

□ 증 례 □

기관지 사구 종양 1례

서남대학교 의과대학 내과학교실, 전남대학교 의과대학 내과학교실*,
홍부외과학 교실**, 광주보훈병원***

이은우, 김수옥, 오인재, 주진영, 조계중,
김규식, 김영철, 박경옥, 나국주, 명재일***

=Abstract=

A Case of Bronchial Glomus Tumor

Eun-Woo Lee, M.D., Soo-Ok Kim, M.D., In-Jae Oh, M.D.,
Jin-Young Ju, M.D., Gye-Jung Cho, M.D., Kyu-Sik Kim, M.D.,
Young-Chul Kim, M.D., Kyung-Ok Park, M.D.,
Kook-Joo Na, M.D., Jae-il Myung, M.D.***

**Department of Internal Medicine Seonam University Medical School
Department of Internal Medicine* and Department of Thoracic and Cardiovascular surgery**
Chonnam National University Medical School,
and Gwangju Veterans Administration Hospital***, Gwangju, South Korea**

An 18-year-old female was admitted because of dyspnea at rest. A chest computed tomography (CT) scan and fiberoptic bronchoscopy demonstrated a polypoid tumor in the left main bronchus, 0.5cm distal from the carina. Surgical resection of the tumor was performed, along with. A pathological evaluation and the immunohistochemical findings led to the diagnosis of a glomus tumor, which originated from the bronchus, an area where this type of tumor has rarely been reported. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 2002, 53:445-449)

Key words : Glomus tumor, Bronchus, immunohistochemical findings.

Address for correspondence :

Eun Woo Lee, M.D.

Department of Internal Medicine Seonam University Medical School

Seonam University Hospital 120-1, Marakdong, Seo-gu, Gwangju, Korea, 502-157

Phone : 062-370-7732 Fax : 062-371-3092 E-mail : lew0118@hanmir.com

서 론

사구종양은 동정맥 문합 주위의 사구세포에서 기원하는 양성종양으로 연조직에서 발생하는 종양의 1.6 %를 차지한다. 가장 흔한 위치는 손가락의 조갑 아래이나 드물게는 슬개골, 위, 결장, 신경, 안검, 코, 종격동 그리고 매우 드물게 호흡기에서도 발생한다.¹ 호흡기에서 발생된 증례 보고는 전 세계적으로 20례의 보고를 찾을 수 있었는데 기관사구종양 13례, 원발성폐사구종양 4례, 기관지 사구종양 3례 등¹⁻¹²이다. 국내에서는 기관에서 발생한 사구종양이 4례 보고¹⁻⁵되었고 광동에 의해 기관지 사구종양이 1예가 보고되었다.⁵ 기관지에서 발생한 사구종양은 세계적으로도 희귀하여 이 증례는 세계적으로는 네 번째, 우리나라에서는 두 번째 증례 보고로 보인다.

저자들은 호흡곤란을 주소로 내원한 18세 여자의 기관지에서 발생한 사구종양 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

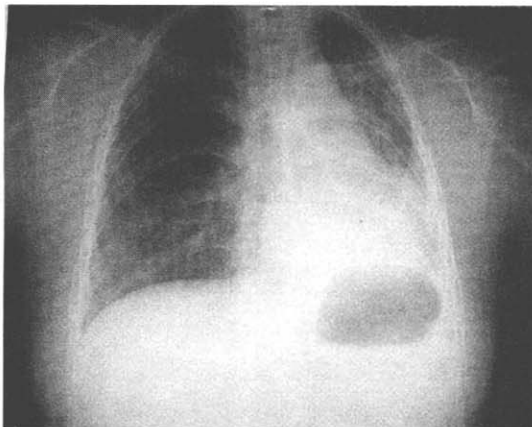
증 례

환 자 : 정○○, 여자, 18세

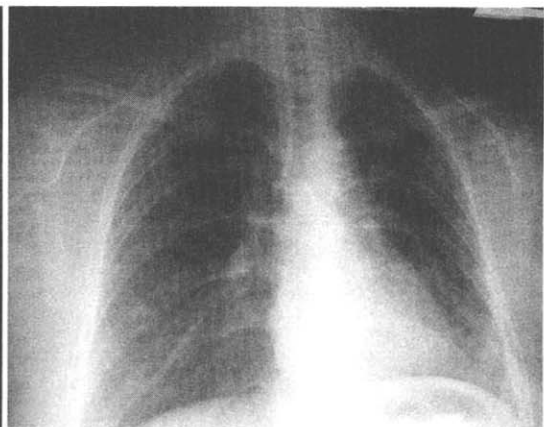
주 소 : 6 개월 전부터 발생한 기침, 호흡곤란
과거력, 가족력, 직업력 : 특이소견 없음.

진찰소견 : 급성 병색을 보였으나 의식은 명료하였고 활력 증후와 두경부의 진찰에서 특이 소견은 없었다. 흉골 상부에서 기관이 좌측으로 편위되어 있었으며 좌측 흉부에서 탁음이 타진되었다. 맥박은 규칙적이었고 심잡음은 청진되지 않았으나, 좌측 폐야에서 성음진탕이 소실되어 있었다. 좌측 폐야에서 호흡음은 들리지 않았고 빠르고 거칠게 호흡을 시켰을 때도 천명음은 청진되지 않았다.

검사실 소견 : 내원 당시 혈액 검사에서 백혈구 $5400/\text{mm}^3$, 혈색소 13.6 g/dL , 혈소판 $203,000/\text{mm}^3$ 를 보였다. 소변검사는 정상하였고 일반 화학검사에서 특이 소견은 보이지 않았다. 폐기능 검사에서는 FEV1 1.81 L(60%), FVC 1.93 L(60%) 이었고, 심전도 검사는 정상이었다.



(A)



(B)

Fig. 1. A. An initial chest radiograph showing atelectasis of the left lower lobe.

B. A follow up chest radiograph after surgery showing resolved atelectasis and metallic suture materials.

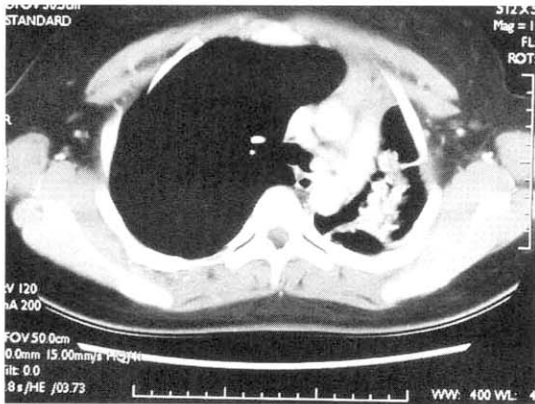


Fig. 2. A chest CT scan showing a 1.5 cm sized well enhancing round lesion in the left main bronchus.



Fig. 3. Bronchoscopic view from the trachea showing a smooth surfaced polypoid mass in the left main bronchus.

방사선 소견 : 흉부 단순 촬영에서 좌폐하엽의 허탈과 기관의 좌측편위가 관찰되었다(Fig. 1A). 흉부 전산화 단층촬영에서 1.5 cm 크기의 조영이 잘 되는 원형 종괴가 좌측 주기관지 내에 관찰되어 기관지 내 종양이 의심되었다(Fig. 2).

임상 경과 : 기관지 내시경검사를 시행하였고 기관 분기부에서 0.5 cm 하방에 좌측 주기관지를 거의

폐쇄하고 있는 점막으로 덮인 표면이 매끄러운 종양이 관찰되어(Fig. 3), 조직을 얻은 결과 방추상의 평활근 세포들이 증식되어 있고 세포핵들이 이형성을 보이는 않는 양성 종양으로 추정되었다.

기관지 내 종양에 의하여 호흡곤란이 초래되고 있었으므로 기관분기부 하부 1 cm 부위에서 막양부를 절개하여 종양을 절제하고 동시에 종양이 기원한 기관지를 쇄기형으로 절제하고 문합하는 기관지 성형술을 시행하였다. 절제된 종양의 크기는 $2 \times 1.5 \times 1$ cm 로써, 병리조직 소견에서 작은 혈관들이 종양세포들을 둘러싸고 있었고 종양세포는 둥근 핵과 세포질이 풍부한 입방 세포들로 이루어져 있었다. 평활근 액틴 면역화학 염색에서 양성 소견이어서 사구종양에 합당한 소견(Fig. 4)이었다.

수술 후 호흡곤란과 기침은 호전되었고 방사선 사진에서 관찰되었던 좌폐하엽의 허탈 소견도 소실되었다(Fig. 1B). 수술 후 1개월 후에 추적 검사한 폐기능 검사에서 FEV1 2.5 L(80%), FVC 2.73 L (78%)로 호전을 보여 현재까지 외래에서 추적 경과 관찰 중이다.

고 찰

사구종양은 1924년 Masson에 의해 처음 기술되어진 정상 사구체의 변형된 평활근 세포와 유사한 세포로 이루어진 종양이다. 사구체는 열조절을 담당하는 동정맥 문합의 특수한 형태로서 Sucquet-Hoyer 관들로 구성되는데 이 관들은 사구세포로 알려진 풍부한 입방형의 내피세포로 내층이 이루어진다.¹² Masson은 이 사구체의 과증식의 결과 사구종양이 발생한다고 주장하였다.

사구종양은 조직학적으로 세 가지 형태로 구분되는데, 첫째 “glomus tumor proper” 형태이고 두 번째가 사구세포 군으로 둘러싸인 해면혈관이 특징인 “glomangioma type”이며 세 번째가 성숙된 방추상의 평활근 세포들로 이루어진 “glomangio-

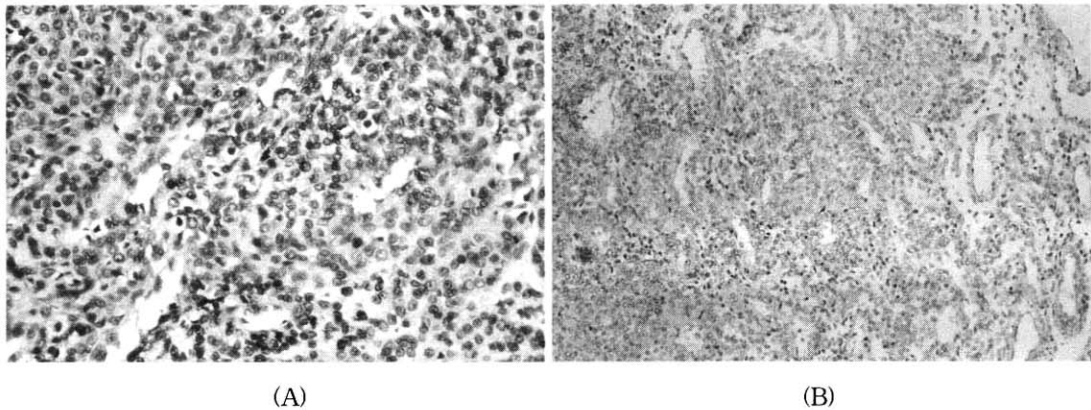


Fig. 4. A. The tumor is composed of groups of small cuboidal cells, with bland oval to round nuclei and a clear cytoplasm surrounding the thin-walled vessels (H&E $\times 100$).
B. immunohistochemical staining for α -smooth muscle actin.

myoma variant” 형이다.¹¹ 최근에는 새로운 형태인 oncocytic glomus tumor가 기술되기도 하였는데 이는 광학현미경으로는 종양세포형(oncocytic) 변화가 관찰되며 전자현미경으로는 수많은 미토콘드리아가 특징적으로 관찰되는 아형이다²

한편 사구종양이 혼하지 않는 위치에서 발견되는 경우 내시경적, 조직학적으로 다른 종양과 유사하기 때문에 감별진단이 필요한데 특히 유암종(carcinoid tumor)과 혈관주위 세포종(hemangiopericytoma)과의 감별진단이 필요하다.¹² 유암종의 경우 사구종양과 같이 혈관이 많고 호산구성 세포질이 있는 원형의 균등한 세포들로 이루어져 있어 감별진단이 어려운데 유암종은 저분자 keratin, chromogranin, 그리고 synaptophysin에 염색되지만 α -평활근 액틴에는 염색되지 않는다. 반면에 사구종양은 α -평활근 액틴에 대한 염색에 양성이고 chromogranin과 synaptophysin에는 음성을 보인다는 점이 감별점이다. 혈관주위 세포종은 종양 세포가 더 방추형이고 vimentin에 국소적으로 염색된다. 특수 표지자 단백질에 대한 면역조직화학적 염색이 감별진단에 유용한데 사구종양은 vimentin과 α -평활근 액틴에 양성이고 cytokeratin,

chromogranin, myoglobin등에 음성인 점이 감별점이다. 본 증례에서는 vimentin, actin에 양성이었다.

사구종양의 임상 경과를 대부분 양성을 보이지만 악성 경과를 보이는 경우도 보고되고 있다. 악성사구종양은 조직학적 형태에 따라 세 가지로 나누는데 첫째는 주변으로 침윤해 들어가는 형(locally infiltrative glomus tumor, LIGT), 둘째는 양성 사구종양에서 발생하는 사구혈관육종(glomangiosarcomas arising in a benign glomus tumors, GABG)이고 셋째로 독립적으로 발생하는 사구혈관육종(glomangiosarcomas arising de novo, GADN)이다.

위 세 가지 형태 중에서 LIGT는 조직학적으로 양성의 고립성 사구종양이지만 주변 조직으로 침윤되며 자라며 수술 후 재발하는 경향을 보인다. GABG는 조직학적으로 악성이고, 선행하는 통상의 양성사구종양에서 존재하는 경우이다. GADN은 원형세포육종들로서 높은 유사분열수를 가지고 있다(HPF당 1-10개).¹⁴

14예의 보고된 기관사구종양 증례들의 평균연령은 58세이며 4 : 1로 남자에서 더 많다. 대부분은 호흡곤란, 기침, 객혈 등 증상을 보였고 두 증례에서는 저자들의 보고와 같이 급성기도 폐색을 보였다. 모

든 기관사구 종양은 막양부 후벽, 하 1/3에서 기원했고 평균직경은 2 cm (1.2 cm~4.5 cm)로 분포하였다. 조직학적으로 71%가 glomus tumor proper, 21%가 glomangioma이고 7%만이 oncocytic glomus tumor 였다. 양성인 경우 단순 절제만으로 치료될 수 있는데 보고된 12예의 기관 혹은 기관지 사구종양에 있어서 9례는 재발 없이 절제만으로 치료되었고 단지 3례에서만 종양의 위치와 크기 때문에 Nd-YAG laser로 치료하였다.^{1-4,6-9}

이상으로 기침과 호흡곤란을 주소로 내원한 18세 여자에서 기관지 사구종양을 발견하여 종양 절제 및 기관지 성형술로써 치유한 1예를 문헌 고찰과 함께 보고한다.

참 고 문 헌

- Kim IL, Kim JH, Suh J, Ham EK, Suh KP. Glomus tumor of the trachea : Report of a case with ultrastructural observation. *Cancer* 1989;64:881-6.
- Shin DH, Park SS, Lee JH, Park MH, Lee JD. Oncocytic glomus tumor of the trachea. *Chest* 1990;98:1021-3.
- 정만표, 정희순, 한성구, 심영수, 김건열, 한용철. 기관내 사구종 1예. *대한내과학회잡지* 1989;36:431-5.
- 최종순, 백정환, 정유석, 고영혜. 기관에 생긴 사구종양 -1예보고-. *대한 이비인후과 학회지*. 2000;43:1368-71.
- 곽기오, 김병훈, 이양행, 조광현. 좌측 주기관지에 위치한 사구종양. *대한 흉부외과학회지* 1999;32:761-4.
- Garcia-Prats MD, Sotelo-Rodeiguez MT, Ballestin C, Martinew-Gonzalez MA, Roca R, Alfaro J, DeMiguel E. Glomus tumor of the trachea: Report of a case with microscopic ultrastructural and immunohistochemical examination and review of the literature. *Histopathology* 1991;19:459-64.
- Fabich DR, Hafez GR. Glomangioma of the trachea. *Cancer* 1980;45:2337-41.
- Sheffield E, Dewar A, Corrin B, Addis BJ, Conroy B. Glomus tumor of the trachea. *histopathology* 1988;13:234-6.
- Watanave M, Takagi K, Ono K, Aoki T, Tanaka S, Shimaqaki H, Aida S. Successful resection of a glomus tumor arising from the lower trachea : Report of a case. *Surg Today* 1998;28: 332-4.
- Okisu H, Oho K, Koshiishi Y, Abe S, Takakura H, Amemiya R, Naito J, Jayata Y, Kodama T. A case of endobronchial glomus tumor. *Jpn Soc Bronchol* 1985;7:312-7.
- Koss MN, Hochholzer L, Moran CA. primary pulmonary glomus tumor. A clinicopathologic and immunohistochemical study of two cases. *Mod Pathol* 1998;11:253-8.
- Oizumi S, Kon Y, Ishida T, Yamazaki K, Itoh T, Ogura S, et al. A rare case of bronchial glomus tumor. *Respiration* 2001; 68:95-8.
- Brathwaite CD, Poppiti RJ jr. Malignant glomus tumor. A case report of widespread metastases in a patient with multiple glomus body hamartomas. *Am J Surg Pathol* 1996; 20:233-8.
- Hiruta N, Kameda N, Tokudome T, Tsuchiya K, Nonaka H, Hatori T, Akima M, Miura M. Malignant glomus tumor : A case report and review of the literature. *Am J Surg Pathol* 1997;21:1096-103.