□ 증 례 □

기관지 천식으로 오인된 기관지 평활근종 2예

연세대학교 의과대학 내과학교실¹, 흉부외과학교실², 병리학교실³,
폐질환연구소⁴, BK21 의학과학사업단⁵

이승철¹, 박무석¹, 정재호¹, 김영삼^{1,4}, 김길동^{2,4},
장 준^{1,4}, 정경영^{2,4}, 신동환^{3,4}, 김성규^{1,4}, 김세규^{1,4,5}

=Abstract=

Two Cases of Bronchial Leiomyoma Initially Misdiagnosed as Bronchial Asthma

Seung Chul Lee, M.D.¹, Moo Suk Park, M.D.¹, Jae Ho Chung, M.D.¹,
Young Sam Kim, M.D.^{1,4}, Kil Dong Kim, M.D.^{2,4}, Joon Chang, M.D.^{1,4},
Kyung Young Chung, M.D.^{2,4}, Dong Hwan Shin, M.D.^{3,4},
Sung Kyu Kim, M.D.^{1,4}, Se Kyu Kim, M.D.^{1,4,5}

Department of Internal Medicine¹, Thoracic and Cardiovascular Surgery², Pathology³,
The Institute of Chest Diseases⁴, Brain Korea 21 Project for Medical Sciences⁵
Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Leiomyoma of the bronchus is a very rare benign tumor of the lung. Leiomyoma is usually found in the young and the middle age. The symptom depends on the location of the tumor, it's size, and changes in the lung distal to the lesion. Obstructive symptoms due to leiomyoma could be similar to those of asthma and bronchitis, and therefore delayed diagnosis is common. The treatment of leiomyoma is conservative since there have been no reports of recurrence after limited resection.

Recently bronchoscopic tumor resection has been applied to selected cases. We experienced two cases of bronchial leiomyoma initially misdiagnosed as bronchial asthma which were successfully excised by resection, end-to-end anastomosis and bronchoplasty. To prevent destructive changes of lung distal to obstruction and to preserve the pulmonary function, early diagnosis and appropriate treatment are important points of consideration. (*Tuberculosis and Respiratory Diseases* 2003, 55:616-622)

Key words : Leiomyoma, Bronchus, Asthma.

Address for correspondence :

Se Kyu Kim, M.D.

Department of Internal Medicine, Yonsei University College of Medicine,
CPO Box 8044, Seoul, Korea.

Phone : 02-361-5429 Fax : 02-393-6884 E-mail : sekyukim@yumc.yonsei.ac.kr

서 론

폐에 발생하는 평활근종은 그 예가 드물어 Forke¹에 의해 1910년 처음으로 보고되었으며 국내의 경우 1967년 황 등²이 폐실질에 발생한 평활근종을 처음 보고한 이래, 기관지에 국한되어 발생하는 평활근종은 1985년 유 등³의 첫 보고후 지금까지 국내에 기관지 평활근종 6예³⁻⁷가 보고되었다(Table 1). 기관지에 발생한 평활근종의 경우, 기관지의 부분 및 완전 폐쇄를 일으켜서 증상을 일으키는데 주로 기침, 객혈, 천명, 흉통, 발열, 호흡곤란 등을 일으키며, 또한 천식으로 오인되어 뒤늦게 진단되기도 한다. 치료는 제한적 절제 후에도 재발된 보고가 없기 때문에 폐실질을 최대한 보존하는 수술이 시행되고 있으며, 최근에는 굴곡성 기관지내시경을 이용한 내시경적 절제술도 보고되고 있다⁵.

저자들은 천명, 호흡곤란, 기침 등의 증상으로 타병원에서 천식으로 진단 받고 이에 대한 치료를 받던 중, 증상의 호전이 없고 점점 악화되어 입원한 환자 2예에서 흉부전산화단층촬영과 굴곡성 기관지내시경 검사를 통해 기관지 평활근종을 진단하였고, 수술적인 제거를 시행하여 재발과 잔여 종괴 없이 성공적인 치료를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 1

환 자 : 유○영, 여자, 43세

주 소 : 천명, 호흡곤란, 좌측 흉통

기왕력, 사회력 및 가족력 : 특이사항은 없었음

현병력 : 약 10개월 전부터 천명 및 일중 변동 및 자세변화에 따른 호흡곤란이 있어 개인의원에서 기관지 천식으로 진단 받고 이에 대한 약물치료를 하며 지내던 중 호전이 없고 증상이 점점 심해져서 외래 경유하여 입원하였다.

진찰, 신체 검사 : 혈압은 100/60 mmHg, 맥박은

Fig. 1. Chest PA showed decreased vascular and bronchial marking on left lung field.

126회/분, 호흡수는 20회/분, 체온 36.2°C 이었다. 청진 소견에서 좌측 호흡음이 크게 감소되어 있었고, 외래에서는 좌측 폐야에서 천명음이 들렸으나, 입원 시에는 천명음이나 수포음은 들리지 않았다.

검사실 소견 : 내원 당시 말초혈액검사상 백혈구 15900/mm³ (중성구 92%), 적혈구 13.9 g/dl, 혈소판 173,000/mm³, 동맥혈 가스 검사상 pH 7.45, PaCO₂ 28 mmHg, PaO₂ 69 mmHg, HCO₃ 20.7 mmHg, 산소포화도 95%이었으며, 혈청 CEA는 1.51 ng/ml이었다. 폐기능검사상 FVC 1.41 L(정상 예측치의 49%), FEV₁ 1.22 L(정상 예측치의 49.4%), FEV₁/FVC 86.5%로 혼합성 환기장애를 보였다.

방사선학적 소견 : 단순 흉부 X-선 촬영상 폐허탈이나 무기폐, 폐렴 등의 소견은 보이지 않았으며, 좌폐야의 혈관 및 기관지 음영이 감소되어 있었다(Fig. 1). 흉부전산화단층촬영상 좌측 주기관지 원위부 내강에 직경 약 1.3 cm의 원형 종괴가 관찰되었으며 주위 조직으로의 침윤이나 임파선 종대는 관찰되지 않았다(Fig. 2).

Fig. 2. Chest CT showed about 1.3 cm sized, well defined round mass in the lumen of Lt. main bronchus without extraluminal extension.

Fig. 3. Bronchoscopic findings showed near total obstruction of left main bronchus by polypoid pedunculated hypervascular mass.

굴곡성 기관지내시경 검사소견 : 좌측 주기관지 원위부의 전측부를 거의 완전히 폐쇄시키는 넓은 기저부를 가지며 병목(stalk)이 있는 용종성 종괴가 관찰되었고, 종괴는 다소 부드러운 피낭에 싸여서 피낭의 주름이 보이고 울혈된 혈관이 피낭의 표면에서 관찰되었다(Fig. 3).

Fig. 4. Microscopic findings showed proliferating spindle-shaped cells with oval nuclei and interlacing bundles of smooth muscles (H&E stain $\times 200$).

치료 및 경과 : 환자는 기관지내시경 조직검사로 평활근종이 진단되어(Fig. 4) 개흉술을 시행하였다. 수술 소견상 주분기부로부터 1.5 cm 원위부의 좌측 주기관지에 $1 \times 1 \times 1$ cm 크기의 등글고 부드러운 종괴가 관찰되었으며, 좌측 주기관지의 종괴가 있는 부분을 수직 절개한 후 종괴의 병목(stalk)을 제거한 다음, 좌측 주기관지를 분절절제 후 단단연결술 및 기관지성형술을 시행하였다. 수술 8일째 별다른 합병증 없이 퇴원하였고, 호흡곤란은 없었으며 좌측 폐야에서 들렸던 천명은 소실되었다. 수술 1년 후 흉부전산화단층촬영을 시행하였고, 잔여 종괴나 재발은 없었으며 3년째 현재 외래에서 경과 관찰 중이다.

증례 2

환자 : 김○자, 여자, 58세

주소 : 천명, 기침, 호흡곤란

기왕력 및 가족력 : 특이사항 없음

현병력 : 3년 전 천명과 기침으로 개인의원에서 기관지 천식으로 진단 받고 치료 받던 중 호흡

곤란이 악화되어 흉부전산화단층촬영 시행한 후, 기관지내 종괴가 발견되어 입원하였다.

진찰, 신체 검사 : 혈압은 130/80 mmHg, 맥박은 85회/분, 호흡수는 16회/분, 체온 36.4 °C 이었다. 청진상 좌측 상부 폐야에서 국소적인 천명음이 들렸다.

검사실 소견 : 내원 당시 말초혈액검사상 백혈구 $6100/\text{mm}^3$ (중성구 92%), 적혈구 12.0 g/dl, 혈소판 $267,000/\text{mm}^3$, 동맥혈 가스 검사상 pH 7.45, PaCO_2 37 mmHg, PaO_2 78 mmHg, HCO_3^- 26 mmHg, 산소포화도 96%이었으며, 혈청 CEA는 1.80 ng/ml이었다. 폐기능검사상 FVC 1.93 L(정상 예측치의 69.8%), FEV_1 1.58 L(정상 예측치의 67.2%), FEV_1/FVC 81.9%로 혼합성 환기장애를 보였다.

방사선학적 소견 : 단순 흉부 X-선 촬영상 특별한 이상 소견 관찰되지 않았으며 흉부전산화단층촬영상 주분기부로부터 2 cm 원위부에 좌측 주기관지 후방에 붙어 있는 약 1×1.5 cm 크기의 타원형의 고형 종괴가 관찰되었고, 주위 조직으로의 침윤이나 임파선 종대는 관찰되지 않았다.

굴곡성 기관지내시경 검사소견 : 주분기부로부터 2 cm 원위부에 좌측 주기관지를 90%이상 폐쇄시키는 매끈한 표면을 갖는 둥근 종괴가 관찰되었다.

치료 및 경과 : 환자는 기관지내시경 조직검사항 조직이 불충분하여 확진되지 않았으나, 기관지 양성 종양으로 생각되어 개흉술을 시행하였다. 수술 소견상 주분기부로부터 2 cm 원위부의 좌측 주기관지에 2×1.3 cm 크기의 타원형의 부드러운 종괴가 관찰되었으며, 수술 중 시행한 동결절편 병리조직 검사상 양성 종양이 진단되어 좌측 주기관지의 종괴와 더불어 약 1 cm의 기관지를 잘라낸 후 단단연결술 및 기관지성형술을 시행하였다. 수술 후 시행한 조직병리 검사상 특징적으로 타원형의 핵과 길고 가느다란 양극성 세포질의 돌기를 갖는 모양과 크기가 일정한 평활근세포들이 소용돌이치는 양상으로 배열되어 있어 평활근종을 진단하

Fig. 5. The tumor was composed of densely packed spindle cells in interlacing bundles with pale elongated nucleus (H&E stain $\times 200$).

였다(Fig. 5). 수술 8일째 별다른 합병증 없이 퇴원하였고, 천명, 호흡곤란, 기침 등의 증상은 소실되었으며 현재 잔여 종괴나 재발은 없는 상태이다.

고 찰

폐의 원발성 평활근종은 하부 기도내에 발생하는 양성 종양의 약 2%를 차지하는 매우 드문 질환이다⁸. 그 중 기관지 평활근종은 폐의 원발성 평활근종의 약 33%에서 발생하는 것으로 보고되고 있고, 하부 1/3 후반부의 막성 부위에서 발생하며, 넓은 기저부를 갖는 용종양 형태를 보인다⁸.

국내 문헌상 폐실질 6예, 기관 6예, 기관지 6예를 포함하여 총 16례의 평활근종이 보고된 바 있으며 기관지에 발생하는 경우는 6예로 1/3에서 발생하였고 외국 문헌에서도 그 빈도는 약 33%였으며¹⁰, 천식으로 치료 받다가 뒤늦게 진단된 증례 보고는 없었다. 기관지 평활근종은 국외 보고에 의하면 30~40대의 비교적 젊은 나이(평균 40.6세)에 발생하며⁸ 성별에 차이가 없고⁹, 발생 부위 별로는 우측(62%)이 좌측(38%) 보다 더 많다¹⁰. 국내에 보고된 증례들은 대부분 30~40대의 젊은 나이(평균

43.4세)에 발견되었으나 국외 보고와는 달리 여자에서 더 많이 발생하였고 좌측에서 더 많이 발생하였다(좌측:우측=7:1).

증상은 기관지의 부분적인 또는 완전한 폐쇄에 의해 기인하며 기침, 호흡곤란, 흉부 통증, 객혈, 천명 등의 증상이 나타날 수 있고, 폐쇄 부위의 원위부로 폐렴, 폐허탈, 기관지확장증 등의 증상 및 호기성 공기 저류(air-trapping)로 인한 이차성 기흉이 나타날 수 있다⁹. 호흡곤란의 경우 늑는 경우와 같이 체위변화에 따라서 혹은 밤에 더 심해질 수 있으며¹¹ 이는 증력에 따른 종양의 위치 변화에 의해 기도 폐쇄가 악화 되거나 수면 중 객담 배출능의 저하와 동반되어 나타나는 증상이라고 생각된다. 본 첫번째 증례에서도 일중 변동있는, 체위 변화에 따른 호흡곤란을 호소하였다. 또 천식으로 오인되어 치료를 받다가 천식과는 다른 임상 증상으로 굴곡성 기관지내시경이나 흉부전산화단층촬영 등을 통해 진단되기도 하는데, 본 두 증례의 경우에도 천식으로 진단 받고 치료 받던 중 증상 호전이 없고 진행하는 호흡곤란으로 흉부전산화단층촬영과 굴곡성 기관지내시경 검사를 통해 처음 진

단된 경우이며, 국내 보고된 증례들의 경우(Table 1), 호흡곤란과 기침이 주된 증상이었다. 이는 기관지 내에 존재하는 양성 종양에 의한 부분적인 혹은 완전한 폐쇄에 의한 증상임을 시사하고 있다.

기관지 평활근종을 진단하는 방법에는 단순 흉부 X-선 촬영, 흉부전산화단층촬영, 굴곡성 기관지내시경 검사 등이 있다. 단순 흉부 X-선 촬영상 기관지 폐쇄에 기인하는 폐허탈, 폐경화, 과팽창, 기흉 등을 관찰할 수 있으며, 흉부전산화단층촬영상 종괴의 위치와 크기를 확인할 수 있다. 평활근종은 절제 후 재발에 대한 보고가 없어 보존적 수술로 치료되며, 또 수술 범위와 방법들을 결정하기 위해 수술 전 기관지내시경 검사를 시행하여 종괴를 직접 확인한 후 조직 검사를 시행하여 미리 확진을 하는 것이 중요하다.

조직병리학적으로 육안 소견상 기도와 기관지벽의 평활근에서 자라 올라온 용종 모양의 형태를 보이고 넓은 기저를 가지며, 현미경적 소견은 다른 곳에 발생한 평활근종과 같이 방추형의 세포로 핵의 끝은 뭉뚱하며 이러한 세포들이 모여서 다발을 이루거나 소용돌이 치는 모습을 보이면서 이형성

Table 1. Literature review of bronchial leiomyoma in Korea

Author	Sex/Age	Symptom	Location	Treatment
You et al. ³	M/58	Dyspnea, Cough	Lt. main bronchus	Tumor removal
Ha et al. ⁴	F/37	Cough	Lt. main bronchus	Lt. lower lobectomy
Kim et al. ⁵	F/45	Cough, Sputum, Dyspnea	Lt. lower lobar bronchus	Bronchoscopic removal (Nd-YAG laser, bronchial snare)
	F/55	Cough, Fever	Lt. lower lobar bronchus	
Kim et al. ⁶	F/37	Cough, Sputum, Dyspnea	Rt. main bronchus	Rt. pneumonectomy
Kim et al. ⁷	M/35	Wheezing, Cough, Sputum, Dyspnea	Lt. main bronchus	Resection: end to end anastomosis
Current case	F/43	Wheezing, Dyspnea, Chest pain	Lt. main bronchus	Resection: end to end anastomosis
Current case	F/58	Wheezing, Cough, Dyspnea,	Lt. main bronchus	Resection: end to end anastomosis

이나 비정형 세포분열은 나타나지 않는다⁴.

기관지 평활근종의 치료는 종양의 위치, 크기, 종괴 기저부의 폭, 그리고 폐쇄 원위부의 폐조직의 병적 변화의 가역성 여부에 따라 달라진다. 문헌에 따르면 기관지 평활근종의 약 65%가 진행된 원위부 폐조직의 병변으로 엽절제나 전폐절제술이 시행되었고, 기관지 평활근종은 제한적인 절제 후에도 재발된 보고가 없기 때문에 폐쇄 원위부의 병적 변화가 없다면, 폐실질을 최대한 보존하는 수술적 절제술이 시행되고 있다¹². 최근에는 굴곡성 기관지내시경을 이용한 종물제거, 레이저를 이용한 종물제거가 보고되고 있으며¹³ 국내에도 김 등⁵이 Nd-YAG laser를 이용하여 기관지 평활근종을 제거한 예를 보고한 바 있다. 그러나 1) 평활근종이 넓은 기저부를 가지고 용종성으로 자라나는 점 2) 일부에서는 기관지 연골 밖으로 침범하며¹⁴ 3) 평활근종과 평활근육종의 감별이 어려울 수 있다는 점¹⁵ 4) 전체의 종양을 조직학 적으로 관찰이 불가능하다는 점 때문에 Nd-YAG laser를 이용한 제거 방법은 작고, 좁은 각을 가지며 이동성이 있는 경우에 한하여 시행하는 것이 좋다고 한다⁹. 게다가 이런 기관지내시경적 절제는 천공과 출혈의 합병증이 있을 수 있으며, 기관지 평활근종이 기관지 벽에서 기원하기 때문에 조직학적으로 완전한 제거를 보장하지 못하고, 또 종양이 작은 조각으로 잘려지기 때문에 기관지 내 파종의 가능성이 있어 내시경적 절제는 위와 같은 제한되고 선별된 경우에 한해서 시행하여야 하며 또 시행 후 정기적인 추적관찰이 필요하다⁵.

개흉술의 경우는 평활근종, 평활근육종, 또는 다른 악성 종양과 감별이 되지 않을 때, 기관지내시경 검사로 얻은 병리조직이 작아서 병변의 성상이 불분명할 때^{9,11}, 폐쇄 원위부의 폐조직이 파괴되었을 때 시행해야 하며⁵, 또한 종괴가 기관지내에 넓게 퍼져 있는 경우나 넓은 기저부를 갖는 경우¹⁰, 반대쪽 기관지 내강으로 자라나는 경우에도 고려

되어야 한다.

본 두 증례 중 첫번째 증례는 약 10개월간의 천명과 일증 변동 및 자세변화에 따른 호흡곤란 등의 증상이 있어 천식으로 오인되어 이에 대한 치료 중 진단이 늦어졌던 경우였으며 두번째 증례의 경우 역시 기관지 천식으로 오인되어 진단이 늦어졌던 경우로 3년간 천식에 대한 치료를 하였던 경우이었다. 증상이 기침, 호흡곤란, 천명 등으로 천식의 증상과 비슷하여 천식 치료 후에도 증상의 호전이 없거나 본 첫번째 증례와 같이 자세에 따른 호흡곤란의 변화가 있을 경우 기관지 평활근종이 감별진단의 하나로 고려되어야 된다. 진단이 늦어질 경우 폐쇄 부위의 원위부로 여러가지 합병증 및 폐실질의 비가역성 변화가 일어날 수 있으며 이 경우 수술의 범위가 엽절제나 전폐절제술로 커질 수 있다. 국내보고에서도 기관지 평활근종의 기관지 폐쇄 원위부의 폐실질의 만성염증으로 폐기능이 상실되어 부득이 전폐절제술을 시행한 증례⁶가 있어 조기진단의 중요성이 있다.

호흡곤란, 기침, 호흡을 감소, 천명 등 기관지 폐쇄의 증상 및 징후가 있을 시에는 기관 및 기관지내의 종양을 의심하여야 하며, 이를 조기 진단해서 폐쇄 기관지의 원위부 폐의 반복적인 폐쇄성 폐렴, 폐농흉, 기관지확장증 등과 같은 비가역적인 폐실질 손상을 방지하고 그 기능을 보존 시키는 것이 중요하리라 생각된다. 본 증례와 같은 기관지 평활근종의 경우, 굴곡성 기관지내시경 검사 및 조직생검에 의한 조기 진단 후 기관지내시경 하에서 제거 가능한지를 판단한 후, 불가능하다고 생각되는 경우 외과적 제거를 시행하여야 하며 이 경우 보존적 수술 요법이 고려되어야 한다.

요 약

호흡곤란, 기침, 천명 등의 증상으로 기관지 천식을 진단 받고 이에 대한 치료를 받던 중증상

호전이 없어 시행한 흉부전산화단층촬영 및 굴곡성 기관지내시경 검사상 진단되어 기관지절개술 및 기관지성형술로 재발과 잔여 종괴 없이 치료된 기관지 평활근종 2예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Forkel W. Ein fall von fibroleiomyom der lunge. Z Krebsforsch 1910;8:390.
2. 황성천, 표창현. Pulmonary Leiomyoma 1예. 대한외과학회지 1967;9(8): 4 93-5.
3. 유영만, 손광현, 김동순, 고일향. 기관지 평활근종 1 수술 치험례. 대한흉부외과학회지 1985;18(4):817-21.
4. 하승연, 이응석, 조원보, 김인선. 기관지에 발생한 평활근종. 대한병리학회지 1993;27:673-5.
5. 김호중, 강우현, 강수정, 정만표, 최동철, 권오정, 등. Nd-YAG laser를 이용한 굴곡성 기관지경하 기관지 평활근종 절제 2예. 결핵 및 호흡기 질환 1996;43(6):1028-34.
6. 김한용, 황상원, 이연재, 유병하, 안종운, 김병현. 기관지내 평활근종 1례 보고-. 대한 흉부외과학회지 1998;31(7):725-9.
7. 김문수, 성숙환, 김영태, 김주현. 기관지에 발생한 평활근종 수술치험 1례 보고. 대한 흉부외과학회지 1999;32(1):88-91.
8. Arrigoni MG, Woolner LB, Bernatz PE, Miller WE, Fontana RS. Benign tumors of the lung: a ten year surgical experience. J Thorac Cardiovasc Surg 1970;60:589-99.
9. Ayabe H, Tsuji H, Tagawa Y, Tomita M, Tsuda N, Chen J. Endobronchial Leiomyoma : report of a case treated by bronchoplasty and a review of the literature. Surg Today 1995;25:1057-60.
10. White SH, Ibrahim NB, Forrester-Wood CP, Jeyasingham K. Leiomyomas of the lower respiratory tract. Thorax 1985;40:306-11.
11. Yellin A, Rosenman Y, Lieberman Y. Review of smooth muscle tumours of the lower respiratory tract. Br J Dis Chest 1984;78: 337-51.
12. Yamada H, Katoh O, Yamaguchi T, Natsuaki M, Itoh T. Intrabronchial leiomyoma treated by localized resection via bronchotomy and bronchoplasty. Chest 1987;91:283-5.
13. Archambeaud-Mouveroux F, Bourcereau J, Fressinaud C, Bourras P. Bronchial leiomyoma: report of a case successfully treated by endoscopic neodymium-yttrium aluminum garnet laser. J Thorac Cardiovasc Surg 1988;95: 536-8.
14. Hirose FM, Henningar GR. Intrabronchial leiomyoma. J Thorac Surg 1955;29:502-11.
15. McNamara JJ, Paulson DL, Kingsley WB, Salinas-Izaquirre SF, Urschel HC Jr. Primary leiomyosarcoma of the lung. J Thorac Cardiovasc Surg 1969;57:636-41.