

肺過誤腫의 一治驗例

朴 光 勳* · 池 貞 熙**

=Abstract=

A Case of Pulmonary Hamartoma

Since its first description by Albrecht in 1904 that hamartoma (Greek meaning "error" and "tumor") is tumor-like malformation characterized by abnormal mixture of normal constituent in any organ it arises, hamartoma involving the lung has assumed the following clinical features :

1) all the pulmonary lesions presenting as "coin lesions", it occupies about 8% according to various reports.

It also constitutes the most prevalent lesion of all the benign lung tumors, appearing in 0.25% of the general population.

2) Peak incidence of the lesion occurs in the 5th and 6th-decade as the carcinoma patient do, and the occasional growing tendency and peripheral location as in this presentation renders the differential diagnosis from the malignant disease difficult and surgical intervention inevitable for definite histological diagnosis and treatment.

3) Nearly all the clinical investigations such as history, physical examination, bronchoscopy, Culture, and cytological examination of sputum are likely to be futile: the only tool for detecting the presence of the lesion is X-Ray, but that's short of telling the true nature of it.

4) Because of its age of presentation and growing tendency in middle-aged adult, it is still controversial whether it is developmental anomaly as Albrecht described, or true neoplasm denovo of fibrous connective tissue origin.

This is a case report of surgical experience of pulmonary hamartoma which had nearly all the typical clinical features above mentioned and was reviewed with related literatures.

緒 言

先天的으로發育異常에依해 나타나는 것으로認定되어온過誤腫에關한古典的記述은漸次해를거듭할수록그發生機轉에對한異論이續出하고있으며, 비록肺에 나타나는全腫瘍 가운데 1%에도 미치지 못하지만¹⁾ 男性에 보다 많이 나타나고 40~60대에好發하며^{2, 4)}

11, 12) 漸次로 成長하는데 다가 所謂 coin lesion으로 나타난다는點等으로 보다 많은 頻度를 占有하는 肺의 原發性癌과의 鑑別診斷이 때로는 不可能하기 때문에 重要한 疾患이다. 더군다나 X-線方法에 依해 病巢의 存在有無를 認知하는 方法外에 어떤 臨床的 所見으로도 確診이 어려워 結局은 開胸術에 依하여 病理組織檢査로만 診斷이 可能하기 때문에 近年에 이르러 여러 報告者들에 依해 事前에 良性임을 看破하여 不必要할수도 있는 手術로 까지 이르지 않으려는 試圖들을 엮을수 있다¹⁸⁾ 우리나라에서는 比較的 稀貴하게 報告된바 있는 肺過誤

* 朝鮮大學校 醫科大學 胸部外科學教室

** 朝鮮大學校 醫科大學 病理學教室

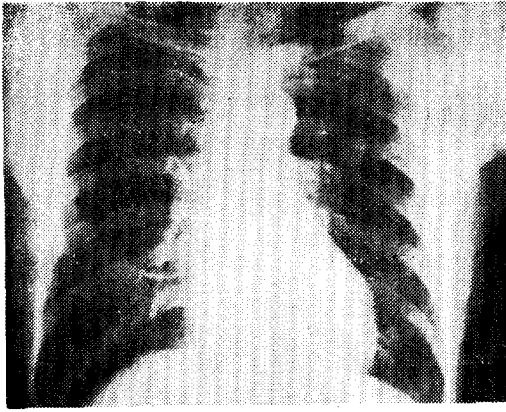


Fig. I. 1973年度 單純 X-線所見



Fig. II. 1976年 手術直前의 增大된 Coin lesion

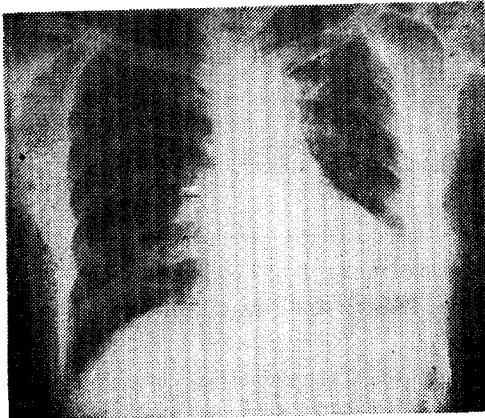


Fig. III. 術後 2週時

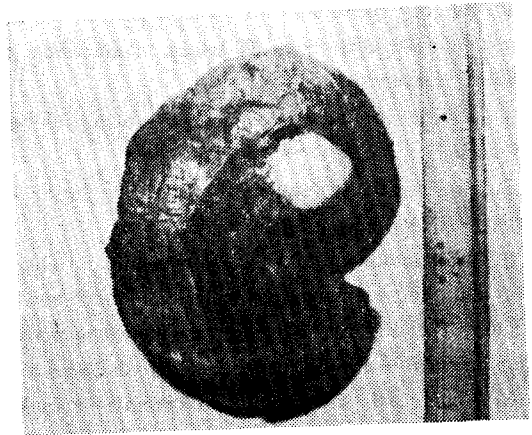


Fig. IV. 切除肺 및 腫瘍의 肉眼의 所見

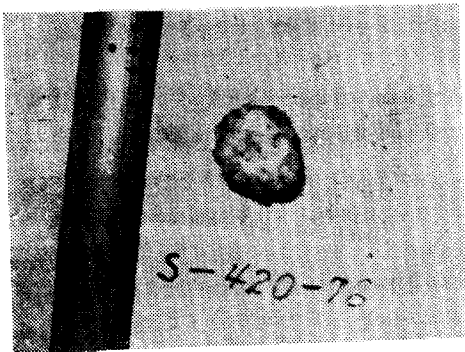


Fig. V. 過誤腫의 滑面

症 例 報 告

患者: 朴○雲, 53歲, 男

主訴: 特異症狀 없음

既往歷 및 家族歷: 特記事項 없음

理學的 檢査: 特記事項 없음

現病歷: 1973年 當時 醫科大學在學中이던 아들 의 勸誘로 偶然한 機會에 胸部단순 X-線撮影을 하기에 이르렀고 그 結果 左肺上野에 直徑 1cm되는 孤立性結節을 볼수 있었으며(Fig. I) 當時로는 이렇다한 症狀이 없는데다 患者의 健康狀態 또한 良好한 便이어서 銳意注視한다는 前提로 그대로 觀察다가 1976年 6月 痛欣하는 習慣이 있는 아버지를 걱정한 아들 의 勸誘로 다시 胸部 X-線檢査를 하기에 이르렀으며 그 結果 直徑 2.5cm 程度의 石灰化되지 않은 所謂 coin lesion이라 할수 있는 孤立性結節狀을 左肺上葉에서 볼수 있었다(Fig. II).

腫에 關해¹⁷⁾ 最近 當 朝鮮大學校 附屬病院 胸部外科 및 病理學教室에서 治驗한 一例에 對한 症例報告와 이에 關聯된 文獻考察을 하고져 한다.

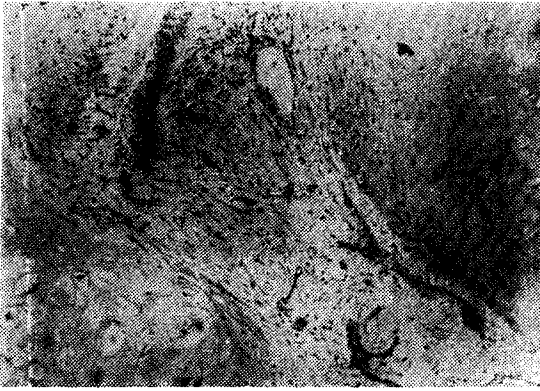


Fig. VI. 成熟된 硝子樣 軟骨組織塊사이의 疎性結核組織內에 上皮細胞增殖으로 因하여 內腔이 閉鎖된 氣管支모양과 血管 及 淋巴球浸潤이 보인다.
(H-E 染色, 10×10倍)

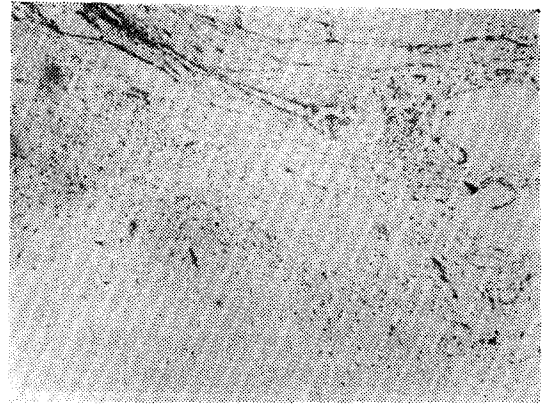


Fig. VII. 軟骨, 組織間에 管狀의 氣管支形成과 增殖 및 擴張을 보이는 血管周圍에 淋巴球浸潤을 볼수 있다.
(H-E 染色, 10×10倍)

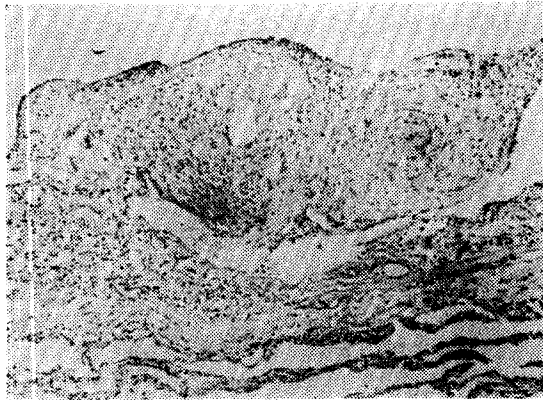


Fig. VIII. 腫瘍과 肺實質의 接合部이며 結節狀 myxoid tissue와 壓迫된 肺實質의 部分的 無氣肺樣變化를 볼수 있다.
(H-E 染色, 10×10倍)

檢査室所見: 數次에 걸친 抗酸菌, 真菌에 對한 特殊檢査, 喀痰에서의 惡性細胞에 對한 細胞學的檢査等を 包含한 諸般 檢査所見上 아무러한 非正常所見을 發見할 수 없었다.

氣管支鏡檢査: Fiberoptic Bronchoscope을 利用, 左肺上葉의 各區域氣管支까지 觀察하였으나 異常所見을 發見할 수 없었으며 이때 氣管支分泌物를 吸引採取하여 抗酸菌, 細胞學的檢査等を 施行하였으나 亦是 아무러한 特異所見을 얻을 수 없었다.

手術所見: 全身麻醉下에 左側後外側切開에 依한 開胸術을 利用하여 第5肋間을 經山, 胸膜腔에 到達하였으나 左側肺는 全般的으로 周圍組織과의 癒着이 거의 없

었으며 觸知上左肺의 前區域과 舌狀區域의 境界部肺實質 깊숙이 位置해 있었으며 病巢自體가 惡性일 可能性도 前提하여 肺葉切除術을 施行하였다.

術後經過는 良好하여 2週만에 退院하였다(Fig. III)

肉眼的 및 病理組織學的 所見

肉眼的 所見: 外科의 方法으로 切除한 一片의 葉狀肺組織으로 그 最大 直徑이 7cm에 이르는 7×5×4cm크기의 實質로 構成되어 있으며 胸膜表面에서 떨어진 中心部の 肺實質內에 뚜렷한 境界를 呈하는 球形結節狀異常組織塊(以下 腫瘍) 2.7cm 直徑을 發見할 수 있었다.

이 腫瘍의 表面은 平滑하고 白色眞珠色이었으며 剖面에서 數個의 微細한 囊狀組織間隔을 볼 수 있었고 硬度는 全般的으로 軟骨樣이었다. 何等的 局所的 壞死나 出血巢 或은 石灰化를 나타내지 않았다 腫瘍의 周邊과 肺實質間의 境界에 確實한 被囊은 存在하지 않았으나 腫瘍에 面한 肺側의 全遊離表面은 平滑하고 潤澤한 膜樣組織으로 덮혀있고 腫瘍組織과의 癒着은 전혀 없었다. 그리고 氣管支와의 開通도 찾아 볼 수 없었다.

腫瘍周邊은 肺實質이 多少의 鬱血과 輕度の 無氣肺狀을 呈하였으며 局所的으로 炭肺症으로 보인 黑色色素沈着이 있었다. 氣管支는 正常內腔을 보이고 擴張이나 壁의 肥厚 或은 纖維化는 볼 수 없었다. 胸膜表面은 出血이나 炎症性病變 없이 潤滑하였다(Fig. IV, V).

顯微鏡的 所見: 腫瘍組織切片의 顯微鏡的 主所見은 正常的으로 成熟된 軟骨組織의 豊富한 小島과 그間隔에 小量의 鬆疎性 結核組織으로 構成되어 있으며 豊富한 血管과 輕度の 慢性炎症細胞浸潤을 볼 수 있다. 이들은 大部分이 淋巴球의 集團이나 小數의 組織球 或은 單核

球을 포함하고 있다. 血管이 豊富한 間質結締組織內에 擴張된 囊狀組織腔을 形成하고 平扁한 單純圓柱上皮로 덮혀있는 氣管支樣相을 나타내며 上皮的 增殖으로 因한 氣管支內腔의 閉鎖를 局所에서 볼수 있었다. 增殖된 上皮核의 atypism과 不同等 極히 輕微한 變化는 있으나 組織學的으로 惡性的 特徵은 찾아 볼수 없었다. 腫瘍의 外表面과 肺實質과의 境界面은 主로 小結節樣 myxoid connective tissue로 덮혀있고 遊離境界面에 扁平한 氣管支上皮細胞의 部分的 出現 및 內腔形成도 局所에 볼수 있었다. 擴張된 氣管支周邊에는 淋巴濾胞形成과 淋巴球浸潤이 있었다. 隣接肺實質에 部分的 無氣肺狀과 肺泡中隔의 球狀纖維性肥厚로 肺間質炎에 類似한 變化를 同伴하였으며 肺泡中隔의 破裂과 擴張된 肺胞內에 Hemosiderin-laden macrophage의 集合으로 慢性鬱血性變化和 中等度の 炭肺症을 볼수 없었다(Fig. VI, VII, VIII)

考 察

1904年 Albrecht에 依한 臟器에 正常的으로 存在하는 構成成分의 非正常的 脫組織的 混合塊狀物에 命名되어진 過誤腫은 肺에 생기는 良性腫瘍으로서는 가장 많은 頻度를 占有하고 있고 孤立性 結節 또는 Coin lesion으로 나타나는 病巢로서는 肉芽腫 및 惡性腫瘍에 이어 3番째로 많은 病巢로써 8%에 이르는 것으로 되어 있고^{5, 8, 10} Albrecht의 처음 先天的 發育異常說에 거의 意見의 一致를 보아 왔으나 最近 20年間 Chondroadenoma (Adems, 1957), Hamartochondroma (Bateson, 1960), Bronchioma (Aletrag, 1953), Mixed tumor of the Lung (Ehrenhaft, 1950), Chondromatous Hamartoma (Karlsen, 1950)等 여러名稱들이 뜻하는 바 發育說에 意見들이 雜多해 졌을 뿐만 아니라 Le Roux (1964) 등은 “過誤腫이란 名稱은 便利하고 魅力的이지만 너무 濫用되며 科學的 用語라기 보다는 차라리 哲學的 表現이다”라고 駁論한 적이 있다는 點등 여러 反論이 擡頭되고 있음은 注目할 만한 事實이다.

即 40~60대에 單 先天的 疾患들과 함께 나타나는 境遇가 드문데다 一生中 어느 時期에 새로이 나타나서 本症例에서 처럼 漸次로 病巢가 커져 간다는 事實은 이 病巢가 眞情한 意味에서의 新生物이고 基本的인 構成物質은 纖維性間質組織의 分化에 依한다고 主張하는 報告者들이 있는가 하면^{2, 6} 數年前 X-線檢査上 아무런 異常陰影이 없던것이 새로이 나타났다. 해서 先天的 原因이 아니라고 할수도 없다는 意見도 있다.⁹

이와 關聯하여 Willis (1955), Liebow (1952)等 一部 研究者들은 過誤腫을 다시 幼兒型과 成人型으로 區

分하여 前者는, 처음 Albrecht가 主張했던바 대로 眞情한 發育異常의 過誤腫으로 後者에 對해서는 意見들이 달라서 Hodges (1958), Willis (1958) 같은 報告者에 依하면 氣管支壁의 間質組織에서 생기는 腫瘍이라고 結論을 내리고 있다.

一旦 나타났다면 적어도 75~80%는 深刻한 病的狀態로 받아들여지는 Coin lesion^{5, 9}은 여러 報告者에 따라 數値에 多少 差異가 있지만은 가장 많은 原因別로 肉芽腫性感染症에 마삭 뒤 따라 惡性腫瘍이 全體例의 $\frac{1}{3}$ 以上을 占하고 있다는 事實에다^{5, 9, 10} 年齡이 增加함에 따라 惡性腫瘍일 可能性이 높아져 50代를 넘어서면 50%以上에서 惡性疾患일 可能性이 있다는 點¹², 40~60代의 男性에 主로 Coin lesion으로, 나타나는 位置마저 中心部보다 肺實質末梢部에, 모든 臨床的 檢査法을 다 動員해도 外科的 介入이 있어야만 그 眞面目을 알수있는 過誤腫은 따라서 보다 혼한 惡性腫瘍과의 鑑別診斷에 가장 深刻한 問題點이 되고 있는 것이다.

胸部 X-線檢査에 依한 病巢의 存在를 認知하는 方法外에 其他 모든 臨床的 方法을 動員해도 正確한 本質의 인 病巢의 正體를 알길이 없는 이 過誤腫은 大部分 軟骨로 되어 있어 一名 軟骨腫(Chondroma)이라고도 불리워 지며 軟骨外에도 極히 一部分이 脂肪組織으로 되어 있기도 하며 X-線所見上 10~50%에서 石灰化陰影이 나타나는 境遇도 있어¹¹ 이를 確認하기 위하여 斷層攝影을 勸奨하기도 한다.^{1, 5}

大體로 病巢自體의 크기나 모양이 2~4年 以上 變化가 없다면지 廣範圍한 石灰化가 나타나면 一旦 良性일 可能性이 增加하는것은 事實이나^{5, 13} Rigler (1950) 같은 사람은 3年 심지어는 7年이나 지나서 局所 또는 遠位轉移로 나타난 惡性腫瘍을 報告한 적이 있는가하면 反面 氣管支囊腫, 過誤腫, 結核腫 其他 良性腫瘍가운데도 病巢의 크기가 커지는 境遇가 있는 것이다.

肺過誤腫은 나타나는 位置에 따라서 肺實質內型和 氣管支內型으로 區分하여 大部分은 實質內에 많은 것으로 되어 있고^{1, 2, 4, 5, 6} 따라서 漸次로 자라서 肺實質, 氣管支壓迫等으로 因한 것 外에는 無症狀인 境遇가 大部分이며 드물게 볼수 있는 氣管支內型에서만 氣管支閉鎖로 因한 無氣肺, 기침, 肺炎等的 症狀을 나타내는 것이고 따라서 이 境遇에만 氣管支鏡檢査가 有意하게 되는 것이다.^{1, 4}

治療에 對하여도 一部 研究者들은 境界가 分명한 孤性結立節에다 뚜렷한 石灰化陰影이 X-線上 나타나면 診斷的 價値가 있고 따라서 不必要한 外科的 介入을 避할수도 있다는 意見도 있으나 上記記述은 確診的인 特

徵은 없는것이, 境界가 鮮명한 孤立性結節은 惡性原發性腫瘍 내지는 轉移性腫瘍에서도 볼수 있을 뿐더러 石灰化 亦是 結核, 真菌症, 轉移性骨肉腫等에서도 볼수 있는 所見들이기 때문이다.⁸⁾ 過誤腫에 있어서는 石灰化되어있는 境遇보다 그렇지 않는 때가 더욱 惡性腫瘍과의 鑑別上 問題로서 最近에는 可能한限 不必要한 外科的 手術을 避한다는 意味에서 年齡을 參考하여 Needle aspiration biopsy나 Brush biopsy等으로 可及的 良性 如否를 術前에 糾明코져 하는 試圖들을 엮볼수 있다.¹⁸⁾

지금까지 여러 報告者에 依해 가장 많이 利用한 外科的 方法은 術前에 病巢自體가 良性인 것만 確實하고 末梢部位에 位置한 境遇 局所切除術, Enucleation, 썬기 切除術等을 많이 使用한 것으로 되어 있으나 Enucleation에 對해서는 炎症性疾患이나 惡性腫瘍時에 그內容物의 Spillage等을 考慮하여 勸奨할만한 方法으로 推薦할 수 없다하고 肺實質 깊숙이 位置한 境遇는 차라리 區域 切除術이나 肺葉切除術을 施行함이 좋은것으로 되어 있다.^{4, 6)}

結 論

最近들어 急激한 增加一路에 있는 肺癌, 肺真菌症과 더불어 鑑別診斷에 難題로 되어있는 肺過誤腫은 特異症狀의 缺如, 診斷方法의 難點等으로 結局은 外科的 介入으로 까지 이르러서야 그 正確한 正體가 드러나는 疾患이다. 著者등은 最近 定型의인 Coin lesion으로 나타나 惡性腫瘍과의 鑑別이 極히 어려워 終局에는 外科的으로 病理組織學的 診斷을 可能케 했던 肺過誤腫 一例를 治療한바 있어 簡單한 文獻考察과 함께 報告하는 바이다.

REFERENCES

1. Arrigoni, M. G., Woolner, L. B., Bernatz, P. E., Miller, W. E., And Fontant, R. S.: *Benign tumor of the lung. A ten-year surgical experience. J. Thorac. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 60:589, 1970.
2. Bateson, E. M.: *So-called hamartoma of the lung. A true neoplasm of fibrous connective tissue of the bronchi. Cancer*, 31:1458, 1973.
3. Jones, E. L., Lucey, J. J., and Taylor, A. B.: *Intrapulmonary lipoma associated with multiple pulmonary hamartoma. Br. J. Surg.*, 60:75, 1973.
4. Shah, J. P., Choudhry, K. U., Huvos, A. G., Martin, N., and Beattie, E. J., Jr.: *Hamartomas of the lung. Surg. Gynecol. Obstet.*, 136:406, 1973.
5. Jones, R. G., and Cleve, E. A.: *Solitary circumscribed lesions of the lung: Selection of cases for diagnostic thoracotomy. Arch. Intern. Med.*, 93:842, 1957.
6. Butler, C., II, and Kleinerman, J.: *Pulmonary hamartoma. Arch. Pathol.*, 88:584, 1969.
7. Weisel, W., Gricklich, M., and Landis, F. B.: *Surgery illustrated: Pulmonary hamartoma, enlarging neoplasm. Arch. Surg.*, 71:128, 1955.
8. Gluck, M. C., and Moser, K. M.: *Hamartoma of the lung Presenting as a mediastinal mass Am. Rev. Resp. Dis.*, 98:281, 1968.
9. Davis, E., Peabody, J., and Katy, S.: *The solitary pulmonary nodule-A ten-year survey based on 215 cases. J. Thorac. Surg.*, 32:728, 1956.
10. Ramchand, S. and, Baskerville, L.: *Multiple hamartomas of the lung.: Am. Rev. Resp. Dis.* 99:932, 1969.
11. Oldham, H. N., Jr., and Sealy, W. C.: *Hamartoma of the lung. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 53:735, 1967.
12. Steele, J. D.: *The solitary pulmonary nodule. Report of a cooperative study of resected asymptomatic solitary pulmonary nodules in males. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 46:21, 1963.
13. McDonald, J. R., Harrington, S. W., and Clagget, O. T.: *Hamartoma (often called chondroma) of lung. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 14:128, 1945.
14. Anderson, M. N.: *Multicentric hamartomas of the lung. Report of a case with two additional lesions 9 years after resection. Ann. Thorac. Surg.*, 6:469, 1968.
15. Hood, R. T., Jr., Good, C. A., Clagget, O. T., and McDonald, T. R.: *Solitary circumscribed lesions of the lung. Study of 156. J. A. M. A.*, 152:1185, 1953.
16. Sabiston, D. C., and Spencer, F. C.: *Surgery of the chest. 3d Ed.* 1976.

17. 이흥균의: *Hamartoma* (과오종)의 1례 보고. 대한의 과학회지, 6:481, 1964.
 18. Lillington, G.A.: *The solitary pulmonary nodule. Am. Rev. Resp. Dis.*, 110:699, 1974
 19. Gracey, D.R., Byrd, R.B., and Cugell, D.W.: *The dilemma of the asymptomatic pulmonary nodule in the young and not -so young adult. Chest*, 60:479, 1971.
-