

## 췌장조직을 함유한 종격동 기형종

- 1 예보고 -

백광제\* · 선 경\* · 김학제\* · 김형묵\* · 김인선\*\*

-Abstract-

### Mediastinal Teratoma Containing Pancreatic Tissue

- A Case Report -

Kwang Je, Baek, M.D.\*, Kyung, Sun, M.D.\*, Hark Jei, Kim, M.D.\*,  
Hyoung Mook, Kim, M.D.\*, In Sun, Kim, M.D.\*\*

Mediastinal teratoma is a rare mediastinal tumor, and is usually located in anterior mediastinum. It contains all tissues which derived from three germinal layers, so its components are vairiable, and its special clinical features are developed by specialized tissue that containing such as teeth, hair, sebaceous gland, digestive epithelium, pancreatic tissue, and etc.. Especially mediastinal teratoma tends to have a well differentiated endodermal layer esp. pancreatic tissues, so functioning exocrine and endocrine hormonal activities produce such complications as hypoglycemia by insulin, aseptic inflammation or fistula by deigestive hormones.

We experienced a case of mediastinal teratoma containing well proliferated pancreatic islet cell without systemic complications.

The patient was 19 year old male student and admitted to Korea University Hospital with productive cough for 2 years. Past history revealed glue inhalation and antituberculosis medication for 2 years under the impression of pulmonary tuberculosis without improvement.

Preoperative routine laboratory findings were not specific in blood chemistry, FBS, CBC, urinalysis, etc..

The patient was operated under the impression of anterior mediastinal dermoid cyst proved by CT scan.

Operation was done thru Lt. posterolateral thoracotomy, and operative findings showed 10x10x5 cm sized cystic mass in anterior mediastinum that containing coca cola-clored fluid about 100 cc in amounts and 1x1x2 cm sized intraluminal mass, and another 2x2x3 cm sized cystic mass in 4th intercostal space with same content.

After removal of mass, permanent pathologic findings showed severe inflammatory and fibrotic cyst wall, multiple granulomatous changes containing cholesterol crystal, bronchial mucosa, secretory epithelium of GI tract, and almost all of the tissues contained pancreatic tissues esp. islet cell.

Immunoenzymatic study showed strong reaction to insulin but few reaction to glucagon and somatostatin.

On 7th postoperative day, there was some loculated effusion in Lt. middle portion of lung but it was improved with prednisolone and antibiotics.

The patient was discharged on 15th postoperative day with good condition.

\* 고려대학교 의과대학 흉부외과학교실

\* Dept. of Thoracic & Cardiovascular Surgery, Medical College, Korea University

\*\* 고려대학교 의과대학 임상병리학교실

\*\* Dept. of Clinical Pathology, Medical College, Korea University

## 서 론

중격동의 기형종은 중격동 종양의 일종으로 전방중격동에 많이 발생하며 태생학적으로 3 배엽에서 기원하는 모든 조직이 존재하는 것이 특징으로 대부분 증상이 없거나 주위조직을 압박하여 wheezing 또는 dysphagia를 초래한다. 드물게는 염증이나 악성변화를 일으키기도 한다. 그러나 때로는 구성하고 있는 조직들이 기능을 갖는 경우가 있는데 난소에서는 갑상선 조직의 출혈으로 갑상선기능항진증이 생기는것은 잘 알려진 사실이다.

중격동에 발생하는 기형종은 다른 부위의 것에 비해 내배엽 특히 췌장조직으로의 분화가 잘 이루어지는 것으로 되어있다. 따라서 췌장의 내분비 및 외분비 기능의 출현으로 인해 인슐린의 분비로 저혈당증을 일으키거나 소화효소의 분비로 비감염성 염증이나 누공(fistula)을 잘 일으키는 것으로 알려져있다.

본 고려대학교 흉부외과학 교실에서는 내배엽 특히 Langerhan's islet의 증식이 현저했던 중격동 기형종을 1예 치험하였으므로 문헌고찰과 함께 보고한다.

## 증 례

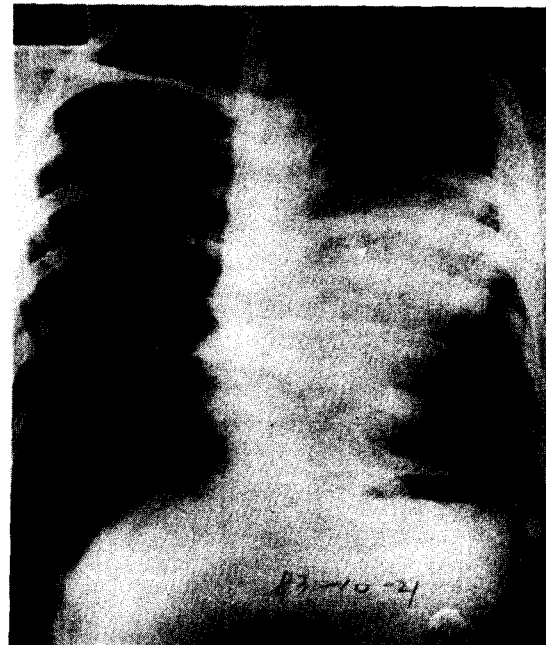


Fig. I. 좌측폐문 주위에 increased hazy density가 보인다

- (1) 환 자 : 이 ○ 진 19세 남자
- (2) 주 소 : 객담을 동반한 기침, 각혈
- (3) 임상 경과 : 2년전부터 기침등이 발생하여 개인 병원에서 폐결핵의 진단하에 항결핵요법을 받아오던 환자로 그간의 치료에도 불구하고 상기 증상의 호전이 없어서 1984년 8월에 본원 외래로 내원하여 흉부 X-선 사진에서 좌측폐문을 중심으로 비교적 큰 음영소견이 발견되어서 입원하였다 (Fig. I, II참조)

(4) 과거력 : 4년간의 객연과 2년전부터의 본드흡입 이외에 특이할 사항은 없었다.

(5) 이학적 소견 : 좌측흉부의 중간부위에서 호흡음의 감소와 둔탁음의 증가가 청취된 것이외는 특기사항 없었다.

(6) 검사소견 : 일반혈액학 검사상에 Hgb 12, Hct 37, W.B.C. 4850, R.B.C 415만, E.S.R. 29등 이었고 생화학검사상에 FBS 85mg %, BUN 21.7mg %, Creatinine 1.3mg %, Total protein 6.5mg %, Total Cholesterol 136mg %, Alk. phosphatase 52mg %, GOT 17 Unit/ℓ GPT 23 U/ℓ 등으로 일반검사소견은 모두 정상이었다.

(7) 방사선 및 내시경소견 : 단순흉부촬영상에 좌측폐문주위에 약 6 cm × 6 cm크기의 음영증가가 발견되어서



Fig. II. 좌측폐문 주위에 increased hazy density가 보인다

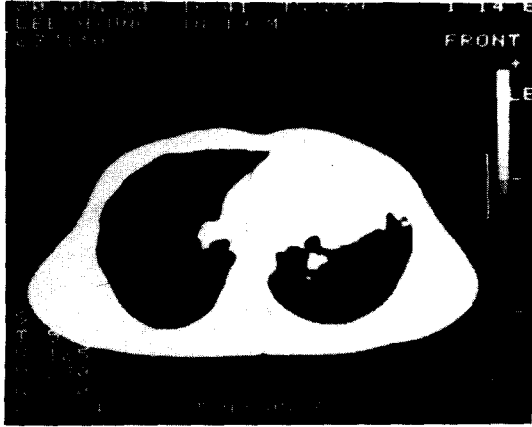


Fig. III. anterior mediastinum에 cystic lesion이 보임

기관지 낭종이나 폐염등을 의심하여 기관지 내시경을 시행하였으나 정상소견이었고 흉부전산화 단층 촬영상에 전방부종격동에 비교적 큰 낭종 모양의 음영이 발견되어서 폐를 압박할 정도로 좌측으로 치우친 전방부 종격동의 Dermoid Cyst 등 전방부 종격동의 종양을 의심할 수 있었다 (Fig. III).

(8) 수술소견 : 수술은 기관삽관을 통한 전신마취하에 좌측 후측방 절개술후 여섯째 늑골을 제거하여 시행하였다.

수술소견상 좌측폐의 중앙부위에 심한 늑막유착이 있어서 늑막박리를 하였고 2개의 낭종이 존재하였는데 그 중에 큰것은 전방부종격동으로 치우쳐 있는 10 cm × 10 cm × 5 cm 정도의 크기로 코카콜라 색깔의 액체가 100 cc 정도 있었고 낭종내부에 1 cm × 1 cm × 2 cm 정도 크기의 조직이 있었다. 나머지 1개의 낭종은 약간 작아서 크기가 2 cm × 3 cm × 3 cm 이었고 4째 좌측 늑골간의 전방에 붙어있었고 내부에는 큰낭종과 마찬가지로 액체가 존재했다. 수술은 큰낭종내부의 괴사된 조직을 동결절편 생검하여 악성종양이 없음을 확인한 후에 종양을 제거하고 흉벽에 붙은 낭종은 주사기로 흡입하고 낭종의 벽을 제거하였다. (Fig. IV, V).

(a) 병리학적소견

육안적소견 : 절제된 조직은 불완전하게 제거된 낭종으로 5 × 4 × 1.5 cm였다. 단면에서 두개의 단단한 조직 덩어리가 있었고 이들은 연황색으로 분열된 양상을 보여 육안적으로 핵장조직임을 알 수 있었다. 종양의 낭벽은 염증으로 유착되었고 모발, 연골, 꿀 또는 치아등



Fig. IV. large cyst 내외 들어있던 mass

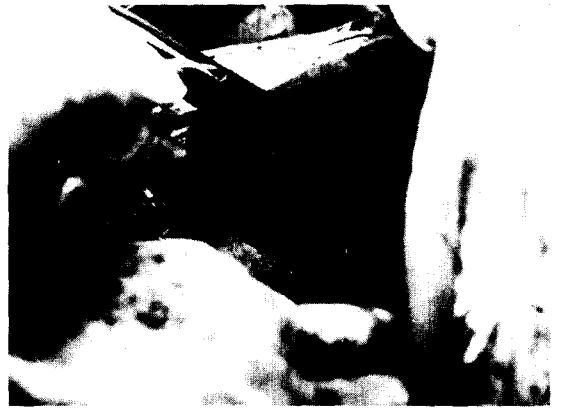


Fig. V. 흉벽에 붙은 cystic lesion에서 coca-cola colored fluid를 Aspiration 하는 사진

은 관찰되지 않았다.

현미경적소견 : 낭종의 대부분은 심한 염증과 섬유화가 있었고 여러곳에서 콜레스테롤결정체를 함유하는 육아종성 반응이 관찰되었다. 몇개의 작은 낭구조들은 위중층으로 되어있는 기관지상피 세포로 피복되거나 위장관의 점액분비상피세포로 피복되어있었다 (그림 11). 대부분의 종양은 핵장조직으로 구성되었고 이들은 핵상섬, Islet 및 도관들이 불규칙하거나 또는 잘 조직화 되어있었다. 특히 Islet 세포들은 선구조에 비해 월등히 증가되어 핵장에서 nesidioblastosis 라고 불리우는 정도였다 (그림 VIII 참조). 또한 한병소에서 몇개의 간세포들이 집단을 이루고 있음이 관찰되었다. 이외에 황문근조직들이 불규칙하게 도관구조와 섞여져있었으나 연골, 치아등 비롯한 외배엽조직은 관찰되지 않았다.



Fig. VI. Low power view of the cystic structure lined partly by pseudostratified ciliated columnar epithelium representing respiratory epithelium (left lower) and partly by tall columnar mucin-secreting epithelium representing intestinal mucosa (right lower). (H & E stain, x60).

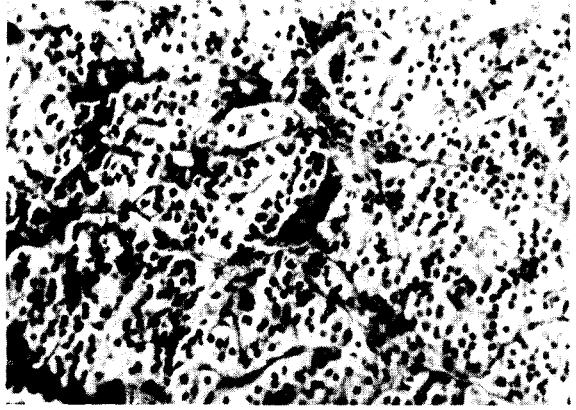


Fig. VIII. Higher power view of Fig. 2. Pale area is composed of closely packed small cells of islet. (H & E stain, x250).



Fig. VII. Low power view of the solid portion which is composed of lobules of pancreatic tissue. Dark area (short arrow) discloses the acinar structures and pale area (long arrow) indicates hyperplastic islet cells. (H & E stain, x60).

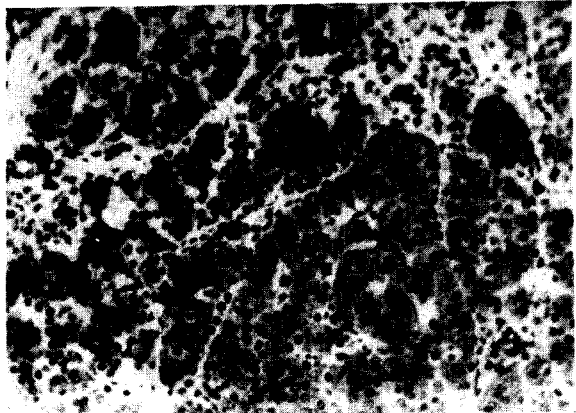


Fig. IX. Immunoperoxidase stain for insulin is positive (pale brownish cytoplasmic granules) in the most of the hyperplastic islet cells. (Immunoperoxidase stain, x250).

면역효소학적조건 : Dako Kit<sup>®</sup>를 이용하여 Insulin, glucagon 및 Somatostatin에 대한 면역효소학적 염색을 시행한 결과 대부분의 Islet 세포들은 Insulin에 강한 양성반응을 보인 반면 glucagon 및 somatostatin에는 소수의 세포만이 양성이었다 (그림 K 참조).

(10) 수술후 경과 : 수술후의 환자는 깨달, 개혈, 기침 등의 증상은 없어졌으며 조직의 현미경적 소견상에 채장조직이 많이 나와서 인슐린 등의 내분비작용을 알아보

기 위해서 FBS, 혈중공복시 포도당과 식후 2시간 포도당치를 검사했는데 각각 72mg%, 89mg%로 비교적 낮기는 했지만 임상적으로 큰 의의는 없었다.

수술후 7일째에 좌측 폐중양부에 액체낭이 조금 보였으나 스테로이드와 항생제의 병용으로 수술후 15일에 많이 흡수되어서 별문제없이 퇴원하였고 외래를 통한 경과 관찰중에 이상소견이 없다 (Fig. XII).

## 고 안

종격동은 thoracic inlet, 횡격막, 양측늑막과 척추 등으로 한정되는 흉곽내 공간으로써 심장, 심낭, 내동맥

과 중요까지, 기도, 식도와 지방조직, 신경조직, 임파선 등 흉부외과적으로 중요한 구조들이 들어있고 또한 태생학적으로 3배엽에서 기원한 모든 조직이 속해있는 공간이다.

종격동 종양은 종양자체나 전이등에 의해서 종격동내의 구조물의 압박이나 괴사등을 일으킬 수 있고 기타의 전신증상도 나타내며 시험개흉술에 의해서만 확진이 가능한 경우가 많아서 흉부외과적 중요성이 큰 종양이다.

종격동 기형종은 종격동 종양의 일종으로 주로 전방부 종격동에서 많이 발생하며<sup>4,9)</sup> 그 빈도는 전체 종격동 종양중에 93%<sup>2)</sup> 등으로 보고되며 국내문헌상에는 종격동 종양중 가장 많은 빈도를 보여준다<sup>6,7)</sup>. 이 기형종은 병리조직학적으로 3배엽에서 발생하는 모든 조직이 보이는 것이<sup>3)</sup> 특징인데 단순흉부촬영상에 치아등이 보여서 쉽게 진단이 되는 경우도 있고 드물게 객담에 치아, 모발이 섞여 나와서 진단이 되기도 한다<sup>9)</sup>.

기형종은 기타의 종격동 종양과는 달리 위치, 크기, invasiveness에 의한 증상<sup>1)</sup> 이외에 각 배엽에서 발생한 특이한 조직에 의해서 국소적, 전신적 증상이 발현된다.

예를들면 난소의 갑상선 조직에서 갑상선 호르몬을 분비한다던가 chorionic gonadotropin 호르몬의 분비로 유방비대를 초래하기도 한다. 기형종내에서 췌장조직의 출현은 특히 종격동에 발생한 경우 현저하다는 것은 잘 알려진 사실이다. 따라서 췌장을 이루고 있는 내분비와 외분비기능에 의한 증상이 문제시 되어왔다. 1973년 Honicky와 de Papp는 종격동기형종에서 인슐린의 과다분비된례를 보고한 바 있다. 1916년부터 종격동 기형종환자에서 비감염성 염증이 빈발한다는 사실이 알려졌는데<sup>5)</sup> 1975년 Sommerlad와 yong은 비세균성 염증을 일으킨 기형종의 분비물내에서 다량의 amylase 검출하였다.

또한 종격동 기형종은 기관지, 심막, 대동맥, superior vena cana, 식도, 늑막 심지어는 목부위로 누공을(fistula)형성한다는 것이<sup>5)</sup> 보고되었는데 이는 분화가 잘된 조직을 함유하는 경우, 특히 췌장, 위장관 또는 타액선 조직이 발달된 경우는 amylase를 비롯한 trypsin, chymotrypsin, 및 Pepsin 등의 소화효소의 분비에 의해 주위조직을 괴사시키기 때문으로 설명이 가능하다. 앞에서 언급한바와 같이 종격동기형종은 내배엽에서 유래된 조직 특히 췌장조직을 함유하며 거의 항상 장 또는 위장관조직과 함께 출현하므로 이들 소화효소에 의한 합병증을 염두에 두어야 할것이다. 국내에서도 기

관지와 fistula를 형성한 경우가 보고되기는 하였지만 소화효소에 대한 언급은 없었다<sup>8)</sup>.

본례에서는 수술시 주위 늑막과 유착이 있어 완전한 제거가 곤란하였으며 종양과 별개의 액체를 함유한 낭 구조가 있었음은 종양내 위장관조직의 출현하였다는 사실과 함께 소화효소분비의 가능성을 암시할 수 있겠다. 특히 본례에서는 췌장조직중 islet 세포들의 종식은 현저하였고 면역효소법으로 대부분의 세포가 인슐린분비 세포라는 점은 혈당치가 정상범위였고 혈청 및 기형종내 인슐린의 측정이 이루어지지 않았기 때문에 확인하기는 어렵다하더라도 인슐린의 분비가 있었으리라 사려된다.

조직학적으로 내배엽이 현저하게 분화된 기형종은 bronchial cyst나 gastroenteric cyst와 감별을 요한다. 전자는 흔히 carina 뒤쪽으로 기도와 기관지분지를 따라 발생하고 조직학적으로는 주로 섬모가 있는 원주상피나 화생된 편평상피로 내피되고 낭벽은 초자양연골, 횡문근, 기관지선 등 정상기관지를 구성하는 구조들을 함유하게 된다.

후자는 후종격동에서 척추주위에 위치하며 많은 경우에 척추의 이상을 동반한다. 낭은 정상위나 장관과 같은 조직구조를 하고 있어 기형종에서 볼 수 있는 다양한 조직들을 관찰할 수 있다.

기형종중에 악성종양은 13%정도가 보고 되고 있으며 이때는 A.F.P이나 C.E.A등이 증가되기도 한다.

대개의 기형종은 3배엽중 외배엽을 기원으로 하는 조직이 많다고 하는데 본 증례에서는 췌장조직을 중심으로 내배엽 조직이 많았고 횡문근 조직이 중배엽성 조직으로 존재하였다. 또한 이러한 조직학적 특성에도 불구하고 저혈당증의 발현이 없었고 주위 조직으로 누공(fistula)형성이나 수술후 체외로 유출로 형성이 없이 순조롭게 치유되었다.

## 결 론

본 고려대학교 흉부외과 교실에서는 췌장조직이 잘 발달되어 있는 종격동 기형종을 1례 수술 치험하였기에 보고하는 바이다.

## REFERENCE

1. J.L. Rubush, I.R. Gardner, W.C. Boyd, & J.L. Ehrenhaft, : *Mediastinal Tumor; The Journal*

- Thoracic and cardiovascular surgery, Vol. 65 No. 2 1973.*
2. Adam R. Wychudis, W. Spencer Payne, O. Theron Clagett, Lewis B. Woolner : *Surgical treatment of mediastinal tumor : The Journal of thoracic and cardiovascular surgery, Vol. 62, No. 3 September 1971.*
  3. Rollin A. Daniel, Jr., Walter L. Divalley, William H, Edwards, Neil Chamberlain, : *Mediastinal tumor: Annal of surg y May 1960*
  4. David C. Sabiston, Jr., H. William Scott, Jr. : *Primary neoplasms and cysts of the mediastina : Annal of Surg y Nov. 1952.*
  5. Hertzler etc. : *Dermoids of Mediastinum : American journal of medical science 152:85, 1916.*
  6. 이정호, 유영선, 유회성 : 종격동 종양의 임상적 고찰, 대한흉부외과학회지, Vol 9, No. 2, Dec 1976.
  7. 조성태 : 종격동 양성종양 21 예에 대한 임상적고찰 대한흉부외과학회지, Vol 9, No. 2, Dec 1977.
  8. 구자홍, 김공수 : 합병증을 동반한 종격동 기형종 대한흉부외과학회지, Vol 15, No. 2, Jun 1982.
  9. David C. Sabiston, Jr. : *H. Newland Oldham, Jr.; The Mediastinum. Gibbon's Surgery of the Chest. 4th Ed. 413-433.*
-