

소장의 원발성 평활근육종

-2증례보고-

부산대학교 의과대학 부속병원 해부병리과

김정만 · 최환주 · 서강석 · 김순호

서 론

소장의 원발성 악성종양은 그 발생빈도가 전 위장관암의 1-3%로서 매우 희귀한 질환으로 알려져 있으며¹⁻⁵⁾, 그 중에서도 소장에 발생하는 평활근육종은 매우 희귀하여 그 발생빈도가 소장암의 10-14%⁶⁻¹¹⁾ 정도이다. 일반적으로 소장의 평활근육종은 임상적으로 특이한 이학적, X-선적 및 검사적 소견들을 나타내지 않으므로 병이 상당히 진행되지 않으면 수술전에 정확한 진단이 불가능한 질환이다. 따라서 소장에 발생한 평활근육종은 위장관의 다른 부위에 발생한 경우보다도 예후가 좋지 못한 것은 자명한 사실이다. 국내에서는 1972년 김 등¹²⁾이 2예를 발표한 이래 모두 20예¹⁰⁻¹⁷⁾에 이르고 있다.

저자들은 53세와 63세의 한국인 여성의 공장과 회장에서 병리조직학적으로 확진된 원발성 평활근육종 2예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 이에들을 보고하는 바이다.

증 례

증례 1.

본 환자는 63세의 한국인 여자로서 수년전부터 고혈압으로 인한 현기증과 두통으로 치료를 받아 오던중 1982년 4월 갑자기 졸도하여 부산대학교 의과대학 부속병원 내과에 입원하였다. 이 환자는 입원당시 직장출혈이 있었고, 입원 15일 후에 좌하복부에 종괴가 촉진되어 일반외과에서 복강내 종양이란 진단하에 수술을 받았다. 과거력 및 가족력상 환자는 수년전부터 고혈압을

앓아온 이외에는 특기할만한 소견이 없었다.

입원당시 체중은 47kg이었고, 전신적인 영양상태는 불량한 편이었다. 혈압은 130/70mmHg, 체온은 36.5°C, 맥박회수는 96회/분, 호흡수는 20회/분 이었다. 좌하복부에 압통과 약간의 복부팽만이 있었고, 종괴촉지가 의심되었다. 이외에는 특기할 만한 소견이 없었다. 말초혈액학적 검사에서 혈색소치는 7.7gm/dl, 백혈구수는 5600/mm³, 혈침은 44mm/hr였고, 뇨검사와 간기능 검사들은 정상 범위내에 있었으며, 대변의 잠혈반응은 2회 시행하였으나, 모두 음성이었다. 흉부 X-선 소견에 고혈압상의 심장형태를 보였고, 복부 X-선 소견에 barium enema 상에서 하행결장부에 국소적 팽양을 보였으나, 위내시경 및 단순복부 X-선상에는 이상소견이 보이지 아니하였다. 안저 검사에서 A/V crossing with tapering의 소견을 나타내었다.

전신마취하에 복부의 좌측 측정중 절개로 개복하였던 바 복강내 출혈이나 복수는 볼수 없었고, 회장 중양부에 종괴가 있었는데 이 크기는 7×6×5cm 였다. 이 종괴는 주위의 후복막과 유착되어 종양이 침윤되어 있었으나, 장간막의 임파선 종대는 없었다. 회장에서 발생한 악성종양으로 진단하고 병소부로부터 상하 18cm 정도의 회장과 그 인접 장간막도 함께 제거한 후 단단 문합술을 시행하였다.

병리학적 소견

병리학적 검사를 위해 보내온 가검물은 회장과 장간막이었다. 회장의 중양부에 위치한 종양을 절개하여 보니 이 종양은 점막층을 제외한 대부분의 층을 침범하고 있었으며 그 크기는 7×6×5cm 이었다. 종양은 연한 갈색을 띄우고 단단하였으며, 장벽의 외부로 돌출하여 있었다. 이 종양을 떼고 있는 점막에는 여러개의 작은 케양이 있었으며 이 주위에 출혈병소가 관찰되었다. 활면에서도 출혈 및 괴사의 병소가 관찰되었다. 후복막에

접 수 : 1983년 9월 15일

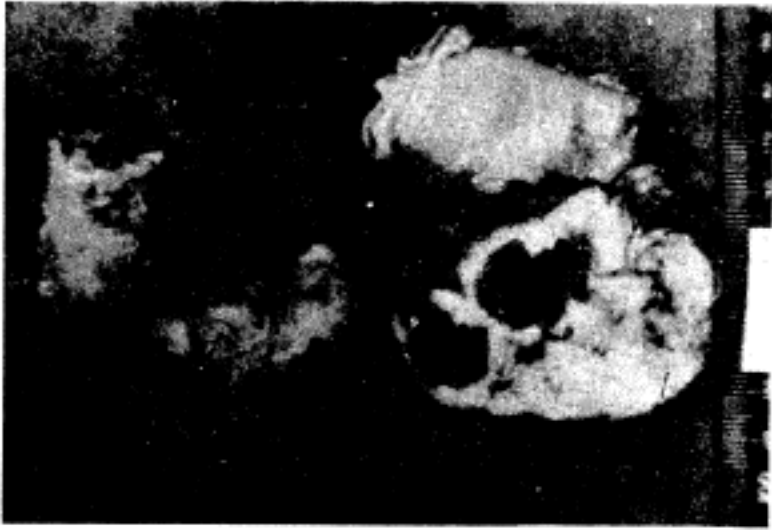


Fig. 1. Grossphotograph of case 1, showing a well circumscribed mass with foci of hemorrhagic necrosis of ileum, measuring 7×6×5 cm in dimensions.

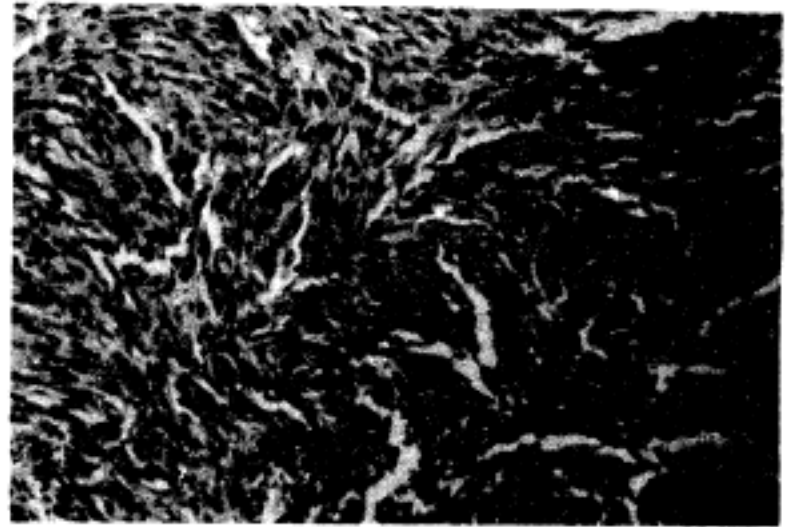


Fig. 2. Microphotograph of the neoplasm, showing interlacing bundles of neoplastic smooth muscle cells. (H&E, ×100)

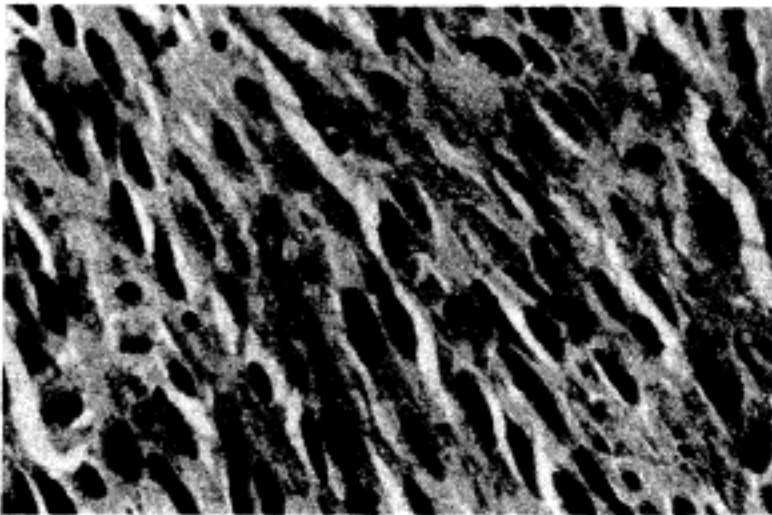


Fig. 3. Microphotograph of the neoplasm, showing cellular atypia and 3 mitotic figures. (H&E, ×400)



Fig. 4. Grossphotograph of case 2, showing a well defined irregular mass with foci of hemorrhagic necrosis of jejunum, measuring 10×10×8 cm in dimensions.

침범된 종괴들 역시 활면은 회백색이었다. 현미경적으로 다수의 종양성 평활근 세포들이 interlacing bundles의 양상을 보이며 여러개의 작은 결절들을 이루고 있었다. 이 종양세포들은 주로 핵소체가 뚜렷한 원형 내지 방추형의 핵과 호산성 세포질을 가지고 있었으며, 일부의 종양세포에서는 세포질 내에서 공포가 발견되었다. 종양세포의 핵들은 중등도의 다형성을 나타내고 있으며, 세포분열상은 10개의 광확대 시야에서 9개 내지 11개가 관찰되었다. 다수의 임파구와 형질세포들이 종양세포들 사이에 침윤하여 있었다. 이 종양세포들은 밖으

로는 근육층까지, 안으로는 점막층까지 침윤하여 있었다. 그리고 후복막 조직면에서도 상기한 종양세포들의 침윤이 있었다.

증례 2.

주소 및 현병력 : 본 환자는 53세의 한국인 여자로서 좌측 복부동통 및 종괴와 빈혈을 주소로 하여 1982년 5월 부산대학교 의과대학 부속병원 내과에 입원하였다. 이 환자는 입원 수개월전 부터 소화불량과 체중감소가 있었고, 입원 2개월 전부터는 좌상복부에 중등도의 동

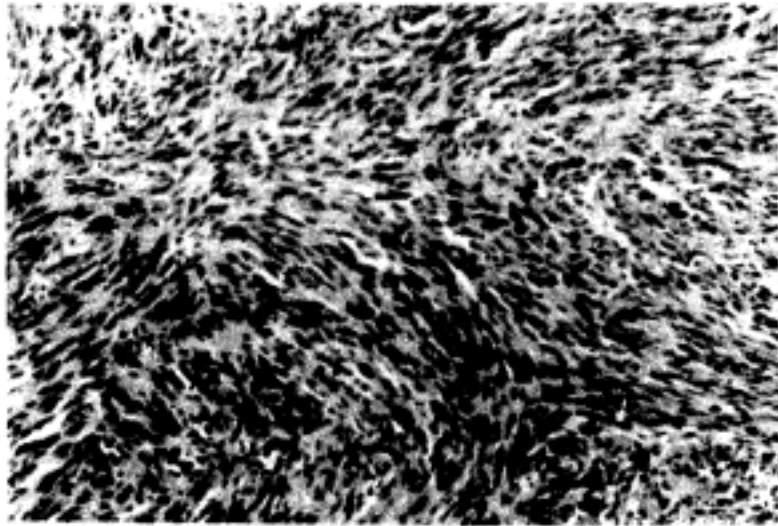


Fig. 5. Microphotograph of the neoplasm, showing interlacing bundles of neoplastic smooth muscle cells. (H&E, x100)

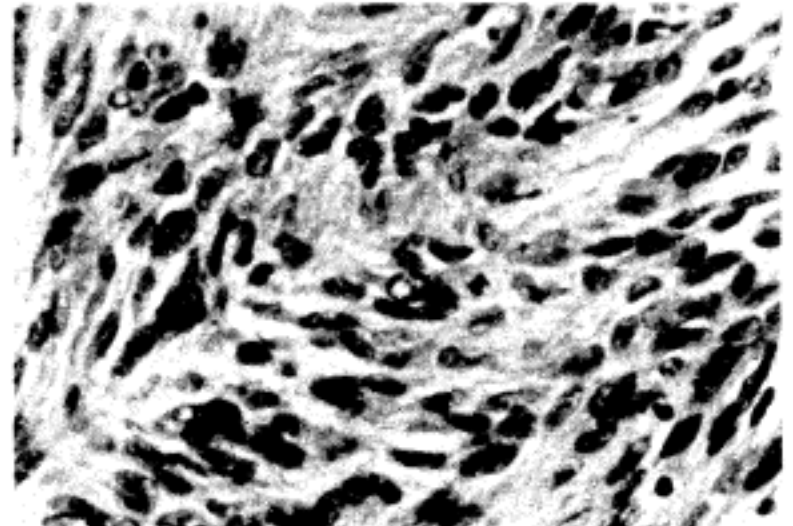


Fig. 6. Microphotograph of the neoplasm, showing hyperchromatic nuclei and a mitotic figure. (H&E, x400)

통이 계속되었다. 이 환자는 입원 10일 후에 일반외과에서 후복막종양이란 진단하에 수술을 받았다. 과거력 및 가족력상 환자는 어릴때 흉막염을, 18세때 뇌막염을 그리고 39세때 장티푸스를 앓았으나 그 외에는 특기할 만한 소견이 없었다.

입원당시 체중은 64kg이었고, 영양상태는 양호하였다. 좌상복부에 동통과 압통이 있었고, 또한 15×7cm 정도 크기의 종괴가 촉지 되었다. 간장은 2횡지 정도로 견고하게 촉지되었다. 이외에는 특기할 만한 소견이 없었다. 말초혈액학적 검사에서 혈색소치는 6.2gm/dl, 백혈구수는 5200/mm³, 혈침은 65mm/hr였고, 대변의 잠혈반응 및 점액검사를 2회 시행하였던바 모두 양성이었다. 뇨검사와 간기능검사 등은 모두 정상범위내에 있었다. 흉부 X-선 소견은 이상이 없었다. 단순복부 X-선상 및 barium enema 소견에서 좌복부에 종괴가 관찰되어 방사선상 소장외 유종으로 추정되었다.

수술소견 : 전신마취하에 복부의 좌측 측정중 절개로 개방한 바 복강내 출혈이나 복수는 볼 수 없었고, 공장 부위에 종괴가 있었다. 이 종괴의 크기는 15×7×7cm 였다. 이 종괴로 인하여 대부분의 공장은 심한 유착을 일으켜 공장의 확실한 형태를 판별하기 어려웠다. 그리고 종괴로 인하여 주위의 소장, 대장, 장간막, 위장의 미부 및 후복막과도 심한 유착이 있었으나 누공은 없었다. 장간막 임파선의 종대도 볼 수 없었다. 간장의 좌엽에 좁쌀크기의 많은 전이성 결절들이 산재하여 있었다. 종괴의 주위조직을 박리한 후 병소부로 부터 상하

30cm정도의 공장과 인접 장간막을 함께 제거한 후 단단 문합술을 시행하였다. 동시에 전이된 것으로 보이는 간장의 결절을 일부 생검하였다.

병리학적소견

병리학적 검사를 위하여 보내온 가검물은 공장이었는데 이 공장은 거의 내강으로 돌출된 종양으로 대체되어 그 울퉁을 찾아 볼 수가 없었다. 절개하여 보니 종양의 크기는 10×10×8cm 였으며 회갈색을 띄우고 있었다. 공장의 내강은 종양으로 인해 매우 좁아져 있었고 부분적으로는 완전히 폐색되어 있었다. 그러나 좁아진 내강에서는 악취가 나는 갈색의 젤리같은 물질로 충만되어 있었고, 점막에서는 작은 궤양과 출혈병소가 산재해 있었다. 종괴는 증예 1과 마찬가지로 점막층을 제외한 전층을 침범하고 있었다. 종괴의 활면에서 출혈성 병소와 괴사의 병소가 관찰되었다. 간장에서 생검한 결절성 종괴는 부분적으로 회백색으로 얼룩져 있었다.

현미경적으로 이 종양은 증예 1과 동일하게 다수의 종양성 평활근 세포들이 interlacing bundles을 이루고 있으며, 비 종양성 섬유조직에 의해서 여러개의 소엽들로 분리되어 있었다. 이 종양세포들은 핵소체가 뚜렷한 방추형의 핵과 호산성 세포질을 가지고 긴 방추형을 정하고 있었다. 핵의 다형성은 거의 볼 수 없었으나 세포분열상은 10개의 광학대 시야에서 6개 내지 8개가 발견되었다. 종양세포들 사이에는 다수의 임파구가 침윤하고 있었다. 종양조직의 일부에서는 출혈과 괴사가 있었다. 이 종양세포들은 장막하층까지 침범하였으며 점막

층은 껍질로 인하여 대부분이 소실되었다. 종양주위와의 경계는 비교적 뚜렷하였으나 일부에서는 종양세포의 침윤을 볼 수 있었다. 전이된 간장조직에서도 상기한 종양세포들로 침윤되어 있었다.

고 안

소장에서 발생하는 평활근육종은 매우 희귀한 질환으로서 그 발생빈도는 전 위장관의 원발성암의 1-3%¹⁻⁵⁾이고 전 소장암의 10-14%⁶⁻¹¹⁾ 정도이다. 전 위장관중 소장에 악성종양이 희귀하게 발생하는 이유를 Lowenfels¹⁸⁾는 소장에서는 장내용물의 통과시간이 짧아서 발암물질과 접촉하는 시간이 짧은 점, 소장내용물이 대장보다 액체성이므로 발암물질이 희석된다는 점과 소장내의 세균수가 적어 담즙이나 기타 세균 신진 대사물에 의한 발암물질의 생성이 적다는 점 등을 들었고, Calman¹⁹⁾과 Wilson등²⁰⁾은 소장내 다량의 IgA가 존재하여 악성종양의 발생이 드물고, 발암성 virus를 중화하는 작용이 있다고 하였으며, Tamakawa등²¹⁾은 소장은 발암물질에 대해 저항성을 가지고 있다고 하였다.

소장의 평활근육종의 성별분포에 관한 문헌을 보면, 남녀비는 Chaffin²²⁾이 1:18, Deck와 Silberman²⁵⁾이 1:1.5, Gibson등²³⁾이 1:1.4, Marshall과 Adamson²⁴⁾과 Morvi와 Walters²⁵⁾가 1:1, Akwari등²⁶⁾이 2.6:1, Pagtaluman등⁶⁾이 1.7:1로 보고자들에 따라 차이가 많아서 일괄하여 논하기는 곤란하였으나 Marshall과 Adamson, Morvi와 Walters 및 Akwari 등의 보고를 제외하면 여자에서 남자보다 발생빈도가 높은 것 같다. 저자들이 경험한 2예도 모두 여성이었다.

이 종양의 연령별 발생빈도를 보면, 평균 연령을 Horsley²⁷⁾는 50.3세, Akwari등²⁶⁾은 55.7세, Deck와 Silberman⁹⁾은 61세, Pagtaluman등⁶⁾은 56세, Diamante와 Bacon²⁸⁾은 55.7세, Miles등²⁹⁾은 40대에서 60대 사이로 보고 하였다. 그러므로 이 종양은 50대의 60대에서 잘 발생한다고 할 수 있다. 저자들의 예도 53세와 63세였다. 한국에서는 보고된 20예와 저자들의 2예를 합한 22예중 성별과 연령의 기재가 명확한 16예를 분석하여 보면 11예가 남자였고, 5예가 여자로서 남자에 더 많이 발생하였으며, 발생연령은 3세부터 64세 사이로 그 평균연령은 47.7세였다. 소장에 발생하는 평활근육종의 십이지장, 공장 및 회장의 발생빈도는 Wilson등²⁰⁾이 10%, 37% 및 53%, Akwari등²⁶⁾이 18.0%,

45.9% 및 36.1%, Deck와 Silberman⁹⁾이 15%, 30% 및 55%, Dodd등³⁰⁾이 3부위에 거의 비슷한 비율로 보고하고 있어 보고자에 따라 다소간에 차이가 있으나, 회장과 공장에서 십이지장 보다 발생빈도가 높음을 알 수 있다. 저자의 2예의 발생부위는 회장과 공장이었다. 한국에서 보고된 22예의 발생 부위의 빈도를 보면 십이지장에 9.1%, 공장에 36.4%, 회장에 54.5%였다. 따라서 한국인에서나 외국인에서나 소장의 평활근육종의 발생빈도는 공히 회장과 공장이 십이지장에서 보다 높다고 생각된다.

소장에 발생한 평활근육종의 임상증상은 소장의 다른 악성종양들의 증상과 유사하여 특이한 것은 없으나 상당히 진행되었을 때 복통, 출혈, 종괴촉지 및 체중감소 등이 있다고 하였다^{9,31-33)}. 이러한 증상중 복부동통은 49-85%^{6,9,26,30,34)}에서 장출혈은 40-87%^{9,26)}에서 나타난다고 한다. 또한 복부촉지상 종괴를 인지할 수 있는 경우는 20-65%^{31,33,35)}이고 체중 감소는 34-48%^{6,29,34)}라고 한다. 소장의 평활근육종시 barium enema와 소장조영술 소견으로 Dodd 등³⁰⁾과 Star와 Dockerty³³⁾는 약 60%에서, Deck와 Silberman⁹⁾은 12.5%에서만 그 병소를 발견했다고 보고하였다. 저자들의 증례 1은 barium enema상 하행결장에서 국소궤양만을, 증례 2는 소장에서 종괴를 인지하였다.

소장의 평활근육종은 크기가 비교적 커서 76%에서 직경이 5cm 이상이라고 하며 일반적으로 단단하고, 적갈색 내지 연한 갈색을 띠고 피막으로 싸여 있다고 한다^{26,33)}. 그리고 활면에서 섬유다발들이 서로 교합하는 양상을 보이며, 흔히 그 종양의 중앙부에 출혈성 괴사소견을 드물게는 석회화를 볼 수 있다고 한다³³⁾.

이 육종은 대부분의 소장의 근육층에서 발생하나, 간혹 점막근육층에서 발생하기도 한다^{26,32)} 조직학적으로 이 종양은 뚜렷한 핵소체를 가진 방추형의 핵과 호산성의 세포질을 갖고 있는 긴 방추형 세포로 구성되며, interlacing 형태를 이루고 있다. 이 종양과 신경성종양 및 평활근종과는 거의 감별이 어렵다고 한다. 평활근종인 경우에도 변성시 기괴한 세포나 거대세포가 때로 관찰되기도 하며, 이상핵분열이 없다고 평활근육종이 아니라고 단정할 수 없다고 하였다³⁶⁾. 그러나 Star와 Dockerty³³⁾는 일반적으로는 이 종양의 진단에 있어서 육안적으로는 종괴의 크기가 악성진단에 중요하지만, 단일인자로서는 조직학적으로 이상핵분열이 가장 중요한 기준이 된다고 하였다. Broders등³⁷⁾은 평활근육종

의 진단에 이상해분열을 지표로 규정하여 악성의 정도를 4등급으로 분류하였고 Star와 Dockerty³³⁾는 이를 토대로 하여 1등급:세포분열상이 10-20광학대 시야에서 1개 이상일때, 2등급:세포분열상이 1-10광학대 시야에서 1개일때, 3등급:세포분열상이 1광학대 시야에서 2-5개 일때, 4등급:세포분열상이 1광학대 시야에서 5개 이상일때의 4등급으로 분류하고 또한 다형성 및 세포수의 정도가 등급의 분류에 중요하다고 하였다. Akwari등²⁶⁾은 Star와 Dockerty의 1등급 일때는 예후가 좋으나, 그 이상의 등급에서는 등급의 차에 관계없이 모두 예후가 좋지 않다고 보고하였다. 저자들의 예들은 그 직경이 7cm와 10cm로서 Pagtaluman등⁶⁾의 소견과 매우 잘 부합되었다.

평활근육종은 임파성 전이는 거의 일으키지 않고³³⁾ 주로 주위조직으로 직접 침윤하거나, 혈행성 전이를 하는 것으로 알려져 있다^{26,30,32,38)}. 저자들의 경험한 2예는 모두 주위조직과 후복막에 전이가 있었으며, 증예 2는 간전이도 있었다. 소장의 평활근육종의 예후는 종양의 침범정도와 장절제 정도에 따라 차이가 있으나, 평균 5년 생존율은 25%-50%^{6,9,26,33)}라고 한다. 이 종양의 치료법으로서는 수술치료법, 방사선요법 및 화학요법이 이용되고 있으나, 어떤 요법이나 좋은 결과를 얻지 못하고 있으며, 다만 광범위한 전이가 있는 경우에 화학요법이 다소의 도움을 준다고 한다³⁹⁾. 본 증예중 증예 1은 장 절제술만 하였으나, 현재까지 생존하고 있으며, 증예 2는 장 절제술 및 2회에 걸쳐 5-FU 500mg을 투여 하였으나, 술후 20일 만에 사망하였다.

요 약

저자들은 위에서 53세와 63세의 한국인 여성의 회장과 공장에서 각각 발생한 원발성 평활근육종 2예를 경험하였기에 이 예들을 보고함과 동시에 이에 관한 약간의 문헌적 고찰을 하였다.

REFERENCES

1) Ewing J: *Neoplastic disease; A Treatise on Tumors. Fourth edition. Philadelphia, WB Saunders, 1940*
 2) Good CA: *Tumors of small intestine. Am J Roentgenol, Red Therapy & Nuclear Med 89:685, 1963*
 3) River DP and Schorsch H: *Tumors of small bowel;*

diagnostic challenge. Postgrad Med 38:243, 1965
 4) Hampole MK, Jackson BA and Burkell CC: *Can J Surg 9:159, 1966*
 5) Ebert PA and Zuidema GD: *Primary tumors of small intestine. Arch Surg 91:452, 1965*
 6) Pagtaluman RJ, Mayo CW and Dockerty MB: *Primary malignant tumors of small intestine. Am J Surg 108:13, 1964*
 7) Silberman H, Crichlow RW and Caplan HS: *Neoplasms of the small bowel. Ann Surg 180:157, 1974*
 8) Treadwell TA and White RR: *Primary tumors of the small bowel. Am J Surg 130:749, 1975*
 9) Deck KB and Silberman H: *Leiomyosarcoma of the small intestine. Cancer 44:323, 1979*
 10) 박재갑, 최국진, 김진복: 소장의 원발성 악성종양. 대한외과학회지 17: 504, 1975
 11) 이정효, 박성일, 장선택: 소장의 원발성 평활근육종 2예 및 임상적고찰. 대한외과학회지 25: 325, 1983.
 12) 김동진, 조영국: 소장 근육종의 2예. 대한외과학회지 14: 307, 1972
 13) 김상현, 전창열: 소장에 발생하는 원발성 악성종양. 대한외과학회지 20: 827, 1972
 14) 한운섭, 이수부, 남상혁, 이광길, 김지환, 이유훈, 김동식: 한국인의 위, 소장 및 대장육종에 관한 임상 및 병리학적으로 고찰. 대한외과학회지 15: 215, 1973
 15) 이순식: 위장관 육종에 관한임상적 고찰. 대한외과학회지 20: 17, 1978
 16) 방인화, 이순식: 소장의 원발성 악성종양에 관한 임상적고찰. 대한외과학회지 22: 29, 1980
 17) 최홍교, 박영관: 소장암에 관한 임상적고찰. 대한외과학회지 25: 617, 1983
 18) Lowenfels AB: *Why are small bowel tumors so rare? Lancet 1:24, 1972*
 19) Calman KC: *Why are small bowel tumors rare? An experimental model. Gut 15:552, 1974*
 20) Wilson JM, Melvin DB, Gray CF and Thorbjarnasson B: *Primary malignancies of the small bowel. A report of 96 cases and review of the literature. Ann Surg 180:175, 1974*
 21) Tamakawa T, Patin C and Morgenstern L: *Small intestinal resistance to experimental gastric cancer. Arch Surg 105:105, 1972*

- 22) Chaffin L: *Smooth muscles tumors of the stomach. Western J Surg* 48:513, 1938
- 23) Giberson RC, Dockerty MB and Gray HK: *Leiomyosarcoma of the stomach. Surg Gynec & Obstet* 98:168, 1954
- 24) Marshall SF and Adamson NE: *Gastric leiomyosarcoma; Report of 20 cases with follow-up results. Surg. Clin N Amer* 38:719, 1959
- 25) Morvi CP and Walter W: *Leiomyosarcoma of the stomach: review of sixteen cases and a report of a case of multiple leiomyosarcoma of the stomach. Arch Surg* 57:62, 1948
- 26) Akwari DE, Dozois RR, Weil LH and Beahrs DH: *Leiomyosarcoma of the small and large bowel. Cancer* 42:1375, 1978
- 27) Horsley GW: *Leiomyosarcoma of the jejunum with two case reports and a review of the literature. Ann Surg* 142:799, 1955
- 28) Diamante M and Bacon HE: *Leiomyosarcoma of the rectum; Report of a case. Dis Colon Rectum* 10:347, 1967
- 29) Miles RM, Crawford D and Duras S: *The small bowel tumor problem: An assessment based on a 20 year experience. Ann Surg* 189:732, 1979
- 30) Dodds WJ, Goldvery HI and Margulis AR: *Leiomyosarcoma of the small intestine. Am J Roentgenol* 107:142, 1969
- 31) Skandalakis JE and Gray SW: *Smooth muscle tumors of the alimentary tract. In: progress in clinical cancer. New York, Grune and Stratton, 1965, p 692*
- 32) Starr GF: *Pathologic features of smooth muscle tumors. JAMA* 229:1219, 1974
- 33) Starr GE and Dockerty MB: *Leiomyomas and leiomyosarcomas of the small intestine. Cancer* 8:101, 1955
- 34) Dormann JE, Floyd CE and Cohn I: *Malignant neoplasms of the small intestine. Am J Surg* 113:131, 1967.
- 35) Cameron AL: *Primary malignancy of the jejunum and ileum. Ann Surg* 108:203, 1938
- 36) Morton JH, Stabins SJ and Morton JJ: *Smooth muscle tumor of the alimentary canal. Ann Surg* 144:487, 1956

- 37) Broders AC, Hightower NC and Hunt WH: *Primary neoplasms of the small intestine. Arch Surg* 79:753, 1959
- 38) Ranchod M and Kempson BL: *Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract and retroperitoneum. A pathologic analysis of 100 cases. Cancer* 39:255, 1977
- 39) Chang P, Brenner CD and Wiernick PH: *Adriamycin-Actinomycin D therapy of advanced sarcoma increasing response and toxicity. Proc Am Soc Clin Oncol* 17:422, 1979

= Abstract =

Primary Leiomyosarcoma of the Small Intestine — Report of 2 Cases —

Jung Man Kim, M.D., Hwan Joo Choi, M.D.,
Kang Suek Suh, M.D. and Soon Ho Kim, M.D.

Department of Pathology, College of Medicine,
Busan National University

The incidence of leiomyosarcoma of the small intestine was low, variably reported 1 to 3 per cent of all neoplasms of the gastrointestinal tracts and 10 to 14 per cent of all cancers of the small intestine.

We have recently experienced two cases of leiomyosarcoma, one of which is located in the ileum from 63-year old female and the other in the jejunum from 53-year old female.

Grossly, the two tumor masses measured 7×6×5 cm and 10×10×8 cm in dimensions, respectively. There were areas of mucosal ulceration and hemorrhage over the mucosa. The cut surface of the masses was relatively well-demarcated, grayish white fibrous tissue with a few hemorrhagic necrosis throughout the whole layers except for mucosa. Metastasis was found in the retroperitoneum in one case and the liver in the other. Microscopically, both tumors were composed of interlacing bundles of smooth muscle cells having increased cellularity and atypical features. More than 6 mitoses per ten high power fields were found in both tumors. The metastatic lesions were infiltrated with above neoplastic cells. A brief review of literatures was made.