

후종격 용모막암종 - 1 례 보고 -

김수성* · 배한익** · 김정란** · 이영현*** · 심재철**** · 이규춘*****

=Abstract=

Choriocarcinoma in Posterior Mediastinum - A case Report -

Soo Sung Kim, M.D.* , Han Ik Bae, M.D.** , Jung Ran Kim, M.D.** ,
Young Hyun Lee, M.D.*** , Jae Chul Shim, M.D.**** , Kuy Chun Lee, M.D.*****

Primary mediastinal choriocarcinoma is characteristically seen in young males presenting with the symptoms of cough, chest pain, and gynecomastia.

A 33-year-old woman was admitted to the hospital because of severe dyspnea and chest pain which was aggravated rapidly 2 or 3 days ago. Posterior mediastinal mass measuring about 13 cm in diameter was seen in Chest P-A, left lateral view of chest, and chest CT. Serum β -HCG level was markedly elevated up to 200,000 mIU. Whole body CT and other studies could not find any lesion on ovary and uterus. But, a single nodule measuring about 1 cm in diameter was identified in the brain CT.

The tumor cells (syncytiotrophoblastic cells) from resected mass revealed positivity on immunohistochemical staining for β -HCG.

She was treated with EMA-CO after resection of tumor. But, 7 months later, she was readmitted and showed cerebral hemorrhage due to metastatic choriocarcinoma. She was operated again for the brain tumor, and was doing well for further 7 months.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1997 ; 30 : 462-6)

Key words : 1. choriocarcinoma
2. mediastinum

* 동국대학교 의과대학 흉부외과학교실

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

** 동국대학교 의과대학 병리학교실

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

*** 동국대학교 의과대학 내과학교실

*** Department of Internal Medicine, College of Medicine, Dongguk University

**** 동국대학교 의과대학 산부인과학교실

**** Department of Obstetrics and Gynecology, College of Medicine, Dongguk University

***** 동국대학교 의과대학 신경외과학교실

***** Department of Neurosurgery, College of Medicine, Dongguk University

논문접수일 : 96년 9월 9일 심사통과일 : 96년 10월 25일

책임저자 : 김수성, (780-350) 경북 경주시 석장동 1090-1 동국대학교 경주병원 흉부외과학교실, Tel. (0561) 770-8237, Fax (0561) 770-8500



Fig. 1. Preoperative Chest CT shows well-margined huge heterogeneous low density mass lesion at the posterior aspect of left lung. The lung parenchyma was displaced anteriorly by the huge mass.

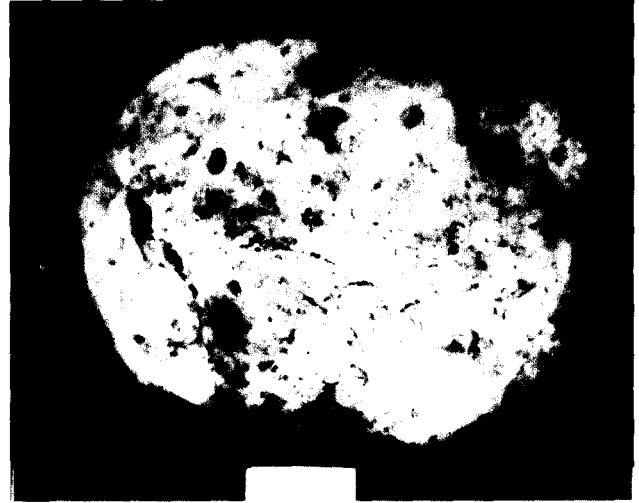


Fig. 2. The cut surface of the ovoid tumor mass shows yellowish brown hemorrhage, and geographic necrosis is evident.

증 례

33세 여자 환자로 약 3개월 전부터 기침과 약간의 객담이 있어 약국에서 감기약을 복용하였으나 증상이 호전되지 않은 상태에서 지내다가 약 1개월 전부터 전신쇠약감, 식욕부진, 체중감소 등이 발생하고 기침도 심해졌으며, 약 2 일 전부터 양측 견갑골 사이와 전흉부로 방사되는 통증이 심해져 내원하였다.

기왕력상 약 6년전 교통사고로 방광 파열과 양측 대퇴골 골절로 타 병원에서 수술 받은 적이 있으며, 출산력은 0-0-3-0이었고, 마지막 유산으로 기록된 것은 약 5 개월전 임신 반응 검사에서 양성이었지만 초음파검사서 임신양이 보이지 않아 유산된 것으로 간주되었었다.

내원당시 혈압 100/60mmHg, 호흡수 19/분, 맥박 76/분, 체온 36.3℃였으며, 이학적 검사상 전체적으로 급성 질환의 소견이었고, 좌측 후흉부에서 호흡음이 감소된 외에 특이한 소견은 없었다.

내원 당시 흉부 단순 촬영과 컴퓨터 단층 촬영에서 경계가 분명한 직경 13cm 정도의 종괴가 후종격에 위치하고 있는 것이 확인되었다(Fig. 1).

입원당시 일반 혈액검사, 간기능검사, 및 소변검사 소견은 정상범위였으나, 혈중 β -HCG 치는 20만 mIU/ml 이상으로 매우 높았다.

기관지경 검사상 기도에서는 아무런 이상소견도 발견되지 않았다.

원발성 병소나 전이된 병소를 찾기 위해 전신 컴퓨터 단층 촬영과 bone scan을 실시한 결과 뇌의 전두-두정엽에 크기 1cm 정도의 결절이 있고 우측 부신에 크기 2.5

cm의 낭종이 발견된 외에 생식기관에서는 아무런 병변도 발견되지 않았다. 초음파 검사에서도 난소나 자궁 등의 생식기관에서 아무런 병변이 발견되지 않았다.

수술소견으로는 직경 약 13cm 정도의 종괴가 후종격에서부터 자라나면서 폐를 전방으로 전위시키고, 종양표면에는 아주 많은 혈관이 공급되고 있었다. 종양은 공급되는 모든 혈관을 결찰 분리한 후 제거할 수 있었다.

적출된 종괴의 크기는 13×10×8cm, 무게는 555g 이었고, 부분적으로 섬유성 피막으로 싸여져 있었으며, 고무같은 탄력성을 보이고 있었다. 그 절단면은 부서지기 쉬운 황갈색의 해면상 조직이었고, 출혈과 괴사가 여러 곳에서 관찰되었다(Fig. 2).

종양의 조직학적 소견은 기둥(column)을 형성하고 있는 다각형의 고염색성 영양막세포들(trophoblastic cells)이 주종을 이루고 있었으며(Fig. 3), 융합세포형양막세포(syncytio-trophoblast)가 소의 주변에서 흔히 관찰되었고, 분명한 세포영양막(cytotrophoblast)도 가끔 발견되었다(Fig. 4). 종양의 기질에는 흔히 염증세포가 침윤되어 있었고, 종양은 비교적 미분화된 소견이었다. Human chorionic gonadotrophin 에 대한 면역 조직화학적 검사에서 종양세포가 양성을 나타냈으며, 특히 융합세포형양막세포(syncytiotrophoblastic cell)가 강한 양성 소견을 보였다(Fig. 5).

수술후 환자는 특별한 합병증 없이 회복되었으며, 수술 후 18일째에 EMA-CO (E:Etoposide, M:Methotrexate, A:Actinomycin D, C:Cytoxan, O:Vincristine sulfate) 1 차를 투여받은 후 퇴원하였다.

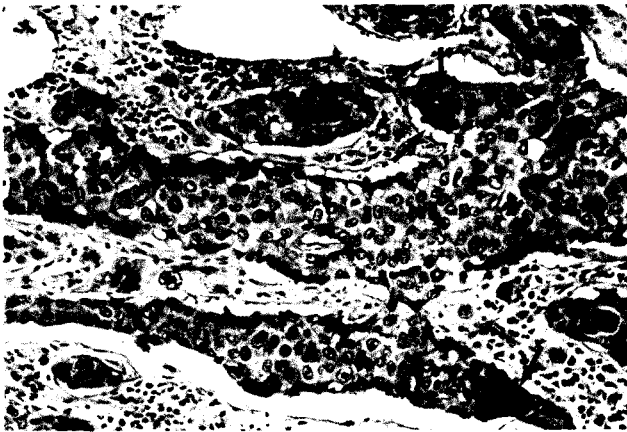


Fig. 3. Higher magnification of the tumor shows the relatively uniform population of poorly differentiated trophoblast overlying syncytiotrophoblast (arrow).

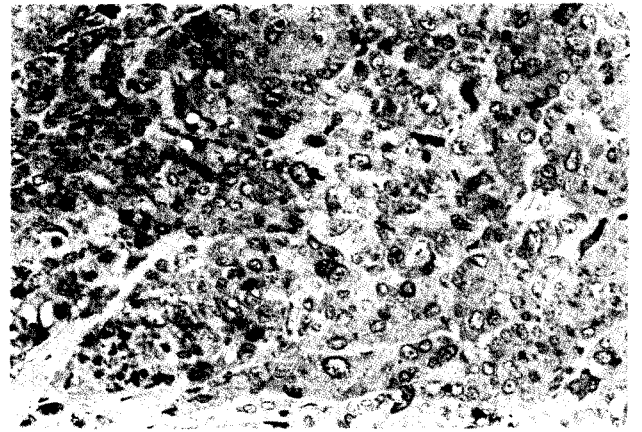


Fig. 5. Immunohistochemical staining for human chorionic gonadotropin reveals homogeneous cytoplasmic expression in trophoblastic cells.

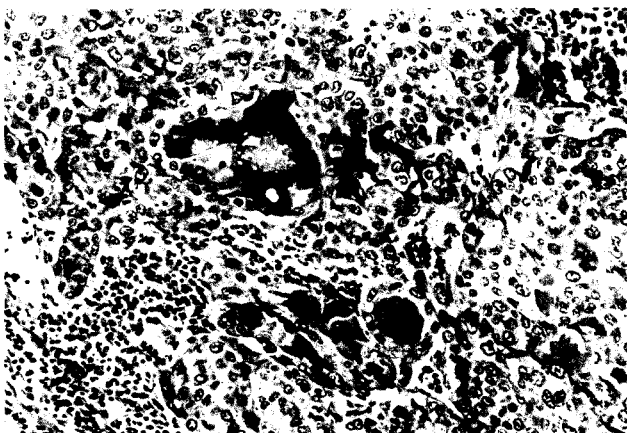


Fig. 4. Syncytiotrophoblastic cells form multinucleated giant cells. The stroma shows infiltrates of chronic inflammatory cells.

수술후 33일째에 2차 화학요법을 받았으나, 더 이상의 화학요법을 거부하다가 약 7개월후 환자가 실신하여 응급실을 통하여 다시 입원하였으며, 뇌에 전이된 용모막암종의 출혈로 진단되어 뇌종양절제술을 시행하였다.

그 후 다시 3회 (뇌종양절제술후 11일, 25일, 40일째)에 걸쳐 EMA-CO 요법을 받았으며, 후종격동의 용모막암종 제거술을 받은 후 14개월 (뇌종양 절제술 후 7개월)동안 간헐적인 두통외의 증상은 없었고, 흉부단순촬영에서 종격종양의 재발소견도 보이지 않았다.

치료과정에서의 혈중 β -HCG 변화는 Table 1 과 같다.

Table 1. Change of β -HCG during treatment

Date	Value(mIU/ml)
Preoperative	> 200,000
8th day after first operation	95.9
One month after first operation	0.79
One year after first operation	2

고 찰

용모막암종은 임신때의 영양모세포에서 유래한 악성 종양으로 발견되거나, 고환을 포함한 생식선, 혹은 인체의 중심선에 위치한 장기들(뇌, 송과선, 뇌하수체, 제 3 뇌실, 종격동, 식도, 후복막, 방광, 신장 등)에서 원발성으로 발생하는 경우, 또 종격동의 기형종에서 악성 용모상피 세포가 발견되는 경우 등이 보고되었다¹⁻³⁾.

임신과 관계된 용모막암종은 전이를 일으키고 원발성 병소는 소멸되는 대표적 종양종의 하나여서, 생식선외의 장기가 원발 병소인 경우와 감별이 어렵다.

종격동의 용모막암종은 주로 30대 남자에서 발생하고, 전종격동에 주로 발생하는 것으로 보고되었다^{1,2,5)}.

생식기관 이외의 부위에서 원발성으로 발생하는 용모막 암종은 여러 장기에서 다수가 보고되었지만 규명이 확실히 된 경우는 많지 않을 뿐만 아니라 논란이 많다. Fine

등²⁾ 이 전세계적으로 보고된 109 예를 재고해 보았을 때 19 예만이 받아들일만한 경우였다고 보고하였다.

종격동의 원발성 용모막암종은 거의 모든 경우 남자에서만 보고되었으나^{1~5)}, 여자에서 보고된 경우도 있다^{6,7)}. 국내에서는 전종격동에 원발한 남자환자 1례가 보고되었다⁸⁾.

저자의 경우 임신한 기왕력이 있고, 생식선의 박편 조직 검사는 시행하지 않아서 완전하다 할수는 없지만, 초음파 검사나 컴퓨터 단층 촬영상 생식선에서의 원발성 병소의 흔적을 찾을 수 없었을 뿐만 아니라, 6년전 교통사고에 의한 방광과열로 수술을 받을 때 아무 이상이 발견되지 않았고, 기침이 시작된 5개월 전 산부인과에서 임신반응 검사에서 양성이었으나 초음파 검사상 임신낭을 발견하지 못했던 점을 감안할 때 전이성으로보다는 원발성으로 간주하는 것이 임상적으로 좀더 타당하리라고 보지만 추후검사를 계속해야할 과제가 남아 있다.

Fine 등²⁾은 종격동의 용모막암종이 원발성으로 발생할 뿐만 아니라 전이되어 발생할 수도 있다고 주장한 반면, 용모막암종이 종격동으로 전이될 가능성이 희박하다고 주장한 사람도 있다⁴⁾.

발병기전에 대해서는 여러가지 기전이 문헌에 제시되었는데, primitive germ cell theory 가 대체적으로 받아들여지고 있는 학설이다^{2,8)}. 이 이론은 primordial germ cell 이 urogenital ridge 를 따라서 primitive gonad 로 이동하는 과정에서 astray 로 들어가거나 이동하는 중간에 멈춰버린 결과라고 설명하고 있다. 이 이론은 임상적으로는 적어도 두가지 측면에서 지지를 받고 있는데 하나는 extragonadal tumor 가 종격, 후복막강, 복부 혹은 골반강내의 장기에 발생한다는 것이고, 두번째는 종양이 2,3,40 대에 발생하는데, 이 조직이 primitive gonadal germ cell 이 사춘기가 될 때까지 dormant 로 남아 있다는 것으로 설명하고 있다.

원발성 종격동 용모막암종의 임상 증상은 흉통증, 혈관 압박에 의한 증상들, 연하곤란, 원목소리, Horner's syndrome , 호흡곤란증, 객혈, 늑막삼출 등이 있고, 비특이적

전신증상으로 전신쇠약감, 식욕부진, 체중감소 등이 보고되었다^{1~3,8)}.

원발성 종격동 용모막암종은 매우 빠른 속도로 성장하고 아주 침습성이어서 외과적 치료는 거의 의의가 없는 것으로 보고되었고^{1,2,8)}, 방사선치료에도 내성을 보여 거의 성공하지 못한 것으로 보고되었다⁹⁾. Methotrexate는 태아조직에서 발생한 용모막암종에는 아주 효과적이지만 원발성 용모막암종의 치료에는 훨씬 비효율적이고, Methotrexate, Adriamycin D, Chlorambucil 의 세가지 약제요법이 가장 효과적이지만, 대부분의 환자에서 4-6 개월 만에 사망하는 것으로 보고되었다²⁾.

본 예에서는 종격동의 용모막암종을 제거한지 14개월(뇌에 전이된 암을 제거한지 7개월) 동안 혈중 β -HCG 가 미량 측정되었으나 아직 생존하고 있는 상태이다.

참 고 문 헌

1. Marlin EW, David ED, David LA, and C. Allen Good. Primary mediastinal choriocarcinoma. Mayo Clin Proc 1968;43: 570-575
2. Fine G, Smith R, Patcher MR. Primary extragenital choriocarcinoma in the male subject. Case report and the review of the literature. Am J Med 1962;32:776
3. Sickles EA, Belliveau RE, and Wiernik P H. Primary mediastinal choriocarcinoma in the male. Cancer 1974;33:1196-1203
4. Lynch MJG, Blewett GL. Choriocarcinoma arising in the male mediastinum. Thorax 1953;8:157-161
5. 양우익, 김한겸. 전종격동의 용모상피암 부검 1예. 중앙의학 1987;52:645-650
6. Peison B. Embryonal teratocarcinoma of the mediastinum in a woman with foci of anaplastic cells simulating choriocarcinoma. Chest 1970;58:169-172
7. Sandhaus L, Stron RL, Mukai K. Primary embryonal-choriocarcinoma of the mediastinum in a woman. A case report with immunohistochemical study. Am J Clin Pathol 1981;75:573-578
8. Yurick BS, Ottoman RE. Primary mediastinal choriocarcinoma. Radiology 1960;75:901-907

=국문초록=

원발성으로 종격동에서 발생한 용모막암종은 드문 질환으로 젊은 남자에서 주로 발견되었으며, 기침, 흉통, 여성형 유방 등의 증상을 보이는 것으로 알려졌다.

33세 여자로서 약 3개월 전부터 가벼운 기침으로 시작하였으나 심한 호흡곤란과 흉통증 등 증상이 급격히 악화되어 내원하였다. 방사선학적 검사상 후종격에서 직경 13cm 크기의 종양이 발견되었고, 혈중 β -HCG가 20만 mIU 이상 증가하였으며, 적출된 종양은 β -HCG에 대한 면역조직화학적 검사상 양성반응을 보였다. 용모막암종 절제술을 받고 EMA-CO 투여 받은후 약 7개월만에 뇌에 전이된 종양 때문에 뇌출혈을 일으켜 다시 뇌종양 적출술을 받았다. 환자는 그 후 약 7개월동안 두통외의 증상은 없었고 흉부단순촬영상 종격종양의 재발소견도 없었다.