

Endobronchial Hamartoma 治驗 1例

金大瑩*·崔秀丞*·李正浩*·柳英善*·柳會性*·朴孝淑**

=Abstract=

Endobronchial Hamartoma

-A Case Report-

D.Y. Kim*, M.D., S.S. Choi*, M.D., J.H. Lee*, M.D.,
Y.S. Yoo*, M.D., H.S. Yoo*, M.D., H.S. Park*, M.D.

In 1904, Albrecht first used the term "hamartoma" to refer to a congenital abnormal mixing of the normal components of an organ and is applied also to tumors found in many organs other than the lung. Though the term "hamartoma" of the lung have been used with the connection to the presence of cartilage, tumors that do not contain cartilagenous component is also considered hamartoma.

The authors experienced one case of endobronchial hamartoma. The patient, a 42-year-old woman, a teacher in a primary school, was admitted to our hospital with frequent attacks of hemoptysis. Bronchogram on the left disclosed abrupt blocking of bronchial filling at the bifurcation between postero-basal and lateral basal segmental bronchial substantiaing a mass in the bronchial lumen. Left lower lobectomy was performed. The answer of pathology was benign endobronchial hamartoma.

Postoperative course was uneventful. Discharged on 19th postoperative day.

序　　論

過誤腫은 身體 部位 어느 곳에서나 發生할 수 있는 良性 瘤瘍으로서 1845年 Lebert에 의해 처음 發表된 以來^{11, 12, 14} 그 例가 稀貴하다. 氣管支 内에 發生된 過誤腫은 더욱 稀貴하여 國內에서는 아직 그 症例 報告의 例가 없다.

著者は 1976年 4月, 本院 胸部外科에서 左側 氣管支

內에 發生한 過誤腫 1例를 治驗하였기에 文獻考察과 아울러 報告하는 바이다.

症　　例

患者는 42세된 國民學校 女教師로서 1972년 수일간에 걸친 輕한 咳血 및 咳嗽를 主訴로 하여 本院 胸部内科 外來에 來院하였다. 當時 胸部 X-線 所見上으로 右側 陰肺野 下部의 游離 및 左側 肺野 下部의 影增 大로 肺炎과 기관지 擴張症이 의심되었으나 患者的 사정으로 더 이상의 조사는 하지 못하고 別 지장없이 치료하였다. 그 후 患者は 咳血의번 번한 再發 및 咳嗽의 悪化로 인하여 1976年 3月 本院 胸部内科에 左側 肺野 下부의 기관지

* 國立醫學院 胸部外科

** 國立醫學院 呼吸科

* Department of Thoracic Surgery, National Medical Center in Seoul



Fig. 1. Bronchography, P-A(Lt.) showing filling-defect on the posterobasal & lateral basal segmental openings.

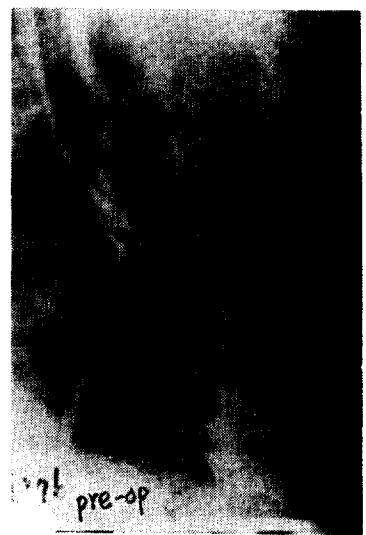


Fig. 2. Bronchography, L. A. O. (Lt.) showing the same filling-defect on the posterobasal & lateral basal segmental openings.

화장증 및 폐렴이라는 臨床診斷下에 再入院하였다.

患者의 家族歴 및 過去歴에서는 特異한 所見을 發見 할 수 없었으며 理學的 所見上에서도 左側 胸下部의 감소된 호흡음 외에는 特異한 點이 없었고 頸部, 腋窩, 鎖骨上部 및 鼠蹊部 淋巴腺도 觸知할 수 없었다.

入院後 氣管支 조영술을 시행한結果 左側 肺下葉後區域 및 側下葉區域上에 선택적인 細氣管支 폐쇄의 음영을 볼 수 있었으며 아울러 이들 기관지 分支부에서는

腫瘍으로 思料되는 음영을 發見할 수 있었다. (Fig-1, 2)

患者는 良性 기관지성 종양의 임상진단下에 外科的手術의 必要에 따라 1976年 4月 本 胸部外科로 轉科되었다.

檢査所見上, 血色素는 11.1g%이었고 血球容積值는 42%, 白血球수는 $3800/\text{mm}^3$, 赤血球 침강속도는 65mm 이었다. 肝기능검사 및 혈장전기영동검사도 정상이었고 尿검사소견 및 電解質소견에서도 异狀을 할 수 없었다. 또한 數次에 걸친 結核細 도말검사 및 細菌백양검사에서도 菌의 發見은 없었으며 肺디스토마에 대한 피부반응검사도 음성이었다.

確診을 爲한 氣管支鏡 檢查의 여부도 생각되었으나 폐쇄음영의 부위가 細氣管支이었고, 또한 肿瘍으로 思料되는 음영을 認知할 수 있었으므로 하지 않았다.

手術所見: 左側 第5肋間을 通하여 開胸하였다. 肉眼的 所見上 下葉後區域 및 側下葉區域(posterior basal and lateral basal segments)에 無氣肺 및 심한 硬結의 病變이 認知되었는바, 左側 肺下葉切除를 施行하였다. 切除된 肺下葉의 氣管支를 切開, 조사한 結果, 卵圓形의 黃褐色 肿瘍이 下葉後 및 側下葉 氣管支 開口部의 分支部直上方에서 이들 氣管支를 폐쇄시키고 있음이 發見되었다. 肿瘍의 크기는 腰豆大였다.

手術後의 肺의 膨脹은 순조로웠으며 術後 15日이 經過한 胸部 X-線 所見에서도 异狀을 發見할 수 없었다. 患者는 術後 19日째 아무런 合併症 없이 追院하였다.

摘出標本所見: 摘出된 標本은 $1.5 \times 1 \times 1\text{cm}$ 크기의 卵圓形의 黃褐色의 肿瘍으로서 脂肪腫의 양상을 呈하였다. 切開上, 비교적 농축된 粘液을 內包한 소수의 작은



Fig. 3. Photograph of left lower lobe showing a polypoid endobronchial hamartoma carrow arising from main bronchial wall.



Fig. 4. Photomicrograph of the hamartoma (H) C;hyaline cartilage of main bronchus, L; hilar lymph node H&E. $\times 4$



Fig. 5. Higher magnification of Fig. 4, illustrating bronchial glands (G) within matured adipose tissue (A) backgrounds. H. & E. $\times 30$

囊胞들이 散在하여 있는 것이 관찰되었다. 이러한 粘液性 囊胞 및 脂肪腫性의 所見 以外의 다른 軟骨, 또는 骨組織의 구조는 관찰되지 않았으며 特別한 惡性 變化를 추측할 만한 所見도 보이지 않았다.

주위의 肺實質 所見에서는 渗出性 斑紋 組織이 後側基底部의 氣管支 주위조직 및 그 內腔에 散在해 있어 氣管支性 肺炎의 양상을 呈하고 있는 것이 관찰되었다.

현미경 所見: 主氣管支內에 發生한 이 卵圓形의 睡瘍은 pseudorstratified columnar ciliated epithelium 으로 덮여 있으며 그 内部는 거의 全 視野에서 成熟한 脂肪組織으로 形成되어 있었고, 表面上皮細胞 直下部에는 약간의 결체 조직 및 平滑筋이 散在해 있는 것이 관찰되었다. 肉眼的으로 보았던 粘液性 囊胞은 粘液생산이 왕성한 成熟한 氣管支腺 및 管과一致하는 현미경적 구조로서 그 배율은 다소 不規則하였으나 異型의 細胞는 認知

되지 않았다. 또한 軟骨 組織이 全혀 포함되어 있지 않았고, 기타 다른 軟性조직等도 確實하지 않았다.

육안적으로 관찰되었던 後側基底部의 氣管支肺炎의 양상은 細氣管支炎을 同伴한 脂肪肺炎으로 나타났다.

考 察

過誤腫은 1845年 Lebert에 의해 처음 軟骨腫으로 所述되며 시작하여^{11, 12, 14)} 1904년 Albrecht에 의해 이의 名稱과 정의가 내려지게 되었다^{4, 8, 12)} 그에 의하면 過誤腫은 한 장기의 定常 구성成分이 胎生學的으로 비정상적混合이 되어 있는 睡瘍의 一種으로 비장 유방 肝 및 脾臟等에서 볼 수 있다고 한다¹⁴⁾

肺臟內의 過誤腫은 1906年 Hart가 肺實質內의 痘巢에서 上皮成分과 軟骨成分의 睡瘍을 發見한 것이 처음이다. 그러나 近來 진보된 醫學技術에 힘입어 肺臟內의 過誤腫 發見 빈도는 점차 증가되고 있어 一般의 인식보다는 더 많이 있을 것으로 料되며 報告에 따라서는 胸部一线所見上 나타나는 소위 "coin lesion" 中 過誤腫의 빈도는 肺癌 및 肉芽腫에 이어 3位라고도 한다¹⁰⁾ 그러나 氣管支內에 發生한 過誤腫은 그 例가 더욱 稀貴하여 1961年 Doven-barger와 Elstun이 總 42例를 確認한 以來 수 例가 報告되었을 뿐이다.

이 睡瘍은 그 조직의 구성 성분에 따라 chondroadenoma¹³, hamartochondroma³, lipochondroadenoma⁵, adeno-lipo-fibro-osteochondroma¹⁵ 및 chondromatous hamartoma⁶等의 여러 名稱으로 불리어졌으나 現今에는 "軟骨性 過誤腫" 内至 "過誤腫"의 명칭이 主로 사용되고 있다. 이들 명칭에서 보듯이 大部分의 過誤腫은 그 구성 성분中에 軟骨成分을 포함하고 있으며 이 軟骨 성분이 없는 過誤腫은 아주 稀貴하여 Smith에 의해 2例가 發表된¹⁷⁾ 以來 文獻上의 보고가 없으며 國內에서는 아직 그 보고의 例가 없다. 本例에서도 睡瘍內의 軟骨成分은 認知할 수 없었다.

過誤腫의 一般的인 조직학적 소견은 보통 基質이 大部分의 구성 성분을 형성하고 있는데, 섬유 조직과 粘液性의 結合組織에 쌓인 軟骨이 塊나 小葉을 형성하여 나타난다. 경우에 따라서는 지방 조직이 結合組織에 섞여 나타나기도 하며 호흡상피도 나타나 小葉을 덮고 있으나 裂狀 區域을 형성하기도 한다. 其他 腺조직 평활근섬유 및 石灰化 또는 骨化의 현상이 보일 수도 있다^{13, 16)}

本例는 지방 조직과 腺 조직이 結合組織에 섞여 나타났다는 것은前述한 바이다.

過誤腫의 臨床 所見은 不確實하여 大部分이 二次의 癡

化로 인한 증세인 바 咳血이나 또는 發熱等의 一般 炎症의 所見 內至 胸部의 減然한 不快感等을 超來한다. 그러나 많은 경우에서는 아무런 特異 所見 없이 經過도 중, 胸部 X-線 上 无연히 發見되는 수가 .

氣管支內의 過誤腫은 그 폐쇄 정도에 따라 二次的 變化로 인한 증상이 비교적 分明하며, 심한 경우에는 無氣肺內至 氣管支 擴張症까지 초래할 수도 있다.

氣管支內의 過誤腫의 診斷은 氣管支 造影述, 氣管支鏡 檢查 또는 Fibroptic 氣管支鏡 檢查等의 方法이 있으나 確診은 手術後의 병리조직검사 上으로 判明되는 것 이 보통이다. 本例에서도 手術後 시험한 병리 조직학적 검사上으로 過誤腫의 確診이 만들어졌다.

治療 方法으로서는 氣管支鏡을 通한 切除, 기관지 절개술, 또는 肺葉 절제술等이 있는데 狀況에 따라서 적절히 이용한다.

結論

國立醫療院 胸部外科에서는 氣管支內의 過誤腫 1例를 經驗, 報告하며 아울러 關係 文獻을 考察하였다.

本例에 關한 國內 報告例는 찾을 수가 없었다.

REFERENCES

1. Adams, M. J. T. : *Pulmonary Hamartoma (the cartilagenous type)*, *Thorax* 12:268, 1957
2. Albrecht, E. : *Ueber Hamartome*, *Verhandl. deutsch. path. Gesellsch* 7:153, 1904
3. Bateson, E. M. : *Relationship between Intrapulmonary and Endobronchial Cartilage-Containing Tumors (So-Called Hamartomata)* *Thorax* 20:447, 1965.
4. Baum, G. L. : *Textbook of pulmonary disease*,
5. Brewin, E. G. : *A case of Lipoma of the Bronchus Treated by Transpleural bronchotomy*, *Brit. J. Surg.* 40:282, 1952
6. Carlsen, C. J., and Kiaer, W. : *Chondromatous Hamartoma of the lung*, *Thorax* 5:283, 1950
7. Dovenbarger, W. V. and Elstun: *Endobronchial Hamartoma*, June 1961 *A. J. O. M.*
8. Hall, W. C. : *Roentgenologic significance of hamartoma of lung*. *A. J. Roentgenol.*, 60:605, 1948.
9. Hart: *Ueber die primären Enchondrome der Lungen*, 4:578, 1906. quoted by Taiana.
10. Jones, R. C., and Cleve, E. A. : *Solitary Circumscribed Lesion of the Lung*, *Ach. Intern. Med.* 93:842, 1954
11. Lebert, H. : *Physiologic pathologique*, vol. 2, p. 213 Bailliere, Paris
12. Le Roux, B. T. : *Pulmonary hamatomata*, *Thorax* 1964, 19, 236
13. Liebow, A. A. : *Benign intrabronchial tumors*, In: *Atlas of Tumor Pathology*, sec. p. 119
14. Oldham, N. H. et al: *Hamartoma of the lung* *J. T. C. S.* 740 vol. 93 No. 5 May 1967
15. Peters, R. : *Ueber das sogenannte Lungenchondrom*, *Beitr. path. Anat.* 89:484, 1932 quoted by Bateson
16. Rubin, M. and Berkman, J. J. : *Chondromatous hamartoma of lung*, *Thoracic Surg.*, 23:393, 1952
17. Smith, A. G. : *Benign Epithelial Tumor of the Bronchus*, *Southern M. J.* 58:1535, 1965