

## 기관지내 발생한 과오종

- 치험 1례 -

김 영 호\* · 김 수 성\* · 김 공 수\*

- Abstract -

### Endobronchial Hamartoma (one case)

Young Ho Kim M.D.,\* Soo Sung Kim M.D.\* and Kong Soo Kim M.D.\*

The origin of hamartoma from the Greek words for "error" and "tumor" is credited to Albrecht who in 1904 described a disorganized arrangement of tissues normally present in an organ and applied also to tumors found in many organs other than the lung.

The hamartoma is the most common benign tumor of the lung and revealed accidentally as asymptomatic coin lesion on routine chest X-ray, but the incidence is very low and especially endobronchial origin extremely low.

We have been successful surgical experienced one case of a 36-year-old female having endobronchial hamartoma, 4x2.5x2 cm in size and located at right main bronchial lumen near the carina, which consists of a hard, nodular surfaced mass and adhered to the cartilagenous portion of the right upper lobe bronchus by dense fibrous band and migrate to trachea on expiration or coughing.

This case was not suspected by chest X-ray or bronchogram and confirmed bronchoscopy with biopsy. Right pneumonectomy was inevitable because of bronchiectatic change of right bronchus due to tumor obstruction.

She was discharged with relatively good general condition on 21 days postoperatively.

### 서 론

과오종이란 어떤 특정된 장기에서 그 장기를 구성하고 있는 성분들이 일정한 조화를 이루지 않고 부분적인 발육 이상으로 발생하는 양성 종양으로서<sup>1,2)</sup> 1845년 Lebert에 의해 처음 발표된 이래<sup>16,17,20)</sup> 그 예가 희귀하다. 폐에 생기는 과오종은 양성 종양중 비교적 흔하지만 기관지내에 발생하는 경우는 더욱 희귀하여 문헌상 1972년 Sibala<sup>24)</sup>에 의해 전세계적으로 58례가 확인된 이래 수례가 보고되고 있고 국내에서는 1976년 유<sup>29)</sup>와 1981년 이<sup>28)</sup>에 의해 2례가 보고되고 있다.

\* 전북대학교 의과대학 흉부외과학교실  
\* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery  
College of Medicine, Jeonbuk National University

본 교실에서는 최근 우측 상엽 기관지 내에 발생한 과오종으로 인하여 우측 기관지 확장증을 합병한 1례를 수술치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

#### 현병력 및 과거력

환자는 36세 여자로서 3년전부터 경한 기침 및 호흡곤란, 악취를 동반한 화농성 객담 배설로 병원에서 기관지 확장증으로 진단받고 수술을 권유 받았으나 환자의 사정으로 수술은 받지 못하였으며 약물치료만 의존하여 왔다.

1년전 임신과 함께 환자상태는 더욱 악화되었으나 특별한 치료를 받지 못하였으며 본 병원 내원 1개월전 심한 호흡곤란으로 인해 다시 모 병원에 입원 치료 받

은후 자각 증상이 호전되자 수술을 받기위해 본 병원에 내원하였다.

### 이학적 및 검사 소견

입원당시 체중 56 kg, 혈압 120 / 70, 맥박 92 / min. 호흡 16/min 체온 37.5 °C이었다. 전반적인 외관상 및 타진상 소견에서는 특별한 것을 발견할 수 없었고 흉부 청진상 우측 흉부 전반에 걸쳐 심하게 감소된 호흡음과 양측 흉부에서 천식음을 들을 수 있었으며 심장잡음은 없었다. 혈액 검사상 혈색소는 12.5 gm/100ml. 혈구 용적치는 39.5 % 백혈구수는 5400/mm<sup>3</sup>이었다. 뇨 및 간기능 검사는 정상이었다. 또한 연차에 걸친 결핵균 도말 검사와 폐 디스토마에 대한 피부반응 검사도 정상이었다. 객담 세균배양 검사에서는 *pseudomonas fluorescens* 을 볼 수 있다.

내원 당시 흉부 단순 촬영상 (Fig.1) 우측 폐 하부에서 가장자리가 불규칙한 균일한 음영을 발견할 수 있으며 기관지 확장증이 의심되어 기관지 조영술 (Fig.2) 을 시행한 결과 우측 폐 중하엽에서 기관지 확장증을 확인할 수 있었다.

기관지경 검사에서 분기절 (carina) 근처에서 우측 주 기관지를 거의 폐쇄시키는 타원형의 종괴를 발견할 수 있었으며 이것은 호흡 변화시마다 기관과 우측 주 기관

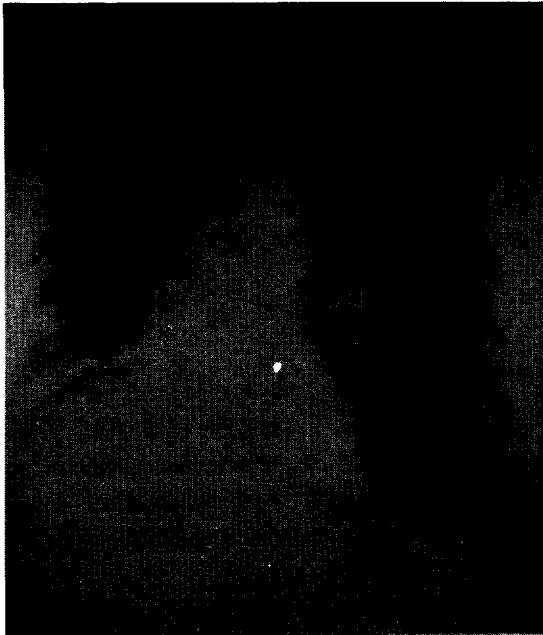


Fig. 1. Chest P-A



Fig. 2. Bronchogram posteroanterior view

지 사이를 왕복 운동하고 있었다.

### 수술 소견

우측 제 5 늑골 절제후 그 기저부를 통하여 개흉하였다. 육안적 소견상 늑막 전반에 걸쳐 중등도의 유착이 있었으며 분기절 근처의 우측 주 기관지내에서 심한 硬結의 병변이 인지되었는 바 주 기관지 절개를 실시하였다. 절개된 기관지를 조사한 결과 4×2.5×2 cm 크기의 단단하고 원통형의 황백색의 종괴가 견고한 섬유질 (dense fibrous band)에 의해 분기절에서 2 cm 떨어진 우측 상엽 기관지의 연골부위 (cartilagenous portion)에 부착되어 있었으며 이 종괴는 평상시나 吸氣 때에는 우측 주 기관지내를 폐쇄시키고 기침시나 呼氣 때에는 기관내로 밀려나와 환자에게 심한 호흡곤란을 일으키고 있음을 알 수 있었다. 또한 폐쇄 이하 부위에서는 화농성의 분비물이 산재하여 있었다. 따라서 우측 폐 절제술을 시행하였다.

### 술후 경과

환자는 술후 3일째 흉관을 제거함과 술후 9일째까지 특별한 이상 소견없이 비교적 양호하였다. 술후 10일째 오심발열, 관절통 및 icteric sclera 를 호소함으로써 인하여 간 기능 검사와 간염에 대한 항원 항체반응 검사상 간염으로 확진되어 이에 따른 치료로 호전되자 환자 의견에 따라 비교적 건강한 모습으로 술후 21일째 퇴원하였다.

**조직 병리 소견**

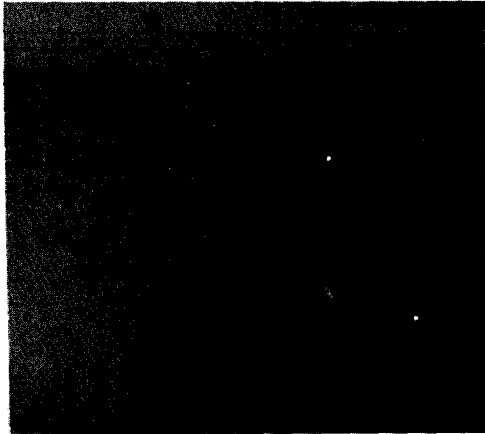
적출된 표본 (Fig.3)은 4×2.5×2cm크기의 원통형의 황백색의 종괴였다. 절단면은 석회화 및 연골조직이 관찰되었으며 다른 점액성 낭포나 지방증성소견 및 특별한 악성변화를 추측할 만한 소견은 관찰할 수 없었다.

주위의 폐 실질 소견에서는 기관지의 불규칙한 확장 및 파괴와 더불어 화농성 분비물이 기관지 주위 및 그 내강에 산재하여 있어 기관지성 폐렴의 양상을 띠고 있는 것이 관찰되었다.

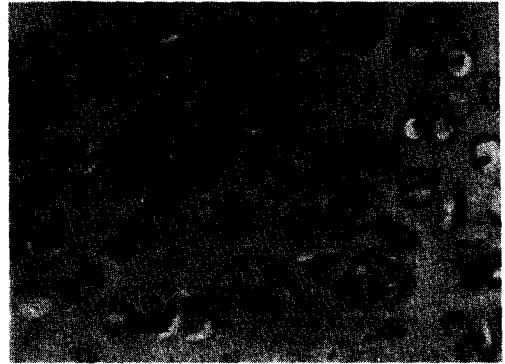
현미경 소견상 (Fig.4) 타원형의 종양은 초자 연골조직이 주 성분을 이루고 있었으며 그 주위는 ciliated columnar epithelium으로 덮혀 있는 선 (gland) 과 평활근이 산재하여 있었다.



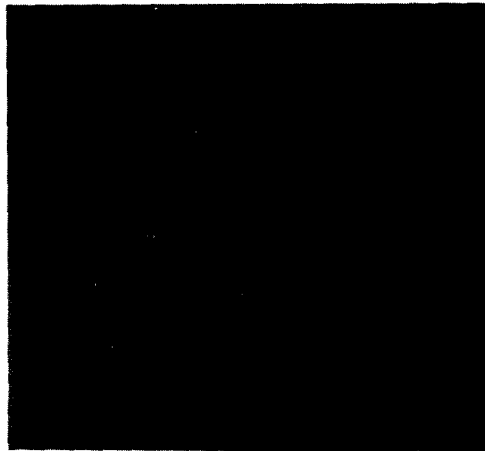
**Fig. 3. -C**  
The mass comes out of the bronchial lumen



**Fig. 3. -A**  
Gross appearance of tumor



**Fig. 4. -A**  
Hyaline cartilage is present as a tumor component



**Fig. 3. -B**  
Cut surface of tumor



**Fig. 4. -B**  
This show glandular spaces with lining ciliated columnar epithelium and smooth muscle tissue.

## 고 찰

과오종은 초기의 문헌을 보면 연골만으로 구성되고 있음을 보고 1845년 Lebert<sup>10)</sup>에 의해 연골종으로 소개되기 시작하여 1904년 Albrecht<sup>2)</sup>에 의해 명칭 및 정의가 내려지게 되었다. 그에 의하면 간에서 생긴 과오종을 정의하기를 “어떤 장기에서 정상적으로 존재하는 성분이 비정상적으로 배합되어 생기는 종양과 같은 기형을 과오종이라고 한다”고 하고 “이러한 이상은 조직의 양, 배열, 분화 정도에 있어서 변화된 형태를 보이며 간 이외에도 비장, 유방 및 폐 등에서도 볼 수 있다”고 하였다.

1906년 Hart<sup>12)</sup>가 폐 실질내에서 상피성분과 연골 성분으로 구성된 폐 과오종을 처음 보고한 이래 폐 과오종은 비교적 많은 경우가 보고되고 있으나 기관지내 발생한 과오종은 매우 희귀하여 문헌상 1961년 Dovenbarger와 Elstun<sup>10)</sup>이 총 42례 확인한 이래 그후 11년후 1972년 Sibala<sup>14)</sup>에 의해 16례가 증가한 58례가 보고되고 있고 국내에서는 현재까지 유<sup>3)</sup>, 이<sup>3)</sup>, 의<sup>2)</sup>가 보고되고 있다.

과오종의 발생기전과 성장의 촉진기전에 대하여서는 잘 알려져 있지 않으나 Blever와 Marks<sup>5)</sup>은 폐 실질내 발생한 과오종에서 성년의 섬유 연골성 종괴와 신생아의 낭포성 종괴가 있으며 배아 잔유조직(embryologic rest)이 비정상적으로 증식한 것이라고 하였다. Bateson<sup>5)</sup>은 노인의 폐에서 발생한 과오종에서 섬유성 결합조직이 원발성 종양 조직이고 연골 및 지방조직 등 다른 결합조직은 이차적으로 형성된 것으로 폐의 과오종은 기관지 벽의 섬유성 결합조직 종양이고 상피는 기관지 점막 표면상피의 붓입에 의해 생긴 것으로 섬유세포와 연골세포 사이에 점진적인 이행이 있다고 하였으며 이것은 Stone과 Churg<sup>20)</sup>에 의해 전자 현미경 연구로 증명되었다.

이 종양은 Albrecht의 처음 선천적 발육이상설에 거의 의견의 일치를 보아 왔으나 최근 30여년간 그 조직의 구성성분에 따라 chondroadenoma<sup>1)</sup>, hamartochondroma<sup>4)</sup>, lipochondroadenoma<sup>7)</sup> adeno-lipo-fibro-osteochondroma<sup>21)</sup> 및 chondromatous hamartoma<sup>9)</sup> 등 여러 명칭으로 불리어지고 있으며 현금에서는 연골성 과오종이나 과오종의 명칭으로 주로 사용되고 있다. 이들 명칭에서 보듯이 대부분의 과오종은 그 구성 성분중에 연골성분을 포함하고 있으며 연골성분이 없는

과오종은 아주 희귀하여 국내에서는 유<sup>3)</sup>가 보고한 폐는 후자에 속하는 것으로 지방조직이 주를 이루고 1981년 이<sup>3)</sup>의 폐와 본 폐에서는 전자에 속하였다.

폐 과오종은 나타나는 위치에 따라서 폐 실질내형과 기관지내형으로 크게 구분할 수 있으며 대부분은 실질내에 많은 것으로 되어 있고<sup>3,5,8,14,23)</sup> 따라서 연차적으로 자라서 폐 실질 및 기관지 압박등으로 인한 것 외에는 Shah<sup>23)</sup> 60례중 48례, Oldham<sup>20)</sup>의 30례중 28례에서 임상적으로 자각증상이 없고 우연한 기회 흉부 X-선 촬영상 발견할 수 있었다. 그러나 폐문부 주위나 기관지내형에서는 기침, 발열, 흉통, 호흡곤란, 각혈 등의 증상이 비교적 초기에 출혈할 수 있으며 심한 경우에는 기관지 폐쇄로 인해 무기폐 내지 허탈상태에 빠질 수도 있고 기관지 확장증이나 폐렴 등의 합병증이 생겨 생명을 위협할 수도 있다<sup>3,26,28)</sup>. 따라서 이 경우에는 기관지경 검사가 유의하게 된다<sup>3,23)</sup>. 본폐에서는 우측 주 기관지를 거의 폐쇄시키는 종괴로서 평상시나 吸氣 때에는 비교적 호흡곤란을 느끼지 못하나 기침시나 呼氣 때에는 기관지로 밀려나와 기관을 폐쇄시킴으로서 심한 호흡곤란을 호소할 뿐만아니라 심하게는 청색증까지 일으키게 되었고 더불어 우측에 저류된 불비물이 좌측으로 넘어감으로 인해서 양측 폐렴을 일으키고 있었으며 기관지경 검사로 추측할 수 있었다.

대체로 병소 자체의 크기나 모양이 2-4년 이상 변화가 없든지 광범위한 석회화가 나타나면 일단 양성일 가능성이 많으며<sup>14,16)</sup> 악성변화는 드물지만 Hayward<sup>13)</sup>, Weinberger<sup>27)</sup> 등은 전이가 있었던 경우를 보고하였고 Karpas와 Blackman<sup>15)</sup>은 adenocarcinoma가 발생한 경우를 보고하였다.

발생빈도는 자각증상이 없으므로 정확히는 알 수 없으나 폐에 발생하는 양성종양중에서 가장 높은 비율을 차지하는 것으로 Arrigoni<sup>9)</sup>의 보고에 의하면 130례의 폐 양성 종양중 과오종이 100례로 77%를 차지하였으며 Good<sup>11)</sup>의 보고에 의하면 폐에 발생한 단발성 coin lesion의 8%를 차지하였다고 하며 폐암과 육아종에 이어 3위라고 한다<sup>14)</sup>. 성별 발생빈도는 남자에서 약 3배 많으며 50대 전후에서 더욱 흔하다<sup>5,6)</sup>. 발생 부위별로 볼 때 주변(periphery)에서 75-80%, 중앙(center)에서 15-20%이며 대부분이 늑막하의 폐 실질내에 존재하고 늑막 및 기관지내 발생하는 경우는 극소수이다.

크기는 다양해서 수 mm에서 6 cm 정도에 이르지만 15 cm 크기까지 보고된 레도 있다<sup>25)</sup>. 육안 소견으로는

표면은 소엽성 (lobulation)에다 편평하고 항상 연골 내지 dense fibrous tissue의 결절로 이루어진다. 조직 소견으로는 기질이 대부분의 구성 성분을 형성하고 있으며 섬유조직과 점액성의 결합조직에 쌓인 연골이 과나 소엽을 형성하여 나타난다. 연골 조직내에는 가끔 석회화, 골화 및 골수성분도 있을 수 있으며<sup>22,30)</sup> 연골조직 사이의 결합조직은 가끔 점액성 간질과 지방조직으로 이행하여 primitive mesenchyme과 아주 유사한 양상을 보이고 방추 세포가 연골세포로 이행하고 있는 것을 볼 수도 있다<sup>19)</sup>. 드물게는 지방조직과 점액성 결합조직이 종양의 주 성분을 이루고 있을 때도 있으며<sup>13,29)</sup> 호흡상피도 나타나 소엽을 덮고 있으나 열상구역을 형성하기도 한다.

진단은 보통 자각증상이 없기 때문에 우연한 기회에 흉부 X-선 사진을 촬영하였을 때 폐에 coin lesion으로 발견되는 경우가 많으며<sup>8,20)</sup> 10-50%에서 석회화 음영이 나타나는 경우<sup>20)</sup>도 있어 이를 확인하기 위해 단층촬영을 이용하기도 한다<sup>8,14)</sup>. 특히 기관지내에 발생한 과오종에서는 기관지경 검사에 의한 생검이 중요한 의의를 가질 수도 있다<sup>23)</sup>. 더욱 악성 종양과의 감별상의 문제로서 최근에는 가능한한 불필요한 외과적 수술을 피한다는 의미에서 연령을 참고하여 Needle aspiration biopsy나 brush biopsy 등으로 가급적 양성 여부를 술전에 판명하기도 한다<sup>18)</sup>. 그러나 대부분의 정확한 진단은 개흉술을 실시한 후에야 판명되는 것이 보통이다.

감별진단이 가장 필요한 경우는 악성 종양으로서 이것은 50년대 이후 coin lesion의 50% 이상을 차지하고 중심부 보다는 말초 부위에 여성보다는 40-60대의 남성에서 많은 점등이 과오종과의 감별이 어렵다<sup>31)</sup>. 그외 종격동내 기형종, 기관지 선종, 결핵성 육아종 등과 감별 진단이 요하며 특히 부분적으로 석회화 침착한 결핵성 육아종과는 감별 진단이 매우 어렵다.

치료는 수술요법에 의해 종양을 제거하는 길이며 병소 자체가 단일 병소이고 악성 변화없이 말초 부위가 확실하다면 국소 절제술, 종양 적출술, 췌기 절제술 등이 가장 간단하게 사용한 것으로 되어 있으나 염증성 질환이거나 악성 종양일 경우는 그 내용물이 주위 조직에 파급될 위험성이 있어 추천할 방법이 못되고 있으며 폐 실질 깊숙히 위치한 경우는 폐 구역 절제술이나 폐엽 절제술을 시행하는 것이 권장된다. 본례에서는 과오종이 상엽 기관지에서 발생하였고 중 하엽에 심한 기관지 확장증을 일으킴으로 인해서 우측 전체 절제술을 시행

하였다.

## 결 론

본 전복의대 흉부 외과학 교실에서는 최근에 우측 중 하엽, 기관지 확장증을 동반한 우측 상엽 기관지내에 발생한 과오종 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

1. Adams, M.J.T. : *Pulmonary Hamartoma (the cartilagenous type)*, *Thorax*, 12:268, 1957
2. Albrecht, E. : *Ueber Hamartoma*, *Verh. Dtsch. Ges. Pathol.* 7:153, 1904
3. Arrigoni, M.G., Woolner, L.B., Bernatz, P.E., Miller, W.E., and Fontant, R.S. : *Benign tumor of the lung. A ten-year surgical experience*, *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 60:589, 1970
4. Bateson, E.M. : *Relationship between intrapulmonary and Endobronchial Cartilage containing Tumors (so called Hamartoma)*, *Thorax*, 20:447, 1965
5. Bateson, E.M. : *So called hamartoma of the lung—A true neoplasm of fibrous connective tissue of the bronchi*, *Cancer*, 31:1458, 1973
6. Blevier, J.M. and Marks J.H. : *Tuberculoma and Hamartoma of Lung, Comparative study of proved cases*, *Am. J. Roentgenol.*, 77:1013, 1957
7. Brewn, E.G. : *A case of lipoma of the bronchus treated by transpleural bronchotomy*, *Brit. J. Surg.*, 40:282, 1952
8. Butler, C. II, and Kleinerman, J. : *Pulmonary Hamartoma*, *Arch. Pathol.*, 88:584, 1969
9. Carlsen, C.J. and Kiaer, W. : *Chondromatous Hamartoma of the lung*, *Thorax*, 5:283, 1950
10. Dovenbarger, W.V. and Elstun: *Endobronchial Hamartoma*, *A.J.O.M.*, June, 1961
11. Good, C.A. and Wilson, T.W. : *The solitary circumscribed pulmonary nodule, study of seven hundred five cases encountered roentgenologically in a period of three and one half years*, *J.A.M.A.*, 166:210, 1958
12. Hart : *Ueber die primaren Enchondroma der Lungs*, 4:578, 1906. quoted by Taiana
13. Hayward, R.H. and Carabasi, R.J. : *Malignant*

- hamartoma of the lung, Fact or Fiction ?*. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 53:457, 1967
14. Jones, R.G. and Cleve E.A. : *Solitary circumscribed lesions of the lung; selection of cases for diagnostic thoracotomy*, *Arch. Intern. Med.*, 93:842, 1957
  15. Karpas, M.D. and Blackman, N. : *Adenocarcinoma arising in a hamartoma of the bronchus associated with multiple benign tumors*, *Am. J. Clin. Pathol.*, 48:383, 1967
  16. Lebert, H. : *Physiologic pathologique*, vol. 2:213, Bailliere, Paris
  17. Le Roux, B.T. : *Pulmonary Hamartoma, Thorax*, 19:236, 1964
  18. Lillington, G.A. : *The solitary pulmonary nodule*, *Am. Rev. Resp. Dis.*, 110:699, 1974
  19. McDonald, J.R., Harrington, S.W., and Clagett, O.T. : *Hamartoma (often called chondroma) of the lung*, *J. Thorac. Surg.*, 14:128, 1945
  20. Oldham, N.H. : *Hamartoma of the lung*, *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 53:735, 1967
  21. Peters, R. : *Ueber dar sogenannte Lungenchondrom*, *Beitr. Path. Anat.* 89:484, 1932. quoted by Bateson
  22. Rubin, M. and Berkman, J.J. : *Chondromatous hamartoma of lung*, *Thoracic. Surg.*, 23:393, 1952
  23. Shah, J.P., Choudhry, K.U., Huvos, A.G., Martin, N., and Beattie, E.J. Jr. : *Hamartomas of the lung*, *Surg. Gynecol. Obstet.*, 136:406, 1973
  24. Sibala, J.L. : *Endobronchial Hamartoma*, *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 62:631, 1972
  25. Simon, M.A. : *Hamartomas of the lung and so called "pulmonary adenomatosis"*, *Am. J.M. Sc.*, 216:333-342, 1948
  26. Stone, F.J. and Churg, A.M. : *The ultrastructure of pulmonary hamartomas*, *Cancer*, 39:1064, 1977
  27. Weinberger, M., Kakos, G.S., and Kilman, J.W. : *The ultrastructure of pulmonary hamartomas*, *Cancer*, 39:1064, 1977
  28. 김경우, 이홍균 : 폐실질 및 기관지에 발생한 과오증 ( 3례보고 ). 대한흉부외과학회지, 14 : 345, 1981
  29. 金大瑩, 崔秀承, 李正浩, 柳英善, 柳會性, 朴孝淑 : 기관지내 과오증 치험 1례, 대한흉부외과학회지, 9:94, 1976.
  30. 이홍균외 : Hamartoma ( 과오증 ) 의 1례보고, 대한외과학회지, 6 : 481, 1941
  31. 박광훈, 지정희 : 폐 과오종의 1치험례, 대한흉부외과학회지, 9 : 169 1976