

## 성삭종양 분화를 보인 자궁내막 간질육종 1예 보고

연세대학교 의과대학 병리학교실

조미연 · 김규래 · 정우희 · 정현주 · 이기범

### Low-grade Uterine Endometrial Stromal Sarcoma Resembling Ovarian Sex-Cord Tumor — A case report —

Mee Yon Cho, M.D., Kyu Rae Kim, M.D., Woo Hee Jung, M.D., Hyeon Joo Jeong, M.D. and Kyi Beum Lee, M.D.

Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine

A case of low-grade endometrial stromal sarcoma resembling ovarian sex-cord tumor in the uterus of a 43-year-old woman is described. This tumor belongs to the group II category of uterine tumors resembling ovarian sex-cord tumor described by Clement and Scully, and the epithelial-like elements show prominent smooth muscle differentiation, proved by immunoreactivity for desmin and actin. The patient did not receive any adjuvant therapy; she is alive and well without recurrence 8 months postoperatively.

**Key Words:** Endometrial stromal sarcoma, Adenomyosis, Ovarian sex-cord tumor

#### 서 론

난소의 성삭종양과 유사한 상피양 구조를 보이는 자궁의 원발성 종양은 1945년 처음으로 기술된 후<sup>1)</sup>, Clement와 Scully<sup>2)</sup>가 14예를 보고하였으며, 그후에도 국외문헌을 통하여 수례의 산발적인 보고가 있었으나<sup>2-6)</sup>, 국내문헌을 통하여는 아직 보고된 예가 없다. 또한, 보고된 예가 적어 그 치료방법과 예후에 있어 통상의 자궁내막 간질육종과 비교할때 어떤 차이가 있는지에 대하여 잘 밝혀져 있지 않은 질환이다.

이에 저자들은 43세 여자의 자궁선근증과 동반된 자궁내막 간질육종에서 난소의 성삭기원 종양과 유사한 조직소견을 보였던 1예를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

#### 증 례

환자는 G<sub>4</sub>P<sub>1</sub>L<sub>2</sub>D<sub>0</sub>A<sub>2</sub>의 산과력을 가진 43세 여자로서, 28일간의 계속된 하복부동통과 질출혈을 주소로 내원하였다. 환자의 과거력과 가족력에는 특이사항이 없었으며, 골반내진상 이상소견은 없었다. 초음파검사 소견상 자궁선근증의 소견이 있어 자궁적출술을 시행하였다.

#### 절제된 자궁의 육안 소견

자궁의 크기는 9×6×5 cm로 약간 커져 있었으나 외형은 비교적 정상이었다. 자궁내강을 따라 절단했을 때, 후측 자궁벽에서 기시하여 자궁강내로 돌출하는 장경 1.5 cm 크기의 용종형 종괴가 관찰되었고, 이의 기시부로 부터 자궁근층내로 침윤하는 듯한 경계가 불명확한 부위가 관찰되었다. 종괴의 단면은 회백색이었으며, 출혈이나 괴사가 없이 고형성의 균일한 조직으

접 수: 1991년 3월 13일, 게재승인: 1991년 5월 1일  
주 소: 서울시 서대문구 신촌동 134번지, 우편번호 120-752  
연세대학교 의과대학 병리학교실, 조 미 연

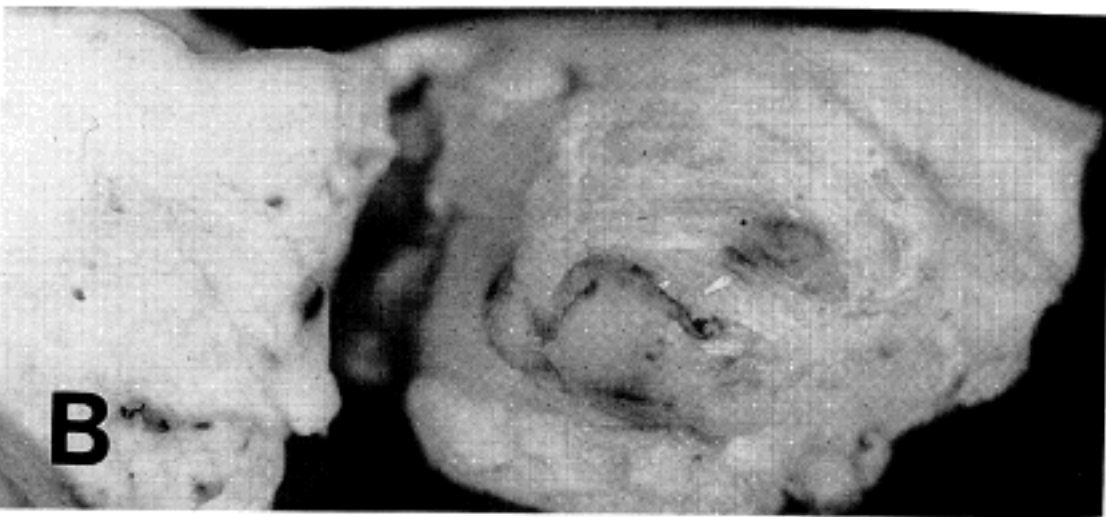
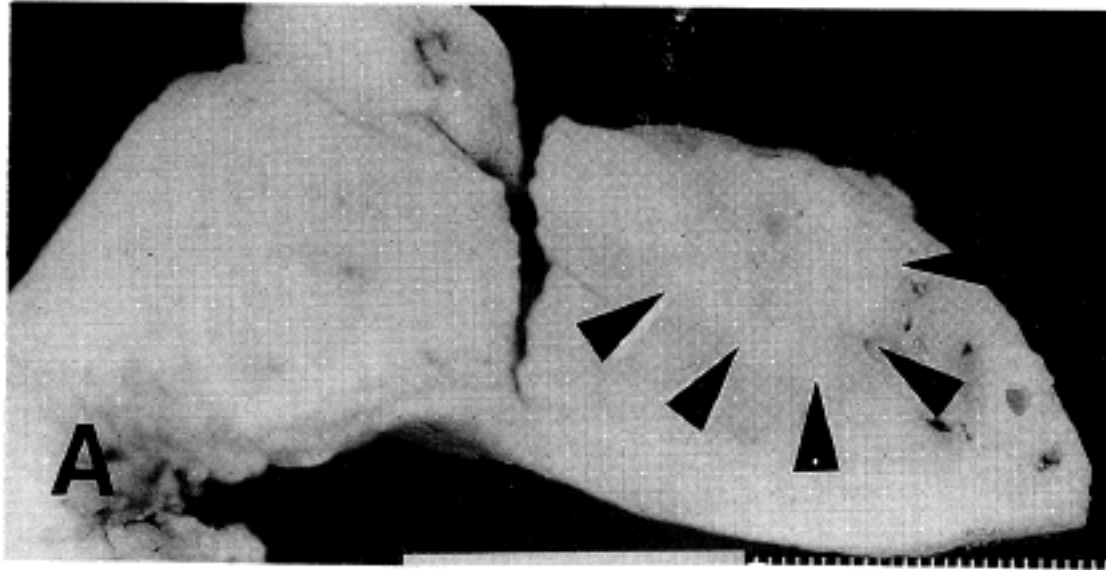


Fig. 1A & B. Photographs show yellowish white solid tumor involving endometrium and myometrium with infiltrative growth(A). Worm-like protrusion is noted around the serosal layer(B).

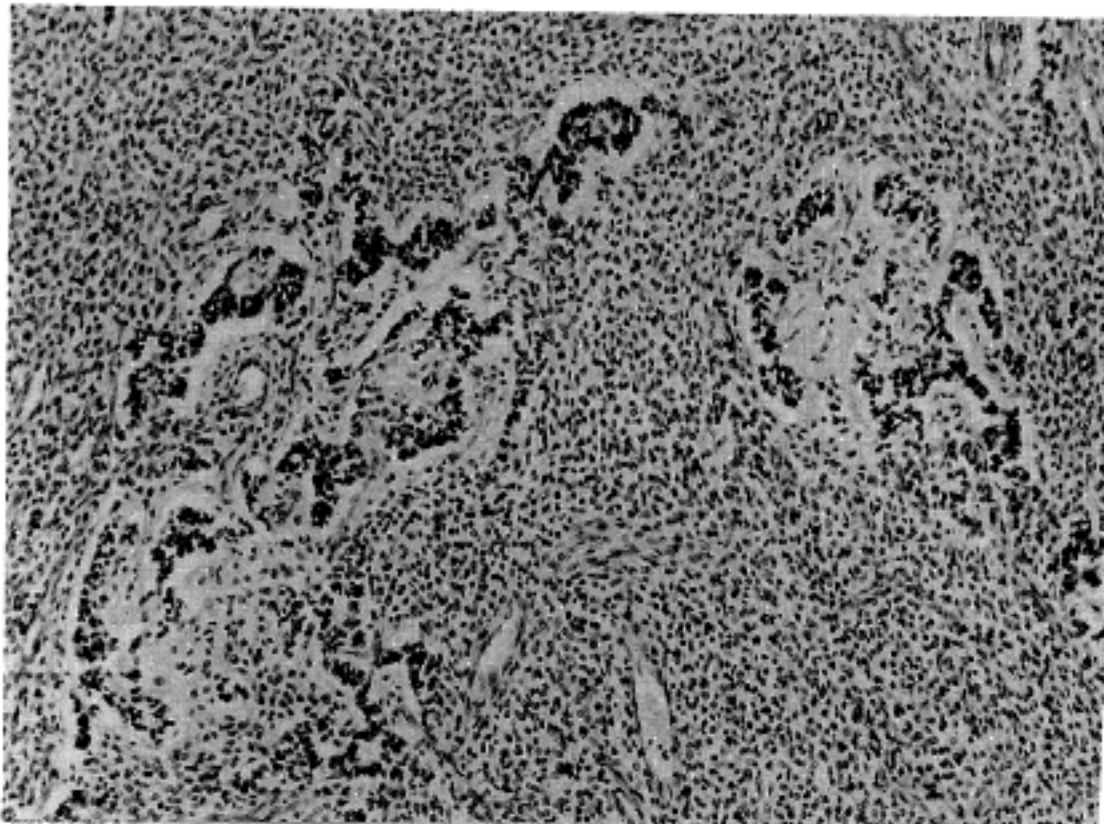


Fig. 2. Anastomosing irregular bands or cords of epithelial-like tumor cells resembled ovarian sex-cord tumor.

로 구성되어 있었고, 자궁근층내로 침윤하는 듯한, 부위의 장경은 약 4cm로써, 정상조직과의 경계가 불명확하였다(Fig. 1A). 장막층 근처의 자궁근층내에서 선

근종의 육안소견과 함께 종양조직의 충양성 돌출(worm-like protrusion)을 관찰할 수 있었다(Fig. 1B).

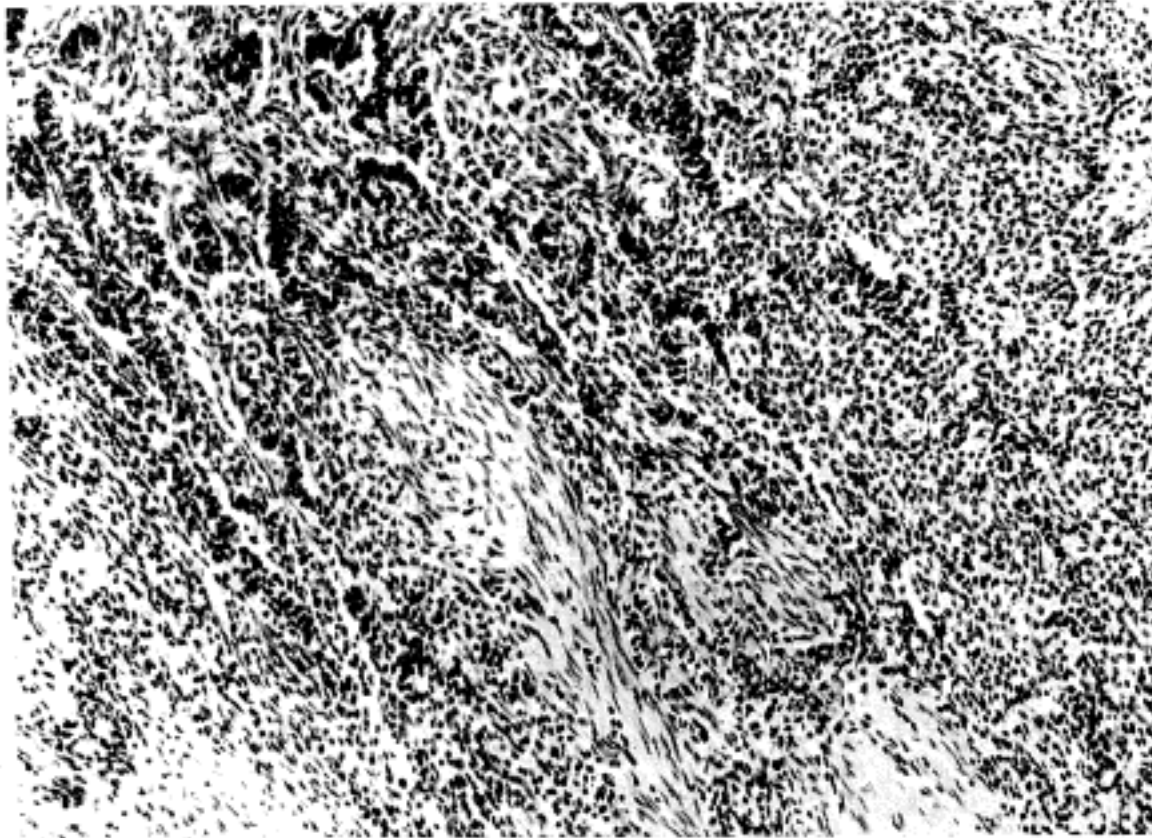


Fig. 3. Tumor cells are infiltrating into the myometrium and blood vessels beyond the tumor mass.

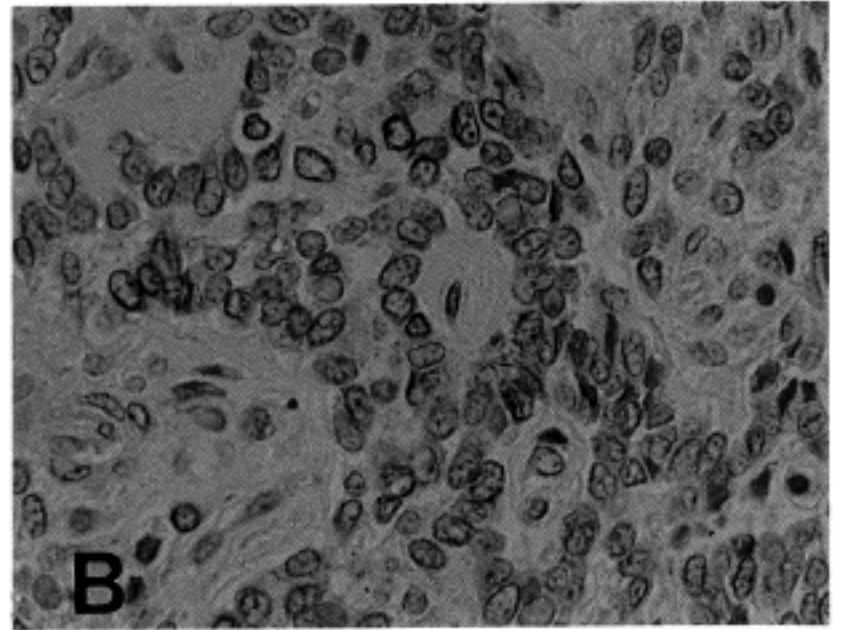
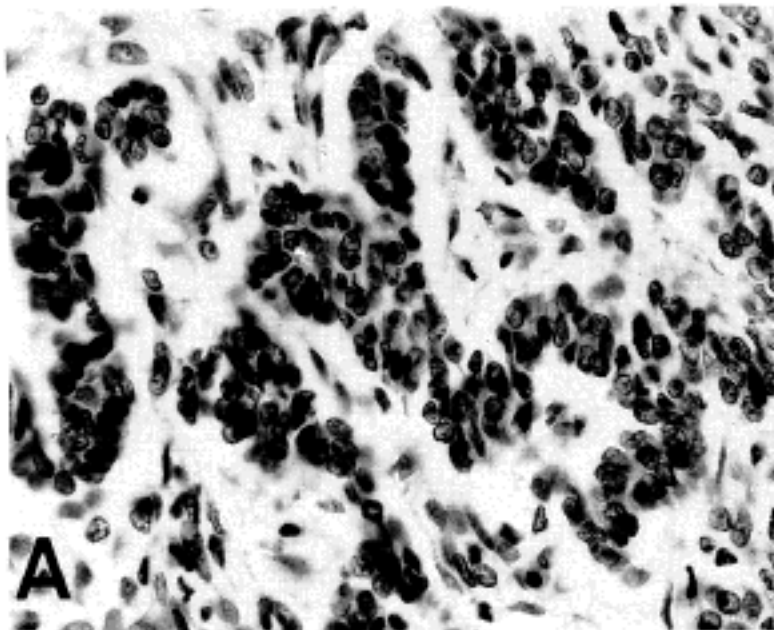


Fig. 4A & B. Tumor cells in cord-like arrangement show hyperchromatic and large nuclei without prominent nucleoli(A). These cells show immunoreactivity for desmin(B).

#### 현미경 소견

종양의 대부분은 전형적인 자궁내막 간질종양의 양상으로 정상 증식기의 자궁내막 간질세포와 유사하였으며, reticulin 염색에서 종양내에서 나선형 미세동맥양(spiral-arteriole-like) 혈관증식이 현저한 것을 확인할 수 있었고, 그 내부 곳곳에 난소의 과립세포종을 연상케하는 상피양 세포들의 리본, 띠, 대모양, 혹은 불규칙한 판상배열을 관찰할 수 있었다(Fig. 2). 이

들 세포들은 배경을 이루고 있는 전형적인 자궁내막 간질 종양 세포보다는 크기가 다소 크고, 핵은 농염되어 있었으며, 핵인은 선명하지 않았고, 유사분열은 10 HPF당 1개 이하로 관찰되었다(Fig. 4A & 5). 또한, 여러곳에서 세포간에 초자변성을 보이는 곳을 관찰할 수 있었다. 종양의 변연부에서는 종양세포가 자궁근층 및 혈관벽으로 침윤성 성장을 하고 있는 것을 관찰할 수 있었으며(Fig. 3), 자궁근층 깊이 주종피와 떨어져 있는 부위에서 자궁선근증을 이루고 있는 자궁내막 간



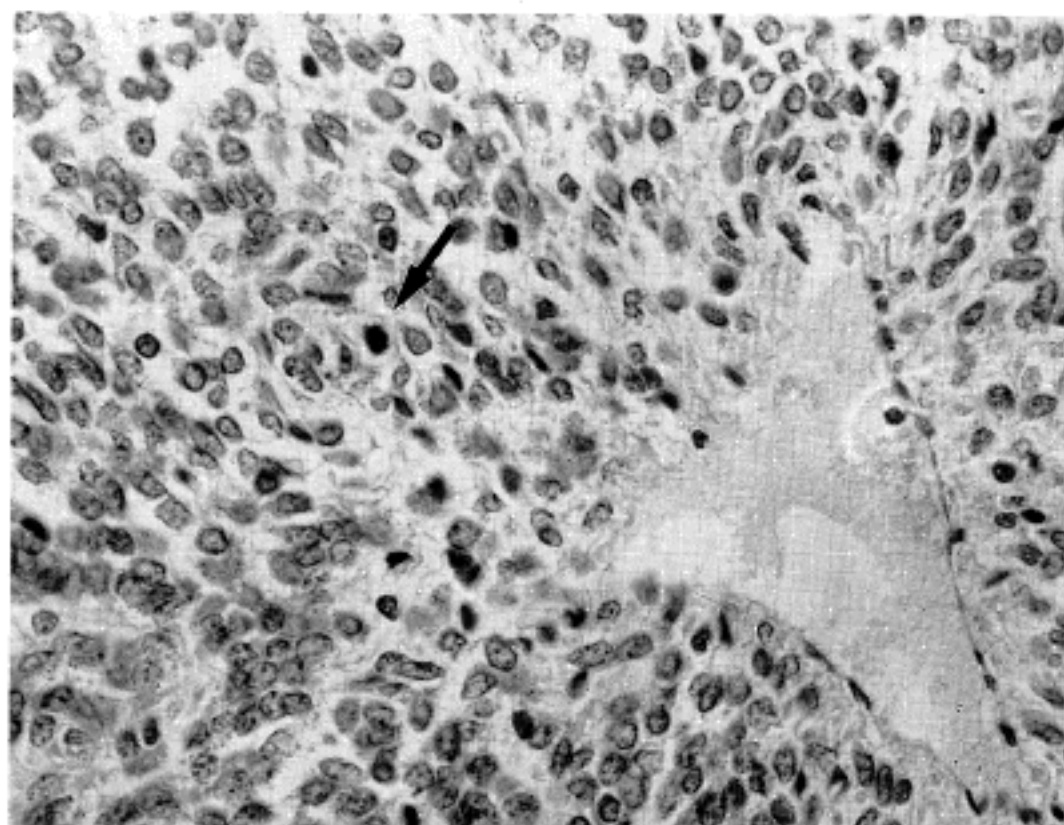


Fig. 5. Mitotic count is less than 1/10HPF in entire tumor (arrow)(B).

질에도 위와 같은 종양의 형성을 관찰할 수 있었다.

#### 면역조직화학염색 소견

배경의 자궁내막 간질 종양 세포 및 상피양 세포가 모두 vimentin에 양성 반응을 보였으며, 상피양 세포는 desmin에 양성 반응(Fig. 4B)을, actin은 국소적으로 약양성 반응을 나타내었다.

환자는 수술 후 현재까지 8개월 동안 재발이나 전이의 소견 없이 순조로운 임상 경과를 보이고 있다.

#### 고 찰

자궁의 원발성 간질 종양 중 난소의 성삭기원 종양과 유사한 상피양 분화를 보이는 종양은 1945년 Morehead와 Bowman<sup>1)</sup>, 1953년 Langley등<sup>3)</sup>이 각 1예씩을 기술한 바 있으나, 그 후 오랫동안 이에 대한 보고가 없었다. 1976년 Clement와 Scully<sup>2)</sup>는 위와 같은 조직소견을 보인 14예를 보고하면서, 이 종양이 40대와 60대 사이에 호발하며, 조직소견에 따라 국소적으로만 상피양 구조를 보이는 group I과 현저하게 많은 부위에서 상피양 구조가 관찰되는 group II로 나누었고, 전자의 군이 후자에 비하여 재발 및 전이등의 좋지 않은 임상 경과를 보이므로 외과적 절제후에 보조적 치료가 필요하였다고 기술하였다.

종양세포의 기원은 아직 확실치 않으나, Clement와 Scully<sup>2)</sup>는 자궁벽에 있는 선근종내의 다분화 능력을 가진 세포에서 기원한다고 생각하였고, Tang등<sup>4)</sup>은 전자현미경 검색을 통하여 난소의 성삭기원 종양과는 유사점을 찾을 수 없었고, 배경에 있는 간질종양의 미세구조는 정상 자궁내막의 간질세포와 유사한 반면, 상피양 구조의 세포는 특징적인 평활근 세포의 분화를 보이므로, stromomyoma라고 명명함이 옳다고 하였다. 또한 Kantelip등<sup>5)</sup>은 종양세포에서 Charcot-Bottcher 결정체와 유사한 구조를 발견하여, 자궁내막 간질종양에서 성삭분화를 보이는 것으로 생각하였다.

보고된 예가 적어서 아직 예후 및 치료에 대한 기준은 없으나, Clement와 Scully가<sup>2)</sup> 보고한 14예 중 group I에 속하는 3예가 재발하였고, 이중 2예가 종양의 전이로 사망하여 group I의 소견을 보이는 종양이 group II에 비해 예후가 나쁘다고 보고한 반면, Malfetano등<sup>6)</sup>은 group II에 속하는 종양으로써 수술 후 6년 만에 재발한 1예를 보고하여, 두 그룹간의 의미있는 예후의 차이는 없는 것으로 생각된다고 하였다. 또한, 이들 종양의 예후는 임상적 병기와, 배경에 있는 자궁내막 간질종양의 악성도 즉, 주변 조직으로의 침윤성 성장여부, 유사분열의 수 및 핵의 다형성여부가 중요한 것으로 알려져 있다<sup>7)</sup>. 치료에 있어서 Clement와 Scully의 보고<sup>2)</sup>에서는 재발한 3예 중 1

예가 방사선 치료에 반응을 보였는가 하면, estrogen과 progesterone 수용체 양성반응을 보여 다른 자궁내막 간질종양과 마찬가지로 progesterone 치료를 한 예도 있었으나<sup>6)</sup>, 아직 확실한 치료방법 및 예후에 대하여는 보고된 예가 적어 확실치 않다.

본 증례는 많은 부위에서 상피양 구조가 관찰되었고, 이 세포들이 desmin에 양성반응을, 그리고 actin에 국소적 약양성반응을 보여 평활근 세포의 분화를 보인 Tang 등<sup>4)</sup>의 보고례와 유사하였고, Clement와 Scully<sup>2)</sup>의 분류에 따르면 group II에 해당하였다.

### 결 론

43세 여자 환자의 자궁에 발생한 저등급 자궁 내막 간질 육종으로써 매우 특이한 난소의 성삭종양 분화를 보였던 1예를 보고하였다. 광학현미경 소견상 통상의 자궁내막 간질 육종의 배경에 난소의 과립세포종을 연상케하는 상피양 구조를 보이는 질환으로서, 본 증례는 많은 부위에서 상피양 구조를 보이므로 Clement와 Scully의 group II에 해당하며, 면역조직화학적 검색상 이들 상피양 구조는 desmin에 양성반응을 보이고 actin에는 국소적으로 양성반응을 보였다.

### 참 고 문 헌

- 1) Morehead RP, Bowman MC: *Heterologous mesenchymal tumors of the uterus. Report of a neoplasm resembling a granulosa cell tumor. Am J Pathol* 21: 53-61, 1945
- 2) Clement PB, Scully RE: *Uterine tumors resembling ovarian sex-cord tumors. A clinicopathologic analysis of fourteen cases. Am J Clin Pathol* 66: 512-525, 1976
- 3) Langley FA, Smith JP, Woodcock AS: *Debatable uterine tumors. Acta Obstet Gynecol Scand* 32: 143-169, 1953
- 4) Tang CK, Toker C, Ances IG: *Stromomyoma of the uterus. Cancer* 43: 308-316, 1979
- 5) Kantelip B, Cloup N, Dechelotte P: *Uterine tumor resembling ovarian sex-cord tumors: Report of a case with ultrastructural study. Human Pathol* 17: 91-94, 1986
- 6) Malfetano JH, Hussain M: *A uterine tumor that resembled ovarian sex-cord tumors: A low-grade sarcoma. Obstet Gynecol* 74: 489, 1989
- 7) Sternberg SS, Antonioli DA, Carter D, Egglesten Ic, Mills SE, eberman HA: *Diagnostic Surgical Pathology. New York, Raven Press, 1989, pp 1631-1635*