

□ 증 례 □

기관에 발생한 평활근종 1예*

가톨릭대학교 의과대학 내과학교실

김치홍 · 최영미 · 이숙영 · 권순석 · 김영균
김관형 · 문화식 · 송정섭 · 박성학

= Abstract =

A Case of Leiomyoma of the trachea*

Chi Hong Kim, M.D., Young Mi Choi, M.D., Suk Young Lee, M.D., Soon Seog Kwon, M.D., Young Kyoon Kim, M.D.
Kwan Hyoung Kim, M.D., Hwa Sik Moon, M.D., Jeong Sup Song, M.D. and Sung Hak Park, M.D.

Department of Internal Medicine, Catholic University Medical College, Seoul, Korea

Leiomyoma of the trachea is a very rare tumor, and the tracheal tumor is frequently misdiagnosed and treated as bronchial asthma. We report here a case of leiomyoma of the trachea which was successfully resected. A 40-year-old woman has suffered from a repeated episode of asthmatic attack for two years. Intensive therapy for asthma had no beneficial effect on her respiratory symptoms, and wheezing and stridor did not disappear. Chest CT and bronchoscopy revealed a pedunculated mass on the trachea just above the carina. Wedge resection of the trachea and right main stem bronchus including the tumor and end-to-end anastomosis was performed. The result of the pathologic examination of the tumor was tracheal leiomyoma. Her postoperative course was uneventful and postoperative bronchoscopic findings showed clear healing of the anastomosis site.

Key Words: Tracheal Leiomyoma

서 론

호흡기계에 발생하는 원발성 평활근종은 매우 드물어 전세계적으로 그 보고가 얼마되지 않는데¹⁾, 그중 90% 정도는 기관지나 폐실질에 발생한 것이고 기관에 발생한 예는 더욱 드물어 대개 개별적인 증례보고로 되어 있다¹⁻⁵⁾. 저자들의 문헌검색결과 기관에 발생한 평활근종은 1955년 Dorenbusch에 의해 처음 보고되었고²⁾ 그 후 전세계적으로 수십에 정도만이 보고 되었을 뿐이다^{1-5,7-8)}. 우리나라에서는 1967년 황성천 등이 폐에 발생한 평활근종 1예를 보고하였고⁹⁾, 1985년 유영만 등이 좌측 주기관지에 발생한 기관지평활근종 1예를 보고한

것이¹⁰⁾ 전부이다. 따라서 본 증례는 기관에 발생한 평활근종으로서는 국내에서의 첫 보고가 아닌가 생각된다. 기관에 생긴 종양은 단순 촬영에서 발견하기 어렵고 반복되는 간헐적인 호흡곤란 및 천명음을 나타내므로 확진 전에는 대개 기관지 천식으로 오인되고 있다. 저자들은 최근 기관지 천식의 진단하에 2년동안 여러 병, 의원에서 치료를 받았으나 호전이 없던 40세 여자 환자에서 흉부 전산화 단층촬영 및 굴곡성 기관지경 검사로 기관내의 종양을 확인하고 수술적 제거로 확진, 완치된 기관에 발생한 평활근종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 최○녀, 여자, 40세

*본 논문은 1993년도 가톨릭 중앙의료원 임상연구비의 일부로 이루어 졌음.

주소 : 호흡곤란, 발작적 기침.

과거력 : 특이사항 없음.

가족력 : 특이사항 없음.

현병력 : 환자는 내원 2년전부터 간헐적인 호흡곤란 및 기침, 천명음이 있어 인근 병, 의원에서 기관지 천식 진단하에 치료하던 중 내원 하루전 부터 심해진 호흡곤란, 기침, 객담, 천명음을 주소로 본원 응급실 경유 입원하였다.

이학적 소견 : 환자는 다소 비대한 편으로 내원 당시 목시 숨찬 모습을 하고 있었고, 혈압은 160/90 mmHg, 맥박수는 분당 100회, 호흡수 분당 26회, 체온은 37°C 였다. 이학적 검사상 의식은 명료하였으며, 안면의 모양은 둥글어서 월상변화(moon face)를 보이고 있었다. 경부 임파절은 촉지되지 않았으며, 청진상 심음은 규칙적이었고 심잡음은 들리지 않았으나, 양측 폐야에서 거친 호흡음과 함께 심한 흡기 및 호기시의 천명음이 들렸다. 복부검사상 비정상적으로 촉지되는 것은 없었으며, 그의 사지 및 신경학적 검사상 특이 소견이 없었다.

검사실 소견 : 내원당시 말초혈액 검사상 혈색소 13.4 g/dL, 적혈구 용적 42%, 백혈구 8,800/mm³, 혈소판 171,000/mm³였다. 산소투여전에 채취한 동맥혈 가스 검사상 pH 7.45, PaCO₂ 34 mmHg, PaO₂ 69 mmHg,

HCO₃ 24 mmol/L였다. 혈청화학 검사상 공복시 혈당 94 mg/dL, BUN 9.2 mg/dL, 크레아티닌 1.1 mg/dL, 총단백 6.4 g/dL, 알부민 3.7 g/dL, 콜레스테롤 182 mg/dL, 중성지방 82 mg/dL, AST 32 U, ALT 29 U, Alkaline Phosphatase 175 IU/L, 요 산 3.6 mg/dL, Na 135 mEq/L, K 3.5 mEq/L, Cl 108 mEq/L, Ca 8.9 mg/dL, Phosphorus 2.8 mg/dL였다. 3회에 걸쳐 시행한 객담 항산균 도말검사상 모두 음성하였고, 객담 세포진 검사도 음성이었다.

방사선학적 소견 : 내원당시 찍은 단순 흉부 사진상 특별한 이상소견을 발견할 수 없었다. 그러나 흉부 전산화 단층촬영 실시후 재검토한 결과 기관분지부의 우측 바로 위에 성인 손톱만한 크기의 희미한 종괴음영을 확인할 수 있었다(Fig. 1). X-선 투시검사에서 얻은 사진에서 종괴음영을 더욱 명확하게 확인할 수 있었다(Fig. 2). 흉부 전산화 단층촬영 사진상 기관분지부의 우측 직상방에 위치하는 약 3×1.5 cm의 경계가 분명한 종괴음영을 관찰할 수 있었다(Fig. 3).

임상 경과 : 환자는 입원후 중증 천식에 준하여 amino-

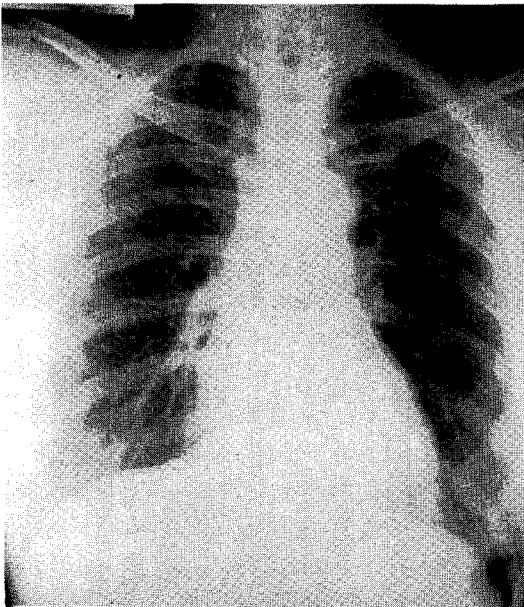


Fig. 1. Chest PA showed no definite abnormality.

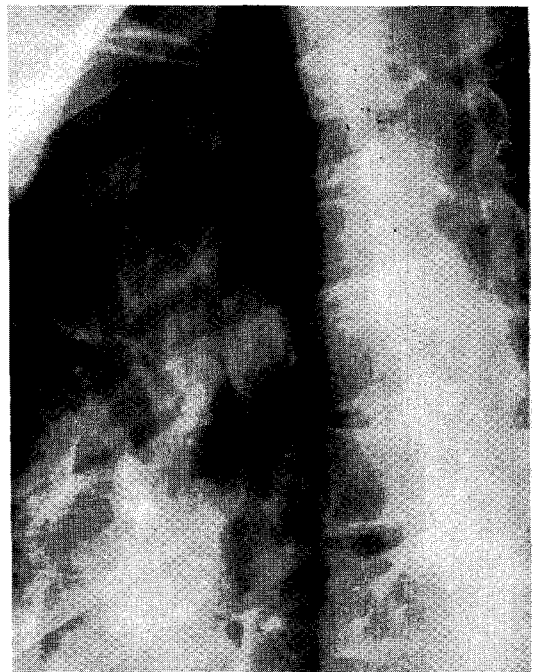


Fig. 2. Right anterior oblique chest by fluoroscopy showed adult finger tip sized mass shadow of the lower trachea just above the carina.

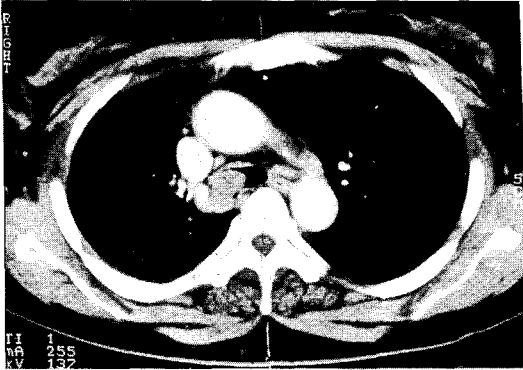


Fig. 3. Chest CT showed about 1.5×3 cm sized well demarcated homogenous increased density at right lower tracheal wall just above the carina.

phylline을 정맥투여하였고, 동시에 스테로이드를 투여하기 시작하였다. 개인병원에서 오랫동안 스테로이드의 투여를 받은 까닭에 환자는 이미 의원성 쿠싱증후군(Iatrogenic Cushing syndrome)에 합당한 얼굴 모습을 하고 있었으며, 어느 정도 증세의 호전을 보여 스테로이드의 투여 용량을 감량하면 다시 증세가 악화되는 스테로이드 의존성 천식의 양상을 보였다. Nebulizer를 통해 Salbutamol과 Cromolyn sodium의 투여를 병행하였고 스테로이드의 감량을 위해 anti-inflammatroy agent로 methotrexate의 투여를 시작 하였으나, 환자의 증세가 악화되면 다시 감량하던 스테로이드의 용량을 증량하여야 했다. 지속적인 집중치료에도 불구하고 흡기시와 호기시의 천음 및 천명음이 입원기간중 계속적으로 들리고 환자상태의 호전이 없어 단순한 기관지 천식이 아닌 흉곽외폐쇄(Extrathoracic obstruction)를 의심하게 되었고 이의 확진을 위해 굴곡성 기관지경 검사를 계획 하였으나, 환자가 정서적 불안이 심하고 증세의 호전이 없음을 비판하여 매우 불안정한 상태이며 심한 호흡곤란이 계속되어 환자가 이를 견디지 못할 것으로 생각되었고, 기관지경 검사를 통한 조직검사시의 대량 출혈을 우려하여 우선 흉부 전산화 단층 촬영을 시행하여 종양의 유무를 확인하고자 하였다. 흉부 전산화 단층 촬영상 전술한 바와 같은 소견이 발견되어 기관에 발생한 악성종양을 의심하였고 치료적 시도로 16일간에 걸쳐 총 3,200 cGy의 방사선 치료를 시행하였다. 방사선 치료후의 추적 사진에서 종괴의 크기가 줄어든 소견은 발견되지 않았으나 환자의 주관적 증상은 많은 호전을 보

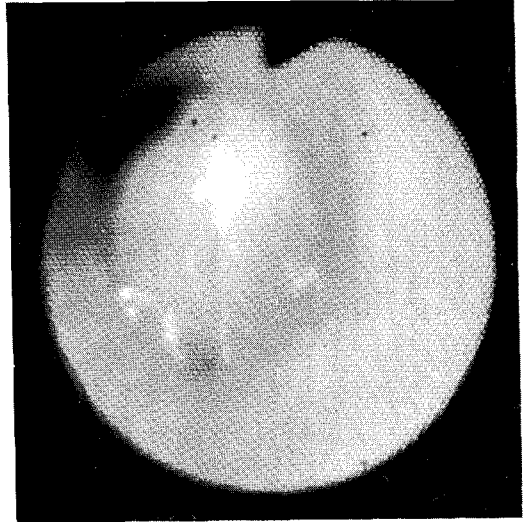


Fig. 4. Fiberoptic bronchoscopy (Preop.) revealed a finger tip sized mass just above the trachea obstructing right main stem bronchus.

였고, 청진상 천음도 감소되는 양상을 보였다. 환자의 상태가 호전된 후 시행한 굴곡성 기관지경 검사상 기관 분지부 직상부의 기관 우측에 성인 손톱만한 크기의 종괴가 우측 주기관지의 입구를 덮고 있는 것이 관찰되었다(Fig. 4). 굴곡성 기관지경은 종괴를 통과하여 우측 주기관지내로 들어갈 수 없었으며, 좌측폐의 기관지는 정상 소견을 보이고 있었다. 흉부외과 의료진과 마취상의 문제와 수술방법을 토론했던 후 이 종괴를 수술적으로 제거하기로 결정하고 환자를 전과하여 수술을 시행하였다.

수술 후 환자는 비교적 양호한 임상경과를 밟았으며, 호흡곤란을 조절하기 위해 사용하던 기관지확장제 등의 투여 없이도 호흡곤란, 천명음 등의 증상이 소실 되었으며, 수술후 10병일에 시행한 추적 기관지경 검사상 이전에 보이던 종괴가 완전히 제거되었고 문합부위의 약간의 부종을 제외하고는 정상적인 소견을 보였다(Fig. 5).

환자는 호흡기 증상이 완전히 사라진 상태로 퇴원하였고 현재 외래에서 추적 관찰중이다.

수술 소견 : 성인 손톱만한 크기의 종괴가 기관분지부의 직상방 기관내벽에 아주 단단히 붙어 있었으며, 표면은 매끈매끈하였고 황백색을 띠고 있었으며 혈관이 풍부하였다. 3 cm 정도의 기관과 우측 주기관지를 쪼개모양으로 절제한후 양측 절제부위를 서로 문합하였다.

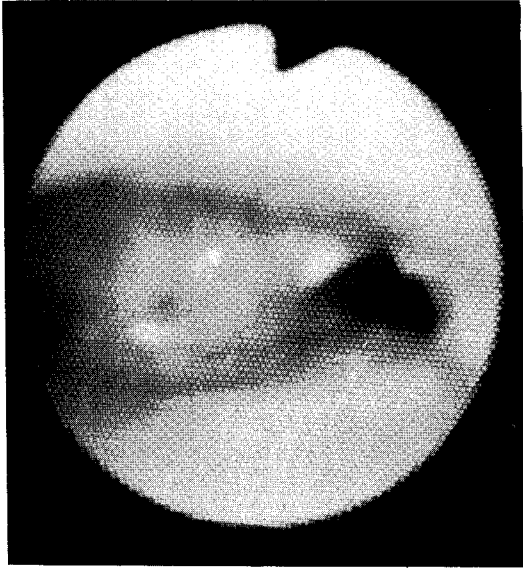


Fig. 5. Follow up bronchoscopy (Postop.) revealed an opening of the right main stem bronchus which is the result of successfully resected tracheal tumor. Mild edema of the anastomosis site was also noted.

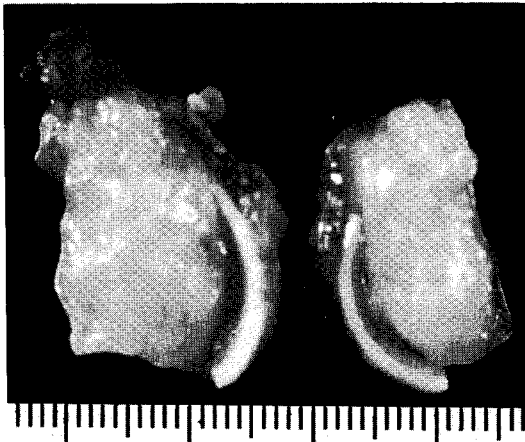


Fig. 6. Gross finding of the tracheal tumor. A $3 \times 1.5 \times 1.0$ cm sized polypoid mass was firmly attached to the tracheal wall.

조직 소견 : $3 \times 1.5 \times 1.0$ cm 크기의 용종모양(poly-poid)의 종괴가 기관에 단단히 붙어 있었으나 종괴 자체는 물렁물렁하였고 종괴를 절개해보니 황색의 반짝거리는 모습을 보이고 있었다(Fig. 6).

현미경 소견상 근세포들이 나란히 주행하는 평활근종

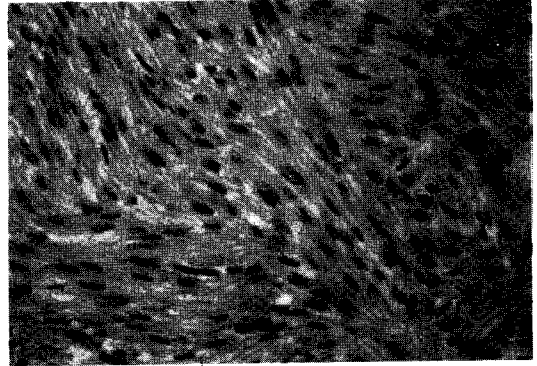


Fig. 7. Microscopic finding of the tracheal mass ($\times 400$). Bundles of spindle cells intersecting each other at wide angles consistent with leiomyoma.

(leiomyoma)의 전형적인 소견을 보였다(Fig. 7).

고 찰

평활근종은 주로 위장관계통에 흔히 발생되는 양성종양으로 이에 대한 보고는 매우 많으나, 호흡기에 발생한 원발성 평활근종은 매우 드물어 전세계적으로 그 보고가 얼마되지 않고 그중에서 90% 정도는 기관지나 폐실질에 발생한 것이고 기관에 발생한 예는 수십 증례에 불과해서¹⁾, 저자들이 문헌검색한 바로는 1955년 Dorenbusch가 처음 보고한 후²⁾ 간헐적으로 개개의 증례보고들이 이루어지고 있다^{3-4,12)}.

기관에 발생하는 양성종양은 매우 드물지만 정확히 진단하면 수술적 제거로 완치되어 현저한 증상의 호전이 오므로³⁾ 진단이 매우 중요하나 크기가 작은 경우 단순 촬영에서 발견되기 어렵고 또 그 회유성으로 인해 기관내 종양을 의심하기가 어렵기 때문에 문제가 된다. 본 증례도 단순 촬영에서는 기관내 종양의 존재를 인지하기 힘들어 처음에는 단순한 난치성 기관지 천식으로 오인되었었다.

기관평활근종에 대한 그동안의 보고들을 검토해보면 40~50대에 가장 많이 발견되고 여자에서 더 많은 것으로 알려져 있다¹⁾. 임상증상으로는 병변으로 인한 기도의 폐쇄성 변화로 인해 단순한 기침에서부터 발작적 천명음까지의 다양한 임상 양상이 간헐적 또는 지속적으로 나타나며, 병변의 계약성변화나 이차적 감염과 연관되어 점액성, 농성 객담 등이 올 수 있으며 일부에서는 객

혈이 나타나기도 한다²⁻⁵⁾.

보통 폐쇄성 폐질환의 형태를 보이고 증상의 일중 또는 연중변동이 있기 때문에 대부분의 환자가 확진될 때까지 수년동안 기관지천식으로 진단받고 치료를 받아온 기왕력이 있다¹⁻⁵⁾. 그러므로 최근에 천식증상이 발생한 40세 이상의 환자에서 발작성 야간 호흡곤란이 있거나 체위변화에 따라 천명음이 심해진다면 한번쯤은 기관을 폐쇄하는 이물이나 종양의 존재를 의심해 보아야 한다¹⁻⁴⁾.

기관내 종양의 진단은 방사선학적 검사를 통해 간혹 단순 흉부사진 특히 측면 사진에서 음영이 발견될 수 있으나 크기가 작은 경우 간과해 버리기 쉽기 때문에 전술한 임상양상을 보이는 환자에서 기관내 종양의 존재를 의심하여 추구하는 것이 진단의 관건이 된다. 확진은 기관지경 검사에 의해 이루어지고 종양의 성상에 대한 확진은 기관지경을 이용한 조직검사나 수술적으로 제거된 표본의 광학 현미경적 검사로 이루어지나 감별이 안될 경우 전자현미경으로 검사하기도 한다¹⁾.

기관평활근종은 보통 직경 1~2.5 cm 정도로 비교적 크기가 작으며, 기관내의 분포는 다양해서 상, 중, 하부에 골고루 분포하는 것으로 알려져 있다¹⁾. 기관평활근종의 기원부위는 보통 평활근섬유가 풍부한 기관의 막부(membranous portion)로 생각된다^{1,3,11)}. 육안적 소견상 둥글고 단단한 모습을 보이며 특징적인 소견은 없으나 간혹 낭종성 변성(cystic degeneration)을 보이는 부위도 있다²⁾. 보통 무경성(sessile) 혹은 넓은 유경성(widely pedunculated)의 내부로 증식하는(endophytic) 폐쇄형 종양이나 간혹 외장성(exophytic)인 경우도 있다³⁾. 어느 경우건 기관의 내경이 좁아져 환자는 수년동안 천식양 발작으로 고생을 하게 된다. 조직학적으로는 방추세포의 다발들이 서로 넓은 각도로 교차하는 것이 특징적인 소견이 된다²⁾. 평활근종이 평활근육종으로 악성변화를 했다고 하는 보고가 있으나¹²⁾ 뒷받침할만한 증거는 거의 없는 실정이다.

기관평활근종을 기관지경을 이용하여 제거한 보고도 있고^{1,13-14)} 기관절개술을 이용하여 국소적으로 제거한 보고도 있으나¹⁾ 종양의 완전한 절제가 이루어졌다고 보기는 어렵고, 기관평활근종의 크기가 비교적 작고 기관수술을 위한 마취기술의 발전이 이루어졌음을 감안하면 본증례와 같이 개흉술을 통한 종양을 포함하는 기관의 부분절제와 양단단문합술(segmental resection with

end-to-end anastomosis)이 가장 좋은 치료법으로 알려져 있다¹⁵⁾.

요 약

저자들은 최근 기관지 천식의 진단하에 치료를 받았으나 호전이 없던 40세 여자 환자에서 흉부 전산화 단층촬영 및 굴곡성 기관지경 검사로 기관내의 종양을 확인하고 수술적 제거로 확진, 완치된 기관에 발생한 평활근종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Yellin A, Rosenman Y, Lieberman Y: Review of smooth muscle tumors of the lower respiratory tract. *Br J Dis Chest* 78:337, 1984
- 2) Dorenbusch AA: Leiomyoma of the trachea. *AMA Arch Otolaryng* 61:470, 1955
- 3) Foroughi E: Leiomyoma of the trachea. *Dis Chest* 42:230, 1962
- 4) Greer AE, Winn GL: Leiomyoma of the trachea. *J Thor Surg* 33:237, 1957
- 5) Sanders JS, Carnes VM: Leiomyoma of the trachea. *N Engl J Med* 264:277, 1961
- 6) Peleg H, Puzner Y: Benign tumors of the lung. *Dis Chest* 47:179, 1965
- 7) Shirakawa T, Takenaka S, Matsumoto T, Hirata N, Nishimura S, Fukuda K, Tanaka F, Shima K, Miyayama H: A case of leiomyoma of the trachea. *Nippon-Kyobu-Shikkan-Gakkai-Zasshi* 29:1464, 1991
- 8) Shimizu J, Watanabe Y, Hayashi Y, Oda M, Iwa T, Takamatsu H, Fujimura M, Mizukami Y: A case of leiomyoma of the intermediate bronchus. *Kyobu-Geka* 44:316, 1991
- 9) 황성천, 표창현: Pulmonary Leiomyoma의 1예, 대한의과학회잡지 9(8):493, 1967
- 10) 유명만, 손광현, 김동순, 고일항: 기관지평활근종 1수술치험례, 대한흉부의과학회지 18(4):817, 1985
- 11) Aakhus T, Mylius EA: Leiomyoma of the lung. *Acta Chir Scand* 124:372, 1962
- 12) Glennie JS, Harvey P, Hewsbury P: Two cases of leiomyosarcoma of the lung. *Torax* 14:327, 1959
- 13) Unger L: The recognition on nonallergic asthma. *Dis Chest* 22:671, 1952
- 14) Harris PF, Maness GM, Ward PH: Leiomyoma of

the larynx and trachea: Case reports. South Med J
60:1223, 1967

15) Kitamura S, Maeda M, Kawashima Y, Masaoka A,

Manabe K: Leiomyoma of the intrathoracic tra-
chea. J Thorac Cardiovasc Surg 57:126, 1969