

## 편측성 종격동 종괴와 반대측 흉수로 발현된 기형종 1예

고려대학교 의과대학 내과학교실, <sup>1</sup>흉부외과학교실, <sup>2</sup>병리학교실

하은실, 허규영, 정기환, 이승룡, 조원민<sup>1</sup>, 이상엽, 김제형, 이응석<sup>2</sup>, 신 철, 심재정, 인광호, 강경호, 유세화

### Teratoma Presenting as An Unilateral Mediastinal Mass with Contralateral Pleural Effusion

Eun Sil Ha, M.D., Gyu Young Hur, M.D., Ki Hwan Jung, M.D., Sung Yong Lee, M.D., Won Min Jo, M.D.<sup>1</sup>, Sang Yeub Lee, M.D., Je-Hyeong Kim, M.D., Eung Seok Lee, M.D.<sup>2</sup>, Chol Shin, M.D., Jae Jeong Shim, M.D., Kwang Ho In, M.D., Kyung Ho Kang, M.D., Se Hwa Yoo, M.D.

Departments of Internal Medicine, <sup>1</sup>Thoracic and Cardiovascular Surgery, and <sup>2</sup>Pathology, College of Medicine, Korea University, Seoul, Korea

A teratoma is the most common benign germ cell tumor that develops in the mediastinum. Patients with a mediastinal teratoma are usually asymptomatic. However, a spontaneous rupture of a mediastinal teratoma into the pleural cavity or adjacent organs can cause severe chest pain, hemoptysis, acute dyspnea, etc. Complications such as recurrent pneumonia, pericardial effusion, pleural effusion and great vessel invasion can sometimes occur. We encountered a case of a patient with an abrupt onset of dyspnea after persistent shoulder pain for one month. The X-ray examinations revealed a unilateral mediastinal mass with contralateral pleural effusion. Subsequent evaluations confirmed a spontaneous rupture of the teratoma into the contralateral pleural cavity.

(*Tuberc Respir Dis* 2006; 60: 347-352)

**Key words** : Mediastinal neoplasms Teratoma pleural effusion

## 서 론

기형종은 종격동에서 발생하는 가장 흔한 생식세포종양 (germ cell tumor)으로 소아에서 종격동 생식세포종양의 약 70%, 성인에서는 약 60%를 차지한다<sup>1</sup>. 기형종은 원발 기관에서 정상적으로는 발생하지 않는, 외배엽, 중배엽, 내배엽 등에서 분화된 다양한 조직을 포함하는 종양이다. 대부분 남성 종양이며, 증상이 없이 우연히 발견되는 경우가 많다<sup>1,2</sup>. 간혹 크기가 커지면서 인접 기관을 압박하거나 주위 조직으로 파열 및 천공되어 흉수, 심장압전, 기흉 등의 합병증을 초래한다<sup>3-5</sup>. 응급으로 수술을 요하기 때문에, 종격동의 종괴가 의심되면서 객혈, 급성 흉통 및 호흡곤란

등의 증상이 발생하면, 반드시 기형종의 파열과 천공에 의한 합병증을 고려해야 한다.

저자들은 종격동의 종괴 위치와 반대측에 발생한 흉수를 보여, 종괴와는 별개의 늑막염을 고려하였으나 이후 기형종 파열에 의한 흉수로 진단한 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

## 증 례

환 자 : 한O O, 여자 36세

주 소 : 호흡곤란

현병력 : 환자는 1개월간의 좌측 어깨 통증 및 흉부 불편감을 주소로 내원하였다. 통증은 조이는 듯한 양상으로, 지속적이었으며 누운 자세에서 더 심했다. 1주일 전 인근 병원에서 어깨관절염으로 진단 받고 물리치료 중, 내원 당일 갑자기 호흡곤란이 발생하고 심해지는 양상을 보여 응급실로 내원하였다. 최근 3개월간 4 kg 체중감소 있었으며, 기침 및 가래 등의 호흡기 증상은 없었다. 1주일 전부터 간헐적인 열감 및 오한을 호소했다.

과거력 : 당뇨, 고혈압, 결핵 등은 없었다.

Address for correspondence : **Je-Hyeong Kim, M.D.**, Division of Pulmonary and Critical Care Medicine, Department of Internal Medicine, Korea University Ansan Hospital

516, Gojan-1-dong, Danwon-gu, Ansan, 425-707 Korea  
Phone : +82-31-412-5950 Fax : +82-31-413-5950  
E-mail : chepraxis@korea.com

Received : Jan. 23. 2006

Accepted : Mar. 9. 2006

사회력 : 가정주부

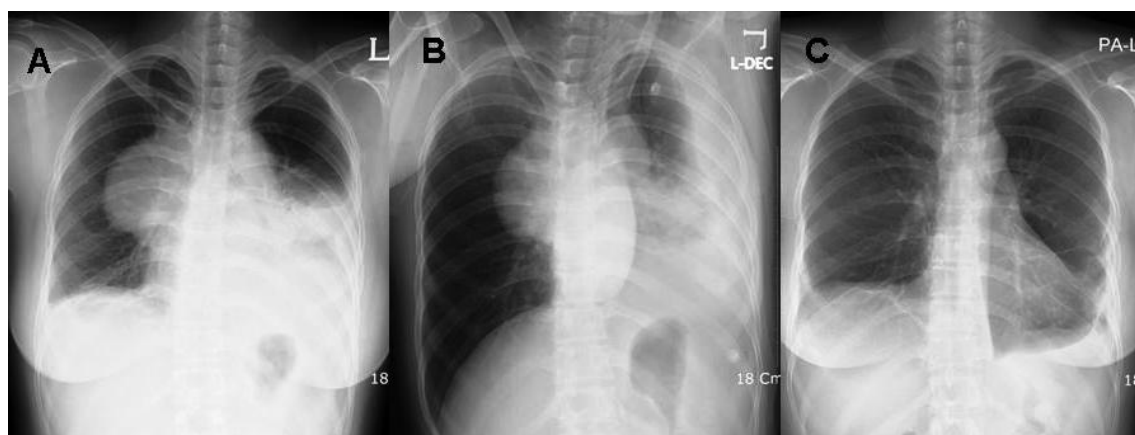
이학적 소견 : 내원 당시 혈압은 140/90 mmHg, 맥박수 96 회/분, 호흡수 24회/분, 체온 36.7°C였다. 급성 병색을 띄고 있었으며 두경부 임파절 비대 및 경정맥의 울혈은 없었다. 심음은 규칙적이었고 심잡음은 들리지 않았다. 좌측 폐하부의 폐음이 감소되었으며 수포음이 청진되었다. 복부 진찰 상 이상소견은 없었고, 양하지에서 부종은 관찰되지 않았다. 사지검사에서 청색증이나 곤봉지는 없었다.

검사실 소견 : 말초혈액 검사에서 백혈구 18,730 /mm<sup>3</sup> (호중구 91.5%, 림프구 5.7%, 단핵구 1.6%), 혈색소 14.0 g/dL, 혈소판 187,000/μL 이었으며, 적혈구 침강속도는 85 mm/Hr, CRP 는 7.49 mg/dL 이었다. 일반화학검사에서 혈중요소질소 12.5 mg/dL, 혈청 크레아티닌 0.7 mg/dL, AST 19 IU/L, ALT 10 IU/L, 총 빌리루빈 0.4 mg/dL, 단백질 7.15 mg/dL, 알부민 3.9 mg/dL, LDH 371 IU/L 이었다. 산소를 투여하지 않은 상태에서 시행한 동맥혈 가스 검사에서는 pH 7.40, PaCO<sub>2</sub> 41.4 mmHg, PaO<sub>2</sub> 65.2 mmHg, HCO<sub>3</sub><sup>-</sup> 26.5 mEq/L, SaO<sub>2</sub> 92.4 %로 저산소혈증을 보였으나, 비캐놀라로 산소 2 L/min를 투여하면서 시행한 동맥혈 가스 검사는 pH 7.39, PaCO<sub>2</sub> 40.2 mmHg, PaO<sub>2</sub> 98.2 mmHg, HCO<sub>3</sub><sup>-</sup> 23.5 mEq/L, SaO<sub>2</sub> 97.4 % 였다. 혈액 종양 표지자는 AFP 2.7 ng/mL, CEA 1.0 ng/mL로 정상 범위이었으나, CA 125 가 332.7 U/mL (정상치 0-30 U/mL)로 상승되었다. 흉막 천자 검사는 pH

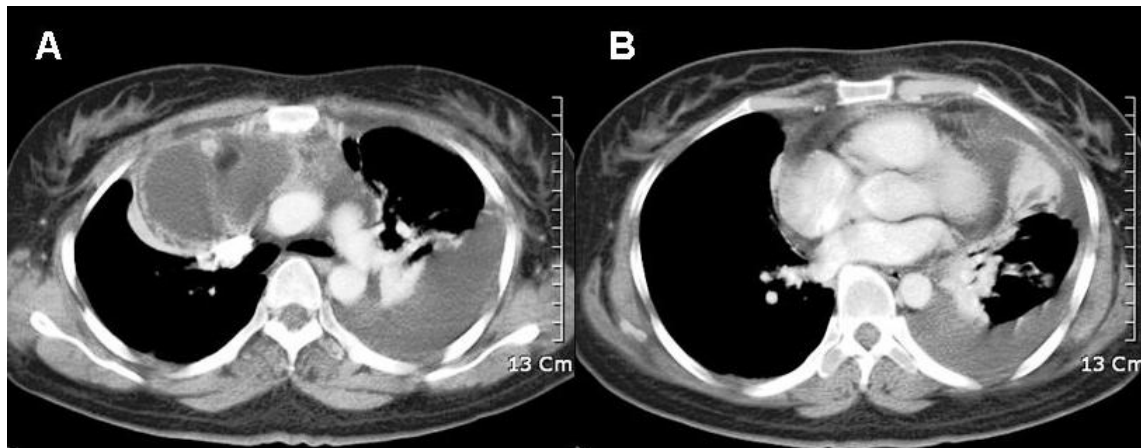
7.0, WBC 22,500/mm<sup>3</sup> (호중구 96%, 림프구 4%), 적혈구 80,000 /mm<sup>3</sup>, 단백질 5.5 mg/dL, LDH 1,529 mg/dL, 포도당 26 mg/dL, ADA 46.9 IU/L 이었다.

방사선 소견: 입원 당시 시행한 단순 흉부 방사선 검사(Figure 1 A)에서는 우측 폐문부 주위에 6×7 cm 크기의 경계가 분명한 등근 음영이 관찰되었고, 좌측 폐하부의 늑횡경막 각이 둔탁했으며 측와위 사진에서 약 3.5 cm 가량의 액체-이동 (fluid-shifting) 소견을 보였다(Figure 1 B). 흉부 전산화단층촬영에서 전종격동에, -45 HU의 지방으로 추정되는 부분을 포함하고, 격막으로 나뉘어진 약 6×7 cm 크기의 낭성 종괴가 관찰되었다. 종괴의 벽은 조영 증강이 되었고<sup>2</sup>, 상대정맥과 상행 대동맥 사이로의 침범이 의심되었다(Figure 2 A). 좌측의 흉수 및 좌하엽의 수동적인 무기폐 (passive atelectasis)가 관찰되었다(Figure 2 B).

치료 및 경과 : 비캐놀라로 산소 2 L/min를 투여하면서 호흡곤란은 곧 호전되었다. 환자의 방사선학적 소견으로 미루어 보아, 종격동 우측의 종괴는 기형종으로 의심되기는 하였으나, 흉수는 반대측에 있어, 기형종의 파열보다는 다른 원인으로 인한 늑막염의 가능성을 일차적으로 생각하였다. 따라서 흉수에 대해서는 환자의 흉통, 말초혈액 내 백혈구 증가증 및 흉수 검사상의 호중구 분획의 증가 등의 소견으로 일차적으로 세균성 폐렴에 동반된 부폐렴성 흉수의 추정 진단 하에, 정주 항생제 투여하였고, 흉수 내 pH 및



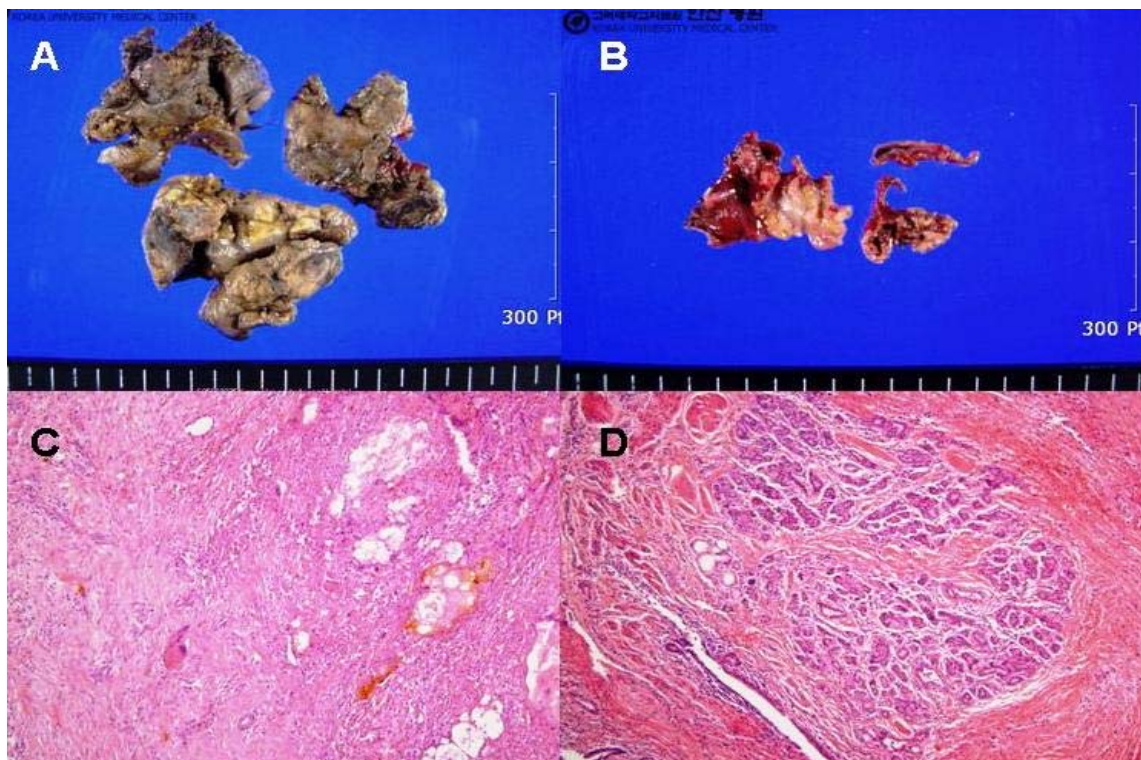
**Figure 1.** Chest radiography shows a huge mass lesion in right hilar area (A), blunting of left costophrenic angle with fluid shifting (B) on admission, and near-normal findings 2 months later after surgical resection (C).



**Figure 2.** Chest computed tomography shows a 6×7 cm sized, septated cystic mass, containing a fat-like low density component in the anterior mediastinum, which insinuates between superior vena cava and ascending aorta (A). The wall of mass is enhanced and no calcification is visible. Left pleural effusion and passive atelectasis are also noted (B).

포도당 농도의 감소가 있어 흉관 삽입술을 시행하였다. 흉수의 세균 및 항산균에 대한 도말 염색 결과는 음성이었고, 세포진 검사에서 악성 세포는 관찰되지 않았다. 하지만 내원 후 초기 치료 과정에서 환자의

임상 증상이, 합병된 부폐렴성 흉수 (complicated parapneumonic effusion) 에서 보이는 전형적인 양상과 달리 심하지 않았다. 또한 흉부 전산화단층촬영 소견으로 우측 중격동의 기형종 및 좌측 흉막강내 파열로



**Figure 3.** Intraoperative photographs of excised specimen (A, B) showed several fragments of yellow to brown soft tissue, measuring 4.7×3×3 cm in the largest one. The histologic findings of specimens are consistent with ruptured teratoma, and reveal adipose tissue (C), formation of pancreatic acini and islet-like structure (D). (hematoxylin and eosin, C:×100, D:×200)

인한 흉수가 의심되었다. 기형종의 반대측 흉막강으로의 파열을 전혀 배제할 수 없어 시행한 흉수내 종양 표지자 검사에서, CA 125 가 208.9 U/mL 로 상승되어 있었다. 난소암 등 혈중 CA 125 가 증가하는 부인과적 종양의 가능성을 배제하기 위해, 자궁검진 및 초음파 검사 등을 시행하였으나 특별한 이상소견은 없었다. 따라서, 확진과 치료 목적으로 종격동 종괴에 대해 오른쪽 4번째 늑간을 통한 개흉수술을 시행하였다. 육안적으로 종괴는 육안상 섬유성 피막으로 싸여 있는 약 5×5 cm 의 단단하고 고정된 낭성 종괴로서 (Figure 3 A, 3 B), 상대정맥의 한쪽 면을 둘러싸고 있었으며 우폐동맥 및 상행 대동맥과 밀착되어 있었다. 폐와 종괴 사이의 유착은 없었다. 종괴의 피막을 조심스럽게 박리하자 종괴가 상대정맥 안쪽까지 침습하였고, 반대측 흉막까지 퍼져 나가 종격동 흉막 내에 다소의 염증 소견이 관찰되었다. 따라서 종격동 흉막 내에 있던 종괴의 부분에서 파열이 일어나고, 이것이 좌측 흉막강 내로 누출된 것으로 추정할 수 있었다. 조직학적으로 종괴는 상피 세포들과 지방 조직으로 구성되어 있었으며(Figure 3 C), 완전하지는 않지만 샘을 이루고 있는 비교적 잘 분화된 양성 기형종이었다(Figure 3 D). 환자는 수술 후 1개월째 호흡곤란 및 어깨 통증 등의 증상 호전되었으며, 혈중 CA 125 수치는 수술 이후에 곧바로 감소하여 3개월째에는 정상화 되었다. 추적 단순 흉부 방사선 검사 (Figure 1 C)에서도 특별한 이상 소견은 없어, 경과 관찰 중이다.

## 고 찰

생식세포종양은 비뇨생식능선 (urogenital ridge) 으로부터의 이주를 끝내지 못하고 종격동에 머무르게 된, 원시종자세포 (primordial germ cells)로부터 기원하는 여러 조직들로 구성된 종양이다. 생식세포종양은 기형종, 정상피종 (seminoma), 배아세포종 (embryonal cell carcinoma), 융모막암종 (choriocarcinoma), 내배엽세포종 (endodermal cell tumor) 등으로 분류된다<sup>1</sup>.

기형종은 종양이 자라난 기관에서는 정상적으로

발생하지 않는, 3가지 원시 배아층으로부터 유래하는 여러 조직으로 구성된 종양이다. 구성 성분에 따라 피부모양기형낭유피낭(dermoid cyst), 기형종, 악성 기형종 등으로 분류한다. 피부모양기형낭유피낭은 주로 상피층 유도체인 피부, 표피 선, 모발, 피지 등으로 구성된다. 기형종은 피부, 머리카락, 땀샘, 피지선, 치아 등의 외배엽과 지방, 평활근, 뼈, 연골 등의 중배엽, 기관지, 위장관 상피조직 등의 내배엽으로 구성된다. 주로 인체의 정중선을 따라 발생하며 생식샘 (gonad) 에서 가장 흔하다. 생식샘 외에는 송과체, 종격동, 후복벽부, 천골, 미골 등 인체의 정중선에 위치한다. 악성 기형종은 원시 또는 배아 조직을 포함하고 있어 구분되며, 미성숙 기형종이라고도 한다. 또한, 구성 성분의 양상에 따라 고형 (solid), 혹은 낭성 (cystic) 으로도 분류된다.

양성 기형종은 성숙 낭성 기형종 (mature cystic teratoma) 을 가리키며, 종격동에서 발생하는 원발성 생식세포종양 중에서 가장 흔한 질환이다. 종격동에 발생하는 종괴의 약 10-20%를 차지하며, 주로 전종격동에 위치한다. 호발하는 시기는 10대에서 20대 사이로, 특별히 성별에는 차이가 없다<sup>4</sup>. 대부분에서 증상이 없이, 우연히 시행한 단순 흉부 방사선 검사에서 발견된다. 하지만 크기가 증가하는 경우에는 주위 조직을 압박하여 흉통, 기침, 호흡곤란 등의 증상을 일으킨다. 또한 드물게 폐내 (intrapulmonary), 심막 및 흉막 내로 파열되기도 한다<sup>6</sup>. 파열로 인한 객혈, 반복적인 폐렴, 기흉, 심장압전 (cardiac tamponade), 흉막염 등이 합병증으로 발생한다<sup>3-5,7</sup>. 주로 외배엽으로 구성된 기형종이 호흡기도로 파열되면, 객담에 머리카락 (trichoptysis) 이나 피지가 혼합되어 배출된다.

국내에서는 만성 농흉으로 오진되었다가 수술 후 종격동 기형종으로 밝혀진 증례, 흉수 및 심장막액을 동시에 동반한 증례, 그리고 폐동맥 침범으로 객혈을 보여 좌폐엽 절제술을 시행한 증례가 보고되어 있다<sup>8-10</sup>. 그러나, 편측성 종격동 종괴와 반대측 흉수로 발견된 경우는 없었다.

단순 흉부 방사선 검사에서 기형종은 보통 경계가 명확한 종괴 형태로 한쪽 폐에 치우쳐 위치한다. 파열되어 호흡기도와 연결되면 공기-액체층 (air-fluid

level) 이 관찰되기도 한다. 흉부 전산화단층촬영에서 성숙 기형종은 전형적으로, 조영증강이 되는 벽을 가진 다낭성의 낭성 종양이며 물, 지방, 연조직, 석회화 등이 동시에 관찰된다<sup>2</sup>. 순수한 낭성 종양으로 보이기도 하는데, 선천성 흉선낭종과는 달리 낭종벽이 인식될 정도의 두께가 있는 것이 감별점이다. 지방이나 지방-액체층 (fat-fluid level) 이 관찰되면 진단적이며, 흉막강으로 파열된 경우에는 지방-액체층이 흉수 내에서 관찰된다.

기형종의 파열을 시사하는 증상은 주로 심한 흉통 또는 객혈이며, 위치에 따라 어깨 및 등쪽으로 방사통이 동반된다. 파열을 시사하는 흉부 전산화단층촬영 소견으로는 종양의 구성 성분들이 균질적이지 않은 경우, 인접한 폐실질에 지방 성분이 포함되거나 경화 또는 무기폐를 동반하는 경우, 흉수 또는 심장막액 소견을 보이는 경우 등이 있다<sup>11</sup>. 파열의 원인은 기형종 내의 채장 조직, 침샘 조직, 위장 상피조직 등에서 분비되는 소화효소에 의한 것으로 추정되며, 이에 대한 근거로 흉수의 아밀라아제 수치 증가가 보고된 바가 있으나 명확하지는 않다. 이외에도 화학적 염증반응, 급격히 성장하는 종괴의 압박으로 인한 허혈 및 괴사, 감염 등이 원인으로 제시된다<sup>12</sup>. 파열이 일어난 경우, 기형종 내부의 아밀라아제, 리파아제 등의 소화효소 뿐 아니라 종양 표지자인 CA 19-9, CEA, CA 125의 상승이 동반되기도 한다<sup>13</sup>. 종양 표지자인 CA 125, CEA, CA 19-9는 호흡기도 내의 정상 상피세포에서도 생성, 분비되므로 이들의 상승이 반드시 비정상 세포의 활성도를 나타내는 특이 지표로 사용될 수는 없다. 그러나, 파열을 동반한 기형종에서 종괴 자체에서만 아니라 흉수 및 심장막액에서도 종양 표지자가 상승하며, CA 19-9 증가에 의한 자연 파열 가능성을 시사하기도 한다<sup>14</sup>. 파열에 의한 흉수의 경우, 세포진 검사에서 편평 상피세포, 각질, 모발, 석회 물질 등이 발견되기도 하지만 본 증례에서 이러한 소견은 관찰되지 않았다.

종격동 기형종이 파열된 경우에는 환자의 연령과 종괴의 크기와 상관없이 곧바로 수술적 제거를 시행한다. 이는 파열 이후에 주위 조직으로 유착되거나, 천공이 일어나는 등 합병증이 발생하여 시간이 경과

함에 따라 수술적 제거가 어렵기 때문이다. 드물지만 양성 기형종이 드물게 악성으로도 진행하기도 하고, 크기가 갑자기 커지면서 종괴에 의한 증상을 나타내는 성장 기형종 증후군이 발생하기도 한다<sup>15</sup>. 그러나, 일반적인 예후는 좋으며, 완전히 제거하면 완치된다.

본 증례의 환자는 1개월간 지속된 왼쪽 어깨통증 및 갑자기 발생한 호흡곤란으로 내원하였다. 기형종의 파열은 일반적으로 종괴의 위치와 같은 쪽으로 생기지만, 환자는 종괴의 반대쪽에 흉수가 있었다. 따라서 처음에는 종괴와는 별도로 부폐렴성 흉수 또는 결핵성 늑막염을 고려했다. 그러나 흉부 전산화단층촬영에서 HU -45로 지방 성분이 부분적으로 혼합되어 있는 기형종을 의심할 수 있어, 기형종 및 기형종의 파열에 의한 흉수로 진단할 수 있었다. 또한 종양 표지자인 CA 125가 혈액과 흉수 모두에서 상승되어 있었다. 수술적 절제를 시행했으며 종괴는 흉곽 내 우측에 위치했으나, 왼쪽 흉막강으로 파열되어 있었다.

## 요 약

저자들은 1개월간 지속된 왼쪽 어깨통증 및 갑자기 발생한 호흡곤란으로 내원한 36세 여자 환자에서, 편측성 종격동의 종괴와 흉막강으로 파열되어 반대측의 흉수를 동반한 기형종의 진단 및 치료 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. Cancer principles & practice of oncology. 6th ed. Wilkins & Wilkins; 2001.
2. Moeller KH, Rosado-de-Christenson ML, Templeton PA. Mediastinal mature teratoma: imaging features. *AJR Am J Roentgenol* 1997;169:985-90.
3. Gunes S, Varon J, Walsh G. Mediastinal teratoma presenting as massive hemoptysis in an adult. *J Emerg Med* 1997;15:313-6.
4. Oomman A, Santhosham R, Vijayakumar C, Jayaraman S, Ramachandran P, Kumar S. Anterior mediastinal teratoma presenting as cardiac tamponade. *Indian Heart J* 2004;56:64-6.
5. Sasaka K, Kurihara Y, Nakajima Y, Seto Y, Endo I, Ishikawa T, et al. Spontaneous rupture: a complica-

- on of benign mature teratomas of the mediastinum. *AJR Am J Roentgenol* 1998;170:323-8.
6. Cheung YC, Ng SH, Wan YL, Pan KT. Ruptured mediastinal cystic teratoma with intrapulmonary bronchial invasion: CT demonstration. *Br J Radiol* 2001;74:1148-9.
7. Ozergin U, Gormus N, Aribas OK, Durgut K, Yuksek T. Benign mature cystic teratoma of the anterior mediastinum leading to heart failure: report of a case. *Surg Today* 2003;33:518-20.
8. Pack HM, Kim ES, Kang JH, Jee HO. Anterior mediastinal teratoma which complicated empyema. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 1988;21:535-40.
9. Lee TH, Lee SE, Baik JJ, Chung Y. A case of mediastinal teratoma complicated by spontaneous ruptured into pleural cavity. *Tuberc Respir Dis* 1999;47:265-71.
10. Jeon JB, Chung CH, Moon TH, Cho W, Ryu JS, Kwak SM, et al. Spontaneous rupture of mediastinal teratoma into adjacent tissue. *Tuberc Respir Dis* 1999;47:400-5.
11. Choi SJ, Lee JS, Song KS, Lim TH. Mediastinal teratoma: CT differentiation of ruptured and unruptured tumors. *AJR Am J Roentgenol* 1998;171:591-4.
12. Goldstraw P. Spontaneous intrapleural rupture of mediastinal teratoma. *Respir Med* 1993;87:399-400.
13. Ege G, Akman H, Cakiroglu G, Kalayci G. Spontaneous rupture of mediastinal cystic teratoma with high levels of amylase, lipase, CA 19-9, CA 125 and CEA in cystic fluid: a case report. *Acta Radiol* 2004;45:11-1-2.
14. Kimura C, Kamiyoshihara M, Sakata K, Itoh H, Morishita Y. Mediastinal mature teratoma perforating into the lung with elevated serum carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) levels: report of a case. *Kyobu Geka* 2003;56:247-50.
15. Cho JH, Son HS, Jo WM, Min BJ, Lee IS, Shin JS. Treatment of mediastinal growing teratoma syndrome. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2005;38:729-32.