

경성 기관지내시경을 이용한 기관지내 과오종 치험 1예

순천향대학교 의과대학 부천병원 이비인후과학교실,* 영상의학과학교실,** 병리학교실***
김기현* · 홍현숙** · 고은석*** · 고윤우*

= Abstract =

A Case of Endobronchial Hamartoma Treated with Rigid Bronchoscopy

Ki Hyun Kim, M.D.,* Hyun Suk Hong, M.D.,** Eun Suk Koh, M.D.,*** Yoon Woo Koh, M.D.*

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery,* Radiology,** Pathology,***
Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon Hospital, Bucheon, Korea

Hamartoma is one of the most common benign lung tumors. Most of them are located in the lung parenchyme, but very rarely it can originate endobronchially. Endobronchial hamartoma may cause irreversible lung damage due to the bronchial obstruction if it is not diagnosed and treated properly. The most frequent clinical features are hemoptysis and obstructive pneumonia. Transbronchial endoscopic surgery is a good therapeutic choice and is recommended first for patients who have resectable small endobronchial hamartoma. Here, we report a case of endobronchial hamartoma treated with rigid bronchoscopy and various microforceps with a review of the literature.

KEY WORDS : Endobronchial hamartoma · Rigid bronchoscopy.

서 론

과오종(Hamartoma)은 어떤 특정한 장기에서 그 장기를 구성하고 있는 성분들의 부분적인 발육이상으로 발생하는 양성 종양으로 주로 폐 및 간에서 발견된다¹⁾. 폐 과오종(lung hamartoma)은 폐의 양성종양 중 가장 흔하여 약 77%에 달하며, 전체 폐종양 중에서는 약 8%를 차지하고, 부검시 0.025~0.32%에서 발견된다²⁾. 폐 과오종은 대부분 폐의 가장자리에서 발생하는데 기관지내에 발생하는 경우는 전체 폐 과오종의 1.4~20%까지 다양하게 보고되고 있다³⁾.

임상증상은 종양의 위치와 크기에 따라 다르게 발현되는데 기관지내 과오종(endobronchial hamartoma)은 주로 기관지 폐쇄로 인한 이차적인 증상으로 내원하게 된다.

치료는 환자의 나이, 종양의 크기와 성장속도 등을 고려하여 치료방침을 결정하게 되는데, 주로 호흡기계 증상이

있는 경우와 악성 종양의 가능성을 배제할 수 없는 경우에 수술의 적응증이 된다²⁾. 수술은 정상 폐조직을 가능한 보존하면서 종양을 절제하는 것이 중요한데, 특히 크기가 작은 기관지내 과오종의 경우 연성 기관지내시경이나 경성 기관지내시경을 이용하여 폐조직에 손상을 주지 않고 치료한 증례가 최근 보고되고 있으나 기관지내경을 완전히 폐쇄하는 정도의 큰 종물에 대해서 시행한 예는 매우 드물게 보고되고 있다.³⁻⁶⁾

저자들은 좌측 주기관지 내에 발생하여 기관지내경을 완전히 폐쇄하고 있는 종물을 주변 폐조직 및 기관지 점막의 손상 없이 경성 기관지내시경을 이용하여 제거한 후 조직 검사에서 기관지내 과오종으로 진단된 1예를 치험 하였고 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

43세 남자가 1년 전부터 시작된 기침, 호흡곤란, 화농성 객담, 열감으로 타병원 외래 통원치료 및 수차례 입원치료를 받아오다가 증상의 호전 없어 시행한 흉부 전산화단층촬영에서 좌측 주기관지내의 종양 진단하에 본원 호흡기내과

교신저자 : 고윤우, 420-021 경기도 부천시 원미구 중동 1174
순천향대학교 의과대학 부천병원 이비인후과학교실
전화 : (032) 621-5438, 5015 · 전송 : (032) 621-5016
E-mail : ywkohent@schbc.ac.kr

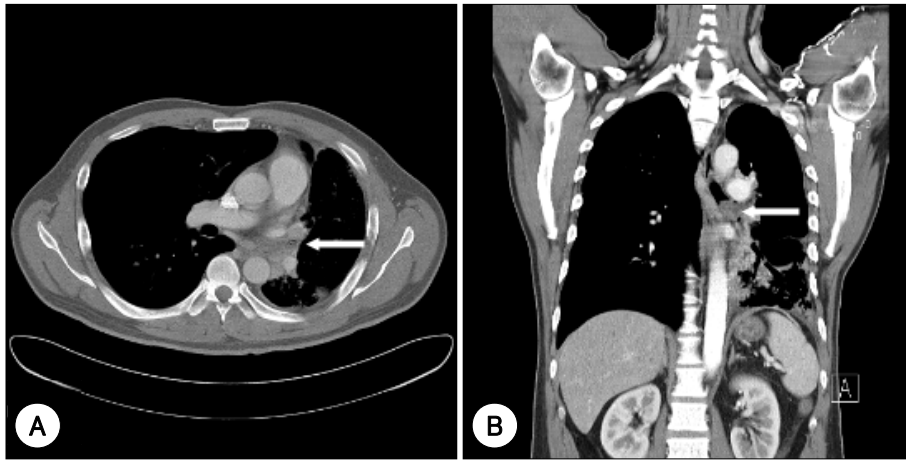


Fig. 1. Preoperative chest CT scan shows a low-attenuation endobronchial mass obstructing left main bronchus(arrow) . Note that atelectatic left lower lobe contains the consolidation and ill defined centrilobular nodules (A & B) .

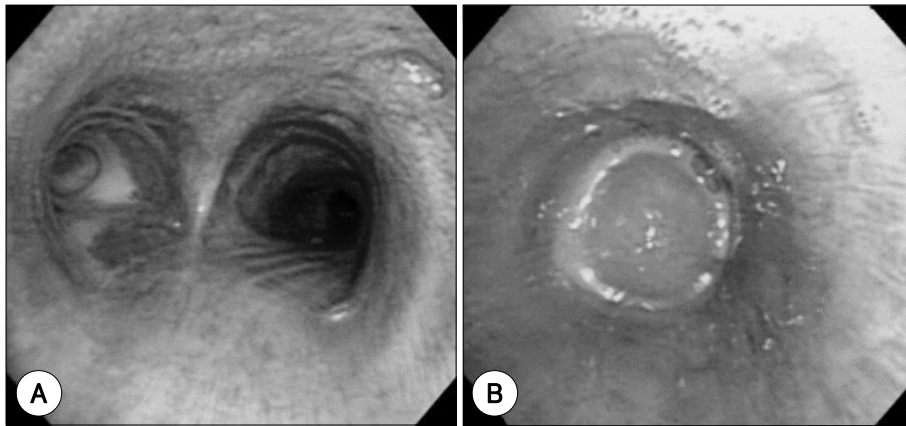


Fig. 2. Preoperative bronchoscopic findings. A : Note that left main bronchus was filled with purulent secretions in comparison with right side main bronchus at the level of carina. B : Complete obstruction of the left main bronchus by the glistening gray-colored tumor is noted.

외래 경유하여 입원하였다. 내원당시 문진소견에서 기침, 호흡곤란, 객담 등을 호소하였고, 청진에서는 좌측폐하의 호흡음 감소 및 수포음이 있었으며, 말초 혈액 검사는 백혈구가 $22,000/\text{mm}^3$ 로 증가되어 있었다. 폐기능 검사에서는 FEV1 2.3L, FVC 2.7L로 감소된 소견을 보였다.

방사선학적 소견으로는 단순흉부 X-선 촬영에서 좌하엽에 무기폐 및 폐 침윤 등의 폐쇄성 폐렴 양상이 관찰되었다. 흉부 전산화단층촬영에서는 좌측 주기관지 내에 저음영의 종양이 관찰되었고, 좌상엽의 일부분과 좌하엽에 국소성 고형질화와 경계가 명확하지 않은 다발성 결절들이 관찰되었다(Fig. 1). 호흡기내과에서 시행한 연성 기관지내시경 검사에서 기관분기부에서 약 2cm 떨어진 곳의 좌측 주기관지에 회백색의 연성 종물로 인한 폐쇄 소견이 관찰되어 조직검사를 시행하였으나 충분한 검체를 얻지 못하였고, 종물의 크기가 기관지내경을 완전히 폐쇄시킬 정도로 커서 종물의 제거 역시 불가능하였다(Fig. 2). 기관지내 종물의 적출 및 조직검사 위해 본과로 전과되어 전신마취 하에 시행한 경성 기관지내시경에서 좌측 주기관지내경을 완전히 폐쇄하고 있

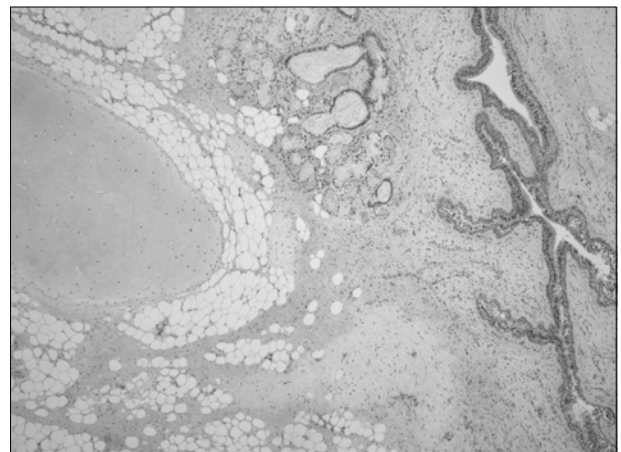


Fig. 3. Pathologic finding. Components shown in detail are mature cartilage, cleft-like space lining by respiratory epithelium, mucus and serous glands, mature adipose tissues and spindle cell mesenchymal stroma (H & E, $\times 40$).

는 회백색의 연성 종물이 관찰되었으며 이를 다양한 기관지내시경용 검자를 이용하여 여러 번에 걸쳐 제거하였다. 이때 기관지점막의 손상 및 파열 등에 주의하며 조심스럽게

고 찰

종물을 제거하였고 수술 중 과도한 출혈은 없었으며 에피네프린을 점적한 숨을 이용하여 지혈을 시도하였다. 술 후 조직병리소견에서 성숙한 연골조직, 호흡상피로 피복된 틈새 공간, 점액 및 장액선, 지방조직과 방추형 중간엽세포 등 다양한 조직소견이 관찰되었으며 이는 기관지내 과오종에 합당한 소견이었다(Fig. 3).

환자는 기관지내 종물 적출술 시행 후 8일째 퇴원하였고 술 후 1개월째 흉부 전산화단층촬영을, 술 후 3개월째 연성 기관지내시경과 폐기능 검사를 시행하였다. 흉부 전산화단층촬영에서 좌측 주기관지내의 종물은 완전히 제거된 상태였고 좌하엽에서 관찰되던 고형질화와 무기폐 양상도 대부분 호전된 소견을 보였다(Fig. 4). 연성 기관지내시경에서도 좌측 주기관지내의 종물이 완전히 제거된 상태로 그 하방의 기관지분지들이 용이하게 관찰되었고 술 후 기관지 협착소견도 없었다(Fig. 5). 폐기능 검사에서도 FEV1 4.36L, FVC 3.52L로 정상에 가깝게 회복된 수치를 보였다. 현재 술 후 9개월째 증상의 재발소견 없이 호흡기내과로 추적관찰 중에 있다.

과오종은 1845년 Lebert에 의해 처음 연골종(chondroma)으로 소개되기 시작하여 1904년 Albrecht에 의해 이의 명칭 및 정의가 내려지게 되었다. 당시 과오종은 한 장기에서 정상적으로 존재하는 성분이 비정상적으로 배합되어 생기는 종양과 같은 기형이라 하였고 이러한 이상은 조직의 양, 배열, 분화 정도에 따라 다양한 형태를 보이며 간, 비장, 유방 및 폐 등 다른 장기에서도 발생할 수 있다고 하였다. 1906년 폐실질내에서 상피 및 연골성분으로 구성된 폐내 과오종이 처음 보고되었고⁷⁾, 이러한 폐 과오종의 발생기전이 선천성 발육 이상의 결과에 기인하다기 보다는 기관지 주위의 결체조직에서 발생한다고 주장하였다⁸⁾.

폐 과오종은 성인형과 유아형의 두 가지로 분류되는데, 전자는 비교적 작고 경계가 분명한 반면, 후자는 전체엽 또는 전체를 점유하는 미만성의 종양이다³⁾. 또한 발생부위에 따라 기관지내 과오종과 폐실질내 과오종으로 분류할 수 있는데,

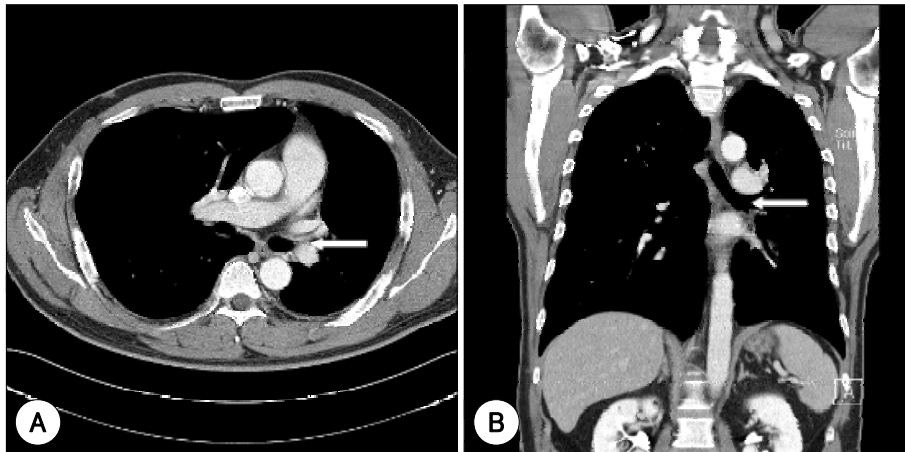


Fig. 4. Postoperative chest CT scan. Note that endobronchial mass was completely removed in left main bronchus (arrows) and previous atelectasis of lung parenchyma was resolved (A & B).

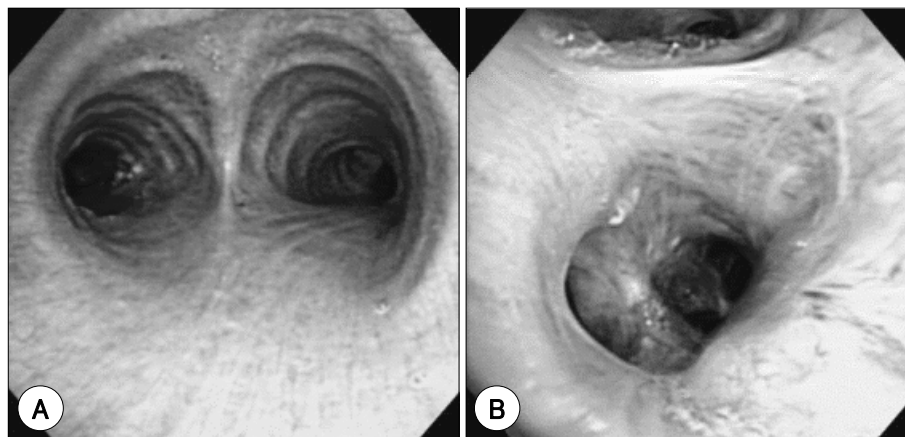


Fig. 5. Postoperative bronchoscopic findings. A : Note that previous purulent secretions in left main bronchus disappeared at the level of carina. B : Note that left lower bronchus was clearly visualized with complete removal of endobronchial mass in left main bronchus.

후자가 전체 폐과오종의 대부분을 차지하고 있고 기관지내 과오종의 경우는 매우 드물어 국내에서도 간혹 보고되고 있는 실정이다³⁻⁵⁾.

폐 과오종의 발생빈도는 폐에서 발생하는 양성 중앙 중 가장 흔하지만 폐 전체의 중앙 중에는 비교적 빈도가 낮은 질환으로, 호발연령은 50~60세이며 남자에서 2~3배 더 많이 발생한다³⁾.

폐실질내 과오종은 대개 무증상으로 우연히 단순흉부 X-선 촬영에서 고립성 폐결절의 양상으로 발견되지만, 기관지내 과오종은 기관지 폐쇄로 인한 기관지확장, 무기폐, 폐렴 등에 의한 이차적인 증상으로 병원을 찾게 되는데 흔한 증상은 주로 기침(84.4%), 객혈(34.4%), 발열(25%), 호흡곤란(18.8%)과 흉통(18.8%) 순이다⁹⁾. 본 증례의 경우에도 좌하엽 무기폐로 인한 기침, 호흡곤란, 화농성 객담, 발열 등의 증상이 있었다.

기관지내 과오종의 단순흉부 X-선 소견은 무기폐(50%)가 가장 많았으며 폐 침윤(38.5%), 폐문 종괴(19.2%) 순이었다⁹⁾. 또한 고해상도 흉부 전산화단층촬영에서는 폐 과오종의 직경이 2.5cm 이하의 매끈한 경계를 가지며, 지방과 석회화 병변이 함께 관찰된다고 하였다¹⁰⁾. 연성 기관지내시경은 기관지내 과오종 진단에 가장 유용한 검사로서 종물의 색깔은 노란색 또는 노란 회색으로 보이며 표면은 평탄하고 그 모양은 용종, 혹은 육경(pedunculated) 모양이라고 하나, 육안적으로 폐암과 구별이 힘들고 표면이 딱딱하여 충분한 조직을 얻지 못하기 때문에 수술 전 확진되는 경우는 드물고 대부분의 경우 수술 후 진단이 내려진다고 한다¹¹⁾. 본 증례의 경우도 수술 전 연성 기관지내시경을 시행하여 조직검사를 시행하였으나 불충분한 검체로 인해 진단이 내려지지 않아 본과로 협진의뢰된 경우였으며 본 증례의 수술 전 연성 기관지내시경 소견도 기존의 보고와 거의 유사하였다.

기관지내 과오종의 발생부위는 좌측이 54.5%, 우측이 45.5%이고 좌하엽기관지에 가장 많이 발생한다고 보고되고 있다¹⁾.

조직병리소견은 대부분이 연골성분으로 구성되어 있으며 드물게는 연골성분이 점액성 간질과 지방조직 내에서 점차 쇠퇴하면서 연골점액성 조직의 아주 작은 섬(island) 모양으로 나타나기도 하고, 연골조직 내에 가끔 석회화, 골화 및 골수성분도 있을 수 있으며 방추형 세포가 연골세포로 이행하는 것도 관찰될 수 있다¹¹⁾¹²⁾. 본 증례의 경우에도 조직병리소견에서 성숙한 연골조직, 호흡상피로 피복된 틈새공간, 점액 및 장액선, 지방조직과 방추형 중간엽세포 등 다양한 조직소견이 관찰되었다. 수술이 필요한 경우는 임상적 혹은 방사선검사서 악성종양과 감별이 어렵거나 무기폐, 기관지확장증, 반복되는 폐렴 등의 증상이 있을 경우 또는 방사

선 검사에서 계속적으로 크기가 커질 경우이다²⁾. 수술은 대개 중앙적출술(enucleation)이나 썬지절제술(wedge resection) 등이 시행되어져 왔고, 폐암과의 감별이 곤란하거나 기관지 폐쇄로 인한 원위부의 비가역적 변화가 초래된 경우에는 구역절제술(segmentectomy)이나 폐엽절제술(lobectomy)이 시행되는 경우도 있었다³⁾¹³⁾. 그러나, 최근에는 레이저, 전기 올가미(electrosurgical snare), 다양한 미세겸자(microforceps) 등 기구의 발달로 크기가 작은 기관지내 과오종의 경우 경성 기관지내시경을 이용하여 폐조직이나 기관지 점막에 손상을 주지 않는 내시경적 수술이 추천되고 있다¹³⁾. 기관지내 과오종의 환자들은 경성 기관지내시경과 레이저, 다양한 미세겸자 등을 이용하여 치료했을 때 81.8%의 치료 성공률이 보고된 바 있다¹³⁾. 본 증례에서는 중앙이 비교적 크고 단단하였으며 기관지내경의 대부분을 폐쇄시키고 있어 국소 마취하 연성 기관지내시경으로는 종물의 제거가 불가능하여, 본과로 전과되어 전신마취 하에 좌측 주기관지내의 과오종을 경성 기관지내시경과 다양한 기관지내시경용 미세겸자를 이용하여 성공적으로 제거할 수 있었다.

악성종양과의 관계에 대해서는 51예의 연골성 과오종을 제거한 후 2~10년 동안 경과관찰 중 4예에서 과오종 병변의 인접위치에서 기관지성 폐암을 발견하여 폐암 발생 위험률을 정상인의 6.3배로 보고하였다¹⁴⁾. 또한 아주 드물게 과오종 자체의 악성화와 치료 후 재발에 대해서도 보고되고 있어 주의 깊은 추적 관찰이 필요한 질환이다¹⁵⁾.

본 저자들은 드물게 경험하는 기관지내 과오종 1예를 폐조직 및 기관지 점막의 손상 없이 경성 기관지내시경을 이용하여 성공적으로 치험 하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

중심 단어 : 기관지내 과오종 · 경성 기관지내시경.

References

- 1) Joseph F, Tomashefski JR: *Benign endobronchial mesenchymal tumors: Their relationship to parenchymal pulmonary hamartomas. Am J Surg Pathol. 1982;6:531-540*
- 2) Hansen CP, Holtveg H, Francis D, Rasch L, Bertelsen S: *Pulmonary hamartoma. J Thorac Cardiovasc Surg. 1992;104:674-678*
- 3) Van den Bosch JM, Wagenaar SS, Corrin B: *Mesenchymoma of the lung (so called hamartoma): a review of 154 parenchymal and endobronchial cases. Thorax. 1987;42:790-793*
- 4) Moon EW, Wang YP, Suh JH, Jo KH, Kwack MS, Lee SH: *Removal of Benign Endotracheal/Endobronchial Tumor. Korean J Thorac Cardiovasc Surg. 2003;36:699-702*
- 5) Lee SH, Yoon HK, Song SH, Lee SY, Kim SC, Ahn JH, et al: *Clinical Analysis of Pulmonary Hamartoma: 29 Cases. Tuberc Respir Dis. 2002;53 (6):644-649*

- 6) Okada S, Yamauchi H, Ishimori S, Satoh S, Sugawara H, Tanaba Y: *Endoscopic surgery with a flexible bronchoscope and argon plasma coagulation for tracheobronchial tumors. J Thorac Cardiovasc Surg. 2001;121 (1):180-182*
- 7) Hart: *Ueber die Primären Enchondrome der lunge. 1906;4:578-579*
- 8) Bateson EM: *So called hamartoma of the lung-A true neoplasm of fibrous connective tissue of the bronchi. Cancer. 1973;31:1458-1467*
- 9) Dovenbarger WV, Elstun W: *Endobronchial hamartoma. Am J Med. 1961;30:965-971*
- 10) Siegelman SS, Khouri NF, Scott WW: *Pulmonary hamartoma: CT findings. Radiology. 1986;160:313-317*
- 11) Sherrick JC: *Endobronchial hamartoma. Quart Bull Northwestern Univ School. 1952;26:171-175*
- 12) Liebow AA. *Benign intrabronchial tumor. Atlas of Tumor Pathology. 1981:119-121*
- 13) Ishibashi H, Akamatsu H, Kikuchi M, Sunamori M: *Resection of endobronchial hamartoma by bronchoplasty and transbronchial endoscopic surgery. Ann Thorac Surg. 2003;75:1300-1302*
- 14) Karasik A, Modan M, Jacob CO, Liebermann Y: *Increased risk of lung cancer in patients with chondromatous hamartoma. J Thorac Cardiovasc Surg. 1980;89:217-220*
- 15) Hayward RH. *Malignant hamartoma of the lung: fact or fiction?. J Thorac Cardiovasc Surg. 1967;53:457-466*