大韓整形外科學會雜誌 第12卷 第1號
Vol. 12, No. 1, March, 1977

良性 間葉腫 2例 報告

高麗病院 整形外科

林 眞 根·孟 根 烈·金 泳 祚

高麗病院 臨床病理科

李 重 達

=Abstract=

Two cases of Benign Mesenchymoma arising in Thigh and Forearm

Lim, Jung Kun M.D., Maing, Keun Yull M.D. and Kim, Young Joe M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Korea General Hospital

Lee, Jung Dal M.D.

Department of Clinical Pathology, Korea General Hospital

The criteria for a mesenchymoma are that it should be composed of at least two mesenchymal elements not ordinarily found together in a tumor.

This report dealt with two cases of benign mesenchymoma arising, one in the left thigh and the other in the left forearm. To diagnose of this tumor on X-ray preoperatively was difficult.

The tumors were excised as much as possible, and mesenchymal derivatives characteristic of the tumor was described in detail.

緖 論

間葉腫(mesenchymoma)은 腫瘍의 構成組織에 따라 angiomyolipoma, lipomyohemangioma, fibromyxolipoma 等 여러가지로 불리우는 身體 어느 곳에서나 發生할 수 있는 稀貴한 腫瘍이다[6].

1948年 Stout[10]가 間葉腫이라 命名한 惡性 腫瘍 8例를 報告하면서 이는 中胚葉에서 起原한 組織들의 胎生期的 成長 障碍(dysontogenicgrowth)로 因하여 發生하는 混合性 中胚葉性 腫瘍(mixed mesodermal tumor)이라고 定義하였다. 그후 Le Ber 와 Stout[6]는 腫瘍의 構成的 特徵으로 一般 單獨 腫瘍에서는 混合되어 나타나지 않는 非上皮性 間葉性 組織들 즉 脂肪, 血管, 平滑筋, 骨格筋, 軟骨, 骨, 粘液樣組織 기타 淋巴組織 및 造血臟器등의 組織들이 混合되어 增殖하며 이 組織構成 要素들中 最少限 두가지 以上의 要素가 混合되어야 한다고 定義하였다. 그러나 中胚葉性 起原인 纖維組織은 어떠한 腫瘍에서도 나타나기 때문에 이것의 出現은 間葉腫의 構成的 特徵이 될 수가 없다고 하였다[6].

著者들은 左側 大腿部 및 左側 前膊部에 發生한 良性 間葉腫 各 1例를 治驗하였기에 文獻 考察과 아울러 報告하는 바이다.

* 본 논문의 요지는 대한 정형외과 학회 제195차 월례집담회에 발표했음.

症 例 1

患者：오○희, 17歲, 女子

主訴：左側 大腿部 外側의 腫脹 및 疼痛

現症：患者는 入院 4個月前부터 上記 主訴가 서서히 發生하였으며 1個月前부터는 症狀이 惡化되어 1976年 7月 2日 高麗病院 整形外科에 入院하였다.

過去歷：數年前부터 左側 下肢가 쉽게 疲勞하였고 가끔 局所 發熱이 있었으나 全身 發熱은 없었다.

家族歷：特記할 事項이 없었음.

理學的 所見：入院時 血壓 140/90mmHg 體重 50kg으로 身體의 發育 및 全身營養狀態는 良好했다. 兩側 大腿部의 둘레는 腫脹部位에서 右側이 44 cm, 左側이 46 cm 이었고, 左側 大腿部 外側에 壓痛性 腫脹이 있으며 腫脹의 範圍를 正確하게 觸知하기 어려웠다. 局所 發赤이나 發熱은 없었고, 左側 下肢의 筋力은 正常이었다.

檢査 所見：血液檢査 및 尿檢査에는 正常所見을 보였다.

X-線 所見：特異한 所見이 없었음.

手術 所見：全身麻醉후 左側 大腿部 外側 皮膚에 大轉子部 下方 3 cm 부터 15 cm 程度의 縱切開를 했다. 大腿筋膜(fascia lata)을 皮膚切開線과 一致하여 切開한 結果 大腿筋膜과 外臘筋(vastus lateralis) 사이에 위치하며 광범위하게 外臘筋에 癒着되어 있는 腫瘍이 露出되었다. 肉眼的으로 皮膜形成이 없었고 5 cm×10 cm 크기의 黃色을 띈 脂肪組織內에 1 cm×1 cm 크기의 出血性 結節이 많이 散在해 있었다. 腫塊의 完全한 切除는 不可能하였으나 可能한 範圍에서 切除하였다.

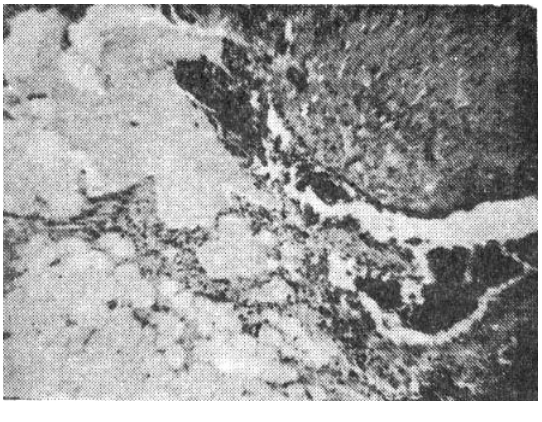

Fig. 1. Microscopic feature of the benign mesenchymoma: blood vesselss, smooth muscle and fat tissue are seen.
(H. & E. stain, 4×10)

經過：患者는 入院 다음날 手術후 別 合併症없이 回復되어 3日후에 退院하였으며 手術후 8個月된 現在 患者는 退院후 계속되는 左側 大腿部 및 左側 下腿部의 輕한 둔통을 호소하고 있으나 理學的 및 X-線 檢査 所見에서는 特別한 異常이 없었다.

病理學的 所見：充實한 部位에는 脂肪組織과 확장된 血管組織이 있으며 그 사이에 平滑筋纖維들이 나타났다. 위의 모든 組織들은 성숙되어 있고 良性 腫瘍의 성상을 띄고 있다(그림 1). 病理學的 기술적인 이름(descriptive term)으로 angioleiomyolipoma라 할 수 있다.

症例 2.

患者：고○심, 34歲, 女子

主訴：左側 前膊 前面部의 腫脹 및 疼痛

現症：患者는 入院 3年前부터 左側 前膊 前面部에 鈍痛 및 腫脹이 시작되었으며 最近 1年前부터 症狀이 惡化되어 1977年 1月 10日 高麗病院 整形外科에 入院하였다.

過去歷：어릴때부터 左側 前膊 前面部 遠位部에 작은 結節性 腫脹이 있었으며 全身 및 局所發熱은 없었다.

家族歷：特記할 事項이 없었음.

理學的 所見：入院時 血壓 120/80mmHg 體重 65kg으로 身體의 發育 및 全身營養狀態는 良好했다. 兩側 前膊部의 둘레는 腫脹部位에서 右側이 19 cm, 左側이 23 cm 이었고, 左側 前膊 前面部에 壓痛性腫脹과 靜脈瘤가 있었다. 若干의 波動感(fluctuation sense)이 觸知되어 穿刺해 보았으나 血液은 나오지 않았으며 局所發赤 및 發熱은 없었다.

檢査 所見：血液檢査, 尿檢査 및 心電圖檢査는 正常所見을 보였다.

X-線所見：左側 前膊 前面部 軟部組織의 腫脹과 石灰沈着陰影이 나타났다(그림 2).

手術 所見：全身麻醉후 左側 前膊 前面 遠位部 皮膚에 15 cm 程度의 縱切開를 했다. 表指屈筋(flexor digitorum sublimis)을 縱切開한 結果 表指屈筋과 深指屈筋(flexor digitorum profundus) 사이에 位置하며 이 두 筋肉에 甚하게 癒着되어 있는 腫塊가 露出되었다. 肉眼的으로 皮膜形成이 없었고 10 cm×15 cm 크기의 赤褐色의 甚하게 鬱血된 血管組織內에 黃色을 띈 脂肪組織이 散在해 있었다(그림 3). 腫塊의 完全한 切除는 不可能했으나 可能한 範圍에서 切除하였다.

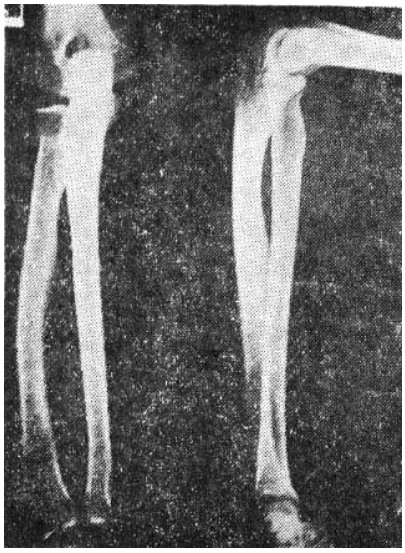

Fig. 2. X-ray findings of left forearm: soft tissue swelling and calcific shadow.

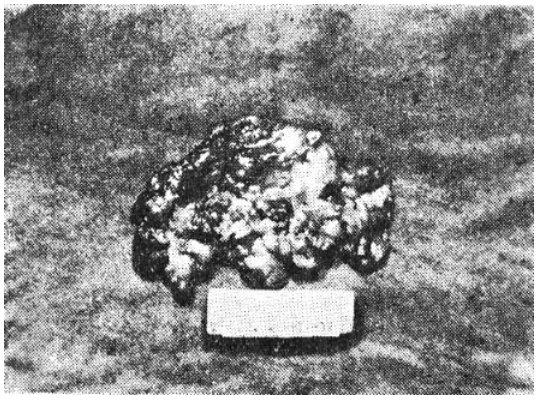

Fig. 3. The gross appearance of tumor; yellowish fat tissue with venous engorgement and not encapsulated.

經過：患者는 入院 다음날 手術하여 別 合病症없이 回復되어 10日後 退院하였다. 術後 左側 手指의 굴곡 운동에 지장이 있었으나 術後 6週가 지난 現在 호전되어 거의 正常에 가까웠다.

病理學的 所見：充實한 部位에는 脂肪組織과 확장된 血管內에 다수의 적혈구가 충만해 있고 약간의 平滑筋 섬유들이 나타났다(그림 4). 위의 모든 組織들은 성숙되어 있고 良性 腫瘍의 성상을 띄고 있다.

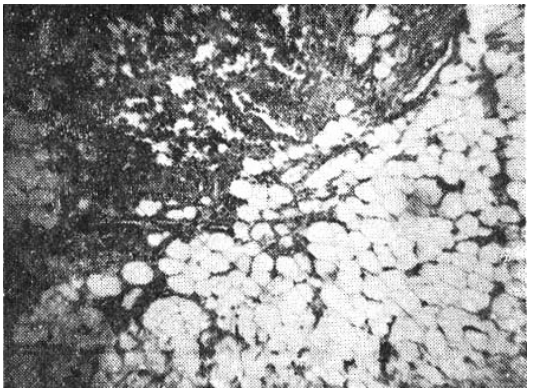

Fig. 4. Microscopic feature of the benign mesenchymoma: blood vessels, fat, and smooth muscle are seen. (H. & E. stain, 4×10)

總　　括

組織 發生說：Moolten[7]과 Tweeddale[11] 等은 間葉腫을 過誤腫(hamartoma)性 起原이라고 說明하였다. 그러나 Stout[10]는 腫瘍이 생기는 部位에 先天的으로 잘 못 位置한 中胚葉性 組織의 細胞들이 胎生期的 成長障碍로 因하여 發生한다고 했다. 또한 그는 방광을 비우고 채우는 것을 반복시킴으로서 그 벽의 平滑筋이 횡문근으로 화생(metaplasia)하는 Carey[3]의 실험을 근거하여 間葉腫의 어떤 構成要素들은 화생으로 형성되었을 可能性을 시사하였다. 過誤腫은 어떤 臟器에 正常的으로 나타나는 組織의 異常排列 및 增殖을 特徵으로 하는데 反하여 間葉腫은 어떤 臟器나 局所에 正常的으로 出現할 수 없는 組織의 腫瘍性 增殖을 特徵으로 하는 腫瘍이다.

臨床：良性 間葉腫은 小兒에서 老人에 이르기까지 廣範圍하게 分布한다[6]. Shuman[8]은 이 腫瘍이 兒童期 내지 靑年期에 發生하면 良性일 境遇가 많으나 惡性의 境遇는 全 年齡에서 發生된다고 하였다. Stout[10] 및 Le Ber와 Stout[6] 等이 모은 22例中 13例가 15歲 以下에서, 4例가 16歲에서 30歲, 5例가 31歲에서 77歲 사이에서 發生하였고 男女의 性比는 2：1로 女子에서 好發하였으며 발생장소는 腎臟 및 그 周圍組織이 가장 빈번하고 上下肢, 軀幹, 後腹膜, 內臟등의 順으로 發生하였다고 報告하였다. Arey[1]는 皮膚 및 皮下組織 그리고 四肢의 筋肉內에 好發하며 드물게 縱隔洞, 後腹膜 및 內臟등에 나타난다고 하였다. 本 症例에서는 1例는 17歲의 女子로 左側 大腿部에 다른 1例는 34歲의 女子로 左側 前膊部에 發生하였다.

病理 組織學的 所見：이 腫瘍의 構成要素들은 매우 多樣하며 Tweeddale[11]等의 例에서는 血管, 脂肪 및 平滑筋들이 複合되어 있었고 Stout[10]例들에서는 平滑筋 脂肪, 骨 및 血管組織들이 나타났으며 조 용재[4] 等의 例에서는 血管, 脂肪, 平滑筋, 淋巴樣組織, 骨 및 골수조직들로 構成되어 있었다. 本 症例에서는 血管, 平滑筋 및 脂肪組織들로 構成되어 있었다.

이 良性 間葉腫이 惡性 變化를 할 것이냐 하는 問題는 報告者에 따라 서로 다른 見解를 갖고 있다. 즉 Speder와 Lafforet[9]들은 良性 間葉腫이 매우 오랫동안 서서히 자라다가 갑자기 惡性變化를 일으킨다고 하였고 Berg[2]는 良性 間葉腫이 육종성 변화를 일으킬 것이라고 시사하였다. 그러나 Le Ber[6] 등과 Hyde[5]는 惡性 間葉腫은 發生時 惡性으로 시작하며 결코 良性 間葉腫이 惡性 變化를 일으키지 않는다고 主張하였다. 筋肉內에 發生한 경우는 筋肉사이로 甚한 浸潤을 일으키지만 轉移하지는 않는다[6]. 本例에서는 잘 分化된 세포들로 構成되었으며 주위 조직에 심하게 浸潤되어 있지만 轉移한 痕跡이 없었다.

診斷：報告된 모든 例들에서 腫塊의 觸知 및 X-線所見에 依하여 腫塊의 存在가 認知되었다. 症例 2에서처럼 X-線上 石灰 沈着 陰影이 腫塊에 存在할 境遇血管腫으로 진단하기 쉬우며 연부조직에 發生한 腫瘍의 경우 감별진단에 良性 間葉腫을 念頭에 두는 것이 좋을 것으로 사료된다.

治療：外科的인 完全 摘出이 가장 좋은 治療法이며, 放射線 治療는 효과가 없다[6]. Le Ber[6] 등은 外科的 摘出後 再發되는 境遇가 20%라고 報告하였다.

結　　論

著者는 大腿部 및 前膊部에 發生한 良性 間葉腫을 治驗하였기에, 文獻 考察과 아울러 報告하는 바이다.

REFERENCES

1. Arey, J.B.: *Benign and malignant tumor of the mesenchymal tissue. Nelson's textbook of pediatrics, 10th ed. p. 1633, W.B. Saunders Co. Philadelphia, 1975.*
2. Berg, J.W.: *Angiolipomyosarcoma of kidney (malignant hamartomatous angiolipomyoma). Cancer, 8:759-763, 1955.*
3. Carey, E.G.: *Quoted by stout, A.P.[10]. The experimental transformation of the smooth bladder muscle of the dog histologically into cross-striated muscle and physiologically into an organ manifesting rhythmicity. Am. J. Anat., 29:341-378, 1921.*
4. Cho, Yong Jae and Lee, Jung Dal.: *A case report of Benign Mesenchymoma arising in the retroperitoneum. J. Korean Surg. Soc., Vol. 17 No' 12, 77-80, December, 1975.*
5. Hyde, W.R., White, J.E., and Stout, A.P.: *Mesenchymoma of the mesentery. Cancer, 3:653-656, 1950.*
6. Le Ber, M.S., and Stout, A.P.: *Benign mesenchymoma in children. Cancer, 15:598-605, 1962.*
7. Moolten, S.E.: *Hamartial nature of the tuberous sclerosis complex and its bearing on the tumor problem: Report of a case with tumor anomaly of the kidney and adenoma sebaveum. Arch. Int. Med., 69:589-623, 1942.*
8. Shuman, R.: *Neoplasm of the mesoderma tissue. Anderson's textbook of pathology 4th edition. p. 467-468, Mosby Co. St. Louis 1962.*
9. Speder and Lafforet.: *Quoted by Stout, A.P.[10]*
10. Stout, A.P.: *Mesenchymoma; the mixed tumor of mesenchymal derivatives. Ann. Surg., 127: 278-290, 1948.*
11. Tweeddale, D.N., Dawe, C.J., and McDonald, J.R.: *Angiolipoleiomyoma of the kidney; Report of case with observation on histogenesis. Cancer 8:764-770, 1955.*