

자궁의 類腺腫

—Adenomatoid tumor of the uterus—

서울대학교 의과대학 병리학교실

손진희 · 안금환 · 김용일 · 이상국

서 론

1945년 Golden과 Ash¹⁾가 예전에 Lymphangioma, Adenomyoma, Reticuloendothelioma, Angiomatoid tumor, Adenofibroma, Adenoma, Mesothelioma 등으로 불리던 생식기의 종양성 병변을 Adenomatoid tumor로 명명하였다. 여성생식기에서 유선종이 호발하는 부위는 수란관 및 자궁외막(perimetrium)이며 수란관의 유선종에 관한 보고는 많이 알려져 있으나 자궁 특히 자궁외막에서 발생하는 유선종에 관한 보고는 그리 흔하지 않다. 따라서 수란관 아닌 자궁에 유선종이 관찰되는 경우 비교적 충실성 성장을 보이거나 선상배열을 하는 경우 혈관종 혹은 혈관명활근종(Angioleiomyoma)으로 오인될 수도 있다. 종양의 기원에 관해서는 많은 논란이 있어왔다. 즉 광학현미경, 전자현미경, 조직화학, 면역조직화학 및 임상적 연구등으로 mesonephric vestige, müllerian structure, endothelium 및 mesothelium 기원등의 여러가지 학설이 대두되었다.

최근 저자들은 자궁근종(증례 1, 2, 4, and 5)과 자궁부속기종양(증례 3)등의 임상적 진단하에 적출한 자궁에서 유선종양 5예를 경험하고 이들 드문 병변의 임상병리학적 특이성을 명확히 하고자 이들 5예를 재검색하였다.

증 례

1) 임상적 소견

1980년부터 1983년에 걸쳐 자궁에서 5예의 우연히

접 수 : 1984년 2월 3일

* 본 논문은 1983년도 10월 21일 강남성모병원 추계학술대회에 구연으로 발표하였음.

발견된 유선종을 경험하였다. 이는 동기간에 검색된 자궁적출예 3,073예중 5예로 전 적출자궁의 0.16%를 차지하였다.

증례 1은 50세 여자 환자로 자궁근종의 의심하에 자궁적출술을 시행하였다. 환자는 1년간 월경과다가 있었을뿐 그의 다른 증상은 없었다. 검색된 자궁은 육안적으로 크기가 8.5×6.4 cm였고 무게가 100 gm이었으며 왼쪽 자궁자 부분에 주위와의 경계가 비교적 뚜렷한 3.0×2.0×2.0 cm의 근종모양의 소결절이 있었고 이에 의하여 자궁의 모양이 변화되어 있었다.

증례 2 역시 자궁근종의 의심하에 자궁적출술을 시행하였으며 근종이나 선근종에 해당하는 소견은 육안적으로 관찰되지 않았고 우연히 절취된 자궁근종의 장막측에서 발견되었고 크기는 약 1.5×1.5×1.0 cm이었다.

증례 3은 3개월간 계속된 소량의 질출혈과 하복부 동통을 주소로 내원하여 이학적 검사상 왼쪽 자궁부속기 부위에서 주먹만한 크기의 덩어리가 만져졌다. 자궁부속기 종양을 의심하여 자궁적출술과 양쪽 부속기 절제술을 시행하였다. 적출된 자궁은 10×6×5 cm였고 무게가 110 gm이었으며 기저부의 후벽부에서 2×2 cm 크기의 비교적 주위와의 경계가 분명한 소결절이 관찰되었다(Fig. 1). 확장된 왼쪽 난관에 응고된 혈액이 관찰되었으며 현미경 소견상 자궁의 임신으로 판명되었다.

증례 4는 2년간 지속된 월경과다로 내원하여 역시 자궁근종의 의심하에 자궁적출술과 오른쪽 자궁부속기 절제술을 시행하였다. 검색된 자궁은 크기가 12×10×6 cm 이고 무게가 230 gm이었으며 여러개의 점막내지 근층내의 근종이 관찰되었고 크기는 평균 0.5 cm에서 3.0 cm 까지였다. 유선종은 여러개의 현미경적 검사절편중 근종주위의 자궁근층에서 발견되었다. 크기는 1.5×1.0×1.0 cm 정도였다.

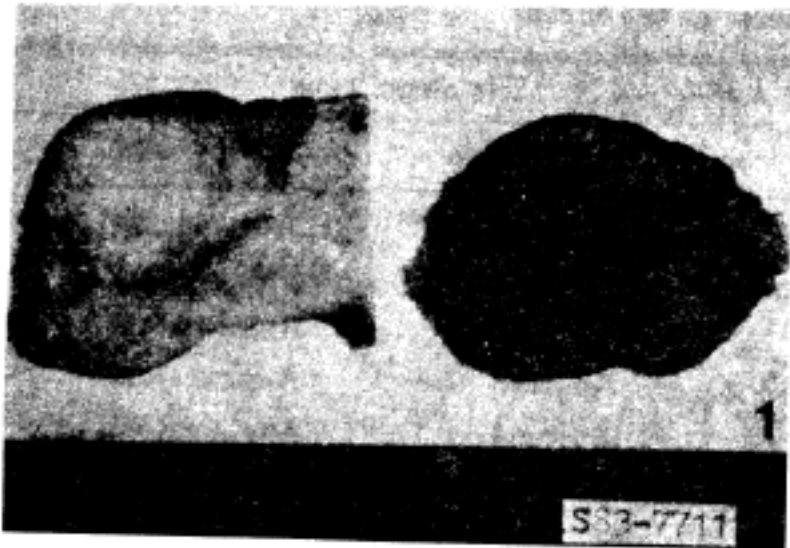


Fig. 1. Gross view of the lesion. Relatively well demarcated nodule is noted. Cut surface shows white trabeculation or whorling appearance.

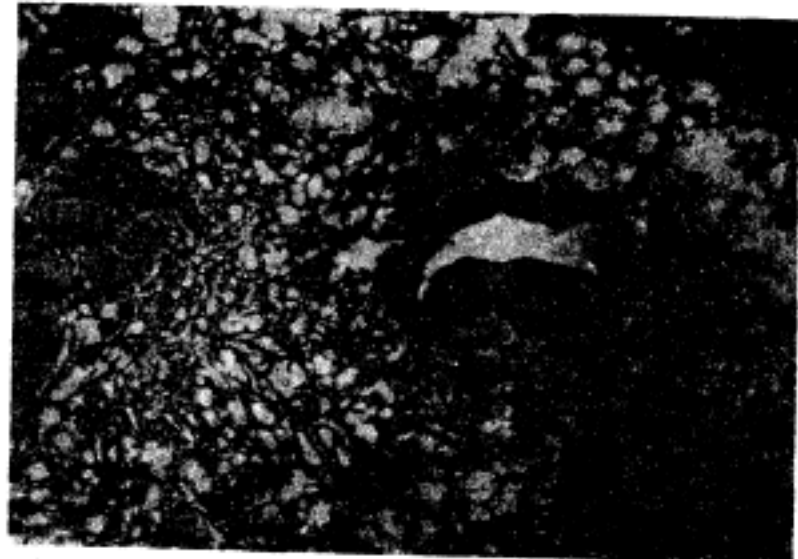


Fig. 2. Small & large cystic spaces are aggregated with interspersed fibrous stroma.



Fig. 3. Tubular or cystic spaces are lined by cuboidal or flat cells.



Fig. 4. Adenoid pattern of the adenomatoid tumor. Tubules & glands lined by cuboidal cells are seen.

증례 5는 자궁근종을 의심하여 자궁적출술을 시행하였고 몇개의 자궁근종이 있었으며 근종 주위의 자궁내막에서 우연히 발견되었다. 크기는 1.5 cm 정도였다.

2) 병리학적 소견

육안적 소견 : 전 5예 중 3예는 육안적으로 자궁외막에 인접하여 위치하고 주위 자궁근층과는 경계가 비교적 확실한 단단한 종괴로서 할면은 회백색이고 소용돌이 모양 혹은 대상(Trabeculated)이었으며 부위에 따라서는 주위 자궁근층과 경계가 불분명한 부위도 있었으며 종괴에 피막은 없었다.

증례 2와 5는 확실한 종괴가 육안적으로 인지되지는 않았으나 현미경적으로 우연히 관찰되었다. 종괴의 크기는 1.5 cm에서 3.0 cm 사이였으며 평균 직경은 2.0 cm였다.

현미경적 소견 : 증례 2, 3, 4, 5는 비슷한 소견을 보였다. 즉 작은 낭포성 구조들이 모여있거나 흩어져서 존

재하고(Fig. 2) 이들을 둘러싸고있는 세포들은 종괴세포 내지는 입방형 세포들로 주로 이루어져 있었다(Fig. 3). 이런 구조들은 선(gland)과 유사한 선상배열(adenoid pattern)을 보였으며(Fig. 4) 내강에는 국소적으로 연한 호염기성 물질이 관찰되었다. 특수염색상 내강내 물질은 Alcian blue에 양성이었으나 PAS 및 mucicarmine 음성이었다. 선상배열을 한 세포내에도 Alcian blue 양성물질이 보였으나 PAS 및 mucicarmine은 음성이었다. 국소적으로 종양세포들은 색상으로 배열되고 일부세포는 세포질내에 미세포말 혹은 큰 단일 공포(vacuole)를 가지며 핵은 세포의 변연부에 밀려있어서 "signet ring cell"과 유사하였다(Fig. 5). 이런 미세포말 혹은 세포질내 공포는 PAS음성, Alcian blue 양성반응을 보였다. 상기한 색상배열은 전체 종괴의 극히 일부분에 지나지 않았고 대부분 주위의 선상배열(Adenoid pattern)로 이행되고 있었다. 낭포성

Table 1. Adenomatoid tumor of the uterus

Case No.	Age	Size	Location	Histologic type	
				Major compo.	Minor compo.
Case 1	50	3.0 cm	Left cornu	Angiomatoid	Adenoid
Case 2	57	1.5 cm	Anterior wall	Adenoid	Angiomatoid
Case 3	36	2.0 cm	Fundus	Adenoid	Angiomatoid
Case 4	50	1.5 cm	Fundus	Adenoid	Angiomatoid
Case 5	53	2.0 cm	Anterior wall	Adenoid	Angiomatoid

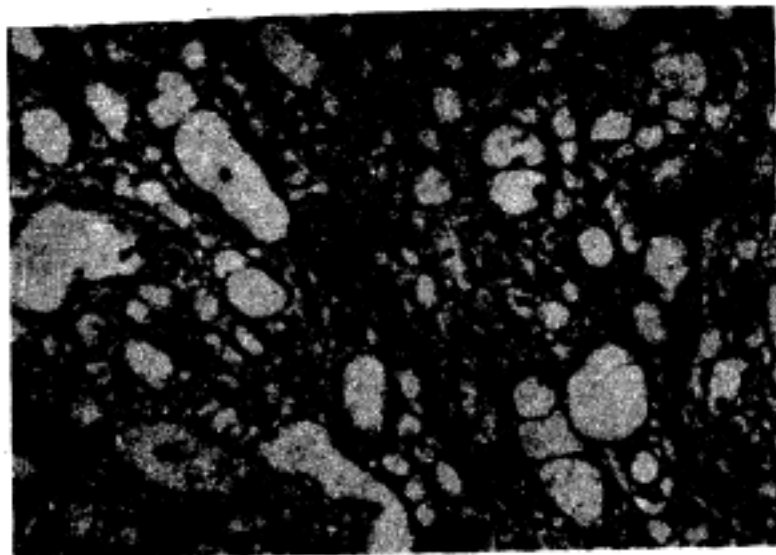


Fig. 5. Some area show cystic spaces with mucinous fluid & peripherally located nucleus exhibiting similar appearance of the signet ring cell.

구조 사이 사이에는 섬유성 조직과 평활근이 있었으며 다소의 평활근 증식이 수반된 부위도 있었다. 부위에 따라서는 간질조직이 거의 없이 낭포성 구조들이 밀집해 있었다. 혈관이나 임파관같이 보이는 넓어진 낭포성 조직도 있으면서 편평한(flattened) 세포들로 둘러싸여 있는 곳도 있었다(Fig. 6). 이런 병변은 증례 1에서 현저하였으며 이런 양상은 혈관종양(Angiomatoid)배열을 보인다고 이해되었고 내강에 혈액이 혼입된 경우 혈관종과의 감별이 필요하였다. 이상 5예의 병리 조직학적 소견을 요약하여 보면 다음 표와 같다(Table 1).

추시 :

이들 5예의 추시기간은 1달에서 3년이며 모두 퇴원 후 재발이나 기타 이상소견이 없었다.

고 안

유선종은 남성생식기중 부고환, 고환, 고환피막(testicular tunica)이나 여성생식기중 자궁, 난관등에서 주



Fig. 6. Scattered dilated cysts lined by flat cells are another feature.

로 나타나는 비교적 드문 양성종양이다. 자궁의 유선종은 더욱 드물어서 전체 자궁종양의 1%정도를 차지하고 20~40대에 주로 나타나며 대부분의 경우 크기가 작고 특별한 증상은 없이 다른 원인으로 시행한 생검 조직에서 우연히 발견된 경우가 많다. 동반되는 질환으로는 자궁근종이 50%정도에서 관찰되고²⁻⁶⁾ 그의 수반되는 질환은 선근종, 자궁내막 증식증, 난관 난소농양, 자궁경부 용종, 염증등이다.

육안적으로는 작고 단단하며 둥글거나 혹은 방추형을 갖고 고무같으면서 절단면은 노란색 내지는 회백색을 띄고 가끔 소용돌이 모양을 보인다. 대개는 경계가 분명하고 피막은 없다. 크기는 보통 0.7 cm에서 7.5 cm 까지였고²⁾ 장막 바로 아래쪽에 주로 위치한다. 현미경적으로는 여러가지 조직학적 형태로 나눌 수 있겠는데 Taxy 등³⁾은 plexiform, tubular, canalicular type 등으로 나누고 있고 Quigley 등⁵⁾은 Adenoid, angiomatoid, solid, cystic 등 4가지 형태로 나누었으며 대개는 이들 형태가 섞여서 나타나고^{4,7)} 작은 낭포성 구조들이 모여 벌집모양을 보이기도 한다. 이들의 세포는 상피세포같이 보이는데 풍부한 세포질과 둥글고, 한쪽으로 밀려서 위치하는 핵을 갖고 세포질 내에는

다양한 크기의 공포를 갖는 것으로 되어 있다. 낭포성 구조를 싸는 세포는 납작한 입방형세포로 주로 되어 있다. 간혹 투명해 보이는 세포질을 많이 가지고 있어 signet ring cell 같이 보이는 경우가 있는데 이 세포질 내의 물질은 PAS 음성이고 acid mucopolysaccharide 를 풍부히 가지고 있다고 알려져 있다³⁾. 이상의 육안적 및 현미경적 소견은 본 검색에서 관찰된 소견과 일치한다. 또한 평활근 섬유를 가지는 수가 많다(70%).^{2,8)} 본 검색에서도 유선종 세포의 증식과 더불어 평활근 증식이 관찰되었고, 평활근은 자궁 이외의 장소, 즉 난소, 장간막 등의 유선종에서는 나타나지 않는 점에 비추어 종양성분이라기 보다 유선종에 병발된 자궁 평활근의 반응성 증식으로 이해된다.

세포의 기원에 대해서는 여러가지 설이 대두되어 예전에는 Müllerian duct origin⁹⁾, mesonephric origin⁹⁾, endothelial origin^{8,9)} 등이 있었으나 세포질 내에 공포가 있고²⁾, factor VIII항체가 음성¹⁰⁾으로 나오고 keratin 물질을 가지고 있는 점에서 endothelial origin 과는 부합되지 않으며 mesonephric origin 인 질이나 광인대에서는 유선종이 나타나지 않는 점⁹⁾이 mesonephric origin 을 부정하는 소견이라고 하겠다. 그러나 immunoperoxidase 법을 이용한 연구에서 keratin 이 유선종에서 증명된 것은 mesothelial origin 과 부분적으로 일치하고 있다. 그러나 keratin 자체가 mesothelial cell 에 특이한 물질이라는 점에서 해석에 주의할 요한다. 한편 일부 유선종에서는 전자 현미경적으로 혈관내피기원을 암시하는 소견이 나타나고 있다.

Mesothelial origin 이라는 것을 뒷받침할 수 있는 증거는 다음과 같다^{4,7,11,12)}.

- 즉 1) 난관장막의 중피와 연결이 있을 수 있는 점.
- 2) 종양이 장막 바로 옆에서 주로 나타나는 점.
- 3) Hyaluronidase-sensitive acid mucopolysaccharide 를 가지고 있는 점.
- 4) 중피세포가 상피세포 모양을 하거나 세관모양을 형성할 수 있는 점.
- 5) 면역 조직학적 검사에서 중피세포가 가지는 각질을 가지고 있는 점등을 들 수 있다.

본 검색에에서 4예 모두 장막 직하부에 위치하고 특이한 세포형 증식을 보이고 세포내에 mucopolysaccharide 양성인 소견은 장막기원(mesothelial origin)을 암시하고 있다.

전자현미경 소견으로는 미세용모, 사상체, 교세포 등이 있고^{8,10)} 혈관종이나 임파관종에서 보이는 혈장포엽(plasma lemnae)이나 macula adherens 는 없어 중

피세포기원을 암시한다고 이해되고 있다. Barwick 등은 혈관내피세포에 특이한 factor VIII항체가 유선종에 관찰되지 않는 점에 미루어 보아 유선종이 혈관내피기원일 가능성은 희박하다는 견해를 보이고 있다.

치료로는 절제만으로도 치료가 되고 국소재발이나 원격전이는 보고된 예가 없다.

본 검색에서 5예 모두 다른 자궁 병변에 수반된 우발적 병변이었고 유선종으로 인한 후유증은 없었다.

REFERENCES

- 1) Golden A, Ash JE: *Adenomatoid tumors of the genital tract. Am J Pathol* 21:63-79, 1945
- 2) Young LA, Taylor HB: *Adenomatoid tumors of the uterus and fallopian tube. Am J Clin Pathol* 48:537-545, 1967
- 3) Taxy JB, Battifora H, Oyasu R: *Adenomatoid tumors; a light microscopic, histochemical and ultrastructural study. Cancer* 34:306-316, 1974
- 4) Lee MJ, Dockerty MB, Thompson GJ: *Benign mesotheliomas (Adenomatoid tumors) of the genital tract. Surg Gynecol Obst* 91:221-231, 1950
- 5) Quigley JC, Hart WR: *Adenomatoid tumors of the uterus. Am J Clin Pathol* 76:627-635, 1981
- 6) Fierenczy A, Fenoglio J, Rechart RM: *Observations on benign mesothelioma of the genital tract. (Adenomatoid tumor) A comparative ultrastructural study. Cancer* 29:148-164, 1972
- 7) Evans N: *Mesothelioma of the epididymis and tunica vaginalis. J Urol* 50:249-254, 1943
- 8) Morehead RP: *Angiomatoid formations in the genital organs with and without tumor formation. Arch Path* 42:56-63, 1946
- 9) Jackson JR: *The histogenesis of the adenomatoid tumor of the genital tract. Cancer* 11:337-350, 1958
- 10) Marcus JB, Lyrrn JA: *Ultrastructural comparison of an adenomatoid tumor, lymphangioma, hemangioma and mesothelioma. Cancer* 25:171-175, 1970
- 11) Horn RC and Lewis GC: *Mesothelioma of the*

- female genital tract. Review of the literature and report of five cases involving the uterus. Am J Clin Pathol 21:251-259, 1951*
- 12) Barwick KW, Madri JA: *An immunohistochemical study of adenomatoid tumors utilizing keratin and factor VIII antibodies Lab Investigation 47:276-280, 1982*
- 13) Eimoto T, Inoue I: *Malignant fibrous mesothelioma of the tunica vaginalis. A histologic and ultrastructural study. Cancer 39:2059-2066, 1977*
- 14) Tiltman AJ: *Adenomatoid tumors of the uterus. Histopathology 4:437-443, 1980*
- 15) Mackay B, Bennington JL, Skoglund RW: *The adenomatoid tumor: fine structural evidence for a mesothelial origin. Cancer 27:109-115, 1971*

= Abstract =

Adenomatoid Tumor of the Uterus

Jin Hee Sohn, M.D., Geung Hwan Ahn, M.D.
Yong Il Kim, M.D. and Sang Kook Lee, M.D.

Department of Pathology, College of Medicine
Seoul National University

In 1945 Golden & Ash proposed the term "adenomatoid tumor" for certain distinctive neoplasms of the genital tract.

Adenomatoid tumor of the female genital tract

occurs frequently in uterus, fallopian tube, ovary and parovarium. Adenomatoid tumors arising in the uterus are not well-recognized and are sometimes mistaken for other neoplasms. Recently, we experienced 5 cases of adenomatoid tumor of the uterus which are found by chance. They were small nodular lesions (1.5~3.0cm) with well demarcated margin in the subserosa of the uterus.

Microscopically, they show small anastomosing gland-like spaces lined by cuboidal or flat cells. Some areas show dilated pseudo-vascular channels interspersed among bundles of myometrial smooth muscle.