

폐 과오종을 동반한 전종격동 흉선낭종

- 1 레 보고 -

이양행* · 황윤호* · 우종수* · 조광현*

박 등 식* · 홍 숙 희**

- Abstract -

Pulmonary Hamartoma Associated with Thymic Cyst

- A case report -

Lee, Yang-Haeng, M.D.* , Whang, Youn-Ho, M.D.* , Woo, Jong-Soo, M.D.* ,
Cho, Kwang-Hyun, M.D.* , Park, Dong-Sick, M.D.* , Hong, Sook-Hee, M.D.**

33-year old female was admitted chest surgery department for evaluation of mild chest. pain.
Chest plain film showed right anterior mediastinal mass and small metastatic daughter mass ipsilateral side.

Exploratory thoracotomy was performed 24th Aug. '83. revealed that small nodular parenchymal mass at right middle lobe and large cystic mass at anterior mediastinum which was connected with anterior mediastinal fat.

Histological examination confirmed diagnosis as pulmonary hamartoma and thymic cyst individually.
We successfully treated these two masses by wedge resection and excision.

Although postoperative course was uneventful, the cause and associated relationship between two tumor origin were obscure.

I. 서 론

흉선 낭종은 비교적 희귀한 질환으로써 경부, 전면 종격동에 발생하며 폐 과오종은 폐에 발생하는 양성 종양 중에서는 발생빈도가 많으나 폐에 생기는 모든 종양에 대한 발생빈도는 매우 낮고, 흉선 낭종과 폐 과오종이 같이 생긴 레는 더더욱 희귀하다. 인제의대 흉부의과학교

실에서는 최근 경미한 흉통으로 래원하여 흉부 단순촬영 결과 종격동 종양을 의심하여 수술후 흉선 낭종과 폐 과오종이 있음을 조직학적으로 확인하였기에 보고하는 바이다.

II. 증 례

33세 여자로서 1개월간에 걸친 경미한 흉통을 주소로 모시골 병원에서 흉부 단순촬영 결과 종격동 종양으로 진단 흉통으로 내원하여 흉부단순촬영 결과 종격동 종양을 의심하였고 종양절제후 조직학적인 검사로 각각 폐 과오종 및 흉선낭종으로 확인되어, 폐부분절제술과 흉선낭종 제거술로 완치하였기에 보고하는 바이다.
결과 종격동 종양을 의심하였고 종양절제후 조직학적인

* 인제의과대학 흉부의과학교실

* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inje Medical College.

** 인제의과대학 임상병리학교실

** Department of Clinical Pathology, Inje Medical College.

검사로 각각 폐 과오종 및 흉선낭종으로 확인되어, 폐부 분절제술과 흉선낭종제거술로 완치하였기에 보고하는 바이다.

II. 증 례

33세의 가정주부로 특별한 증상없이 경미한 흉부불쾌감으로 본원에서 흉부단순촬영을 시행하였고 종격동종양을 의심 수술받기 위해 입원하였다. 환자의 과거력이나 가족력에 특별한 이상 소견이 없었다. 이학적 검사상 우측 흉부에 호흡음의 저하가 있고, 타진상 둔음의 상승이 있었다. CEA(0.9 ng/ml), α -fetoprotein(3 ng/ml)을 포함한 모든 검사소견은 정상하였고, Serum Protein Electrophoresis도 정상이었다. 흉부 단순촬영 상에서 우측 폐문 부위에 심장연의 중간 2/3를 가리는 종괴의 음영과 그음영의 가장자리는 얇은 석회층 윤이 보였으며 그 내용물은 전체적으로 음영이 균등하여 낭종을 의심케 하였다. Chest P-A상에는 이 종괴의 중하부 가장자리 가까이 우폐야 중간부에 직경 2cm×2cm 크기의 이종괴보다 더 Radiopaque 한 음영이 겹쳐 있고 Lateral 상은 이종괴와 떨어져 앞쪽에 위치하여 술전 종격동 종양과의 관계가 매우 모호하였다(Fig. 1, 2).

8, 23에 Bronchofiberscopy 하였으나 기관지내 이상을 발견치 못하였고 8, 24에 환자의 증상 및 여러검사 소견

을 종합하여 종격동 종양을 추정 개흉하였다.

Antero-lateral Thoracotomy 시행하여 5번째 골막하로 늑막강에 들어가 흉골연 직하부에 어른의 주먹보다 조금 큰 낭종을 발견하였고 그 낭종은 말랑말랑 하면서도 탄력이 있었고, 심낭과 상대정맥과 유착이 있었고 앞쪽으로는 흉선 조직 및 지방 조직과 연결되어 있었다. 또 우측 중엽에 Medial Segment의 앞쪽 가장자리에 약 2.5 cm×1.8 cm×3.2 cm 크기의 Gelatinous nodule of cartilage가 있어 중엽 일부를 포함하여 절제하여 Frozen Section을 하였다. 이 Nodule의 절제소견은 단단하며 분엽된 회백색의 둥근 물체로 주로 연골 조직 섬유로 구성되어 있었고 소량의 지방, 폐 실질조직 및 평활근, 호흡상피 및 섬모가 보여 폐 과오종의 진단을 내릴 수가 있었다. 종격동 종양의 크기는 9.6×7.5×6.5 cm였고 종격동 종양의 내부는 석회화와 함께 교질 조직으로 구성되어 있고 낭종 내부의 표피 세포는 파괴되어 있었으며, 만성 염증을 보이고 있었다. 그러나 군데 군데에 편평 세포로 덮여 있었다. 낭종의 외측 층은 위측 퇴화된 흉선 조직으로 되어 있었다(Fig. 3, 4, 5, 6).

술후 1주일후 아무런 합병증 없이 퇴원하였다.

III. 고 찰

폐의 과오종의 발생 기전에 대하여는 논란이 많다.



Fig. 1. Pre-ope. chest P-A & Rt. lateral films, showing well defined round mass like density at right hilar area which obliterate right cardiac border. Thin calcification ring is placed at its peripheral portion. it's inner content shows homogenous cystic density. Daughter small calcified mass is found at inferior-lateral border of large mass(chest P-A) anterior-inferior (Rt lateral)

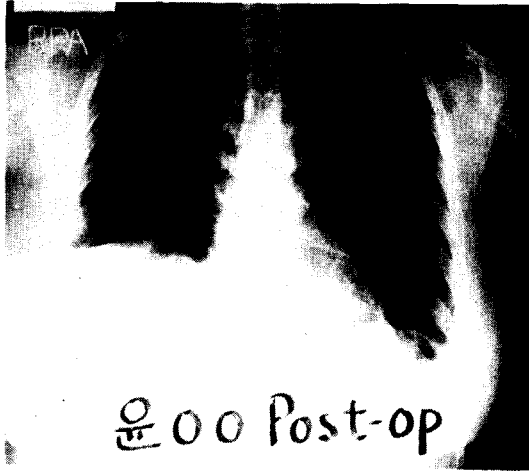


Fig. 2. Post-op. Plain chest P-A and lateral views.



Fig. 3. Gross specimen, showing a large ovoid firm thymic cyst, measuring approximately 9.6x7.5x6.5 Cm in dimension.



Fig. 4. The lung mass is composed of islands of mature cartilage, smooth muscle, and clefts lined by respiratory epithelium.

1883, Chiari²²⁾는 이종양이 연골 이외의 지방, 선상피 조직이 포함되어 있음을 알고 Lipochondro adenoma 라고 명명하였고 1904 Albrecht 가 어떤 장기에서 정상적으로 존재하는 성분이 비정상적으로 배합되어 생기는 종양과 같은 기형을 과오종이라고 하였다³⁴⁾. 그러나 이후 이종양은 조직 병리학적인 연구 결과 기관지 벽의 결합 조직에서 후천적으로 발생한 양성 종양임이 밝혀졌다¹⁾. 특

히 Bateson¹¹⁾ 등은 섬유성 결합 조직이 원발성 종양 조직이고 연골, 지방 조직 등 다른 결합 조직은 이차적으로 형성된 것으로 폐의 과오종은 기관지 벽의 섬유성 결합 조직 종양이고 상피는 기관지 점막 표면 상피의 붕임에 의하여 생긴 것이라고 주장하였다.

폐 과오종의 발생 빈도는 Arrigoni⁴⁾ 등의 보고에 의하면, 폐 양성 종양 130례 중 과오종이 100례로 77% 점하였고 Good⁶⁾ 등의 보고에 의하면 폐에 발생한 단발성 Coin lesion 의 8%를 점하였다고 한다. 이종양은 대



Fig. 5. The cyst wall shows partially ulcerated squamous epithelial lining and scattered lymphocytes.



Fig. 6. In area, the cyst wall is surrounded by normal thymic tissue composed of lymphocytes aggregates and fat cells.

개 중년 이후 남자에 호발하고 폐말초 부위의 비교적 크기가 적은 Coin lesion으로 발견되며 원발성 폐암과의 구별이 용이하지 않아 임상적으로 중요한 의미를 가진다^{3,4)}. X-Ray상의 특징은 진하고 경계가 뚜렷한 둥근 혹은 분엽된 종괴를 형성하며 석회화 침윤상을 나타내기도 하지만 큰 경우는 기관지 폐암과의 감별이 힘들고⁵⁾ 본례의 경우는 아주 작은(2cm 직경) 종양이 중격동 중앙

과 떨어져 있어 술전 의심하기가 어려웠다. 폐 과오종은 육안적으로 흰색의 단단한 종괴로서 종양의 활면은 분엽상을 보이고 대부분이 윤기있는 연골조직 결절로 구성되어 있다. 대부분은 본례와 같이 늑막하의 폐 실질에 존재하고 Bateson¹⁰⁾ 등은 큰기관지 내로 폴립으로 자라는 19.5%가 기관내 과오종이라고 하였다. 폐 과오종의 현미경 소견은 이종양의 대부분이 정상 연골로 되어 있고 결합 조직에 의해 여러 결절로 나뉘어 있다. 연골 조직 내에는 가끔 석회화, 골화 및 골수 성분도 있을 수 있다. 연골 결절 사이에는 Cleft, 지방조직, 평활근 섬유, 점액 선을 가지며 Cleft는 호흡기 상피 세포로 배열되어 있고 때로는 섬모가 보이기도 한다^{3,11)}.

폐 과오종의 악성 변화에 관해서는 논란이 많으며^{2,10)} 그 빈도는 매우 낮은 것으로 보고되어 있다. 본 종양의 치료 방법은 수술 요법에 의하여 종양을 제거하는 방법 뿐으로 종양의 위치나 폐 조직과의 유착 정도에 따라 Wedge Resection 또는 Lobectomy를 시행하여야 한다. 흉선 낭종도 비교적 희귀한 질환으로써 1897년 Loupalt²⁾가 처음 보고하였다.

발생 부위는 경부, 전면 중격동 또는 양측에 생길 수 있다. 그러나 Podolsky¹⁷⁾ 등의 보고에 의하면 35 case의 흉선 낭종은 위치별로 중격동 27례, 경부 8례, 양측성 4례로 나타났다. 그러나 Krech¹⁵⁾ 등의 보고에 의하면 1/3이 경부에 국한되고 2/3가 전흉부에 위치하나 그 중 10%가 경부로 연장된 경우라고 주장하였다. Castleman¹³⁾ 등의 보고에 의하면 대개가 선천성인 경우고 소수에서 후천적인 원인으로 발생된 것으로 추정한다. 1954년 Krech¹⁵⁾ 등은 흉선 낭종은 선천성, 염증성, 종양에 의한 것으로 분류하였다. 흉선 낭종의 원인에는 여러 가지 설이 있으나^{14, 18, 20, 22)} Seltzer¹⁸⁾ 등에 의하면 Third pharyngeal pouch의 tubular remnant에서 생긴다고 주장하였다. Podalsky¹⁷⁾ 등은 선천성 결손, 속이 빈 흉선관, 또는 흉선 인두관이 액체가 차거나 출혈성 팽만이 있을 때까지 잔존하여 발생한다고 주장하였다.

대부분의 경우 무증상이고 우연히 찍은 흉부 X-선 사진에서 발견되는 경우가 많으며 소수에서 흉통 또는 기침이 있고 연하곤란, 호흡곤란, 사성, 체중감소 등의 증상이 있을 수 있다^{14, 17, 19)}. X-선 소견상 그 크기는 다양하고 대개 종축이 길며, 아주 큰 경우는 양측에 다 보일 경우도 있다. 대개 Lobulation이 있으며 전부 중격동에 위치하기 때문에 기관지나 식도가 뒤로 밀려 있을 가능성이 있다.

본례와 같이 Calcification이 있는 경우는 매우 드무

나 이것이 보일 때 낭종이라는 추측을 할 수 있다. 또 갑자기 크기가 커질 때는 낭종내 출혈을 의심할 수 있다¹⁷⁾. 흉선 낭종의 조직학적 소견은 내부가 Multi-loculated 되어 있으며 투명액 또는 현탁액이 들어있고, 오랜 출혈로 황색, 갈색, 적색액이 들어 있을 수 있다. 낭종의 벽은 흉선 조직으로 구성되어 있고, 삼피 혹은 섬유조직이 낭종을 싸고 있으며, Calcium과 Cholesterol Crystals, 부분적인 출혈 등도 볼 수 있다. 본례에서는 낭종 내부는 노란 빛의 비지같은 물체가 들어 있었으며, 상기한 모든 조직학적 소견을 다 볼 수 있었다. 낭종은 흔히 정상 흉선속에 들어 있거나 섬유질의 조직에 의해 연결되어 있는데 본례에서는 지방 조직과 흉선 실질 조직들과도 연결되어 있었다. 치료는 외과적 절제이다. 1901년 Polloson¹⁸⁾ 등이 처음 외과적 절제가 시도된 뒤 1944년 Hyde, Sellers, and Owen^{16, 19)}에 의하여 경부 흉선 낭종의 완전 절제가 이루어 졌으며 재발의 보고는 없다^{16, 17)}. 흉선 낭종과 폐 과오종이 동시에 생긴 원인은 우연으로 생각되었으나 확실한 연관은 알지 못하였다.

IV. 결 론

인제대의 흉부외과에서는 최근 치험한 폐 과오종과 흉선 낭종이 동시에 발견된 1례를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. ^{13, 17)}.

REFERENCES

1. Bateson, E.M. : So-called hamartoma of the lung—a true neoplasm of fibrous connective tissue of the bronchi. *Cancer*, 31:1458, 1973.
2. McDonald, J.R., Harrington, S.W. and Clagett, O.T. : Hamartoma (often called chondroma) of the lung. *J. Thorac. Surg.*, 14:128, 1945.
3. Butler, C. II and Kleinerman, J. : Pulmonary hamartoma. *Arch. Pathol.*, 88:504, 1969.
4. Arrigoni, M.G., Woolner, L.B., Bernatz, P.E., et al. : Benign tumors of the lung. A ten year surgical experience. *J. Thorac. cardiovasc. Surg.*, 60:589, 1970.
5. Wilson, W., Glicklich, M. and Landis, F.B. : Surgical illustrated : Pulmonary hamartoma, an enlarging neoplasm. *Arch. Surg.*, 71:128, 1955.
6. 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.
7. Shah, J.P., Choudhry, K.U. Huvos, A.G., Martini, N. and Beattie, E.J. Jr. : Hamartoma of the lung. *Surg. Gynecol. Obstet.*, 136:406, 1973.
8. Hall, W.C. : The roentgenologic significance of hamartoma of the lung. *Am. J. Roentgenol. Radium Ther.*, 10:605, 1948.
9. Hall, W.G. : The roentgenologic significance of hamartoma of the lung. *Am. J. Roentgenol. Radium Ther.*, 10:605, 1948.
10. Oldham, H.N. Jr. : Benign tumors of the lung and bronchus. *Surgical Clinics of North America*, 60:825, 1980.
11. 김대영, 유희성 : 기관지내 과오종 치험 1례, 대한흉부외과학회지, 9:94, 1976.
12. 김경우, 이홍균 : 폐실질 및 기관지에 발생한 과오종(3례보고), 대한흉부외과학회지, 14:345, 1981.
13. Castleman, B. : Tumors of the thymic gland. *Armed Forces institute of Pathology Fascicle*.
14. Ringertz, N., and Lidholm, S.O. : Mediastinal Tumors and Cysts, *J. Thor. Surg.* 31:458, 1956.
15. Krech,
16. Krech, W.G., Storey, C.F. and Umiker, W.C. : "Thymic Cysts. : A Review of the literature and Report of two cases," *J. Thor. Surg.* 27:477, 1954.
17. Bradford, M.L., et al. : Mediastinal Cysts and Tumors, *Surg. Gynec. Obstet.* 85:467, 1947.
18. Podolsky, S., Ehrlich, E.W. and Howard, J.M. : Congenital thymic cyst attached to the pericardium. *Case Report and review of the literature, Dis. Chest*, 42:642, 1962.
19. Ronald, A. Seltzer, et al. : Mediastinal thymic cyst, *Dis. of Chest*, 53:186-96, Feb., 68.
20. Polloson, A. and Piery, M. : "Un cas D'Epithelioma Primitif du Thymus, : " *Providence Med., Lyon* 15:1, 1901.
21. Hyde, T.L., Sellers, E.D. and Owen, M. : "Thymic Cyst of the Neck," *Texas State J. Med.*, 39:539, 1944.
22. 김주현외 : 선천성 흉선낭종 2례 보고, 대한흉부외과학회지, 5:41, 1972.
23. Loupalt, M. : "Maladie de Basedow." *Bull. Soc. Anat. Par.*, 72:592, 1897.