

Pulmonary Carcinosarcoma within Bronchogenic Cyst*

— 1 례 보고 —

권오춘 ** · 김병열 ** · 유병하 ** · 이정호 ** · 유희성 **

— Abstract —

Pulmonary Carcinosarcoma within Bronchogenic Cyst*

O.C. Kwon, M.D.*, B.Y. Kim, M.D.*, B.H. Yoo, M.D.**,
J.H. Lee, M.D.*, H.S. Yu, M.D.**

Carcinosarcoma is an unusual and rarest neoplasm in man, consisting of carcinomatous parenchyme and sarcomatous stroma. Two clinical types of carcinosarcoma were present. One type of tumor was centrally located (endobronchial type), infrequent metastasis, and better prognosis than parenchymal type. The other type was peripherally located (parenchymal type), frequent metastasis, and poor prognosis.

The histogenesis of carcinosarcoma is many hypothesis, but controversial; 1) sarcomatous degeneration of stroma, 2) intermingling of simultaneously arising carcinoma & sarcoma, 3) multiple primary tumor, 4) blastomatous changes in hamatoma, 5) stromal reaction to squamous cell carcinoma, 6) true & collision carcinosarcoma.

In this case, 52 year-old male patient was hospitalized due to intermittent hemoptysis & known pulmonary lesions. Since 1968, chest PA showed round hazziness within cyst & multiple cyst on RUL & RLL. Radical pneumonectomy was performed and histopathology showed carcinosarcoma, surrounded by bronchial epithelium.

The patient maintain general well-being without clinical evidence of recurrence till now.

I. 서 론

Pulmonary carcinosarcoma는 매우 드문 폐종양으로 폐보다는 자궁에서 가장 많이 발생하며 hypopharynx 식도, 폐 순으로 발생된다.¹⁾

조직학적 구조는 Carcinomatous parenchyme 과 Sarcomatous element 로 이루어져 있으며 조직의 생성과 정에는 아직도 논란이 많으며 세계적으로 문헌보고 예

* 이 논문은 국립의료원 임상연구비의 보조로 이루어진 것임.

**국립의료원 흉부외과

**Department of thoracic & cardiovascular surgery
National Medical Center, Seoul

도 30개 전후에 불과하다. 그러나 두종류의 악성조직이 분명히 있으며 Sarcomatous element는 조직학적으로 결체조직의 비악성 분화와는 분명히 구별된다.

본원에서는 기관지 낭종내에 발생한 Carcinosarcoma를 치험하였기에 조직학적 특성과 성상을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

환자는 52세된 남자 환자로 직업은 요리사였다. 과거력상 1968년 정규 신체검사에서 흉부 X선 촬영상 난원형의 폐 병소가 우측폐에서 발견되어 폐결핵 진단 하에 약 18개월간 규칙적인 항결핵제 투여후 완치되었다고

진단 받았다. 당시에는 뚜렷한 자각증상은 없었다. 그 이후 간헐적인 기침과 혈담을 보여 왔으며 거기에 대해 대증적인 치료만을 받았을 뿐이다.

환자는 입원 1주일전부터 계속적인 혈담을 주소로 입원하였으나 혈담외에 자극적인 기침이나 흉통, 열, 전신쇠약 및 체중감소, 호흡곤란, 전신증상은 없었다.

이학적 소견상 환자는 대체로 영양상태가 좋은 가운데 건강하게 보였으며 혈압은 120/80mmHg, 심박수 70회/분, 호흡수 18회/분이었고 호흡음은 우측이 좌측에 비해 전체적으로 떨어진 가운데 우하엽에서 거친 호흡음을 보였다. 규칙적인 심박동을 보였으며 간 비장의 비대도 없었고 병적인 신경학적 소견도 보이지 않았다.

검사소견상 혈색소치 17.2, 백혈구수 10,700/mm³ prothrombin time, Bleeding time, Clotting time은 정상범위내에 있었으며 전해질도 정상범위였다. 간기능 및 신장기능도 정상범위내였다. 객담검사상 결핵균, 곰팡이 및 균주는 모두 음성이었으며 P. Westermanni도 객담, 변, 피부점사에서 음성반응을 보였다. 객담세포검사상 두차례에 걸쳐 Squamous metaplasia를 보였으나 암세포는 보이지 않았다.

과거력상 경한 뇌졸중을 보인적이 있어 뇌 단층촬영 결과 Communicating type의 뇌수종을 경하게 보였으며 술전 시행한 Master test도 음성이었다. 폐 주사에서 우상엽 측면의 음영이 감소되었고 폐기능검사는 만족스러운 범위였다.

1968년부터 촬영한 흉부 X선 사진을 차례대로 보면 1968년 사진에서 우상엽에서 hazziness를 보이며 동시에 하엽에 낭종을 보였다. 한달뒤 상엽의 hazziness는 air-fluid 면을 가진 낭원형 병소로 변했다. 1969년 사진에서 air-fluid면은 완전히 없어진채 낭종만이 남아 있었다. 1973년 사진에서 낭종내에 다시 초생달 모양의 균일음영이 나타났으며 우하엽은 폐염음영을 보였다. 1983년부터 1984년 사진에서는 기간변화를 보이지 않고 우상엽의 낭종내를 완전히 채운 균일음영이 나타났으며 우하엽의 낭종은 그대로 남아 있었다.

기관지 조영상 우상엽의 낭종내에 균일음영과 기관지와의 직접교통관계는 보이지 않았고 종괴음영 바로위에 우후소엽 기관지와 경하게 연결되는 작은 낭종성 공간을 보였다. 우하엽에도 기관지와 교통이 의심되는 낭종성 공간이 있었다(그림 1).

술전진단으로 다발성 폐 낭종에 2차적 감염이 있는 것과 혹은 낭종내에 폐 종양이 복합적으로 있는 것으로



Fig. 1. Round homogenous shadow in RVL (→) just above round lesion, visible small cyst (▲).

진단하고 개흉을 시행하였다.

수술 육안적 소견상 막성유착이 전체에 있었으며 병소의 흉벽침윤은 없었다.

폐는 기종성 변화를 보이면서 약 5×4 cm 크기의 결절성 종괴가 우상엽의 후소엽에 위치하였으며 장축 및 벽측 흉막까지는 침투되어 있지 않았다. 우중엽 폐표면에 능막하 기포가 하나 있었고 우하엽에 횡격막에 유착된 1~2개의 낭종성 공간을 볼 수 있었다. 기관지조영상 보였던 우상엽의 낭종은 촉진상 발견하기 어려웠다. 육안적으로 종격동 및 폐문부 임파선 전이는 없는 것으로 보였으며, 폐종양과 다발성 폐낭종으로 인해 완전 폐적출술을 시행후 폐용하였다. 환자는 한차례 항암요법 후 별문제없이 퇴원하였다. 외래 추적관찰에서 지금까지(술후 1년 6개월) 전이나 폐 증상없이 건강한 생활을 하고 있다.

병리 조직학적 소견; 육안적 소견(그림 2)에서 폐종양을 절개한 결과 우상엽 후소엽에 종양이 위치하고 있었으며 크기는 약 5.5×4×3 cm 크기였고 유백색을 나타냈으며 고무정도의 경도를 보였다. 종양은 기관지와 연결은 없었고 얇은 기관지 낭종막으로 둘러싸여 있었으며 일부는 낭종의 막과 분리되어 있었고 부분적으로 minor fissure 쪽으로 뻗어 나갔다.

종양의 위쪽에 약 2 cm 크기의 낭종성 공간이 있었고 우중엽에는 능막하 기포가 있었고 우하엽에는 섬유성 막 조직으로 둘러싸인 3 cm 크기의 낭종성 공간이 있었으



그림 2. Resected Specimen

주병소가 RUL에 존재하며 이것은 얇은 막으로 둘러싸여 있고 minor fissure 쪽으로 확산되어 있다.
병소의 바로 상부에 적은 낭종이 있으며 우하엽에도 주름진 낭종을 보인다.

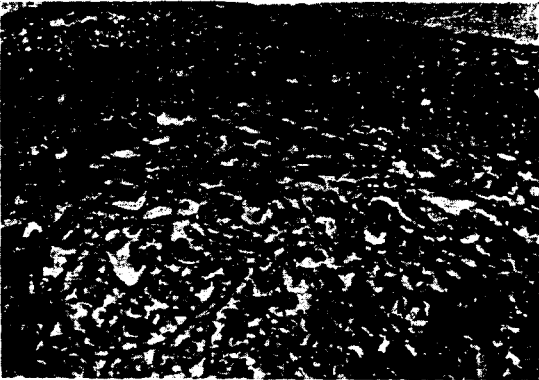


Fig. 3. Sq cell carcinoma in upper zone. Spindle-shaped sarcomatous stroma in lower zone.

나 기관지와 직접 교통로는 없었다.

현미경하 소견(그림 3)에서 종괴는 중등도 분화를 가진 편평세포암과 미분화된 Spindle-shaped sarcomatous components로 구성되어 있었다. 또 기관지 상피 세포가 잘 보존된 기관지벽으로 둘러싸여 있었다. 기관지내 종괴성장을 보였다.(endobronchial growth & Carcinoma in situ).

그리고 여러곳에 종양괴사를 보였으며 Carcinoma area에서 Sarcomatous bizarre cell로 이행되는 부위를 보여 Carcinoma와 Sarcomatous metaplasia를 시사하

였다. 그러나 세포들은 세포사이사이에 많은 비정형과 reticulin fiber를 보여 metaplasia보다는 Carcinosarcomatous growth 보는 것이 옳을 것이다. 우상·하엽에 있던 낭종성 공간은 pseudostratified ciliated columnar epithelium을 보여 기관지 낭종임을 알 수 있었다.

III. 고 안

KiKa²⁾에 의해 처음 보고된 pulmonary carcinosarcoma는 그 조직 생성과정에 많은 논란이 있다. 발생비는 남녀비로 약 4:1로 발생하며 연령분포는 35세에서 75세 까지이며 가장 많은 연령층은 50대에서 70대이다⁴⁾.

육안적으로 크게 2가지로 대별되며 혼합형도 존재한다.

첫째는 endobronchial type으로 약 2/3를 차지한다. 종양의 위치는 중앙부에 위치하며 주로 pedunculated endobronchial growth를 하며 자주 주위기관지를 따라 손가락 모양으로 퍼지나 확산은 주위 실질에 국한된다. 주 증상은 기관지 폐쇄에 의한 증상이 대부분이며 이것 때문에 일찍 발견되며 예후도 parenchymal type에 비해 좋은 것으로 되어 있다¹⁾.

둘째는 parenchymal type 으로 약 1/3 을 차지한다. 폐실질의 가장자리에 위치하며 빠른 전이를 보이며 흉벽, 주위 종격동 및 혈관구조물을 침범하여 전신증상으로 체중감소, 흉통 및 원격전이에 의한 증상을 나타낸다.

임파선 전이나 원격전이는 endobronchial type 에서는 드물며 parenchymal type 에서 훨씬 많은 빈도를 보여 후자가 나쁜 예후를 보인다^{4, 5, 7}).

본 증례보고에는 기관지내의 발생은 아니나 bronchial epithelium 으로 둘러싸인 상태에 있고 경한 주위 실질로의 확산과 임파선 전이등이 없는 것으로 보아 endobronchial type 에 속하는 것으로 본다.

Carcinosarcoma 의 조직생성과정에는 확립된 정설은 없으나 공존하는 2 가지 악성조직에 대해 Willis⁸ 등은 종양은 pleomorphic Squamous Cell Carcinoma 로 상피성 암종과 그 기질(stroma)의 Sarcomatous degeneration 으로 이루어진다고 하였다. Harvey와 Hamilton⁹ 등도 Willis 와 비슷한 의견으로 Carcinoma 내의 기질성 변화로 생긴다고 하였으나 Fould¹⁰ 등은 동시에 발생하는 Carcinoma 와 Sarcoma 가 뒤섞인 것으로 보았다. Prive¹² 와 Souza¹³ 등은 과오종내에서 악성 및 기질성 요소로 분화할 수 있는 능력을 가진 pulmonary blastoma 에서 기인한다고 생각했다(Blastomatous change).

Herxheimer¹⁴ 는 미분화된 상피남 세포가 변이에 의해 Sarcomatous Cell 로 변전된다고 보고있다. Jenkins⁶ 는 Carcinomatous Cell 과 Sarcomatous Cell 이 동시에 전이병소에서 발견된다면 carcinosarcoma 를 Carcinoma 와 Sarcoma 가 동시에 발생한다는 것을 인정할 수 있으나 이러한 증거가 거의 없으므로 Carcinosarcoma 는 Squamous Cell Carcinoma 에 대한 기질의 반응형태로 보았다(sarcomatous stromal reaction).

Bergmann³ 등은 Carcinosarcoma 를 조직형태에 따라 true carcinosarcoma 와 Collision Carcinosarcoma 로 구분하였다. True Carcinosarcoma 는 Carcinomatous element 와 Sarcomatous element 양자가 단일병소로 생기는 것을 말하며 Collision Carcinosarcoma 는 서로 뒤섞여서 나타나는 것을 말한다.

Sarcoma zone 에는 Reticulin 과 Collagen 이 풍부하며 epithelial element 와 mesenchymal element 사이에 분명한 이행지역이 있다⁴.

약 75%에서 상피요소는 squamous Cell Carcinoma 이고 나머지는 adenocarcinoma 나 Undifferentiated Car-

cinoma 이며 기질요소는 대부분 fibrosarcoma 이다.

진단적인 측면에서 임상병력이나 흉부 X선 사진은 특이소견이 못되고 세포점사에서 대부분 음성이다¹⁵. Sarcomatous Stromal element 는 기관지경을 통한 생검에서 흔히 발견된다¹⁶.

치료는 이 종양이 폐암과 같이 급격히 커지거나 일찍 전이한다는 증거는 없다. 그러나 기관지 폐쇄와 전이하기 전에 출혈등에 의한 이차적으로 상당한 사망율을 나타내므로 이관점에서 가능한 광범위 폐절제가 필요하다^{1, 4, 6, 7}).

예후는 문헌보고예에서 18개월에서 6년까지의 생존이 확인되고 있으며 마지막 추적관찰이 임상적 재발 징조없이 6년까지 보고되고 있으나 대부분 endobronchial type 에서 이런 결과를 보인다^{1, 3, 13, 17}).

IV. 결 론

비교적 드문 폐 Carcinosarcoma 를 1례 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Moore TC: *Carcinosarcoma of the lung. Surgery* 50:886, 1961.
2. Kika: *Cited by Bergmann et al.*³
3. Bergmann, M., Ackerman, L.V., and Kemler, R.L.: *Carcinosarcoma of the Lung: Review of the Literature and Report of Two Cases Treated by Pneumonectomy, Cancer* 4:979, 1951.
4. Stackhouse, E.M., Harrison, E.G., and Ellis, F.H. (1969). Primary mixed malignancies of lung: carcinosarcoma and blastoma. *J. Thorac. cardiovasc. Surg.*, 57, 385.
5. Jenkins BJ: *Carcinosarcoma of the Lung, J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 55:657, 1968.
6. Kakos GS, Williams TE, Assor D, et al: *Pulmonary carcinosarcoma; Etiologic, therapeutic, and prognostic considerations. J. Thorac Cardiovasc. Surg.* 61:778, 1971.
7. Razzuk MA, Urschel HC, Race GJ, et al: *Carcinosarcoma of the Lung. J. Thorac Cardiovasc Surg.* 61:541, 1971.
8. Willis, R.A.: *Pathology of Tumours, London, 1953, Butterworth & Co., pp. 139-141.*
9. Harvey, W.F., and Hamilton, T.D.: *Carcinosarcoma: Study of the Microscopic Anatomy and the Meaning of a Peculiar Cancer, Edinburg M.J.* 41:337-378, 1935.
10. Foulds, L.: *The Histological Analysis of Tumors. A Critical*

- Review, *Am. J. Cancer* 39:1-22, 1940.
11. Rock, D.A., and Hall, J.W.: *Squamous Cell Carcinoma of the Bronchus and Spindle Cell Sarcoma of the Lung*. *Abstr. Proc. New York Pathological Soc., 1942-1945*, pp. 16-19.
 12. Prive, L., Tellem, M., et al: *Carcinosarcoma of the Lung*. *Arch. Path. (Chicago)* 72:351-357, 1961.
 13. Souza, R.C., et al: *Pulmonary Blastomas: A Distinctive Group of Carcinosarcomas of the Lung*. *Ann. Thorac. Surg.* 1:259-268, 1965.
 14. Henzheimer, G. and Reinke, G.: *Carcinoma Sarcomatodes*. (*Pathologic des Krebses*), *Ergebn. d. allg. Path. u. path. Anat.* 16:280-282, 1912.
 15. Kern, W.H., and Jones, J.C.: *Polypoid Endobronchial Carcinosarcoma With Repeated Expectoration of Tumor Components*, *J. Thorac. Cardiovasc. surg.* 46:393, 1963.
 16. Spencer, H.: *Pathology of the lung*, ed. 2. Pergamon Press Ltd., 1968, pp. 778-848.
 17. Taylor, H.E., and Rae, M.V.: *Endobronchial Carcinoma*, *J. Thoracic Surg.* 24:93, 1952.
-