

Pseudo-Meigs' 증후군에 동반된 Brenner 종양의 1예

대구파티마병원 산부인과¹, 병리과²
김소희¹ · 김진희¹ · 박미선¹ · 박학열¹ · 김동자²

Pseudo-Meigs' 증후군은 난황낭 종양, 난소암, 자궁근종. Brenner 종양 결핵등과 같이 흉수와 복수가 나타나는 드문 증후군으로 그 원인과 병리기전은 아직 확실히 밝혀지지 않고 있다. 특징적인 임상양상으로 진단은 내리고 있다. 본 저자들은 CA 125 수치가 상승되고 Brenner 종양을 동반한 Pseudo-Meigs' 증후군의 예를 경험하였기에 이에 보고하는 바이다.

중심단어 : Pseudo-Meigs 증후군, Brenner 종양

서 론

난소 섬유종에 복수와 흉수가 동반된 경우를 Meigs' 증후군이라고 하며, 난소 섬유종 이외의 난소의 양성실질성종양인 난포막종, 과립막세포종, 자궁근종 등에 복수와 흉수가 동반된 경우를 Pseudo-Meigs 증후군이라고 한다. 드문 증후군으로서 그 원인과 병리기전은 확실하지 않으며 특징적인 임상소견으로서 진단된다. 대부분의 경우에서 골반 내 종괴를 제거하면 임상증상의 급격한 호전을 볼 수 있다. 저자 등은 좌측난소에서 발생한 Brenner 종양과 연관된 Pseudo -Meigs 증후군의 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 조○경, 40세
주 소 : 10개월 동안의 복부팽만감 및 복부 동통
산과력 : 1-0-0-1로 정상남아 분만
월경력 : 10개월 전(2005년 1월경) 이후 생리 없이 지냈다 함.

논문접수일 : 2006년 2월 6일 채택일 : 2006년 4월 25일
교신저자 : 김소희, 701-724 대구광역시 동구 신암동 576-31
대구파티마병원 산부인과 의국
전화 : (053) 940-7314 · 전송 : (053) 940-7469
E-mail : hellosoya@naver.com

가족력 : 특이사항 없음.

과거력 : 특이사항 없음.

수술력 : 5년 전 복막염으로 수술함.

현병력 : 2005년 1월경부터 복부팽만감 증상 있었으나 경과 관찰하던 중 최근 4일 전부터 복부 동통 있어 들어 본원 내과 통해 입원하여 실시한 검진상 복수와 흉수, 골반 내 종괴 소견 있어 산부인과로 의뢰됨.

이학적 소견 : 내원당시 전신 상태는 만성적인 병력이 있어 보였으며 혈압은 130/90 mmHg, 맥박수 80-90회/분, 체온 37.1°C, 호흡수는 20회/분이었으며, 두경부 및 흉부의 이학적인 검사상 양측 폐하부에서 감소된 호흡이 관찰되었다. 복부 진찰 소견상 상복부는 팽대되어 있었으며 만져지는 복부 종괴 소견이 관찰되었다. 골반 내진 소견상 자궁은 전굴 되어 있었고 자궁경부 및 양측 부속기에 특이소견은 없었다.

검사 소견 : 일반혈액검사상 혈색소 12.5 g/dl, 백혈구 8050/ μ l, 혈소판 404/ μ l 보였고 혈액 생화학검사상 혈장 총단백 5.6 g/dl, 알부민 3.4 g/dl로 간기능검사와 함께 정상소견을 보였으며 BUN 15.6 mg/dl, Creatinine 1.29 mg/dl로 증가된 소견을 보였다. CA 125는 243 U/ml로 증가된 소견이었고 CA 19-9는 3.02 U/ml로 정상소견을 보였다. 흉막천자액 검사상 단백질 3.9 g/dl, 알부민 2.7 g/dl로 정상소견 보였고 복강천자액 검사상 단백질 4.2 g/dl, 알부민 2.9 g/dl로 역시 정상소견을 보였다. Tb PCR 역시

음성반응을 보였다.

골반 초음파 및 복부 초음파 소견 : 질식 초음파상 자궁의 직경은 25 mm, 자궁 내막은 5 mm, 우측난소는

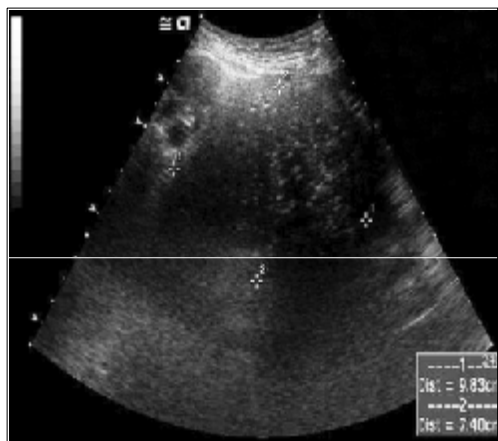


Fig. 1. Abdominal USG demonstrates 9.83×7.40 cm sized ill-defined margined complex echogenic mass lesion at the Lt adnexa with ascites.

43 mm, 좌측부속기에 170×98 mm의 고형의 종괴와 다량의 복수가 골반강 내에 관찰되었다.

복부 초음파상 다량의 담낭석 소견과 함께 다량의 복수, 전체적으로 비대해진 양측 신장이 보였고 complex echo 종괴가 복강 내에 관찰되었다(Fig. 1).

흉부 및 복부 전산화단층촬영소견 : 양측 폐에 다량의 흉막 삼출 소견이 보이고 폐전이 소견은 안보였다. 복수와 좌측 난소에 종양소견이 관찰되었다(Fig. 3).

수술 소견 : 2005년 9월 30일 전신 마취하에 시험적개복술을 시행하였다. 골반강 내에서 약 3,000 cc의 straw-color의 복수를 흡인하여 복수의 세포 검사를 의뢰하였다. 자궁의 육안적 소견은 정상이었고 좌측 부속기에 난소종괴가 발견되었다. 전자궁적출술 및 양측 부속기 절제술을 시행하였고 S자 결장, 소장, 복막, 그물막의 조직 검사를 시행하였다.

병리학적 소견 : 종괴는 육안소견상 17×14×13 cm 이고 1,520 mg의 다수의 낭종을 가진 흰색 고형의 좌측

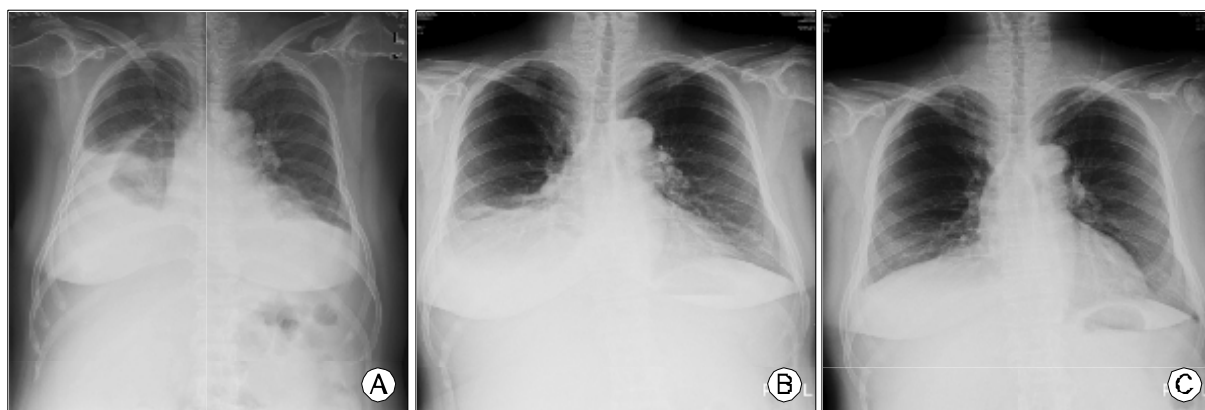


Fig. 2. (A) The POD 0 day chest X-ray. (B) The POD 7 day chest X-ray. (C) The POD 14 days chest X-ray.

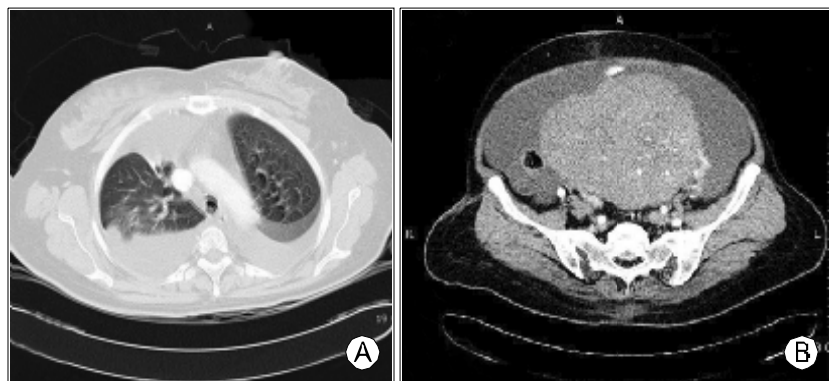


Fig. 3. (A) Bilateral pleural effusion with compressive atelectasis of both lung. No evidence of lung metastasis. (B) On the contrast-enhanced abdominal CT scan shows a 17.6 cm sized, ovoid solid mass with homogeneous enhancement at the Lt adnexa. The feature is lobulated calcified enhancing mass. Rt hydrosalpinx also has seen.

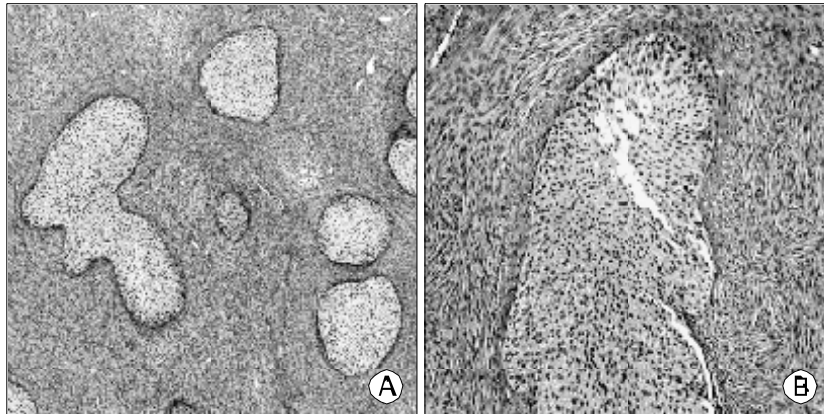


Fig. 4. (A) Dense fibrous stroma punctuated by nests of stromal cells resembling those lining urinary bladder (H&E $\times 40$). (B) The nests of transitional metaplasia found within the fibrotic stroma (H&E $\times 200$).

난소종괴였다. 종괴는 날카로운 경계를 가지고 그 외부 표면은 결절의 양상을 보였다. 절단 표면의 일부는 약간의 석회화된 부분을 가지는 모래알 모양을 띠고 있었고 출혈이나 괴사의 소견은 없었다. 복수 내의 악성 세포는 보이지 않았으며 mesothelial reaction을 보였다(Fig. 4).

수술 후 경과 : 수술 후 환자 호흡곤란 증세가 있어 intubation keep한 상태로 중증중환자실 입원하여 ventilator 치료 시행하였다. 수술 후 4일째 ventilator weaning하였고 흉부사진상 흉막삼출소견 호전된 소견을 보였으며 수술 후 14일째 정상 퇴원하였다.

고 찰

양성 Brenner 종양의 연령분포는 평균 53.4세이고 경계성 Brenner 종양의 평균연령은 50세에서 52세이며 악성 Brenner 종양의 평균 연령은 60세로 보고되었다.¹ 대개 Brenner 종양에 특이한 증상은 없으나 Woodruff 등은 주된 증상이 복부증대와 복통으로 보고하였다.² 폐경기 전의 약 반수에서 월경과다증이나 주기간 출혈이 있었고 폐경기 환자의 약 40%에서 자궁출혈의 재발이 있었다. 일반적으로 이 종양은 내분비작용이 없는 것으로 알려져 있으나 최근의 연구결과로는 폐경기 이후의 질 출혈, 자궁내막증식, 내분비성선 또는 자궁내막암을 동반하는 예가 종종 보고되어 왔다. Eton 등에 의하면 5예의 Brenner 종양 중 2예에서 샘암종을 3예에서 자궁내막증식으로 폐경기 후 질 출혈을 호소하였다고 하며 Ming과 Goldmann은 폐경기여성 67예에 대한 자궁내막 검사소견 보고에서 32예에서 자궁내막비후증을 14예에서 자궁내막용종을 6예에서 자궁내막선암 소견을 보여 이 종양

이 estrogen을 분비한다고 보고하였다.³

Brenner 종양은 상피세포들로 구성된 상피세포소와 그 상피세포소를 둘러싸는 섬유성의 결체조직의 바탕으로 이루어지는데 상피세포의 핵속에는 특징적인 coffee-bean 형태를 가지고 있는 난형 또는 다각형의 세포들로 방광의 이행상피세포를 닮았고 상피세포주를 형성한다. 이행상피암종 또는 편평상피암종으로 악성변화를 한 상피세포들은 난포막세포를 닮은 간질세포로 구성된 풍부한 섬유성기질 내에 침윤되어 있는 양상을 보인다. 종양의 반 정도에서 기질의 석회화를 볼 수 있다.

Brenner 종양은 거의 대부분이 양성 난소 종양이므로 단순 난소 절제술로 완치가 가능하며 악성 Brenner 종양인 경우에는 복식전자궁적출술과 양측 부속기 절제술이 필요하다. 악성종양을 제외하고는 예후는 양호한 편이며 첫 진단 시에 임상적병기가 중요하다고 생각된다. Woodruff 등은 stage Ia에서는 수술 후 5년 생존율이 70%였으며 stage III, IV에서는 5년 생존율이 0%이었다.

Meigs는 1937년 난소섬유종이 흉수 및 복수를 동반하는 임상증후군 7예를 보고하였다. 17년 후 Meigs 증후군은 고형의 양성 난소 종괴와 함께 흉수 및 복수를 동반하는 경우 난소 종괴 제거 시 증상이 완전히 치유되는 경우에 정의되었다.⁴ Meigs는 84예의 전형적인 Meigs 증후군에서 난소섬유종이 69명, 난포막종이 8명, 과립막세포막종이 5명, Brenner tumor가 1명이라고 하였다. 처음에 기술된 조직학적 아형이 다른 난소 종괴와 함께 상기 증상이 동반 되었을 때 Pseudo-Meigs 증후군으로 정의하였다.¹⁵

난소섬유종이 Meigs 증후군의 가장 흔한 원인이며 적출된 난소 종양 전체의 2-5%를 차지한다. 난소섬유종의

로 진단된 경우 중 단지 1%에서만 Meigs 증후군의 임상양상을 보였던 것으로 보고되어 그 유병률은 매우 낮은 것으로 보이며 Pseudo-Meigs 증후군의 유병률에 관한 유용한 정보는 아직 없는 실정이나 문헌상 Meigs 증후군보다 더 낮은 것으로 보고되고 있다.⁵ Pseudo-Meigs 증후군에 동반되는 난소종양은 양성이고 실질성 종양인 난포막종, 과립막 세포 종양, Brenner 종양, struma ovarii, 평활근종등이 있고 발생 빈도는 매우 낮으나 난소 악성종양에서도 흉복강 내로 암세포의 전이 없이 흉수와 복수를 동반하는 경우가 있다. 본 증례는 상피성 난소종양으로 모든 난소종양의 1% 미만을 차지하고 폐경기 이후에 호발 하는 Brenner tumor가 동반된 경우였다.

Meigs 증후군은 평균연령 50세 이상에서 흔히 발견되며 대부분 편측성이며 약 10% 이하에서만 양측성으로 나타나고 증상은 복부팽만, 호흡곤란, 흉통, 하지부종, 부정질출혈 등이 있다.⁶

Meigs 증후군과 Pseudo-Meigs 증후군에서 흉수와 복수의 생성기전에 대해서는 아직 확실하게 밝혀진 기전은 없고 몇 가지 가설이 제기되어왔다. 간질 부종액의 여출 또는 손상이나 괴사로 인한 종양 내의 낭종 형성으로 인해 복수가 발생할 것이라는 가설이 있다.⁷ 난소 섬유종 자체의 부종과 표면에 산재한 작은 수포들에 의해 투과성이 좋은 피막을 통하여 세포간질 부종액이 쉽게 빠져나오게 된다. 종양에서는 물질대사가 왕성하여 많은 양의 세포간질 부종액이 생성되나 상대적으로 이를 수용하는 난소 줄기의 림프관과 혈관이 작아 유출이 쉽게 일어난다고 하였다.⁴

초기 연구에서는 난소종양의 크기와 복수의 양과는 상관관계가 없다고 하였으나 Richard과 Ulfelder는 난소종양의 직경이 5 cm 이상일 때 19예 중 8예에서 복수가 있었다고 보고하였고⁸ Samanth와 Black은 난소종양의 직경이 10 cm 이상이면 40%에서 복수가 동반된다고 하였다.⁹

1943년 Meigs는 India ink를 복수가 찬 복강 내로 주입시에 흉수 내로 시료가 빠르게 이동하는 것을 확인하고 흉수와 복수의 단백전기영동검사와 지질 profile 검사상이 두개가 동일 물질임이 밝혀졌다.⁹ 이 연구는 Carmine 용액을 사용했을 때도 동일한 결과를 얻었으며¹⁰ Tc-labelled albumin을 복강 내로 주입했을 때도 같은 결과를 얻었다.¹¹ 이 결과들로 미루어보아 흉수의 발생은 횡경

막의 발생학적 결함을 통해 복수가 직접 통과하여 발생된다고 생각되며, Meigs 증후군에서 우측흉수가 빈발하게 발생하는 것도 후복막림프관과 가슴림프관의 분지가 우측에서 더 발달되었기 때문이라고 하였다.¹²

CA-125가 증가하는 기전에 대해서도 아직 명확하게 밝혀진 기전은 없다. Meigs 증후군에서 CA-125가 증가된 경우는 루푸스 복막염이 의심되었던 전신성홍반성루푸스 환자에서 우발적인 증상으로 처음 보고되었다.¹⁵ CA-125 등의 종양표지인자와의 관련성은 난소암진단에 CA 125 등을 폐경기 여성에서의 난소암진단에 사용하고 있으나 이것은 대망과 난소간막에서 CA 125에 대한 높은 면역반응성이 발견된 반면에 종양자체에서는 발견되지 않았다. 이것은 종양표지인자의 상승이 종양자체에 의해서라기보다는 항원의 중피성 표현에 의해서 상승한다는 것을 의미한다고 보인다. Amant와 Timmerman의 연구에 따르면 CA 125의 상승과 복수의 양간에는 일정한 상관성이 있으며 종양으로 인한 복강의 기계적 자극 또는 많은 양의 복수로 인해 CA 125가 상승될 수 있다고 보고되었다.¹³

이 증후군들에 많은 양의 흉수로 인해 이 증례에서처럼 호흡기 증상부터 시작될 수 있다. 이러한 환자들에서 흉수 세포진 검사나 흉막 생검들을 시행하고 이상이 없다면 Meigs 증후군이나 Pseudo Meigs 증후군을 의심하고 평가를 시행해야한다.¹⁴

Meigs 증후군의 치료는 난소나 자궁의 종양을 제거해 주면 그 임상 증상은 빠르게 호전을 보인다. 폐경기여성에서는 전자궁적출술 및 양측 자궁부속기절제술을 시행한다. 수술 전에 흉통을 동반한 호흡곤란이 있을 때에는 흉복수 천자술을 시행한다.

참고문헌

1. Jorgensen EO, Dockerty MD, Wilson RB. Clinicopathologic study of 58 cases of Brenner tumor of the ovary. Am J Obstet Gynecol 1970; 108: 122-7.
2. Woodruff JD, Dietrich D, Genadry R, Parmley TH. Proliferative and malignant Brenner tumor. Review of 47 cases. Am J Obstet Gynecol 1981; 141: 118.
3. Eton B. Endometrial abnormalities including carcinoma associated with ovarian Brenner tumor. J Obstet Gynecol Brit Emp 1958; 65: 95.
4. Meigs JV, Cass JW. Fibroma of the ovary with ascites and hydrothorax with a report of seven cases. Am J Obstet Gy-

- necol 1937; 33: 249-67.
5. Kazanov L, Ander DS, Enriquez E, Jaggi FM. Pseudo-Meigs' syndrome. Am J Emerg Med 1998; 16: 404-5.
 6. Amr SS, Hassan AA. Struma ovarii with Pseudo-Meigs' syndrome. Eur J Obstet Gynecol Repord Biol 1994; 55: 205-8.
 7. Huh JJ, Montz FJ, Bristow RE. Struma ovarii associated with pseudo-Meigs' syndrome and elevated serum CA125. Gynecol Oncol 2002; 86: 231-4.
 8. Richardson GS, Wfelder H. Problem presented by benign solid ovarian tumor. Clin obstet Gynecol 1961; 4: 834-45.
 9. Samanth KK, Black WC. Benign ovarian stromal tumors associated with free peritoneal fluid. Am J obstet Gynecol 1970; 107: 538-45.
 10. Meigs JV, Armstrong SH, Hamilton HH. A further contribution the syndrome of the ovary with fluid in the abdomen and chest, Meigs' syndrome. Am J Obstet Gynecol 1943; 46: 19-33.
 11. Bast RC Jr, Feeney M, Lazarus H, Nadler LM, Colin RB, Knap RC. Reactivity of monoclonal antibody with human ovarian carcinoma. J Clin Invest 1981; 63: 1331-7.
 12. Bridgewater JA, Rustin GJS. Pseudo-Meigs' syndrome secondary to ovarian germ cell tumor. Gynecol oncol 2004; 94: 226-8.
 13. Tjalma WAA. Ascites, pleural effusion, and CA125 elevation in an SLE patient, either a Tjalma syndrome or, due to the migrated Filshie clips, a Pseudo-Meigs' syndrome. Gynecol Oncol 2005; 97: 288-91.
 14. Yin H, Li XH, Xu MM, Lu YP. Pseudo-Meigs' syndrome secondary to bilateral ovarian endometrioid carcinoma. Int J Gynecol Obstet 1999; 66: 293-5.
 15. Buttin BM, Cohn DE, Herzog TJ. Meigs' syndrome with an elevated CA 125 from benign brenner tumors. Am J Obstet Gynecol 2001; 98: 980-2.

A case of Pseudo-Meigs' syndrome with Brenner tumor

So Hee Kim¹, Jin Hee Kim¹, Mi Sun Park¹, Hak Youle Park¹, Dong Ja Kim²

Departments of Obstetrics and Gynecology¹ and Pathology², Fatima Hospital, Daegu, Korea

Meigs' syndrome is defined by the presence of ascites and hydrothorax in association with an ovarian fibroma, which spontaneously resolve soon after the removal of the tumor. Pseudo-Meigs' syndrome is rare syndrome associated with struma ovarii, yolk sac tumor, ovarian carcinoma, leiomyoma, Brenner tumor and tuberculosis which is combined with the same clinical feature. The cause and pathophysiology of Pseudo-Meigs' syndrome are uncertain. The diagnosis is done by characteristic clinical finding. We present a case of Pseudo-Meigs' syndrome with Brenner tumor with brief review of the literatures.

Key Words : Pseudo-Meigs syndrome, Brenner tumor
