

폐경 이후에 발생한 자궁의 atypical polypoid adenomyoma 1예

대구파티마병원 산부인과, 파티마여성병원¹, 김동석병리과의원²윤득현 · 김항진 · 강인구¹ · 김동석²

자궁에 발생하는 atypical polypoid adenomyoma는 드문 종양으로 대개 젊은 여성에게서 발생한다. 가장 흔한 임상 증상은 비정상적 자궁출혈이며, 확진은 조직학적 검사를 통하여 이루어진다. 치료는 환자의 나이, 임신을 원하는지 여부, 그리고 증상의 심한 정도에 따라 결정한다. 만약 환자가 향후 임신을 원한다면 반복적인 소파술이 반드시 시행되어야 한다. 이유는 자궁내막 암종이 동시에 발생하는 경우가 있기 때문이다. 만약 임신을 원하지 않는다면 자궁절제술이 합당하다. 저자들은 폐경 이후에는 드물게 발생하는 자궁의 atypical polypoid adenomyoma 1예를 경험하고 간단한 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

중심단어 : Atypical polypoid adenomyoma, 폐경

서론

자궁에 발생하는 atypical polypoid adenomyoma (APA)는 비교적 드문 자궁내막 용종으로, Mazur가 1981년 최초로 명명한 이래 본 증례와 같이 폐경 이후에 발생한 증례는 국내외적으로도 매우 드물게 보고되어 있다. 대개 양성종양으로 인식되어 왔으나 자궁내막 암종이 동반되어 발생하는 경우가 종종 확인되고 또한 없던 암종이 새롭게 생기는 경우가 있어 어느 정도의 악성잠재력(malignant potential)을 가지고 있는 것으로 생각된다. 따라서 보존적 치료를 할 경우 소파술 등으로 반복적이고도 지속적인 자궁내막의 조직학적 검사를 통하여 자궁내막 암종의 존재 유무를 반드시 확인해야 한다.

저자들은 폐경 이후에 발생한 자궁의 APA 1예를 경험하여 보고하는 바이다.

증례

환자 : 박○○, 63세

논문접수일 : 2006년 9월 25일 채택일 : 2006년 10월 21일
교신저자 : 윤득현, 701-724 대구시 동구 신암동 576-31번지

대구파티마병원 산부인과
전화 : (053) 940-7314, 전송 : (053) 940-7469
E-mail : hyoon20@naver.com

주소 : 1년 동안의 불규칙적인 질출혈

산과력 : 4-0-1-4

월경력 : 초경은 16세였으며, 11년 전 폐경이 되었다.

과거력 : 2003년 10월에 유방암으로 좌측 변형근치유 방절제술을 시행했으며, 현재까지 약 2년 10개월간 tamoxifen을 복용 중이었다.

가족력 : 특이사항 없음

현병력 : 11년 전 폐경 이후 부인과적으로 특이소견 없이 지내던 중, 1년 전부터 불규칙적인 질출혈이 있어 2005년 12월 시행한 질식초음파에서 자궁내막이 두꺼워져 소파술을 시행하였다. 조직 검사상 자궁내막 용종으로 진단되어 경과를 관찰하던 중 질출혈이 지속되어 2006년 1월 시행한 sonohysterogram상 자궁강으로 돌출하는 4.5×2.3 cm 크기의 종괴가 발견되었으며(Fig. 1A), 점막하 근종으로 진단하고 경과를 관찰하였다. 2006년 4월에 증상이 지속되어 자궁절제술을 시행하기 위하여 입원하였다.

진찰 소견 : 입원 당시 전신 상태는 양호하였으며, 혈압 110/70 mmHg, 맥박 75회/분, 호흡 20회/분, 체온 36.5°C였으며, 골반 내진 소견상 약간의 질출혈이 관찰되었다.

검사 소견 : 혈액학적 검사에서 백혈구 9,920/ μ l, 혈색소 12.4 g/dl, 혈소판 265,000/ μ l이었으며, 간기능 검사상

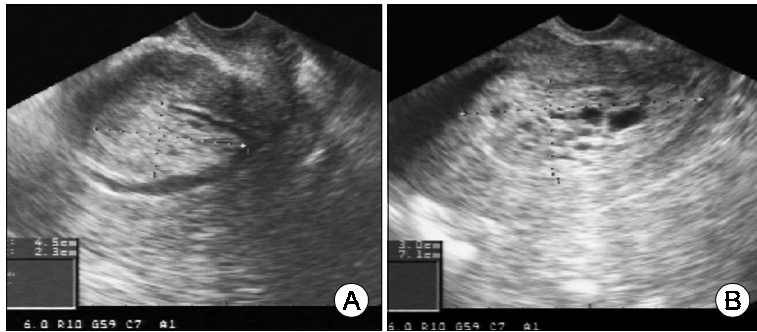


Fig. 1. (A) A 4.5×2.3 cm hyperechogenic mass protruding to the uterine cavity is shown at sonohysterogram. (B) A 7.1×3.0 cm sized lesion is shown at transvaginal sonogram just before hysterectomy.

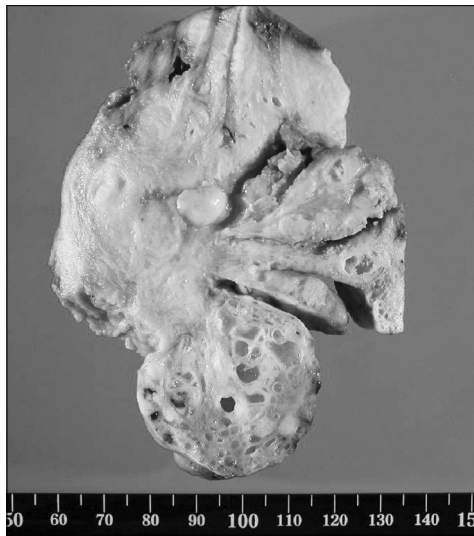


Fig. 2. A large multilobulated polypoid mass, measuring 7.0×4.0 cm in size, is shown. The cut surface reveals multiple varying-sized cystic spaces.

AST, ALT 및 cholesterol 수치가 약간 증가한 소견 이외에는 정상이었다. 흉부 X-ray상에서는 우측 상엽에 비활 동성 폐결핵 소견이 있었다. 수술 전 시행한 질식초음파 검사상 종괴는 7.1×3.0 cm로 이전보다 커진 소견을 보였으며, 전체적으로 자궁의 크기는 증가된 소견을 보였다(Fig. 1B).

수술 소견 : 전신마취하에 질식자궁절제술을 시행하였다. 자궁은 열린 선홍색을 띠었고, 양측 자궁부속기 등에는 특이소견이 없었다. 자궁의 장축 방향으로 절개했을 때 다분엽상의 용종이 관찰되었고, 표본은 조직검사를 의뢰하였다.

병리학적 소견 : 육안소견에서 자궁의 크기는 $13 \times 9.5 \times 8$ cm, 무게는 313 g이었으며, 표면은 매끈하고 열린 선홍색을 띠었다. 자궁을 장축 방향으로 절개하였을 때

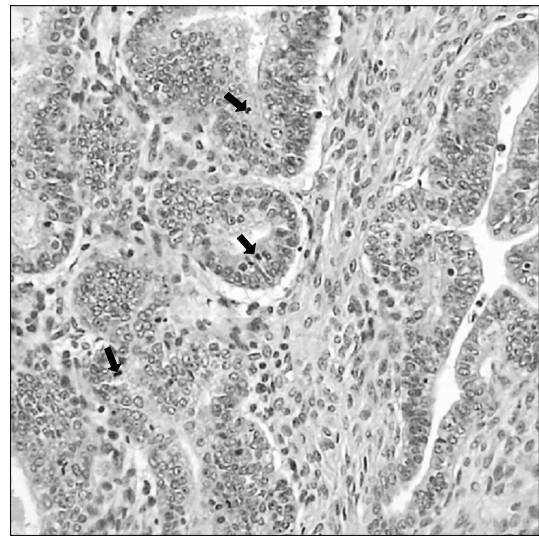


Fig. 3. This photograph represents proliferation of complex glands, which are composed of pseudostratified cuboidal cells with atypical nuclei. Frequent mitoses (arrows) are identified. Also noted is intimate proliferation of smooth muscle cells between the atypical glands (H&E, $\times 200$).

단면 소견상 다분엽상의 용종성 종괴가 자궁의 후벽에서 관찰되었고, 종괴의 크기는 7×4 cm였다. 용종성 종괴의 단면에는 점액 성분을 포함하고 있는 다양한 크기의 낭성 병변이 관찰되었다(Fig. 2). 조직소견에서 자궁 내막샘의 현저한 증식이 관찰되었으며, 증식된 샘 사이 사이에서는 평활근 조직이 동시에 증식하고 있었다. 증식된 샘 구조들은 복잡한 성장 형태(complex glandular pattern)를 띠고 있었으나, 샘암종에는 미흡한 소견을 보이고 있었다. 샘을 구성하고 있는 종양세포들은 비정형성을 띠고 있었으며 간혹 유사분열상도 관찰되었으나(Fig. 3), squamous morule은 관찰되지 않았다. 샘 구조 사이의 평활근은 비정형성 소견이 없었다. 종양 전체를 검

색하였으나 어디에서도 샘암종의 소견은 관찰되지 않았다.

수술 후 경과 : 수술 후 경과가 양호하여 퇴원하였으며, 수술 후 5개월이 지난 현재까지의 추적관찰에서 환자는 특별한 증상 없이 양호한 상태이다.

고 찰

APA는 자궁에 발생하는 종양으로 자궁내막 용종과 유사한 샘근종의 드문 변형이다. 1981년 Mazur가 5예의 일반적이지 않은 증례들에서 처음으로 명명하였으며, 조직학적으로는 평활근으로 둘러싸인 자궁내막의 비정형적 샘조직으로 구성되어 있는 자궁내막의 용종성 종양을 말한다.¹

발생 빈도는 매우 드문 것으로 알려져 있으며, 크기는 대개 0.1-6.0 cm 정도로 보고되고 있다.² 발생위치는 문헌에 따라 달라, 자궁하부에 가장 많이 발생한다는 문헌이 있는가하면, 자궁기저부에 가장 많이 발생한다는 문헌도 있으며, 그 밖에 자궁내경부 등에서도 발생할 수 있다.^{2,3}

발생기전은 아직 명확하지 않으나, 자궁내막에서 기원하며 자궁내막의 버팀질세포의 광범위한 화생성 변화로 인하여 샘조직과 평활근 성분이 발생하는 것으로 생각된다.² 또한 자궁내막에 발생하는 다른 질환과 마찬가지로 APA도 장기간의 에스트로겐 자극이 어느 정도 역할을 할 것으로 보이며,⁴ 유방암 환자에서 장기간의 tamoxifen 치료 후에 발생한 증례도 있다.³ 본 증례에서도 유방암 수술 후 약 2년 10개월간의 tamoxifen 치료를 하였으며, 본 질환의 발생과 관련이 있을 것으로 생각된다.

발생연령은 평균 39세로 대부분 폐경 이전의 여성에게서 발생하지만, 본 증례와 같이 폐경 이후에 발생한 경우도 드물게 있다.⁵ 연구에 의하면 96%가 폐경 이전에 발생하였으며, 절반 이상이 40세 이전에 발생하였다.³ 특히 폐경 이후에 발생한 경우는 연령과 증상이 자궁내막 암종과 거의 비슷하기 때문에 감별 진단에 특히 유의하여야 한다.

불규칙한 월경, 반복적인 월경과다 또는 월경사이 출혈 등의 비정상적인 자궁출혈이 가장 흔한 증상이며, 그 외에도 질 분비물 과다, 골반통, 불임, 폐경 이후 질출혈

그리고 성교 후 출혈 등이 생길 수 있다.^{2,3} 증상이 없이 정기검진에서 우연히 발견되어 자궁절제술 후 진단이 된 예도 있다.⁶

초음파 검사에서 자궁강으로 돌출하는 용종성 종괴를 관찰할 수 있으며, sonohysterogram 등으로 검사하면 종괴의 위치를 더욱 정확하게 확인할 수 있다. 본 증례에서는 질식 초음파 검사상 자궁내막의 두께가 증가한 소견만 있었으며, 이후 sonohysterogram으로 자궁내막이 두꺼워진 것이 아니라 자궁강으로 돌출한 종괴인 것을 확인할 수 있었다. 자궁내막 암종과의 감별이 어려운 경우에는 추가적인 검사를 시행하기도 한다. 일단 종괴가 확인되면 소파술 또는 용종절제술을 시행하여 조직 검사를 통해 진단할 수 있으며 조직학적으로 특징적 소견인 squamous morule이 90% 정도에서 발견되지만 본 증례에서는 squamous morule을 발견할 수 없었다. 그리고 가끔 암종으로 오진하는 경우가 있는데 이전의 문헌에서도 APA를 자궁내막의 암종으로 진단한 경우가 있었으며, 그로 인하여 방사선 치료를 시행하고 이후 자궁절제술을 시행한 예도 있었다.² 그 밖에 자궁내막의 샘편평세포암종(adenosquamous carcinoma), 샘육종(adenosarcoma), 그리고 malignant mixed Müllerian tumor와 혼동될 수 있어 조직학적 감별 진단에 유의해야 한다.⁷ 또 다른 감별진단으로 adenomyomatous polyp, polypoid endometrial hyperplasia, tamoxifen-related endometrial polyp 등이 있는데 adenomyomatous polyp이나 polypoid endometrial hyperplasia는 증식샘들이 이형성을 보이지 않으며 평활근세포의 증식이 있다고 하여도 APA와는 달리 세포충실성을 보이지 않아 감별할 수 있다.

치료는 환자의 나이, 자궁을 보존하여 임신을 원하는지의 여부 및 증상의 정도에 따라 결정한다. 환자의 나이가 많고 임신을 원하지 않거나 소파술 또는 용종절제술 등의 보존적 치료로 출혈이 조절되지 않으면 자궁절제술이 합당하다. 향후 임신을 원하는 젊은 여성에게서는 보존적 치료를 시행하는데, 이 경우에는 세심한 추적 관찰이 필수적이다.² 그것은 자궁내막 암종이 APA와 동반될 수 있으며,^{8,9} 일부에서는 APA가 악성변화를 할 수 있다고 보고하기 때문이다.^{10,11} APA로 진단받은 환자의 8.8%에서 병변부위 또는 인접한 자궁내막 조직에 자궁내막 암종이 동시에 발생한다고 하였으며,¹² 이는 자궁내막 용종 환자에서의 암종 발생률 0.8%와 비교하면 10

배 이상 높은 수치이다.¹³ 따라서 보존적 치료를 할 경우 반복적인 소파술 등으로 조직 검사를 시행하여 주기적으로 추적검사를 하여야 한다. 소파술 및 용종절제술을 시행한 환자의 45%에서 APA가 지속되거나 재발할 수 있다고 하며, 샘 구조의 현저한 복잡성(glandular complexity)이 있는 경우에는 자궁근층 침범의 위험성이 있어 “atypical polypoid adenomyoma of low malignant potential (APA-LMP)”로 명명하기도 하였다.³

APA가 지속되거나 재발하는 경우가 많지만 자궁 이외의 장기에 재발하거나 사망하는 경우는 없었고, 또한 자궁을 보존한 경우에 정상적인 임신과 출산이 이루어질 수 있어 예후는 비교적 양호한 것으로 판단된다.³

저자들은 폐경 이후에 유방암 수술 후 tamoxifen을 복용 중인 환자에게서 지속적인 질출혈이 있어 자궁절제술을 시행하고 조직검사서 우연히 발견된 APA 1예를 경험하고 간단한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Mazur MT. Atypical polypoid adenomyomas of the endometrium. *Am J Surg Pathol* 1981; 5: 473-82.
2. Young RH, Treger T, Scully RE. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus: A report of 27 cases. *Am J Clin Pathol* 1986; 86: 139-45.
3. Longacre TA, Chung MH, Rouse RV, Hendrickson MR. Atypical polypoid adenomyofibromas (atypical polypoid adenomyomas) of the uterus: A clinicopathologic study of 55 cases. *Am J Surg Pathol* 1996; 20: 1-20.
4. Clement PB, Young RH. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus associated with Turner's syndrome: A report of three cases, including a review of “estrogen-associated” endometrial neoplasm and neoplasms associated with Turner's syndrome. *Int J Gynecol Pathol* 1987; 6: 104-13.
5. Sugiyama T, Nishida T, Hasuo Y, Kataoka A, Yakushiji M. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus: Clinical and histological findings of three postmenopausal cases. *J Obstet Gynecol* 1997; 17: 304-6.
6. Maeda T, Tateishi U, Sasajima Y, Hasegawa T, Daisaki H, Arai Y, et al. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus: Appearance on ¹⁸F-FDG PET/MRI fused images. *Am J Roentgenol* 2006; 186: 320-3.
7. Tziortziotis D, Mortakis A. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus. *J Obstet Gynecol* 1997; 17: 110-1.
8. Mittal KR, Peng XC, Wallach RC, Demopoulos RI. Coexistent atypical polypoid adenomyoma and endometrial adenocarcinoma. *Hum Pathol* 1995; 26: 574-6.
9. Lee KR. Atypical polypoid adenomyoma of the endometrium associated with adenomyomatosis and adenocarcinoma. *Gynecol Oncol* 1993; 51: 416-8.
10. Buenerd A, Dargent D, Scoazec JY, Berger G. Carcinomatous transformation of an atypical polypoid adenomyofibroma of the uterus. *Ann Pathol* 2003; 23: 63-6.
11. Sugiyama T, Ohta S, Nishida T, Okura N, Tanabe K, Yakushiji M. Two cases of endometrial adenocarcinoma arising from atypical polypoid adenomyoma. *Gynecol Oncol* 1998; 71: 141-4.
12. Heatley MK. Atypical polypoid adenomyoma: A systematic review of the English literature. *Histopathology* 2006; 48: 609-10.
13. Savelli L, De Iaco P, Santini D, Rosati F, Ghi T, Pignotti E, et al. Histopathologic features and risk factors for benignity, hyperplasia, and cancer in endometrial polyps. *Am J Obstet Gynecol* 2003; 188: 927-31.

A case of atypical polypoid adenomyoma of the uterus in a postmenopausal woman

Douk-Hun Yoon, Hang-Jin Kim, In-Goo Kang¹, Dong-Sug Kim²

*Department of Obstetrics and Gynecology, Daegu Fatima Hospital,
Fatima Women's Hospital¹, Dr. Kim's Pathology Clinic², Daegu, Korea*

Atypical polypoid adenomyoma of the uterus is a rare tumor and usually occurs in young women. The most common symptom is abnormal uterine bleeding and the definite diagnosis of the lesions depends on microscopic features. The treatment of this tumor depends on the age of the patient, her desire to retain reproductive function, and the severity of her symptoms. If the patient desires to preserve her reproductive capacity, repeated dilatations and curettages must be done because of the possibility of coexisting endometrial carcinoma. If not, hysterectomy is acceptable. We experienced a rare case of atypical polypoid adenomyoma of the uterus in a postmenopausal woman and report it with brief review of literature.

Key Words : Atypical polypoid adenomyoma, Postmenopause
