

# 양성낭성기형종과 양육종 및 거대세포종성병변을 동반한 난소의 경계점액성낭선종

고려대학교 의과대학 임상병리과

주 영 채 · 김 인 선 · 백 승 룡

= Abstract =

## Ovarian Borderline Mucinous Cystadenoma Associated with Benign Cystic Teratoma and Carcinosarcomatous and Giant Cell Tumor-like Lesions

Young Chae Chu, M.D., In Sun Kim, M.D. and Seung Yong Paik, M.D.

Department of Clinical Pathology, College of Medicine, Korea University, Seoul, Korea

The association of mucinous tumors of ovary with other ovarian neoplasma, such as dermoid cyst and Brenner tumor, is well recognized. Bettinger described a pseudomucinous cystadenoma of the ovary that showed a large focus of giant cell tumor of bone. We reported a case of ovarian borderline mucinous cystadenoma associated with areas of benign cystic teratoma and carcinosarcomatous and giant cell tumor-like lesions in nulliparous 22 year-old woman and reviewed the literatures about its pathogenesis and prognostic significance.

### 서 론

난소의 원발성 점액성낭종이 유피낭종이나 브렌너씨 종양등을 수반할 수 있다는 것은 잘 알려진 사실이고 기형종과 함께 발생한다는 것은 점액성낭종이 기형종성 기원이라는 점을 뒷받침하는 것으로 해석되어지고 있다<sup>1,2)</sup>. 그러나 1953년 Bettinger<sup>3)</sup>가 점액성낭종의 낭벽에서 낭종과 무관하게 끝에서 발견되는 거대세포종의 병리학적 소견과 같은 부위를 기술한 이래 1975년 Veliath등<sup>4)</sup>이 1예를 보고하였고 1979년 Prat등<sup>5)</sup>이 "Ovarian mucinous tumors with sarcoma-like nodules"이라는 제목으로 7예를 보고하고 같은 질환으로 생각되어지는 7예를 문헌고찰한 바 있다. 그러나 이러한 조직소견의 출현에 대한 발생학적 기전과 환자의 예후에 대한 의의는 아직 확실하지 않은 상태이다. 저자들은 최근 22세 여자에서 제거된 난소의 경계 점액성낭

선종에서 양성낭성 기형종과 양육종 및 골의 거대세포종과 같은 조직소견이 있는 부위를 함께 관찰할 수 있었던 예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

환 자 : 박○숙, 여자, 22세

주 소 : 복부 팽만 및 복부 종괴

현병력 : 약 2년전 부터 우측 하복부에 종괴가 촉진되었으며 그후 서서히 커지다가 얼마후 촉진되지 않았으며 최근 약 15일전부터 갑자기 커져 내원하였다.

과거력 및 가족력 : 특기할 만한 사항은 없었다.

월경력 : 정상

출산 경력 : ○—○—○—○

이학적 소견 : 전신상태는 비교적 양호하였으며 특기할만한 2차 성징의 변화는 없었다. 복부는 팽창되어 있었고 촉진시에 배꼽에서 상복부까지 차지하는 큰 종괴가 있었다.

접 수 : 1982년 1월 9일

**검사소견** : 입원당시 시행한 혈액검사, 뇨검사, 대변 검사 및 간기능검사에서 소변에 상피세포가 약간 나오는 외에는 모두 정상 범위였다.

**X-선소견** : 흉부 X-선 촬영시 심장과 폐 모두 정상이었으나 단순복부촬영에서 큰 타원형의 종괴가 골반강에서 상복부까지 차지하면서 소장, 방광, 위를 누르고 있었으나 석회화음영은 보이지 않았다.

**수술소견** : 개복을 시행하자 바로 매우 커다란 평활한 표면을 갖는 낭종이 전 복강을 차지하고 있었으나, 복수는 없었고, 주위조직과 유착도 없었다. 자궁은 정상크기였으며, 유착이나 결절등은 볼 수 없었고 좌측 난소와 양쪽 난관들은 모두 정상이었다. 수술로는 우측 난관과 난소 적출술을 시행하였다.

**병리학적 소견** : 육안적 소견 ; 제거된 조직은 우측 난관과 난소였다. 난소는 17.5×17.0×12.0 cm의 크기였고, 무게는 850 gm이었다. 표면은 낭포성으로 매끈하고 회백색을 띠었으며 부분적으로 견고한 부위가 촉지되었다(그림 1). 절단면에서는 커다란 하나의 낭구조와 부분적으로 여러개의 작은 낭들로 구성되어 있었고 낭 속에는 회백색의 점액이 들어 있었다. 한부분에서는 3 cm 정도 크기의 낭이 벽에 붙어 있었고 그 속에는 검은 머리털과 황색의 피지같은 물질이 들어 있었다. 또한 낭벽에 견고하게 비후된 부위가 관찰되었고 자를 때 약간의 저항이 있었다(그림 2). 우측 난관은 정상이었다.

**현미경적 소견** : 우측 난소 낭종은 대부분 섬모가 없는 점액분비성 원주상피세포로 피복되어 있었다. 부분적으로는 단층이었으나 많은 부위에서 2~3층으로 중층을 이루었고 유두상을 하였으며 세포는 뚜렷한 핵소체에 많은 세포분열을 보였다. 또한 많은 낭선들을 만들었으나 간질침입은 보이지 않았다(그림 3). 검은 머리털과 피지같은 물질이 들어 있었던 낭은 중층편평상피세포와 피부부속기관 즉 피지선 및 모낭으로 구성된 낭벽을 보였고 층을 이루고 있는 각질도 보였다(그림 4). 또한 각질과 모간에 대한 이물반응이 관찰되기도 하였다. 견고한 부위에서의 조직절편은 용모같은 성장을 보이는 여러층의 원주상피세포로 피복된 낭구조 밑에 수많은 크고 작은 선상구조의 집단이 관찰되었다(그림 5). 이 선들은 점액성 원주상피 세포와는 다른 입방형의 악성세포로 되어있고 그 기질은 매우 불규칙하고 다형성이었다. 많은 세포들은 방추형이었으나 풍부한 호산성 세포질을 갖는 거대세포들도 관찰되었다. 또한 선상구조를 이루는 상피세포와 같은 세포들이 불완전한 세포집단을 이루고 방추형세포와 잘 섞여 있었

다(그림 6). 이와 인접하여 심한 출혈성병변이 있고 사이에 많은 파골세포형의 다핵거대세포들과 작은 간질세포들이 혼합되어 있었다. 간질세포들의 핵은 다소 부동하였으며 간혹 세포분열이 있었고 혈철소의 침착이 관찰되었다(그림 7 및 8). 따라서 우측 난소의 양성낭성기형종과 암육종 및 거대세포종성 병변을 동반한 경계 점액성낭선종으로 진단되었다.

## 고 안

본 예는 주로 경계 점액성낭선종으로 구성된 종양으로 낭벽에 확실한 양성낭성기형종을 갖고 있었으며, 선암과 육종이 혼합되어 있는 암육종성 병변이 골의 거대 세포종과 유사한 부위와 인접해서 관찰되었다. 종양의 주를 이루고 있었던 점액성낭선종은 2~3층의 큰 원주상피로 피복되었고 혼한 세포분열, 뚜렷한 핵소체 및 유두상 성장을 보였으나 확실한 간질침입을 보이지 않아 경계종양에 속하였다. 난소의 점액성 종양의 발생론에 대해서는 아직 확실한 설은 없으나 배 세포상피에서 유래된다는 설과 기형종성기원설을 들 수 있다. 특히 젊은 연령에서 발생할 경우에는 약 15~20%의 양성낭성기형종이 점액상피를 함유할 뿐 아니라 점액성종양에서 흔히 다른 조직성분을 관찰할 수 있다는 점들은 명확치 않지만 점액성낭선종이란 내배엽 성분이 다른 기형종 성분보다 월등하게 증식하여 생기는 일종의 기형종으로 생각하는 설이 많다<sup>6)</sup>. 따라서 본례에서와 같이 젊은 연령에서 점액성낭선종이 양성기형종을 동반한 것은 점액종이 기형종성 유래라는 사실을 뒷받침한다고 할 수 있겠다. 그러나 양성기형종과는 별개로 관찰되었던 암육종성 변화와 거대세포종의 출현을 이해하는 것은 매우 어려운 점이다. 원래 양성낭성기형종에서 악성 변화를 하는 경우는 매우 드물어 2%미만이<sup>7,8)</sup> 악성 종양의 형태는 편평상피암이 가장 흔하다. 덜 흔히는 선암도 생기며 아주 드물게 악성 육종, Argentaffinoma, 내피세포종, 각종 육종 및 암육종등이 보고되고 있다<sup>7,9)</sup>. 또한 골에 발생하는 거대세포종과 같은 현미경적 소견은 갑상선, 피부, 안와, 심장, 연부조직 또는 폐장등에서 기술되었고<sup>10-15)</sup> 난소에서도 Bettinger<sup>3)</sup>와 Veliath 등<sup>4)</sup>에 의해 기술된 바 있다.

이들 파골세포형의 거대세포는 골에서 발생할 때는 지주 결체조직에서 유래된다는 설이 있으나<sup>16)</sup> 폐장에서 관찰되는 거대세포에 대해 Rosai<sup>17)</sup>는 전자현미경적 소견으로 Posen은<sup>18)</sup> 조직화학적 소견으로 상피세포에

서 유래된다고 주장하였다. 그러나 Prat 등<sup>5)</sup>은 난소의 점액성종양에 sarcoma-like nodule 을 갖고있던 7예를 보고하면서 절절의 조직학적 소견을 3가지 형태로 구분하였다. 이중 파골세포형 거대세포가 출현하는 형태를 pleomorphic and epulis-like nodule 이라 칭하면서 절절이 점액상피세포와 잘 경계되었고 파골세포형 거대세포가 출현이 있는 곳에 밀집해 있으며, 탐식능력을 갖고 muramidase 에 강한 반응을 보인다는 점등으로 반복되는 출혈에 이차적으로 조직구가 변화되어 생긴다고 하였다. 그러나 본례에서는 양성낭성기형종과 함께 관찰되었으며 더우기 암육종성 병변과 인접하여 거대세포종이 발생한 이 종양은 일종의 양성낭성기형종으로서 내배엽이 증식되어 잘 형성된 점액성낭선종을 이루었고 동시에 암육종과 거대세포종으로 악성변화를 일으킨 것으로 해석하는 것이 타당하리라 생각된다. 양성낭성기형종이 악성변화를 하는 경우는 전이가 있거나 낭종의 파열이 있는 경우 특히 선암, 육종, 혼합종 및 음모상피암 등에서 치료에 무관하고 예후가 나쁜 것으로 알려졌다<sup>8)</sup>. 그러나 점액성낭선종에서 거대세포종을 병발하는 경우에 대해서는 질환의 빈도가 낮아 예후를 일괄적으로 말하기는 어렵다. 한 난소에서 기형종, 점액성낭선종 및 거대세포종을 관찰하여 본례와 비슷했던 Bettinger 의 례에서는 6년간 종양의 재발이 없었고<sup>9)</sup>, 문헌에 보고된 다른 유사한 례들도 평균 7년 이상의 생존율을 갖는다고 하였다<sup>10,11)</sup>. 또한 Prat 등<sup>5)</sup>은 그들이 경험한 례들의 연구에 의하면 양성낭성기형종에서 악성변화를 한 경우에는 달리 예후가 좋다는 점을 들어 거대세포의 출현이 반드시 악성임을 의미하지 않고 따라서 전혀 예후에 영향을 미치지 않는다는 사실을 강조하였다.

본례는 수술후 6개월이 지난 현재까지 병원을 방문하지 않아 그 경과를 확실히 알 수 없다.

## 결 론

저자들은 최근 22세 여자의 난소에서 경계 점액성낭선종 및 양성낭성기형종과 함께 암육종 및 골의 거대세포종과 유사한 조직소견을 보이는 1례를 경험하였기에 그 발생빈도가 희귀하고 발생기원이 흥미로와 문헌고찰과 함께 보고하였다.

## 참 고 문 헌

1) Woodruff JD, Bie LS, Sherman RJ: *Mucinous*

- tumors of the ovary. Obstet Gynecol* 16:699, 1960.
- 2) Fox H, Langley FA: *Tumors of the ovary. Chicago, Year Book Medical Publisher Inc, 1976*
- 3) Bettinger HF: *A giant cell tumor of bone in a pseudomucinous cystadenoma of the ovary. J Obstet Gynecol Br Commonw* 60:230, 1953
- 4) Veliath AJ, Sankaran V, Aurora AL: *Ovarian giant cell tumor with cystadenocarcinoma. Arch Pathol* 99:488, 1975
- 5) Prat J, Scully RE: *Ovarian mucinous tumor with sarcoma-like nodules. A report of seven cases. Cancer* 44:1332, 1979
- 6) Novak ER, Woodruff JD: *Novak's gynecologic and obstetric pathology. 8th edition. Philadelphia, WB Saunders, 1979*
- 7) Kelley RR, Scully RE: *Cancer developing in dermoid cysts of the ovary-A report of cases, including a carcinoid and a leiomyosarcoma. Cancer* 14:989, 1961
- 8) Peterson, WF: *Malignant degeneration of benign cystic teratomas of ovary: A collective review of literatures. Obstet Gynecol Survey* 12:793, 1957
- 9) Climie ARW, Heath LP: *Malignant degeneration of benign cystic teratomas of the ovary. Cancer* 22:824, 1968
- 10) Andreev VC, Raitchev R, Nicolova D: *Malignant osteoclastoma of the skin. Brit J Dermatol* 76:40, 1964
- 11) Silverberg SG, De Giorgi LS: *Osteoclastoma-like giant cell tumor of the thyroid. Cancer* 31:621, 1973
- 12) Abdalla MI, Hosni F: *Osteoclastoma of the orbit: Case report. Brit J Ophthalmol* 50:95, 1966
- 13) Dorney P: *Osteoclastoma of the heart. Brit Heart J* 29:276, 1967
- 14) Salm R, Sissons HA: *Giant cell tumors of soft tissues. J Pathol* 107:27, 1972
- 15) Posen JA: *Giant cell tumor of the pancreas of the osteoclastic type associated with a mucous secreting cystadenocarcinoma. Human Pathol*

- 12:944, 1981
- 16) Lichtenstein L: *Bone tumors 5th edition. St. Louis, CV Mosby, 1977*
- 17) Rosai J: *Carcinomas of the pancreas simulating giant cell tumors of bone. Electron microscopic evidence of its acinar origin. Cancer 22:333, 1968*
- 18) Azoury RS, Woodruff JD: *Primary ovarian sarcomas. Report of 43 cases from the Emil Novak Ovarian tumor registry. Obstet Gynecol 37:920, 1971*
- 19) Fenn ME, Abell MR: *Carcinosarcoma of the ovary. Am J Obstet Gynecol 110:1066, 1971*

---

### Explanation for Figures

- Fig. 1. Gross photograph of a large ovarian cystic mass showing smooth glistening surface.
- Fig. 2. Gross photograph of the cut surface showing multilocular spaces, containing thick mucoid material. A cyst contains greasy sebaceous material admixed with hairs(long arrow). Short arrow indicates focal thickening of the septum of the cyst.
- Fig. 3. Photomicrograph showing numerous cystic spaces lined by tall, columnar, nonciliated cells with stratification and daughter gland formation.(H & E stain, ×100)
- Fig. 4. Photomicrograph showing cyst wall composed of stratified squamous epithelium having skin appendages and lamellated keratin material.(H & E stain, ×100)
- Fig. 5. Irregular sized and shaped glands which are intimately admixed with sarcomatous stroma. (H & E stain, ×100)
- Fig. 6. Higher magnification of area of fig. 5. Pleomorphic spindle and giant cells showing hyperchromatism and mitosis.(H & E stain, ×200)
- Fig. 7. Area of giant cell tumor-like lesion. Multinucleated giant cells are scattered in the hemorrhagic background.(H & E stain, ×100)
- Fig. 8. Higher magnification of area of fig. 7. There are multinucleated giant cells resembling osteoclasts and stromal cells. Hemosiderin deposits are also noted.(H & E stain, ×400)



» 주영채 외 2인 논문 사진부도 ① «



» 주영체 외 2인 논문 사진부도 ② «

