

기관지 내관에 발생한 다형성 선종

— 1증례 보고 —

가톨릭대학 의학부 임상병리학교실

박 은 선·지 미 경·강 석 진
김 병 기·김 선 무

서 론

기관지에 원발성으로 발생하는 다형성 선종(pleomorphic adenoma)은 1961년 Weiss와 Ingram¹⁾이 기관지의 타액선형 종양을 검토하면서 그 존재 가능성을 제시한 바 있지만, 최초의 문헌상 보고는 1965년 Payne 등²⁾이 2예를 처음 보고하였고, 이 외에 1972년 Davis 등³⁾의 1예, 1972년 Spencer⁴⁾의 2예, 1982년 Dardick 등⁵⁾의 1예의 보고밖에 없었다. 따라서 저자들은 최근 우폐상엽의 중기관지에서 발생한 다형성 선종 1예를 경험하였는데 매우 희귀한 증례로 생각되어 보고하는 바이다.

증례

환자는 38세 여자로서 2개월전부터 간헐적인 호흡곤란 및 기침을 주소로 개인의원에서 대중요법으로 치료를 받아 왔으나 별 호전이 없고 흉부 X-선 사진상 우폐상엽에 불투명한 음영이 관찰되어 1986년 8월 강남성모병원 흉부외과에 내원하였다. 기왕력 및 가족력은 특기할 사항이 없었고 이학적 소견은 약간 쇠약해 보였으며 혈압, 맥박, 체온은 정상범위였다. 청진 소견상 우폐에서 호흡음의 심한 감소가 있었다.

입원당시 시행한 혈액검사 및 뇨검사는 모두 정상이었고 객담도말 및 배양검사는 특이 소견이 없었다. 흉부 X-선 소견상 우폐상엽에 불투명한 음영이 증가되었고

종격동 구조물이 우측으로 전위되어 있었고 우폐하엽은 폐기종 양상을 보였다. 우폐 단층조영상 $4 \times 3.2\text{ cm}$ 정도의 난원형 종괴가 우측 주기관지를 폐쇄시키고 있었다. 기관지 조영에서도 기관지내관(endobronchial)의 종양을 확인할 수 있어 우전폐절제술을 시행하였다. 병리조직학적 검사에서 육안 소견상 우측 주기관지 내관에 용종양으로 돌출한 종양이 기관지 내강의 대부분을 폐쇄시키고 있었다. 종양은 몇 개의 분엽으로 되어 있었으며 크기는 기관지 내관부분이 $1.4 \times 1.1\text{ cm}$, 기관지 바깥 폐실질부분이 $2.2 \times 1.7\text{ cm}$ 였다.

절단면은 회백색으로 단단한 부위와 점액성의 무른 부위가 혼재되어 있었으며 연골양 경도를 가진 부위도 관찰되었다. 또한 부분적으로 종양은 폐실질내로 직접적인 연장(direct extension)을 보이기도 하였다. 현미경 소견상 종양은 기관지 벽의 점액선과 직접적인 연결을 보였으며 타액선에 흔히 발견되는 다형성 선종과 별 다른 차이가 없었다.

종양세포들은 점액을 분비하고 연골양 또는 점액성 기질내에 군집을 이루고 있었다.

고찰

기관지에서 발생한 다형성 선종(pleomorphic adenoma)은 매우 희귀하여 Payne 등²⁾이 1965년 2예를 처음 보고하였고 그 이후 4예의 추가보고가 있을 뿐이다. Kramer⁶⁾는 1930년 성장이 빠르고 조기전이를 일으키는 악성 기관지 암종과 구별하기 위하여 기관지 점액선에서 발생하는 종양을 기관지 선종(bronchial adenoma)이라는 명칭을 사용하였다. 그러나 Payne 등²⁾은 이러한 '기관지 선종'이 국소적인 침윤이나, 또는 이따금

*본 증례는 1986년 추계학술대회에서 발표되었음.

**본 논문은 가톨릭 중앙의료원 학술연구 조성기금으로 이루어졌음.



Fig. 1. A polypoid, somewhat lobulated endobronchial mass is seen in the right upper lobe bronchus.

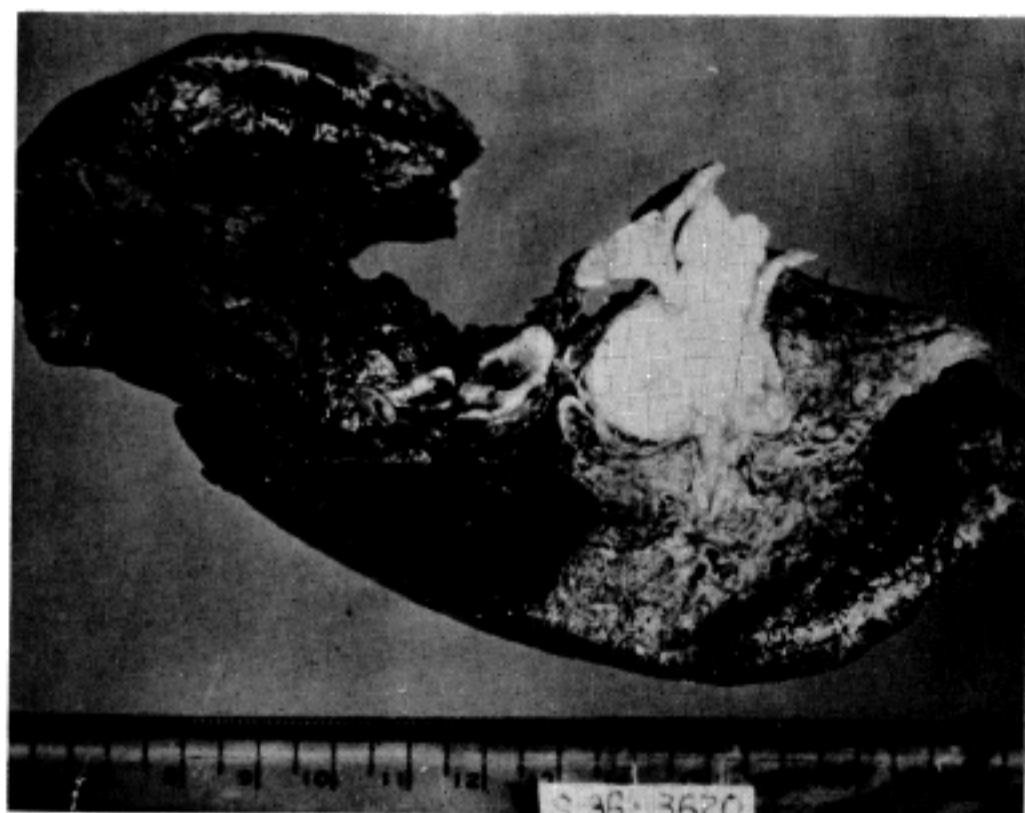


Fig. 2. Cut surface shows an endobronchial polypoid mass with extension to peribronchial lung substance.

전이도 할 수 있음을 보고하였으며 200예의 점액선에서 발생한 종양을 재분류하는 과정중에서 2예의 기관지 기원 다형성 선종을 처음으로 기술하게 되었다. Spencer⁴⁾는 기관지에 발생한 2예의 다형성 선종을 보고하면서 타 액선에서 발생한 경우처럼 그 발생기전이 확실하지 않다고 하였다. 즉 다형성 선종의 모든 간엽성 성분이 상피 세포 또는 근상피세포에서 이차적으로 유래하는 것은 일반적으로 인정되고 있어 혼합종양(mixed tumor)보다는 다형성 선종이라는 명칭이 더 적절하다고 생각하지

만, 근상피세포 자체의 역할은 확실하지 않다고 하였다⁵⁾.

Azzopardi와 Smith⁷⁾는 상피세포와 근상피세포가 연골성 및 점액성 간질의 생성에 관여한다고 믿었지만, 이와 달리 Doyle 등⁸⁾은 근상피세포가 연골성세포로 직접 화생을 일으키는 것이라고 주장하였다. 발생연령과 성별을 보면 Payne 등⁹⁾의 2예는 모두 여자이었으며 50, 47 세로서 기관지 암종보다 약간 낮은 연령층에서 발생한다고 하였고 저자들의 증례는 38세 여자였다. 그러나

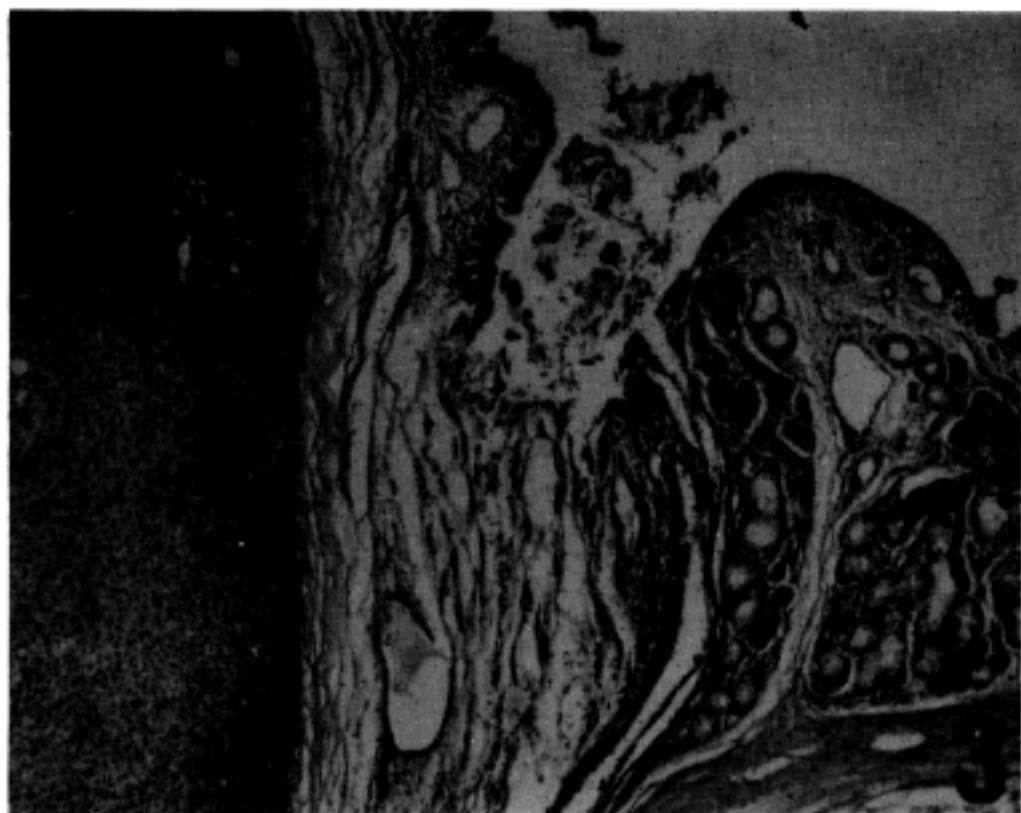


Fig. 3. The endobronchial portion of pleomorphic adenoma is well circumscribed and is composed of solid portion of epithelial cells. The bronchial mucosa and cartilage on the right side are also seen.



Fig. 4. The solid portion of pleomorphic adenoma shows direct continuity with bronchial cartilage (H&E, x40).

Spencer⁴⁾의 2예는 모두 남자였고 기관지 암종의 호발연령과 별다른 차이가 없는 58세, 68세이었다. 그러므로 연령층의 분포는 비교적 넓다고 생각된다. 기관지 내경 검사상의 임상진단은 Payne 등²⁾의 2예는 저자들의 증례처럼 기관지 선종이었으나 나머지 3예의 임상진단은 기관지 종양이었다.

저자들의 증례와 Payne 등²⁾의 1예, Davis 등³⁾의 1예는 모두 우측 상엽 기관지에서 종양이 발생하였고, Payne 등²⁾의 다른 1예는 우측 중엽 기관지, Spencer⁴⁾의

2예는 우측 하엽기관지에서 발생하였다. 저자들의 1예와 문헌상의 5예가 모두 우측 폐에서 발생했다는 사실이 매우 흥미있는 점이나 그 기전은 현재로서는 알 수가 없다. 저자들의 증례와 Payne 등²⁾의 2예는 기관지 내강(endobronchial) 및 폐실질(extraluminal) 내에 종양이 위치하고 있었고 Davis 등³⁾의 1예는 주기관지 내에서 발생하여 주기관지쪽으로 자라고 있었다. 종양의 크기는 저자들의 증례(장경 3.6 cm)와 문헌상의 4예는 장경 5 cm 미만이었으나 Spencer⁴⁾의 다른 1예

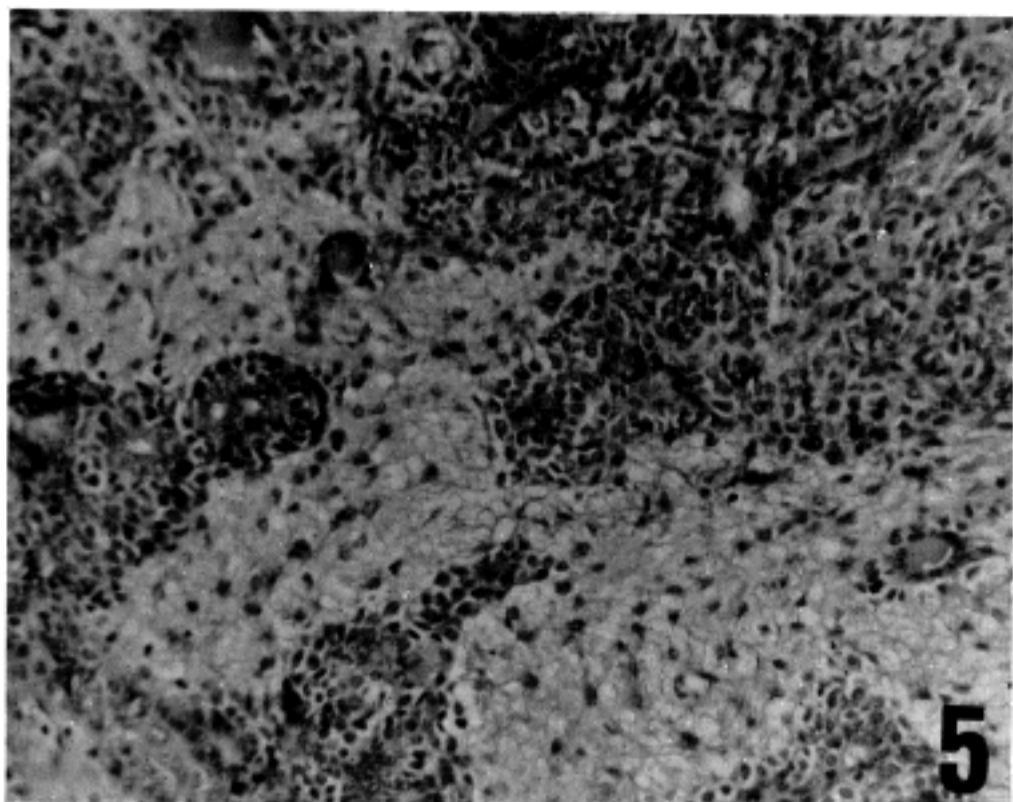


Fig. 5. Transition from epithelial component to myxoid stroma is seen (H&E, x200).

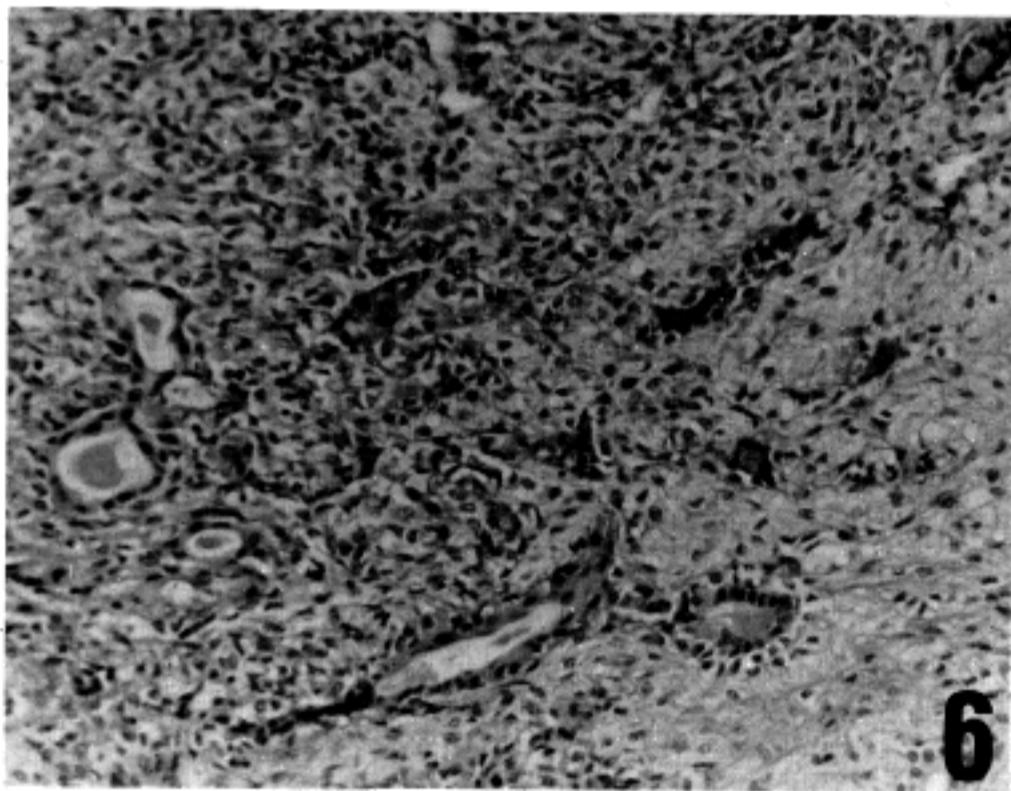


Fig. 6. Duct formation with secretory pattern is scattered throughout (H&E, x200).

는 우측 하엽을 광범위하게 차지하는 커다란 종양이었다. 광학 현미경 소견에서 저자들의 1예와 문헌상의 6 예는 모두 상피형 성분 및 결합조직성분이 혼합 증식하는 전형적인 다형성 선종이었다. 다만 종양의 크기가 커던 Spencer⁴⁾의 1예는 부분적인 괴사와 어느정도의 세포 분열이 관찰됨에도 불구하고 양성 다형성 선종으로 진단하였으나, 우측 폐하엽절제술 시행 4년후에 재발하였기에 악성의 가능성이 높아 방사선 치료를 하였다. 나머지 저자들의 증례와 Panyne 등²⁾의 1예, Davis 등³⁾의 1예는 우전폐절제술을 시행하였고, Spencer⁴⁾의 다른 1예는 우

하엽절제술, Panyne 등²⁾의 다른 1예는 우상엽절제술을 시행하였는데 모두 재발의 증거없이 환자 상태는 양호하였다.

결 론

폐기관지에서 원발성으로 발생하는 타액선형의 다형성 선종은 매우 희귀한 종양으로 저자들은 최근 1예를 경험하여 보고하는 바이며, 현재까지 보고된 문헌상의 6 예와 저자들의 증례를 비교검토하였다.

REFERENCES

- 1) Weiss L, Ingram M: *Adenomatoid bronchial tumor. A consideration of the carcinoid tumors and the salivary tumors of the bronchial tree.* Cancer 14:161, 1961
- 2) Payne WS, Schier J, Woolner LB: *Mixed tumors of the bronchus (salivary gland type).* J Thorac Cardiovasc Surg 49:663, 1972
- 3) Davis PW, Briggs JC, Seal RME, Storring FK: *Benign and malignant mixed tumors of the lung.* Thorax 27:657, 1972
- 4) Spencer H: *Pathology of the lung.* 4th edition. Oxford, Pergamon press, 1985, p962
- 5) Dardick I, Peter van Nostrand AW, Phillips MJ: *Histogenesis of salivary gland pleomorphic adenoma (mixed tumor) with an evaluation of the role of the myoepithelial cells.* Hum Path 13:62, 1982
- 6) Kramer R: *Adenoma of bronchus.* Ann Otol Rhin & Laryng 39:689, 1930
- 7) Azzopardi JG, Smith OD: *Salivary gland tumors and their mucins.* J Path Bact 77:131, 1959
- 8) Doyle LE, Lynn JA, Panopio IT, Crass G: *Ultrastructure of the chondroid regions of benign mixed tumor of salivary gland.* Cancer 22:225, 1968

— Abstract —

Pleomorphic Adenoma of the Bronchus

— A case report —

Eun Sun Park, M.D., Mi Kyung Jee, M.D.
Seok Jin Gang, M.D., Byung Kee Kim, M.D.
and Sun Moo Kim, M.D.

Department of Clinical Pathology
Catholic University Medical College, Seoul, Korea

Pleomorphic adenoma presenting as primary lesion of the bronchus is very rarely encountered, and in our knowledge only 6 cases have been reported in the literature of the western world, and no case report has been published in Korea. Currently, we experienced a case of bronchial pleomorphic adenoma occurring in a 38 years old woman. On X-ray examination, hazy density in the right upper lobe and emphysematous change in the right lower lobe were noted. A right pneumonectomy was done under bronchoscopic diagnosis of bronchial adenoma.

The pathologic examination of the present case showed a polypoid endobronchial tumor, 1.4 × 1.1 cm (with extraluminal portion, 2.2 × 1.7 cm) in the right upper bronchus. The microscopic examination revealed a pleomorphic adenoma showing same morphology as those found in the salivary gland.

This case, therefore, was believed to be a genuine example of bronchial pleomorphic adenoma of salivary gland type. We compared this case with 6 cases in the literature.

Key Words: Bronchial pleomorphic adenoma, Salivary gland type