

기관지성 낭종

—1례 보고—

고 태 환^{*}·이 종 육^{*}·손 동 섭^{*}·조 대 윤^{*}·양 기 민^{*}·

— Abstract —

Bronchogenic Cyst

— 1 case report —

T.W.Koh, M.D.^{*}, J.W.Lee, M.D.^{*}, D.S.Sohn, M.D.^{*},
D.Y.Cho, M.D.^{*}, K.M.Yang, M.D.^{*}

Bronchogenic cysts are uncommon congenital lesions which are derived from primitive foregut. Most of the bronchogenic cysts may occur at the tracheal bifurcation, both main bronchi, the lung parenchyme and the mediastinum.

We experienced a case of bronchogenic cyst with a esophageal stalk. The diagnosis was made by simple chest x-ray and confirmed by bronchoscopy and chest CT. On the chest CT findings, 6.8×4.8 cm sized oval shaped mass was located on the right posteroinferior side of the carina, elevating the right main bronchus and the thin wall of the mass was enhanced with contrast materials. On the operative findings, the esophagus and the cyst were connected with a stalk and the cyst was filled with mucinous materials. And on the histological findings, the mass was lined with pseudostratified ciliated columnar epithelium.

Thus we report this case of bronchogenic cyst with review of literatures.

서 론

기관지성 낭종은 비교적 드문 질환이나 선천성 낭종 중에서는 비교적 발생빈도가 높은 질환으로 폐조직 내 혹은 종격동 내에서 발견되는 것이 많으나, 식도, 심낭, 횡격막 등에서도 발견되며 심지어는 드문 경우이나 다발성으로 발견되기도 한다.

1678년 Batholinus가 4세된 남아의 좌상엽에 발생한 폐 낭종을 최초로 보고하였으며, 1859년에는

Mayer가 종격동에 발생한 기관지성 낭종을 보고하였다. 그후 기관지성 낭종은 희귀한 질환으로 생각되어 왔으나, 최근들어 진단 방법이 발달하면서 증세가 없는 환자에서도 수술을 시행하는 적극적 치료원칙이 도입된 이래, 진단 및 치료례가 계속 증가하는 추세에 있다. 한국에서도 수 예가 보고되었고 점차 그 빈도가 늘어나고 있다.

본 중앙대학교 흉부외과학 교실에서는 식도 균육총과 연결된 기관지성 낭종 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 이의 제 임상소견을 보고하고자 한다.

* 중앙대학교 의과대학 흉부외과학교실
* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery,
College of Medicine, Chung-Ang University
1989년 5월 30일 접수

증례

환자: 김 ○세 남자, 29세

주소 : 기침 및 객담

현병력 : 입원 15일전부터 기침, 객담이 나타나 약국에서 약을 사 먹었으나 호전되지 않았고 오심, 두통 까지 동반되어 입원함.

과거력 : 특이 질환을 앓은 적은 없이 건강하였으며 호흡이나 음식물 연하에 불편함은 없었다고 함.

이학적 소견 : 환자의 전신상태는 양호하였고 호흡 음의 감소나 변형은 들리지 않았으며 기타 특이소견은 없었다.

검사 소견 : 숨전 일반 혈액검사, 폐기능 검사 및 세포병리 검사 등 검사결과에서 특이 소견은 없었으나, 단순 흉부 X-선 소견으로 우측 폐문에서 종괴가 발견 되었고(Fig. 1). 흉부 컴퓨터 촬영 결과 6.8×4.8 cm



Fig. 1. Preoperative chest PA & LAT; Right hilar mass density but no active lesion in the lung parenchyma.

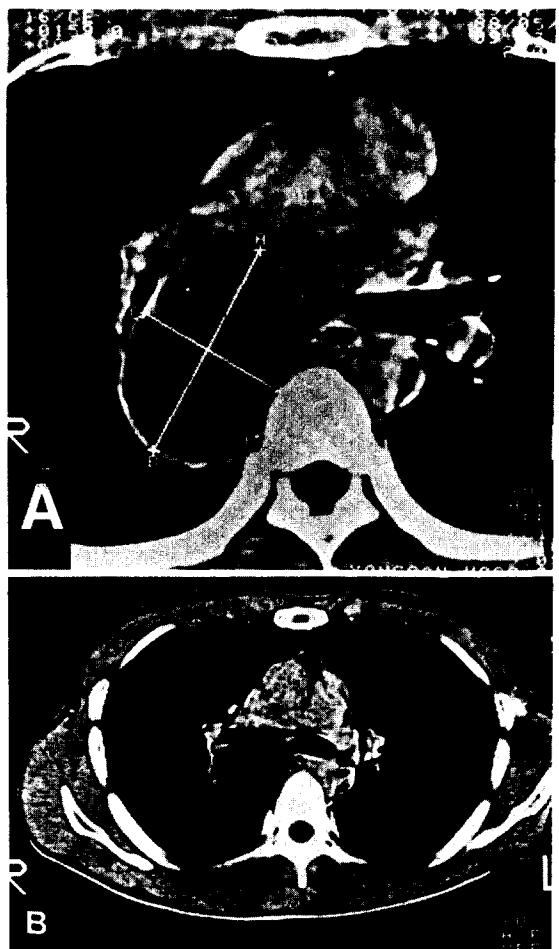


Fig. 2. Preoperative CHEST CT; 6.8×4.8 cm sized oval shaped mass with low density on the right posteroinferior side of the carina (A), elevating the right main bronchus and compressing the right pulmonary artery. Inhomogenous internal texture of the mass with enhancement of the thin wall on the post-enhancement study (B).

cm 크기의 난형, 저음영의 종괴가 기관분지부의 우측 후하방에 있었으며(Fig. 2). 기관지경 검사상 우측 주 기관지의 협착을 발견할 수 있었으나 기관지내 종괴는 없었다.

수술 소견 : 기관지성 낭종이란 진단하에 우측 흉부 후측방 절개로 수술을 시행하였는 바, 크기는 7×8 cm, 벽은 0.2 내지 0.3 cm 두께의 낭종이 식도, 심낭, 기관지와 유착이 되어 있었으나 비교적 쉽게 분리되었고, 기관지와의 연결여부는 확인할 수 없었으나, 식도 외벽과 연결된 조직을 발견할 수 있었다. 낭종

은 갈색의 끈적끈적한 점액질의 액체로 차 있었고, 낭종내 액체의 도말 염색 결과 소수의 그람 양성 및 음성 간균을 발견할 수 있었다.

병리 소견 : 가성 섬모를 가진 원추 상피 세포, 즉 호흡 상피 세포로 낭종의 벽이 이루어져 있었고 임파구의 침윤이 있는 소견을 보였으며, 식도와 연결되는 조직은 식도의 상피 세포로 이루어져 있는 소견을 보였다(Fig. 3).



Fig. 3. Light Microscopic Findings (H-E stain, A $\times 400$, B $\times 100$); The cystic mass was lined by pseudociliated columnar epithelium (A), the wall of the cyst showed focal infiltration of lymphocytes, bronchial glands (B).

고 찰

기관지성 낭종은 희귀한 선천성 질환으로 알려져 있으나 최근 보고되는 빈도가 점차 증가 추세에 있다^{1~5)}. 기관지성 낭종은 보통 양성 낭종이고, 폐실질내 혹은 종격동내에 발생하나 드물게 심낭, 횡격막, 경부, 복부 내에서도 발견된다.

지금까지 알려진 발생기전을 보면, 태생학적으로 원시 전장의 양측에 측막이 생겨서 중심부로 발전하여

앞부분은 기관아가 되고 뒷부분은 식도가 되는데, 이 시기에 원시기관(primitive trachea)의 이상 발아 혹은 원시기관지의 이상 분지로 인하여 기관지성 낭종이 생성되는 것으로 보고되어 있다^{1,6~9)}. 따라서 낭종벽은 기관지 상피세포와 점액선, 연골, 탄력성 조직, 평활근으로 구성되어서 낭종내에서 체액이 분비되어 고일 수 있으며 또한 기관지와 연결이 있을 때는 공기로 차기도 한다.

발생빈도를 보면 기관지성 낭종은 외과적 대상이 될 수 있는 원발성 후종격동 종양중 비교적 발생빈도가 많은 편으로 Gibbon에 의하면 소아에서 종격동 종피의 10 %를 차지한다고 하며, 우측에서 좌측보다 빈발하고 소년에서 소녀보다 빈발한다고 했으며, Blades¹⁾는 원발성 종격동 종양 93예 중 23예, Ringers¹⁰⁾ 등은 155예 중 21예, Abell¹¹⁾ 등은 133예 중 17예, Liebow¹²⁾ 등은 문헌적으로 집계된 356예 중 48예, Oldham¹³⁾ 등은 296예 중 27예, Morrison¹⁴⁾은 29예 중 23예를 보고하여 종격동 종양중 세번째로 흔한 질환으로 비교적 드물지 않은 것을 나타내며, 우리나라에서도 발표되는 빈도수가 늘어나고 있다^{5,15~23)}. 호발부위를 보면 Rogers¹⁰⁾의 보고에 의하면 14예 중 7예가 후종격동에 발생했다고 하였고 Sabiston²⁴⁾ 등에 의하면 대부분의 낭종이 기관지부 후면에서 발생한다고 하였고, Marier²⁵⁾는 기관지성 낭종을 위치에 따라 다음과 같이 분류하였다.

1. 기관군(paratracheal group)
2. 기관분지군(carinal group)
3. 폐문군(hilar group)
4. 식도군(paraesophageal group)
5. 기타(miscellaneous group)

대부분이 폐문군에 속한다고 하였고 크기는 여러 보고에서 작은 것에서부터 거대한 것까지 볼 수 있었다고 했다^{1,21,26)}. 대부분이 단발성이고 다발성 낭종은 드물다고 하나, Abell³⁾은 17예 중 3예, Bingertz²⁾는 21예 중 2예가 다발성이었다고 보고한 바 있다.

임상증상을 보면 대개는 증상없이 지내는 수가 많으나 소아에서는 심한 증상을 나타내는 수도 있다. 증상의 발현 여부는 기관지와의 교통여부에 달려있는 데 기관지와의 교통이 없으며 대부분 무증상으로 흉부 X-선 촬영에서 독립된 폐음영만 나타나나, 때때로 낭종의 크기가 커서 기관지를 압박해서 호흡곤란, wheezing, stridor, 청색증을 유발하기도 한다. Ringertz²⁾는 42 %, Rogers¹⁰⁾는 18 %에서 임상증상이 없었다고

했다. 그러나 임상증상이 있는 경우에는 Rogers¹⁰⁾는 증상에 따라 다음과 같이 분류하였다.

1. 감염증으로 인한 증세, 2. 불명의 객혈, 3. 호흡 곤란 및 청색증, 4. X-선 활영상 이상이 있는 무증상 군

실제로 많은 예에서 기관지와 교통이 있는 데 보통 그 연결부위가 좁아서 분비물이 충분히 밖으로 나가지 못하고 낭종 안에 고이게 되며 그 결과 세균의 좋은 배양 환경을 하게되어 이차적으로 화농성 세균 감염을 초래하여 발열, 기침, 흉통 등을 나타내기도 한다²⁷⁾. 세균감염이 없을지라도 낭종내 출혈은 항상 존재할 수 있어 만일 기관지와의 교통이 있으면 객혈이 가능하다²⁸⁾. 신생아나 영아기에 호흡곤란 및 청색증이 흔히 오는데, 그 이유는 이 시기에는 기관과 기관지가 쉽게 압박될 수 있으며, 낭종과 기관지의 연결이 있는 경우 이것이 ball-valve 역할을 하게 된다. 따라서 낭종이 공기로 팽창하여 주위 폐 조직과 종격동을 압박함으로 호흡곤란 등 증상이 나타나며 이 경우는 응급 수술의 적응이 된다^{10,23,2)}.

진단은 흉부 단순 활영상 경계가 명확한 음영이면서 원형 혹은 난원형의 종피양상이 나타나면 의심을 할 수 있으며²³⁾, Culliner에 의하면 낭종내 air-fluid의 유무에 관계없이 흉부 단순 활영상 경계가 명확한 음영이 있는 곳에 투명역(radiolucent area)을 관찰할 수 있으면 낭종을 진단할 수 있다고 했고, Bucky활영이나 컴퓨터 단층 활영은 낭종의 위치와 여러 종격동 종양을 감별할 수 있으며, 감별질환으로는 Lymphoma, Teratoid tumor, Hamartoma, Mediastinal granuloma, Aortic saccular aneurysm, Primary or metastatic carcinoma, Tuberculous cavity, Pyogenic abscess 등이 있다.

한편, 병리조직학 검사로 확진을 하게 된다. 대부분의 경우 낭벽은 보통 종이 두께로 섬모원주상피로 덮여 있고 점액선, 연골, 결체 조직 및 근육 등으로 이루어져 있으며, 낭종 내에는 점액질로 차 있다^{20,23,25)}.

치료는 최근 개흉술이 안전하게 시행될 수 있고 증세가 있는 경우는 물론, 없는 경우라 할지라도 감염의 위험성 및 낭종의 크기가 커짐에 따른 주위조직의 압박 가능성에 있으며, 또한 악성 가능성도 고려하여 완전 절제가 필요하다^{13,23,26)}.

예후는 매우 좋은 편이다. Greenfield와 Howe³⁰⁾에 의하면 종격동에 발생한 기관지성 낭종이 악성화한 보고는 없다고 하며 기관지성 낭종의 벽에 발생한 기관

선종의 1례를 보고하였다. 또한 Maier²⁵⁾에 의하면 수술받은 8명중 7명은 술후 양호한 상태를 보였고 1명만이 심장 문제가 있었으나 digitalization으로 곧 양호한 상태를 보였다고 하며, Salyer³¹⁾는 술후 추적 조사 결과 35명 전환자에서 좋은 예후를 얻었다고 보고하였다.

결 론

본 중앙 대학교 의과대학 흉부외과학 교실에서는 식도 근육층과 연결된 후종격동에 발생한 기관지성 낭종 1례를 수술 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Blades, B: *Mediastinal tumors*. Ann Surg 123:749, 1946
2. Ringertz, N and Lidholm, SO: *Mediastinal tumors and cysts*. J Thorac Surg 31:458, 1956
3. Abell, MR: *Mediastinal cysts*. Arch Pathol 16:360, 1956
4. Morrison, IM: *Tumors and cysts of the mediastinum*. Thorax 13:294, 1958
5. 서경필, 하규식, 주동윤, 이영균: 기관지성 낭종(1 예보고). 대한 흉부외과학회지 2:13, 1970
6. Laippy, TC: *Cysts and cystic tumors of the mediastinum*. Arch Pathol 39:153, 1945
7. Healy, R: *Bronchogenic cyst*. Radiology 57:2000, 1951
8. Culliner, MM and Grimes, OF: *Localized emphysema in association with bronchogenic cysts and mucocele*. J Thorac Cardiovasc Surg 41:306, 1961
9. Breckenridge, RL, Rehmann, RL and Gibson, ET: *Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung*. J Pediatr 67:863, 1965
10. Rogers, LF and Osmer, JC: *Bronchogenic cyst, A review of 46 cases*. Am J Roentgenol 91:273, 1964
11. Abell, MR: *Mediastinal cysts*. Arch Pathol 61:360-371, 1956
12. Liebow, AA: *Thoracic surgery and related pathology*. New York, Appleton-Century-Crofts, 1953
13. Gibbon, JH et al: *Surgery of the chest*. 4th ed, Philadelphia, Saunder, 1983
14. Morrison, IM: *Tumors and cysts of the*

- mediastinum. Thorax* 13:294, 1958
- 15. 이세순, 홍승록, 서상현, 김광수, 윤태연, 홍필훈 : 폐낭종. 대한흉부외과학회지 1:5, 1968
 - 16. 조중행, 이영, 노준량, 이영균 : 기관지성 낭종 4예 수술보고. 대한흉부외과학회지 5:35, 1972
 - 17. 김형목, 김영철, 최인환 : 기관지성 낭종(2예수술보고). 대한흉부외과학회지 7:9, 1974
 - 18. 김종원, 조광현, 김희윤 : Aberrant hypoplastic lung tissue에서 발생한 bronchogenic cyst. 대한흉부외과학회지 8:13, 1975
 - 19. 이종배, 김근호, 김춘원, 김기홍 : 식도에 발생한 기관지성 낭종 치험예. 대한흉부외과학회지 9:69, 1976
 - 20. 곽상룡, 홍기우, 김주현, 이정빈 : 기관지성 낭종 3예보고. 대한흉부외과학회지 11:476, 1978
 - 21. 손광현, 주동운, 이남수 : 누두흉을 동반한 선천성 기관지성 낭종(1치험예). 대한흉부외과학회지 11: 246, 1978
 - 22. 임승평, 노준량, 김종환, 서경필, 이영균 : 폐부엽에 발생한 기관지성 낭종(1예보고). 대한흉부외과학회지 12:9, 1979
 - 23. 손동섭, 오상준, 이홍섭, 강정호, 김삼현, 김창호 : 기관지성 낭종 2예 치험보고. 대한흉부외과학회지 18:800, 1985
 - 24. Sabiston, DC: *Mediastinal tumors. Ann Surg* 136:777, 1952
 - 25. Maier, HC: *Bronchogenic cysts of the mediastinum. Ann Surg* 127:479, 1957
 - 26. Eckel: *Treatment of cancer and allied disease. Vol V. 2nd ed.* p.78-479.
 - 27. 서경필, 이영균 : 기관지성 낭종에 대하여. 최신의학 13:794, 1970
 - 28. 임승평, 노준호, 김종환, 서경필, 이영균 : 폐부엽에 발생한 기관지성 낭종. 대한흉부외과학회지 12:9, 1979
 - 29. Minis, JF Jr.: *Congenital cystic disease of the lung in infancy. J Thorac Cardiovasc Surg* 43:262, 1962
 - 30. Greenfield LJ and Howe JS: *Bronchial adenoma within the wall of a bronchogenic cyst. J Thorac Cardiovasc Surg* 49:398, 1965
 - 31. Salyer, DC, Salyer, WR. and Eggleston JC: *Benign developmental cysts of the mediastinum. Arch Pathol* 101:136-139, 1977