

결핵성만성농흉벽에 원발한 T세포형 악성임파종

-1례 보고-

송 우 철* · 최 진 호* · 명 창 류* · 신 호 승*
김 병 주* · 박 희 철* · 홍 기 우* · 안 혜 경**

-Abstract-

T-cell Non-Hodgkin's Lymphoma originating in the wall of Chronic Tuberculous Empyema

-One Case Report-

Woo Chul Song, M.D.*, Jin Ho Choi, M.D.* , Chang Yul Myeong, M.D.*,
Ho Seung Shin, M.D.* , Byeong Joo Kim, M.D.* , Hee Chul Park, M.D.* ,
Ki Woo Hong, M.D.* , Hea Kyeong Ahn, M.D.**,

A 66-year-old male patient was admitted due to chest pain and dyspnea of 1 year duration. He had history of treatment for tuberculosis and pleurisy, about 40 years ago. At another hospital the patient underwent closed thoracostomy drainage for six months, and thereafter the symptom gradually aggravated.

Under the diagnosis of chronic tuberculous empyema, decortication was performed. The peel attached to the posterolateral aspect of chest wall, there was an area of soft tissues with pale-brown discoloration, extending to intercostal muscles, but sparing overlying muscles. The biopsy specimen of the lesion was pathologically diagnosed as diffuse, large T-cell non-Hodgkin's lymphoma.

A review of the literature showed that malignant lymphoma of this type have been reported exclusively from Japan but never from other countries including Korea.

After 1 year of followup period, the patient is well and stable.

서 론

결핵성 농흉을 앓거나 인공 기흉술을 시행받은 후
만성 농흉벽에 발생한 악성종양에 대한 보고는 드물고

^{1,2,3,6)}, 더구나 악성임파종에 대한 보고는 극소수이며
아직 국내 문헌에 보고된 예가 없었다^{4,5,7,8,11)}.

저자들은 40년전에 폐결핵과 늑막염으로 치료받은
후 만성 농흉이 병발한 환자에서 늑막박피술 후 면역
조직화학염색법 검사로 진단된 T세포형 악성 임파종
1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이
다.

증례

66세 남자 환자로 90년말부터 시작된 좌측 흉통과

*한림대학교 의과대학 흉부외과학교실

*Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Hallym University

**한림대학교 의과대학 병리학교실

**Department of Pathology, College of Medicine, Hallym University

점진적으로 심해지는 운동시 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 환자는 40년전 폐결핵 및 늑막염을 치료받은 과거력이 있었으며, 그 후 특별한 치료없이 지내오다가 상기 증상의 발현으로 타 병원에서 농흉의 진단하에 흉관삽관 후, 6개월 가량 치료받았으나 증상의 호전이 없어 본원으로 전원되었다.

내원당시 이학적 소견은 신장 170cm, 체중 50kg의 마른 체격으로 만성적인 병적 외견을 보였고, 혈압 120 / 80mmHg, 맥박수는 분당 90내지 100회정도이었고, 호흡수는 분당 24회정도이었다. 곤봉상 수지를 보였으며, 좌흉벽은 수축되어 호흡시 흉벽의 운동이 저하되어 있고 청진상 호흡음은 많이 감소되어 있었다.

일반혈액검사소견은 백혈구수가 $12,000/\text{mm}^3$, 혈색소 11g/dl, ESR 46mm/hr이었으며, 동맥혈 가스 검사에서는 pH 7.47, PO₂ 97mmHg, PCO₂ 40mmHg 이었다. 간기능검사와 일반소변검사는 정상이었다. 폐 기능검사에서 노력성 폐활량 52%(1.93L), 1초율 59%(1.71L), 분식최대호흡율은 44%이었다.

단순흉부사진에서 좌흉강의 대부분을 차지하는 비후된 벽을 갖는 농흉낭을 보이며, 우상폐야에는 폐결핵으로 짐작되는 섬유화와 석회화 음영이 보이고, 우하 늑골-횡격막각(Costophrenic angle)에 늑막비후

소견을 보였다(Fig. 1). 흉부전산화단층촬영 사진에서 만성 농흉의 소견과 비후된 농흉벽을 보이며, 하부의 일부에서는 이의 단절상과 흉막외 저밀도 음영을 보이며 조영제가 흡수되는 연부조직소견을 보였다. 좌흉벽은 농흉벽의 섬유화에 의해 수축되어 있었다.

수술 및 조직 검사소견

좌측 결핵성 만성 농흉의 진단하에 늑막박피술을 시행하였다. 수술 소견으로, 폐첨부에서부터 횡격막에 이르는 약 1cm 두께의 농흉벽의 흉강외벽에 심하게 유착되어 체벽측늑막도 같이 제거하였으며, 폐하엽의 장축 늑막은 비교적 잘 분리되었으나, 엽간열 부위에서는 맥락상으로 이루어진 농흉벽이 약 3cm 두께로 엽간열을 파고 들어가 있었고, 폐에는 연결되어있지 않았다.

농흉벽을 제거하고 난 후의 폐는 부분적인 석회화로 거칠게 만져졌으나, 결핵종과 같은 이상소견은 보이지 않았고 양암 호흡시 비교적 잘 팽창되었다. 제7번에서 9번 늑골간의 농흉벽에는 얇은 갈색의 불규칙한 모양의 연부조직이 있었으며, 이는 늑간근에 침윤을 보였다.

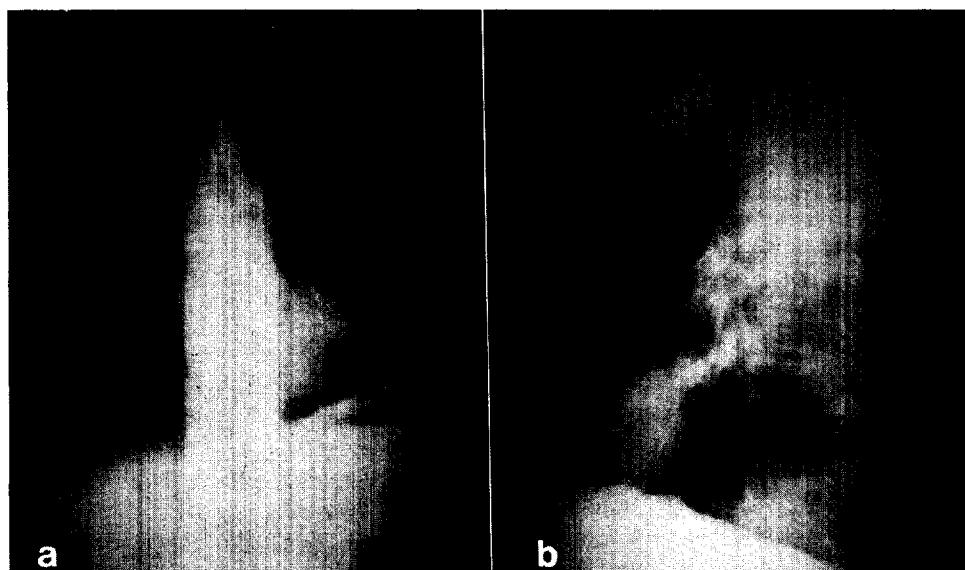


Fig. 1. The simple chest films(PA & lateral)show a diffuse increased opacity with some lobulations in the chest. Suspicious extensive medial deviation of parietal pleura by extrapleural soft tissue is suggested. Old tuberculous lesion is also noted in right upper lung.



Fig. 2. The enhanced CT scan shows the chronic thoracic empyema with irregular pleural thickening and enhancing nodular mass.



Fig. 3. The more caudal slice of the Chest CT shows discontinuity of pleural thickening, interruption(arrows) and extrapleural low density mass(extension of thoracic empyema through disrupted pleura) with extension into intercostal space, posteriorly. Also suspicious enhanced soft tissue mass is noted in the thoracic empyema cavity.

절제된 농흉낭에는 주로 괴사된 물질이 차 있었으며, 장축 농흉벽 중간부의 비후와 결절상을 보이는 것 외에는 일반농흉과 육안적 차이는 없었다(Fig. 4).

병리조직검사소견은 광범위한 괴사를 보이고 괴사되지 않은 적은 부위의 조직에는 세포 크기가 비교적 크고 다양하며 핵막이 불규칙하게 두꺼워진 핵을 가진 세포들이 판상으로 배열되어 있었으며, 뚜렷한 핵소체를 지닌 면역모세포(immunoblast)와 유사한 세포들이 섞여있었다. 종양세포 사이에는 잘 성숙된 정상 임파구들도 발견할 수가 있었다.

면역조직화학염색법을 이용하여, 이들 종양세포들

이 carcinoembryonic antigen, cytokeratin과 vimentin등에 모두 음성반응을 보임으로서 상피성 혹은 간질조직 기원의 암종을 제외할 수 있었으며, leukocyte common antigen과 T세포에 특이한 반응을 보이는 DAKO-CD3(UCHT1, Dako company)에 양성 반응을 보였다(Fig. 6).

이상의 방법으로 농흉벽에 원발한 미만성 대세포성 T세포형의 임파종으로 진단되었다.

환자는 수술후 약 3개월간은 비교적 상태가 양호하였으며, 차츰 흉통과 전신쇠약을 보였지만 보호자의 회망에 따라 현재까지 특별한 치료없이 외래 경과관찰 중이다.



Fig. 4. The cut surface of thickened peel shows fibro-necrotic tissue and some friable pale brown soft tissue(arrows) were represent malignant cells.

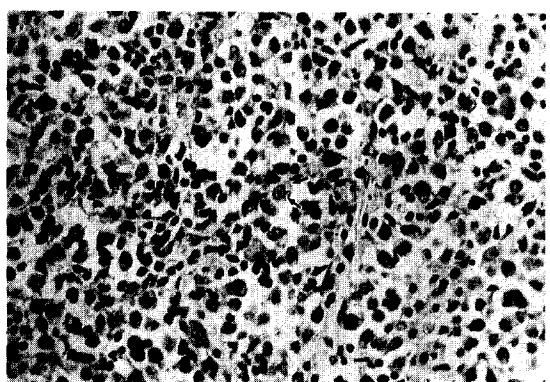


Fig. 5. Tumor cells with irregular sized large nuclei and some prominent nucleoli resembling immunoblasts(arrows) which are arranged in sheet without any organoid pattern.(Hematoxylin-Eosin Stain, $\times 400$)

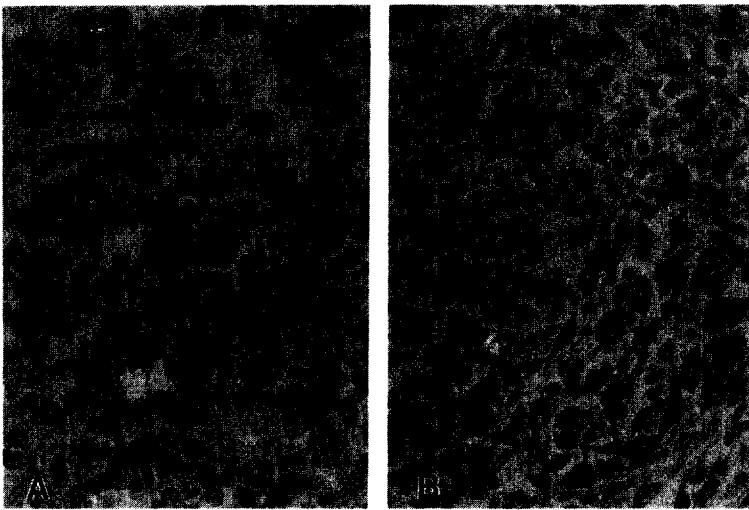


Fig. 6. Immunohistochemical stainings are positive in Leukocyte Common Antigen[A], and UCHT1(T-cell maker of DAKO-CD3) [B], ($\times 400$)

고 찰

임파절외의 장기증 늑막에서 원발성으로 병발한 악성임파종은 전세계적으로 모두 37례 보고된 매우 희귀한 질환로, 이는 모두 일본에서 보고되었다^{4,5,7,8,11)}. 보고례 모두에서 과거에 결핵성 농흉이나 늑막염을 앓거나 인공 기흉술을 시행받은 기왕력이 있으며, 심한 염증과 비후를 보이는 늑막에서 악성 임파종의 발생을 보였다.

이같이 늑막에서 발생하는 악성 임파종의 발생 기전은 아직 명확하지 않으나, 만성적 자극에 의해 B임파구의 증식되는 정도에 따라 암발생의 빈도가 커지는 것으로 보아, 만성 염증에 의한 B임파구가 증식되는 과정중 하나의 순계세포(Clone)가 암으로 발전하는 것이 아닌가 추정한다⁹⁾.

결핵성 만성 농흉이나 늑막염후 발생하는 악성 임파종에 대한 보고례는 현재까지 모두 37례이며⁸⁾ 그들의 연령 분포는 46세에서 81세로 평균 63세이며, 남녀의 비는 5.2:1로 특징적으로 남성에서 많다. 결핵성 늑막염 혹은 인공 기흉술을 시행받은 후 발병까지의 기간은 22년 내지 55년으로 평균 33년이었다.

주증상은 객담, 발열, 흉통, 혈담, 흉벽종괴이며, 그밖에 염증반응과 국소 압박감을 호소하는 경우도 있다.

조직병리소견은 미만성 대세포성이 81%를 차지하며 면역조직학적 분류로는 B세포형이 32례, T세포형이 1례¹⁰⁾로 B세포형이 대부분분이다⁸⁾. 저자들의 경험한 증례는 T세포형으로 매우 드문 증례이며, 국내에서는 최초의 증례보고이다.

일반적으로 B세포형 악성임파종의 중요한 예후 인자는 병리진단소견, 원발 병소, 병의 기간과 연령이며 절반이상에서 1년이내에 사망하였다고 보고하고 있다⁹⁾.

T세포형의 중요한 예후 인자는 병변부위의 수와 LDH 및 혈청단백의 수치로 알려져 있다. 수술로 암종을 절제하면 약 5내지 6주후에는 LDH치는 정상으로 회복된다고 하며, LDH치의 상승이 종양재발을 예고하는 지표로 보고있다⁹⁾.

특히 만성 결핵성 농흉에서 발생한 B세포형 악성 임파종의 증식 양상은 농흉강내를 중심으로 증식하여 흉벽쪽으로 진행하는 한편, T세포형은 임상례가 1례로 희귀하여 분명치 않으나, 처음부터 농흉벽쪽에서 발생하여 흉벽의 종괴를 형성하는례가 보고되어 있으며, 저자들의 경우에서도 이와 유사하나 늑간근 외부 흉벽 조직총에 침습을 보이지는 않았다¹⁰⁾.

만성 결핵성 농흉벽에서 발생하는 악성임파종의 빈도는 정상인의 임파종 발생빈도 보다 약 300배정도 높은 것으로 보고되고 있다⁹⁾. 그러므로 만성 농흉 환자를 접할 때는 언제나 이를 염두에 두어야 할 것으로 사

료된다. 종물 음영의 확인율은 단순흉부 X-선 사진에서는 35%, 흉부 전산화 단층촬영은 77% 확인율을 보인다⁸⁾. 저자들의 증례에서는 광범위한 병변으로 인해 단순흉부사진상에서는 종물을 확인하지 못하였으나 흉부 전산화 단층촬영에서는 유효하였다.

치료는 술후에 방사선조사요법과 화학적요법이 있으나 별효과는 없는 것으로 보이며, 정기적으로 흉부 전산화 단층촬영으로 늑막병변의 조기 발견과 조기 수술만이 중요한 것으로 사료된다.

결 론

저자들은 66세 남자환자에서 병발한 결핵성 만성 농흉으로 늑막박피술을 시행한 후 면역조직화학염색법 검사로 확진된 T세포형 악성임파종 1례를 치료하였다. 아직 국내 문헌에 보고된 예가 없기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Deaton W.R. Jr. *Carcinoma arising in chronic empyema cavity. Case report with review of the literature. Dis Chest* 1962; 42: 563-566
2. Willen R., Bruce T., Dahlstrom G., Dubiel WT. *Squamous epithelial cancer in metaplastic pleura following extrapleural pneumothorax for pulmonary tuberculosis. Virchow Arch A Path Anat and Histol* 1976; 370: 225-231
3. Murota Y., Ohtsuka T., Nagata H., Hayakawa K., Takahashi M. *Two cases of reticulum cell sarcoma of the chest wall and diaphragm complicated by pyothorax. Jpn J Chest Dis* 1977; 36: 619-626
4. Watanabe S., Hitomi S., Nakamura T., et al. *A clinical study of six surgically treated patients with malignant tumors arising from chronic pleuritis and pyothorax. J Jpn Assoc Thorac Surg* 1989; 37: 281-286
5. Luchi K., Ichimiya A., Akashi A., et al. *Non-Hodgkin lymphoma of the pleural cavity developing from long-standing pyothorax. Cancer* 1987; 60: 1771-1775
6. 益田貞彦, 堤正夫, 佐藤信英: 肺胸に合併した胸壁脂肪肉腫. 日胸疾會誌 1973; 11: 676-681
7. 門倉光隆, 平田正信, 荒井他嘉司, 等, 人工氣胸後, 胸膜に発生した Non-Hodgkin 悪性 リンパ腫 2 手術例. 肺癌 1986; 26: 795-801
8. Iuchi K., Aozasa K., Yamamoto S., et al. *Non-Hodgkin's lymphoma of the pleural cavity developing from long-standing pyothorax. Summary of clinical and pathological findings in thirty-seven cases. Jpn J Clin Oncol.* 1989; 19: 249-257
9. 下山正徳: 日本における非ホキソリンバ腫研究の展開. 癌と化學療法 1988; 15: 3169-3188
10. 鶴原敬三, 神 德子, 小柳津直衛, 森井外吉 胸壁原発範外性悪性リンパ腫の 1剖検例. 癌の臨床 1987; 33: 1287-1293
11. Minami M., Kawauchi N., Yoshikawa K., Itai Y., Kokubo T., Iguchi M., Masuyama S., Takeuchi K., Iio M. *Malignancy Associated with Chronic Empyema. Radiologic Assessment Radiology* 1991; 178: 417-423