

폐내 과오종

최명석* · 임진수* · 최형호* · 장정수*

—Abstract—

Intrapulmonary Hamartoma

M.S Choi, M.D., J.S Im, M.D., H.H Choi, M.D., J.S. Chang, M.D.,

Hamartoma had been considered as a congenital malformation of a tumorous lesion since the original description by Albrecht in 1904. Pulmonary hamartoma is able to classified as endobronchial and intrapulmonary hamartoma clinically, and is considered to benign mesenchymal neoplasms which originated in peribronchial connective tissue, and so called mesenchymoma by someone.

We have experienced 3 cases intrapulmonary hamartoma which were discovered during routine chest film check up at all cases and are able to detailed histologic examination by electron microscopy at one case.

서 론

폐에서 발생하는 과오종은 인체의 다른 장기에서 발생하는 과오종보다는 그 발생 빈도가 높지만 폐 전체의 종양중에서는 비교적 빈도가 낮은 질환의 하나로서, 이는 원발성 및 전이성 종양, 그리고 결핵종 등과의 감별진단이 쉽지 않으며, 특히 폐내과오종은 건강진단 목적으로 흉부 X-선 촬영시에 우연히 발견되는 경우가 많다. 최근에는 과오종의 발생 기전이 선천성 발육이상의 결과에 기인한다기 보다는 기관지 주위의 결체 조직에서 발생하는 양성 종양이라고 생각되어 지고 있다. 저자들은 최근에 폐내과오종 3예를 수술치험 하였기에 전자현미경적 검색이 가능하였던 1예의 소견과 함께 보고하는 바이다.

증 례 1.

환자는 56세의 여자로서 5년전 자궁근종으로 자궁절제술을 받기 위하여 기본적인 흉부 X-선 검사를 한 결과 우측폐상엽에 4.3cm×3.7cm정도 크기의 난원형 음영이 발견되어 수술을 권유하였으나 거절하여 1회씩 흉부 X-선 검사로 추적중 5년후에는 5.4cm×4.5cm정도에 이르러(사진 1) 우측폐 상엽을 절제하였다. 술전 C-T소견으로는 경계가 분명하고 석회화 침착이 없는 난원형의 결절소견을 보였다(사진 2).

수술은 배후측 흉부절개로 우측 제5 늑간을 통하여 흉강을 열었을 때 우측폐 상엽에서 5×5×4.5cm 정도의 비교적 단단한 종괴를 촉지할 수 있었으며, 병리학적인 육안소견은 대부분이 노란 지방조직으로 된 종괴내에 0.5cm 정도의 연골 조직들이 군데군데에서 관찰되었으며, 종양의 전체에서 증열들이 관찰되어 마치 유두형태를 취하고 있는듯 하였다(사진 3).

광학현미경 소견상 종양의 대부분은 지방조직으로

*조선대학교 의과대학 흉부외과학교실

*Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Chosun University.

1990년 10월 30일 접수

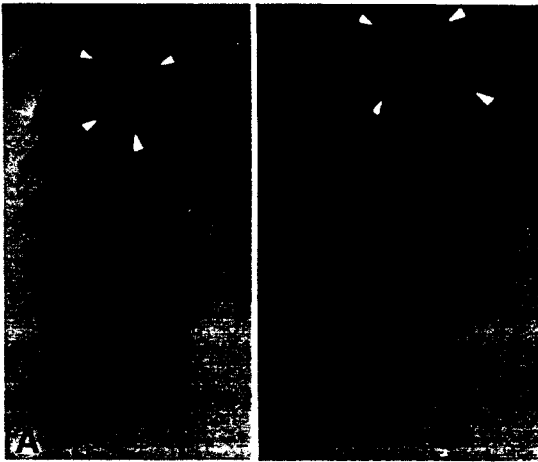


Fig. 1. Chest P-A view show enlarging coin lesion on the right upper lung field from fig A to B. (Fig A ; initial film and 4.2×3.7cm in size. Fig B; checked after 5 year from the initial film and 5.4×4.5cm in size. Arrows indicate the mass.)

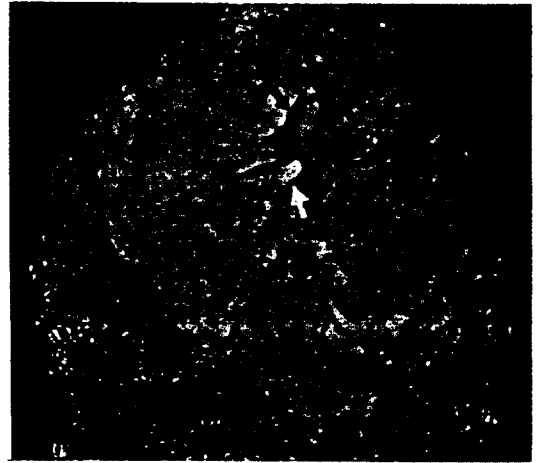


Fig. 3. Cut surface show well circumscribed and bulging neoplastic adipose tissue, numerous segments of cartilage and multiple cleft like spaces. (Dark arrow ; cleft, open arrow ; cartilage).

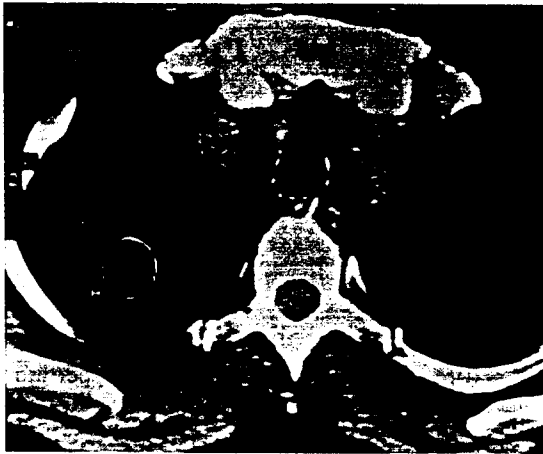


Fig. 2. Thoracic C-T scanning show a well demarcated round mass on the right hemithorax without calcification.

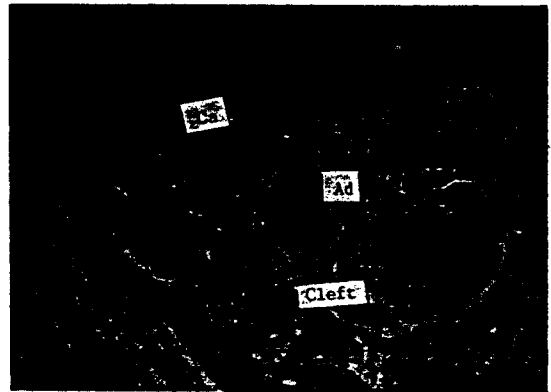


Fig. 4. Photomicrograph show cleft like spaces lined by pseudostratified ciliated epithelium, cartilage (Ca) and adipose tissue (Ad).

구성되어 있었으며 드물게는 성숙, 미성숙한 연골조직과 연골조직의 주변부에는 점액중성 조직들이 관찰되었다. 중열은 현저하게 나타나 중열사이에는 비교적 큰 공간이 나타났으며 이들은 위중층 섬모원주상피로 피복되어 있었다(사진 4).

전자현미경 소견상 중열을 피복하고 있는 상피세포에서 위중층섬모원주상피의 특징을 관찰할 수 있었는데 특히 세포의 첨부에서는 섬모가 관찰되었고 인접 세포와는 교소체에 의하여 연결되어 있었다(사

진 5). 연골세포가 미성숙세포에서 성숙세포로 진행하여가는 동안 세포질의 scalloping 이 점차 발전하여 완전한 세포질돌기가 형성되었다(사진 6). 한편 세포주위에서는 교원질이 많이 나타나며 세포질에 근원섬유의 분화가 나타난 성상의 미분화 세포가 관찰되었다(사진 7).

환자는 술후 12일만에 완쾌된 모습으로 퇴원하였다.

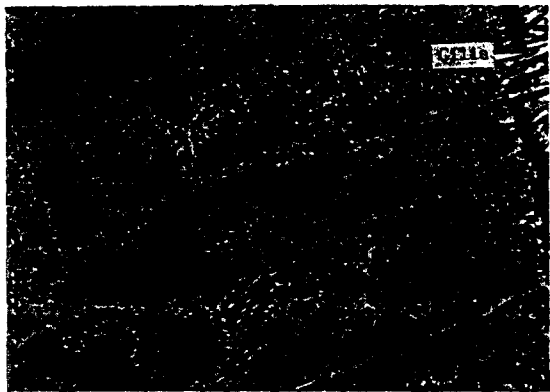


Fig. 5. Electron microscopography show pseudostriated ciliated columnar epithelium which lined the cleft. There are the cilia and desmo-some. (X 7200).

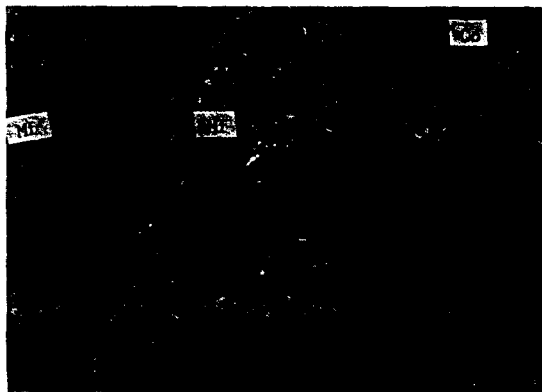


Fig. 7. Electron micrograph of undifferentiated, stellated mesenchymal cells bearing collagen (Co) and myofilament (Mf) differentiation (X 15900).

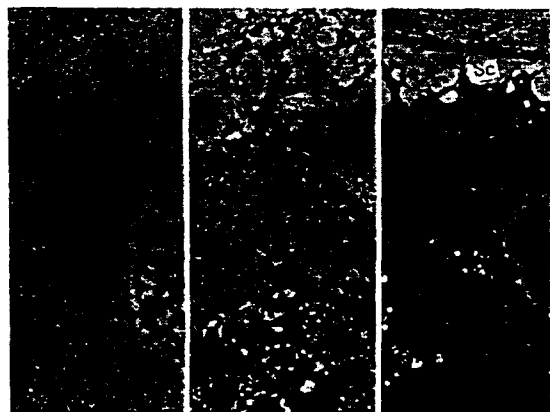


Fig. 6. Electron micrograph show developmental stage of the chondrocyte from A (immature) to B (mature). Sc : scalloping. (A : $\times 7900$, B : $\times 8400$, C : $\times 5800$).

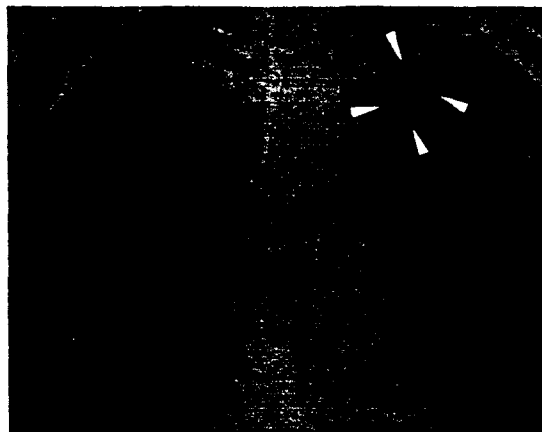


Fig. 8. Chest P-A show well demarcated, about 3cm sized coin lesion on the left upper lung field (arrow : indicate mass)

증 례 2.

환자는 39세의 여자로서 우상복부 동통 및 월경후 계속되는 Vaginal spotting을 주소로 정밀검사중 단순 흉부 X-선 사진상 좌측폐 상엽에서 직경 3cm 정도의 둥근 고립성 동전형 병변을 발견하였다(사진 8). 본 환자는 1개월후 흉부 X-선 사진상 변화는 없었으나 가끔 좌측 흉통이 있어 다시 입원, 수술을 받았다. 이때 특기할 만한 이학적 소견이나 검사소견은 볼 수 없었으며 심전도 소견도 정상소견을 보였다.

수술은 배후측 흉부절개로 제5늑간을 통하여 흉강을 열었을때 좌측 상엽의 전절에서 늑막 직하부에 있

는 직경 4cm 정도의 둥글고 단단한 종괴를 촉지할 수 있었으며 구역절제를 하였다. 종양을 절단하여 단면을 관찰하였을 때 직경이 약 3cm 정도 되는 단단한 결절성 양상을 띠고 있었다.

광학현미경 소견상 종괴는 주로 성숙한 연골조직과 위중층섬모원주상피로 구성된 층열로 구성되어 있었다(사진 9).

환자는 술후 14일만에 건강히 퇴원하였다.

증 례 3.

환자는 53세된 남자로 입원 2년 8개월전에 건강진단 목적으로 촬영한 단순 흉부 X-선 사진에서 직경

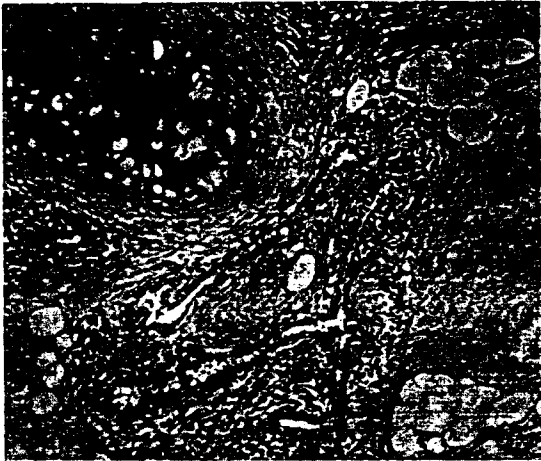


Fig. 9. Photomicrography show cleft like space lined by pseudostratified ciliated epithelium, cartilage, and adipose tissue.



Fig. 10. Cut surface of the hamartoma show mainly chondromatous component with lobulate configuration and multiple clefts.

1.5 cm의 난원형 음영이 발견되었으며, 3개월후 다시 촬영한 사진에서 유의할 만한 변화는 없었다. 본 환자는 입원 1개월전부터 기침이 심해져서 흉부 X-선 촬영결과 처음 발견되었던 음영의 크기가 직경 2.5cm 정도로 증가하였다.

입원시 특기할만한 이학적 소견이나 검사소견은 없었으며 단지 기관지경 검사에서 좌측 상부기관지가 주변에 의해서 눌러 약간의 협착을 보이고 있었다.

수술은 배후측 흉부절개로 제5늑간을 통하여 흉강을 열었을때 좌측 상부절의 늑막 직하부에서 직경

4cm정도의 단단하고 둥근 종괴를 촉지할 수 있었다.

구역절제를 하였으며, 종양의 절단면에서는 폐실질과 경계가 명확한 종괴가 회백색을 띠고 있었으며 절단면의 곳곳에서는 중열이 관찰되었다(그림 10).

광학현미경 소견상 종괴의 대부분은 성숙한 연골조직과 사이사이에서 관찰되는 중열을 피복하고 있는 위중층섬모원주상피와 입방상피로 구성되어 있었으며, 가끔 점액중성 간질조직이 관찰되었다.

환자는 수술 8일만에 건강히 퇴원하였다.

고 찰

양성 폐종양은 전체 폐종양의 1%에도 미치지 못하며 이중 과오종이 가장 많다.^{1,2)} 과오종은 드문 폐종양으로서 Mc Donald 등⁶⁾의 보고에 따르면 7972예의 부검 환자중 20예에서 발견되어 0.25%의 빈도를 보이며, Bateson⁷⁾의 분석에 의하면 2958예의 고립성 폐결절중 5.7%가 과오종 이었다. Arrigoni 등²⁾의 보고는 10년간 외과적 절제술을 시행하였던 130예의 양성 폐종양중 76.9%가 과오종 이었다.

과오종이라는 용어는 Alrecht³⁾에 의해서 처음으로 정의되어 사용되기 시작하였으며, 폐장에 발생한 과오종은 1906년 Hart⁴⁾에 의해서 처음 보고 되었다. Albrecht가 선천성 기형이라고 주장한 이래 폐내과오종의 조직형성 기원에 대해서는 많은 학설이 있으나(선천성 기형, 정상 구조물의 과형성, 신생종양, 염중성 종양), Bateson^{15,33)}은 기관지 주위의 미분화 간엽 세포에서 기원한 양성 종양으로서 상피세포는 점막표면상피의 붕입에 의하며, 내기관지성 과오종과 폐내 과오종의 기원은 동일하며 단지 발생한 위치와 성장 방향에 따라서 이렇게 나눌 수 있음을 도식으로 설명 하였다.

과오종은 성인에서 발견되며, 50대에서 호발하고, 30세 이하에서는 매우 드물며, 실제로 소아에서는 발견되지 않는다^{5,8,16)}. 대부분의 과오종에서 그 직경이 4cm미만 이지만 10cm까지 보고된 예가 있으며, 연속된 X-선 사진에서 1년에 5mm, 혹은 그 이상으로 성장하기도 하며, 조직학적으로 다발성의 chondromatous hamartoma로 구성된 30cm정도 크기의 다발성 과오종도 보고되었다^{8,11,12,13,16,17,18,23)}.

말초의 상피로 피복된 중열은 간엽조직이 증식되어 팽창하는 종괴내로 주위기관지 상피가 붕입되어

발생한 것임을 조직학적 연구에서 보여주며^{9,15)}, 전자현미경 사진에서는 세기관지 상피와 중격 피복 상피가 서로 닮았으며 기저막이 존재한다는 것을 보여주고 있다^{14,20)}. 또한 미분화 간엽세포들, 혹은 섬유화 세포양 세포들과 잘 분화된 연골근과의 점진적인 이행이 광학현미경이나 전자현미경 사진에서 관찰된다^{20,33)}. 이러한 몇가지 증거들이 Bateson의 가설을 지지해 주며, 혹자는 과오종이라는 용어가 병원론적으로 부적절하며 간엽종(mesenchymoma)과 같은 용어를 사용하여야 한다는 사람도 있다²⁸⁾.

폐과오종은 Bateson의 설명처럼 그 발생하는 부위에 따라서 비교적 큰기관지에서 발생하여 기관지 내강으로 성장을 보이는 내기관지성 과오종(endobronchial hamartoma)과 세기관지에서 기원한 종양이 폐실질내로 성장하여 마치 폐실치내에 파묻혀 있는 듯한 폐내과오종(intrapulmonary hamartoma)으로 육안 소견상 크게 분류된다. 후자가 전체 과오종의 90%정도 되며, 이 경우는 중심부에서도 발견될 수 있지만, 주로 폐말초부에서 발생하여 증상발현이 거의 없으나, 나머지 10%를 차지하는 내기관지성 과오종의 경우는 기관지 폐쇄를 일으키며, 대개 기침, 호흡곤란, 객혈, 천식음, 흉통, 그리고 발열등의 증상이 동반되며, 흉부 X-선상 기관지 폐쇄에 의한 침윤성 음영, 공동, 종양과 비슷한 음영, 늑막변화등을 보일 수 있고, 무기폐, 폐염, 폐농양등의 합병증을 초래할 수 있다^{5,32)}.

대부분의 폐과오종에서는 증상없이 지내다가 우연히 단순 흉부 X-선 촬영 사진에서 고립성 동전형 병변을 발견하여 진단 및 치료 목적의 개흉술에 의해서 확진할 수 있다. 악성종양과의 감별이 어렵고 악성변화를 할 수 있으며^{30,31,25)}, 다른 원발성 폐암종의 발병율이 대조군에 비해서 6.3배 정도 더 높고²⁹⁾, 특히 내기관지성 과오종의 경우는 심각한 합병증을 유발할 수 있기 때문에 개흉술에 의한 여러가지 절제술이나 종양적출술등의 외과적 치료를 하여야 한다. 그러나 Hamper등¹⁶⁾은 TNAB(transthoracic needle aspiration biopsy)가 86%의 진단율을 가지며, Ludwig등²⁷⁾도 11명중 10명에서 FNAB(fine needle aspiration biopsy)로 진단을 할 수 있어서 진단이나 치료목적의 외과적 수술을 피할 수 있다 하였으며, Siegelman등¹⁰⁾은 관심영역을 작은 간격으로 촬영할 CT를 이용하여 폐과오종을 진단할 수 있다면(직경

이 2.5cm 이하, smooth edge, 지방조직의 국소집합, 석회화 침착이 있는 지방조직) 병변이 작을 때 수술을 피할 수 있거나 병변이 크거나 증상이 있을 때도 폐엽 절제를 피해 폐분절, 절제나 종양 적출만 시행할 수 있다 하였다.

내기관지성 과오종은 기관지조영술 소견이 진단에 도움이 되지만 기관지선종이나 다른 암종과 감별이 필요하며²²⁾, 대개 기관지경을 이용한 조직검사로 확진이 가능하며, 치료는 일측 폐전절제술, 폐엽절제술, 폐분절 절제술, 췌기절제술등이 모두 가능하지만 술전 조직검사에 의한 확진시는 기관지경 적출술이나 기관지 절개술, 혹은 Sleeve resection도 가능하다⁵⁾. 따라서 폐기능이 감소되어 있는 경우에는 후자의 방법들이 상당히 의미있는 방법이라 생각되며, 국내에서도 김³⁴⁾, 문등³⁵⁾이 기관지내에 발생한 과오종을 기관절개로 제거하여 폐보존에 성공하였다.

결 론

저자들은 최근 폐내과오종 3예를 치험하였는데 모두 우연한 기회에 촬영한 단순 흉부 X-선 사진에서 고립성 동전형 병변을 발견하고 진단 및 치료 목적의 폐엽절제 또는 구역절제술을 시행하였으며, 광학현미경 소견상 주로 성숙 또는 미성숙 연골세포로 구성되고 의중충섬모성원주상피로 피복된 증열을 관찰할 수 있었으며, 전자현미경적 검색이 가능 하였던, 1예에서 중격피복상피가 세기관지 상피와 비슷하였으며 기저막을 관찰 할 수 있었다.

REFERENCES

1. Martini, N., and Beattie, E.J. : *Less common tumors of the lung. In General Thoracic surgery, 2nd ed. Edited by T.W. Shields. Philadelphia, Lea Febiger, 1983, p. 780.*
2. Arrigoni, M.G., et al. : *Benign tumors of the lung: a ten year surgical experience. J. Thorac. Cardiovasc. Surg., 60 : 589, 1970.*
3. Albrecht, E. : *Ueber hamartoma. Verh. Deutsch. Ges. Path., 7 : 153, 1904.*
4. Hart : *Ueber die primaren enchondrome der lunge. Ztschr Krebsforsch, 4 : 578, 1906.*
5. Joseph, F., and Tomashefski, Jr. : *Benign end-*

- obronchial mesenchymal tumors. Their relationship to parenchymal pulmonary hamartoma. *Am. J. Sug. Pathol.*, 6 : 531, 1982.
6. McDonald, J.R., Harrington, S.W., and Clagett, O.T., : *Hamartoma (often called chondroma) of the lung. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 14 : 128, 1945.
 7. Bateson, E.M. : *An analysis of 155 solitary lung lesions illustrating the differential diagnosis of mixed tumors of the lung. Clin. Radiol.*, 16 : 51, 1965.
 8. Bateson, E.M., and Abbott, E.K. : *Mixed tumors of the lungs, or hamartochondromas. A review of the radiological appearances of cases published in the literature and report fifteen new cases. Clin. Radiol.*, 11 : 232, 1960.
 9. Dunnill, M.S., and Gatter, K.C. : *Cellular heterogeneity in lung cancer. Histopathology*, 10 : 461, 1986.
 10. Siegelman, S.S., Khouri, N.F., and Scott, W. W., et al : *Pulmonary hamartoma: C-T findings. Radiology*, 160 : 313, 1986.
 11. Jensen, J.G., and Schiodt, T. : *Growth conditions of hamartoma of the lung: A study based on 22 cases operated on after radiographic observation for from one to 18 years. Thorax*, 13 : 233, 1958.
 12. Weisel, W., Glicklich, M., and Landis, F.B : *Pulmonary hamartoma, an enlarging neoplasm. Arch. Surg.*, 71 : 128, 1955.
 13. Butler, C., and Kleinerman, J. : *Pulmonary hamartoma. Arch. Pathol.*, 88 : 584, 1969.
 14. Perz-Atayde, A.R., and Seiler, M.W. : *Pulmonary hamartoma. Cancer*, 53 : 485, 1984.
 15. Bateson, E.M. : *Histogenesis of intrapulmonary and endobronchial hamartomas and chondromas (cartilage-containing tumors): A hypothesis. J. Pathol.*, 101 : 77, 1970.
 16. Koutras, P., Urschel, H.C., and Paulson, D. L. : *Hamartoma of the lung. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 61 : 768, 1971.
 17. Durke, C.S., Day, P., and Grainger, R.G., et al : *The bronchial circulation in a case of giant hamartoma of the lung. Br j. Radiol.*, 45 : 147, 1972.
 18. Madani, M.A., Dafoe, C.S., and Ross, C.A. : *Multiple hamartoma of the lung. Thorax*, 18 : 468, 1966.
 19. Sagel, S.S., and Ablow, R.C. : *Hamartoma: on occasion of rapidly growing tumor of the lung. Radiology*, 91 : 971, 1968.
 20. Incze, J.S., and Lui, P.S. : *Morphology of the epithelial component of human lung hamartomas. Hum Pathol.*, 8 : 411, 1977.
 21. Hamper, U.M., Khouri, N.F., and Stitik, F. P., et al : *Pulmonary hamartoma. Diagnosis by transthoracic needle aspiration biopsy. Radiology*, 155 : 15, 1985.
 22. Sibala, J.L. : *Endobronchial hamartomas. Chest*, 62 : 631, 1972.
 23. Petheram, I.S., and Heard, B.E. : *Unique massive pulmonary hamartoma: case report with review of hamartoma treated at Brompton Hospital in 27 years. Chest*, 75 : 95, 1979.
 24. Mark, E.J. : *Mesenchymal cystic hamartoma of the lung. N. Engl J. Med.*, 315 : 1255, 1986.
 25. Kapas, C.M., and Blackman, N. : *Adenocarcinoma arising in a hamartoma (adenolipomyoma) of the bronchus associated with multiple benign tumors. Am. J. Clin. Pathol.*, 48 : 383, 1967.
 26. Dahlgren, S. : *Needle biopsy of intrapulmonary hamartoma. Scand. J. Resp. dis.*, 47 : 187, 1966.
 27. Ludwig, M.E., Otis, R.D., and Cole, S.R., et al : *Fine needle aspiration cytology of pulmonary hamartoma. Cytol.*, 26 : 671, 1982.
 28. Van Den Bosch, J.M.M., Wagenaar, S.S., and Corrin, B., et al : *Mesenchymoma of the lung (so called hamartoma): A review of 154 parenchymal and endobronchial cases. Thorax*, 42 : 790, 1987.
 29. Karasik, A. et al : *Increased risk of lung cancer in patients with chondromatous hamartoma. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 80 : 217, 1980.
 30. Hayward, R.H., and Carabasi, R.J. : *Malignant hamartoma of the lung. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, 53 : 457, 1967.
 31. Weinberger, M., Kakos, G.S., and Kilman, J. W. : *The adult form of pulmonary hamartoma. Ann Thorac. Surg.*, 15 : 67, 1973.
 32. Fudge, T.L., Ochsner, J.L., and Mills, N.L. : *Clinical spectrum of pulmonary hamartomas. Ann. Thorac. Surg.*, 30 : 36, 1980.
 33. Bateson, E.M. : *So-called hamartoma of the lung—a true neoplasm of fibrous connective tissue of*

the bronchi. Cancer, 31 : 1458, 1973.

34. 김송명 : 기관지내에 발생한 과오종 치험 1예. 대한흉부외과학회지, 16 : 146, 1983.

35. 문성환, 박재길, 황영필, 김세화, 이홍균 : 기관지내 발생한 폐 과오종. 대한흉부외과학회지 22 : 473, 1989.
