

난소의 원발성 평활근종 1예

연세대학교 원주의과대학 산부인과학교실¹, 병리학교실²
김형원¹ · 한혁동¹ · 권민수¹ · 박은영¹ · 박광화² · 정요셉²

난소의 평활근종은 양성 난소 종양의 1% 정도를 차지하는 드문 종양이다. 대개 증상이 없으며 복강 내 수술 중 우연히 발견되는 경우가 많다. 현미경학적으로 주로 작은 크기의 핵을 가진 균일한 모양의 평활근 세포가 다발을 이루거나 회오리모양으로 자라는 소견을 보이는데, 섬유종/난포막종 혹은 extragastrointestinal stromal tumor 등 난소에 생길 수 있는 다른 평활근 기원의 종양들과의 감별이 필요하다. Desmin이나 smooth muscle actin (SMA), α -inhibin, c-kit 등에 대한 면역조직화학염색을 이용하여 이러한 종양을 감별하는 데 도움을 얻을 수 있다. 최근 저자들은 본원에서 경험한 43세 여자 환자의 원발성 난소 평활근종 1예를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어 : 난소, 평활근종

서 론

난소에 발생하는 평활근종은 난소의 간엽성(mesenchymal) 종양 중 약 1%를 차지하며 1862년 Sangalli에 의해 처음 보고된 이후 전 세계적으로 약 60예 정도만 보고된 매우 드문 질환이다.¹ 이들은 대부분 무증상인 경우가 많으며 다른 질환에 의한 복강 내 수술 과정 중 우연히 발견되는 경우가 많다. 저자들은 하복부 통증을 주소로 내원한 43세 여자 환자에서 자궁근종 및 좌측 난소 종괴 진단 하에 개복술을 시행하여 전자궁 절제술 및 양측 난소 난관 절제술을 시행 후 조직 검사상 좌측 난소 평활근종이 진단된 예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자 : 김○○, 43세

가족력 : 특이 사항 없음.

논문접수일 : 2007년 6월 30일 채택일 : 2007년 8월 16일
교신저자 : 한혁동, 220-701 강원도 원주시 일산동 162

연세대학교 원주의과대학 원주기독교병원 산부인과학교실
전화 : 033) 741-1272·전송 : 033) 745-5157
E-mail : dong1234@yonsei.ac.kr

산과력 : 2-0-5-2의 환자로, 23, 24세에 제왕절개 분만 하였으며 5회 임신 중절을 시행하였음.

월경력 : 초경은 12세이었으며, 28일 주기로 규칙적이며 기간은 5일, 양은 보통이었으며 월경통은 없음.

과거력 : 특이 사항 없음.

현병력 : 3-4개월 전부터 하복부와 허리의 통증을 주소로 개인 병원에서 자궁근종 및 좌측 난소 종괴 진단 후 수술을 위해 본원 산부인과로 내원함.

진찰소견 : 신체검사에서 이상소견은 관찰되지 않았고, 내진 결과 자궁은 전굴 상태로 정상크기보다 약간 크며 단단하였다. 좌측 난소는 타구공 크기로 만져졌으며 우측 난소 난관에는 특이 소견 없었다.

검사소견 : 혈액 검사 결과 백혈구 수 4,880/ μ l, 혈색소 12.2 g/dl, 혈소판 수 321,000/ μ l이었으며, 간 및 신장 기능 검사는 정상이었다. 종양 표지자 수치는 CEA는 < 2 ng/ml, CA 125는 8.3 U/mL로 정상이었으며, 자궁경부 세포 검사는 염증을 동반한 반응성 세포변화(Reactive cellular changes associated with inflammation)이었다.

질식 초음파 결과 자궁에 4-5개 정도의 근육층 내 (intramural type) 근종이 관찰되었으며 좌측 난소는 약 5.2×3.4 cm 크기의 고형의 종괴 양상으로 관찰되었다 (Fig. 1).

컴퓨터 단층 촬영(CT)에서는 여러 개의 자궁 근종 소견이 보였고 좌측 난소에는 약 $6\times4\text{ cm}$ 크기의 low density lesion을 포함한 고형성 종괴 소견으로 보였으며, CT 상 추정 진단은 섬유종(fibroma) 이었다(Fig. 2).

수술소견 : 2006년 12월 4일 전자궁 절제술 및 양측 난소 난관 절제술을 시행하였다. 수술 소견상 자궁체부는 약간 커져있는 정도이었으며 자궁에 2 cm 미만의 작은 근육층 내 근종이 자궁체부의 전벽 및 후벽에서 여러 개 관찰되었다. 좌측 난소는 약 $7\times5\text{ cm}$ 정도로 커져 보였으며 단단하게 만져졌고 우측 난소에 특이 소견은 없어 보였다.

육안 소견 및 병리학적 소견 : 자궁의 크기는 $9\times4\times4\text{ cm}$, 무게는 150 gm이었다. 표면은 부드럽고 매끈하였으며, 자궁경부에 특별한 이상소견은 관찰되지 않았다. 자궁의 전벽을 따라 열었을 때, 자궁내막은 길이가 5 cm이

었고 육안적 이상소견은 관찰되지 않았다. 자궁전벽 근층에 직경 2 cm, 후벽에 직경 1-2 cm 크기의 여러 개의 근종이 발견되었다. 우측 난소의 크기는 $3\times2\times1\text{ cm}$ 이며, $0.7\times0.5\times0.5\text{ cm}$ 의 짙은 갈색의 출혈성 낭종이 관찰되었고, 조직검사상 출혈성 난소 낭종으로 밝혀졌다. 좌측 난소는 표면이 비교적 매끈하였고, 크기는 종괴를 포함하여 $7.5\times5\times4\text{ cm}$ 이었으며, 종괴는 회백색의 다발 결절성 섬유성 종괴로 비교적 경계가 분명하였고 얇은 피막으로 둘러싸여 있었다. 단면은 단단하였고 섬유성 다발이 소용돌이 모양으로 자라는 양식을 관찰할 수 있었으며 한쪽 부분으로 난소의 실질이 일부 유지되는 소견을 관찰할 수 있었다(Fig. 3).

현미경 소견상, 전반적으로 낮은 세포밀도를 가진 종괴로, 작은 난원형 또는 방추형의 핵과 호산성의 풍부한 세포질은 가지며 세포 사이 경계가 잘 구분되지 않는 평활근 세포로 이루어져 있었고, 미만성의 간질 섬유화가 동반되어 있으면서 일부에서는 유리막성, 점액성 변성

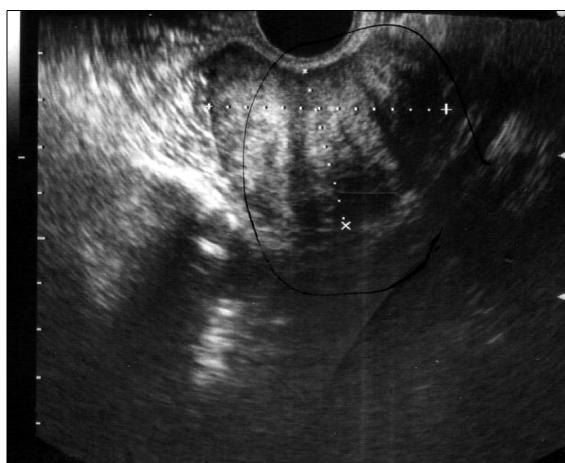


Fig. 1. Transvaginal ultrasonography shows the $5.2\times3.4\text{ cm}$ sized left ovarian solid mass.



Fig. 2. Computer tomography shows the $6\times4\text{ cm}$ sized left ovarian multi-nodular solid mass with low density lesion.

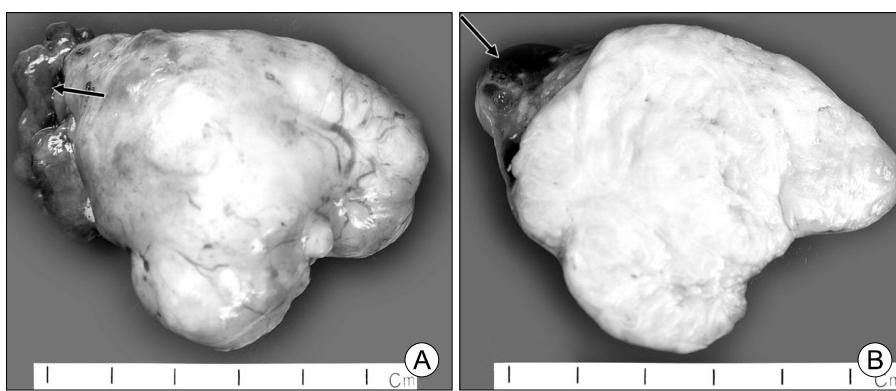


Fig. 3. Left ovarian mass ($7.5\times5\times4\text{ cm}$) with attached fallopian tube (arrow) (A). It is a multinodular solid bulging mass with smooth and glistening external surface. The ovarian capsule is intact. The cut surface shows a gray white fibrotic solid mass with whirled pattern of smooth muscle bundle and attached remaining ovarian normal parenchyma (arrow) (B).

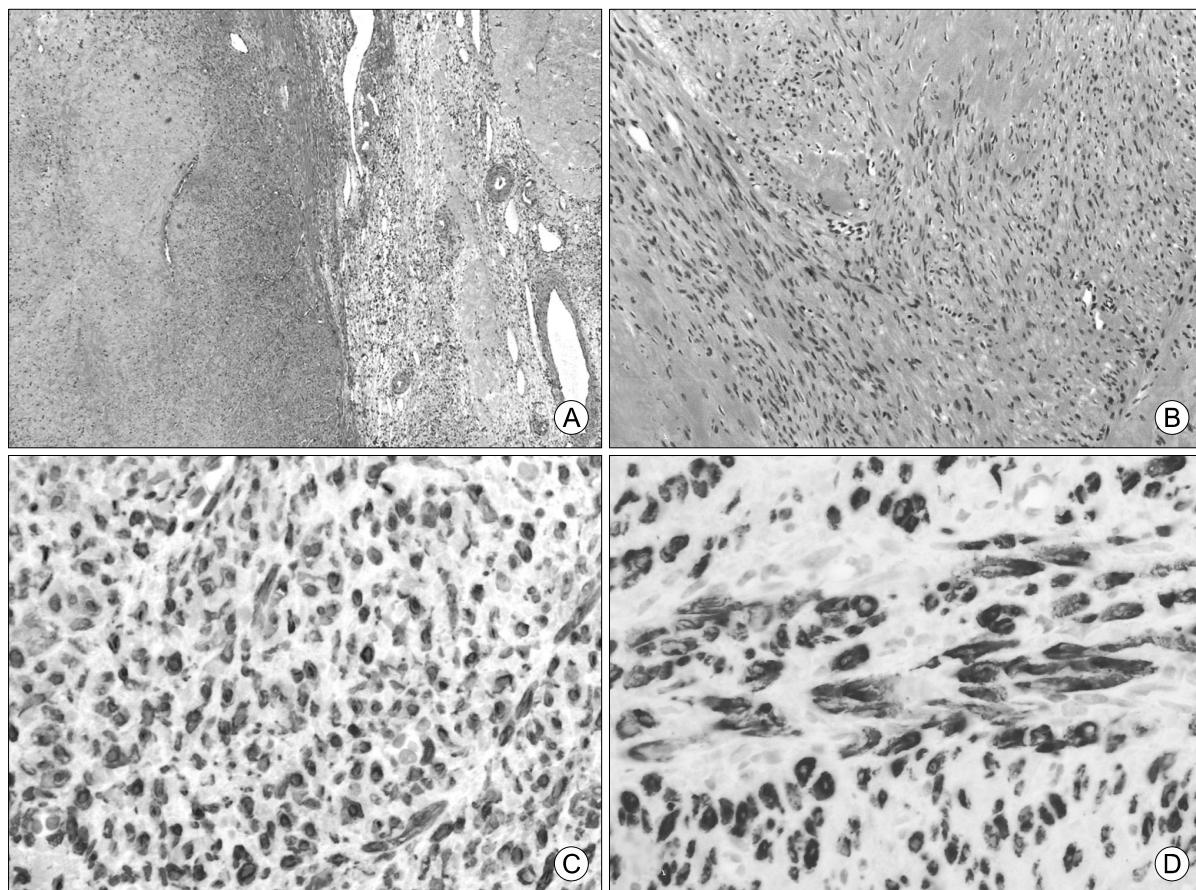


Fig. 4. Microscopic findings; (A) On low power field, a well-demarcated spindle cell tumor is identified (left). There are a few corpus albicans with normal-appearing ovarian stroma and vessels (right). (B) The tumor cells are uniformly small spindle cells with "cigar-shaped" nuclei and eosinophilic cytoplasms, which are showing whirled and storiform growth pattern. The immunohistochemical stains reveal strong cytoplasmic staining for smooth muscle actin (C) and desmin (D).

이 동반되어 있었다. 종양세포들은 주로 다발을 이루면서 회오리 또는 소용돌이 모양으로 자라는 성장양식을 보이고 있었다.

섬유종/난포막종, extra-gastrointestinal stromal tumor 등 난소에서 생길 수 있는 다른 평활근 기원의 종양을 감별하기 위하여 smooth muscle actin (SMA), desmin, inhibin 및 c-kit에 대한 면역조직화학염색을 시행하였고, 종양세포는 smooth muscle actin과 desmin에 대한 염색에 양성, inhibin과 c-kit에 대한 염색에 음성을 나타내었다. Hematoxilin & eosin 염색 소견과 면역조직화학염색 소견을 종합하여 난소에 생긴 원발성 평활근종으로 진단하였다(Fig. 4).

수술 후 경과 : 양측 난소 및 난관절제 후 5일부터 갑자기 가슴이 두근거리고 얼굴이 화끈 거리는 안면홍조

증상을 보여 호르몬 대체요법을 위해 유방조영술(mammography) 실시하여 특이 소견 관찰되지 않아 Climen[®] 처방하였으며 특별한 문제 없이 7일 만에 퇴원하였다.

고 찰

난소의 평활근종은 매우 드문 질환으로 보통 직경은 3-4 cm 이하로 작고 무증상이며 우연히 발견되는 경우가 많다. 염전(torsion) 또는 괴사에 의한 급성 통증을 나타내는 경우는 드물다고 알려졌으나² 본 증례의 경우 염전이나 괴사의 소견 없이도 급성 복부 통증의 소견을 보였다. 극히 드물게 복수(ascites), 다발성근염(polymyositis), 수흉증(hydrothorax) 또는 수신증(hydronephrosis)을 보이

는 경우도 보고되었으며 testosterone 증가에 따른 남성화의 발생이 보고되기도 하였다.³

주로 가임기 여성에 많이 발생하나 폐경기 이후의 환자도 약 1/6을 차지한다고 알려져 있으며 드물게는 임산부에게서 발생한 경우도 있었다.⁴

초음파상 육경성 근종(pedunculate myoma)과 비슷한 에코성의 고형성의 복강 내 종괴로 관찰된다.⁵ 고형성 종괴로 관찰되므로 다른 악성 종양과의 감별이 중요한데 이때 MRI (magnetic resonance imaging)의 T2 weighted image를 이용해 불규칙한 high-signal intensity를 포함한 종괴를 확인하면 감별에 유용하다.⁶

조직학적 소견으로는 자궁의 평활근종과 기본적으로 일치하며, 유사분열과 핵의 이형성은 거의 관찰되지 않는다. 그 외 이차적 변성으로 인한 출혈, 석회화의 소견이 있을 수 있으며 종양주의 난소 기질에 많은 혈관이 관찰된다.⁷

난소 근종의 발생과정은 정확하게 밝혀진 바는 없으나 다음과 같은 몇 가지 가설이 있다. 난소 인대내의 평활근 섬유에서 유래한다는 가설과,⁸ 난소 문(hilus)의 혈관 근육층 혹은 난소 피질(cortex)의 근육층에서 발생한다는 가설,² 미분화된 난소의 기질(stroma) 내의 생식세포(germ cell)들이 평활근으로 분화된다는 가설 등이 있다.⁹ 또한 난소 기질의 평활근에서 유래한다는 가설도 있으며 Lastarria 등은 정상 난소의 기질에서 면역조직학적 방법으로 desmin 양성을 증명하여 이 가설의 가능성을 주장하기도 하였다.¹⁰ 이 밖에도 Scully는 자궁내막종이 주위의 난소기질을 평활근으로 화생(metaplasia)을 유발(trigger)할 수 있다고 하였다.¹¹ 그러나 이 가설은 자궁근종 내에 자궁내막종이 발견된 보고가 없었고 자궁근종의 대부분은 자궁내막증과 관련이 적기 때문에 이 가설의 가능성은 떨어져 보인다.¹²

원발성 난소근종은 병변의 평활근 성분의 확인이 반드시 필요하며 이차적으로 난소 표면에 나타나는 전이성 복막성 평활근종증(leiomyomatosis peritonealis disseminata)과 광인대에서 발생하는 근종, 또는 자궁에서 발생하는 육경성 근종(pedunculated myoma)과는 반드시 구별되어야 한다.¹³

조직학적으로 난소의 평활근종은 이보다 더 흔한 섬유종/난포막종(fibroma/thecoma) 등의 난소간질종양과의 감별이 어려울 수 있는데, 섬유종의 경우는 다발성의 성

장양식이 적고, 배경에 더 많은 아교질 성분이 있으면서 세포의 핵이 좀 더 파동형이며 끝이 뾰족한 특징을 보인다. 그에 비하여 평활근종은 다량의 호산성의 세포질을 가진 세포로 이루어져 있는데, 난원형 또는 월련모양의 핵이 특징적이다. 그러나 hematoxylin & eosin 염색소견만으로 감별이 쉽지 않은 경우가 많은데 이때에는 면역 조직화학염색의 도움을 얻을 수 있다.

섬유종과의 감별에서 가장 도움이 될 수 있는 것은 desmin으로 근종에서는 미만성의 양성소견을 보이지만, 섬유종에서는 음성이거나 드물게 국소적으로 양성을 보인다. SMA의 경우 평활근종에서 발현되므로 감별에 유용하다는 보고도 있었으나¹⁴ 근종과 섬유성 종양 모두에서 양성을 보일 수 있기 때문에 감별진단에는 유용하지 못할 것으로 보인다. 그 외에도 α -inhibin을 이용할 수 있는데, 이 표지자는 난소간질종양에서만 발현되므로 음성이라면 난소간질종양을 배제할 수 있다.¹⁵ 본 예는 현미경적 소견만을 본다면 섬유종의 가능성도 배제하기 어려우나 면역조직화학염색 결과를 통하여 두 가지를 감별할 수 있었던 중례이다.

또한 평활근육종(leiomyosarcoma)과도 구별되어야 하는데 이때는 자궁 근종의 평활근육종처럼 세포핵의 이형성과 다형성(active nuclear pleomorphism)이 심하고 유사분열과 괴사가 동반되며 침윤성 성장을 하는 것으로 쉽게 구분할 수 있다.¹²

치료는 자궁근종이 있을 때와 마찬가지로 수술로 제거하는 것이 원칙이다.

최근 저자들은 본원에 내원한 43세 여자 환자에게서 자궁근종 및 좌측 난소 종괴 의증 진단 하에 전자궁 절제술 및 양측 난소 난관 절제술을 시행한 후 조직학적 검사로 확진한 난소의 원발성 평활근종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

- Doss BJ, Wanek SM, Jacques SM, Qureshi F, Ramirez NC, Lawrence WD. Ovarian leiomyomas. Clinico-pathologic features in fifteen cases. Int J Gynecol Pathol 1999; 18: 63-8.
- Fallahzadeh H, Dockerty MB, Lee RA. Leiomyoma of the ovary: Report of the five case and review of literature. Am J Obstet Gynecol 1972; 113: 394.
- Stanhope CR, Van Winter JT. Giant ovarian leiomyoma

- associated with ascites and polymyositis. *Obstet Gynecol* 1992; 80: 560-3.
4. Kohno A, Yoshikawa W, Yunoki M, Yanagida T, Fukunaga S. MR finding in degenerated ovarian leiomyoma. *Br J Radiol* 1999; 72: 1213-5.
 5. San Marco L, Londero F, Stefanutti V, Costa L, Rocco M. Ovarian leiomyoma: Case report. *Clin Exp Obstet Gyn* 1991; 18: 145-8.
 6. Kobayashi Y, Murakami R, Sugizaki K, Yamamoto K, Sasaki S, Tajima N, et al. Primary leiomyoma of the ovary: A case report. *Eur Radiol* 1998; 8: 1444-6.
 7. Park CW, Jung CW, Lee SM, Kang YM, Han JH, Cho TI, et al. Two cases of ovarian leiomyoma. *Korean J Obstet Gynecol* 2000; 43: 910-3.
 8. Choudhuri PK, Mukherj AK. Leiomyoma of the ovary. *Am J Obstet Gynecol* 1972; 113: 1142-4.
 9. Vierhout ME, Pijpers L, Tham MN, Dhadha-Ajwanis S. Leiomyoma of the ovary. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1990; 69: 445-7.
 10. Lastarria D, Sachdev RK, Babury RA, Yu HM, Nuovo GJ. Immunohistochemical analysis for desmin in normal and neoplastic ovarian stromal tissue. *Arch Pathol Lab Med* 1990; 114: 502-5.
 11. Scully RE. Smooth muscle differentiation in genital tract disorders. *Arch Pathol Lab Med* 1981; 105: 505-7.
 12. Shin HJ, Yu HJ, Park CH, Kim TE, Jung JK, Ro DY, et al. A case of leiomyoma of the ovary. *Korean J Obstet Gynecol* 2005; 48: 784-7.
 13. Seinera P, Raspollini M, Privitera S, Farina C, Crana F. Bilateral ovarian leiomyoma. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1997; 76: 488-9.
 14. Czernobilsky B, Shezen E, Lifschitz-Mercer B, Fogel M, Luzon A, Jacob N, et al. Alpha smooth muscle actin (alpha-SM actin) in normal human ovaries, in ovarian stromal hyperplasia and in ovarian neoplasm. *Virchows Arch B Cell Pathol Incl Mol Pathol* 1989; 57: 55-61.
 15. Lim SC, Jeon HJ. Bilateral primary ovarian leiomyoma in a young women: case report and literature review. *Gynecol Oncol* 2004; 95: 733-5.

A case of primary ovarian leiomyoma

Hyeong Won Kim¹, Hyuck Dong Han¹, Min Soo Kwon¹,
Eun Young Park¹, Kwang Hwa Park², Yo Sep Chong²

Departments of Obstetrics and Gynecology¹ and Pathology², Yonsei University Wonju College of Medicine, Wonju, Korea

Ovarian leiomyoma is a rare type of tumor that only takes about 1% of benign ovarian tumor. It mostly does not induce any symptoms and is often found by chance during a surgical operation in abdominal cavity. It is microscopically observed that smooth muscle cells with an identical shape and a small nucleus grow in a bundle or in a storiform configuration, and they need to be distinguished from other tumors of the smooth-muscle origin that can occur in ovary such as fibroma/thecoma and extragastrointestinal stromal tumor. Using immunohistochemistry staining on desmin, smooth muscle actin (SMA), α -inhibin, c-kit, etc can help with distinguishing these tumors. Recently, the authors experienced in this hospital a primary ovarian leiomyoma of a 43-year-old female patient and hereby report the case with a review of literatures.

Key Words : Ovary, Leiomyoma