

小兒에 發生한 氣管支腺腫의 1 治驗例

郭 東 善*·金 義 潤*

=Abstract=

A Case of Bronchial Adenoma in a Child

Dong Seon Kwak*, M.D. and Yie Yun Kim*, M.D.

A bronchial adenoma, being one of rare neoplastic diseases in children, was reported in a 4 year-old-male child. The tumor was located entirely intraluminal in the left main bronchus and was treated with left pneumonectomy because of the irreversible cystic changes were revealed throughout the left lung on open thoracotomy. The tumor was histologically confirmed to be a muco-epidermoid type of bronchial adenoma.

緒 論

氣管支腺腫은 1877年 Heschl¹⁾에 依해서 처음 Cylindroma 라는 名稱으로 記載되었고 1882年 Moeller²⁾가 그의 剖檢例에서 比較의 詳細하게 報告한바있으나 臨床的으로는 1939年 Kramer³⁾에 依해서 처음 報告된 以來 歐美에서는 적지않은 報告가있고 氣管支系의 原發性腫瘍의 約 5%를 차지하는 것으로 알려져있으나 1965年 林⁴⁾ 등의 報告에 依하면 日本에서의 全報告例는 57例에 不過하며 比較의 稀有한 疾患으로써 普通 好發年齡은 30~40歲이고 慢性的인 經過를 取하며 臨床症狀를 나타내기까지는 數年을 要하는 경우가 많다. 이와같은 氣管支腺腫이 小兒에게 發生한다는 것은 極히 稀有한 것으로 報告되어있고 1968年 Verska⁵⁾의 32年間に 걸친 小兒氣管支腺腫 發生例에 對한 報告에 依하면 16歲以下에서 發生한 例數는 21例이며 最少年齡은 4歲이며 2例, 7歲 및 8歲에서 各各 1例씩을 報告하였다.

著者는 最近 釜山大學病院 胸部外科에서 滿 4歲의 小兒에 發生한 氣管支腺腫에 對한 1治驗例를 經驗하였기에 若干의 文獻의 考察과 아울러 報告하는 바이다.

症 例

박 ○ 덕 4歲 男

主訴: 咳嗽 및 間歇의 發熱

約 10個月前 咳嗽과 發熱을 主訴로하여 某病院에 入院하여 左側肺炎이라는 診斷下에 約 1個月半 治療를 받았으나 若干의 自覺症狀의 緩和가 있었을뿐 左側肺野陰影은 도리혀 增大하여 졌으므로 (圖 1) 某綜合病院으로

* 釜山醫大 胸部外科 <指導: 金 珍 植 教授>



圖 1. 咳嗽, 發熱의 初症狀이 있는 5個月後의 胸部 X-線像

옮겨 抗結核療法 및 其他 廣範圍 抗生劑로써 治療하였으나 胸部X-線上 全左肺野 陰影으로 發展된체 轉轉하다가 本大學病院에 入院하였다.

入院當時, 全身狀態 및 發育狀態는 比較의 良好하였고 胸部 打聽診上 右側에는 別異常이 없었고 左側에는 呼吸音을 들을수없고, 前後 胸部에서 모두 濁音을 나타냈으나 胸膜液은 없었다. 検査室的 検査所見에서는 白血球 增多症(16,400 中性 多核球 25%, 淋巴球 71%)外에는 肝機能検査 및 其他 血清學的 検査, 尿検査 및 心電圖上 異常所見은 없었다. 單純胸部X-線 撮影(圖 2)에서는 左肺野에 全陰影 및 多數의 小囊胞性 變化를 보였고 氣管支攝影에서는 左側主氣管支가 分岐部로부터 約 3厘米距離에서 完全히 造影劑 流入이 遮斷되어 있었다 (圖 3). 氣管支鏡 検査所見을 보면 左側主氣管支 粘膜은 正常이고 門齒에서 約 20厘米距離에서 左側主氣管支管의



圖 2. 術前 1個月前



圖 3. 術前 氣管支 造影像

外側壁으로부터 起始된 表面平滑한 橢圓形的 腫瘍이 左側主氣管支를 거의 完全히 封鎖하고 있었고 氣管支鏡視下에 生檢하였다. 生檢時 若干의 出血이 있었으나 곧 止血되었다.

手術: 氣管 挿管 全身麻醉下에 開胸하여 胸膜癒着을 剝離하고 左側全肺切除를 하였다. 肺門部 淋巴腺은 多



圖 4. 左側肺 切除標本(→部: 腺腫)

少 腫脹되어 있으나 生檢에서 腫瘍轉移像은 볼수 없었다.

切除標本에서 腫瘍은 氣管支 分岐部에서 約 3浬 距離의 左側 主氣管支에 있고 剖面에서의 크기는 $1.0 \times 0.7 \times 0.6$ cm 이고 帶灰白色, 充實性이고 表面이 平滑하며 이 腫瘍 發生部の 氣管支 內徑은 $1.0 \times 1.2 \times 0.7$ cm 이며 若干 膨大되어 있다(圖 4).



圖 5. 組織像(弱擴大) (→: 粘液)



圖 6. 組織像(強擴大) (→: 粘液)

組織學的으로는 圖 5, 6과 같이 腫瘍細胞는 Pale 하고 Cytoplasm 이 豊富하며 hypo 또는 hyperchromatic 한 核을 가지고있고 核分裂像을 많이 볼수 있다. 또 어떤 곳에서는 eosinophilic 하고 granular 한 많은 Cytoplasm 을 가지고있고 核은 pleomorphic 한 樣相을 보여주며 epidermoid cell 의 性格을 나타내고 있고 여러곳에서 eosinophilic 乃至는 basophilic 한 粘液을 볼수 있다. 以上과 같은 所見로 Muco-epidermoid 型 氣管支腺腫으로 診斷되었다.

考 按

1. 發生頻度

氣管支腺腫의 男女別 發生頻度は 거의 比等한 것으로

報告되어 있고, 그 平均年齡은 大略 30~40歲이며 小兒에게는 稀有的 疾患으로 알려져 있다. Verska (1968)⁵⁾가 16歲以下의 小兒에서 發生한 例를 集計한 바에 依하면 32年間に 걸친 發生例는 不過 21例이며 最少年齡은

Table 1. Age and Sex Incidences of Bronchial Adenoma

Age (yrs.)	Sex	Author	
		Verska ⁵⁾ (1935-1966)	Hayashi ⁴⁾ (1932-1964)
4	M	2	—
7	M	1	—
8	F	1	—
9-10	M	1	—
	F	7	—
11-15	M	8	1
	F	—	3
16-20	M	—	1
	F	1	2
21-30	M	—	9
	F	—	10
31-40	M	—	8
	F	—	9
41-64	M	—	10
	F	—	4
Total	M	12	29
	F	9	28
		21	57

Table 2. Location of Bronchial Adenoma

	Moersch 1950	Soutter 1954	Jaegar 1955	Hayashi 1965	Total
Right	44	14	164	22	244(51.2%)
Main bronchus	15	4	47	12	78(16.4%)
Upper lobe	7	4	20	3	34(7.2%)
Middle lobe	3	1	26	5	35(7.2%)
Lower lobe	19	5	71	2	97(20.4%)
Trachea	0	1	21	16	38(8.0%)
Left	38	30	109	17	194(40.8%)
Main bronchus	14	24	41	4	83(17.5%)
Upper lobe	9	1	26	10	46(9.7%)
Lower lobe	15	5	42	3	65(13.7%)
Total	86	46	285	57	474(100%)

4歲이며 2例, 7歲 및 8歲에서 各各 1例를 報告하고 있다. (表 1) 著者の 例는 4歲 男兒의 左側主氣管支에 發生한 것으로써 지금까지 報告된 例中에서는 最少年齡에 該當하며 氣管支腺腫中에서도 가장 發生頻度가 낮은 Muco-epidermoid 型이었다.

發生部位別 頻度를 보면 表 2 및 圖 5와 같으며 474例中 244例(51.2%)가 右側氣管支에 194例(40.8%)가 左側氣管支에 發生하였고 氣管에 發生한 例는 38例(8.0%)

Table 3. Pathological Findings of Bronchial Adenoma

	Author			
	Wilkins ¹⁵⁾	Markel	Moersch	Verska*
Cylindroma	9 (10.9%)	5 (8.2%)	9 (10%)	4 (26.6%)
Carcinoid	68 (82.4%)	83 (86.9%)	77 (90%)	9 (60.0%)
Mucoepidermoid	6 (6.7%)	3 (4.9%)	—	2 (13.3%)
Type not reported				6
Total	82	61	86	21

* Reported in 16 years of age and younger.

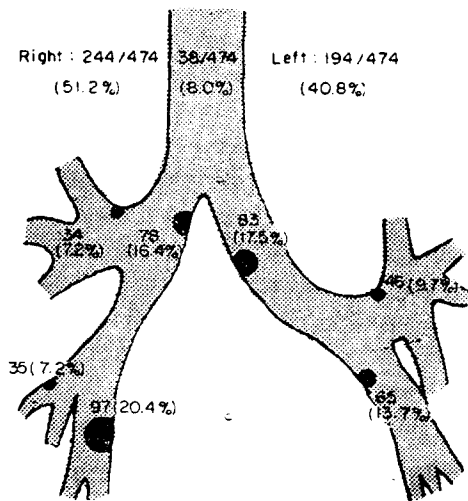


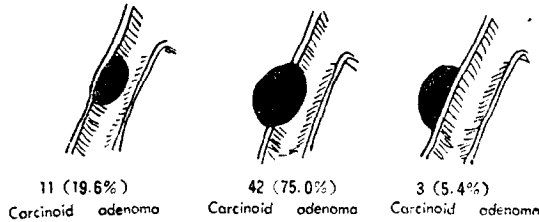
圖 5. Location of Bronchial Adenoma (474 Cases)

에 不過하였다. 또한 各氣管支別 發生頻度順은 右下葉氣管支(20.4%), 左側主氣管支(17.5%), 右側主氣管支

Table 4. Local Growth Pattern of Bronchial Adenoma

	Soutter (1954)	Yamata (1960)
Entirely intra-luminal	11(5 ped-unculated)	4
Intra-and extrabronchial	42	8
Extra-bronchial	3	2
Total	56	14

Entirely intra-luminal Intra-& extra-bronchial Extra-bronchial



(16.4%), 左下葉氣管支(13.7%), 左上葉氣管支(9.7%) 右上葉氣管支(7.2%) 및 右中葉氣管支(7.2%)로 되어 있으며 Rabin에 依하면 末梢性 氣管支腺腫은 全例의 4%에 不過하다고 한다.

氣管支腺腫의 組織學의 分類에 依한 發生頻度는 表 3과 같으며 Carcinoid型이 越等하게 많고 Cylindroma型은 10%內外이고 Muco-epidermoid型이 제일 드문것으로 되어있으나 Verska⁹⁾(1968)의 小兒에서의 發生比率을 보면 2例(13.3%)로써 成人에서 보다는 若干 높은 頻度を 보여주고 있다.

局所의 發育樣式에 依한 比率을 보면 表 4에서와 같이 Soutter¹⁰⁾에 依하면 75.0%에서 氣管支管內外에 걸쳐 發生했다고하며 氣管支管內에만 限局性으로 發生한 例은 19.6%, 管外性 發生은 極히 적으며 5.4%를 차지한다고 한다. 著者例은 左側主氣管支管의 側壁에서 起始하여 管內限局性으로 發生 增大되어 完全히 主氣管支를 閉塞해버려 左側全肺臟의 無氣肺를 招來케한 例이었다.

2. 症 狀

氣管支腺腫의 發生部位가 大概 主氣管支 및 葉氣管支와 같은 比較的 큰 氣管支에 發生하는 수가 많고 또 그 經過가 慢性的이며 二次的 合併症을 同伴하는 경우가 많을뿐 아니라, 腫瘍 그自體가 出血性 傾向을 가지고 있기때문에 特徵的인 症狀를 나타내며 때로는 二次的인 合併症에 依한것이 主症狀으로 나타날 때가있어 이런경우 一次的原因이 蔭蔽되어 誤診되는수가 많다. 氣管支腺腫

Table 5. Main Symptoms in Bronchial Adenoma

	Moersch et al. (86)	Yamata (14)	Verska (21)**
Coughing*	67(78.0%)	6(42.9%)	16(76.2%)
Hemoptysis	49(57.0%)	8(57.2%)	8(38.1%)
Chest pain	48(55.8%)	6(42.9%)	
Fever*	22(25.6%)	3(21.4%)	6(28.6%) (Pneumonia)
Dyspnea	21(24.4%)	4(28.6%)	
Hoarseness	0	3(21.4%)	

* Main symptoms of our case.

** Reported in 16 years of age and younger.

의 主症狀이라고 볼 수 있는것은 咳嗽과 血痰 또는 咯血이며 表 5에서 보면 二次的 合併症에 依해서 나타났을 것으로 보이는 胸痛 및 發熱도 各各 50%內外 및 25%內外에서 볼 수 있다. 著者例에서는 左側肺臟이 完全히 機能이 喪失되었음에도 不拘하고 呼吸困難이 없었고 輕한 咳嗽 및 發熱만을 呼訴한것은 아마도 慢性的인 經過를 取하고 또 無氣肺나 二次感染等은 廣範圍 抗生劑使用에 依하여 症狀이 輕減되었음에 基因된다고 생각된다.

3. 診 斷

a. 單純 胸部 X-線像

胸部 X-線像에서의 特徵은 氣管支腺腫 自體의 陰影과 二次的變화에 依해서 나타나는 異常所見이 있을 수 있는데 Davis에 依하면 全體 孤立性 陰影(Solitary lesion) 1,203例中 氣管支腺腫은 42例에 不過하다고 하며 Friedman⁷⁾ 및 Doty는 氣管支腺腫에 있어서 無氣肺를 나타내는 경우는 2/3 또는 40% 程度라고 各各 報告하고 있다. 또한 山田⁸⁾는 氣管支腺腫의 約 60%에서 閉塞性 肺炎을 이끈다고하며 Heimburger¹¹⁾에 依하면 210例中 約 11%에서 石灰化像을 볼 수 있었다고 한다. 이밖에 閉塞性 肺氣腫을 볼 수 있었다고하는 學者도 있으나 이와 같은 모든 所見은 氣管支腺腫에서 뿐만아니라 다른 많은 肺臟 및 胸部疾患에서도 볼 수 있는 所見들로써 氣管支腺腫의 診斷에 特徵的인것은 못된다. 더욱 中心部에 생긴 氣管支腺腫은 末梢部에 생긴것보다 그 크기가 적으며 發生部位의 解剖學的 位置 關係로 縱隔, 肺門部 陰影과 重複되는 수가 많아 發見이 困難한 경우가 많다.

b. 氣管支造影法 및 胸部斷層攝影

直達鏡에 依한 診斷이 不可能한 第3次 分枝에 發生했을 경우 間接的인 診斷法으로 氣管支造影術이 有力한 것이며 氣管支의 中斷像 혹은 狹窄像을 볼 수 있으며 그 末梢部에는 肺氣腫이나 無氣肺로 되어있는 경우도있다. 斷層攝影에서는 中心型인 경우 氣管支內에 圓形 銳界性

陰影을 보이는 경우가 많으나 補助的인 方法에 不過하다.

c. 喀痰 細胞檢査

氣管支腺腫은 肺癌과는 달리 腫瘍이 粘膜炎으로 덮여있고 普通 粘膜炎上皮가 覆食되어있지 않기때문에 喀痰中이나 氣管支 分泌物中에서 腫瘍細胞를 發見하기 힘들다.

d. 腫瘍穿刺法

Rabin¹⁰⁾에 依하면 末梢性으로 發生하는 경우는 겨우 4%에 不過하며 穿刺가 可能할 程度까지 腫瘍이 크지 않으면 안되며 普通 使用되지 않는다.

e. 氣管支鏡 檢査 및 直達鏡下 生檢法

氣管支腺腫의 大部分은 主氣管支나 葉氣管支와 같은 大氣管支에 發生하는 것으로 氣管支鏡의 容易하게 發見될 수 있다. McDonald & Moersch 등은 78例中 75例(96%), Wiklund 는 70例中 66例(94%), Son 은 23例中 19例(82%), McBurney 는 102例中 90例(88%)에서 各各 氣管支鏡下에서 診斷이 可能하였다고 한다. 그러나 Sato 의 31例中 15例(50%)만이 氣管支鏡下에서 診斷이 可能하였다고 하는데 이것은 末梢氣管支에 發生한 例가 많았기때문인 것으로 說明되고 있다. 著者例에서도 氣管支鏡檢査에서 腺腫의 모양, 크기, 硬度, 起始部等을 仔細하게 觀察할 수 있었으며 生檢을 通하여 確診을 내릴 수 있었은例이다.

f. 試驗開胸術

氣管支腺腫은 一般的으로 良性腫瘍으로 알려져있으나 때로는 核分裂像, 血管侵襲像 및 被膜侵襲像을 同伴할뿐 아니라 所屬淋巴腺 및 周圍臟器 轉移는 勿論 遠隔臟器 轉移도 일으키는 것으로써 腺腫의 疑診이 解消되지 않는限 試驗開胸을 하여 確診을 얻음과 同時에 腫瘍을 切除하는것이 좋을것으로 생각된다.

4. 鑑別診斷

腫瘍自體에 依한 陰影이나 二次的變化에 基因한 廣範한 X-線上 陰影때문에 特히 우리나라와 같은 肺結核症이 많은 곳에서는 肺結核이나 肺炎으로 誤診되는 수가 많고 肺癌, 肺化膿症, 中葉症候群, 無氣肺, 閉塞性肺氣腫等과도 鑑別이 必要하다. 著者例도 約 10個月間 肺炎, 肺結核等으로 誤診받았던것으로, 氣管支鏡 檢査로써 確診된 例이었다.

5. 轉 移

氣管支腺腫은 本來 良性 腫瘍인 것으로 알려져왔으나 近來에는 惡性腫瘍으로 看做하는 學者가 많으며, 所屬 淋巴腺을 비롯해서 遠隔轉移도 相當한 比率에서 일어나고 있음을 報告하고 있다.¹²⁾ 腺腫中에서도 Carcinoid 型과 Muco-epidermoid 型은 比較的 良性으로 알려져있고 Cylindroma 型은 大部分에 있어서 所屬 淋巴腺에 轉移

를 하며 肺臟, 肝, 骨 및 腎轉移를 일으키는 일도 때때로 볼 수 있다고 한다. Hayashi¹¹⁾는 Cylindroma 型에서 兩側肺, 肝右葉, 兩側腎 및 腰椎等に 多發性 轉移例를 報告한 바 있고 Heimbürger⁹⁾는 677例의 Carcinoid 型에서 1.8%의 肝轉移를 볼 수 있었다고 하여¹²⁾ 氣管支腺腫이 惡性腫瘍으로 看做되어야함을 強調하고 있다. 著者例는 가장 良性型으로 알려져있는 Muco-epidermoid 型이며 轉移像은 볼 수 없었다.

6. 治療 및 生存率

治療에 있어서 考慮되어야 할 點은 腫瘍 그自體와 二次的으로 腫瘍때문에 일어난 末梢部 肺臟의 非可逆性 病變인데 過去에는 內視鏡의 腫瘍切除 및 凝固法을 使用해 왔으나 再發例가 많고 또 Radiation 等 非手術的 方法도 試圖되어왔으나 氣管支腺腫은 Cylindroma 型은 若干 感受性이 있으나 其他型은 全혀 感受性이 없는 關係로 外科的으로 肺葉切除나 境遇에 따라서는 全肺切除까지도 施行하는 수가 있다.

著者例도 左側主氣管支에 생긴 腫瘍때문에 左肺 全葉에 걸쳐 非可逆的 囊性變化를 일으켰음으로 左肺切除를 할 수 밖에 없었다. 5年 및 10年生存率은 表6에서와 같이 大差없이 比較的 좋은 成績으로 報告되고 있다.

Table 6. Methods of Treatment and Survival rate

	Wilkins ¹³⁾ (82)	Markel (61)	Moersch (86)
Surgical Treatment Pneumonectomy, Bilobectomy, Lobectomy, Segmental resection, Tracheotomy and Bronchotomy etc.	67(82%)	53(87%)	81(94%)
Non-surgical Treatment* Radiation, Endobronchial Re-implantation	15(18%)	8(13%)	5(6%)
Survival			
5 years survival	75%	95%	79%
10 years survival	70%	91%	75%

*: Radiation has no application in the Carcinoid adenoma or the Muco-epidermoid tumor. It is frequently effective, however, in the Cylindroma.

結 論

1. 最近 4歲 男兒의 左側 主氣管支에 發生한 氣管支腺腫에 對하여 左側肺切除를 한 1治療例를 報告하였다.
2. 現在까지 報告된 最少年齡은 4歲이며 1953年 Berger 는 Carcinoid 型을, 1963年 Scott 는 Cylindroma 型을

各各 報告하였고 著者例는 Muco-epidermoid 型이었다.

REFERENCES

- 1) Heschl, R. : *Wein med. Wchnschr.*, 27:385, 1877. Cited from Tanaka.¹¹⁾
- 2) Moeller, H. : *Zur Entstehungsgeschichte der Bronchialerweiterungen*, *Ermsleben a. H. A. Busch*, 1882. Cited from Tanaka.¹¹⁾
- 3) Kramer, R. & M.L. Som. : *Arch. Otolaryng.*, 29:356, 1939. Cited from Yamata.⁸⁾
- 4) 林周一 : いわゆる 惡性氣管支腺腫について, 胸部外科, 18:10, 1965.
- 5) J. J. Verska : *Bronchial adenomas, in children*, *J. Thoracic & Cardiovas. Surg.*, 55:3, 1968.
- 6) Soutter, Sniffen, & Robbins. : *J. Thorac. Surg.*, 28:412, 1954. Cited from Yamata.⁸⁾
- 7) Friedman. : *Rentgenology of the Chest by coleman.*, Charles Thomas Camp., 1958.
- 8) 山田淳一 : 氣管支腺腫について, 胸部外科, 13:10, 1960.
- 9) I. L. Heimburger : *Peripheral bronchial adenomas*, *J. Thorac. & Cardiovas. Surg.*, 52:4, 1966.
- 10) Rabin, C. & Neuhof, H. : *Surgery*, 18:149, 1949. Cited from Tanaka.¹¹⁾
- 11) 田中勸 : 小兒氣管支腺腫左肺全剔除によす 1治驗例, 16:7, 1963.
- 12) R. J. McConaghie : *The Malignant Carcinoid Syndrome Associated with a Metastasizing Bronchial Adenoma, Report of case*, *J. Thorac. & Cardiovas. Surg.*, 43:3, 1962.
- 13) W. W. Wilkins : *A Continuing Clinical Survey of Adenomas of the Trachea and Bronchus in a General Hospital*, *J. Thorac. & Cardiovas. Surg.*, 46:3, 1963.