

□ 증 례 □

세기관지 유두종 1예

가톨릭대학교 의과대학 내과학교실, 임상병리학교실*

이상학 · 김치홍 · 문화식 · 송정섭 · 박성학 · 장은덕*

= Abstract =

A Case of Bronchiolar Papilloma

Sang Hak Lee, M.D., Chi Hong Kim, M.D., Hwa Sik Moon, M.D.,
Jeong Sup Song, M.D., Sung Hak Park, M.D. and Eun Deok Jang, M.D.*

Department of Internal Medicine and Clinical Pathology*, Catholic University Medical College, Seoul, Korea

A 59-year-old woman was admitted to the hospital because of intermittent fever and right side chest pain. She has a same episode eight months before this entry. Chest CT scan demonstrated ill-defined parenchymal consolidation containing dilated bronchi of right lower lung field, but no endobronchial mass in the bronchial trees. Fiberoptic bronchoscopy seeking the cause of recurrent pneumonia revealed a small, round mass nearly completely obstructing the lumen of basal segmental bronchus of right lower lobe. The diagnosis of bronchiolar papilloma was made from the biopsy specimens of the bronchoscopic examination. The patient was treated with right lower lobectomy because of irreversible secondary changes below the obstructed bronchus. This thoracotomic excision resulted in complete relief of symptoms and the postoperative course was uneventful for 12 months. Here we report a extremely rare tumor with a brief review of literatures.

Key Words : Bronchiolar papilloma, Recurrent pneumonia, Lobectomy

서 론

세기관지 유두종(bronchiolar papilloma)은 제 2형 폐포세포에서 기원한 양성세포들로 구성된 유두

상을 특징으로 하는 극히 드문 양성 폐종양으로 제 2형 폐포세포의 유두상 선종(papillary adenoma of type 2 pneumocyte) 또는 Clara세포 선종(Clara cell adenoma) 등의 다른 이름으로도

불리온다^{1,2)}. Montes 등³⁾이 1966년에 Clara세포와 유사한 세포들로 구성된 유두상의 종양을 처음으로 기술하였으며, 1982년 Fantone 등⁴⁾이 폐의 유두상 선종에서 전자현미경적 구조가 Clara 세포와 제 2형 폐포세포의 분화에 일치하는 소견을 관찰함으로써 종양세포의 기원을 밝혀낸 세기관지 유두종은 현재까지 전 세계적으로 수 예만이 보고되어 있을 정도로 매우 드문 종양이다. 저자들은 가톨릭대학교 성빈센트병원에 내원한 반복적인 폐렴 및 흉막염이 있었던 환자에서 굴곡성 기관지경 검사를 시행하여 우폐하엽 기관지에 발생한 종양을 확인하고 수술로 완치시킨 세기관지 유두종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자 : 여자, 59세

주소 : 9개월간의 간헐적인 우측 흉부 통증 및 발열

과거력 및 가족력 : 특이 사항 없음

흡연력 : 없음

현병력 : 환자는 내원 8개월전 한달간의 객담을 동반한 기침, 우측 하흉부 통증, 발열로 입원하여 우폐 하엽의 폐렴 및 부폐렴흉막염 진단하여 치료 후 호전되어 퇴원하였던 환자로 그 후 간헐적으로 유사한 증상이 있었으나 정도가 경미하여 특별한 치료 없이 지내던 중, 내원 3일전부터 증세의 악화를 보여 이의 평가 및 치료를 위해 다시 입원하였다.

이학적 소견 : 입원당시 체온은 37.3℃, 혈압은 130/80 mmHg, 맥박 분당 92회, 호흡수 분당 18회였다. 흉부 청진상 우폐하야에서 수포음이 청진된 것 이외에는 특이 소견 없었다.

검사실 소견 : 말초 혈액검사상 혈색소 11.9g/dl, 백혈구 14,500/mm³(다형핵구 71%, 림프구 27%, 단핵구 2%), 혈소판 323,000/mm³이었고, 혈청 생화학검사, 소변검사 등은 모두 정상소견이었다. 동맥혈 가스검사상 pH 7.41, PaO₂ 76.4mmHg, PaCO₂ 39.9mmHg, HCO₃ 25.7mmol/L, 산소포화도 95.6%였다. 8개월전 및 급변 입원후 시행하였던 객담 결핵균 도말 및 배양 검사는 음성이었다.

흉부 방사선학적 소견 : 처음 입원 당시 시행한 단순 흉부 X-선상 우하엽의 염증성 침윤 및 흉수 소견이 보였다(Fig. 1). 항생제 등의 치료 후 호전되어(Fig. 2) 퇴원 하였다가 증세가 악화되어 재입원하여 시행한 흉부 X-선상 처음 입원당시의 소견과 유사한 양상을 보였다(Fig. 3). 흉부 전산화 단층촬영상 우하엽 기저분절에 기관지 확장을 동반한 폐허탈 및 고형질화가 관찰되었으나, 기관지내의 뚜렷한 종괴소견은 관찰되지 않았다(Fig. 4).



Fig. 1. Initial chest PA showed ill-defined hazy increased density in RLL base, obliterating the right hemidiaphragm with mild volume loss.



Fig. 2. Follow up chest PA showed reexpansion and clearing of the previous lesion.



Fig. 3. Chest PA at second admission showed reappearance of the same-natured lesion with the Fig. 1.

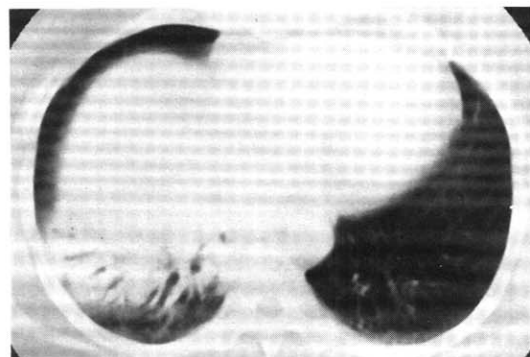


Fig. 4. Chest CT(lung setting) at the level of RLL base demonstrated ill-defined parenchymal consolidation containing dilated bronchi. Right hemidiaphragmatic elevation suggested volume loss of RLL.



Fig. 5. Fiberoptic bronchoscopic examination revealed a small, round mass with white, glistening surface nearly completely obstructing the opening of basal segmental bronchi of RLL.

굴곡성 기관지경 검사 소견 : 우하엽 기저분절 기관지 입구에 점액성의 백색 표면을 보이는 원형의 종괴가 관찰되었고 기관지내경은 좁아져 있었지만 생검감자는 통과가 가능하였다(Fig. 5).

병리조직학적 소견 : 종양은 비교적 경계가 분

명하며, 가지가 많은 유두상 소견을 보였다(Fig. 6). 유두의 중심은 섬유성이고, 둥글거나 난원형의 핵을 가진 입방세포와 원주세포로 피복되었다(Fig. 7). 종양은 비교적 순한 양성의 종양세포로 구성되었으며, 세포분열상이나 이형성, 괴사 등은

관찰되지 않아 세기관지 유두종의 소견에 합당하였다.



Fig. 6. Microscopic examination of the mass showed a branching papillary appearance with fibrous core(H & E stain, X 40).

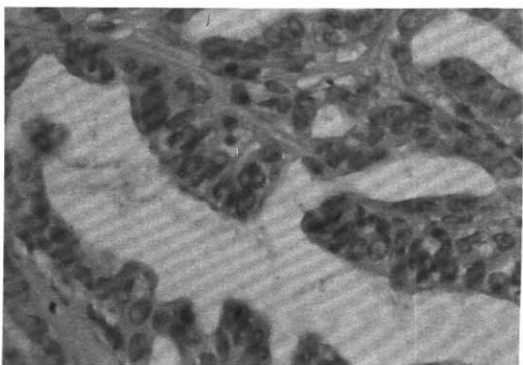


Fig. 7. Bronchiolar papilloma. The cores of the papillae are lined by bland, cuboidal and columnar cells with oval to round nuclei(H & E stain, X 200).

치료 및 경과 : 흉부외과로 전원하여 우하엽 절제술을 시행하였다. 환자는 수술후 특별한 합병증없이 12개월째 외래에서 추적관찰중이다.

고 찰

세기관지 유두종(bronchiolar papilloma)은 제 2

형 폐포세포에서 기원한 양성세포들로 구성된 유두상을 특징으로 하는 극히 드문 양성 폐종양으로 제 2형 폐포세포의 유두상 선종(papillary adenoma of type 2 pneumocyte) 또는 Clara세포 선종(Clara cell adenoma)등의 다른 이름으로도 불리운다^{1,2)}. Montes등³⁾이 1966년도에 Clara 세포와 유사한 세포들로 구성된 유두상의 종양을 처음으로 기술한 이래, 1980년 Spencer등¹⁾이 21예의 비침습성의 유두상 폐종양 중 2예의 종양이 광학현미경 소견상 Clara 세포와 유사한 형태를 가진 세포들로 구성되어 있다고 발표하였으며, 1982년 Fantone등⁴⁾이 폐의 유두상 선종에서 전자현미경적 구조를 관찰함에 의해 기원이 밝혀진 제 2형 폐포세포의 유두상 선종은 폐 말초부위나 중심부위에 존재하는 매우 드문 양성종양으로 알려져 있다.

병리조직학적으로 볼때 육안적으로는 대개 직경이 1-4cm 정도되는 말초결절로 국한성 구조를 가지고 있으며 절단면은 흰색으로 해면상 또는 과립상으로 기도와는 분리되어 있는 경우가 대부분이지만 소기관지 내강으로 돌출된 경우도 드물게 있다^{1,2,5)}. 본 환자의 경우도 말초에서 기원한 결절성 병변이 시간경과에 따라 소기관지 내강으로 자라나와 분절 기관지를 거의 폐색시킬만큼 성장한 것으로 생각된다. 현미경적 소견상 종양은 경계가 명확하며 주위 폐조직으로 침윤하기 보다는 압박하는 양상을 보이며 소기관지나 세기관지와 관련되어 있기도 하다⁵⁾. 종양은 분지를 가진 유두상을 보이는데 유두의 중심부는 섬유성이고 표면은 난형이나 구형의 핵을 가진 입방세포와 원주세포로 구성되어 있으며 핵안에는 균일하게 분산되어 있는 미세한 염색질이 관찰되며, 종종 섬모세포가 군데군데 존재하는 경우도 있다⁵⁾. 또한 양성과 악성의 제 2형 폐포세포에서 보이는 것과 같은 호산성 핵내 봉합체를 가지고 있기도 하며, 유사분열이나 괴사 그리고 세포내 점액은

존재하지 않는다^{5,6)}. 전자현미경적 소견상 대개 여러방향으로의 분화를 관찰할 수 있는데, 그 중에서 제 2형 폐포세포에서 보이는 것과 유사한 세포질내 오스미움 친화성 층판체(osmiophilic lamellar bodies)를 가진 세포들과 Clara 세포에서 존재하는 작고, 첨부에 위치하는 전자밀도가 높은 과립들을 가진 세포들이 서로 섞여 있는 양상이 가장 흔하게 관찰된다^{3,4,5,6)}. 또한 면역화학염색상 종양세포의 세포질은 표면활성제의 아포단백이나 Clara 세포항원을 나타낼 수도 있다. 하지만 Clara 세포와 제 2형 폐포세포간의 세포질내 불합체에 명확한 차이가 있음에도 불구하고^{8,9)} 일부 폐선종 및 세기관지폐포암에서 그 기원세포를 알기는 어려운 경우가 많고, 또한 이 종양이 제 2형 폐포세포나 Clara 세포주를 따라 분화한 다른 기관지 상피세포로부터 발생하였을 가능성을 배제할 수는 없다고 하겠다^{4,7)}. 본 예에서 전자현미경이나 면역조직화학염색을 이용한 관찰을 시행하지는 않았으나 광학현미경상 뚜렷한 특징을 가지고 있어 진단을 내리는 데 큰 어려움은 없었다.

이 종양이 양성이라는 증거는 조직학적으로 그동안 보고된 여러 예에서 유사분열의 활성도와 세포학적 이형성이 없었고^{5,6)}, 임상적으로는 10년간의 관찰에서 크기의 변화가 없었던 점⁴⁾, 그리고 다른 여러 예들에서 전이의 소견 및 절제 시행후 재발이 없었던 점을 들 수 있겠다^{12,5)}. 또한 기질에 탄력섬유가 없는 점을 포함한 성장양상을 볼 때 세기관지 유두종이 세기관지폐포암으로 진행되지는 않을 것으로 생각되고 있다²⁾.

발병 연령은 7세에서부터 60세까지로^{12,4,5,6)} 다양한 연령에서 발생되며 대개는 무증상으로 흉부 X-선상 고립성 폐결절로 발견되는 경우가 대부분이며 본 증례에서 같이 기관지 폐쇄로 인한 증상으로 발견되는 경우는 매우 드물다고 할 수 있

나, Spencer등¹⁾이 보고한 26세의 여자환자에서도 약 2개월간의 기침, 발열, 경도의 객혈, 천명음 등의 증상이 관찰된 바 있어, 보다 중심성의 기관지를 침범한 경우에는 이런 2차적인 증상이 생길수도 있다. 특히 본 증례는 흉부 X-선뿐 아니라 흉부 전산화 단층촬영에서도 종괴소견이 관찰되지 않아 처음에 진단을 내리는데는 어려움이 있었다. 재입원 당시 이전에 보였던 흉부 X-선상의 이상이 다시 발견되어 재발성 폐렴이 있을 경우 고려해야 할 기관지내 종양을 의심하여 흉부 전산화 단층촬영을 시행하였으나 기관지내 종양은 발견할 수 없었다. 그러나 결국 기관지경 검사를 시행하여 우폐 하엽의 기저분절 입구에 위치하고 있는 원형의 종괴를 발견하고 이를 생검하여 진단할 수 있었던 바, 방사선학적 검사상 기관지내 종양이 발견되지 않을 경우라도 폐렴의 재발 등 기관지 폐색증상이 의심되는 경우에는 기관지경 검사를 통한 확인이 반드시 필요하다고 하겠다.

세기관지 유두종은 일반적으로 폐의 다른 유두상 종양이나 선종과의 감별이 필요한데, 폐포선종(alveolar adenoma)은 유두상 선종에서 관찰되는 유두상이 존재하지 않으므로 감별이 가능하고, 유두상 세기관지폐포암(papillary bronchiolar cell carcinoma)의 경우 피사나 세포분열 그리고 핵 및 세포질의 다형성등의 악성소견으로 감별할 수 있다. 경화성 혈관종(sclerosing hemangioma)의 경우 유두상의 성장양상을 보이고 유두표면이 제2형폐포세포로 구성되어 있어 주의깊은 감별을 요하는데 세기관지 유두종에 비해 고형 부위 및 혈액이 충만한 낭, 그리고 반흔 부위 등의 다양한 조직학적 소견을 나타내고, 또한 세기관지 유두종에서는 관찰되지 않는 소견인 난형 또는 구형, 다각형 등의 형태를 하고있는 종양세포가 간질내에서 관찰되는 특징을 가지고 있어 감별점으로 삼을 수 있다.

치료 측면에서 볼 때 현재까지는 이 종양이 양성으로 알려져 있어 특별한 증상이 없는 경우에는 경과 관찰외의 다른 치료가 필요할 것으로 생각되지는 않지만, 본 예에서와 같이 기관지 폐색으로 인한 증상이 있는 경우에는 결국 수술적인 치료가 필요하다고 생각되며 본 예에서는 우하엽 절제술을 시행후 환자는 특별한 증상이 없는 상태로 12개월째 추적 관찰 중이다.

요 약

59세의 여자 환자가 반복되는 폐렴 및 흉수를 주소로 내원하였다. 흉부 전산화 단층촬영상 우폐 하엽 기저분절에 기관지 확장을 동반한 폐허탈 및 염증성 침윤소견이 관찰되었으며, 기관지내의 종괴 소견은 관찰되지 않았다. 굴곡성 기관지경 검사상 우하엽 기저분절 기관지 입구에 점액성의 백색 표면을 보이는 돌출성 종괴가 관찰되었고 관강은 좁아져 있었으며 감자 생검상 세기관지 폐포암으로 확진되었다. 환자는 우하엽 절제술을 시행받았으며 수술후 증상없는 상태로 12개월째 추적관찰중이다.

세기관지 유두종은 극히 드문 양성 폐종양으로 알려져 있고 국내에는 아직 보고된 바가 없어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Spencer H, Dail DH, Arneaud J : Non-invasive bronchial epithelial papillary tumors. *Cancer* **45** : 1486, 1980
- 2) Noguchi M, Kodama T, Shimosato Y, Koide T, Naruke T, Gurmukh S, Katyal SL : Papillary adenoma of type 2 pneumocytes. *Am J Surg Pathol* **10** : 134, 1986
- 3) Montes M, Allen H, Brennen JC : Bronchiolar apocrine tumor. *Am Rev Respir Dis* **93** : 946, 1966
- 4) Fantone JC, Geisinger KR, Appelman HD : Papillary adenoma of the lung with lamellar and electron dense granules. An ultrastructural study. *Cancer* **50** : 2839, 1982
- 5) Fukuda T, Ohnishi Y, Kanai I : Papillary adenoma of the lung. Histological and ultrastructural findings in two cases. *Acta Pathol Jpn* **42** : 56, 1992
- 6) Hegg CA, Flint A, Singh G : Papillary adenoma of the lung. *Am J Clin Pathol* **97** : 393, 1992
- 7) Kuhn C : Fine structure of bronchiolo-alveolar cell carcinoma. *Cancer* **40** : 2171, 1977
- 8) Kouffman SL, Alexander L, Sass L : Histologic and ultrastructural features of the Clara cell adenoma of the lung. *Lab Invest* **40** : 708, 1979
- 9) Sato T, Kauffman SL : A scanning electron microscopic study of the type II and Clara cell adenoma of the mouse lung. *Lab Invest* **40** : 28, 1980