

기관지내시경 검사상 우연히 발견된 무증상의 기관지 과립세포종 2예

인제대학교 의과대학 내과학교실, 병리학교실*

강은희, 이성홍, 나영숙, 최태영, 남궁준, 정병오
이혁표, 김주인, 염호기, 최수전, 조혜제*, 이혜경*

= Abstract =

Two Cases of Asymptomatic Granular Cell Tumor of the Bronchus Detected Incidentally by Bronchoscopy

Eun Hee Kang, M.D., Sung Hong Lee, M.D., Young Sook Na, M.D., Tae Young Choi, M.D.,
June Namgung, M.D., Byung Oh Jeoung, M.D., Hyuk Pyo Lee, M.D., Joo In Kim, M.D.,
Ho Kee Yum, M.D., Soo Jeon Choi, M.D., Hye Jae Cho, M.D.*, Hye Kyung Lee, M.D.*

Department of Internal Medicine, Department of Pathology,
College of Medicine, Inje University, Seoul, Korea*

Granular cell tumor(formerly named to be granular cell myoblastoma) was first described by Abrikossoff in 1926 and is a rare tumor thought to be of Schwann cell origin. It can occur at any soft tissue of the body, but most cases are found at the tongue, skin, breast and GI tract. Only 6% of them occur in respiratory system. We report two cases of asymptomatic granular cell tumor of the bronchus that were detected incidentally by bronchoscopy. One patient had aspiration pneumonia, the other had immotile cilia syndrome. The former patient was simply observed and bronchoscopic extirpation of the tumor was done in the latter patient. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 1999, 46 : 122-128)

Key words : Granular cell tumor, Granular cell myoblastoma, Bronchus, Bronchoscopy.

서 론

과립세포종은 비교적 희귀한 양성종양으로, 1926년 Abrikossoff¹⁾가 혀에서 발생한 근아세포종(myoblastic myoma) 5예를 처음 발표할 당시에는 근세포기원인 것으로 생각했던 종양이었으나, 최근에는 전

자현미경적, 조직면역학적 연구를 통해 신경세포(Schwann cell)기원인 것으로 여기고 있다²⁾. 과립세포종은 주로 양성종양으로 피부나 유방, 소화기 및 신경계 등 신체 어느 부분에서든 발생할 수 있지만, 호흡기에 발생하는 것은 전체의 6% 정도로 드물게 보고되고 있다³⁾.

기관지의 과립세포종은 주로 기관지 폐쇄에 의한 기침, 흉통, 객혈 등의 증상과 흉부방사선 검사상 지속적 또는 재발성 무기폐, 기관지확장증, 폐침윤 등의 소견으로 나타나지만, 무증상인 경우도 흔하여 기관지 내시경검사가 많이 시행되는 요즘에는 우연히 발견되는 경우도 늘어날 것으로 예상되고 있다.

국내에서도 피부나 혀, 유방, 소화기, 신경기관에 발생한 보고는 다수 있으나, 호흡기중 후두에 발생한 과립세포종은 1965년 김 등이 보고한 이래⁴⁾ 이후 5예가 더 보고되었고 이들 대부분은 애성(hoarseness)으로 발견되었으며, 기관지에 발생한 과립세포종은 1982년 이 등이 보고한 이래⁵⁾ 이후 2예가 추가 보고된 정도이다^{6,7)}. 국내의 기관지 과립세포종 3예는 반복적인 폐쇄성폐렴으로 발견된 것이 1예⁶⁾, 객혈과 무기폐로 발견된 것이 1예⁷⁾, 기관지확장증으로 수술 받은 조직에서 발견된 것이 1예⁵⁾ 있었다.

저자들은 타 질환으로 입원하여 검사 및 치료하는 동안 기관지내시경검사상 우연히 발견된 과립세포종(이 자체로는 무증상)을 2예 경험하였고, 무증상으로 발견된 경우 및 기관지내시경적으로 적출한 경우는 국내에는 보고가 없기에 이에 보고하는 바이다.

증 례 1

환 자 : 54세, 남자

주 소 : 발열과 오한

현병력 : 평상시 하루 막걸리 3-4병 정도씩 30년동안 마셔왔고 내원 4일전까지 술을 마신적이 있었던 분으로, 내원 2주전 발열감과 한기를 느꼈으나 그냥 지나다가 내원 3일전 발열과 오한이 심해져 개인의원에서 단순 흉부방사선사진과 컴퓨터단층촬영을 하고 흡인성폐렴 진단하에 본원 응급실로 이송되었다. 평소 약간의 노작성 호흡곤란과 기침이 있었으며, 내원당시 기침, 객담과 전신의 근육통이 있었으나 안정시 호흡곤란은 없었다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없음

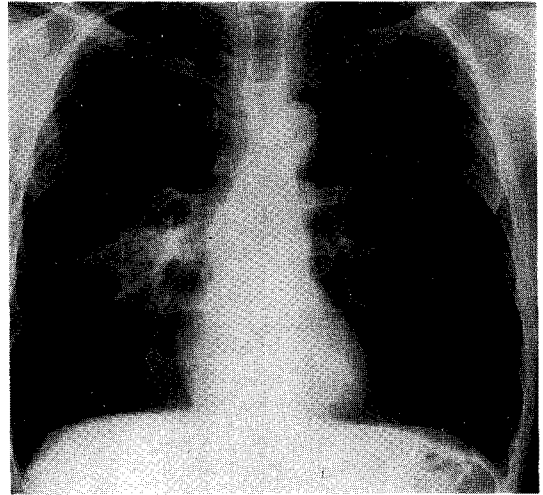


Fig. 1. Chest PA shows consolidation at RLL.

흡연력 : 하루에 1갑씩 30년

직업력 : 환경미화원

이학적 소견 : 환자는 급성병색을 보였고 의식은 명료하였으며, 혈압 100/60mmHg, 분당 맥박수 92회, 분당 호흡수 20회, 체온은 38.5℃였다. 흉부 청진상 배부의 우측 하폐야에서 악설음이 청진되었으나 천명음은 들리지 않았다. 복부와 사지 및 신경학적 검사에서 이상소견은 없었다.

검사소견 : 말초혈액검사상 혈색소 11.7g/dL, 헤마토키리트 36.0%, 백혈구 18,950/mm³(호중구 81%, 림프구 7%, 단핵구12%), 혈소판 109,000/mm³였으며, 적혈구침강속도는 77mm/hr로 증가되어 있었다. 생화학검사상 혈당 130mg/dL, 총단백 5.9g/dL, 알부민 3.2g/dL, BUN 11mg/dL, creatinine 0.9mg/dL, AST 134IU/L, ALT 56 IU/L, 총빌리루빈 1.3mg/dL였으며, 뇨, 전해질 등은 정상소견이었다. 객담검사상 3번의 항산성검사는 모두 음성이었으며, 결핵배양검사도 음성이었다. 동맥혈가스검사상 대기호흡상태에서 pH 7.43, PaCO₂ 38mmHg, PaO₂ 68mmHg, HCO₃⁻ 25.1mmol/L였고, 객담 도말검사서서 그람양성구균이 관찰되었으나 배양에서는 특정균 검출 없이 정상구강내 세균으로 나왔다.

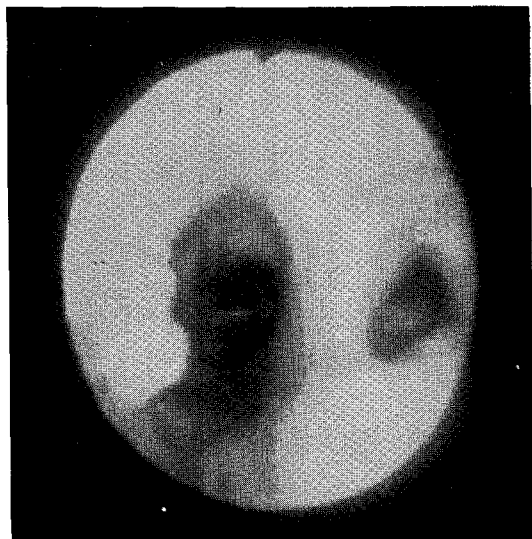


Fig. 2. Bronchoscopic feature : Whitish nodule was detected at the medial wall of basal segmental orifice, RLL.

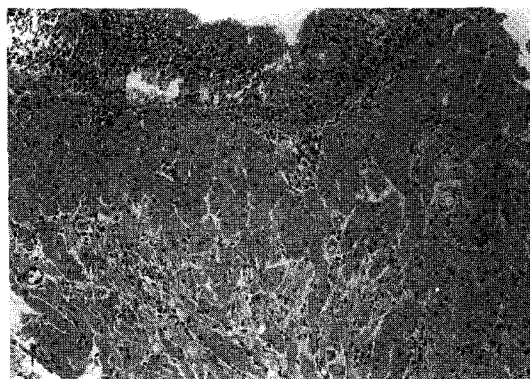


Fig. 3. Pathologic feature : Marked infiltration of monotonous large cells with abundant eosinophilic cytoplasm in nodular or sheet pattern just beneath the respiratory epithelium, accompanied by squamous metaplasia.

흉부방사선사진 : 우하엽에 침윤소견이 관찰되었다 (Fig. 1).

폐기능검사 : FVC 3.04L(78%), FEV₁ 1.38L(48%), FEV₁/FVC 45%, DLCO/VA 2.30/min/mmHg (57%)으로 폐쇄성환기장애 소견을 보였다.

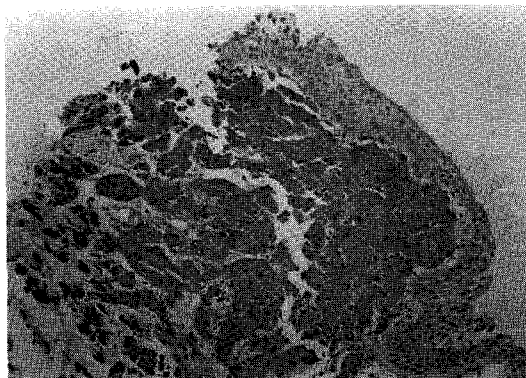


Fig. 4. Immunohistochemical staining to S100 protein : strong positive.

치료 및 경과 : 흡인성폐렴 진단하에 Cefotetan, gentamicin, clindamycin으로 항생제를 투여하여 증상이 어느정도 호전되고 기관지내의 병변 유무를 확인하기 위한 기관지내시경검사상 우하엽기관지 기시부의 내측벽에 1cm 정도의 흰색의 작은 용기를 보이는 결절이 발견되었으나 기도 폐쇄의 소견은 없었다(Fig. 2). 생검 병리검사결과 과립세포종으로 확인되었다.

폐기능 저하소견으로 수술적 치료는 하지 않았고, 폐렴 치료후 퇴원하여 경과관찰 중이다.

병리소견 : 기관지상피세포는 광범위한 편평상피화생(squamous metaplasia)이 관찰되었고, 그 기저로 호산성과립이 풍부한 세포질을 가진, 크기가 큰 단조성(monotonous)의 세포들이 결절양 또는 판상으로 침윤되어 있었다(Fig. 3). S-100 protein에 대한 면역조직화학염색상 강양성을 보였다(Fig. 4).

증 례 2

환 자 : 24세, 여자

주 소 : 호흡곤란

현병력 : 12세때 폐결핵으로 2년간 항결핵제 투약받은 적이 있고, 20세때는 결핵성 뇌막염으로 타병원에서 치료, 완치되었다고 하며, 6-7년전부터 콧물, 코막힘 등으로 타병원에서 부비동염으로 치료받다 3년 전에 수술을 받았다. 환자는 오래전부터 평소에 기침

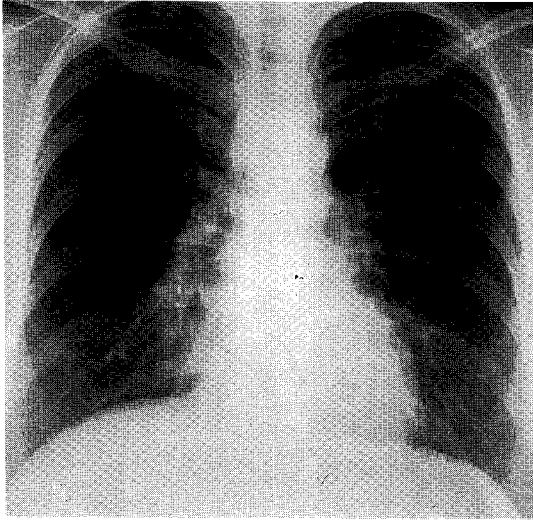


Fig. 5. Chest PA shows peribronchovascular infiltration at both lower lung field.

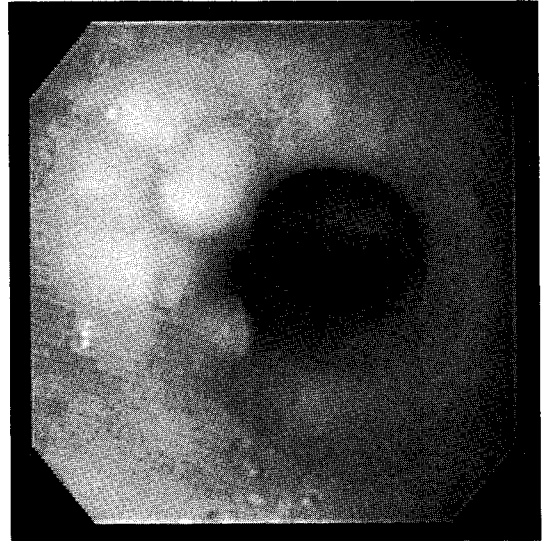


Fig. 7. Bronchoscopic feature : Nodular infiltration was detected at the basal segmental orifice, LLL.

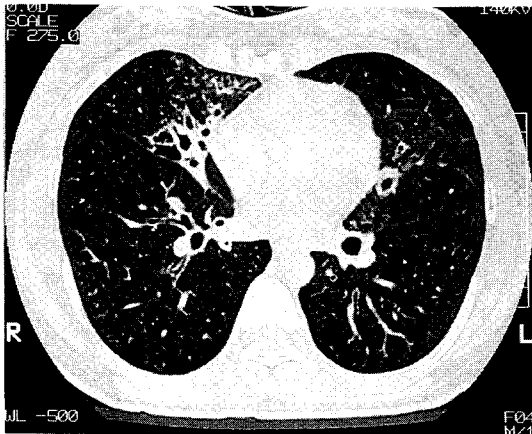


Fig. 6. Chest CT scan shows bronchiectatic change at RML and left lingula.

과 객담 및 천명 등이 있어 개인의원 등에서 치료를 받았으며 일시적인 호전은 있었으나 계속 증상은 반복 되어 왔고, 약 4년전부터 점진적으로 호흡곤란이 진행되어 내원하였다.

과거력 : 2년간 정상적인 부부생활에도 아이가 없어 근래 타병원에서 호르몬 검사 등 불임검사를 받았으나 특별한 원인은 찾지 못하였다.

가족력 : 3세 아래인 여동생도 환자와 비슷한 호흡기 증상이 있어 치료를 받고 있으며, 기관지확장증이라는 말을 들었다고 한다.

사회력 : 흡연은 안하였고, 술은 맥주를 소량 가끔 마시는 정도였다.

이학적소견 : 내원당시 환자는 만성병색이었고, 혈압 130/80mmHg, 분당 맥박수 92회, 분당 호흡수 20회, 체온은 36.0℃였다. 흉부 청진상 양측 하폐야에서 천명음과 악실음이 들렸으며, 복부와 사지 및 신경학적 검사에서 이상소견은 없었다.

검사소견 : 말초혈액검사상 혈색소 12.6g/dL, 헤마토크리트 37%, 백혈구 10,300/mm³, 혈소판 307,000/mm³였고, 그외 생화학검사, 뇨검사는 모두 정상소견이었다. 객담 결핵균도말검사는 3회 모두 음성이었으며, 객담 일반세균 배양검사상 *H. influenzae*가 검출되었다. 혈청 α_1 -antitrypsin 257mg/dL, IgG 1776mg/dL, IgA 278mg/dL, IgM 123mg/dL로 정상소견이었으며, IgE 773U/ml였다.

방사선학적 검사 : 흉부방사선사진 및 전산화단층촬영상 우중엽과 좌측폐의 설상엽에 기관지확장증 소견이

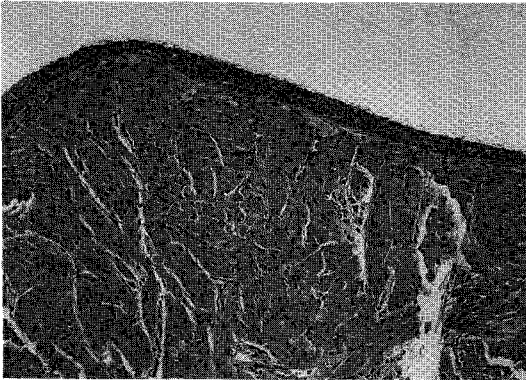


Fig. 8. Pathologic feature : the same as case 1.

관찰되었고(Fig. 5, 6), 부비동방사선 촬영상 양측 상악동 및 사골동(maxillary and ethmoid sinus)의 혼탁소견(haziness)이 관찰되었다.

폐기능검사: FVC 2.76L(79%), FEV₁ 2.11L(75%), FEV₁/FVC 76%, DLCO/VA 5.25/min/mmHg (110%)였다.

기관지내시경소견: 전체 기도에서 다량의 분비물이 관찰되었고, 좌하엽 기저부 기관지에 8mm 정도의 황색 결절성 침윤이 발견되었다(Fig. 7). 생검 병리검사상 과립세포종으로 확인되었고, 육안상 정상 소견을 보인 다른 기관지부위의 점막생검 전자현미경검사상 비운동성 섬모중후군(immotile cilia syndrome)에 해당하였다.

병리소견: 미세한 과립이 풍부한 세포질과 중앙에 또는 편재한 난원형의 작은 핵을 가지고 있었으며, PAS 염색 및 NSE 염색상 양성반응을 보였다(Fig. 8).

치료 및 경과: 기관지내시경을 다시 시행하여 육안적으로 보이는 결절을 검자를 이용해 적출하였다.

고 찰

과립세포종은 1926년 Abrikossoff가 처음 혀에서 발생한 5예를 보고¹⁾할 당시에는 근아세포종(myoblastoma)으로 명명된 것에서 보여지듯 중앙이 근조

직 기원인 것으로 생각했으나, 횡문근이 없는 다른 장기들에서 발생한 예들이 계속 보고되었고, 1971년 Sobel 등이 면역조직화학적 및 전자현미경적 검사결과를 통해 7예를 발표한 이래⁹⁾ 현재는 신경세포(Schwann cell) 기원의 종양으로 생각되어지고 있다.

신체의 각 연부조직에는 어디든지 발생할 수 있으며, 특히 피부나 혀, 유방, 소화기, 신경기관에 발생한 과립세포종에 대한 보고는 많으나, 호흡기계에 발생한 경우는 1938년 Frenckener가 기관지에서, 1939년 Kramer가 기관지에서 발생한 과립세포종을 처음으로 보고한 이래 전세계적으로 100예 정도가 보고된 바 있으며, 전체 과립세포종의 6-10% 정도로 드물게 발생한다고 알려져 있다³⁾.

호흡기에 발생하는 과립세포종은 주로 후두 및 주기관지 부위에 호발하며, 기관지에서는 분기부에서 잘 생기는 것으로 보고되고 있다. 단독으로 발생하는 경우가 많지만, 기관지내에 다발성으로 나타나는 경우도 7%, 피부나 혀 등에 동반되어 중앙이 보이는 경우도 16% 정도를 차지한다는 보고도 있다. 주로 40대에 호발하지만 어느 연령에서도 생길 수 있으며, 남녀간의 발생빈도는 차이가 없는 것으로 알려져 있다⁹⁾.

임상증상은 다양하여 대부분의 환자는 객담을 수반하거나 또는 수반하지 않는 기침, 흉통, 천명음, 객혈 및 호흡곤란 등을 호소하였으며, 주로 기관지 폐쇄 정도에 따른 반복적인 폐렴(37%)이나 폐허탈(16%), 객혈(16%)이 많았다¹⁰⁾.

흉부방사선소견상 폐침윤, 경결이나 폐허탈 또는 폐결절로 나타나며, 진단은 기관지내시경을 통한 조직생검으로 확진할 수 있다. 기관지내시경상 중앙은 점막이 약간 비후된 정도에서부터 기관지 내강으로 돌출한 여러 가지 크기를 가진 황색이나 분홍색을 띤 용종상으로 보이며, 기관지를 부분적 또는 전체적으로 막고 있는 경우가 많다.

현미경학적으로 중앙은 특징적으로 중앙 또는 한 쪽으로 편재한 난원형의 작은 핵과 주위에 수많은 미세한 과립을 함유한 풍부한 세포질을 가지고 있는 크고 다각형의 세포들로 구성되어 있으며, 이들 중앙을 덮

고 있는 표면 상피는 상당한 정도의 편평상피화생이 나타나는 경우가 많아 편평상피암으로 오인되기도 한다¹¹⁾. PAS염색상에서 고도 내지 중등도의 양성 반응을 보이고, alcian blue 염색에서는 부분적인 양성 반응을 보인다. 면역조직화학검사상 신경세포들의 표식자로 사용되는 S-100 protein, NSE(neuron specific enolase)에 강양성을 보이는 특징을 가지고 있다¹²⁾.

과립세포종은 대부분 양성종양으로 악성인 경우는 매우 드물며 흉곽외에서 악성 과립세포종이 발생한 경우¹³⁾는 보고되어 있으나, 기관지내 종양으로 악성인 경우는 보고된 적이 없다. 다만 국소적으로 점막하선(submucosal gland), 림프절 등 기관지주위 조직으로 침습하는 경우는 있어 완전 절제가 이루어지지 않은 경우 재발하는 경우가 있다.

치료는 무증상이면서 다발성인 경우는 단순히 경과 관찰만 하는 경우도 있으며, 기관지내시경적 적출술(bronchoscopic extirpation) 또는 레이저요법 및 수술적인 방법이 있는데, 1977년 Dillon 등은 종양에 의한 폐실질 염증이나 파괴가 있는 경우를 제외하고는 국소적인 종양절제술만으로도 치료는 충분하다고 보고하고 있지만¹⁴⁾, Daniel 등이 55예를 분석한 보고에서 종양의 크기가 8mm 이상인 경우는 기관지의 전층을 침범하거나 폐실질까지 침윤되는 양상을 보일 수 있으므로 내시경적 적출술보다는 수술적인 방법을 통하여 침범 범위에 따라 광범위한 적출술을 시행하여야 재발을 예방할 수 있다고 하였다¹⁵⁾.

본 예에서는 흡인성폐렴과 비운동성 심모중후근으로 내원한 2명에서 증상과는 관련을 짓기 어려운 위치와 크기의 과립세포종이 기관지내시경검사로 발견되었으며, 크기는 1cm 내외였으나 폐기능의 여분이 충분치 않고 종양자체도 악성화된 예는 없어 1예는 단순 관찰만 하고 있고, 다른 1예는 기관지내시경을 통해 될 수 있는 한 결절을 적출하였다. 기관지의 과립세포종은 초기 보고들은 대부분 기관지폐쇄 등의 증상으로 발견되었으나, 기관지내시경이 많이 시행되면서 발생보고도 늘고 무증상인 경우도 증가할 것으로

예상된다.

요 약

저자들은 타질환으로 입원중 기관지내시경검사상 우연히 발견된 과립세포종 2예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Abriskosoff AJ : Uber Myoma, ausgehend Von der quergesteiften willkurliche muskulatur, Virchow Arch(Pathol Anat) 260 : 215, 1926
2. Fisher ER, Wechsler H : Granular cell myoblastoma : A misnomer : Electron microscopic and histochemical evidence concerning its Schwann cell derivation and nature(Granular cell Schwannoma) Cancer 15 : 936, 1962
3. Paskin DL, Hull JD, Cookson PJ : Granular cell myoblastoma. Ann Surg 175 : 501, 1972
4. Kim GR, Kim SK, Kim YM : A granular cell myoblastoma of the larynx. Yonsei Medical Journal 6 : 68, 1965
5. 이은엽, 김수근, 손한철, 김순호 : 기관지에 발생한 과립상 세포종양. 대한병리학회지 16 : 98, 1982
6. 윤상원, 은준상, 이영실, 유남수, 조동일, 강경훈, 서정일, 김성진 : 기관지에 발생한 과립세포종 1예. 결핵 및 호흡기질환 42 : 588, 1995
7. 박태병, 송영구, 구성현, 고영운, 황성철, 이이형, 주희재 : 기관지의 과립세포종 1예. 결핵 및 호흡기질환 43 : 243, 1996
8. Solbel HJ, et al : Granular cell myoblastoma, Am J Pathol 65 : 59, 1971
9. Ostermiller WE, Comer TF, Barker WL : Endobronchial granular cell myoblastoma. A report of three cases and review of the literature. Ann Thorac Surg 9 : 143, 1970

10. Deavers M, Guinee D, Koss MN, Travis WD : Granular cell tumors of the lung : clinicopathologic study of 20 cases. *Am J Surg Pathol* 19 : 627, 1995
11. Sobel HJ, Marquet E, Arvin E : Granular cell myoblastoma : An electric microscopic and cytochemical study illustrating the genesis of granules and aging of myoblastoma cells. *Am J Pathol* 65 : 59, 1971
12. Sobel HJ, Churg J : granular cells and granular cell lesions. *Arch Path* 77 : 132, 1964
13. Matsumoto H : A malignant granular cell tumor of the stomach. *Surgery Today* 26 : 119, 1996
14. Dillon ML : Benign tumors of the trachea and bronchi, In Sabiston DC(Ed.) : *Davis-Christopher Textbook of surgery*, 11th Ed, p2119, Philadelphia, W.B. Saunders Company. 1997
15. Daniel TM, Smith RH, Faunce HF, Sylvest VM : Transbronchoscopic versus surgical resection of tracheobronchial granular cell myoblastomas. *J Thoracic Cardiovasc Surg* 80 : 898, 1980