

혈관 육종의 폐 전이에 의한 기흉

함석진* · 백효채* · 김창완* · 권지은** · 최형윤* · 이두연*

Pneumothorax due to Metastasis of Angiosarcoma to the Lung

Seok-Jin Haam, M.D.*, Hyo-Chae Paik, M.D.*, Chang-Wan Kim, M.D.*,
Ji-Eun Kwon, M.D.**, Hyung-Yoon Choi, M.D.*, Doo-Yun Lee, M.D.*

An 80-year-old male with a medical history of angiosarcoma of the scalp visited the Emergency Department complaining of dyspnea, and the chest X-ray revealed pneumothorax. He has undergone scalp resection and radiotherapy three years ago due to angiosarcoma. Due to a persistent air leak, he underwent wedge resection of the lung and was pathologically diagnosed with metastatic angiosarcoma to the lung. He underwent radiotherapy following the lung resection, but he died from his disease at 15 month following surgery due to further aggravation of the lung metastasis. Angiosarcoma is a highly malignant tumor and it frequently occurs on the scalp and face in elderly patients. Angiosarcoma frequently metastasizes to the lung and it may cause pneumothorax as a consequence of a ruptured cavitory lesion. We report here on a case of pneumothorax that was caused by lung metastasis in an elderly patient with a history of angiosarcoma of the scalp.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2010;43:228-231)

Key words: 1. Pneumothorax
2. Metastasectomy

증례

80세 남자 환자가 1주일 간 지속된 호흡곤란으로 타병원 내원, 좌측 기흉 진단 받고 본원 응급실 통하여 흉부외과로 입원하였다. 환자는 과거력상 3년 전 타병원에서 후두부의 두피에 혈관 육종이 진단되어 절제술 시행하였고 추가로 6,000 cG의 방사선을 조사 받았다. 그 밖의 병력은 없었으며 가족력도 없었다. 흉부 X-선 검사상 좌측에 약 70%의 기흉이 관찰되어 흉관을 삽입하였다. 흉관 삽입 후 시행한 흉부 전산화 단층 촬영상 주위에 간유리 음영을 가지는 2~3 cm 크기의 폐기포들이 양측 폐 첨부에 관찰되었다(Fig. 1). 흉관 삽입 직후부터 심한 피하 기종과 공기 누출이 있었으며 이 증상들은 3일 동안 점점 더 심해

지는 양상을 보여 수술을 시행하였다. 수술은 입원 4일째 5 mm 흉강경을 이용하여 시행하였으며 폐를 관찰하였을 때 첨부에 3 cm 크기의 폐기포가 있었고 전반적으로 무른 (fragile) 양상을 보였다. 자동 봉합기를 이용하여 폐기포의 썬기 절제술을 시행하였고 기흉의 재발 방지를 위해 탈크 분말을 이용한 흉막 유착술을 시행하였다. 동결 절편 검사상 흉막 아래 부위에 이형성이 뚜렷한 내피세포로 피복되어 있는 불규칙한 혈관구조들이 서로 연결되며 침윤하고 있는 소견이 관찰되었으며 전이성 혈관 육종으로 진단되었고 CD31에 대한 면역조직화학 염색을 시행한 결과 종양을 형성하는 내피세포에 양성이었다(Fig. 2). 환자는 수술 후 3일째 흉관을 제거하고 수술 후 4일째 퇴원하였다. 수술 후 시행한 양전자방출단층촬영상 양측 폐에 강

*연세대학교 의과대학 강남세브란스병원 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University College of Medicine

**연세대학교 의과대학 강남세브란스병원 병리학교실

Department of Pathology, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University College of Medicine

논문접수일 : 2009년 10월 10일, 논문수정일 : 2009년 11월 4일, 심사통과일 : 2009년 11월 13일

책임저자 : 백효채 (135-720) 서울시 강남구 도곡동 언주로 712, 연세대학교 강남세브란스병원 흉부외과

(Tel) 02-2019-3380, (Fax) 02-3461-8282, E-mail: hcpaik@yuhs.ac

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

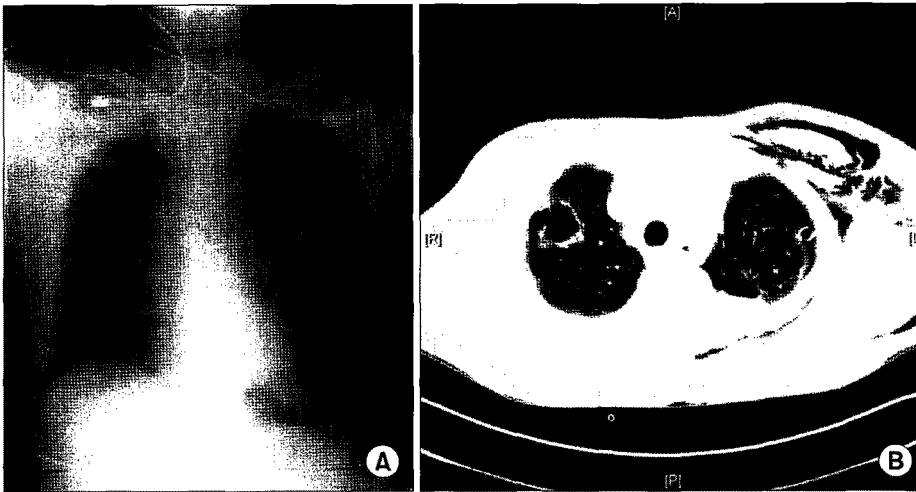


Fig. 1. Initial chest X-ray and chest computerized tomography (CT). Chest X-ray shows pneumothorax in the left lung (A). Chest CT shows multiple cavitary lesions in both upper lobes (B).

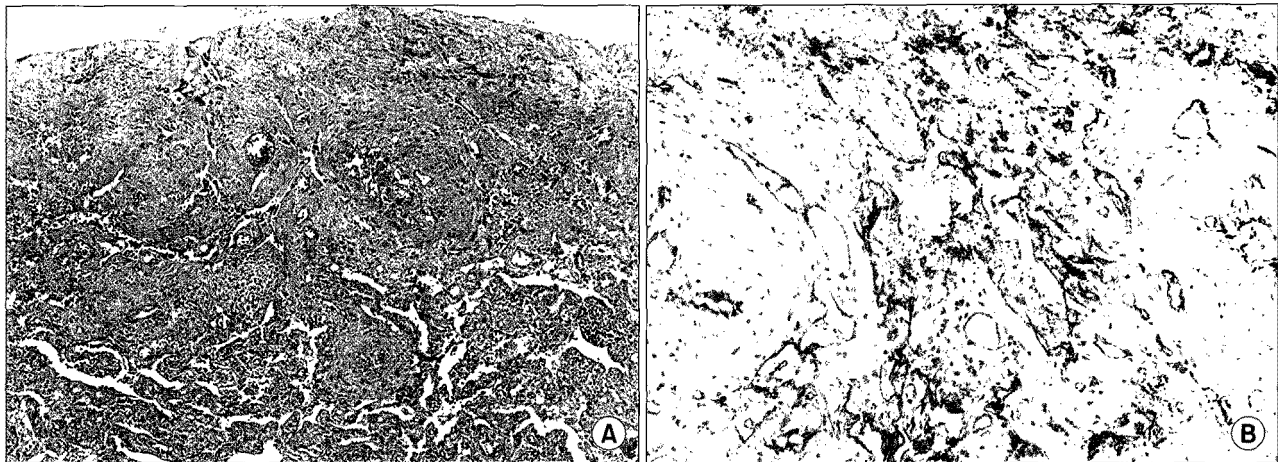


Fig. 2. Histologic findings showing atypical endothelial cells and complicated vascular structures in subpleural area (A, H&E stain, $\times 100$). Immunostain for CD31 was positive in endothelial cells constituting angiosarcoma (B, Immunostain for CD31, $\times 200$).

한 FDG 흡수를 보이는 다발성 폐결절이 관찰되었고 늑골, 요추 및 천골 등의 뼈에도 FDG의 흡수를 보여 혈관 육종의 전이가 의심되었다. 외래 추적 관찰 중 퇴원 후 4개월째 우측 기흉이 발생하여 흉관 삽입술 시행하였고 3개월 뒤에 우측 기흉이 재발하여 다시 흉관 삽입술을 시행하였다. 환자는 첫 내원 10개월째 시행한 양전자방출단층촬영상 혈관 육종의 전이로 인한 폐의 공동성 병변이 더욱 악화되고, 좌측 횡격막 부위에 새로운 전이 소견이 관찰되었다. 내원 11개월째 토모치료법을 이용하여 폐와 좌측 늑골부위에 각각 2,400 및 4,800 cG의 방사선을 조사하였다. 이후 외래에서 경과 관찰하였으나 폐의 공동성 병변이 점차 확장되는 소견 보였으며 첫 내원 15개월째 폐

의 확장된 공동성 병변으로 인한 폐 실질의 소실과 폐렴으로 사망하였다(Fig. 3).

고 찰

혈관 육종은 드문 질환이지만 혈관내피세포에서 발생하는 높은 악성도를 가지는 종양으로 주로 남자 노인에게 발생하고 두피나 안면 피부에 호발한다[1,2]. 혈관 육종은 적극적인 치료에도 불구하고 국소 재발하거나 타장기로 혈행성으로 전이되는 경향을 보인다[1]. 그 중 폐는 전이가 가장 많이 되는 장기이며 간, 경부 림프절, 비장으로도 전이되며 드물게는 심장이나 뇌로도 전이된다. 혈관 육종

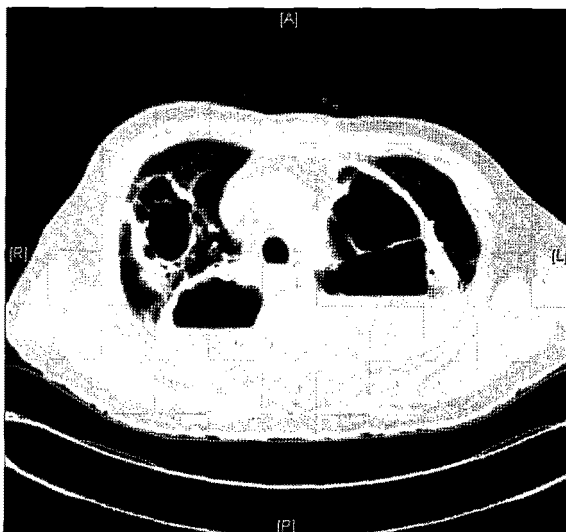


Fig. 3. Chest CT finding showing aggregation of cavitary lesions with air-fluid level in both upper lobes of the lung.

은 전이 발생 이후 평균 생존기간이 4개월 정도로 예후가 매우 불량한 것으로 알려져 있다[3].

혈관 육종의 폐전이 시 나타나는 가장 흔한 증상은 객혈이지만 드물게 기흉이나 종격동 기종을 보이는 경우도 있다[4,5]. 원발성 또는 전이성 폐암에 의한 이차성 기흉은 자연 기흉 전체의 1% 이하로 빈도는 적으며 원발성 폐암 보다는 전이성 폐암에서 더 많이 발생하는 것으로 알려져 있다[6]. Kitagawa 등[5]은 두피에서 발생한 혈관 육종이 다른 부위에 발생한 혈관 육종보다 폐전이에 의한 합병증을 더 많이 발생시킨다고 하였고 혈관 육종의 폐전이로 인한 2차성 기흉이 발생한 환자 17명 중 1명을 제외한 나머지 환자는 모두 두피에 원발성 혈관 종양이 있었다.

혈관 육종의 폐전이는 주로 고형 결절의 형태로 나타나지만 얇은 벽을 가진 공동성 폐 병변으로 나타나기도 한다. 주로 두경부 및 자궁 경부의 편평상피세포암이 폐로 전이될 때 이러한 공동성 병변을 나타내게 되는데 공동성 병변의 발생 기전은 아직 명확하게 밝혀진 바 없으나 종양 결절 내부의 피사 물질이 배출되면서 공동이 형성되거나 이미 존재하던 폐기포 벽으로 종양 세포가 침윤되면서 발생하는 것으로 생각하며[5] 기흉은 이러한 공동성 병변의 파열로 발생하는 것으로 알려져 있다.

피부에 발생한 혈관 육종의 치료는 수술적 치료만 하거나 방사선 또는 항암제를 추가로 시행하기도 하지만 적극적인 치료에도 불구하고 예후는 불량하여 5년 생존율이 10~35% 정도이다. 혈관 육종의 폐전이에 대한 치료는 확립되어 있지 않으나 대증요법이 주로 시행되며, 본 증례 처럼 수술적인 치료를 한다 하더라도 결국 공동성 병변의 확대에 의한 폐실질의 손상으로 사망하게 되며 높은 악성도와 불량한 예후를 고려할 때, 수술에 의한 치료 효과는 적을 것으로 생각된다. 본 증례에서도 수술 전 혈관 육종의 폐전이가 의심되었다면 폐쇄기절제술 보다는 탈크 등을 이용한 늑막 유착술 등이 더 유용하였을 것으로 생각된다. 그러나, 방사선학적 소견만으로는 혈관 육종의 폐전이를 감별하기 어렵기 때문에 치료 계획의 수립 이전에 충분한 병력 청취와 전이 가능성에 대한 고려가 우선 되어야 할 것이다.

저자들은 두피의 혈관 육종을 치료한 환자에서 공동성 폐전이에 의한 기흉을 경험하였기에 보고하는 바이며 고령의 혈관 육종 과거력이 있는 환자에서 기흉 발생시, 혈관 육종의 폐전이 가능성에 대해 고려해야 할 것이다.

참 고 문 헌

1. Naka N, Ohsawa M, Tomita Y, Kanno H, Uchida A, Aozasa K. *Angiosarcoma in Japan. A review of 99 cases.* Cancer 1994;75:989-96.
2. Holden CA, Spittle MF, Jones EW. *Angiosarcoma of the face and scalp, prognosis and treatment.* Cancer 1987;59:1046-57.
3. Morgan MB, Swann M, Somach S, et al. *Cutaneous angiosarcoma: a case series with prognostic correlation.* J Am Acad Dermatol 2004;50:867-74.
4. Nomura M, Nakaya Y, Saito K, et al. *Hemopneumothorax secondary to multiple cavitary metastasis in angiosarcoma of the scalp.* Respiration 1994;61:109-12.
5. Kitagawa M, Tanaka I, Takemura T, et al. *Angiosarcoma of the scalp: report of two cases with fatal pulmonary complications and a review of Japanese autopsy registry data.* Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol 1987;412:83-7.
6. Dines DE, Cortese DA, Brennan MD, Hahn RG, Payne WS. *Malignant pulmonary neoplasms predisposing to spontaneous pneumothorax.* Mayo Clin Proc 1973;48:541-4.

=국문 초록=

3년 전 두피에 발생한 혈관 육종의 과거력이 있는 80세 남자 환자가 호흡 곤란을 주소로 본원 응급실 내원하여 시행한 흉부 X-ray상 좌측 기흉이 진단되었다. 환자는 3년 전 혈관 육종으로 두피의 종양 절제와 방사선 치료를 받았다. 입원 후 지속되는 공기 누출로 폐쇄기 절제술을 시행 받았으며 병리 검사상 혈관 육종의 폐전이가 진단되었다. 환자는 방사선 치료를 시행하였으나 혈관 육종의 폐전이 악화로 폐절제술 후 15개월에 사망하였다. 혈관 육종은 노인에서 두피 또는 얼굴에 호발하는 악성도가 높은 종양으로 드물게 폐에 공동성 병변의 형태로 전이되어 기흉을 발생시킨다. 저자들은 두피에 발생한 혈관 육종의 과거력이 있는 환자에서 폐전이에 의한 기흉을 경험하였기에 보고하는 바이다.

- 중심 단어 : 1. 기흉
2. 전이병소절제술