

파열된 종격동 기형종과 단순 기형종과의 차이

조 석 기* · 이 응 배*

The Differences between Ruptured and Unruptured Mediastinal Teratoma

Sukki Cho, M.D.*, Eung-Bae Lee, M.D.*

Background: Benign teratoma is mostly asymptomatic, but this tumor rarely ruptures into the adjacent structure such as the pleural space, pericardium, lung parenchyma or tracheobronchial tree. Thus, it is important to differentiate ruptured teratoma from unruptured teratoma. This study evaluated the difference between ruptured and unruptured benign teratoma. **Material and Method:** Twenty-four cases of surgically resected benign teratomas were reviewed retrospectively. The clinical symptoms, chest CT findings and operative findings of the ruptured teratoma were compared with those of the unruptured teratoma. Especially, the tumor size, wall thickness, location of the mass, internal septation, homogeneity, calcification and ancillary findings were evaluated on CT. **Result:** Of the 24 patients, 7 patients were diagnosed with ruptured teratoma. Severe symptoms were more commonly found for ruptured teratoma than for unruptured teratoma. The ruptured teratoma had a tendency to display calcification and such ancillary findings as collapse or consolidation of the lung parenchyma. For the ruptured teratoma, the resection was performed by sternotomy or thoracotomy, and more lung resection was included. **Conclusion:** Calcification within the mass and changes in the lung parenchyma on the preoperative CT findings can be diagnostic signs of a ruptured teratoma. The demonstration of ruptured teratoma is important not only for making the early diagnosis, but also for the surgical planning.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2009;42:355-360)

Key words: 1. Mediastinal neoplasms
2. Teratoma
3. Rupture

서 론

양성 기형종은 종격동에서 발생하는 원발성 생식세포 종 중에서 가장 흔한 질환이다[1]. 양성 기형종의 특징은 서서히 성장하며 대부분 진단될 때까지 특별한 증상이 없다. 일단 진단이 되면 증상이 없다 하더라도 수술적 완전 절제가 가장 좋은 치료로 알려져 있다. 하지만, 종종 늦게 진단되거나 진단 되었더라도 수술적 절제를 거부한 일부 환자 중에서 종양이 흉막, 심외막, 폐, 기관지 등으로 파열이 되어서 심한 흉통, 객혈, 폐렴 등의 염증 소견 등을 보

일 수 있다. 파열된 기형종의 증상은 파열된 장기와 관련이 있어 농흉, 심장 압진 등으로 간혹 오인되기도 하고[2], 오랜기간 동안 폐의 염증으로 결핵, 마이코플라즈마 등이 혼합 감염을 일으키기도 한다[3]. 치료는 다른 양성 기형종과 같이 수술적 치료를 원칙으로 하지만 주위 장기와의 심한 유착으로 수술적 제거가 쉽지 않고, 양성 기형종과의 감별도 쉽지 않아 주위 장기를 같이 절제하는 경우가 많다. 최근에는 흉강경을 이용한 흉부 영역의 수술이 발달하면서 양성 기형종을 포함한 종격동 종양에서 좋은 성적을 보이고 있다. 하지만 파열된 기형종의 경우는 흉강

*경북대학교 의과대학 경북대학교병원 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Kyungpook National University Hospital, Kyungpook National University College of Medicine

논문접수일 : 2008년 11월 17일, 심사통과일 : 2008년 12월 25일

책임저자 : 이응배 (700-721) 대구시 중구 삼덕2가 50번지, 경북대학교병원 흉부외과

(Tel) 053-420-5665, (Fax) 053-426-4765, E-mail: bay@knu.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

Table 1. Clinical characteristics of the ruptured teratoma

Patient No	Sex	Age	Symptoms	CT findings	Surgical approach	Ancillary findings	Lung resection
1	M	43	Cough, sputum	Rupture	Sternotomy	None	None
2	F	25	Chest pain	Rupture	Sternotomy	Effusion collapse	Wedge
3	M	20	Cough	Rupture	Sternotomy	Collapse	Segment
4	F	13	Cough	Rupture	Sternotomy	Collapse	Wedge
5	M	47	Chest pain	Rupture	Sternotomy	Collapse	Wedge
6	F	17	Chest pain	Rupture	Thoracotomy	None	None
7	M	52	Hemoptysis	Rupture	Thoracotomy	Consolidation	Lobectomy

Patient No	Pericardium resection	Tumor size (cm)	Pancreatic tissue	Chest tube (d)	Hospital days	Complications
1	Yes	8×6	Present	4	10	None
2	No	16×10	Present	3	4	None
3	No	16×10	Present	4	5	Pneumonia
4	Yes	12×9	None	4	6	None
5	Yes	12×9	None	23	23	Hospital death
6	No	4.5×4	Present	4	5	None
7	Yes	19×16	Present	21	21	Lung collapse

Segment=Segmentectomy; Wedge=Wedge resection.

경을 이용한 절제가 용이하지 않아 술 전 확인이 수술 접근 및 수술시간을 단축시킬 수 있다. 지금까지 파열된 양성 기형종에 대한 임상 연구는 드물며, 대부분 증례 보고 형식으로 발표 되고 있다. 따라서 이 연구에서는 10년 동안의 수술한 양성 기형종 중에서 파열된 기형종으로 진단된 환자들의 임상적 특징, 방사선학적 특징과 수술적 치료 및 수술 후 합병증 등에 대해서 알아 보고자 하였다.

대상 및 방법

1998년 1월부터 2007년 12월까지 양성 기형종으로 확진된 24명 환자의 자료를 후향적인 방법으로 분석하였다. 양성 기형종의 확진은 수술 후 병리 결과를 바탕으로 하였다. 병리 결과에서 세분엽이 존재하며 세포형태에서 악성 소견을 보이지 않으면 양성 기형종으로 진단하였고 악성 생식세포종의 치료 후 남은 잔존 양성 기형종은 제외하였다. 양성 기형종 중에서 파열된 기형종의 진단은 수술 소견 결과 종양을 둘러싸고 있는 피막의 파열과 내부 성분의 누출 등을 기준으로 하였다. 술 전 증상, 단순 흉부 사진, 흉부 컴퓨터 단층 촬영, 알파 태아 단백질(AFP)과 인간 융모성 생식선 자극 호르몬(β HCG) 수치를 분석하였다. 특히, 술 전 파열된 양성 기형종을 가장 정확히 진단할 수 있는 검사인 흉부 컴퓨터 단층 촬영 소견에서

종괴의 크기, 종괴벽의 두께, 위치, 내부 사이막 형성(septation) 유무, 내용물의 성상, 석회화 여부 등을 확인하였고, 주위 폐실질, 흉막, 심외막 등과의 관계 등도 분석하였다. 병리학적인 결과에서는 양성 기형종의 파열의 원인이 될 수 있는 장내 점막 조직, 횡장 조직 등의 유무를 확인하였다.

수술 방법은 술 전 종괴의 위치 및 양상에 따라서 정중 흉골 절개, 개흉술 또는 흉강경을 이용하여 시행하였다. 완전 절제는 종괴를 둘러 싸고 있는 피막을 파괴하지 않은 채로 절제하였고 파열된 기형종의 경우 주위 장기와 유착이 심해서 폐, 심외막 등과 분리가 힘들 경우 주위 장기의 일부를 포함해서 절제하였다. 통계적인 분석은 SPSS version 14.0 (SPSS Inc, Chicago, IL, USA) 프로그램을 이용하였다. 파열된 기형종과 파열되지 않은 기형종 간의 임상적, 방사선학적, 병리학적인 인자들의 차이를 교차 분석을 통해서 분석하였다. 모든 통계학적 분석은 유의 수준 0.05 이하인 경우를 통계적으로 유의한 것을 평가하였다.

결 과

수술을 시행받은 24명의 환자들의 평균 연령은 28±14 (12~57)세였고 남자는 13명, 여자는 14명이었다. 24명의 양성 기형종 중에서 7명은 파열된 양성 기형종, 17명은 단

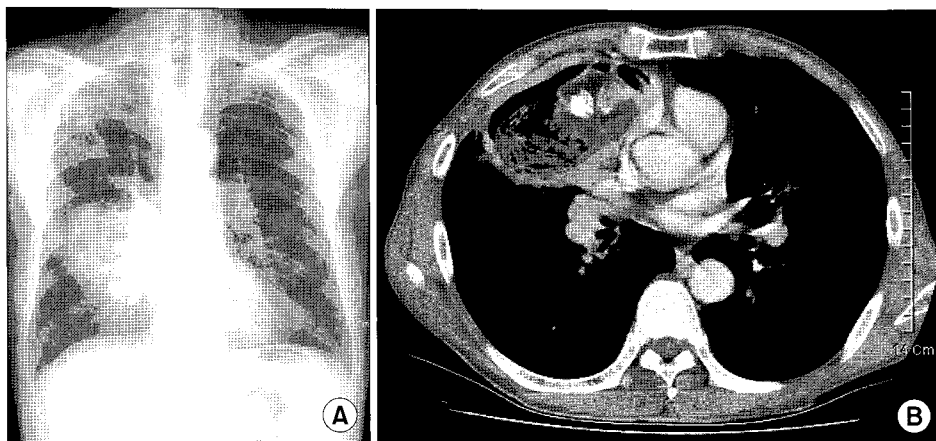


Fig. 1. Preoperative CPA (A) and Chest CT (B). Preoperative findings showed heterogenous, cystic mass in the right anterior mediastinum with a calcification perforating into the lung.

Table 2. Difference of CT findings between unruptured teratoma and ruptured teratoma

	Ruptured (n=7)	Unruptured (n=17)	p-value
Location, right (%)	5 (71.4)	10 (58.8)	0.67
Wall thickness, >6 mm (%)	5 (71.4)	6 (35.3)	0.18
Loculation			0.19
Uniloculation (%)	1 (14.3)	8 (47.1)	
Multiloculation (%)	6 (85.7)	9 (52.9)	
Homogeneity			0.17
Homogenous (%)	1 (14.3)	9 (52.9)	
Inhomogenous (%)	6 (85.7)	8 (47.1)	
Calcification (%)	6 (85.7)	7 (41.2)	0.04
Fat (%)	6 (85.7)	12 (70.6)	0.63
Ancillary findings			
Lung collapse (%)	5 (83.3)	1 (6.3)	0.03
Pleural effusion (%)	1 (14.3)	2 (11.8)	1.000

순 양성 기형종이었다. 임상 증상은 9명의 환자에서는 전혀 없이 건강 검진 또는 학교 신체 검사에서 발견되었으며, 15명의 환자에서는 흉통, 호흡곤란, 피로감, 기침 등의 증상이 있었다. 파열된 7명의 환자들은 모두 증상이 있었으며, 파열되지 않은 환자와 같이 비특이적인 증상도 있었지만 심한 흉통, 폐렴, 객혈 등의 심한 증상도 동반되었다(Table 1). 술 전 시행한 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 평균 종괴의 크기는 10.4±5.0 (4~26) cm였고, 단순 기형종과 파열된 기형종의 크기는 각각 9.5±4.9 cm, 12.5±5.0 cm로 통계적 차이는 없었다. 종괴 벽의 두께는 6 mm를 기준으로 평가해 보았을 때, 파열된 기형종에서 약간 두꺼운 경향을 보였지만 통계적 차이는 없었다. 파열된 기형종은 단순 기형종에 비해서 다방성(multiloculation)을 보

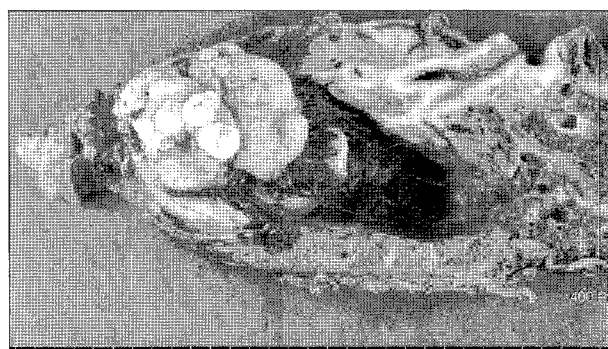


Fig. 2. Gross specimen. Resected specimen showed hair and teeth in the mass and this mass invaded adjacent lung parenchyma.

이는 경우는 85.7%로 많았고 내용물도 더 불균일(inhomogeneity) 하였다. 종괴 내의 석회화와 종괴로 인한 주위의 병변은 파열된 기형종에서 통계적으로 많았다(Table 2). 결론적으로 술 전 CT에서는 8명에서 파열된 기형종으로 진단하였고, 이중 7명에서 수술 소견으로 확진되었으며, CT에서 파열된 기형종으로 의심되었던 환자는 수술소견에서 피막의 두께는 염증에 의해서 두꺼워져 있었으나 주위 장기와의 유착은 거의 없어서 제외되었다. 수술은 9명에서 흉강경을 이용해서 15명에서는 흉골 절개 또는 개흉술을 통해서 시행하였다. 파열된 기형종의 모든 환자에서 절개를 통한 절제술을 시행하였고, 이중에서 1명은 흉강경으로 시도하였으나 유착이 심하고 출혈이 심해서 개흉술로 전환하였다. 완전 절제를 위해서 종괴 절제 외에 심막 절제가 7예, 폐 절제가 5예 있었으며, 심외막 절제는 단순 기형종에서도 3예가 있었다. 폐절제를 같이 시행 받은 5명의 환자들은 모두 수술 전 객혈, 폐렴 등의 호흡기

증상이 심했고 1명에서는 결핵이 동반되어 있었다. 폐절제 범위는 3명에서는 썬기절제, 1명에서는 분엽절제술을 받았고, 결핵까지 동반되었던 환자에서는 우중엽, 하엽 절제술을 받았다(Fig. 1). 파열된 기형종의 5예에서 수술 시 종괴와 횡격막 신경에 유착이 있었으나 전례에서 횡격막 신경을 보존하였고 술 후 횡격막 마비 환자는 없었다. 병리 결과에서 횡격막 조직은 9명에서 발견되었으며 이중에서 파열된 기형종에서는 71.4%에서 발견되었다(단순 기형종 23.5%, $p=0.06$). 수술 후 사망은 파열된 기형종 환자에서 발생하였고 수술 직후 출혈이 심했고 술 후 폐렴으로 중환자실에서 인공 호흡기 치료를 지속하였으며 술 후 23일째 성인성 호흡 곤란 증후군 및 폐혈증으로 사망하였다. 수술 후 사망환자를 제외한 23명의 환자의 평균 재원기간은 8.3 ± 6.6 일이었으며, 평균 흉관 거치 기간은 5.1 ± 5.4 일이었다. 수술 후 합병증은 4명의 환자에서 발생하였으며, 이중에서 3명은 파열된 기형종이었다. 술 후 발열, 폐허탈, 폐렴 등이 발생하였으나 횡격막 마비는 없었고 항생제 치료 후 모두 호전되었다. 수술 후 사망 환자를 제외한 환자들의 평균 관찰 기간은 65.3 (14.6~120.7)개월이며, 이 기간 동안 재발한 환자는 없었다.

고 찰

종격동의 양성 기형종은 종격동에서는 해부학적으로 있어서는 안 될 조직들로 이루어진 양성 종양으로 1952년에 Willis에 의해서 처음 정의 되었다[4]. 종격동에 발생하는 원발성 양성 기형종은 흔하지 않으며 모든 종격동 종양의 5~10% 정도를 차지한다[5]. 양성 기형종은 종종 종격동, 흉막, 심외막 또는 폐로 파열될 수 있으나 아직까지 정확한 기전은 밝혀져 있지 않고 몇가지 가설이 제시되고 있다[3,6]. 첫째, 종괴가 커지면서 혈액의 공급이 부족하여 종괴에 허혈 상태가 유발되고 조직이 괴사되어 파열된다는 이론이 있다. 대부분의 파열된 기형종의 크기가 크다는 점에서 가능성이 있으며, 본 연구에서도 통계적인 차이는 없었으나 파열된 기형종의 크기가 6 cm 정도 더 컸다. 둘째, 종괴 내에 존재하는 횡격막 조직 등에서 소화효소가 분비되어 종괴에 염증을 일으키고 파열을 시킨다는 이론이다[7]. 이러한 이론을 뒷받침하기 위해 Ashour 등은 흉관 내로 파열이 의심되는 환자의 흉수에서 소화효소의 하나인 아밀라제의 농도가 높은 것을 확인하였다[8]. 이 연구에서는 아밀라제 수치를 측정하지는 않았지만, 병리 조직 검사에서 9예에서 횡격막 조직을 확인할 수 있었고 파

열된 기형종이 5예 포함되어 있었다. 또한 파열된 기형종에서 발생하는 심한 흉통도 파열된 종괴에서 유출된 소화효소가 흉막을 자극하여 생긴 증상으로 설명할 수 있다. 이에 대해 Yu 등은 실제 파열된 기형종의 종괴 내에서 측정된 아밀라제, 리파아제 수치가 높지 않았기 때문에 이것만으로 파열의 원인이라고 하기에는 부족하다는 주장하기도 하였다[3]. 양성 기형종은 대부분은 증상이 없기 때문에, 지속적이면서 심한 증상은 파열된 기형종을 진단하는데 많은 도움을 주며 또한 침범된 장기를 예측할 수 있다. 예를 들면, 기침시에 가래에 머리카락 또는 피지 덩어리(sebum) 등이 섞여 나오는 것은 파열된 기형종의 특징적인 소견이며 폐 또는 기관지 내로 파열되었음을 암시한다. 이 연구에서도 단순 기형종에서는 47.1%의 환자에서 증상이 있었으나 대부분 비특이적 소견이었고, 파열된 기형종에서는 100%에서 증상이 있었고 폐렴, 객혈 등의 심한 증상이 동반되었다. 술 전 양성 기형종에서 파열된 기형종을 감별할 수 있는 가장 정확한 방법은 흉부 CT이며 파열된 기형종은 특징적인 소견을 보이는 경우가 많다. 최수정 등은 파열된 기형종의 소견으로 내부 내용물의 불균일성과 종괴 주위의 폐실질, 흉막, 심외막 등의 변화 등을 단순 기형종과의 가장 큰 차이로 보고하였다[9]. 특히 저자들은 종괴 주변 변화를 지적하면서 폐허탈, 폐경화, 흉수, 심낭 삼출 등이 있을 경우 대부분이 파열된 기형종으로 진단되는 경우가 많다고 하였다. Cheung 등은 파열된 기형종의 파열 전과 후를 비교한 논문에서 내부 내용물의 불균일성 변화, 종괴 경계면의 거친 변화, 지방조직의 변화 등을 파열된 기형종의 영상 소견으로 제시하였다[6]. 따라서 술 전 흉부 CT 소견은 파열된 기형종을 정확히 판단할 수 있다고 결론지었다.

파열된 기형종의 치료는 수술적 치료를 원칙으로 하며, 수술 범위는 완전 절제를 위해서 종괴를 완전히 제거하고 침범된 부분들을 확인 후 같이 절제하게 된다. 단순 기형종과 달리 파열된 기형종은 빠른 수술적 절제가 필요하며, 지연될 경우 누출된 소화효소액으로 인한 심한 반응으로 인하여 절제가 더욱 어려울 수 있다. 이 연구에서도 기형종으로 진단 받고 수술을 기다리던 중에 가래에서 피가 섞여 나와 지역 병원에서 결핵으로 진단 받고 결핵을 치료하던 중에서 객혈이 심해져서 결국 종괴 절제와 함께 우중엽, 하엽을 동시에 절제받은 예가 포함되어 있었다. 또한 파열된 기형종은 주위 구조물과 유착이 심하기 때문에 간혹 악성 기형종으로 오인되는 경우가 많아 주위 장기를 같이 절제하는 빈도가 높아 이 연구에서도 3명의 단

순 기형종 환자에서 심외막 절제를 같이 시행하였다. 술 전 파열된 기형종의 감별은 최근에는 흉강경을 이용한 종양 절제술을 많이 시행하기 때문에 더 중요하다고 할 수 있다. 수술 소견에서 유착이 심하거나 주위 구조에 침범이 있으면 개흉술 또는 흉골 절개술로 전환하면 되지만, 상황에 따라서는 환자의 체위를 바꾸거나 새로이 수술 도구를 준비 해야 하는 경우도 발생한다. 그러므로, 술 전 파열된 기형종의 진단은 수술 시기를 결정하거나 수술 방법을 계획하는데 중요한 역할을 한다고 할 수 있다.

결론

양성 종격동 기형종은 양성 질환으로 수술적으로 완전 절제되면 재발을 하지 않는 예후가 좋은 질환이다 하지만, 간혹 파열이 되는 경우가 있어 환자가 나쁜 상태에서 응급으로 수술이 시행되거나 수술 시 심한 유착으로 주위 장기까지 제거해야 하는 경우가 발생한다. 이 연구를 통해서 술 전 흉부 CT는 파열된 종격동 기형종의 정확한 진단을 할 수 있었고 수술 방법을 결정하는데도 도움을 주었다.

참고 문헌

1. Fulcher AS, Proto AV, Jolles H. Cystic teratoma of the mediastinum: demonstration of fat/fluid level. *AJR Am J Roentgenol* 1990;154:259-60.
2. Oomman A, Santhosham R, Vijayakumar C, et al. Anterior mediastinal teratoma presenting as cardiac tamponade. *Indian Heart J* 2004;56:64-6.
3. Yu CW, Hsieh MJ, Hwang KP, Huang CC, Ng SH, Ko SF. Mediastinal mature teratoma with complex rupture into the pleura, lung, and bronchus complicated with mycoplasma pneumonia. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2007;133:1114-5.
4. Allen MS, Trastek VF, Pairolero PC. Benign germ cell tumors of the mediastinum. In: Shields TW, LoCicero J, Ponn RB. *General thoracic surgery*. 5th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins. 2000;2275-82.
5. Allen MS. Presentation and management of benign mediastinal teratomas. *Chest Surg Clin N Am* 2002;12:659-64.
6. Cheung YC, Ng SH, Wan YL, Pan KT. Ruptured mediastinal cystic teratoma with intrapulmonary bronchial invasion: CT demonstration. *Br J Radiol* 2001;74:1148-9.
7. Southgate J, Slade PR. Teratodermoid cyst of the mediastinum with pancreatic enzyme secretion. *Thorax* 1982;37:476-7.
8. Ashour M, Hawass NED, Adam KA, et al. Spontaneous intrapleural rupture of mediastinal teratoma. *Respir Med* 1993;87:69-72.
9. Choi SJ, Lee JS, Song KS, Lim TH. Mediastinal teratoma: CT differentiation of ruptured and unruptured tumors. *AJR Am J Roentgenol* 1998;171:591-4.

=국문 초록=

배경: 양성 기형종은 대부분은 무증상이지만 적은 빈도에서 늑막, 심외막, 폐실질, 기관지 내로 파열되어 심한 증상 유발과 함께 치료가 어려워 술 전 파열여부에 대한 정확한 진단이 수술적 치료에 있어서 중요하다. 따라서, 이 연구에서는 파열된 양성 기형종의 임상적 증상, 영상학적 소견과 수술적 소견에 대해서 알아 보고 파열되지 않은 기형종과의 차이를 알아 보고자 하였다. **대상 및 방법:** 24명의 완전 절제된 양성 기형종의 환자를 후향적으로 조사하였다. 수술 전 임상 증상, 흉부 CT 소견, 수술 소견과 수술 성적의 차이를 파열된 군과 파열되지 않은 두 군에서 비교하였다. 특히 흉부 CT 소견에서는 종괴 크기, 피막 두께, 종괴의 위치, 분엽 정도, 균일성, 종괴 내용물, 주위 장기와의 관계 등을 조사하였다. **결과:** 총 24명의 환자에서 수술 소견 결과, 7명의 환자(29.2%)가 파열된 양성 기형종으로 진단되었다. 15명(62.5%)의 환자에서 술 전 흉통, 기침 등의 증상이 있었으며 파열된 양성 기형종에서 증상이 심하고 빈도가 높았으나 통계적으로 차이는 없었다($p=0.37$). 흉부 CT 소견에서는 두 군간에 종괴의 크기, 피막 두께, 종괴의 위치, 분엽정도, 균일성에는 차이가 없었다. 하지만 석회화 정도와($p=0.04$), 종괴 주변 소견으로 폐경화, 폐허탈의 빈도가 파열 양성 기형종에서 통계적으로 유의하게 높았다($p=0.03$). 파열된 양성 기형종에서 수술적 접근은 모두 흉골 절개 또는 개흉술을 통해서 이루어 졌으며 동반된 폐절제 건수도 많았다. **결론:** 술 전 흉부 CT는 파열된 기형종을 정확하게 진단할 수 있었고, 종괴 내에 석회화가 존재하거나 폐병변이 동반된 경우 파열된 기형종의 확률이 높았다. 따라서, 술 전 임상 소견 및 흉부 CT 소견에 의한 정확한 진단은 적절한 수술적 시기를 정하거나 접근 방법을 정하는 데에도 중요한 역할을 할 것으로 생각된다.

중심 단어 : 1. 종격동 종양
2. 기형종
3. 파열