

여성 생식기에 발생한 샘모양 종양 (adenomatoid tumor)의 임상양상: 195예 분석

관동대학교 의과대학 제일병원 산부인과¹, 병리과²

이지은¹ · 조연진¹ · 김미라¹ · 김주명¹ · 주관영¹ · 전종영¹ · 한호원¹ · 구유진¹ · 김윤영¹ · 전이경²

Adenomatoid tumors of female genital tracts: An analysis of 195 cases

Ji Eun Lee, M.D.¹, Yeon Jean Cho, M.D.¹, Mi La Kim, M.D.¹, Joo Myoung Kim, M.D.¹,
Kwan Young Joo, M.D.¹, Jong Young Jun, M.D.¹, Ho Won Han, M.D.¹, Yu Jin Koo, M.D.¹,
Yun Young Kim, M.D.¹, Yi Kyeong Chun, M.D.²

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Pathology, Cheil General Hospital and Women's Healthcare Center,
Kwandong University College of Medicine, Seoul, Korea

Objective: Adenomatoid tumors of female genital tracts are benign lesions derived from mesothelium, occurring most commonly during the reproductive years. The aim of this study was to evaluate the overall incidence of adenomatoid tumors in Korean women and to analyze the clinical characteristics.

Methods: One hundred and ninety five patients with adenomatoid tumors were found in a retrospective medical records review of pathologic reports for 44,984 benign uterine diseases at Cheil General Hospital, from January 1995 to April 2009.

Results: The overall incidence rate was 0.42% of all benign uterine disease. Among them, 149 patients received hysterectomy, and 46 patients received uterine conservative surgery. Main symptoms of the patients were pain (25.1%), bleeding (30.2%), and palpable mass (18.5%). Most common associated pathologies were leiomyoma (46.6%), adenomyosis (25.1%) and endometriosis (13.1%). Most of the diagnosis was made postoperatively. Among 46 patients with conservative treatment, 13 patients showed successful pregnancy outcome. No recurrence occurred during the follow up period.

Conclusion: Adenomatoid tumors are associated with fibroids and tend to mimic them clinically, making pre-operative diagnosis difficult. The recurrence is rare even after conservative operation. Our data about this benign neoplasm may be helpful for counseling patients after operations.

Key Words: Adenomatoid tumor, Female genital tract, Mesothelioma

샘모양 종양 (adenomatoid tumor)은 중피종 (mesothelioma)의 일종으로,¹ 자궁이나 난소, 난관 등 여성 생식기에서 다소 드물게 발견되는 양성 종양이다. 중피 세포

기원이 밝혀지기 전에, 조직학적 소견이 선종과 비슷하다고 하여 1945년 Golden과 Ash²에 의해 샘모양 종양으로 명명되었다.³ 자궁절제술을 시행한 검체의 약 1%에서 진단되고,^{4,5} 임상적으로 특별한 증상이 없는 경우가 많다. 초음파에서 자궁근종이나 선근종으로 진단되는 경우가 많고,⁶ 수술을 시행한 후 조직학적 검사에서 우연히 진단되는 경우가 대부분이다. 악성화하지 않는 것으로 알려져 있

접 수 일 : 2010. 3. 19.
채 택 일 : 2010. 6. 11.
교신저자 : 조연진
E-mail : jeanjane@naver.com

으며,^{5,7} 보통은 보존적 수술이나 자궁절제술로 치료한다. 자궁의 샘모양 종양은 국내에서 1965년 3예 및 1977년 1예,⁸ 1993년 1예,⁹ 2004년 1예,¹⁰ 2009년 1예를 보고하였으나,⁷ 정확한 빈도 및 양상에 대한 보고는 부족한 실정이다. 이에 본 연구는 1995년 1월부터 2009년 4월까지 제일병원 산부인과에서 자궁절제술 및 근중 제거수술 중 진단된 샘모양 종양의 빈도, 임상적 특징, 치료 및 경과를 알아보고자 하며, 더불어 가임기 여성에서 진단되어 보존적 수술을 하였을 때 향후 임신력이나 재발률에 대해서 알아보고자 하였다.

연구 대상 및 방법

본 연구는 1995년 1월부터 2009년 4월까지 본원에서 임상적으로 자궁근종 또는 선근종의 진단하에 개복하 또는 복강경하 자궁절제술 및 보존적 수술을 시행한 예 중 조직학적으로 샘모양 종양을 진단받은 195명의 환자에 대하여 후향적 연구를 진행하였다. 환자의 수술 시 나이, 증상, 과거력, 초음파 및 영상학적 진단명, 조직학 결과 및 동반 병변, 샘모양 종양 발생 부위를 살펴보았으며, 가임기 여성에서 보존적인 수술을 하였을 때 향후 임신 성공 여부 및 병변 재발 여부를 분석하였으며, 샘모양 종양 진단을 위하여 calretinin을 면역 조직 화학 염색을 시행하였다. 통계는 SPSS ver. 12.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA) 통계패키지를 이용하여 Student's *t*-test 및 chi-square test를 사용하였고, 유의 수준이 0.05인 경우를 통계적으로 의의가 있는 것으로 하였다.

결 과

본원에서 연구기간 동안 시행한 자궁절제술 및 보존적 수술을 받은 환자는 44,984명이었으며, 그 중 조직학적 결과 샘모양 종양이 진단된 경우는 195명으로, 샘모양 종양이 진단된 빈도는 0.42%였다. 195명 중 자궁절제술은 149명, 보존적 수술은 46명이었으며 전체 추적관찰 기간은 79.9 (range: 1~416)개월이었다. 환자의 평균 나이, 임신력, 출산력과 수술 당시 주 증상을 자궁절제술을 시행받은 환자와 보존적인 수술을 시행받은 환자를 나눠서 살펴볼 때 Table 1과 같다. 보존적인 수술은 수술 시 종양만을 제

거하는 것으로 향후 임신을 원하는 환자에서 이뤄졌기 때문에 나이, 임신력 및 출산력은 의미 있게 낮았다. 전체 환자군을 대상으로 하였을 때 수술 당시 주증상은 통증 (25.1%, n=49), 생리양 과다 (17.4%, n=34), 부정 출혈 (12.8%, n=25), 압박증상 및 크기 증가(18.5%, n=36)가 있었으며 그 외에 불임 증상과 관련하여 수술한 경우 (7.7%, n=15) 및 미세 침윤자궁경부암이 동반된 예들이 있었다 (Table 2). 조직소견에서 종양은 크고 작은 낭성 병변으로 구성되어 있었다 (Fig. 1). 종양 세포는 입방형 혹은 납작한 세포로 되어있고, 핵의 비정형성이나 세포 분열은 관찰 되지 않았다. 면역조직화학 검사에서 종양세포는 중피세포 표지자인 calretinin에 양성을 보였다 (Fig. 2). 수술 전 이학적 소견 및 영상진단을 통한 수술 전 진단으로는 자궁근종의 경우가 133명 (68.2%)으로 가장 많았으며, 그 외에 자궁선근증 27명 (13.8%), 난소 낭종 8명 (4.1%), 자궁경부 병변 12명 (6.2%) 등이 있었다. 수술 후 조직검사에서 샘모양 종양 단독으로 있는 경우는 42명 (21.5%)이었으며 153명 (78.5%)에서 다른 병변이 동반되어 있었는데, 빈도별로 보면, 자궁근종 89명 (46.6%), 자궁선근증 48명 (25.1%), 자궁내막증 25명 (13.1%), 난소 낭종 11명

Table 1. Characteristics of patients according to operation methods

	Hysterectomy (n=149)	Conservative treatment (n=46)	Total (n=195)	P
Age (yr)	44.7±5.9	32.5±6.7	41.8±8.0	<0.001
Gravidity (n)	3.8±1.8	1.2±1.8	3.2±2.1	<0.001
Parity (n)	2.0±1.0	0.3±0.7	1.6±1.1	<0.001

Table 2. Indication for operation according to operation methods

Indication for operation	Hysterectomy No. (%)	Conservative treatment No. (%)	Total No. (%)
Pain	39 (26.1)	10 (21.7)	49 (25.1)
Menorrhagia	29 (19.5)	5 (10.9)	34 (17.4)
Bleeding	25 (16.8)	0	25 (12.8)
Infertility	0	15 (32.6)	15 (7.7)
Size increase	23 (15.4)	9 (19.6)	32 (16.4)
Pressure symptom	4 (2.7)	0	4 (2.1)
Incidentally	19 (12.8)	5 (10.9)	24 (12.3)
Others	10 (6.7)	2 (4.3)	12 (6.2)

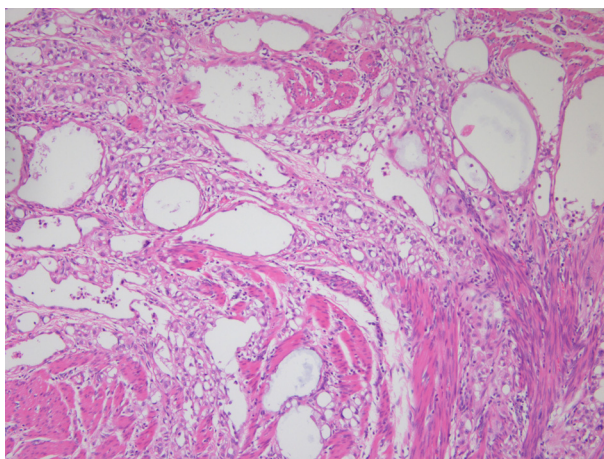


Fig. 1. Solid cords or variable sized cystic spaces lined by flat to cuboidal tumor cells (H&E stain, ×100).

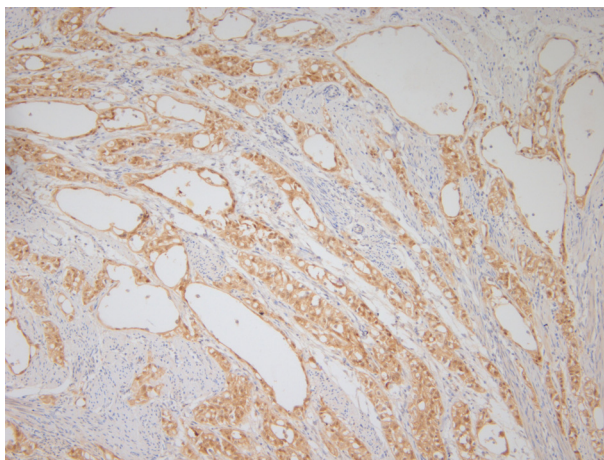


Fig. 2. Immunohistochemical stain for calretinin showing diffuse strong positivity in tumor cells (×100).

(5.8%) 순이었으며 드물게 자궁경부암 (5.2%), 자궁내막증식증 (1.6%), 난소암 (1.0%), 난관수종 (1.6%)과 동반되었다 (Table 3). 샘모양 종양이 발견된 곳으로는 192명 (98.5%)에서 자궁이었으며, 난소인 경우는 1명 (0.5%), 나팔관인 경우가 2명 (1.0%)으로 이들은 자궁절제술 및 양측 자궁 부속기 제거 수술을 하였던 경우에서 발견된 것으로 나팔관 병변은 그 크기가 약 1~3 cm로 작은 경우였으나, 난소의 샘모양 종양을 보였던 예는 58세 폐경 여성으로 수술 전 초음파상에서 우측난소에 7.8 cm의 격막이 있는 낭종 소견이 보였으며 수술 당시에는 우측 난소의 염전 소견이 보였던 예이다.

향후 임신을 원하거나 미혼 상태에서 보존적 수술을 받

Table 3. Coexisting pathologies with adenomatoid tumor

Pathology	No. (%)
Adenomatoid tumor only	42 (21.5)
Adenomatoid tumor associated with other pathologies	153 (78.5)
Leiomyoma	89 (46.6)
Adenomyosis	48 (25.1)
Ovarian cyst	11 (5.8)
Endometriosis	25 (13.1)
Cervix cancer, carcimona in situ	10 (5.2)
Endometrial hyperplasia	3 (1.6)
Ovarian cancer	2 (1.0)
Hydrosalpinx	3 (1.6)

All of the associated pathologies were recorded together.

은 46명 환자 중 추적관찰 기간 중 임신에 성공한 경우는 13명으로 (28.2%), 이는 자연임신 및 보조 생식술을 받은 경우 모두를 포함하고 평균 임신 기간은 38.3주였으며 분만방법으로 제왕절개술을 받은 경우 10명, 자연분만한 경우 3명으로 임신 중이나 분만 중에 자궁파열 등의 심각한 합병증을 동반한 예는 없었다 (Table 4). 이 환자들에서 추적관찰 기간 동안 샘모양 종양으로 재발했던 경우는 없었다.

고 찰

1945년 Golden과 Ash²에 의해 명명된 샘모양 종양은, 중피에서 기원하는 양성 종양이며, 이전에는 림프관종, 선근종, 세망내피종등 다양하게 불리웠다. 종양의 기원에 관해서는 혈관종 모양의 종양, 선섬유종, 중피종 등 과거에 많은 혼동이 있었지만, 전자현미경 검사와 면역 조직 화학 염색으로 중피 세포 기원임이 밝혀졌다. 면역 조직 화학 염색에서 중피 세포 표지자인 calretinin에 대해 미만성으로 양성 반응을 보이는 것이 이 종양을 확진하는 데 도움이 된다.¹¹

샘모양 종양으로 진단된 환자들의 수술 적응증으로 복통 호소 (25.1%), 부정 출혈 및 생리양 증가가 있었던 경우 (30.2%)와 같은 증상을 호소하는 경우가 많았지만, 자궁근종 등 다른 병리학적 문제를 동반하고 있던 경우가 78.5%나 되므로 이러한 동반 질환으로 인한 증상이었을 가능성이 높고, 샘모양 종양만의 특이적인 증상으로 생각되는 것은 없었다. 샘모양 종양의 정확한 발생빈도를 알기 어려운 이유도 수술 전 초음파 등 영상진단에서 자궁근종 등 다른

Table 4. Pregnancy outcome after conservative management of adenomatoid tumor

No.	Age at op.	G	P	Age at pregnancy	Pregnancy method	Delivery mode	Op. method	Complication during pregnancy
1	27	0	0	29	IVF	C/S	Laparotomy	None
2	24	0	0	31	Natural	C/S	Laparotomy	Placenta totalis
3	27	2	1	29	IVF	C/S	Laparoscopy	None
4	32	0	0	33	Natural	NSVD	Laparoscopy	None
5	27	2	2	31	Natural	NSVD	Laparotomy	None
6	37	0	0	39	IVF	C/S	Laparoscopy	Twin pregnancy, IIOC
7	36	1	0	37	Natural	C/S	Laparotomy	None
8	30	2	0	31	IVF	C/S	Laparoscopy	None
9	41	2	0	43	IVF	C/S	Laparoscopy	None
10	32	0	0	33	Natural	C/S	Laparoscopy	None
11	26	0	0	27	OI	C/S	Laparotomy	None
12	23	1	0	24	Natural	NSVD	Laparoscopy	Twin pregnancy
13	33	0	0	34	Natural	C/S	Laparoscopy	None

Op.: operation, OI: ovulation induction, IVF: in vitro fertilization, IIOC: incompetent internal os of cervix, C/S: cesarean section, NSVD: normal spontaneous vaginal delivery.

진단을 받았다가 수술 후 조직학적 검사에서 우연히 진단되는 경우가 대부분이기 때문이다. 샘모양 종양은 수술 전 진찰 및 초음파, 전산화단층촬영, 자기공명영상 등의 진단 기구로 감별하는 것은 어려운 것으로 알려져 있다. 확진은 수술 후 조직 검사상에서 현미경 소견과 중피 표지자를 이용한 면역화학 염색에 의해 내려진다.⁶ 본 연구에서도 샘모양 종양을 진단받은 195명 중 133명의 수술 전 영상진단이 자궁근종이었다.

샘모양 종양은 육안적으로는 회백색의 매끈한 절단면을 보이며 자궁근종과 달리 주변의 근육층과 경계가 잘 구분되지 않는다.^{3,6,12,13} 주로 단독으로 존재하나, 다발성인 경우도 있고, 크기는 0.5 cm부터 5 cm까지 다양하다. 남성 종양의 경우 그 최대 직경이 10 cm에 이르는 것도 보고되었다.⁶ 또한 이 경우 육안적 소견이 림프관종 (lymphangioma)과 유사하므로 감별해야 하며, 필요하다면 냉동절편검사를 시행해야 한다.¹² 대부분 수술 중의 특징으로는 경계가 불분명하며 근종과는 달리 자궁의 정상 조직에서 잘 제거 되지 않는 점이 있다.

조직학적으로 낭형, 아테노이드형, 유혈관종형, 고형 등의 아형으로 구분되는데,¹⁴ 어느 형태가 주요한지는 종양의 크기 등과는 관계없는 것으로 알려져 있다.⁷ Sangoi 등¹¹은 샘모양 종양의 조직학적 검사에서 보이는 림프구 침윤 (lymphoid aggregation) 같은 만성 염증 소견이 남성 생식기의 샘모양 종양의 경우 100%에서 발견되지만, 여성

생식기의 샘모양 종양의 경우에는 13%로 드물다고 보고하면서 성별에 따른 중피조직 표지자 비교를 시도하였다.

여성 생식기에서 샘모양 종양의 호발 연령은 26세에서 55세이고 평균 연령은 41세이다.¹⁵ 자궁절제술로 치료하는 것이 원칙이지만, 젊은 여성들의 경우, 특히 최근 우리나라 여성의 임신 연령이 점차 고령화되어 감을 고려한다면 자궁의 보존적 수술을 시도할 수 있다.¹⁶ 샘모양 종양은 양성 종양으로 재발된 예가 보고되지 않았고 악성 변성 또한 없는 것으로 알려져 있다.^{5,17} 본 연구결과 평균 79.9개월의 추적 관찰 기간 동안, 195명 중 단 한 예도 재발하지 않았다. 다만 샘모양 종양의 단순절제술을 받았다가 자궁근종이 발생하여 재수술을 받는 경우 다섯 예에서 있었으며, 다른 부인과적 양성질환으로 재수술 할 수 있음에 대한 충분한 설명이 이루어져야 할 것으로 생각된다. 자궁의 샘모양 종양은 무려 56~80%의 경우에서 자궁근종과 함께 발생하며,^{4,5,12} 본 연구에서도 자궁근종이 동반되는 경우 46.6%, 자궁선근증이 동반되는 경우 25.1% 등 다양한 질환과 동반됨을 알 수 있다.

Irikoma 등¹⁸은 샘모양 종양에 보존적 수술을 시행하여 임신을 성공한 한 경우를 소개하였으며, 본 연구에서도, 보존적 수술을 하였던 46명중 13명 (28.2%)에 해당하는 환자들이 임신 및 분만에 성공하였다. 비슷하게 자궁근종의 경우에도 자궁근종의 위치나 크기에 따라 임신율에 차이가 있듯이 샘모양 종양을 임신율과 관련 지어 설명하기

위해선 보다 세분하게 구별하여 분석할 필요가 있을 것으로 생각된다. 또한 그 외에도 임신 성공에는 환자의 나이 등 여러 가지 변수들이 있기 때문에 단순히 임신에 성공한 13명의 결과만으로 샘모양 종양과 임신율의 관계를 설명하기에는 많은 한계가 있지만 젊은 여성에게서 샘모양 종양을 치료할 때 임신능력을 보존하기 위한 방법으로 보존적 수술을 추천할 수 있는 근거가 될 수 있다.

본 연구는 임상적으로 드문 샘모양 종양을 진단받은 195예를 후향적으로 분석하여 샘모양 종양의 빈도 및 재발, 임신의 결과를 보여준 것에 의의가 있다고 본다. 기존의 중례 보고만으로는 샘모양 종양의 정확한 임상양상이나 동반 병변의 종류 및 빈도를 알기는 어려운 실정이었으며,

수술 후 샘모양 종양으로 진단 된 것이 어떠한 의미를 가지는 지에 대한 근거는 부족하였다. 샘모양 종양은 자궁에 생기는 양성 종양의 하나로서 수술 전에 샘모양 종양을 진단하는 것은 매우 어렵기도 하지만, 종양의 유무를 진단하는 것 자체가 임상적으로 큰 의미가 있는 것은 아니라고 생각되나, 수술 전 자궁 근종 및 다른 양성 질환으로 진단했다가 수술 후 샘모양 종양으로 확진 받은 가임기 여성에서 향후 재발 및 임신과 관련된 상담을 하는데 있어서 본 연구 결과가 도움이 될 것으로 생각한다. 향후 샘모양 종양의 크기 및 위치뿐만 아니라 자궁근종 등 흔한 질환들과 차이점 등에 관한 연구가 더 이루어져야 할 것으로 생각된다.

참고문헌

1. Hanada S, Okumura Y, Kaida K. Multicentric adenomatoid tumors involving uterus, ovary, and appendix. *J Obstet Gynaecol Res* 2003; 29: 234-8.
2. Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. *Am J Pathol* 1945; 21: 63-79.
3. Di Stefano D, Faticanti Scucchi L, Covello R, Martinazzoli A, Meli C, Bosman C. Uterine diffuse adenomatoid tumor. Does it represent a different biological entity? *Gynecol Obstet Invest* 1998; 46: 68-72.
4. Tiltman AJ. Adenomatoid tumours of the uterus. *Histopathology* 1980; 4: 437-43.
5. Christensen C, Bichel P. Adenomatoid tumour of uterus. Case report. *Br J Obstet Gynaecol* 1988; 95: 524-6.
6. Kalidindi M, Odejinmi F. Laparoscopic excision of uterine adenomatoid tumour: two cases and literature review. *Arch Gynecol Obstet* 2010; 281: 311-5.
7. An SH, Cha SH, Kim MK, Kim JY, Choi GY, Lee JJ, et al. One case of adenomatoid tumor of uterus. *Korean J Obstet Gynecol* 2009; 52: 581-6.
8. Lee IK, Kim YD, Park YS, Park YH. Two cases of adenomatoid tumor. *Korean J Obstet Gynecol* 1977; 20: 859-62.
9. Choi YH, Chae SW, Ahn HK, Lee MC, Park YE. Giant cystic adenomatoid tumor of the uterus: a case report. *Korean J Pathol* 1993; 27: 85-7.
10. Kim MJ, Gu MJ. Giant cystic adenomatoid tumor of the uterus: a case report. *Korean J Pathol* 2004; 38: 415-8.
11. Sangoi AR, McKenney JK, Schwartz EJ, Rouse RV, Longacre TA. Adenomatoid tumors of the female and male genital tracts: a clinicopathological and immunohistochemical study of 44 cases. *Mod Pathol* 2009; 22: 1228-35.
12. Nogales FF, Isaac MA, Hardisson D, Bosincu L, Palacios J, Ordi J, et al. Adenomatoid tumors of the uterus: an analysis of 60 cases. *Int J Gynecol Pathol* 2002; 21: 34-40.
13. Schwartz EJ, Longacre TA. Adenomatoid tumors of the female and male genital tracts express WT1. *Int J Gynecol Pathol* 2004; 23: 123-8.
14. Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumors of the uterus. *Am J Clin Pathol* 1981; 76: 627-35.
15. Huang CC, Chang DY, Chen CK, Chou YY, Huang SC. Adenomatoid tumor of the female genital tract. *Int J Gynaecol Obstet* 1995; 50: 275-80.
16. Sieunarine K, Cowie AS, Bartlett JD, Lindsay I, Smith JR. A novel approach in the management of a recurrent adenomatoid tumor of the uterus utilizing a Strassman technique. *Int J Gynecol Cancer* 2005; 15: 671-5.
17. Fisher ER, Klieger H. Epididymal carcinoma (malignant adenomatoid tumor, mesonephric, mesodermal carcinoma of epididymis). *J Urol* 1966; 95: 568-72.
18. Irikoma M, Takahashi K, Kurioka H, Miyazaki K, Kamei T. Uterine adenomatoid tumors confirmed by immunohistochemical staining. *Arch Gynecol Obstet* 2001; 265: 151-4.

= 국문초록 =

목적: 자궁절제술 또는 보존적 수술로 치료한 샘모양 종양 (adenomatoid tumor)의 임상적 특징 및 향후 임신력에 대해 알아보고자 하였다.

연구 방법: 1995년 1월부터 2009년 4월까지 본원 산부인과에서 양성 자궁 질환으로 자궁절제술 및 보존적 수술을 받은 44,984명 중, 조직학적으로 샘모양 종양을 진단받은 195명을 대상으로 하였다. 수술 후 의무기록을 이용하여 후향적 분석을 통해 샘모양종양의 발생부위, 동반 병변 등을 살펴보고, 보존적 수술을 받은 가임기 여성의 경우 향후 임신 성공 여부 및 재발 여부를 분석하였다.

결과: 양성 자궁질환 중 자궁 샘모양 종양을 진단받은 195명으로 빈도는 0.42%이다. 환자들의 주 증상은 통증 (25.1%), 출혈 (30.2%), 복부에서 촉진되는 종괴였으며, 동반되는 부인과 질환으로는 자궁 근종 (46.6%), 자궁선근증 (25.1%) 및 자궁내막증 (13.1%)이 가장 많았다. 보존적 수술을 시행받은 환자는 46명이었으며, 그 중 13명이 임신에 성공하고 분만하였으며, 샘모양 종양이 재발한 경우는 없었다.

결론: 샘모양 종양은 자궁근종과 주로 동반하며, 임상양상도 비슷하기 때문에 수술 전 진단이 어려운 질환이나, 재발은 거의 없으며, 가임기 여성의 경우 임신 능력을 보존하기 위하여 보존적 수술을 시행할 수 있다. 이러한 결과는 향후 환자의 상담에 도움이 될 것이다.

중심단어: 샘모양종양, 여성생식기, 중피종
