

자궁목의 육종양 편평세포암 1예

경상대학교 의학전문대학원 산부인과학교실¹, 경상대학교 건강과학연구원², 경상대학교 의학전문대학원 병리학교실³

박 영¹ · 조지혜¹ · 이종실^{2,3} · 신정규^{1,2} · 최원준^{1,2} · 이종학^{1,2} · 백원영^{1,2}

Sarcomatoid squamous cell carcinoma of uterine cervix

Young Park, M.D.¹, Jee Hae Cho, M.D.¹, Jong Sil Lee, M.D.^{2,3}, Jeong Kyu Shin, M.D.^{1,2},
Won Jun Choi, M.D.^{1,2}, Jong Hak Lee, M.D.^{1,2}, Won Young Paik, M.D.^{1,2}

¹Department of Obstetrics and Gynecology; ²Gyeongsang Institute of Health Sciences; ³Department of Pathology,
Gyeongsang National University School of Medicine, Jinju, Korea

Sarcomatoid squamous cell carcinoma (SSCC) is composed of squamous cell carcinoma element and spindle cell element, and can occur in any organ, such as the lung, skin and esophagus. But SSCC in uterine cervix is very rare. The prognosis of SSCC is poorer than squamous cell carcinoma (SCC) of uterine cervix. We report here a case of SSCC of uterine cervix with a brief review of literature.

Key Words: Sarcomatoid squamous cell carcinoma, Uterine cervix

자궁목의 육종양 편평세포암(sarcomatoid squamous cell carcinoma, SSCC)은 매우 드문 종양으로¹⁻⁵ 보고되어 있다. 진단 당시 대부분 병기가 진행된 상태이고 치료 후에도 골반 내 국소 재발이나 원격전이가 빈번하며, 자궁육종의 치료결과와 유사하게 일차적, 이차적 치료에 대한 반응은 불량한 것으로 알려져 있다. 저자들은 자궁목의 육종양 편평세포암 1예를 경험하였기에, 문헌고찰과 함께 보고하였다.

증 례

환 자: 김 O 정, 35세
주 소: 비정상 질 출혈

접 수 일: 2010. 5. 20.
수 정 일: 2010. 7. 30
채 택 일: 2010. 9. 6.
교신저자: 백원영
E-mail: wypaik@gnu.ac.kr

월경력: 규칙적으로 4~5일 동안 지속되고 양은 보통이었다.

출산력: 1회의 정상 만삭 질식 분만, 2회의 인공유산
과거력 및 가족력: 특이사항 없었다.

현병력: 질 출혈을 주소로 2008년 11월에 개인 병원 방문하여 시행한 착공 생검(punch biopsy)상 이상 소견 보이지 않았다. 2009년 5월 질 출혈 증가하여 다시 개인병원에서 시행한 착공 생검상 침윤성 편평세포암 소견을 보여 정밀 검사 위해 2009년 6월 2일에 본원에 내원하였다.

이학적 소견: 내원 당시 키 161.6 cm, 몸무게 48 kg, 혈압 130/80 mm Hg, 맥박 70회/분, 체온 36.4°C였다. 흉부 청진상 호흡음과 심박동은 정상이었고 복부 촉진상 특이 소견 없었다. 골반 진찰상 자궁은 전굴로 정상 크기였으며 자궁목에 약 4.2×2.5 cm 정도의 외향성 종양이 관찰되었다. 직장 수지검사상 특이소견은 없었다.

검사 소견: 입원 시 시행한 심전도와 흉부 방사선 촬영 소견은 정상이었고 혈액소는 13.2 g/dL, 백혈구는 7,330/mm³, 적혈구용적 38%, 혈소판은 237,000/mm³, 소변 검



Fig. 1. Pelvis CT showed the LN enlargement at Lt. iliac area (arrow) and ill-defined cervical mass.

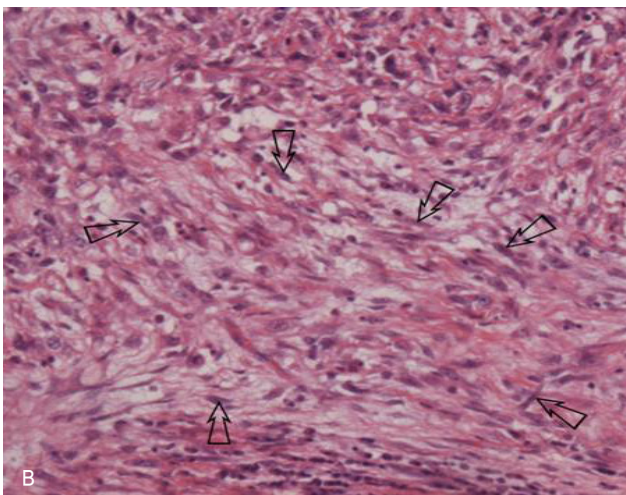
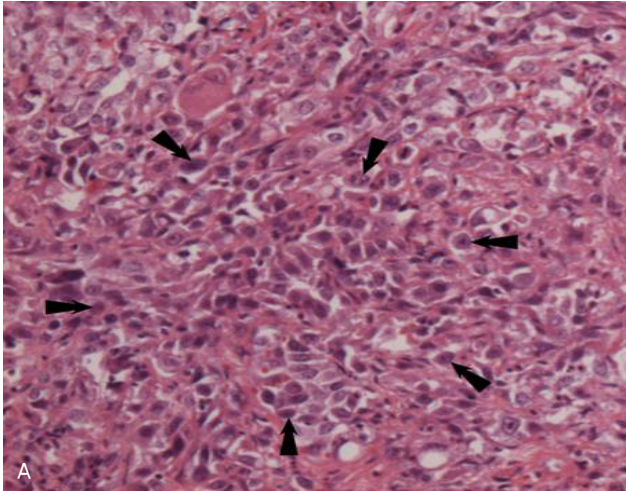


Fig. 2. (A) The tumor consists of squamous cell carcinoma (solid arrows). (B) Sarcomatoid component (open arrows) (H&E stain, $\times 100$).

사와 간기능 검사는 정상이었다. Squamous cell carcinoma antigen는 0.68 ng/mL로 정상 범위였다. 골반 컴퓨터 단층 촬영에서 왼쪽 장골 림프절이 커져 있는 소견 외 자궁 경부의 종괴나 다른 부위로의 전이 소견은 보이지 않았으며(Fig. 1), 방광경 및 직장경 검사는 모두 정상 소견을 보였다. 임상 병기는 International Federation of Gynecology and Obstetrics (FIGO) stage Ib2로 판단되었다.

수술 소견: 전신 마취하에 하복부 정중절개로 개복한 수술 소견은 자궁은 정상 크기였으며 자궁목이 비후되어 있는 것 외 자궁 경부에 육안으로 보이는 종괴 소견은 없었다. 양측 자궁 부속기에 특이소견 없었다. 수술은 근치적 광범위 전자궁절제술 및 골반 림프절 광창술을 시행하였다. 골반 컴퓨터 단층 촬영에서 보였던 왼쪽 장골 림프절의 비대 소견은 수술 시 촉진되지 않았고, 그 외 다른 골반 림프절의 비대도 관찰되지 않았다. 또한 대동맥 림프절 역시 촉진되지 않아 전이를 의심할 만한 소견은 발견되지 않았다.

조직병리 소견: 자궁목에 4.2 \times 2.5 cm 크기의 종괴가 있었다. 절개 단면부에서 종괴는 자궁목을 1.4 cm 깊이까지 침범하고 있었다. 단면상 종괴는 황색의 과립양을 띄고 있었으며 경계는 불분명하였다.

Keratin을 형성하고 있는 분명한 편평세포암종(Fig. 2A)과 세포의 비정형이 심하고 분화가 나쁜 방추형의 육종양 성분(Fig. 2B)이 혼재되어 관찰되었다. 수술 후 획득된

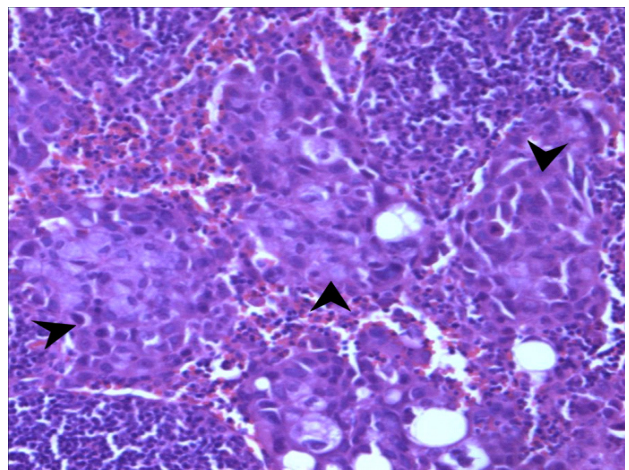


Fig. 3. Lymph node involvement by squamous cell carcinoma component (arrows heads) (H&E stain, $\times 100$).

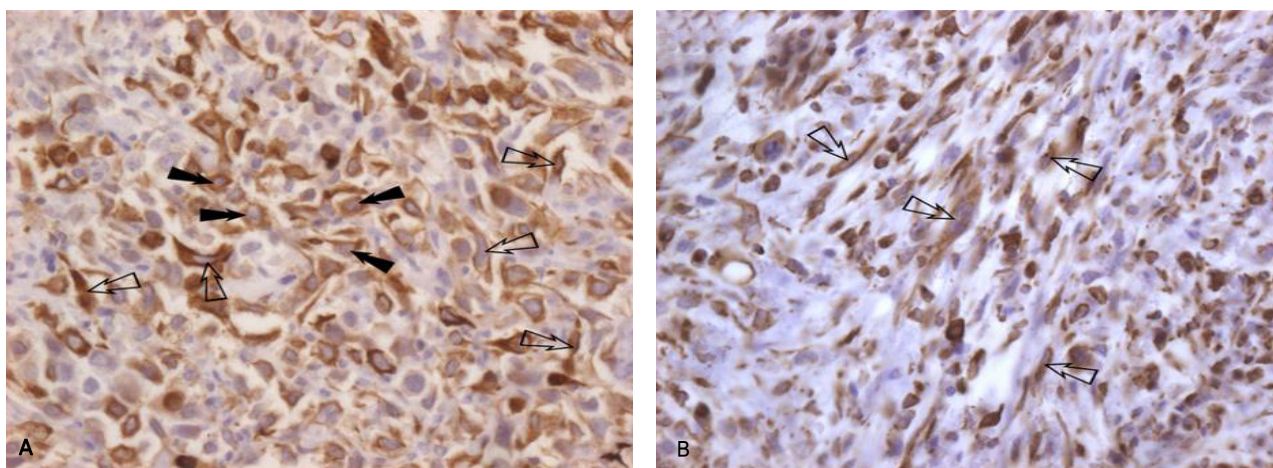


Fig. 4. Immunoperoxidase staining for cytokeratin (A) and vimentin (B). (A) The squamous cell carcinoma component (solid arrows) and sarcomatoid component (open arrows) was positive for cytokeratin ($\times 200$). (B) The sarcomatoid component (open arrows) was positive for vimentin ($\times 200$).

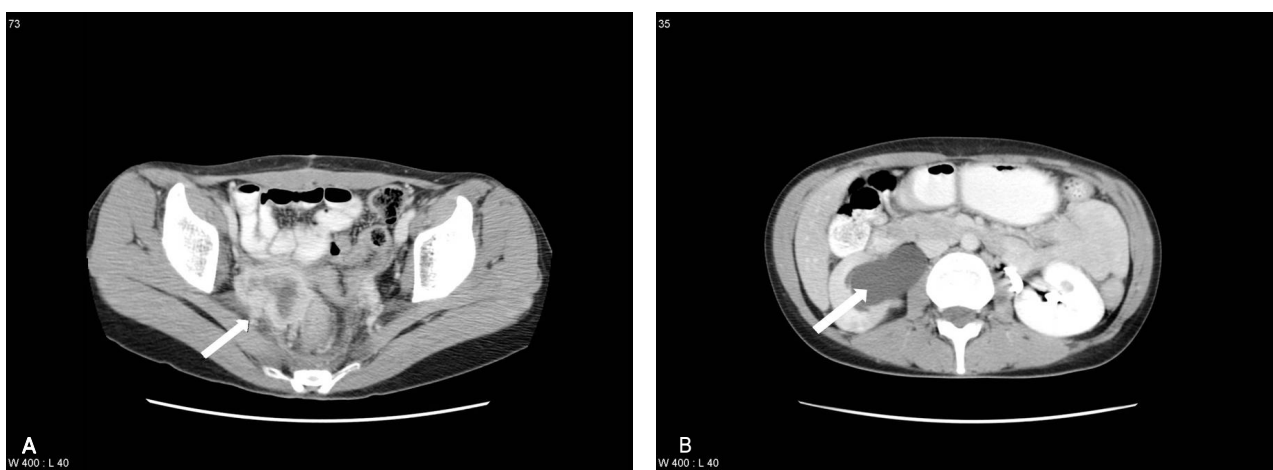


Fig. 5. (A) Four-month postoperative CT scan showed a mass of 5.4 cm in diameter extended from vaginal stump to pelvic cavity (A) and hydronephrosis of right kidney due to pelvic mass (B). (B) There were right hydronephrosis (arrow) due to right pelvic mass.

21개 골반 림프절 중 오른쪽 하복 림프절과 오른쪽 자궁 옆조직 림프절에서 전이가 관찰되었다(Fig. 3).

면역조직화학적 염색: 방추형 세포로 구성된 육종양 병변 부위 및 편평세포암종 부위는 모두 상피성 표지자인 cytokeratin 염색에 양성을 보였으며(Fig. 4A), 육종성 표지자인 vimentin 염색은 육종양 병변 부위에만 양성을 보였(Fig. 4B).

수술 후 경과: 수술 후 조직 검사 소견에 따라 골반에 6주간 방사선 치료 5,040 cGy를 sacrum 1~2 level에서 시행하였다. 동시 항암화학방사선요법을 권유하였으나, 환자 거부로 항암화학요법은 시행하지 못했다. 수술 후 4개

월째 복부 통증이 발생하여 시행한 골반 컴퓨터 단층 촬영 결과 자궁 단단부가 두꺼워져 있고, 자궁 단단부에서 기시하여 오른쪽 골반강 쪽으로 확장되는 5.4 cm 크기의 종괴와(Fig. 5A) 이로 인한 오른쪽 수신증(hydronephrosis)을 확인하였다(Fig. 5B). 영상 판독상 재발로 진단되어 복합 화학요법을 권유하였으나 환자는 타원으로 전원하였다.

고 찰

육종양 편평세포암은 1931년 Martin과 Stewart⁶가 피부에서 편평세포암과 육종양 기질 성분이 혼합된 종양을

육종양 편평세포암으로 처음 분류하였다. 일반적으로 이 질환은 폐, 식도 및 피부 등 다양한 부위에서 발생하는 것으로 알려졌으며,² 육종양 편평세포암이 비교적 흔한 후두도 세계적으로 약 250예 정도 보고되었을 만큼 육종양 편평세포암은 매우 드문 편이다.⁷ 조직병리학적으로 육종양 편평세포암은 상피 세포 기원의 편평세포암종(squamous cell carcinoma)과 육종양 병변(sarcomatoid component)이 혼합되어 이루어져 있다.

예전에는 암육종이 임상 소견이나 조직학적 검사상 육종양 암종과 비슷하여 그 명칭을 서로 혼용하여 써 왔다. 그러나 암육종은 악성상피세포와 간엽성 성분이 섞여 있는 종양으로 광학현미경상 골조직이나 연골, 횡문근 등 간엽 조직의 특이 분화를 보이고 종양의 육종 부위가 간엽 세포의 표지자인 vimentin에는 양성이나 상피 세포 표지자인 cytokeratin이나 carcinoembryonic antigen에는 음성인 점이 육종양 암종과 구별되는 점이다.⁷⁻⁹

육종양 편평세포암의 병인론에 대해서는 여러 다른 조직학적 가설들이 있다.

첫째는 별개의 상피 및 중배엽 세포가 각각 악성 변화를 하였다는 것, 둘째는 상피 세포가 편평 세포 및 방추 세포로 분화하였다는 것, 셋째는 암종이 주변 간질 조직의 양

성 반응을 초래하였다는 것, 넷째는 악성 상피 세포가 육종으로 재분화하였다는 설명이다.^{5,10}

이 종양은 조직학적으로 동질성 악성 혼합 밀러씨 종양(homologous malignant müllerian mixed tumor)과 구별에 있어 많은 논란이 되어 왔는데 육종양 편평세포암(sarcomatoid squamous cell carcinoma)은 육종양 모습을 한 상피암으로 악성 중배엽 부분이 없다는 점에서 악성 혼합중배엽종(malignant müllerian mixed tumor)과 감별을 하고 있다.¹ 또한 악성혼합중배엽종은 암종 성분이 주로 선암(adenocarcinoma)이나 미분화 암종(undifferentiated carcinoma)인 점에서도 육종양 편평세포암과 차이가 있다.¹¹

자궁목에 생긴 육종양 편평세포암은 1983년 Steeper 등⁵이 보고한 이후 현재 해외에서 17예, 국내에서는 2예만이 보고되어 있는 극히 드문 종양이다.^{1-5,12}

2003년 Brown 등¹은 12예 자궁목 육종양 편평세포암을 진단하여 9예의 치료 결과를 발표하였는데, 평균 발병 연령은 48세였고(29~76세) 9명의 환자 중 8명의 주증상은 질 출혈이었다. 자궁목 병변의 크기는 1.6 cm에서 8 cm였다. 면역화학 염색에서 암세포가 9명 모두 육종성 표지자(vimentin)와 상피성 표지자(cytokeratin)에 염색되었다.

Table 1. Cases of sarcomatoid squamous cell carcinoma in uterine cervix

Author	Age	FIGO stage	Treatment given	Follow-up
Steeper et al ⁵	67	III	Chemo RT	8 weeks; DOD
	54	Stage NR	ERBT	NR
Pang ³	65	Ib	RAH+Chemo RT	2 month; DOD
	61	Ib	RAH+Chemo RT	14 month; DOD
Rodrigues et al ⁴	39	Ib2	ERBT+RAH	12 month; DOD
Brown et al ¹	29	Ib2	RAH+Pelvic ERBT	Recurred
	32	Ib2	ERBT	42 month; disease free
	34	Ib1	RAH+Chemo RT	5 month; disease free
	39	Ib	ERBT	Recurred
	47	IIa1	ERBT	40 month; disease free
	57	IVa	ERBT+exenteration	Recurred
	59	IVb	CRS+RAH+Chemo	Recurred
	59	IVb	ERBT	Recurred
	76	IIa2	ERBT	22 month; disease free
Kang et al ¹²	42	Ib2	RAH+Chemo RT	12 month; disease free
Kumar et al ²	54	IIIb	Chemo RT	6 month; disease free

FIGO: International Federation of Gynecology and Obstetrics, DOD: died of disease, ERBT: external-beam radiotherapy, RAH: radical abdominal hysterectomy, CRS: cytoreductive therapy, NR: not reported.

9명 중 5명은 평균 4.9개월(2~9.5개월)만에 재발하였고 모두 2차 치료에 반응하지 않았다. 또한 재발된 5명에서 무병기간이 매우 짧았고 암의 재발이 진단될 당시 암종이 광범위하게 퍼져 있었으므로, 육종양 편평세포암은 매우 악성도가 높다고 하였다.

현재까지 보고된 자궁목 육종양 편평세포암의 임상 경과를 정리하면 Table 1과 같다.

추적검사 결과가 밝혀진 16명에서 평균 발병 연령은 50세였고(29~76세), 이 중 9명은 폐경 상태였다. 16명 중 13명의 주증상은 질 출혈이었고 그 외 허리통증, 골반 통증 및 질 분비물을 주소로 내원하였다. 16명 중 4명에서 진단 후 2년 이내 사망하였고 5명은 치료 후 재발하였다.¹⁻⁵ 따라서, 전체의 2/3 정도에서 재발하거나 사망하였으므로 예후는 불량하다고 생각된다.

본 증례에서는 FIGO stage Ib2였고 근치적 광범위 전자

궁절제술 및 골반 임파선 광청술 후 6주간 보조 방사선 치료 5,040 cGy를 시행하였으나 약 4개월 만에 재발하였다.

Brown 등¹이 경험한 경우에는 재발을 하지 않은 4명은 이른 병기였고(Ib1-IIa2), 그 중 3명은 방사선 치료만, 나머지 1명은 수술과 항암 및 방사선 치료를 시행하였다. Brown 등¹은 재발을 하지 않은 4명에서 모두 방사선 치료를 시행하였지만, 방사선 치료가 수술보다 더 나은 치료라고 하기보다는 암의 진행 정도가 이들의 예후와 더 관계있다고 하였다.

Kumar 등²은 자궁목 육종양 편평세포암의 치료에 있어서 충분한 경험은 없지만 자궁목 편평세포암에 준한 광범위 치료를 하는 것이 좋겠다고 하였다.

저자들은 자궁목 육종양 편평세포암 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하였다.

참고문헌

1. Brown J, Broaddus R, Koeller M, Burke TW, Gershenson DM, Bodurka DC. Sarcomatoid carcinoma of the cervix. *Gynecol Oncol* 2003; 90: 23-8.
2. Kumar M, Bahl A, Sharma DN, Agarwal S, Halanaik D, Kumar R, et al. Sarcomatoid squamous cell carcinoma of uterine cervix: pathology, imaging, and treatment. *J Cancer Res Ther* 2008; 4: 39-41.
3. Pang LC. Sarcomatoid squamous cell carcinoma of the uterine cervix with osteoclast-like giant cells: report of two cases. *Int J Gynecol Pathol* 1998; 17: 174-7.
4. Rodrigues L, Santana I, Cunha T, Felix A, Freire J, Cabral I. Sarcomatoid squamous cell carcinoma of the uterine cervix: case report. *Eur J Gynaecol Oncol* 2000; 21: 287-9.
5. Steeper TA, Pisciolli F, Rosai J. Squamous cell carcinoma with sarcoma-like stroma of the female genital tract. *Clinicopathologic study of four cases. Cancer* 1983; 52: 890-8.
6. Martin HE, Stewart FW. Spindle cell epidermoid carcinoma. *Am J Cancer* 1935; 24: 273-98.
7. Kim KI, Flint JD, Müller NL. Pulmonary carcinosarcoma: radiologic and pathologic findings in three patients. *AJR* 1997; 169: 691-4.
8. Ishida T, Tateishi M, Kaneko S, Yano T, Mitsudomi T, Sugimachi K, et al. Carcinosarcoma and spindle cell carcinoma of the lung. *Clinicopathologic and immunohistochemical studies. J Thorac Cardiovasc Surg* 1990; 100: 844-52.
9. Colby TV, Koss MN, Travis WD, editors. Tumors of the lower respiratory tract. In: *Atlas of tumor pathology*. 3rd ed. Washington: American Registry of Pathology; 1994. p.411-6.
10. Thompson LD, Wieneke JA, Miettinen M, Heffner DK. Spindle cell (sarcomatoid) carcinomas of the larynx: a clinicopathologic study of 187 cases. *Am J Surg Pathol* 2002; 26: 153-70.
11. Clement PB, Zubovits JT, Young RH, Scully RE. Malignant müllerian mixed tumors of the uterine cervix: a report of nine cases of a neoplasm with morphology often different from its counterpart in the corpus. *Int J Gynecol Pathol* 1998; 17: 211-22.
12. Kang JJ, Park CS, Song HS, Jang SN, Kim BJ, Kim MH, et al. A case of sarcomatoid squamous cell carcinoma of uterine cervix. *Korean J Obstet Gynecol* 2004; 47: 2255-9.

= 국문초록 =

자궁목 육종양 편평세포암은 조직학적으로 편평세포암과 육종양 기질 성분이 혼합된 종양이다. 이 종양은 매우 드물며 일반적으로 병의 진행이 빠르고 전이 및 재발이 많아 예후가 나쁘다고 보고되고 있다. 저자들은 임상 병기 Ib2로 진단되어 수술 및 보조 방사선 치료를 시행하였으나 약 4개월 만에 재발한 자궁목 육종양 편평세포암 환자 1예를 경험하였기에 임상 및 문헌고찰과 함께 보고하였다.

중심단어: 자궁목, 육종양 편평세포암
