

폐의 용모상피암 1예

□ 이달의 X선 □

¹연세대학교 의과대학 내과학교실, ²폐질환연구소, ³병리학교실

박세미¹, 양우인¹, 문지애¹, 변민광^{1,2}, 정우영^{1,2}, 최상봉^{1,2}, 정재희^{1,2}, 강신명^{1,2}, 박무석^{1,2}, 김영삼^{1,2}, 장 준^{1,2}, 조남훈³, 조상호³, 김성규^{1,2}, 김세규^{1,2}

A Case of Pulmonary Choriocarcinoma

Semi Park, M.D.¹, Woo In Yang, M.D.¹, Ji Ae Moon, M.D.¹, Min Kwang Byun, M.D.^{1,2}, Woo Young Chung, M.D.^{1,2}, Sang Bong Choi, M.D.^{1,2}, Jae Hee Chung, M.D.^{1,2}, Shin Myung Kang, M.D.^{1,2}, Moo Suk Park, M.D.^{1,2}, Young Sam Kim, M.D.^{1,2}, Joon Chang, M.D.^{1,2}, Nam Hoon Cho, M.D.³, Sang Ho Cho, M.D.³, Sung Kyu Kim, M.D.^{1,2}, Se Kyu Kim, M.D.^{1,2}

¹Department of Internal Medicine, ²The Institute of Chest Diseases, ³Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Pulmonary choriocarcinoma is a very rare tumor in men.

Herrein, the case of a pulmonary choriocarcinoma in 39-year-old man, and whether it had a primary nature, is reported. He denied any prior medical illness, but was admitted to our hospital with a history of a cough, and progressive dyspnea and hemoptysis 2 and 1 week duration, respectively. Chest radiographs on admission revealed a huge lung mass, 10 cm in diameter, in the left upper lung field, with left pleural effusion. Although biopsies using several diagnostic methods for the pathological confirmation were attempted, the pathology was not confirmed. Finally, the patient died after 2 months of regression. An autopsy of the lung was then performed. (*Tuberc Respir Dis 2007; 62: 237-240*)

Key Words: Choriocarcinoma, Lung, Men.

서 론

용모상피암(choriocarcinoma)은 주로 여성에서 발생하며, 남성에서는 고환종(seminoma), 기형종(teratoma), 태생암(embryonal carcinoma) 등의 종양과 함께 고환에 발생할 수 있으나 폐에 원발성으로 발생하는 경우는 매우 드물다.

저자들은 39세 남자 환자에서 부검을 통해 폐의 용모상피암종을 확인하였으나 고환 및 성선 부위의 암종 존재 유무를 확인하지 못하여 원발성인지 혹은 전이성인지를 구분하지 못한 폐의 종양 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 정O수, 남자, 39세

Address for correspondence: **Se Kyu Kim, M.D.**
Department of Internal Medicine, Yonsei University College of Medicine, 134 Shinchon-dong, eodaemun-ku, Seoul, 120-752, Korea.
Phone: 82-2-2228-1954, Fax: 82-2-393-6884,
E-mail: sekyukim@yumc.yonsei.ac.kr
Received: Nov. 29. 2006
Accepted: Dec. 28. 2006

주 소: 기침, 점차 악화되는 운동성 호흡곤란 및 혈담
현병력: 2주전부터 시작된 기침과 점차 악화되는 운동성 호흡곤란, 1주전부터의 혈담을 주소로 개인병원 내원하여 촬영한 흉부 X-선 사진상 폐의 거대한 종양 소견을 보여 본원으로 전원 되었다.

과거력: 특이 사항 없음.

개인력: 20갑년의 흡연력 있음.

사회력: 건설회사 직원

신체검사: 내원 당시 혈압은 120/80 mmHg, 호흡수는 분당 20회, 맥박은 분당 80회, 체온은 37.0°C이었다. 의식은 명료하였고 비교적 건강해 보였으며, 흉부 청진상 좌측 전폐야에서 호흡음이 감소하였고, 수포음이나 천명음은 청진되지 않았다. 심음은 규칙적이었으며, 심잡음은 없었다. 약간의 양측 가슴비대증이 있었으며, 음낭의 정도의 부종이 관찰되었으나 신체 검사상 뚜렷한 종괴는 촉진되지 않았다. 그 외 특이소견은 없었다.

검사실소견: 말초혈액검사상 백혈구는 14080/uL (호중구 80.0%, 림프구 10.7%, 단핵구 4.8%), 혈색소 14.7 g/dl, 헤마토크릿 42.2%, 혈소판수 314000/mm³이었다. 혈청 생화학 검사상 LDH 1077 IU/L, 혈청 종양표지자 CYFRA-21 19.72 ng/ml 로 증가된 것 이외



Figure 1. Chest PA, Huge lung mass in left upper lobe

에는 모두 정상 범주이었고, β -hCG (β -human chorionic gonadotropin) 검사는 시행하지 못하였다. 소변 검사상 3 양성 혈뇨 소견을 보였다. 폐기능 검사 소견상 노력성 폐활량 (FVC) 2.69L (예측치의 57%), 1초간 노력성호기량 (FEV₁) 2.19L (예측치의 60%), FEV₁/FVC 81%이었다.

방사선 소견: 단순 흉부 X-선 촬영상 좌측 상부 폐야에 직경 10 cm의 거대한 폐 종괴가 관찰되었고, 좌측 흉막액 소견을 보였다(Figure 1). 흉부 전산화단층 촬영상 좌상엽에 10x6 cm 의 종양이 관찰되었고, 좌하엽의 내측 흉막하 부분에 또 하나의 4.4x3.4 cm 크기의 종양이 보였다. 각각의 종양의 변연부는 조영 증강 소견을 보였으나 중심부는 조영 감소되어 괴사에 합당한 소견을 보였고, 두 종양의 성상은 동일한 것으로 생각되었다. 방사선 소견상 병기 4기(T4N1M1)의 폐암이 의심되었다(Figure 2).

기관지내시경 검사와 폐 생검, 늑막조직검사 소견: 기관지내시경검사 소견상 전반적인 기관지 점막의 이상 소견은 관찰되지 않았고, 좌상엽 기관지 입구가 외부에서의 압박에 의해 50% 이상 좁아져 있어서 조직 감자를 기관지내로 삽입하여 조직 생검을 시행하였으



Figure 2. Chest CT, A 10x6 cm sized large mass is noted on the left upper lobe paramediastinal area. The mass contiguously invades mediastinum and contacting the aortic arch. Another 4.4x3.4 cm mass is noted at the left lower lobe medial subpleural area.

나 병리조직검사 결과 확진되지 않았다. 이후 경피적 폐 생검(gun biopsy)을 시행하였으나 역시 확진되지 않았고, 흉막조직검사 및 흉막 삼출액 세포 병리검사에서도 확진되지 않았다. 확진을 위해 환자에게 흉강경을 통한 조직검사(thoracoscopic biopsy)를 권유하였으나 환자는 이를 거절하고 자의 퇴원하였다. 1개월 후, 환자는 호흡곤란이 더욱 심해져서 본원 응급실로 다시 내원하였고 이 때 촬영한 흉부 X-선 사진상 종양의 크기는 더욱 커졌으며, 급성 호흡곤란증후군이 발생하여 인공호흡기 치료를 하였으나 임상적으로 호전 없이 급격히 악화되어 입원 2주 후 사망하였다. 가족들과 상의하여 사망 후 폐 부검을 시행하였다.

병리학적 소견: 저배율 소견상 다수의 합포체 영양막세포(syncytiotrophoblast)와 다량의 괴사 및 출혈을 동반하여 혼합된 영양막세포(cytotrophoblast)가 창문모양의 판(fenestrated sheets) 모양을 나타내었고, 고배율 소견에서는 중앙부에 영양막세포가 위치하였고 합포체 영양막세포의 불규칙한 군집이 주변을 둘러싸고 있었다(Figure 3-1, 3-2, 3-3). 이상의 결과를 종합하여 용모상피암(choriocarcinoma)으로 진단



Figure 3-1. Gross pathology, multiple lung masses are scattered in entire lung

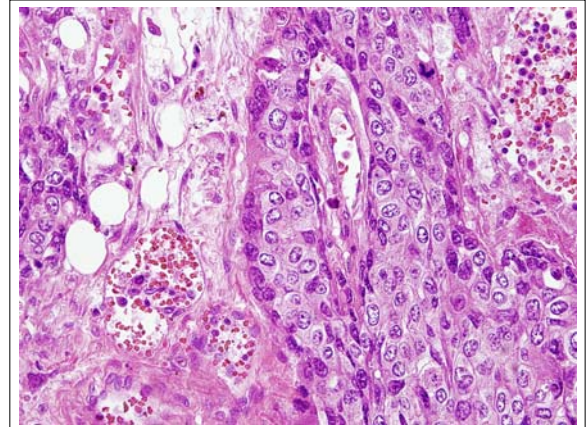


Figure 3-3. Cytotrophoblastic cells situated centrally and surrounded by irregular collection of syncytiotrophoblastic cells (x200, H & E stains)

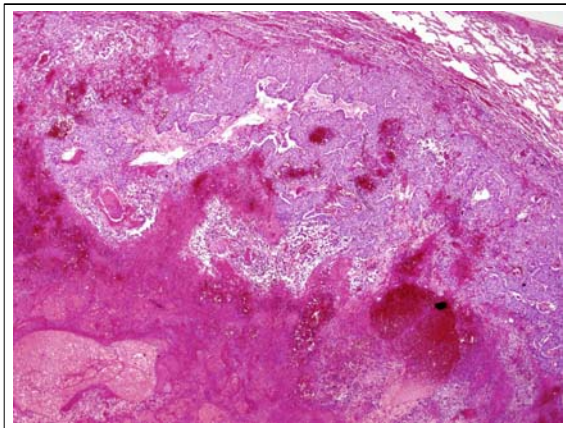


Figure 3-2. Fenestrated sheets of cytotrophoblast mixed with numerous syncytiotrophoblasts and extensive hemorrhage and necrosis (x12, H & E stains)

하였다.

고 찰

융모상피암은 hCG(human chorionic gonadotropin)를 생성하는 종양으로서 주로 임신, 유산, 자궁 외 임신, 몰(hydatidiform moles) 등의 산과적인 문제를 겪은 여성의 생식기관에서 주로 발생한다¹. 드물게는 이러한 과거력 없이 남성에서도 고환종(seminoma), 기형종(teratoma), 태생암(embryonal carcinoma) 등의 종양과 함께 고환에 발생함으로써

발병할 수 있다². 융모상피암은 종종 원발 병소보다 전이된 곳에서 종양이 먼저 발견되는 경우가 있고, 폐에서 원발성으로 발생하는 경우는 매우 드물며, 그 예후는 매우 불량하다^{3,4}.

국내에서는 폐의 원발성 융모상피암은 3예가 보고되었고, 국외에서는 23예가 보고되었다⁵⁻⁸.

폐에서 융모상피암이 원발로 발병될 가능성은 매우 낮으나, 그 이전에 대해서는 몇 가지 가설이 제시되고 있다. 일부 저자들은 남아있는 원시생식세포(primitive germ cells)가 발생 과정 중에 비정상적으로 이동하여 폐에서 종양이 발생할 수 있다고 하며, 또 다른 저자들은 원발성 생식세포 종양으로부터 폐 전이가 이루어진 다음에 원발 종양은 자연적으로 퇴화한다는 가설도 제시하고 있다. 또한 영양배엽성 색전(trophoblastic emboli) 으로부터 종양이 발병하거나 비생식세포에서 영양배엽으로 역분화 혹은 화생(metaplasia) 되어 폐에서 융모상피암이 발생한다는 가설도 제시되고 있다^{9,10}.

본 증례의 39세 남환은 기침, 호흡곤란, 객혈 등의 호흡기 증상으로 발견된 거대한 폐 종양을 주소로 내원하였고, 20갑년의 흡연자로서 폐암이 강력하게 의심되었다. 이를 확진하기 위해 기관지내시경 검사, 경피적 폐 생검(gun biopsy), 흉막 조직검사 등 다양한 방법의 조직검사를 시행하였으나 모든 경우에서 확진을 하지 못하였다. 확진을 위해 환자에게 흉강경을 통

한 조직검사(thoracoscopic biopsy)를 권유하였으나 거절하고 자의 퇴원하였다. 1개월 후, 환자는 호흡곤란이 더욱 심해져서 본원 응급실로 다시 내원하여 촬영한 흉부 X-선 사진상 종양의 크기는 더욱 커졌으며, 급성 호흡곤란증후군이 발생하여 인공호흡기 치료를 하였으나 임상적으로 호전 없이 급격히 악화되어 입원 2주 후 사망하였다. 가족들과 상의하여 사망 후 폐 부검을 시행하였고 용모상피암으로 진단되었다. 그러나 환자 사망 전에 남자에서의 용모상피암 가능성을 의심하지 못하여 혈청 및 소변에서 β -hCG 등의 종양표지자 검사를 시행하지 못하였고, 고환 등의 생식선에 대한 정밀 검사가 이루어지지 못하였다. 또한 환자는 사후 폐에 대해서만 부분적으로 부검이 진행되었고, 고환 등의 생식선에 대한 부검을 시행하지 않아서 환자의 용모상피암이 폐에서 원발한 종양인지 아니면 생식선에서 발병하여 폐 전이가 이루어진 것인지에 대해서는 결론을 내릴 수 없었다.

그러나, 이러한 임상 양상의 환자가 폐암이 아니라 남자에서는 드문 용모상피암이 폐에서 발병하여 진단될 수 있음을 염두에 두어야 할 것으로 생각된다.

요 약

저자들은 39세 남자 환자에서 부검을 통해 폐의 용모상피암종을 확인하였으나 고환과 같은 생식선 또는 성선 이외(extragonad) 부위에서의 암종 존재 유무를 확인하지 못하여 원발성인지 혹은 전이성인지를 구분하지 못한 폐의 용모상피암 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Chen F, Tatsumi A, Numoto S. Combined choriocarcinoma and adenocarcinoma of the lung occurring in a man: case report and review of the

- literature. *Cancer* 2001;91:123-9.
2. Arslanian A, Pischedda F, Filosso PL, Di Marzio P, Oliaro A, Fraire F, et al. Primary choriocarcinoma of the lung. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2003;125:193-6.
3. Rossi G, Valli R, Rivasi F, Longo L. Does primary pulmonary choriocarcinoma really exist? *Chest* 2003;123:313.
4. Ikura Y, Inoue T, Tsukuda H, Yamamoto T, Ueda M, Kobayashi Y. Primary choriocarcinoma and human chorionic gonadotrophin-producing giant cell carcinoma of the lung: are they independent entities? *Histopathology* 2000;36:17-25.
5. Rhee YK, Kim JH, Kim WH, Ha CY, You KH, Jang DS. Primary choriocarcinoma of the lung. *Kor J Intern Med* 1987;2:269-73.
6. Ko KS, Bae IH, Cho IS, Rhee KJ, Kim SY. A case of primary choriocarcinoma of the lung. *Kor J Med* 1990;39:569-75.
7. Chang SW, Park JO, Lee KY, Lee WA, Ryu JW, Park SS, et al. Rapidly progressed primary choriocarcinoma of the lung. *Kor J Thorac Cardiovasc Surg* 2004;37:805-8.
8. Yamamoto S, Tanaka H, Takeo H, Yasuda K, Mastukuma S. Primary pulmonary choriocarcinoma combined with adenocarcinoma. *Pathol Int* 2006;56:402-7.
9. Tsai JR, Chong IW, Hung JY, Tsai KB. Use of urine pregnancy test for rapid diagnosis of primary pulmonary choriocarcinoma in a man. *Chest* 2002;121:996-8.
10. Ino K, Mitsui T, Nomura S, Kikkawa F, Mizutani S. Complete remission of gestational choriocarcinoma with choroidal metastasis treated with systemic chemotherapy alone: case report and review of literature. *Gynecol Oncol* 2001;83:601-4.
11. Okur E, Halezeroglu S, Somay A, Atasalihi A. Unusual intrathoracic location of a primary germ cell tumour. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002;22:651-3.
12. Balagopal P, Pandey M, Chandramohan K, Somanathan T, Kumar A. Unusual presentation of choriocarcinoma. *World J Surg Oncol* 2003;1:4.
13. Shintaku M, Hwang MH, Amitani R. Primary choriocarcinoma of the lung manifesting as diffuse alveolar hemorrhage. *Arch Pathol Lab Med* 2006;130:540-3.