun W: Endobronchial hamartoma. Am J Med 30:965, 1961
- Fudge TL, Ochsner JL, Mills NL: Clinical spectrum of pulmonary hamartomas. Ann Thorac Surg 30:36, 1980
- Koutras P, Urschel HC, Paulson DL: Hamartoma of the lung, J Thorac Cardiovasc Surg 61:768, 1971
- Lansden FT, Ankeney JL: Endobronchial hamartoma. Ann Thorac Surg 2:845, 1966
- Zeidler D, Vogot-Moykopf I: Das Intrabronchiale Hamartochondrom: Symptomatologie and Therapie. Pneumologie 146:178, 1971
- Hayward RH, Carabasi RJ: Malignant hamartoma of the lung: Fact or fiction? J Thorac Cardiovasc Surg 53:457, 1967
- Poulsen JT, Jacobson M, Francis D: Probable malignant transformation of a pulmonary hamartoma. Thorax 34:557, 1979