

A CASE OF OVARIAN LEIOMYOMA TREATED WITH LAPAROSCOPIC MASS EXCISION

Myung Joo Kim, MD¹, Eun Duc Na, MD¹, Yoon Jung Lee, MD¹, Mi-La Kim, MD, PhD¹, Seok Ju Seong, MD, PhD¹, Ji-Young Kim, MD, PhD²

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Pathology, CHA Gangnam Medical Center, CHA University College of Medicine, Seoul, Korea

Primary ovarian leiomyoma is a rare tumor, accounting for only 0.5%-1% of benign ovarian neoplasms. About 80 cases have been reported in the literature worldwide to date. Most cases are asymptomatic and usually found incidentally in routine gynecologic workup, during surgery, or at autopsy. Ovarian leiomyoma is difficult to be differentiated from other ovarian benign and malignant neoplasms, particularly from large ovarian solid tumors. It is important to consider ovary-preserving surgery as the first treatment modality in patients of reproductive age after excluding the possibility of malignancy, given that 80% of ovarian leiomyomas occur in premenopausal women and the size of the mass is larger in younger patients. Here we report a case of ovarian leiomyoma in a 38-year-old female patient who underwent laparoscopic excision of left ovarian mass and uterine myomectomy.

Keywords: Ovarian leiomyoma; Laparoscopy; Myoma; Ovary

난소에서 발생하는 평활근종은 매우 희귀한 간엽성(mesenchymal) 종양으로 난소의 양성 종양 중 0.5%–1.0%를 차지하며, 1862년 Sangalli가 처음 보고한 이후 전세계적으로 약 80예, 국내에서는 12예가 보고되었다[1].

난소 평활근종은 임상적으로 대부분 무증상으로 다른 질환에 의한 복강내 수술 과정 중 우연히 발견되는 경우가 많고, 간혹 하복부 동통과 복부 팽만과 같은 증상으로 발견되는 경우가 있다. 국내에 발표된 12예는 모두 개복하 수술적 치료를 시행하였으며, 부속기제거술 또는 전자궁절제술과 부속기제거술을 동시에 시행하였고, 난소 평활근종만 제거하고 정상 난소를 유지한 것에 대한 보고는 없다. 전세계적으로도 대부분 부속기제거술 또는 동반된 전자궁절제술이 시행되었고, 정상 난소를 보존한 것은 7예에 불과하며[2,3], 아직까지 복강경으로 종괴만을 제거한 것에 대한 보고는 없다. 저자들은 최근 자궁 평활근종 및 좌측 난소 종양 진단 하에 복강경하 근종제거술 및 좌측 난소종괴제거술 시행한 환자에서 난소 평활근종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 권 O 정, 38세

과거력: 2006년 타병원에서 자궁내막증으로 복강경수술 시행한 과거력 외에 특이 내외과력 없었다.

가족력: 특이사항 없었다.

월경력: 13세 초경 후 월경은 30일 주기로 규칙적으로 기간은 3일이며 월경통이 있었다.

산과력: 0-0-2-0, 결혼했으며 임신계획 중이었다.

주 소: 평소 월경통이 있으며 내원 1개월 전부터 복부통증 호소하였다.

현병력: 상기 38세 여자 환자는 2006년 타병원에서 자궁내막증으로 복강경수술 시행한 과거력이 있었다. 평소 월경통이 있어오다 내원 1개월 전부터 복부통증으로 개인 산부인과 의원 방문하여 시행한 초음파상 5 cm, 3 cm의 자궁평활근종 소견이 있어 향후 치료 계획을 상담하기 위해 본원으로 전원되었다.

진찰 소견: 키 155 cm, 52 kg이었으며 급성병색을 보였다. 내원 시 검

Received: 2011.12.12. Accepted: 2012.1.30.

Corresponding author: Mi-La Kim, MD, PhD

Department of Obstetrics and Gynecology, CHA Gangnam

Medical Center, CHA University College of Medicine, 650-9

Yeoksam-dong, Gangnam-gu, Seoul 135-913, Korea

Tel: +82-2-3468-3673 Fax: +82-2-558-2638

E-mail: mila76@naver.com

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 non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2012. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

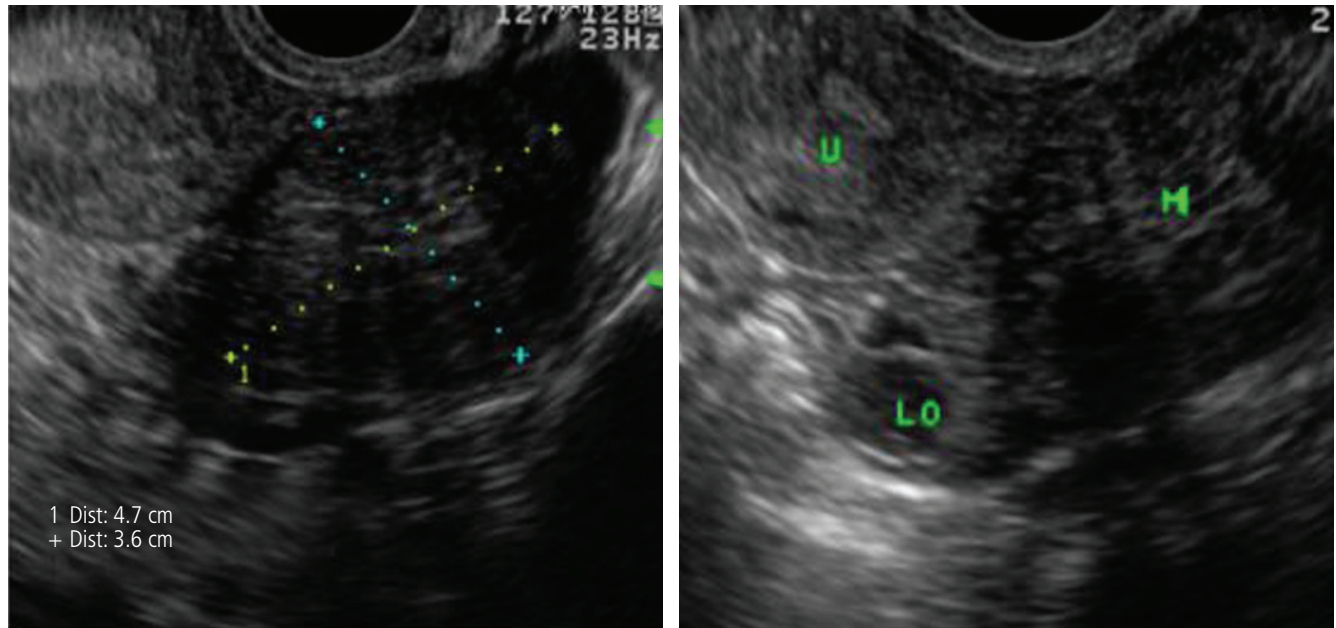


Fig. 1. Findings of transvaginal ultrasound. About 4.7×3.6 cm sized low mixed echo solid mass was noted in left ovary. U, uterus; LO, left ovary; M, mass.

사한 활력증후상 혈압은 110/71 mm Hg, 맥박은 94회였으며 체온은 36.8°C로 정상 소견을 보였다. 환자의 배는 부드러웠고 평평했으며 압통 및 반발통은 없었다. 육안상 회음부 및 질부 등에는 이상 소견이 없었고, 골반내진상 자궁은 전굴로 약간 증가한 크기였고, 자궁 오른쪽에 5 cm, 자궁 왼쪽으로 5 cm 가량의 종괴가 촉지되었다.

검사 소견: 혈액검사상 혈색소 수치는 13.8 g/dL, 백혈구 수치는 5,570/ μ L로 정상 소견을 보였으며 혈액응고검사, 소변검사, 전해질검사, 간기능검사도 정상 수치를 보였다. 종양 표지자인 CA-125는 14.2 U/mL, CA 19-9은 8.1 U/mL로 정상 소견을 보였다.

초음파 소견: 자궁은 전굴로 여성의 주먹만한 크기였고, 자궁 오른쪽 벽에 4.7×2.6 cm 크기의 유경성 장막하 근종이 관찰되었다. 좌측 난소에 섬유종 혹은 유경성 자궁평활근종(pedunculated uterine leiomyoma)로 의심되는 4.7×3.6 cm 크기의 복합적인 저에코성의 고형(solid) 종괴가 관찰되었다(Fig. 1). 그 외 좌측 난관과 우측 난소 및 난관에 특이 소견은 없었다.

수술 소견: 전신마취하에 복강경하 수술을 시행하였다. 자궁은 여성의 주먹만한 크기였고, 자궁 오른쪽 벽에 5×3.5 cm의 유경성 장막하 평활근종이 관찰되었고, 좌측 난소에 비교적 경계가 잘 지워지는 5×4 cm의 단단한 고형성 종괴가 관찰되었다. 그 외 좌측 난관과 우측 난소 및 난관을 비롯해 골반내 특이 소견은 없었다. 좌측 난소 부위에 유착소견은 없었으며, 골반내 복수 및 암 전이를 의심할만한 복막내 착상 소견도 없었다. 복강경하 자궁근종절제술 및 좌측 난소의 종괴제거술을 시행하였고, 두 종괴 모두 세절기를 이용하여 체외로 제거하였다. 난소 종괴는 EndoPouch (Ethicon Endo-Surgery, Cincinnati, OH, USA)내에 넣은 상태에서 세절기로 잘라내어, 복강내 작은 조각이 떨어

지지 않도록 한 상태에서 제거하였는데, 세절 시 종괴가 비교적 단단하여 종괴의 표면을 따라 끊어지지 않고 약 8 cm 정도의 길이로 길게 세절이 가능하였다(Fig. 2).

병리학적 소견: 육안적으로는 세절된 두 종류의 종괴 중에서 자궁의 종괴는 가장 큰 세절 부위가 2.8×1.9 cm였고 총 중량은 25 g이었다. 조직은 매끈한 회백색으로, 소용돌이무늬의 고무양 경도를 갖는 절단면이 관찰되었다. 좌측 난소의 종괴는 가장 큰 세절 부위가 8.5×1.5 cm였으며 총 중량 40 g이었다. 절단면은 자궁 종괴와 유사하며, 고무양(rubbery) 경도를 갖는 회백색의 딱딱한 소용돌이무늬가 있었으며, 출혈이나 괴사 소견은 없었다. 복강경으로 잘라진 종괴 조각에는 주변 정상 조직은 관찰되지 않았다. 현미경학적으로는 자궁과 난소의 종괴 모두 비교적 균일하게 여송연 모양의 핵을 가진 방추형 세포들이 교차하는 긴 다발들로 배열되어 있었고, 핵이나 세포 모양의 비정형성은 보이지 않았으며, 유사분열도 10개의 고배율 시야당 1개 이하로 거의 관찰되지 않았다(Fig. 3A, 3B). 면역조직화학 염색상 좌측 난소에서 적출한 종괴의 세포들은 desmin에 뚜렷한 양성반응을 보였다(Fig. 3C).

수술 후 경과: 수술 후 경과 양호하여 수술 후 2일째 퇴원하였으며 외래를 통해 추적 관찰 중으로 첫 외래 방문 시 이상 소견은 없었다. 수술 후 3개월 후 외래 내원 시 시행한 초음파상 양측 난소 모두 정상적인 형태를 보였다.

고 찰

난소의 평활근종은 발생이 매우 드문 간엽성(mesenchymal) 종양의

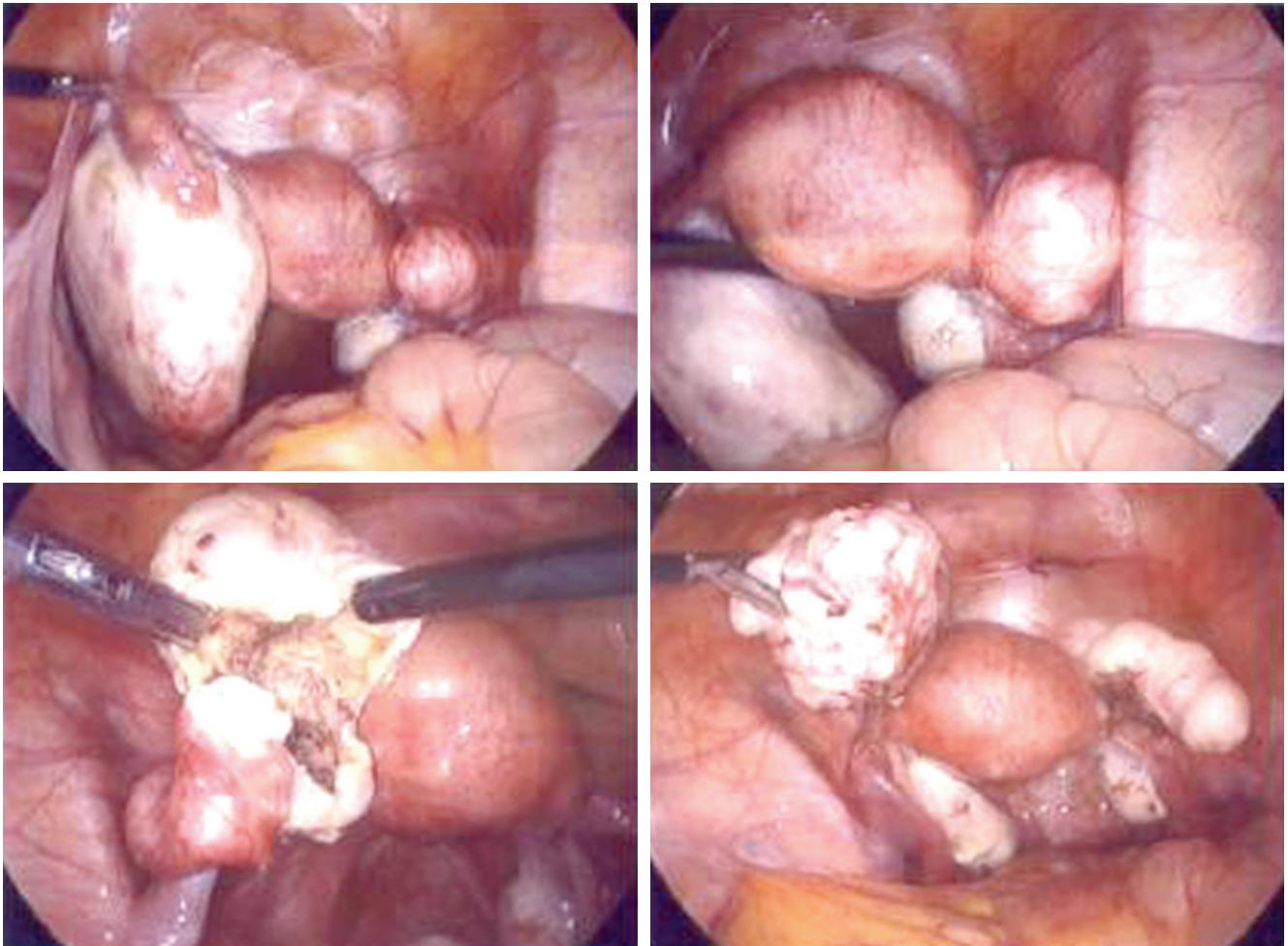


Fig. 2. Laparoscopic findings of left ovarian mass and subserosal myoma. After excision of ovarian mass, normal ovarian tissue was remained.

로 난소의 양성 종양 중 0.5%–1.0%를 차지하며 현재까지 전세계적으로 약 80예가 보고되었다. 난소 평활근종에 대한 보고가 적은 이유는 첫째, 다른 질환에 의한 수술과정에서 우연히 발견되는 경우가 많고, 둘째, 일반적으로 크기가 3 cm 이하이고 무증상이며 셋째, 육안상 난소 평활근종보다 빈도가 높은 난소 섬유난포막종(fibrothecoma)이 비슷하여 오진율이 높기 때문이다[4].

난소 평활근종은 대체로 20–65세에서 발생하며, 80%가 폐경 전 여성에서 발생하는 것으로 알려져 있다[5]. 대체로 무증상이며 우연히 골반내진상 혹은 초음파 등 영상학적 검사에서 발견되거나 다른 수술 과정 중에 관찰되기도하며 부검 시에 우연히 발견되기도 한다. 간혹 복부 팽만이나 복부동통을 호소하는데 드물게 복부에서 촉진되는 종괴나 열전, 괴사, 테스토스테론이 증가함에 따른 남성화(virilization)가 나타나거나 복수, 수흉증(hydrothorax), 수신증(hydronephrosis)을 동반하기도 하며, 희귀하게 복수와 흉막삼출을 동반하는 Meigs 증후군 예가 보고된 바도 있다[6,7].

난소 평활근종의 크기는 수 mm부터 36×37×11 cm (6,855 g)에 이

르는 예가 보고되는 등 다양하지만 일반적으로 3 cm 이하이다[8]. 대부분 일측성이나 젊은 여성에서 발생될 때에는 양측성이 보다 흔하며 큰 종괴로 나타나기도 한다[2]. 난소 평활근종은 본래 고형(solid)이지만 초산화(hyalinization), 출혈, 석회화(calcification), 낭종 형성(cyst formation)과 같은 이차 변성이 일어나기도 한다[9]. 또한 이론적으로 난소는 에스트로겐의 농도가 가장 높은 기관이며 난소 평활근종이 임신 시에 크기가 급증하고 수술로 제거하고 남은 조직이 임신 종결 후에 퇴화되기 때문에 자궁 평활근종처럼 에스트로겐의 영향을 받는 것으로 추정된다[10].

난소 평활근종의 진단을 위해 초음파, 컴퓨터단층촬영, magnetic resonance imaging (MRI) 등이 시행되고 확진은 수술 후 조직검사 및 면역조직화학적 염색을 통해 이루어진다. 영상학적 검사는 일반적으로 초음파가 다양한 골반내 장기 및 병변에 가장 좋은 진단 도구로 인정되지만 난소 평활근종에 있어서는 대체로 그 기원이 명시되지 않은 난소의 비특이적인 고형(solid) 종양으로 보고되거나 종종 유경성(pedunculated) 장막하 자궁근종으로 오인되므로 진단에 어려움이 있

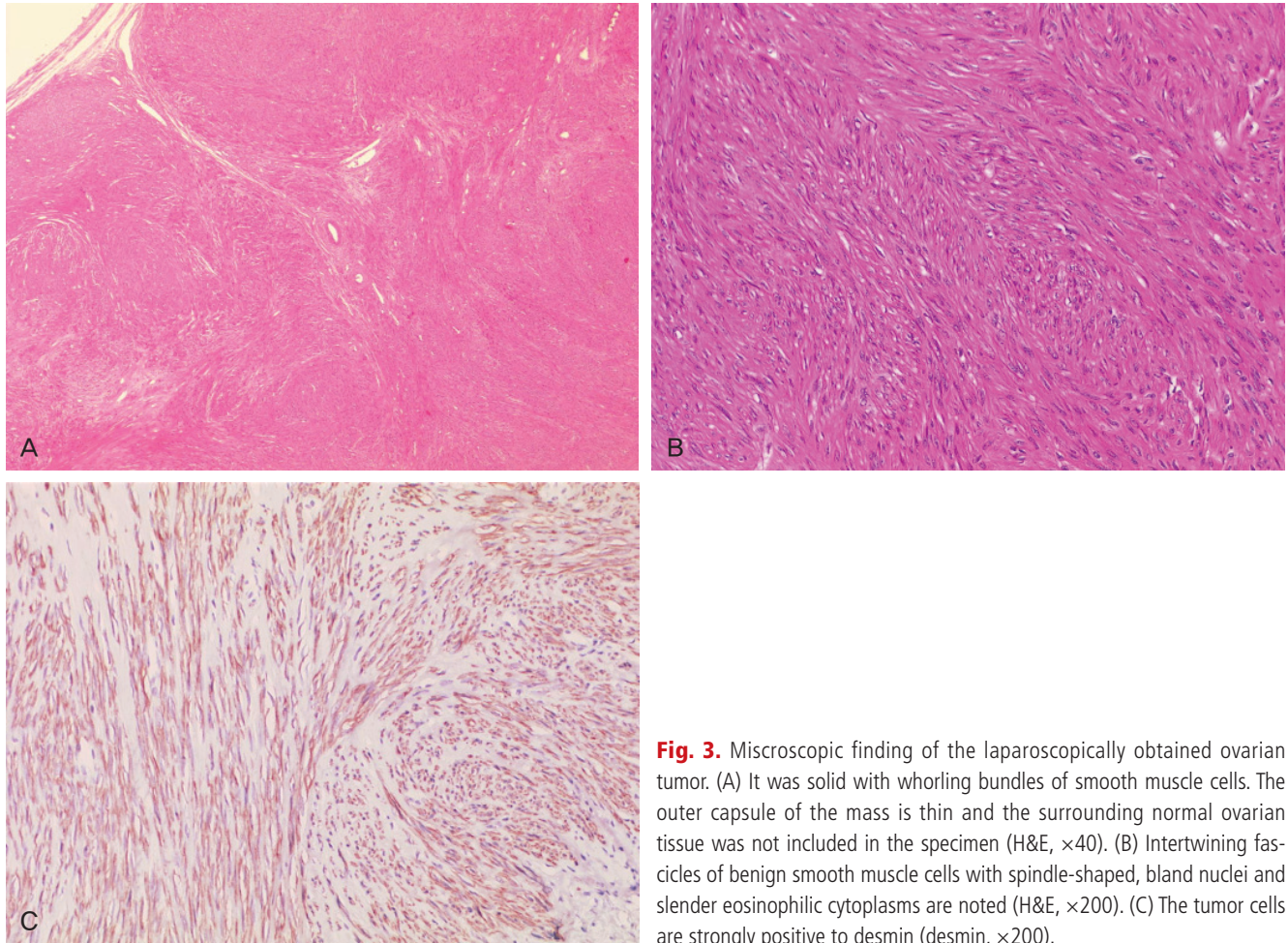


Fig. 3. Microscopic finding of the laparoscopically obtained ovarian tumor. (A) It was solid with whorling bundles of smooth muscle cells. The outer capsule of the mass is thin and the surrounding normal ovarian tissue was not included in the specimen (H&E, $\times 40$). (B) Intertwining fascicles of benign smooth muscle cells with spindle-shaped, bland nuclei and slender eosinophilic cytoplasm are noted (H&E, $\times 200$). (C) The tumor cells are strongly positive to desmin (desmin, $\times 200$).

다. Computed tomography (CT)나 MRI를 이용해도 마찬가지로 진단이 어렵다. MRI에서는 난소 평활근종이 T1 및 T2 이미지에서 저 신호강도로 나타나는데 이는 섬유종(fibroma)이나 섬유난포종(fibrothecoma)에서도 같은 양상으로 나타나므로 감별진단이 힘든 것으로 알려져 있다. 하지만, 최근 dynamic contrast-enhanced MRI로 시행한 연구에서 섬유종이나 섬유난포막종은 지연성으로 약한 신호증강이 나타나나 난소 평활근종에서는 T1 이미지에서는 윤곽이 뚜렷한 저신호 강도로, T2 이미지에서는 조기의 강한 신호 증강으로 나타나 dynamic contrast-enhanced MRI가 난소 평활근종의 진단도구로 제시되기도 하였다[11].

조직학적 소견상 난소 평활근종은 자궁 평활근종과 마찬가지로 둥근 핵을 가진 균일한 방추형의 평활근 세포가 다발을 이루거나 소용돌이치는 모양을 나타내며 유사분열(mitosis)은 관찰되지 않으며 세포핵의 다형성(active nuclear pleomorphism)은 관찰되지 않는다. 종양세포는 섬유성 격막에 의해 나뉘지는 다발을 형성하며 이차적인 변성으로 넓고 현저한 초자질화(hyalinization)를 보이며 그 외 출혈, 석회화, 낭성 변종 등이 보일 수 있다. 조직학적 진단은 병변의 평활근 성분에 대한 반드시 확인이 필요하며 다른 고형성 난소 종양과 감별되어야 한다. 평활근 성분을 확인하기 위해 면역조직화학적으로 desmin과 α -smooth

muscle actin (SMA), vimentin, Masson's trichrom stain 등을 이용하여 종양세포와 주위 혈관근육조직에 염색되는 것을 확인한다. 감별질환으로 섬유종(fibroma), 섬유난포막종(fibrothecoma), 세포 섬유종(cellular fibroma), 섬유육종(fibrosarcoma), sclerosing stromal tumor가 있다. 섬유종은 α -SMA에 염색되지 않고, desmin은 평활근종의 경우 조직 절편의 전범위에 양성을 보이지만 섬유성 종양(fibromatous tumor)에는 음성이거나 국소적으로만 양성을 보이며, Masson's trichrom stain 역시 섬유성(fibrous)인지 평활근육 성분(smooth muscle component)이 있는지를 구분하는 특징이 있다[12]. 그 밖에 아주 드물게 난소의 평활근육종(leiomyosarcoma)와도 감별해야 하는데 이는 세포학적 다형성(cytological pleomorphism)과 유사분열(mitosis)의 수에 의존하여 평가하지만 명백한 세포핵의 이형성(nuclear atypia)이 없는 경우 난소 평활근육종의 진단에 주의를 기울여야 한다[13].

난소의 평활근종의 치료는 자궁근종과 마찬가지로 수술로 제거하는 것이다. 난소 평활근종은 80%에서 자궁 평활근종을 동반하는 것으로 알려져 있으므로 수술 시 병변이 있는 난소뿐 아니라 자궁절제술을 동시에 시행하는 경우도 많지만, 가임기 여성에서 발견된 경우, 만약 여성이 임신을 원하는 경우라면 가능한 난소의 기능 보존을 하는 것이 중

요하다. 현재까지 보고된 대부분의 예에서 개복으로 수술하였으며 몇몇 예를 제외하고는 난소절제술을 시행하였다[1-3]. 10대에 나타난 경우에도 난소절제술을 시행한 경우들이 있었으며, 경우에 따라 악성 난소종양으로 의심되어 병기 설정 수술까지 시행한 경우도 있다. 난소 평활근종은 희귀한 데다 악성 종양을 포함해 다른 난소 종양과의 감별이 힘든 점으로 인해 간혹 필요 이상으로 수술 범위를 확대하기도 한다. 난소 평활근종은 난소의 양성 종양으로 80%가 폐경 전 여성에서 발생하고 젊은 여성에서는 보다 큰 종괴로 나타난다는 점을 주지하여 난소의 고형 종양을 지닌 가임기 환자에게 있어 악성 가능성이 철저히 배제된 후에는 난소의 기능을 보존하는 수술을 우선적으로 고려하는 것이 중요하다. 난소의 평활근종의 경우 세부분열이 활발한 종괴의 경우에서도 재발이 없는 좋은 예후를 보여주므로[14], 가능한 가임력을 보존하는 방향으로 치료가 진행되어야 할 것이다. 본 증례에서도 복강경하 수술 시 정상 난소조직과 종괴는 쉽게 분리가 되었으며, 난소 평활근종은 복강경하 종괴제거술만으로 시행되었으며, 정상적인 난소는 보존이 가능하였다. 제거된 종괴는 경도가 자궁근종과 유사하여 일반적으로 시행되는 복강경하 근종제거술과 동일한 방법으로 세절기를 이용한 제거가 가능하였다. 종괴의 제거는 EndoPouch에 넣은 상태에서 세절 후 EndoPouch 자체를 체외로 제거하여 골반강내 작은 조각이 떨어지는 것을 예방할 수 있었다.

저자들은 최근 자궁 평활근종 및 좌측 난소의 고형(solid) 종양진단 하에 시행한 복강경하 자궁 평활근종절제술 및 좌측 난소의 종양적출술을 시행한 환자에서 난소 평활근종을 발견하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이며, 난소의 고형종괴에서 악성이 배제된 경우 가능한 난소를 보존하는 치료를 하는 것을 권유하는 바이다.

References

1. Doss BJ, Wanek SM, Jacques SM, Qureshi F, Ramirez NC, Lawrence WD. Ovarian leiomyomas: clinicopathologic features in fifteen cases. *Int J Gynecol Pathol* 1999;18:63-8.
2. Wei C, Lilic N, Shorter N, Garrow E. Primary ovarian leiomyoma: a rare cause of ovarian tumor in adolescence. *J Pediatr Adolesc Gynecol* 2008;21:33-6.
3. Koo YJ, Cho YJ, Kim JY, Lee JE, Kim ML, Kim JM, et al. Ovarian leiomyoma as a potential cause of compromised fertility. *Fertil Steril* 2011;95:1120.e11-4.
4. Matamala MF, Nogales FF, Aneiros J, Herraiz MA, Caracul MD. Leiomyomas of the ovary. *Int J Gynecol Pathol* 1988;7:190-6.
5. Scully RE, Young RH, Clement PB. Atlas of tumor pathology: tumors of the ovary, maldeveloped gonads, fallopian tube, and broad ligament. Washington, DC: Armed Force Institute of Pathology; 1998.
6. Khaffaf N, Khaffaf H, Wuketich S. Giant ovarian leiomyoma as a rare cause of acute abdomen and hydronephrosis. *Obstet Gynecol* 1996;87:872-3.
7. Kurai M, Shiozawa T, Noguchi H, Konishi I. Leiomyoma of the ovary presenting with Meigs' syndrome. *J Obstet Gynaecol Res* 2005;31:257-62.
8. San Marco L, Londero F, Stefanutti V, Costa L, Rocco M. Ovarian leiomyoma. Case report. *Clin Exp Obstet Gynecol* 1991;18:145-8.
9. Fallahzadeh H, Dockerty MB, Lee RA. Leiomyoma of the ovary: report of five cases and review of the literature. *Am J Obstet Gynecol* 1972;113:394-8.
10. Daniel Y, Lessing JB, Bar-Am A, Kupfermanc MJ, Jossiphov J, Peyser MR. Treatment of bilateral multiple primary ovarian leiomyomas during pregnancy by way of conservative surgery: a case report. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1997;74:125-6.
11. Tamada T, Sone T, Tanimoto D, Higashi H, Miyoshi H, Egashira N, et al. MRI appearance of primary giant ovarian leiomyoma in a hysterectomized woman. *Br J Radiol* 2006;79:e126-8.
12. Tomas D, Lenicek T, Tuckar N, Puljiz Z, Ledinsky M, Kruslin B. Primary ovarian leiomyoma associated with endometriotic cyst presenting with symptoms of acute appendicitis: a case report. *Diagn Pathol* 2009;4:25.
13. Erkaya S, Kutlay B, Uygur D, Kara F, Tezer A. Primary ovarian leiomyoma in a postmenopausal woman. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2000;79:79-87.
14. Prayson RA, Hart WR. Primary smooth-muscle tumors of the ovary. A clinicopathologic study of four leiomyomas and two mitotically active leiomyomas. *Arch Pathol Lab Med* 1992;116:1068-71.

복강경하 종괴제거술로 치료한 난소의 원발성 평활근종 1예차의과학대학교 의과대학 ¹산부인과학교실, ²병리학교실김명주¹, 나은덕¹, 이윤정¹, 김미라¹, 성석주¹, 김지영²

난소에서 발생하는 원발성 평활근종은 매우 희귀한 질환으로 양성 난소종양의 약 0.5%–1%를 차지하며 현재까지 세계적으로 약 80예가 보고되었다. 대부분의 경우 무증상으로 부인과 정기검진이나 다른 수술 시 혹은 부검 시에 우연히 발견된다. 난소 평활근종은 다른 난소의 양성 및 악성 종양과 감별이 힘들며, 특히 고형성 종괴의 크기가 큰 경우 감별이 힘들다. 이는 양성 종양으로 80%가 폐경 전 여성에서 발생하고 젊은 여성에서는 크기가 큰 양상을 고려하면, 가임기 여성에 있어 악성 가능성이 배제된 뒤에는 난소 기능을 보전하는 수술을 우선적으로 고려하는 것이 중요하다. 저자들은 최근 복강경하 난소 종괴제거술을 시행한 38세 여성에서 난소 평활근종을 발견하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어: 난소 평활근종, 복강경, 근종, 난소