

다발성 폐 결절로 발견된 파리샘종 1예

울산대학교 의과대학 강릉아산병원 ¹내과, ²병리과, ³흉부외과

이동석¹ · 황민식¹ · 임재민¹ · 김미혜¹ · 정복현¹ · 강길현² · 유동곤³

A Case of Alveolar Adenoma Involving Multiple Lung Nodules

Dong Seok Lee¹, Min Sik Hwang¹, Jae Min Lim¹, Mi Hye Kim¹, Bock Hyun Jung¹, Gil Hyun Kang², and Dong-Kon Yoo³

Departments of ¹Internal Medicine, ²Pathology and ³Thoracic and Cardiovascular Surgery, Gangneung Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Gangneung, Korea

Alveolar adenoma is a very rare benign intraparenchymal lung tumor originating from type II pneumocytes. It can be mistaken for other benign tumors or lung cancer in radiological images. It is especially difficult to distinguish alveolar adenoma from sclerosing hemangioma. A small aspiration biopsy specimen, such as with percutaneous needle aspiration, is insufficient for a pathological diagnosis. Surgical resection is the only method by which a pathological diagnosis can be made and the disease treated. An alveolar adenoma presenting as multiple nodules is very rare and has to our knowledge not been reported in Korea previously. Here, we report a case of alveolar adenoma in multiple nodules in a 57-year-old female and review the literature. (Korean J Med 2014;86:623-626)

Keywords: Alveolar adenoma; Multiple lung nodules; Type II pneumocytes

서 론

파리샘종(alveolar adenoma)은 1986년 Yousem 등[1]에 의해 최초로 소개된 양성 폐종양이다. 환자들은 대개 무증상이며 우연히 시행한 영상 검사에서 경계가 분명한 단일 결절로 발견된다. 파리샘종의 명확한 원인은 밝혀져 있지 않지만 제 2형 폐포세포에서 분화되어 발생하는 것으로 알려져 있다[2]. 파리샘종은 조직학적으로 양성 종양으로 수술적 절제 이후에는 재발하지 않아 예후가 좋은 것으로 알려져 있다[2,3].

다발성 폐 결절에서 발견된 파리샘종은 전 세계적으로도 매우 희귀하며 지금까지 국내 문헌보고는 없었다. 저자들은 기침을 주소로 내원한 환자에서 비디오보조흉강경수술에 의해 진단된 다발성 파리샘종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

57세 여자 환자가 15일 전부터 발생한 기침을 주소로 내

Received: 2013. 11. 20

Revised: 2013. 12. 30

Accepted: 2014. 1. 7

Correspondence to Bock Hyun Jung, M.D.

Department of Internal Medicine, Gangneung Asan Hospital, University of Ulsan College of Medicine, 38 Bangdong-gil, Sacheon-myeon, Gangneung 210-711, Korea

Tel: +82-33-610-3125, Fax: +82-33-641-8050, E-mail: jbh@gnah.co.kr

Copyright © 2014 The Korean Association of Internal Medicine

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

원하였다. 내원 시 혈압은 110/70 mmHg였고 심박 수는 분당 70회였으며 호흡곤란은 호소하지 않았다. 체온은 36.5℃였고 흉부 청진에서 천명음이나 수포음은 들리지 않았으며 심음도 규칙적이고 심잡음은 들리지 않았다. 과거력상 10년 전

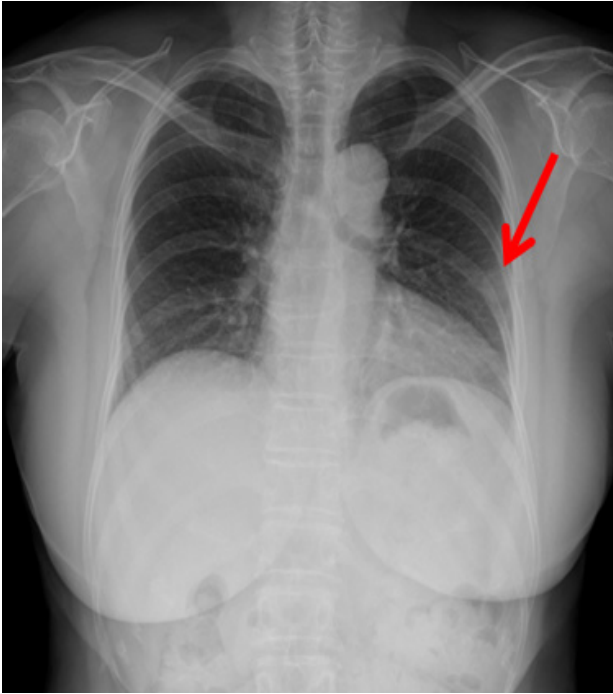


Figure 1. The chest X-ray shows a solitary, well-circumscribed, homogenous, non-calcified, subpleural nodule in the left lower lobe.

갑상선 결절로 갑상선 우엽 절제술을 받았으며 그 외 사회력이나 가족력상 특이소견은 없었다. 입원하여 시행한 혈액 검사상 특이소견은 발견되지 않았으며 흉부 X-선 검사에서 좌하엽에서 1.6 cm 크기의 결절이 관찰되었다(Fig. 1). 흉부 컴퓨터 단층촬영 검사상 우상엽에서 0.8 cm 크기의 폐 결절이 추가로 발견되었다(Fig. 2). 경계가 명확하여 양성 종양이 의심되나 다발성 폐 결절로 전이성 폐암과 감별하기 위해 좌하엽에 있는 폐 결절에서 경피적 흉부 세침흡인생검을 시행하였다. 좌하엽에서 시행한 경피적 흉부 세침흡인생검에서 비정형 세포가 관찰되어 확진을 위해 비디오보조흉강경 수술을 통한 췌기절제술을 시행하여 좌하엽 폐 결절을 제거하였다. 절제된 폐 결절의 육안 소견은 직경이 1.6 cm 크기의 경계가 분명하고 부드럽고 빛나는 밝은 노란색을 띤 종괴였다. 조직학적 소견은 서로 다른 크기의 다발성낭종으로 구성되어 있었으며 낭종 내부는 세포가 없는 투명한 모습을 띠었다. 조직의 일부분은 단백질 성분, 과립구, 호산구 그리고 거품세포로 구성되어 있었으며 세포분열이나 궤사 부위는 관찰되지 않았다. 낭종의 경계는 상피세포로 구성되어 있었으며 PAS-diastase stain에서 양성이었다(Fig. 3). 상기 조직학적 소견을 통해 절제된 폐 결절을 파리샘종으로 확진하였다. 우중엽에 위치한 0.8 cm 크기의 폐 결절 영상 소견은 좌하엽에서 제거된 파리샘종과 같은 영상의학적 소견을 보여 수술적 절제 없이 추적관찰하였으나 크기 변화가 없어 2년간 외래 관찰 중이다.

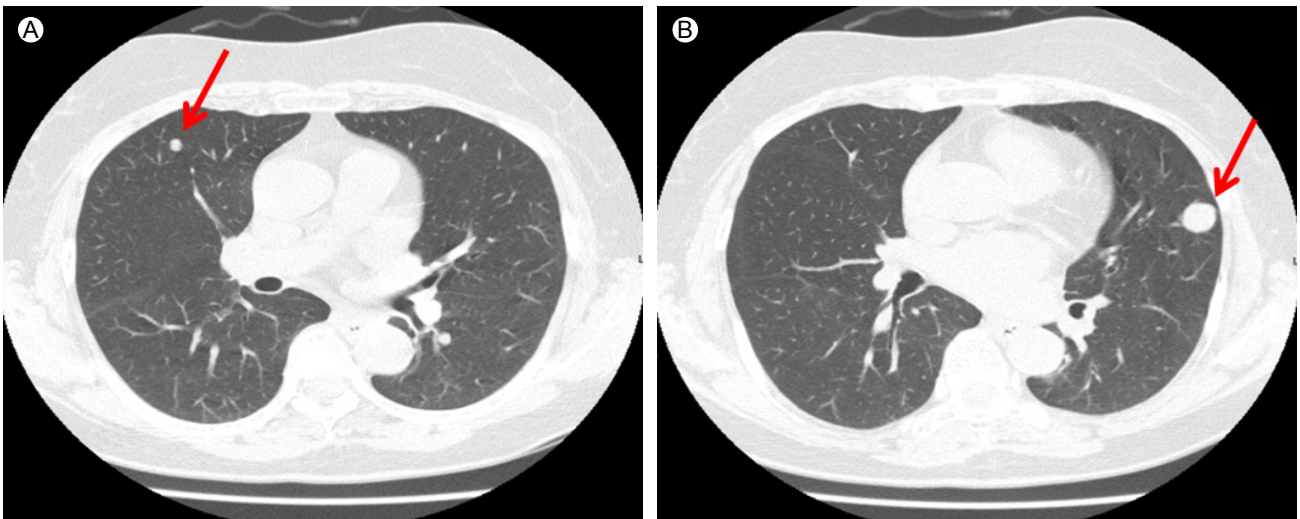


Figure 2. (A) Computed tomography of the chest shows a 0.8-cm, well-defined, nodular lesion in the right middle lobe (arrow). (B) A 1.6-cm well-circumscribed, homogenous, punctate enhancing, non-calcified, subpleural solitary nodule in the left lower lobe (arrow).

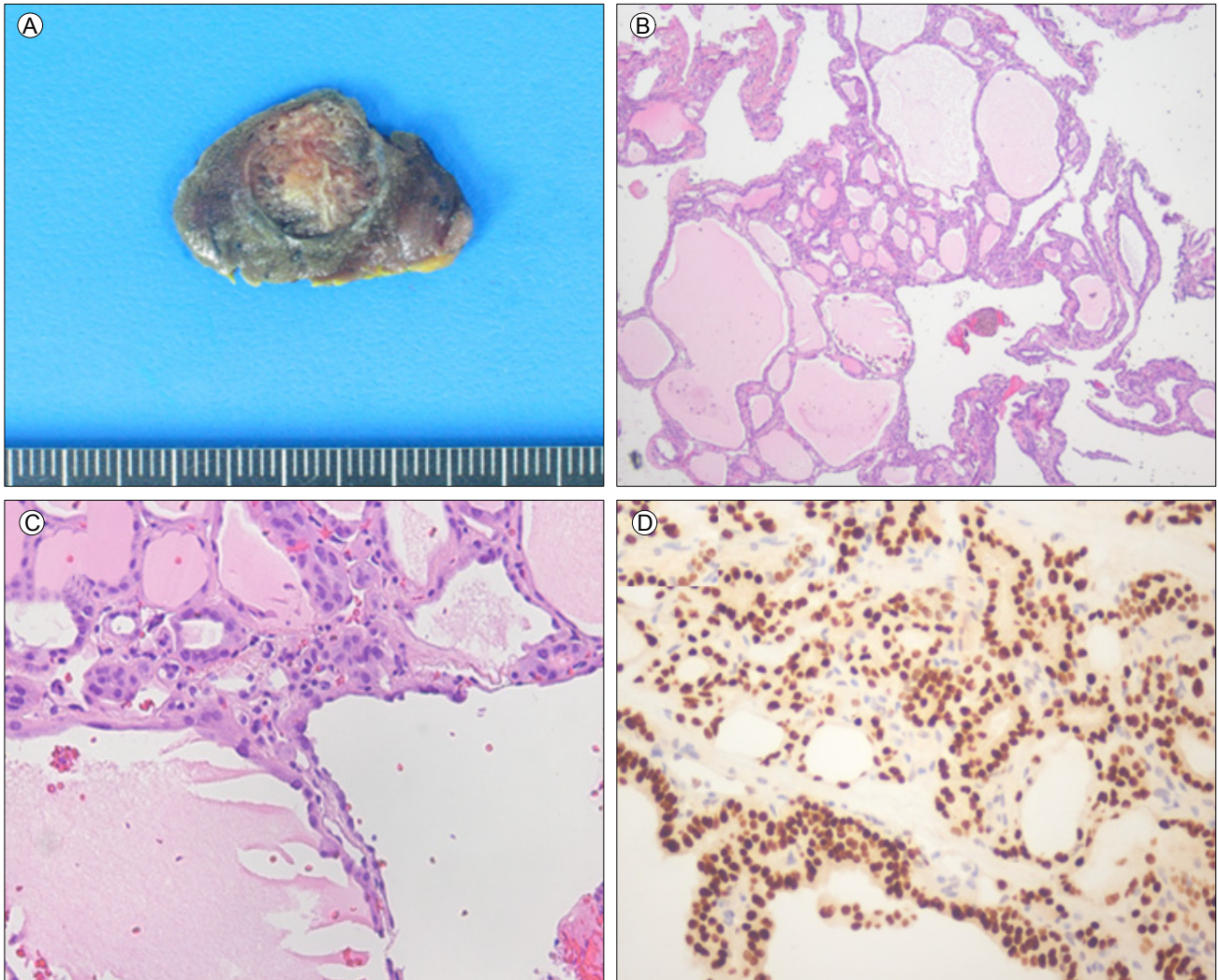


Figure 3. (A) Macroscopic view of the tumor. (B) Variable-sized alveolar structures with cystic dilatation and eosinophilic material (H&E $\times 40$). (C) Alveolar space lined with cuboidal pneumocytes (H&E $\times 40$). (D) Alveolar-lining epithelial cell nuclei (TTF1 $\times 400$).

고 찰

파리샘종은 양성 종양 중에도 매우 드물어 Wang 등[4]의 보고에 의하면 2013년 9월까지 39건의 증례만 보고되었다. 환자 연령대는 39세에서 74세이며 여성이 약간 더 많은 편이다. 대부분 무증상 환자에서 시행한 흉부 X-선 검사에서 우연히 발견된 단일 폐 결절을 통해 발견된다[3]. 영상의학 검사 소견은 폐 말단 부위에 위치한 경계가 분명하며 균일한 밀도를 가진 단일 결절이며 오직 한 개의 증례보고에서만 3개의 결절을 보인 경우가 있었다[5]. FDG-PET은 조영증강 소견을 보이지 않기 때문에 진단에 비특이적이다. 파리샘종의 육안적 모습은 크기가 직경이 0.7-6.0 cm 정도이며 경

계가 부드럽고 엷의 형태를 이루고 있으며 표면은 밝은 노란색을 띠고 있다[6]. 조직학적 소견은 경계가 균일한 막이 없는 다낭종으로 구성되며 낭종의 내부는 주변의 폐조직에서 발견되지 않는 호산구성 단백질 성분들로 구성된다. 특히 낭종의 경계가 입방체 모양의 상피조직세포들로 구성되며 제2형 폐포세포가 대부분을 차지하고 있기 때문에 thyroid transcription factor-1 염색에서 양성 소견이며 세포이형성은 관찰되지 않는다[7]. 흉부 컴퓨터 단층촬영 소견상으로 유두선종, 경화성 혈관종, 림프종, 비정형 선종성 증식증 등 많은 종류의 양성 폐종양과 감별이 필요한데, 영상 소견만으로 파리샘종을 감별하기는 매우 어렵다[7]. 특히 경화성 혈관종과 파리샘종을 감별하기 어려운데, 두 병변의 영상의학적 소견

은 모두 비슷하며 조직학적으로도 모두 낭종의 형태를 띤다. 하지만 경화성 혈관종은 낭종 내부에 혈액 물질을 포함하지만 파리샘종은 호산구 물질을 포함하며 thyroid transcription factor-1염색에서 양성 소견을 보이는 것이 차이점이다. 림프관종은 cytokeratin 염색에서 음성소견을 보이며 비정형 선종성 증식증은 비정형 기관지 폐포가 증식되는 소견을 보이는 것이 차이점이다[7]. 파리샘종이 일반 폐실질과 매우 유사한 조직학적 특성을 나타내기 때문에 경피적 흉부 세침흡인생검은 진단에 도움이 되지 않고 수술적 제거를 통한 조직 검사만이 유일한 확진 방법이다[7]. 예후는 양호하여 수술적 절제 후에는 재발하지 않는 것으로 알려져 있다. 대개 건강한 사람에게서 발견되지만 매우 희귀하게 폐암 환자의 조직검체에서 파리샘종이 발견된 한 예가 있었다[3].

현재까지 파리샘종의 국내 증례보고는 없었다. 본 증례는 국내에서 보고되는 첫 번째 파리샘종 증례이며 기존의 단일 폐 결절에서 발견된 파리샘종 증례와 달리 다발성 폐 결절에서 발견된 것이 특이점이다. 본 증례를 통해 향후 다발성 폐 결절이 있는 경우에도 파리샘종을 고려하여야 하며, 다발성 폐 결절의 감별진단에 파리샘종이 포함되어야 할 것으로 사료된다.

요 약

파리샘종은 폐에서 발생하는 매우 드문 양성종양으로 영상의학적 소견과 경피적 흉부 세침흡인생검으로는 진단이 어렵고 수술적 절제를 통한 조직학적 소견 및 면역화학 검사를 통한 정확한 진단이 필요하다. 현재까지 파리샘종은 한 국에서 보고된 증례가 없으며 더욱이 다발성 결절로 발현된

경우는 전 세계적으로도 매우 희귀하다. 본 연구자들은 기침을 주소로 내원한 57세 여자 환자에서 흉부 X-선상 두 개의 폐 결절을 발견하여 비디오보조흉강경수술을 통해 진단된 파리샘종을 경험하였기에 보고하며 향후 단일 폐 결절 및 다발성 폐 결절 감별진단에 파리샘종이 포함되어야 할 것으로 사료된다.

중심 단어: 파리샘종; 다발성 폐 결절; 제2형 폐포세포

REFERENCES

1. Yousem SA, Hochholzer L. Alveolar adenoma. Hum Pathol 1986;17:1066-1071.
2. Beasley MB, Brambilla E, Travis WD. The 2004 World Health Organization classification of lung tumors. Semin Roentgenol 2005;40:90-97.
3. Bhavsar T, Uppal G, Travaline JM, Gaughan C, Huang Y, Khurana JS. An unusual case of a microscopic alveolar adenoma coexisting with lung carcinoma: a case report and review of the literature. J Med Case Rep 2011;5:187.
4. Wang X, Li WQ, Yan HZ, et al. Alveolar adenoma combined with multifocal cysts: case report and literature review. J Int Med Res 2013;41:895-906.
5. Kondo N, Torii I, Hashimoto M, et al. Alveolar adenoma of the lung: a case report. Ann Thorac Cardiovasc Surg 2011; 17:71-73.
6. Fujimoto K, Müller NL, Sadohara J, Harada H, Hayashi A, Hayabuchi N. Alveolar adenoma of the lung: computed tomography and magnetic resonance imaging findings. J Thorac Imaging 2002;17:163-166.
7. Burke LM, Rush WI, Khoor A, et al. Alveolar adenoma: a histochemical, immunohistochemical, and ultrastructural analysis of 17 cases. Hum Pathol 1999;30:158-167.