

심막 계실을 동반한 기관지성 낭종

- 1례 보고 -

황윤호* · 이양행* · 우종수* · 조광현*

박 동 식* · 주 종 은**

-Abstract-

Bronchogenic Cyst Combined with Pericardial Diverticulum: A Case Report

Whang, Youn-Ho, M.D.* , Lee, Yang-Haeng, M.D.* , Woo, Jong-Soo, M.D.* ,
Cho, Kwang-Hyun, M.D.* , Park, Dong-Sick, M.D.* , Joo, Jong-Eun, M.D.*

Bronchogenic cyst and pericardial diverticulum are relatively infrequent respectively, but they have been detected more commonly with the increasing popularity of the routine and mass survey examination of the chest.

A 31 year-old male was admitted for the evaluation of productive cough and two mass lesions in left side on the chest films and bronchogram.

Exploratory thoractomy revealed pericardial diverticulum and bronchogenic cyst, which were confirmed by pathologic examination.

We are willing to report this combined case which was treated uneventfully by left lower lobectomy and diverticulectomy.

緒 論

선천성 기관지성 낭종과 선천성 심막 계실은 각기 비교적 희귀한 질환들이지만, 현금 흉부 X-선 촬영이 보편화되어감에 따라 그 발견 빈도가 높아지고 있다. 또 각각에 대한 국내 보고도 상당수에 이르고 있다. 그러나 한 환자에서 두 질환이 공존하였던 보고는 없다.

* 인제의대 흉부외과학교실

* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inje Medical College.

** 인제의대 병리학교실

** Department of Pathology, Inje Medical College.

인제의대 흉부외과학교실에서는 최근 좌측 심막계실을 동반하여 좌하폐내에 발생하였던 기관지성 낭종 1례를 발견하여 좌하엽 절제술과 심막계실 절제를 시행하여 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

症 例

성 명 : 전 ○ ○ , 성 별 : 남 , 나이 : 31 세

主 訴 : 악취가 있는 객담 및 기침

現病歷 및 過去歷 : 환자는 1983년 8월 상기 주소로 입원하였다. 입원 약 1년전에 상기 증상 및 각혈로 모 개인병원에서 치료받은 적이 있고, 입원 2개월전 본원 흉부외과 외래로 내원하여 기관지조영술을 권유 받았으나 거절하였다. 16세때 정부 임파선 결핵을 앓

은 적이 있으며, 직업은 농부였다.

理學的 所見 : 골격과 발육 및 영양상태는 중등도였고, 흉곽의 외형은 좌우대칭으로 보였다. 좌하폐야에 호흡음이 감소되어 있었고, 습성 잡음이 들렸다. 복부와 사지는 정상이었다.

檢査所見 : 입원시 혈액검사상 혈색소 16.9 gm%, 백혈구 12,000/mm³, neutrophile 22%, monocyte 5%, lymphocyte 46%, eosinophile 22%였다. 대소변 검사상 정상, 심전도상 정상, 폐기능 검사상 tidal volume 600ml, vital capacity 4,100ml, FEV₁ 97.6%, MVV 108 L/min이었다. 객담 AFB 검사상 음성이었다.

胸部 X-線 및 氣管支 造影所見 : 단순 흉부 X-선상 좌하심장연과 횡격막음영에 걸친 둥근 음영 및 좌하폐야 후부에 둥근 종괴음영을 보여 (Fig. 1), 기관지 조영술을 실시하였는데, 좌하엽의 후폐저기관지에서 흘러내린 조영액이 posterior costophrenic sinus 쪽에 낭상의 음영을 보였다 (Fig. 2). 그러나 자세히 관찰한 결과 단순 흉부 X-선상의 심장연에 보인 음영과는 서로 관계가 없는 두개의 종양음영으로 의심되었다.

手術 所見 : 기관삼관하 전신마취를 시행하여, 좌측 제 6 늑골을 절제한 후 개흉하였다. 개흉시 좌측 심장연의 횡격막 신경 앞쪽에 얇은 막의 낭종을 발견하고, 그 기저부를 감자로 이중으로 잡고 결찰·절제

하였다. 결찰전 낭종의 내용물이 심낭으로 이동하는 것을 확인하였다. 횡격막과의 유착을 제거한 후 좌하엽을 먼저본 측, 역시 이상소견이 있는 것으로 생각되어 좌하엽 절제술을 시행하였다.



Fig. 2. Bronchogram reveals large cystic lesion in left lower lobe with bronchial communication and air-fluid level.

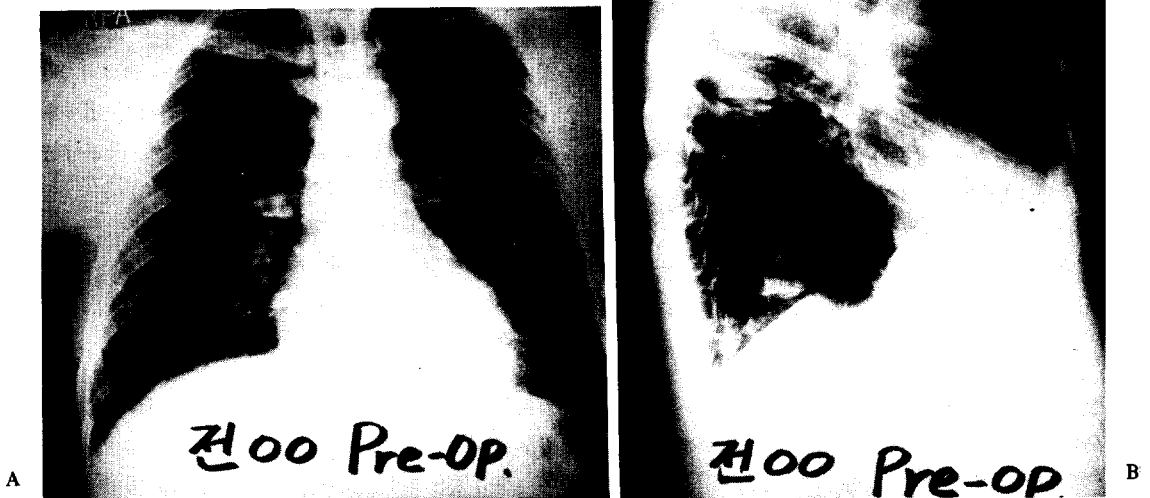


Fig. 1. A. Pre-op. chest P-A view; round mass shadow on the left lower cardiac border. B. Left lateral view; large round cystic lesion in the posterior lower lung field.

病理組織所見 : 심막계실의 크기는 $5.2 \times 4 \times 4$ cm 정도이고 무색의 액체로 차 있었고 내면은 평평하였다 (Fig. 3). 현미경소견상 계실의 내벽은 단층의 flattened 혹은 cuboidal cell로 피복되었고, 경도의 lymphoplasmic cell의 침윤이 보였다 (Fig. 4).

좌하엽절제후 폐내낭종은 후폐저구와 외측폐저구 기관지와 연결되어 있었고, 절단면의 크기는 3.2×4.5 cm였으며, yellowish brown gelatinous material로 차 있었다. 내면은 평평하고 일부에 trabeculation이 있었다. 현미경소견상의 낭종의 내벽은 ciliated columnar epithelium으로 덮혀 있고 가끔 squamous metaplasia를 보이고 있었다 (Fig. 5). 낭종의 벽은 큰 혈관들을 가진 결체조직으로 구성되었고 부분적으로 약간의 연골을 볼 수 있었다. Lymphocyte, plasma ce-

ll, eosinophile 및 neutrophile 등의 침윤이 경도 혹은 중등도로 있었다. 낭종 주위의 폐조직은 부분적으로 위축 혹은 확장부진증의 변화를 보였다 (Fig. 6).

낭종내의 내용물은 점액성 물질로 약간의 세균군집과 염증세포 등을 함유하고 있었다.

手術 經過 : 술후의 흉부 X선 소견 (Fig. 7)은 정상이었으며, 2주일후 합병증없이 퇴원하였다.

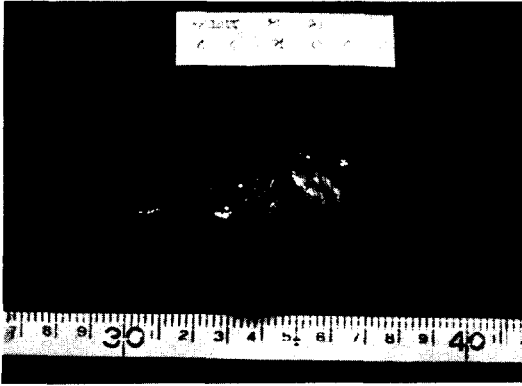


Fig. 3. Gross finding of resected pericardial diverticulum.

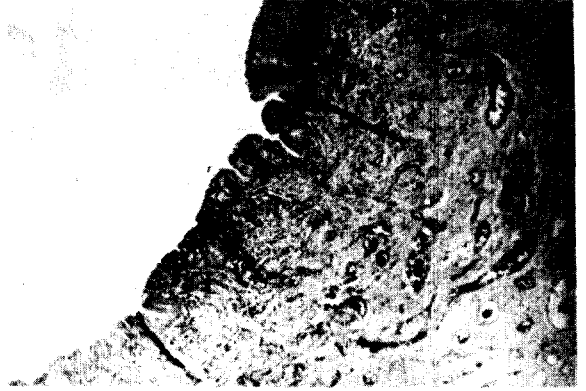


Fig. 5. Microscopic finding of bronchogenic cyst (1); the cystic space is internally lined by ciliated tall columnar epithelium (lower left) with focal squamous metaplasia (upper mid). The cystic wall is also composed of highly vascular fibrous tissue. (H-E stain, x40)

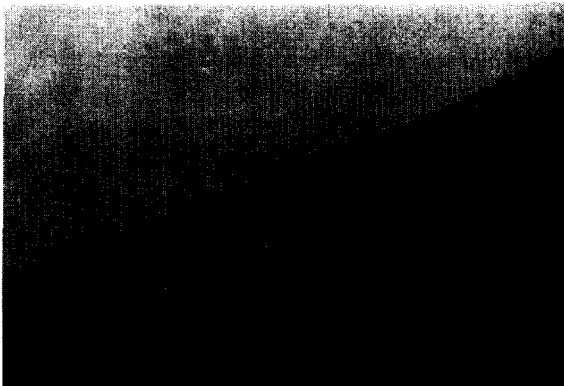


Fig. 4. Microscopic finding of pericardial diverticulum; the cystic wall is of hyalinized fibrous tissue and lined by a layer of mesothelial cells along the internal surface. (H-E stain, x40).

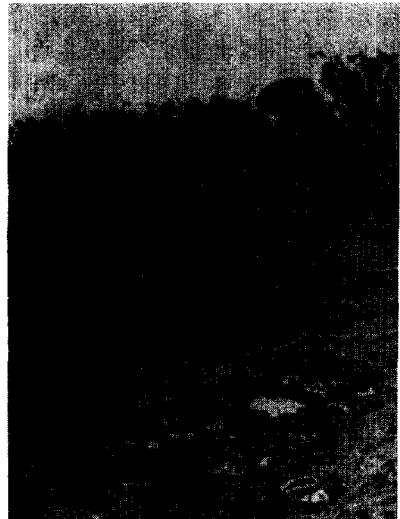


Fig. 6. Microscopic finding of bronchogenic cyst (2); beyond the mildly inflamed cystic wall, some of compressed and atrophied pulmonary parenchyme is observed (lower). (H-E stain, 40x)



Fig. 7. Post-op. chest P-A view.

考 案

선천성 기관지성 낭종과 선천성 심막계실은 각기 희귀한 질환이지만, 흉부 X-선검사의 보편화로 그 발견율이 많이 증가되고 있다고 한다.

기관지성 낭종의 발생학적 기전은 Laipply¹⁾에 의하면 호흡기관과 식도가 태아기에 원시전장에 발생한다고 하였으며 이 원시전장에 측벽이 생겨 중심부로 발전되어 복부 부분은 기관아(tracheal bud)가 되고, 배부 부분은 식도로 형성되는 바, 이 시기에 원시기관의 이상발아(abnormal budding)로 인하여 생성된다고 하였다. Brunner²⁾에 의하면 기관지조직 근위에서 발생한 낭종은 기관지성 낭종이라 부르고, 기관지조직 말단부에 발생한 낭종을 기포성낭종(alveolar cyst and pneumatocele)이라 부르며, 특히 성인에서 볼 수 있는 기낭은 기포성기낭(emphysematous bullae)이라고 부른다고 하였다. 기관지성 낭종을 위치에 따라, Maier³⁾은 폐내 낭종과 종격동 낭종으로 구별하였고 기관지와 교통을 가지는 경우는 폐내낭종이 대부분이나, 전체적으로는 폐내낭종이 종격동낭종보다 드물다고 하였으며, 국내 보고도 적었다. 또 종격동낭종을 그 위치에 따라 paratracheal, carinal, hilar, paraesophageal 및 기타 군으로 나누었는데 여기서는 거론하지 않겠다.

폐내낭종의 경우 소아기에 check valve 형식으로 되어 갑자기 낭종의 크기가 커져 주위조직을 압박함으로써 심한 호흡부전이 나타날 수 있으며, 단순흉부 X-선 촬영시 경계가 뚜렷한 원형 또는 타원형의 종양이 폐야 한가운데 위치하고 낭종에 2차적 감염이

없는 한 증상이 없는 것이 보통이라고 하였다^{4,5)}. 증상으로는 각혈과 농성 분비물을 뱉어내기도 하며 2차 감염이 되면 내면의 상피가 파괴되기 때문에 후천성 낭종과의 구별이 곤란하다고 하였다³⁾.

폐내 기관지성낭종의 병리조직학적 소견은 대개 단일의 둥근 낭성종양을 형성하고 때로는 소엽으로 분리되어 생길 수 있고 낭종이 여러개 뭉쳐서 있을 수 있다고 하였다³⁾. 잘라 보았을때 한개의 방으로 된 것이 보통이나 여러개의 방으로 그 크기가 다르며, 방 사이에 교통이 없는 경우도 없지 않으며, 낭종벽은 얇고 내벽은 섬모원주상피이고 또한 점액선을 갖고 있고 연골, 결체조직 및 평활근 등으로 구성된다고 하였으며 연골과 점액선은 없는 경우도 있다고 하였다³⁾.

기관지성 낭종과 타 기형과의 합병은 국내 보고로는 손 등⁶⁾이 누두흉과 동반을, 김 등⁷⁾이 폐동맥관막협착증과의 합병례를 보고하였으며, 김 등⁸⁾은 aberrant hypoplastic lung tissue에서 발생한 기관지성 낭종을 보고하였고, Moersch와 Clagett⁹⁾는 기관지성 낭종에서 기관지 선종이, 또 낭종의 악성변화를 보고하였다. 그의 Maier³⁾는 선천성 심낭 결손과 합병례를 보고하고 기관지성 낭종이 그 결손된 부위를 통하여 심낭내에 위치하였다고 하였다.

폐내 기관지성낭종은 감염이 성립되기 전이라면 폐결핵 및 폐암과 구별이 힘들고 감염이 성립되면 임상 증상이 나타나기 시작하므로 후천성 감염, 특히 농양, 낭성기관지 확장증, 폐기종, 기흉 및 이차성 기낭과 구별이 힘들다고 한다.

치료는 Minnis⁵⁾에 의하면 2차적인 변화를 일으키지 않은 기관지성 낭종은 약 25%에서 자연적으로 소멸되지만, 2차적인 변화를 일으켰을 경우는 외과적인 적출이 근치술이라고 하였다.

Srouji¹⁰⁾와 Lillie 등¹¹⁾은 심막계실과 심막성 낭종 사이에 밀접한 관계를 발견하고, 별도의 임상적·병리적 질환이 아니라, 한 발달과정의 다른 단계의 것으로 설명하였다. 얇은 막의 심막성 낭종은, 심막강과의 통로가 막힘으로써 심막계실로 부터 생길 수 있으며, 심막성낭종으로 생각되는 병소가 심막강과 교통이 생겨 심막계실로 될 수도 있다 하였다¹²⁾.

심막은 일련의 분리된 lacunae로 부터 형성되며, 발생기의 짧은 기간동안 lacunae는 개개의 공간으로 남아 있는데, 만약 그와 같은 lacunae의 연결이 계속 존재시 심막계실을 형성한다고 한다.

심막성 낭종은 원초적 심막소와의 융합부전(fusion failure of the primitive pericardial lacunae)이나 태아 늑막의 비정상적인 주름(abnormal folds in the embryonic pleura)에 의해 형성된다고 하였다. 후천적으로도 심막성낭종이 올 수 있는데, 이는 염증으로 인하여 심낭내 삼출액이 차면서 심낭벽의 어느 한쪽에 연약한 부분이 있어 계실을 형성하게 되는 경우이나 염증의 확증이 없으면 선천성이라고 할 수 있다고 하였다¹²⁾.

보고는 드물지만 심막성낭종의 발생은 그리 드물지 않은 것으로¹³⁾ 거의 70%가 심장 우측 전부중격동 횡격막 가까이 접해서 나타나며 나머지는 좌측 및 폐문부에서 발생한다고 하였다^{12,14,15)}.

크기는 100~300 gm 정도이고 간혹 1,000cc 이상의 큰 것도 있다고 하였다¹⁴⁾. Fluid는 무색 투명하고 낭종벽은 mesothelial cell로 되었으며, pericardiophrenic vessels로 부터 혈류를 공급받는다고 한다.

대개 무증상으로 치료가 필요치 않으나 확진을 위하여 절제술을 시행한다고 하였다^{12,14)}.

結 論

본 인제의대 흉부외과학 교실에서는 선천성 심막계실과 선천성 폐내 기관지성 낭종이 공존한 1례에서 계실절제술과 폐절제술을 실시하여 성공적으로 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

1. Laipply, T.C.: *Cysts and cystic tumor of the mediastinum. Arch. Path.* 39:153-161, 1945.
2. Brummer, S.: *Lung cyst. A clinical radiologic study.*

Copenhagen. Denmark. 1964.

3. Maier, H.C.: *Bronchogenic cyst of the mediastinum. Ann. Surg.* 127:476-502, 1948.
4. Ringertz, N. and Lidholdm, S.O.: *Mediastinal tumors and cysts. J. Thoracic Surg.* 31:458, 1956.
5. Minis, J.F., Jr.: *Congenital cystic disease of the lung in infancy, successful lobectomy in a one day-old child. J. Thorac. Cardio. Surg.* 43:262-266, 1962.
6. 손광현, 주종은, 이남수: 누두흉을 동반한 선천성 기관지 낭종. *대한흉부외과학회지*, 11:246, 1978.
7. 김주이, 이정호, 유영선, 유희성: 선천성 낭성폐와 동반한 폐동맥관막협착증. *대한흉부외과학회지*. 10:118, 1977.
8. 김종원, 조광현, 김의윤: Aberrant hypoplastic lung tissue에서 발생한 Bronchogenic cyst. 8:13, 1975.
9. Moersch, H.J. and Clagett, D.T.: *Pulmonary cysts. J. Thoracic Surg.* 16:179, 1947.
10. Srouji, M.N. and Mustard, W.T.: *Diverticulum of the pericardium, Canad. J. Surg.* 8:196, 1965.
11. Lillie, W.I., McDonald, J.R. and Clagett, O.T.: *Pericardial coelomic cysts and pericardial diverticulum. A concept of etiology and report of cases. J. Thoracic Surg.* 20:494, 1950.
12. Pader, E., Kirschner, P.A.: *Pericardial diverticulum. Dis. Chest* 55:344-346, 1969.
13. LeRoux, B.H.: *Pericardial coelomic cysts. Thorax* 14:127, 1959.
14. Lemmon, W.M., Segal, B.L.: *Pericardial cysts, report of a case. Dis. Chest* 48:434-439, 1965.
15. Feigin, D.S., Fenoglio, J.J., McAllister, H.A., Madewell, J.E.: *Pericardial cyst, A radiologic-pathologic correlation and review. Radiology* 125:15-20, 1977.