

기관지 점액선종 1예 보고

—A case report—

연세대학교 의과대학 병리학교실

진 소 영 · 이 광 길

서 론

기관지 선종은 폐에서 발생할 수 있는 종양종 0.5% 이하에 불과한 종양으로서¹⁾ 1882년 Müller가 최초로 보고한 이래 다수가 보고되었다. 이에 속하는 것으로서는 원주종, 유암종, 점막표피암, 점액선종, 양성혼합종, 근아세포종등이 있다. 이중 점액선종은 1935년 Rosenblum 및 Klein²⁾에 의해 최초로 보고된 이래 20여예^{1~11)}의 보고가 있을 뿐으로 더욱 드문 종양이다. 다른 유형과는 달리 광학현미경적으로 풍부한 점액을 형성하는 단층의 원주상 또는 다각형의 세포에 의해 명백한 선상구조를 취하며 단순절제 또는 폐단엽절제술만으로 완치될 수 있어 완전한 양성종양이라는 점으로, 악성잠재능을 지닌 다른 유형의 기관지선종과 구별된다.

저자들은 최근 12세 여아의 우폐상엽에 발생하여 심한 이차적 석회화를 보인 점액선종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환아는 12세된 여아로 6개월 전부터의 복통 및 운동시 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 과거력이나 가족력상 별 특이한 사항은 발견되지 않았다. 입원당시 혈압은 120/90 mmHg, 맥박 96/min., 호흡수 24/min, 체온 37°C였다.

접 수 : 1985년 8월 26일

* 본 논문의 요지는 1984년 추계 학술대회 석상에서 발표되었음.

이학적 검색상 만성병색이었으며 흉부청진소견은 정상이었고 심와부에 압통을 호소하였다. 흉부 X선 검사상 우측폐상엽에 혼탁한 종괴가 관찰되었다(Fig. 1). 검사실 소견으로 혈색소 9.4 g/dl, 헤마토크릿치 30.6%, 백혈구수 7,600/mm³(분엽중성구 48%, 임파구 38%, 단핵구 12%)였다. 소변검사는 정상범주에 속하였고 결핵반응검사 및 폐흡충에 대한 피부반응검사는 모두 음성이었다.

폐종양의 의심하에 입원 2일째 기관지경검사를 시행한 결과 우측폐상엽 폐침구역 기관지의 내강이 협착된 소견만 관찰되었을뿐 기관지내 병변은 관찰되지 않았다. 이당시 사각근임파절이 만져져 생검을 시행한 결과 반응성증식으로 보고되었다.

입원 3일째 흉부 단층촬영검사상(Fig. 2) 우측폐상엽에 난원형으로서 주위와의 경계가 명확하고 방사선 불투과성인 고형성종괴를 관찰하였으며 아울러 종격동

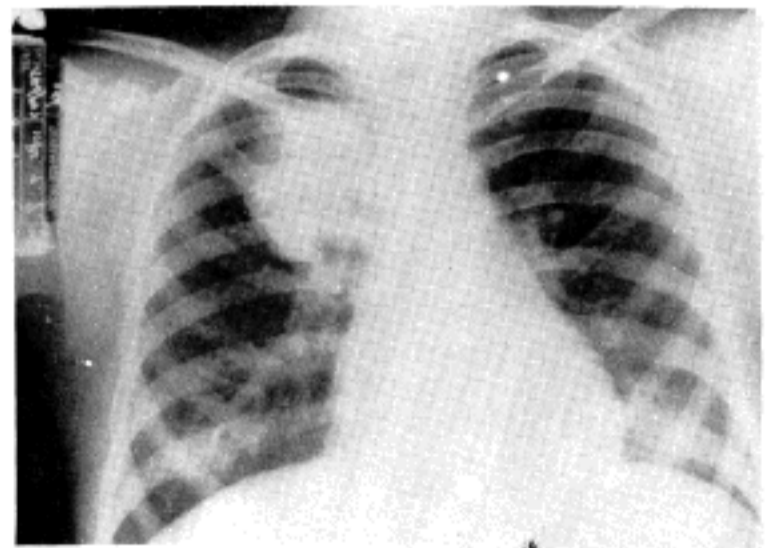


Fig. 1. Chest P-A revealed an oval radioopaque solid mass at the right upper lung field.

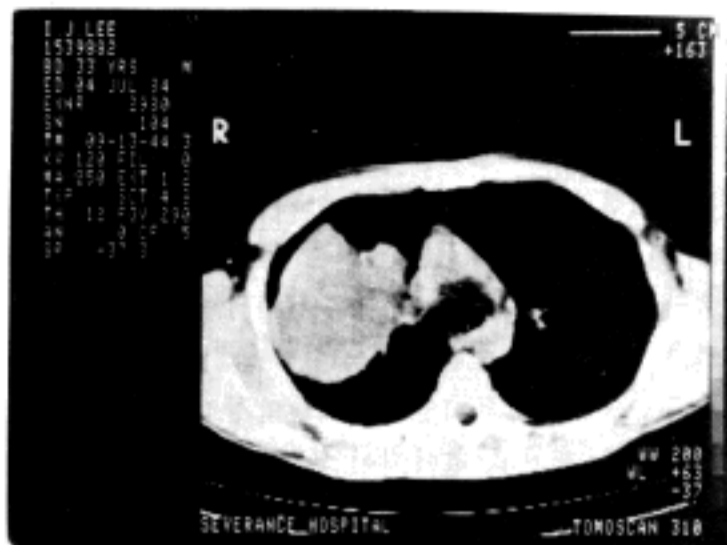


Fig. 2. Chest tomogram showing an well circumscribed calcified solid mass at the right upper lobe of the lung.



Fig. 3. Gray-white cut surface of the tumor showing mucin-filled cysts and innumerable sand-like calcified bodies.

내 다수의 임파절이 증대된 소견도 알 수 있었다. 종괴에 심한 석회화를 동반하고 있어 임상적으로는 연골육종의 의심하에 입원 5일째 수술을 시행하였다.

수술소견상 우폐상엽에 단단한 난원형의 종괴가 관찰되었으며 우폐중엽 및 우폐하엽의 상분절엽과 다소 유착되어 있었다.

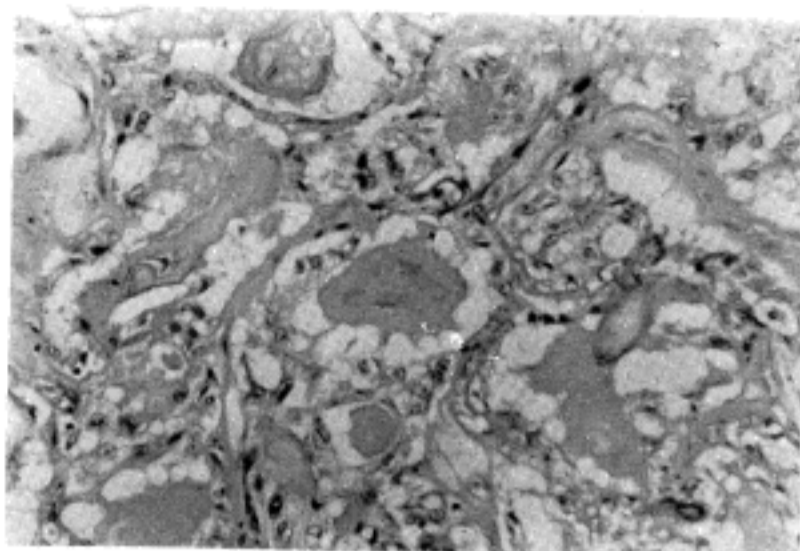


Fig. 4. Well developed glandular structures lined by a layer of columnar cells(H-E, x200).

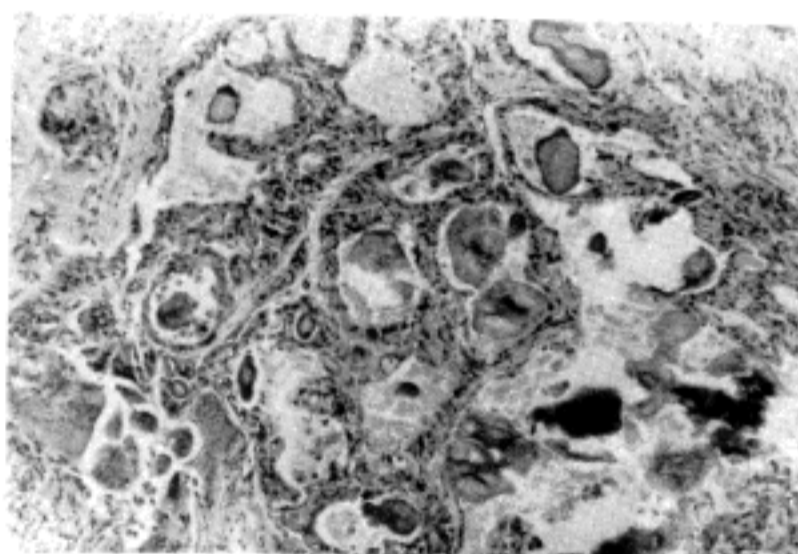


Fig. 5. Many calcific spherules within the glandular lumen with occasional psammoma body-like appearance(H-E, x200).

병리 소견

육안적 검색 : 받은 조직은 절제된 우폐상엽 및 중엽과 종격동내에서 발견된 증대된 임파절이었다. 우폐상엽에 직경 6 cm 의 주위와 경계가 잘 지어지는 난원형의 단단한 고형성종괴가 관찰되었다. 절단을 해보았더니 주기관지의 내강이 종괴에 의해 협착되어 있고 점액성분비물로 폐색되어 있었다. 종괴는 결막하층에 위치하고 있으면서 황회색 또는 점액상의 절단면을 갖고 있었고 모태알같은 수많은 석회체가 관찰되었다(Fig. 3).

광학현미경적 검색 : 피막은 관찰되지 않았으나 종괴는 주위의 폐조직과 경계가 잘 지어져 있고 일부 두꺼운 섬유성 조직에 의해 둘러싸여 있으면서 그 주위로 cholesterol cleft 또는 이물질반응이 관찰되었다. 종괴는 대부분 균일한 크기의 단층의 원주상 상피로 둘러

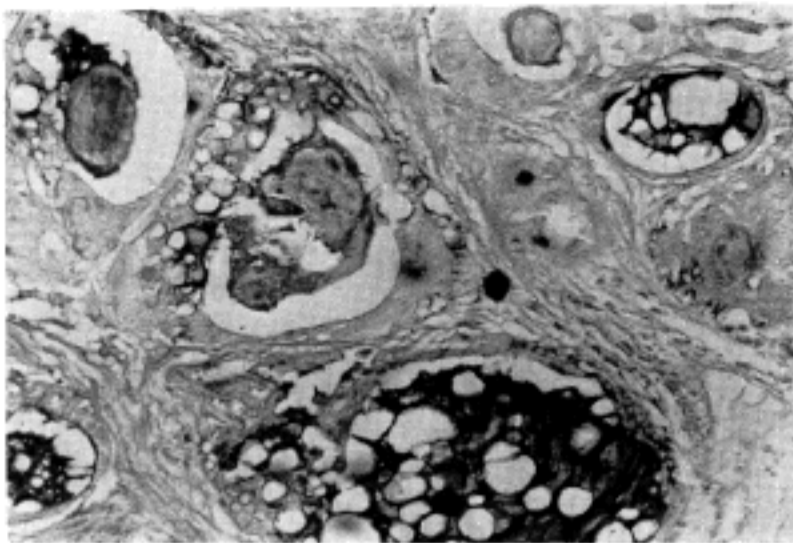


Fig. 6. Mucicarmine-positive secretory material (Mucicarmine, ×200).

러싸인 선상구조를 취하고 있었으며 간혹 낭성확장을 보이는 부위도 있었다(Fig. 4). 각 선구조의 내강은 다량의 무형성 호산성 분비물로 차있으면서 여러 군데에서 그 중심부위에 석회화를 보였고 사종체와 유사한 구조도 흔히 관찰되었다(Fig. 5). 분비물의 성분을 알아보기 위한 특수염색소전상 colloidal iron 염색에 청색, Alcian blue pH 2.5 염색에 청색, 그리고 Mucicarmine 염색상 짙은 장미빛을 띠어(Fig. 6) 산성점액다당류로 생각하였다. 표면의 기관지상피는 대부분 잘 보존되어 있었으나 국소적으로 미란의 소견을 보이는 부위도 있었다.

고 안

1882년 Müller 에 의해 최초로 기관지선종이 보고된 이래 그기원에 관한 많은 논란이 있어 왔다. Womack 및 Graham¹²⁾과 Churchill¹³⁾은 배로 종양내 연골이나 골이 관찰되는 점을 들어 태생기의 폐아(fetal lung buds)에서 기원한 것이라고 생각하였으나 이 의견은 Liebow¹⁴⁾에 의해, 연골은 종양에 의해 생성된 싹생골이라기 보다는 심연(invaginated)된 것이며 골은 원래부터 존재하는 연골 또는 섬유성중격이나 피막으로부터의 화생으로 비롯된 것이라 하여 이론을 제기하였다. 그밖에 타액선호산성과립세포(oncocyte)¹⁵⁾, 혈관내피세포¹⁶⁾, 성인기관지상피세포의 역분화¹⁷⁾¹⁸⁾, 기관지의 기저세포등¹⁹⁾으로부터의 기원설이 주장되었다.

그러나 종양이 항상 잘 보존된 상피로 덮여있고 기저막이 계속되므로 기관지의 표면상피 기원은 아니며, 구성하는 세포가 원주상으로 점액선상피세포와 유사한 점이 없고 정상 점액선과의 이행부위가 없다는 점을

들어 Reisner²⁰⁾와 Wessler 및 Rabin²¹⁾은 점액선의 관찰상피기원이라고 주장하였다. 그 이래 여러학자들도 이에 동의하여⁴⁻⁷⁾ 지금은 점액선으로부터의 기원이라는 사실에 의견의 일치를 보고있다.

기관지선종에는 학자에 따라 다소 분류의 차이는 있으나 원주종, 유암종, 점막표피암, 점액선종의 네 유형을 대표적으로 들 수 있겠다. 점액선종이란 그 단어 자체가 지시하듯 기관지내 양성종양을 가리키나 원주종, 유암종, 점막표피암등은 그 암성잠재능이 자주 거론되며 원이장기로 전이되어 환자가 사망한 보고도 다수 있다. 따라서 진정한 의미의 양성 기관지선종은 점액선종뿐이다.

점액선종은 학자에 따라 'papillary cystadenoma of the bronchus'²²⁾, 'bronchial cystadenoma'¹¹⁾, 'bronchial adenoma of the mucous gland type'²³⁾, 'adenomatous polyp of the bronchus'²⁴⁾등으로도 불려왔으며 1935년 Rosenblum 및 Klein²⁵⁾이 가는 경(stalk)을 가지고 선상구조로 구성된 양성선종을 보고함으로써 최초로 소개되었다. 1953년 Ramsey 및 Reiman⁴⁾이 정상 기관지점액선과 유사한 점을 들어 점액선 기원이라는 직접적인 증거를 제시하였고, Gilman 등⁶⁾이 조직화학적 검사를 통해 선강내 물질이 산성점액다당류임을 입증하였다.

이러한 산발적인 보고를 1967년에 이르러 Kroe 및 Pitcock⁷⁾이 그때까지 문헌에 보고되었던 10예와 자신의 1예를 첨가한 11예를 대상으로 고찰하면서 기관지선종의 다른 유형과 구별되는 확실한 하나의 독립된 질병임을 주장하였으며 이후에도 약 10예의 추가보고가 있어왔다^{1,8-11)}.

이에 저자는 이제까지 문헌에 보고된 점액선종중 임상소견을 알 수 있는 15예를 대상으로 고찰하여 보았다(Table 1). 연령분포는 어떠한 호발연령층이 없이 전 연령층에 걸쳐 고루 발생하였으며 남성에서 2.2:1로 호발하였고 남성보다 여성에서 젊은 연령층에 빈발하였다. 내원시 주소를 보면 증상이 없던 예가 2예 있었고 증상이 있는 경우는 모두 해소, 혈담등 호흡기 증세나 폐렴증상이었다. 증상의 기간은 대략 2년 5개월의 긴 기간이었다. 종양의 발생부위는 1예를 제외하고는⁵⁾ 모두 주기판지에 위치하였으며 상, 하, 좌, 우 폐엽의 호발빈도의 차이는 없었다. 육안소견상 대부분이 기관지내강내로 돌출된 용종양 종괴로서 5예에서 경을 갖고 있었으며 모두 점막하층에 위치하였다. 종괴의 크기는 평균 2.14 cm 으로서 가장 큰 예가 4.0 cm 으로 본 예의 6.0 cm 보다 모두 작은 크기였다.

Table 1. Collected 16 cases of mucous gland adenomas of the bronchus

Case	Age	Sex	Symptoms	Duration of symptoms	Location of Tumor	Size(cm)	Treatment	Follow up
1	11	M	Cough, hemoptysis, weight loss, chest pain	9 mo	RMB, just beyond carina	1.5	Bronchoscopic excision	L & W till now
2*	62	M	Hemoptysis	2 yr	LUL bronchus	ϕ	Lobectomy	ϕ
3	14	F	Pneumonitis, wheezing; hemorrhage for 6mo	2 yr	LMB	4.0	Wedge resection	L & W 11mo
4	54	M	Protracted pneumonia	2 mo	RLL bronchus	0.4	Lobectomy	L & W 2mo
5	66	M	None, found on routine chest roentgenogram		RML bronchus (peripheral)	2.0	Local resection	ϕ
6	28	M	Recurrent pneumonia	4 yr	RUL bronchus	2.5	Lobectomy	ϕ
7	47	F	"Pulmonary symptoms"	6 yr	LLL bronchus to lingula	ϕ	Pneumonectomy	ϕ
8*	36	W	Recurrent pulmonary symptoms	3 yr	LLL bronchus to lingula	ϕ	Lobectomy	ϕ
9*	44	M	Recurrent pneumonia	10 yr	RMB	ϕ	Repeated local excision	@
10*	8 ¹ / ₂	F	Recurrent fever and bronchitis	1 yr	RLL bronchus	ϕ	Bilobectomy	ϕ
11	51	M	None, except possible dyspnea on exertion		RUL bronchus	2.0	Lobectomy	L & W 3 yr
12	14	M	Recurrent pneumonia	6 mo	LLL bronchus	1.1	Excision	L & W 2 mo
13	66	M	Cough, hemoptysis	18 mo	LUL bronchus	1.2	Lobectomy	ϕ
14	22	F	Cough, chill, fever, night sweat	5 wk	RUL bronchus	1.5	Lobectomy	L & W 1 yr
15	27	M	Lobar pneumonia	ϕ	LLL bronchus	1.5	Lobectomy	ϕ
16*	12	F	Dyspnea on exertion	6 mo	RUL bronchus	6.0	Bilobectomy	L & W till now

@ Patient died of pneumonia and at autopsy the RMB contained a large endobronchial mucous gland adenoma. Key to abbreviations: RMB, right main bronchus; LMB, left main bronchus; RUL, RML, & RLL, respectively right upper, middle and lower lobes; LUL, left upper lobe; LLL, left lower lobe; ϕ, not indicated; L & W patient living and well without respiratory complications; *, cited from reference 7; #, our case

현미경적 소견은 모두 단층의 점액세포에 의해 잘 발달된 선구조를 취하고 있었다. 분비된 점액에 대한 특수염색은 Ramsey 및 Reiman⁴⁾이 최초로 시행하였고 Gilman 등⁵⁾에 의해 산성점액다당류로 밝혀졌으며 Edwards 및 Matthews¹¹⁾와 Pritchett 및 Key²³⁾는 전자현미경적 검사들 통해 구성하는 상피세포의 세포질 내에서 점액공포를 확인하였다.

치료로서는 단순절제 또는 양성종양과의 감별, 종괴로 인한 말초폐실질의 불가역성 변화때문에 폐단엽절제술을 시행한 것이 대부분이다. 종괴로 인해 폐렴, 무기폐, 기관지확장증, 폐기종등의 합병증이 초래되었으나 이들은 모두 종양의 제거와 더불어 해소되었다.

본 예에서는 심한 석회화를 동반하고 있었는데, 이제까지 기관지 선종의 석회화는 드물지않게 관찰되는 것으로 알려져 있으나²⁴⁻²⁶⁾ 점액선종의 유형에서는 보고된 바가 없다. 본 예에서는 모든 석회물질이 선내강에만 존재하며 항상 점액의 중앙에서 발견된다는 점으로 농축된 점액에 2차적으로 일어난 석회화로 설명될 수 있다.

결 론

저자는 12세 여아의 우폐상엽에 발생하여 심한 이차적 석회화를 보인 점액선종 1예를 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Spencer H: *Bronchial mucous gland tumors. Virchow Arch(Pathol Anat Histol)* 383:101, 1979
- 2) Rosenblum P, Klein RI: *Adenomatous polyp of the right main bronchus producing atelectasis. J Ped* 7:791, 1935
- 3) Goldman A, Conner CL: *Benign tumors of the lungs with lungs with special reference to adenomatous bronchial tumors. Dis Chest* 17:644, 1950
- 4) Ramsey JH, Reiman DL: *Bronchial adenomas arising in mucous glands; illustrative case. Am J Pathol* 29:339, 1953
- 5) Weinberger MA, Katz S, Davis EW: *Peripheral bronchial adenoma of mucous gland type; clinical and pathologic aspects. J Thorac Surg* 29:626, 1955
- 6) Gilman RA, Klassen KP, Scarpelli DG: *Mucous gland adenoma of bronchus; report of a case with histochemical study of secretion. Am J Clin Pathol* 26:151, 1956
- 7) Kroe DJ, Pitcock JA: *Benign mucous gland adenoma of the bronchus. Arch Pathol* 84:539, 1967
- 8) Emory WB, Mitchell WT Jr, Hatch HB Jr: *Mucous gland adenoma of the bronchus. Am Rev Resp Dis* 108:1407, 1973
- 9) Allen MS Jr, Marsh WL Jr, Geissinger WT: *Mucous gland adenoma of the bronchus. J Thorac Cardiovasc Surg* 67:966, 1974
- 10) Key BM, Pritchett PS: *Mucous gland adenoma of the bronchus. South Med J* 72:83, 1979
- 11) Edwards CW, Matthews HR: *Mucous gland adenoma of the bronchus. Thorax* 36:147, 1981
- 12) Womack NA, Graham EA: *Mixed tumors of the lung, so-called bronchial or pulmonary adenoma. Arch Pathol* 26:165, 1938
- 13) Churchill ED: *Discussion of symposium on surgery of lung and mediastinum; lobectomy and pneumonectomy in bronchiectasis and cystic disease. J Thorac Surg* 6:335, 1937
- 14) Liebow AA: *Tumors of the lower respiratory tract. Atlas of Tumor pathology. Section on adenoma of bronchus. p26, Armed Forces Institute of Pathology. Washington DC, 1952*
- 15) Stout AP: *Cellular origin of bronchial adenoma. Arch Pathol* 35:803, 1943
- 16) Edwards AT, Taylor AB: *Vascular endothelioma of the lung. Br J Surg* 25:487, 1938
- 17) Allen AC: *So-called mixed tumors of the mammary gland of dog and man with special reference to the general problem of cartilage and bone formation. Arch Pathol* 29:589, 1940
- 18) Brunn H, Goldman A: *Bronchial adenoma. Am J Surg* 54:179, 1941
- 19) Fried BM: *Bronchogenic adenoma. Arch Int Med* 79:291, 1947
- 20) Reisner D: *Intrabronchial polypoid adenoma;*

- report of a case. *Arch Surg* 16:1201, 1928
- 21) Wessler H, Rabin CB: *Benign tumors of the bronchus. Am J Med Sci* 183:164, 1932
- 22) Smith AJ: *Benign epithelial tumors of the bronchus. South Med J* 58:1535, 1965
- 23) Pritchett PS, Key BM: *Mucous gland adenoma of the bronchus; ultrastructural and histochemical studies. Ala J Med Sci* 15:43, 1978, cited from Edwards CW, Matthews HR: *Mucous gland adenoma of the bronchus. Thorax* 36:147, 1981
- 24) Heimbürger IL, Kilman JW, Battersby JS: *Peripheral bronchial adenomas. J Thorac Cardiovasc Surg* 52:542, 1966
- 25) Troupin RH: *Ossifying bronchial carcinoid; a case report. Am J Roentgenol* 104:808, 1968
- 26) Bateson EM, Whimster WF, Ming MW: *Ossified bronchial adenoma. Br J Radiol* 43:570, 1970

=Abstract=

Mucous Gland Adenoma of the Bronchus

—A case report—

So Young Jin, M.D. and Kwang Gil Lee, M.D.

Department of Pathology, College of Medicine,
Yonsei University

Mucous gland adenoma, one type of bronchial adenoma, is first introduced by Rosenblum and Klein²⁾ in 1935 and very rare. Only twenty-one cases had been reported in English literature. This tumor must be differentiated from other types of bronchial adenoma because of completely benign clinical course. A case of mucous gland adenoma is presented which showed marked secondary calcification.