

Sclerosing Stromal Tumor of the Ovary

—3예 보고—

서울대학교 의과대학 병리학교실

유 은 실 · 이 현 순 · 안 금 환

서 론

난소에 생긴 sclerosing stromal tumor는 1973년 Chalvardjian과 Scully 등이 처음으로 10예를 보고하면서 난소의 기질세포(stromal cell)기원의 다른 종양들과 임상 및 형태학적으로 구분되는 드문 양성 종양으로 처음 기술하였다¹⁾. 이후 산발적인 증례 보고들이 있었으며 국내에서도 산발적인 증례 경험은 있었으나²⁾ 문헌상 보고된 바 없어 저자들은 1977년부터 1984년까지 서울대학교병원에서 병리학적으로 검색된 3예의 sclerosing stromal tumor를 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1.

환자는 23세의 여자로서 수년전 발견한 복부종괴 및 6개월 동안 계속된 월경불순(menstrual irregularity)과 질출혈(vaginal bleeding)을 주소로 내원하였다. 초경은 16세에 있었으며 월경주기는 규칙적이었다. 이학적 소견상 좌측 난소 부위에 종괴가 만져졌다. 검사 소견상 특별한 내분비 이상은 없었으며 복부 X선 촬영에서 석회화를 동반한 종괴가 좌측 난소부위에서 발견되었다. 수술 소견상 복강내 주위 조직과의 유착이나 복수는 없었다.

좌측 난소에 생긴 종양은 크기가 22×19×9 cm였으며, 무게는 2,500 gm이었다. 한편은 다방성 낭성이었으며 낭내에는 혈성 삼출액이 함유되어 있었다. 현미경적으로는 종괴는 세포성이 높은 부위와 부종성의 소성

조직이 불규칙하게 혼합된 양상을 보여서 세포성이 높은 섬유성 조직은 세포성이 적고 교원질성이거나 부종성인 소성 조직에 의해 위엽상 형태를 이루었다. 세포성이 높은 부위는 원형의 상피양 세포와 방추형 세포가 혼재되어 있었다. 원형의 세포는 포상핵과 뚜렷한 인을 가지고 있었다. 세포성이 높은 부위에는 많은 혈관이 있었고 부위에 따라서는 교원섬유 침착이 특징적으로 개개 세포 주위에 나타나 있었다.

증 례 2.

환자는 25세의 미경산부로 2년간 계속된 월경과다(hypermenorrhea)를 주소로 입원하였다. 초경은 20세에 있었으며 주기는 규칙적이었다. 이학적 검사에서 자궁은 커져 있었고 여러개의 유동성 종양이 만져졌다. 다발성 자궁근종이 의심되어 수술을 시행하였는데 복강내에 혈액 또는 복수는 없었으며 주위 조직과의 유착도 없었다. 우측 난소에 회백색의 종괴가 있었으며 우측 난소 절제 및 좌측 난소의 wedge resection을 시행하였다. 본 증례는 임상 추적 조사결과 재발의 증거 없이 건강하였으며 수술후 1년 4개월만에 임신 16주임이 소변 HCG 양의 증가 및 초음파 촬영으로 확인되었다.

종양의 크기는 8.0×6.5×6.0 cm였으며 무게는 105 gm이었다. 외면은 회백색 및 황색을 띠었으며 매끈하였다. 한편에서는 회백색의 단단한 종양조직은 경계가 명확한 편이었고 정상적인 난소 조직을 가장자리로 밀면서 pushing margin을 보였다. 종괴내에 부분적으로 낭포성 변화를 보였고 낭내에는 장액성 용액이 차 있었으며 피사나 출혈은 보이지 않았다(Fig. 1). 현미경적으로도 정상 난소 조직은 종양조직에 의해 가장자리로 밀려 떠를 형성하였다. 저배율상에서 특징적인 위엽상 형태를 보였으며(Fig. 3) 세포성분이 없는 부분은 교원질의 침착이 심하거나 부종성인 조직임을 Masson's trichrome 염색으로 분명히 알 수 있었다.

접 수 : 1985년 3월 27일

* 증례중 일부는 1982년 2월 20일 대한 병리학회 월례 집담회에서 발표되었음.



Fig. 1. Well circumscribed tumor mass with peripherally displaced ovarian tissue. Cut surface shows gray tan glistening tissue and a few small cysts.(case 2)



Fig. 2. Cut surface of the tumor. Note its sharp circumscription and central cystic degeneration.(case 3)

Reticulin fiber 염색에서는 개개의 종양세포를 둘러싸거나 종양세포가 밀집되어 이루어진 소엽을 둘러싸는 풍부한 reticulin fiber 를 확인할 수 있었다. 세포성분이 많은 부위는 세포질이 풍부하고 청명하며 핵이 원형 또는 난형인 세포들과 방추형의 세포들로 이루어져 있었다. 세포성분이 밀집되어 있는 부위와 소성조직의 경계부위에 다양한 크기의 혈관들이 다수 분포하였다 (Fig. 4).

증례 3.

환자는 24세 미혼여성으로 입원 4년전 1년간 월경이 없다가 그후에는 1개월에 2회씩 불규칙하게 계속되었

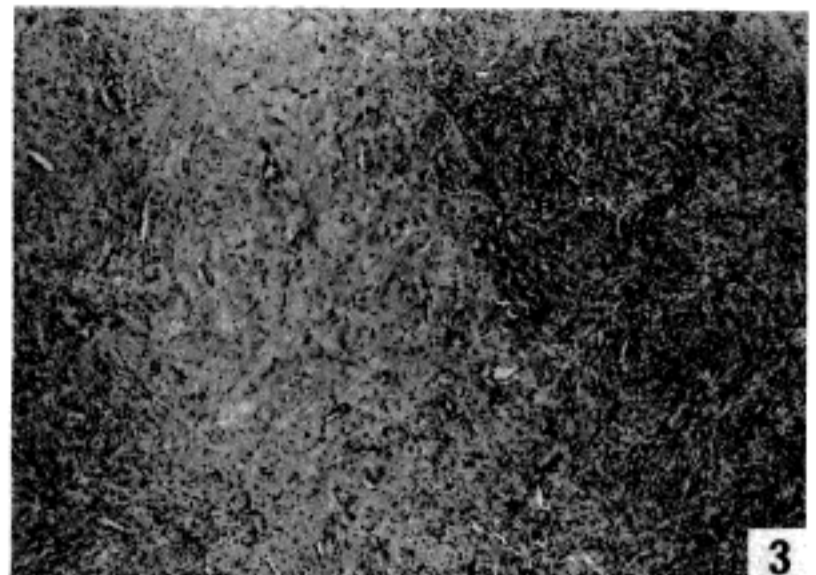


Fig. 3. Pseudolobular appearance by alternation of cellular area and poorly cellular collagenous tissue.(H&E, ×40)

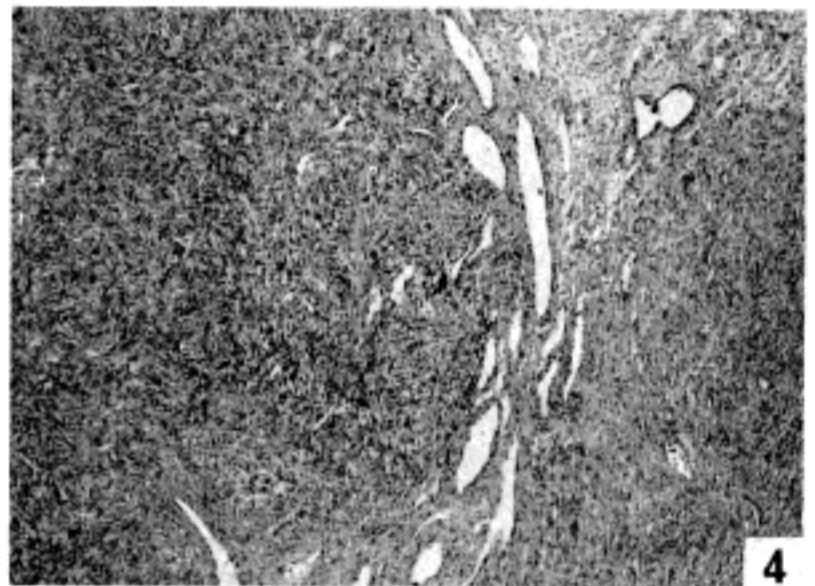


Fig. 4. Cellular areas surrounded by dilated thin walled capillaries and an edematous area at the top.(H&E, ×40)

다. 초경은 14세에 있었다. 최근 하복부 종괴가 촉진되어 초음파 촬영에서 부분적으로 낭을 형성한 좌측 난소 종양을 확인하여 좌측 부속기절제술을 받았는데 종양은 주변 조직과 쉽게 박리되었으며 복수도 없었다. 종양의 장경은 11 cm였으며 외면은 비교적 윤택하였다. 비교적 단단한 종양의 한면은 회백색이었으며 주위 조직과의 경계는 명확하였으며 중앙부에 낭성변화를 보였다(Fig. 2). 현미경적으로 위소엽양으로 종양세포가 분포하였으며 원형의 세포들과 그들 사이사이에 방추형 세포가 혼재하여 전형적인 sclerosing stromal tumor의 소견이었다(Fig. 5). 증례 1과 2에 비하여 종양세포들이 보다 풍부하고 청명한 세포질을 가지고 있어 Leydig cell을 연상케 하였으나 crystalloid of Reinke은 확인할 수 없었다(Fig. 6).

Table 1. Clinicopathologic findings of sclerosing stromal tumor of the ovary

| Case No. | Age (yrs) | Chief complaints | Size & Weigh | Gross appearance | Operation | Follow-up |
|--------------|-----------|--|-----------------------|--|--|--------------------------------|
| 1. S77-1888 | 23 | Abdominal mass for several years, menstrual irregularity & vaginal spotting for 6 months | 22×19×5 cm 2,500 g | Multilocular cyst with hemorrhagic serous fluid | Lt. salpingoophorectomy & appendectomy | Lost to follow-up |
| 2. S83-7586 | 25 | Hypermenorrhea for 2 years | 8×6.5×5 cm 105 g | Greyish white to yellow, partly cystic | Rt. ovarian cystectomy & Lt. ovary wedge resection | Live & well, 1 year & 5 months |
| 3. S84-12200 | 24 | Menstrual irregularity & abdominal mass for 4 years | 11×11×11 cm | Greyish white, solid and cystic with serous fluid. | Lt. adnexectomy & appendectomy | Live & well, 3 months |

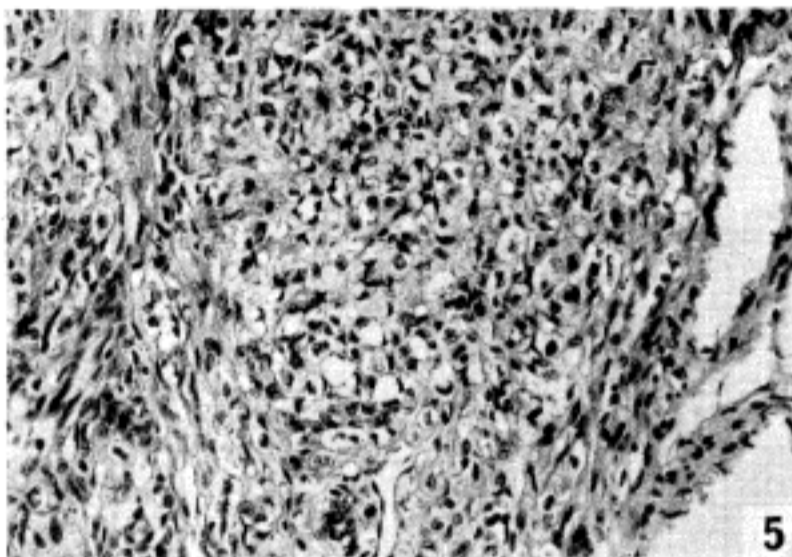


Fig. 5. Cellular area being composed of rounded cells with an epithelial appearance and spindle-shaped cells. Note the dilated thin walled capillaries in a cellular area. (H&E, ×200)

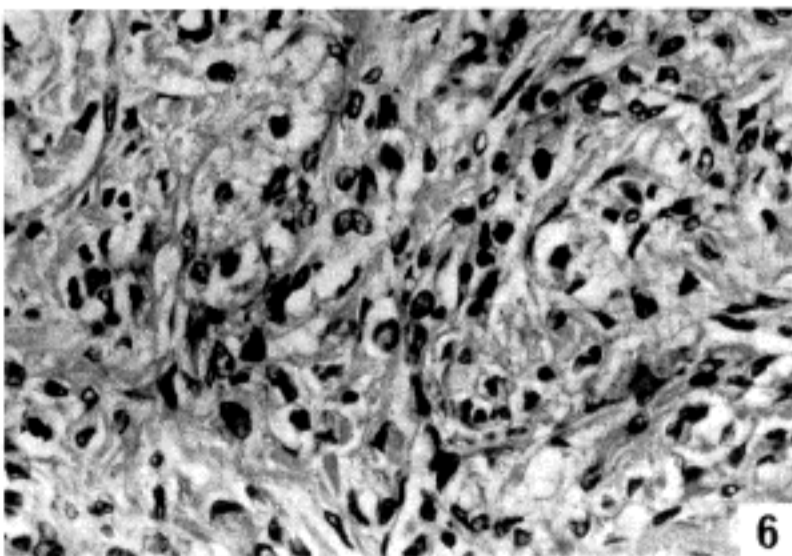


Fig. 6. Rounded cells with clear cytoplasm occasionally resemble signet-ring cells. Spindle-shaped cells are also scattered. (H&E, ×400)

고 안

난소의 기질세포에서 기원하는 종양에는 섬유종(fibroma), 포막종(thecoma), 황체화된 섬유종 및 포막종과 리포이드 세포종의 일부가 속하며³⁻⁸⁾ 이들은 형태학적으로 구분하기 어려운 경우도 많기 때문에 소위 thecoma-fibroma group의 종양으로 일괄하여 구분하기도 한다⁹⁾. 그러나 sclerosing stromal tumor는 위의 종양들과는 임상 및 형태학적으로 뚜렷이 구별되는 특징을 가지고 있어 이 종양의 진단은 비교적 용이한 편이다. Sclerosing stromal tumor가 난소기질에서 기원했으리라고 짐작하는 근거로는 1) 종양세포의 세포질이 청명하고 공포가 있어 thecoma-fibroma group의 종양세포들과 유사하다는 점, 2) 세포 주변에 망상 섬유가 풍부하고, 3) 세포내 지방을 확인할 수 있다는 점을 들고 있다¹⁾. 또한 전자현미경 검색에서 이 종양이 난포막세포와 과립막세포 뿐만아니라 전형적인 난소피질세포에서부터 섬유아세포에 이르기까지 여러 종류의 기질세포로 구성되어 있음을 확인하였는데¹⁰⁾ 이와 같은 소견 역시 sclerosing stromal tumor의 기원세포에 대한 근거를 제시해 준다고 생각된다.

임상적으로 10, 20대에 호발하며 미경산부에 다소 많다는 특징이 있다. 주된 임상 소견은 부정자궁출혈이나 기능성자궁출혈등의 월경불순, 골반통, 골반내 종괴의 순서이다. 본 증례들은 기원의 전형적인 sclerosing stromal tumor의 특징적인 현미경 소견인 밀집된 종양세포들과 소성조직에 의한 위열상 형태와 원형 또는 방추형의 종양세포들, 풍부한 혈관증식과 아울러 임상소견도 잘 부합하였다. 그러나 증례 1은 무게가

2,500 gm 으로 기왕의 보고예들이 226~620 gm 인데 비하여 큰 차이를 보였다.

Chalvardjian 등은 sclerosing stromal tumor 가 내분비기능 이상을 시사하는 임상 증상을 보이지 않는 비활동성 종양으로 간주하였으며 비정상적인 자궁출혈은 종양의 비특이적 압력 효과 때문이라 하였다^{1,12)}. 그러나 Damjanov 등은 수술 전후의 소변내 호르몬 분석과 전자현미경 검색을 통해 이 종양이 estrogen 과 androgen 을 모두 분비하는 기질세포 기원의 활동성 종양임을 보고하였다¹⁰⁾. 또한 Yuen 등도 estradiol, progesterone 및 testosterone 을 분비하는 sclerosing stromal tumor 1예를 보고하였다¹¹⁾. 이 예에서는 활동성 종양이 clomiphene citrate 치료에도 불구하고 계속되는 무배란성 불임증을 유발하였으나 수술후 정상적인 월경 주기로 회복되었으며 9개월 후 정상적인 임신이 가능하였다. 본 증례들은 수술 전후의 소변 및 혈액내 호르몬 측정이 되어 있지 않아 직접적인 증거는 제시할 수 없으나 수술 후 정상적인 월경주기가 회복되었고 증례 2의 경우 종양 제거 후 임신이 가능했던 것은 이 종양에 의해 호르몬 대사의 이상이 있었을 가능성을 시사한다고 생각된다.

결 론

Sclerosing stromal tumor 은 난소의 기질세포에서 기원한 양성 종양들과는 다른 임상 및 병리학적으로 특징적인 소견을 보이는 비교적 드문 양성 종양이다. 저자들은 서울대학교병원에서 지난 8년간 경험한 3예의 sclerosing stromal tumor 의 임상병리학적 소견을 요약하여 보고하는 바이다. 증례들은 모두 20대의 미경산부로 6개월 내지 4년간 지속된 월경불순을 주소로 입원하였다. 수술 소견상 3예 모두 주변 조직과의 유착이나 복수는 없었으며 난소절제술 또는 부속기절제술을 시행하였다. 종양은 주변 조직과 경계가 분명하였으며 단단하였다.

크기는 장경이 각각 22 cm, 8 cm, 11 cm 였으며 할면은 모두 회백색 혹은 회황색 충실성 조직이었고 장액성 또는 혈성액을 가지고 있는 낭성 변화를 보이는 부위도 관찰되었다. 현미경적으로 세포성이 높은 부위와 부종성이거나 섬유성인 부위가 혼합되어 이루어진 불규칙한 위엽상이 특징적이었다. 종양세포들은 두 종류로 세포질이 풍부하고 청명한 난원형의 세포들과 소수의 방추형 세포로 이루어져 있었다. 종양세포 주변으로 교원섬유의 침착이 심하여져 세포성분이 적은 부위

로 이행하는 소견을 보였다. 다양한 크기의 혈관들은 특히 세포성분이 많은 부위에 다수 분포하였다. 유사분열상은 매우 드물어 모든 예에서 10개 고배율영역에서 1개이하였으며 괴사 부위는 없었다.

본 증례들은 전에 모두 양성 경과를 보여 3개월에서 1년 5개월 동안의 임상추적 조사에서 재발의 증거는 없었으며 증례 2의 경우 수술 후 정상적인 월경주기로 회복되고 임신이 가능하였다. 본 증례중 무배란성 불임이나 월경불순등의 임상증상을 보이는 증례는 종양이 분비하는 호르몬에 의한 것으로 추정되었다.

REFERENCES

- 1) Chalvardjian A, Scully RE: *Sclerosing stromal tumor of the ovary*. *Cancer* 31:664-670, 1973
- 2) 안공환 : 난소종양의 병리학적 연구. *서울의대 학술지* 23:47-58, 1982
- 3) Dockerty MB, Masson JC: *Ovarian fibroma. A clinical and pathological study of two hundred and eighty three cases*. *Am J Obstet Gynecol* 47:741-752, 1944
- 4) Scully RE: *Stromal luteoma of the ovary. A distinctive type of lipoid cell tumor*. *Cancer* 17:769-778, 1964
- 5) Taylor HB, Norris HJ: *Lipid cell tumors of the ovary*. *Cancer* 20:1953-1962, 1967
- 6) Scully RE: *Stromal luteoma of the ovary*. *Cancer* 17:769-778, 1964
- 7) Kalstone CE, Jaffe RB, Abell MR: *Massive edema of the ovary simulating fibroma*. *Obstet Gynecol* 34:564-571, 1969
- 8) Taylor HB, Norris HJ: *Lipid cell tumors of the ovary*. *Cancer* 20:1953-1962, 1967
- 9) Scully RE: *Tumors of the ovary and maldeveloped gonads. 2nd series AFIP. Washington*, 1979
- 10) Damjanov I, Drobnjak P, Grizelj V, Longhino N: *Sclerosing stromal tumor of the ovary. A hormonal and ultrastructural analysis*. *Obstet Gynecol* 45:675, 1975
- 11) Yuen BH, Robertson DI, Clement PB, Mincey EK: *Sclerosing stromal tumor of the ovary*. *Obstet Gynecol* 60:252, 1980

- 12) Malkasian Jr GD, Dockerty MB, Wilson RB, Farber JE: *Functioning tumor of the ovary in women under 40. Obstet Gynecol 26:669-675, 1965*

= Abstract =

Sclerosing Stromal Tumor of the Ovary

—A report of 3 cases—

Eun Sil Yu, M.D., Hyun Soon Lee, M.D.
and Geung Hwan Ahn, M.D.

*Department of Pathology, College of Medicine
Seoul National University*

Three cases of sclerosing stromal tumor of the ovary are presented. All three patients were nulli-

parous young women of 23~25 years of age, presenting with menstrual irregularity for 6 months to 4 years. Grossly the tumors ranged in size from 8 to 22 cm in greatest diameter, showing gray white to yellow solid or predominantly cystic tissue with serous fluid. The common microscopic finding was that of cellular areas admixed with dense fibrous and/or edematous tissue, presenting pseudolobular appearance. Two types of tumor cells were rounded cells with clear vacuolated cytoplasm and less numerous spindle shaped cells. Postoperative course was uneventful and menstrual irregularity disappeared postoperatively. In case 2, the patient got pregnant after 1 year and 4 months. This clinical course suggests that sclerosing stromal tumor of the ovary may be endocrinologically active.