

폐장 내 기형종에서 속발한 선 암종

경희대학교 의과대학 병리과*, 흉부외과** 및 방사선과***

홍은경* · 이종달* · 유세영** · 진재권** · 윤 업***

= Abstract =

Adenocarcinoma arising in Intrapulmonary Teratoma

Eun Kyung Hong, M.D.*, Jung Dal Lee, M.D.*, Seh Young Yuh, M.D.**

Jae Kwon Chin, M.D.** and Yup Yoon, M.D.***

Departments of Pathology*, Chest Surgery** and Radiology***,
College of Medicine, Kyung Hee University

A rare case of malignant intrapulmonary teratoma is reported. The patient, 50 year old female, had suffered from symptoms characteristic of a benign intrapulmonary teratoma more than twenty years. After the confirmation on a bronchoscopic biopsy of adenocarcinoma arising in the pre-existing benign teratoma, left pneumonectomy was performed. The adenocarcinomatous component metastasized to the contralateral lung one year after the pneumonectomy, and the patient died in 3 months after the metastasis.

The histogenesis, clinical behavior and pathologic features of intrapulmonary malignant teratoma are discussed, and the rarity of the pulmonary location of this lesion is emphasized.

서 론

흉곽 내에 발생하는 기형종은 대개 종격동에 위치하며 흉선에서 기원한 것으로 생각한다. 그러나 폐장 내 기형종의 보고는 매우 드문 것으로 1975년까지 세계 문헌 상 대략 20례가 기술되고 있으며, 우리나라에서는 1972년 **李 등²⁾**이 보고한 2예와 1974년 **張 등³⁾**이 보고한 1례가 있을 뿐이다. 이런 드문 폐 실질 내 기형종은 대부분이 양성이었고 악성 변화의 빈도는 희귀한 것으로서, 보고된 23례 중 9례에서 악성변화를 인정할 수가 있다¹⁾. 악성 기형종의 조직은 기형종을 이루는 여러 조직 중 한 조직이 악성 변화를 하여, 양성 조직이 종양의 일부분에 국한되어 존재하기 때문에 수술전 진단은 거의 불가능한 것으로 되어있다. 이런 폐장내 악성기형종들은 대개 절제한 종양 조직의 현미경적 검사에서 조직학적 악성 변화를 인정하고 악성 기형종으로 '보고된 경우들이다'⁴⁾.

접 수 : 1982년 9월 10일

저자들은 모발의 각출을 과거 오랫동안 반복적으로 보였던 한 환자에서 폐 실질 내에 큰 종양을 발견하고 임상적으로 폐 기형종으로 생각하였고, 최근 반복된 객담의 세포학적 검사 및 가요성 기관지경으로 얻은 조직의 현미경적 검사에서 선 암종으로 진단되어 수술 전에 폐 실질내에 발생한 악성 기형종의 확진이 가능하였던 한 예를 최근 경험하게 되었다. 이 증례에서 폐 절제술을 실시한지 1년 후에 반대편 폐장으로 선암종이 전이한 조직학적 확진을 얻게 되어, 이 지극히 희귀한 폐장 내 악성 기형종의 임상적 경과와 예후를 판단하는데 훌륭한 증례라고 생각하여 보고하는 바이다.

증 례

환자 : 50세 여자(병원번호 17506137) 첫 입원(81년 2월)

주소 : 호흡 곤란과 객혈

현병력 : 환자는 약 27년 전부터 호흡 곤란과 객담에 모발 및 황색 분비물이 섞여 나오는 증상 때문에 흉부

X선 촬영을 받았고 폐장 내 기형종이라는 진단으로 수술을 권유받았으나 별 다른 치료없이 지내왔다.

첫 입원 2년 전부터 상기 증상과 함께 작혈, 기침등이 나타났으며, 3개월 전에는 그 증상이 악화되면서 좌측 흉부에 동통을 동반하여 내원하였다.

이학적 소견 : 환자는 중등도의 체격으로 영양상태는 약간 불량하였으며 전신 상태는 허약하였다. 좌측 폐상부에 호흡음이 감소되어 있는 것 외에는 별 특이한 소견이 없었다.

흉부 X선 소견 : 흉부 단순 X선 촬영상 좌폐의 폐문부 상부에 직경 6 cm 크기의 원형의 증가된 음영을 나타내는 종괴가 관찰되었고 이 종괴는 주위 폐 실질과 경계가 비교적 뚜렷하였다(사진 1). 종괴 내에 특별히 석회화나 감소된 음영은 발견되지 않았다. 입원 후 반복 실시한 단순 흉부 X선 사진에서 이 종괴는 약간 커져 있었다.

기관지경 검사 소견 : 좌측 폐장의 상엽 기관지가 내강으로 돌출한 둥근 종괴에 의해 일부가 막혀있었으며 불규칙한 접막면을 보이고 있어 암을 의심케 하였다. 기관지경 검사시 시행한 기관지 세척물의 세포학적 검사(P-81-372)와 생검을 실시하여 조직학적 검사를 실시하였다(S-81-597). 이들 양 검사에서 모두 선암종으로 진단되었다. 다른 기관지 접막에는 이상 소견이 없었다.

수술 소견 : 진회색의 유아 대두 크기의 종양이 좌측 폐장의 상엽을 거의 차지하고 있었으며, 주위 폐 실질은 종양에 의하여 무기폐 상을 나타내고 있었다. 이

종양은 주위의 흉벽과 종격동의 늑막 및 심낭막과 심하게 유착되어 있었다. 좌폐 절제술로 종양과 함께 좌폐장을 제거하였다. 환자는 수술 30일 만에 아무런 합병증이 없이 퇴원하였고 외래를 통하여 검진을 권유받았다.

두번째 입원(82년 2월)

환자는 좌폐 절제술을 받은 후 잘 지내오다가 수술 후 9개월 만에 다시 발생한 호흡 곤란과 객담을 동반한 기침이 나타났다. 그 후 좌측 늑골과 우측 장골의 동통을 호소하여 좌폐 절제 후 1년 만에 제 2차로 입원하게 되었다. 골 주사 사진에서 암의 전이를 생각할 만한 병변을 발견하지 못하였다. 단순 흉부 X선 사진상 우측 폐문부에 새로 생긴 종괴 음영이 보였으며 이로 인한 기관지 폐쇄로 우상엽이 무기폐 현상을 보여 기관지성 폐암의 소견을 보이고 있었다(사진 2).

기관지경 검사에서 우측 주 기관지의 후벽이 외부로부터의 압박으로 좁아져 있었으며, 우 폐장의 상엽기관지가 종양의 침범으로 거의 막혀있는 소견을 발견하였다. 이때 시행한 기관지 세척물의 세포학적 검사(P-82-696) 및 생검 조직 검사(S-82-1140)에서 각각 선암종으로 다시 진단되었다. 우 폐장의 이 전이성 선암종 진단 후 환자는 3개월 만에 사망하였고 시체 해부는 실시하지 못하였다.

병리학적 검사 :

기관지 세척물의 세포학적 검사(P-81-372) : 첫 입원 당시 좌측 폐장의 상엽 기관지로 부터 가요성 내시경 검사시 얻은 세척물의 세포학적 검사에서 혈성 도말물



Fig. 1. Chest PA view shows a homogenous, increased density with nodular demarcation in the left upper lobe of the lung. Atelectasis around the nodular density makes the demarcation unclear.

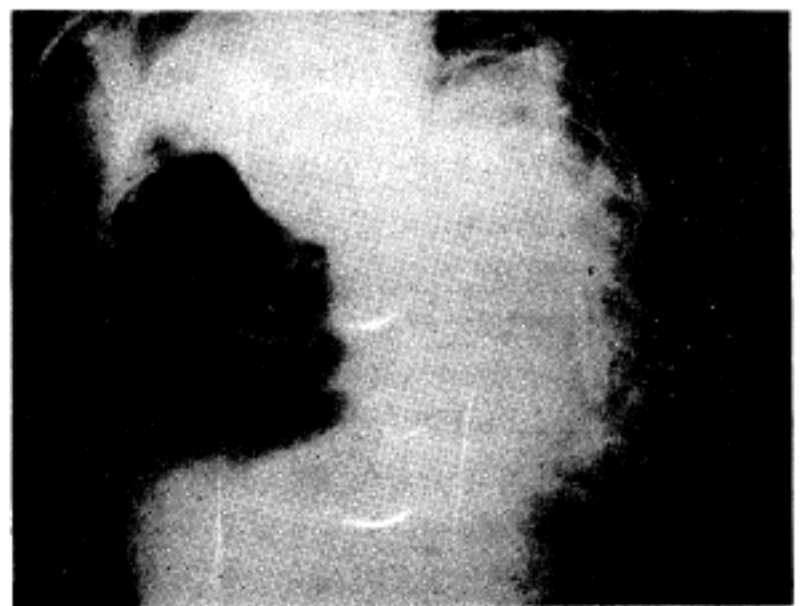


Fig. 2. Chest PA view shows a nodular density on the right upper lobe of the lung with peripheral atelectasis. The radiography was taken one year after the left pneumonectomy.

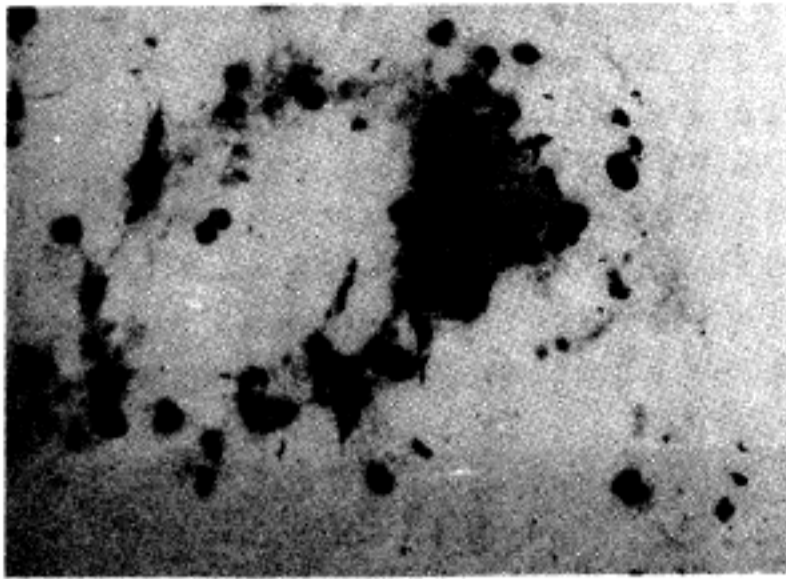


Fig. 3. Bronchial washing cytology at the first admission reveals many necrotic malignant cells with characteristics of adenocarcinoma cells. The washing was obtained from the left upper bronchus of the lung (Papanicolaou stain, x400).

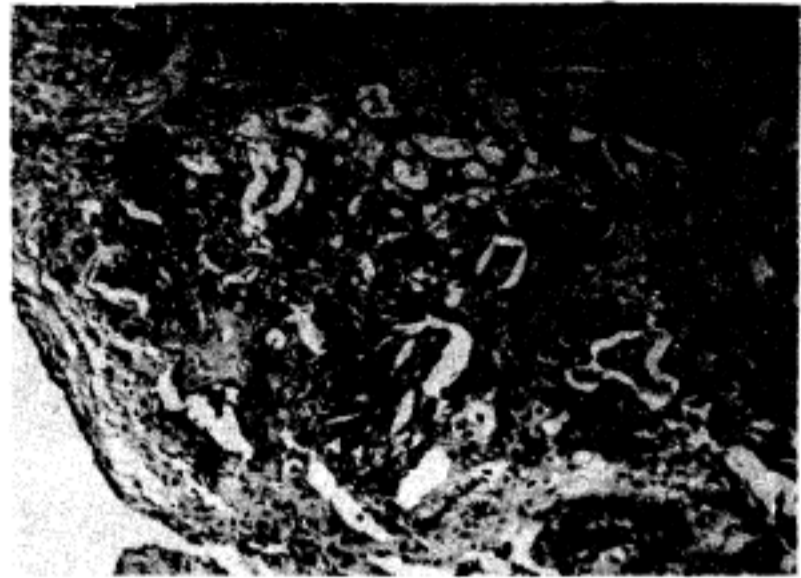


Fig. 4. Bronchoscopic biopsy at the first admission reveals adenocarcinoma of intestinal type with moderate desmoplastic reaction. The biopsy was obtained from the left upper bronchial mucosa (H-E stain, x100).



Fig. 5. Grossa appearance of the tumor on the left pneumonectomy specimen. The tumor has connection with the left upper bronchus. Cut surface reveals solid gray white tumor with hairs and sebaceous material admixed.



Fig. 6. Transition between the proximal bronchial mucosa and the neoplastic coverings. The bronchial epithelium transforms gradually to stratified squamous epithelium of the tumor coverings (H-E stain, x100).

과 세포 군집 절편 (cell block)을 얻을 수 있었다. 도말 표본과 절편에서 이 같이 핵소체가 크고 불규칙하며 핵은 뚜렷한 염색과 비후된 핵막을 가진 선 암종 세포를 다수 관찰할 수 있어 선 암종으로 진단하였다 (사진 3).

기관지경 생검 조직 검사(S-81-597) : 첫 입원 당시 좌측 폐장의 상엽 기관지의 내시경적 생검조직은 수평의 작은 회백색 조직으로 구성되었다. 이들은 전부 종양 조직으로 이루어져 있었고, 정상 피복 기관지 상피는 관찰할 수 없었다. 종양 조직은 분화가 비교적 양

호한 대장 기원의 선 암종에 유사한 조직상을 나타내고 있었다(사진 4). 이 조직 절편에서 다른 기형종성 조직은 관찰할 수 없었다.

폐장 절제 표본의 병리학적 검사(S-81-717) :

① 육안적 소견 : 절제된 좌측 폐장은 22×15×8 cm의 크기였고 무게는 1,000 gm이었다. 내측 피복 늑막의 표면은 매끈하였고, 검은 색소의 점상 침착을 볼 수 있었다. 좌폐 상엽에 12×7 cm 직경의 단단한 종양이 육시되었다. 한편에서 이 종양은 폐 실질의 주변부 늑막 하에 위치하였고, 기관지를 따라 절개를 가하니 근위측 기관지가 매우 확장되어 있으면서 종양조직과 연

결되어 있었다(사진 5). 종양의 절단면은 황백색의 충실한 조직으로 이루어져 있고, 종양 조직 내에 피지양 분비물과 모발이 섞여 있었다. 주위 폐 조직은 단단하였고 갈색을 띄우고 있었다.

② **현미경적 소견**: 종양 조직, 그리고 이와 교통하고 있는 기관지 및 주위 폐 조직으로부터 얻은 풍부한 조직 절편을 검사하였다. 종양 조직과 교통하고 있는 기관지 점막 상피는 서서히 중첩 편평상피로 이행하고, 중첩 편평상피의 표면이 표피양 각화 현상을 일으키면서 종양 조직의 표면을 이루고 있었다(사진 6).

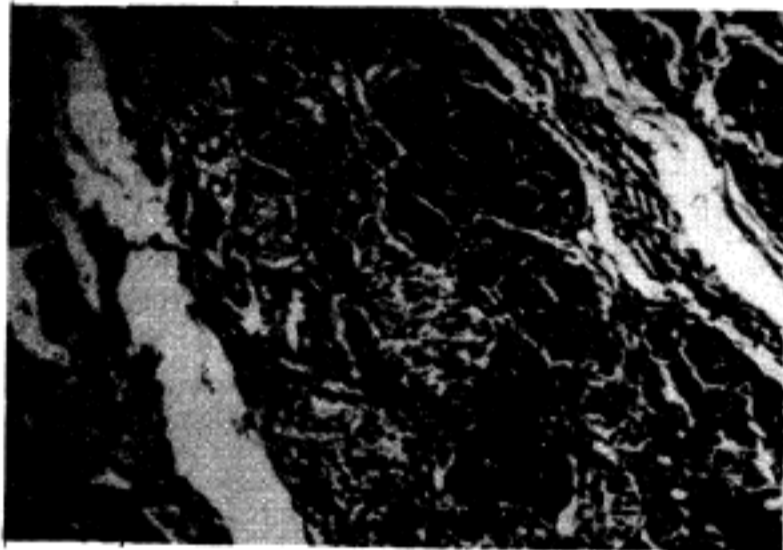


Fig. 7. A large part of the teratoma is made up of both pancreatic exocrine and endocrine glands (H-E stain, x100).

그 하방에 많은 피부 부속물 즉 모발, 피지선, 한선등을 포함하고 이들 사이에 지방조직이 소량 출현하고 있었다. 종양 조직의 균대균대 잘 분화된 점액선의 섬들을 볼 수 있었다. 이 피부양 구조물의 하방에는 다량의 체장 조직이 관찰되었는데 이들은 외분비선의 소엽과 소량의 Langerhans 소도로 구성되어 있었다(사진 7). 종양 조직의 많은 부분에는 비교적 잘 분화된 선 암종이 주위 기형종성 종양 조직내로 침윤성 증식을 하고 있었으며(사진 8), 신경 섬유 주위를 침윤하

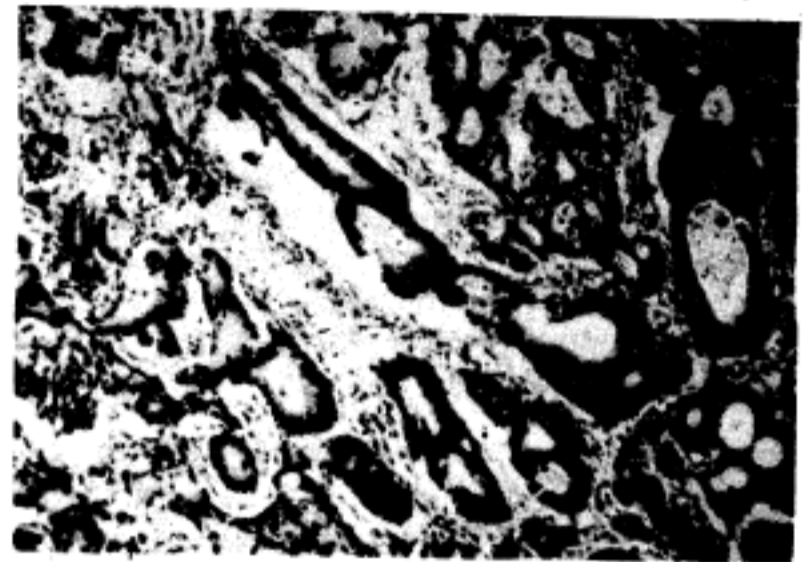


Fig. 8. A component of the teratoma is a moderately differentiated adenocarcinoma of columnar type with varying size of lumens(H-E stain, x100).

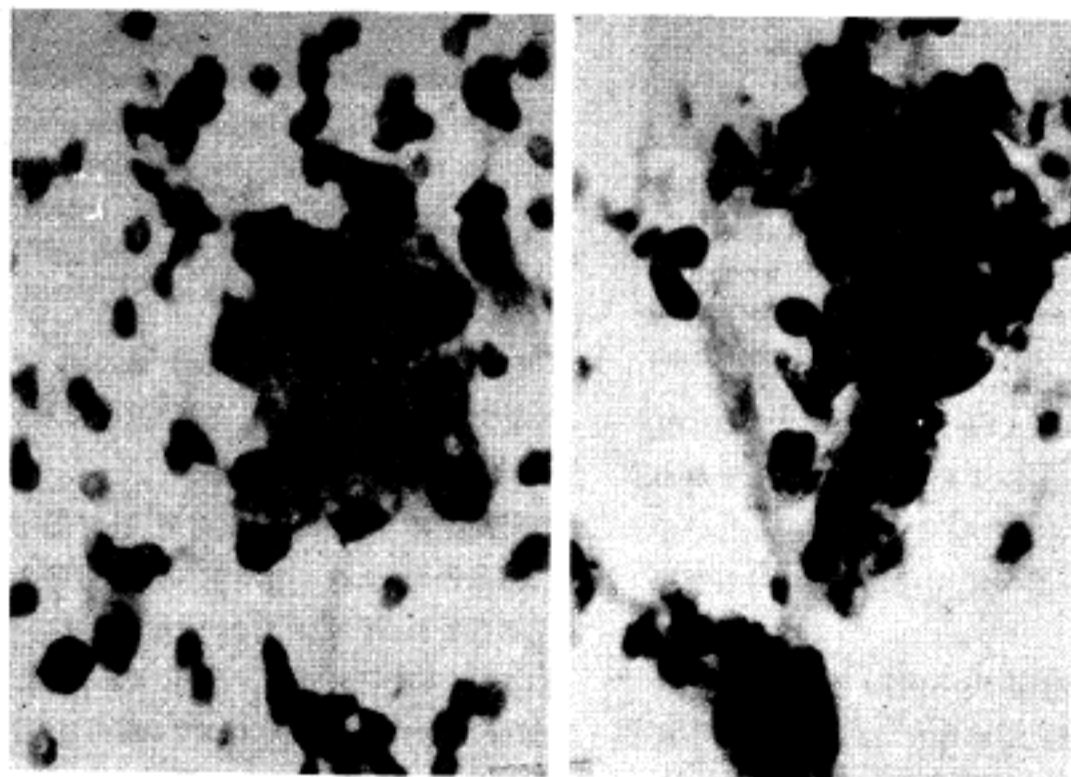


Fig. 9. Bronchial washing cytology one year after the left pneumonectomy reveals malignant cells characteristic of adenocarcinoma. The washing was obtained from the right upper lobe of the lung (Papanicolaou stain, x400).

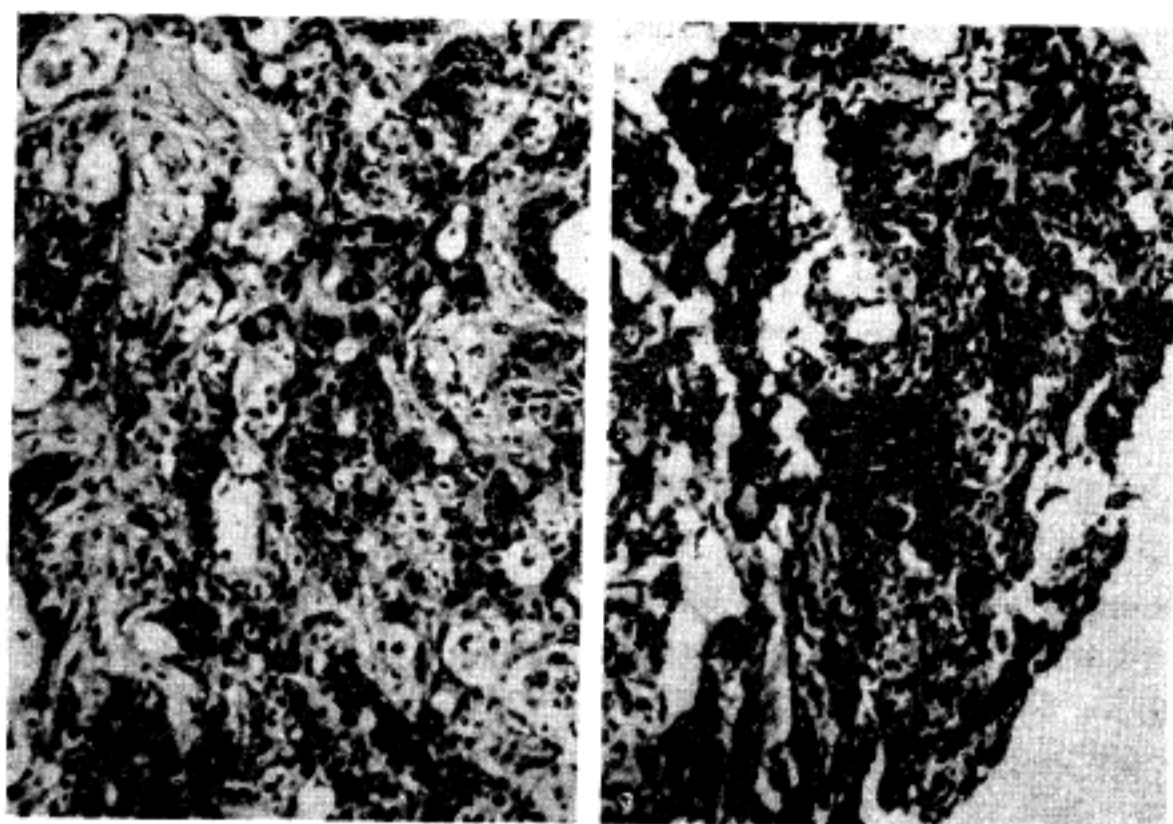


Fig. 10. Bronchoscopic biopsy one year after the left pneumonectomy reveals adenocarcinoma of poorly differentiated type with desmoplasia. The biopsy was taken from the right upper bronchial mucosa (H-E stain, x100).

고 있었다. 선암종은 크고 작은 불규칙한 선강으로 이루어져 있었고, 암 세포는 원주상이며 점액을 분비하고 있었다. 종양 조직 내에 흉선 조직으로 인정할 만한 구조물은 관찰되지 아니하였다. 근위측 기관지는 확장되었고 기관지점막에 심한 만성염증을 동반하고 있었다. 종양 주위 폐조직은 무기폐의 소견을 나타내고 간질 섬유 증식이 심하였다. 상엽과 하엽의 내측벽 막은 섬유 증식에 의하여 서로 유착되고 있었다. 기관지 주위 임파선에 암의 전이는 볼 수 없었다. 병리학 적 진단은 좌폐 상엽의 양성 기형종에 속발한 선 암종(악성 기형종)이었다.

전이소의 기관지 세척물의 세포학적 검사(P-82-696): 좌 폐장 절제 1년 후에 우 폐장의 상엽 기관지 세척물의 도말 및 세포군 집적편의 검경에서 분화가 나쁜 선 암종세포가 다수 관찰되었다. 이들 암 세포는 세포질의 양이 비교적 적고, 핵막이 불규칙하게 두꺼워져 있었으며 염색질은 불규칙하게 배열되어 있었다. 핵소체는 뚜렷하였고, 한 핵 내에 여러 개가 관찰되었다(사진 9).

전이소의 기관지경 생검 조직 검사(S-82-1140): 좌 폐장 절제 1년 후에 우 폐장의 상엽 기관지로 부터 얻은 내시경적 생검 조직은 소량의 정상 기관지 점막과 선 암종 조직으로 이루어져 있었다. 선 암종은 매우

분화가 나쁘고, 불규칙한 선강으로 이루어져 있었고, 간질에 다량의 섬유 증식을 동반하고 있었다(사진 10).

총괄 및 고안

이 보고는 50세된 여자가 적어도 지난 20여 년간 좌 폐장의 상엽에 양성 기형종을 가지고 지내오다가(임상 증상 및 흉부 X선 소견상), 이 양성 기형종에 선암종이 속발하였음을 확인받고(기관지경 세척물의 세포학적 검사 및 생검 조직 검사 상), 좌 폐장의 절제술을 받은 후 1년 만에 우폐장으로 선 암종이 전이하여(기관지 세척물의 세포학적 검사 및 생검 조직 검사 상), 전이소의 진단 3개월후 사망한 지극히 드문 증례를 다루고 있다.

이 증례의 좌 폐장에 발생한 악성 기형종과 좌 폐장 절제 1년 후에 발생한 우 폐장의 선 암종의 상호관계에 대하여 충분한 고안이 필요하리라고 저자들은 생각한다. 악성 기형종의 발생양상은 2가지 형태로 설명되는데, 그 하나는 발생 당시 3배엽성 조직 중 통상 그 어느 한 배엽의 조직이 악성으로 발육하며(병발성 악성 기형종), 이 악성 조직이 곧 전이를 하게 되어 예후가 불량한 것이 통례이다. 이와 반대로 양성 기형종으로 오랫동안 지속하다가 그 어느 한 배엽의 조직이

악성화하여(속발성 악성 기형종) 악성 기형종으로 나타나는 경우가 있다. 후자의 경우 그 임상 경과가 매우 지속적이고, 따라서 예후가 양호하며 악성화한 이후부터 임상경과가 급진한다. 따라서 병발성과 속발성 악성 기형종의 임상적 의미는 서로 매우 상이하다. 이 증례의 좌 폐장에 발생한 악성 기형종은 속발성으로 저자들은 믿고 있는데, 그 이유는 수술 전 27년 간에 걸친 임상 증상(모발의 각출, X선 상 종양크기의 변동)의 장기간 지속에도 불구하고 수술 직전까지 선암종의 속발이 임상적으로 인정되지 아니하였다. 이 증례에서 좌 폐장에 발생한 기형종의 절제가 만일 선암종의 속발전에 이루어졌더라면 이 종양으로 인한 환자의 사망도 방지되었을 것으로 믿는다.

이 증례의 우 폐장에 발생한 선암종은 1년 전에 절제한 좌 폐장의 기형종에서 속발한 선암종의 전이로 저자들은 생각한다. 그 까닭은 좌폐장의 절제 전에 여러번 반복 실시한 흉부 X선 검사 및 세밀한 기관지경 검사에서 우 폐장의 기관지 점막에 이상 소견이 없었고, 좌 폐장의 기형종을 절제 후 1년 만에 우 폐장 상엽 기관지를 외부로 부터 압박하는 큰 종양이 신속히 커지는 소견 등은 원발성 선암종으로 생각하기 보다는 오히려 전이성 암종의 소견을 나타낸다고 할 수 있다. 또한 좌 폐장의 기형종에 속발한 선암종(점액분비성 대장형의 선암종)과 우 폐장의 선암종이 조직학적으로 동일한 점은 후자가 전자로 부터 전이하였음을 시사해 주는 소견이라 할 수 있다.

폐장 내 기형종의 발생 기전은 Schlumberger²⁹⁾에 의하여 1946년 처음으로 제창되었는데 아직도 그의 학설이 이 종양의 폐장 내 기원을 설명하는데 가장 많은 지지를 받고 있다. 폐장 내 기형종은 종격동 기형종과 같이 흉선의 발생 과정과 밀접한 관계가 있다. 흉선의 anlage인 제 3인두낭(third pharyngeal pouch)이 기관지의 발육 과정을 따라 폐장 내에 이주하게 되고 폐 실질에 매몰되어 자라서 기관지와 흔히 교통하는 기형종이 발생하게 된다고 설명하고 있다. 제 3인두낭에서 기원하는 조직은 주로 흉선, 췌장, 호흡기 상피, 소화기 상피 등의 내배엽성 조직이고, 제 3인두낭과 밀접한 해부학적 관계가 있는 제 3 branchial cleft의 일부인 경동(cervical sinus)이 또한 이 종양의 기원에 관계하여 외배엽성 기원의 조직 즉 피부 및 그 부속물들이 이 종양의 구성 성분으로 나타나게 된다. 이 학설을 뒷받침하는 소견들은 폐장 내 기형종의 호발 부위가 제 3인두낭이 이주하는 경로(좌 폐장 상엽)에 일치하고¹⁻³⁾, 기관지와 흔히 교통하며^{2,3,7)}, 종양 조직내

간혹 흉선 조직이 관찰되고¹⁾ 흉선의 위치와 가장 가까운 폐장 내에 이 종양이 위치한다⁴⁻⁶⁾.

폐 실질 내에서 발생하는 기형종의 빈도는 종격동 기형종에 비해 극히 드물다²⁾. 보고된 증례의 연령 분포는 10개월에서 68歲에 이르며²⁾, 여자에서 더 잘 발생한다⁴⁾. 종양의 발생 부위는 좌폐 상엽에 제일 빈발한다²⁻⁴⁾. 저자들의 예도 여기에 해당된다. 종양이 폐 실질 내에 있더라도 기관지와 연결된 경우는 많지 않으나⁶⁻⁸⁾, 저자들의 예를 포함하여 우리나라에서 보고된 李 동²⁾의 2예와 張 동³⁾의 1예는 기관지와 종양이 교통하고 있었다. 또한 폐 기형종이 기관지 내로 자라서 기관지 확장증 및 주위 폐조직의 무기폐 소견을 가져올 수도 있다⁷⁾.

Spencer⁵⁾는 이러한 폐 실질 내의 기형종은 대부분이 천천히 자라는 양성 종양이며, 악성화 되는 경우는 드물다고 하였다. 그러나 세계 문헌에 보고된 23례 중 9례가 악성 기형종임을 보이고 있다^{1,4,6)}. 보고된 대부분의 악성 종양은 기형종을 구성하는 한 부분의 조직이 국소적으로 악성화하여 큰 양성기형종의 일부에 악성조직이 국한되어 나타나기 때문에 종양 조직을 연속 전편으로 검사하여야 비로서 악성조직을 발견하는 수가 많았다. 따라서 종양의 절제전에 악성조직의 존재를 진단하기가 불가능 하였고^{4,6)}, 환자의 예후에 그리 심각한 영향을 준 예들은 아니었다. 이와같은 예로 Barrett와 Barnard⁴⁾는 17년 이상이나 아무 증상이 없었던 악성 기형종 환자를 발표한 바도 있다. 저자들의 예는 이와는 반대로 선암종 조직이 기형종의 대부분을 이루고 있으면서 기관지 내로 자라나와 기관지세척물의 세포학적 검사 및 생검 조직 검사로 수술전에 암의 속발을 확진할 수 있었다. 환자가 27년간 모발을 각출하는 등 전형적인 폐 기형종의 증상을 나타내어 양성 폐 기형종에 이차적으로 선암종이 속발하였다는 사실을 수술 전에 확진할 수 있었던 드문 예이다.

폐 기형종에 수반되는 증상으로는 비특이성인, 기침, 객담 배출 및 각혈, 호흡 곤란 등이 있고 기형종이 기관지와 연결된 경우 객담에 모발이 배출되는 특이한 증상을 호소하여 진단이 용이할 수도 있다. 흉부 X선 소견은 중심성 종괴로 나타나며, 기관지와 연결이 되어 있을 경우 반월형의 공기 음영이 나타날 수 있다^{2,7)}. 종괴 내에 석회화도 보일 수 있다^{2,4)}.

이 증례는 좌폐 절제술을 시행한지 1년 후에 우측 폐장으로 전이한 선암 조직이 급속히 자라서 환자의 예후는 매우 불량하였다.

결 론

이 보고는 50세된 여자가 지난 20여 년간 좌 폐장의 상엽에 양성 기형종을 가지고 지내오다가 선 암종의 속발을 확인받고, 좌폐 절제술을 받은 후 1년 만에 우 폐장에 선 암종의 전이소가 조직학적으로 확인된 후 3개월 만에 사망한 드문 증례를 다루고 있다.

이 증례의 발생 기전, 임상 경과 및 병리학적 소견을 보고하였고, 폐장 내 양성 기형종의 발생기전과 임상 경과에 대하여 고안하였다.

참 고 문 헌

- 1) Day DW, Taylor SA: *An intrapulmonary teratoma associated with thymic tissue. Thorax 30: 582-587, 1975*
- 2) 이영, 허진철, 이진우 외 : 폐 기형종 치험 2예. 대한흉부외과학회지 5:141-146, 1972
- 3) 장기현, 이명옥, 한만청 외 : 폐 기형종 1예 보고.

대한흉부외과학회지 10:115-118, 1974

- 4) Gautam HP: *Intrapulmonary malignant teratoma. Amer Rev Resp Dis 100:863-865, 1969*
- 5) Spencer H: *Pathology of the lung. 2nd Ed Pergamon Press 1968, p990-992*
- 6) Collier FC, Dowling EA, Plott D, et al: *Teratoma of the lung. Arch Path 68:138-142, 1959*
- 7) Bateson EM, Hayes JA, Woo-Ming M: *Endobronchial teratoma associated with bronchiectasis and bronchiolectasis. Thorax 23:69-75, 1968*
- 8) Trivedi SA, Mehta KN, Nanavaty JM: *Teratoma of the lung. Report of a case. Brit J Dis Chest 60:156-159, 1966*
- 9) Schlumberger HG: *Teratoma of the anterior mediastinum in group of military age: Study of 16 cases and review of theories of genesis. Arch Path 41:398, 1946*