대한병리학회지 1992;26:82~7

난소의 낭성 기형종에서 발생한 피지선종양
-1예 보고-

순천향대학 부속병원 해부병리과

김 대 중 · 진 소 영 · 이 동 화

Sebaceous Gland Tumor Arising in Cystic Teratoma of the Ovary
-An unique form of monodermal teratoma-

Dae Joong Kim, M.D., **So Young Jin**, M.D. and **Dong Wha Lee**, M.D.

Department of Anatomical Pathology, Soonchunhyang University Hospital, Seoul

Although cystic teratoma is the most common benign tumor of the ovary, the association of sebaceous gland tumor with cystic teratoma is rare.

We have recently experienced a case of sebaceous gland tumor, arising in the cystic teratoma of the ovary in a 78-year-old Korean woman.

Histologically, the tumor was characterized by an organoid lobular architectures of the sebaceous glands which are exculsively composed of germinative and mature sebaceous cells. Although it is difficult to come to a valid conclusion due to the presence of atypical mitosis and necrosis, this tumor was regarded as benign from the viewpoint of preserved organoid structures, and absence of capsular invasion or metastasis.**(Korea J Pathol 1991; 26 : 82~7)**

Key Words: Sebaceous gland tumor, Cystic teratoma, Ovary

서 론

난소의 낭성 기형종은 내배엽, 중배엽 및 외배엽의 3가지 배아층의 파생물로 구성된 가장 흔한 난소 종양으로서 20~30대의 젊은 연령층에서 호발한다[1~3]. 낭성 기형종의 낭벽은 주로 피부 부속기를 포함하는 각질화된 표피에 의해서 흔히 피복되나, 지방, 평활근, 호흡기 상피, 연골 및 소화기 상피등 세가지 배엽 모두로부터 파생된 조직으로 구성이 되는 경우가 가장 흔하다. 그러나 세가지 배엽중 하나의 배엽에서 파생된 조직이 난소 종양의 대부분을 차지하거나 적어도 육안적으로 인지할 수 있을 만큼 많은 부위를 구성하는 경우가 있는데 이러한 종양을 단배엽성 기형종이라고 하며, 예를 들면 난소갑상선종[4], 유암종[5] 등이 있다.

피지선은 낭성 기형종의 낭벽을 피복하는 피부조직의 피부부속기의 한 성분으로서 흔히 관찰되는 조직이나 낭성 기형종이 주로 피지선으로 구성된 경우는 매우[9] 드물어 1964년 Strauss와 Gates[6]에 의해서 처음 기술된 난소의 낭성 기형종에서 발생한 피지선 종양이 처음 기술되었으며, 국내에는 아직까지 보고된 적이 없다. 이 종양은 기형종의 피지선으로부터 기원한다고 생각하고 있으나 정확한 발생학적 기전과 환자의 예후에 대한 의의는 아직 확실하게 정립되어 있지

접 수:1991년 8월 7일, 게재승인:1991년 10월 10일
주 소:서울특별시 용산구 한남동 657, 우편번호 140-743
순천향대학병원 해부병리과, 김 대 중

않다.

저자들은 최근 난소의 낭성 기형종에서 발생한 피지선 종양 1예를 경험하였기에 임상적 및 병리학적인 특징을 기술하고 난소의 피지선종양에 있어서 양성과 악성병변의 진단기준에 관하여 고찰하였다.

증 례

78세 여자 환자가 하복통을 동반하는 하복부 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 약 3년전부터 하복부 불쾌감 및 종괴가 촉지되어 오던 중 최근에 종괴의 크기가 증가하고 하복부 동통이 악화되어 본원 외래를 경유하여 입원하였다. 가족력 및 과거력은 특기할만한 사항이 없었다. 월경력은 초경이 14세, 폐경이 55세였으며 임신력은 모두 9회 임신한 적이 있고 6회의 유산 경력이 있으며 현재 3명의 자녀가 있다. 이학적 소견상 피부에 특이소견은 없었다.

내진소견상 하복부의 종물이 성인의 머리크기로 촉지되었으며 좌우의 부속기와 연관성은 구별할 수가 없었다. 자궁은 촉지하기가 어려웠으나 하복부 종물뒤로 약간 위축된 크기로 짐작되었고 자궁경부는 노인성 위축 소견 외에는 정상 범주로 생각되었다.

입원당시 시행한 혈액검사 및 뇨검사는 정상 범위였고 종양표지 물질들도 alpha-fetoprotein(AFP)치는 5.0 ng/ml, carcinoembryonic antigen(CEA)치는 2.0 ng/ml, CA 125는 2.8 U/ml, human chorionic gonadotropin(HCG)치는 5 mIU/ml로서 정상 범위였다.

정맥성 신우조영술 소견에서 하복부 종물에 의한 수신증 및 수뇨관증 변화를 보였다. 하복부 초음파 소견상 단방성인 낭종성 종물이 골반강내에서 15×12×8 cm의 크기로 발견되었고, 낭종내 일부에서 고형성분을 볼수 있어 난소암으로 생각되었다. 거대 난소 종양이라는 임상진단하에 입원 2일째 자궁 및 양측 부속기 적출술을 시행하였다.

수술 소견상 자궁은 노인성 위축으로 작아져 있었다. 골반강내에 좌측의 난소에서 기인한 것으로 여겨지는 낭종이 관찰되었으며 장축은 15 cm으로 현저히 커져 있고 표면은 평활하였다. 좌측 난관은 난소 낭종으로 과대신전되어 있었으며 우측 난소 및 난관은 특이 소견이 없었다. 수술당시 복수나 주위 조직과의 유착은 관찰되지 않았으며, 장간막이나 간으로의 종양전이는 발견되지 않았다. 개복후 즉시 시행된 종양조직의 동결절편 검사상 악성 세포는 보이지 않았고 수술당시 시행된 복강세척액을 이용한 세포도말 검사에서는 비정형 중피세포만이 보였다. 환자는 퇴원하여 17개월이 지난 지금까지 특별한 치료없이 비교적 건강하게 지내고 있다.

병리학적 소견

육안 소견: 적출된 좌측 난소 낭종은 15×12×8 cm의 크기로 구상이었으며 외표면은 광택을 띤 회백색으로 평활하였다. 좌측 난관은 난소 낭종으로 인해 과대신전되어 있었다. 우측 난소 및 난관의 특이소견은 없었다. 절단시 낭종은 단방성이었고 주로 탁한 점액성 물질로 차있었다. 낭종의 내벽은 노란색의 끈적끈적한 피지성 물질이 수많은 모발과 혼재되어 피복되어 있었으며, 일부 내벽에서 내강으로 돌출하는 유두상 결절(4.5×3×2.5 cm)을 볼 수 있었다(Fig. 1, 2).

광학현미경 소견: 좌측 난소 낭종은 중층 편평상피와 피부 부속기관, 즉 피지선과 모낭으로 구성된 낭벽을 보였으며, 내강으로 돌출하는 유두상 결절은 대부분 다양한 크기의 소엽상의 피지선으로 구성되어 있었으며, 낭벽과 경계가 잘 지워져 있었다(Fig. 3). 종양의 많은 부위에서 다량의 각질성 물질과 피지의 집락이 관찰되었고 여러부위에서 괴사를 동반하였으며(Fig. 4A), 이 괴사는 전분비성 분해(holocrine disintegration)였고 종양괴사는 볼 수 없었다. 소엽의 크기는 다양하였고 피지세포(sebaceous cell)와 기저양세포(germinative cell)로 구성되었다(Fig. 4B). 소엽은 대부분 얇은 섬유성 간질조직에 의해 나뉘어져 있었으나 일부에서는 이들 간질조직이 관찰되지 않아 소엽의 경계가 구분되지 않는 곳도 있었다. 기저양세포는 주로 소엽의 주변부에서 관찰되며, 세포질은 옅은 호산성으로 균질하였으나 일부에서는 과립성 혹은 공포성의 세포질 소견도 보였다. 기저양 발아세포의 핵은 대부분 난원형으로 다소의 이형성 소견을 보였고 염색질은 균질하였으며, 자주 작고 둥근 호산성의 핵인이 관찰되었다. 정형 혹은 비정형의 세포분열상이 기저양세포에서 평균 1~2개/1 HPF로 흔히 관찰되

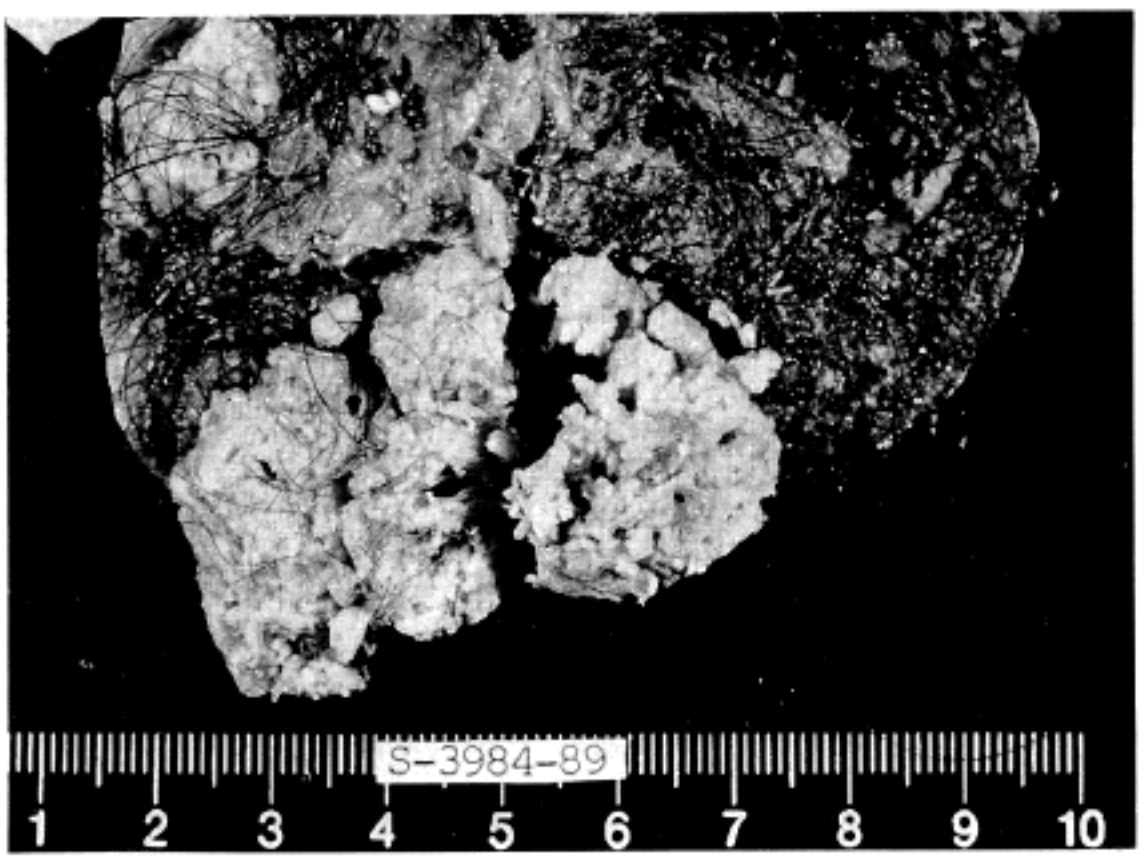

Fig. 1. Close-up view reveals friable, papillary granular and fatty mass covered with sebum.

Fig. 2. The tumor was composed of well defined lobules of sebaceous gland, and hair shaft in the fibrous capsule.

었다(Fig. 5). 그러나 종양의 어느부위에서도 비정형세포들의 낭벽내로의 침윤은 관찰되지 않았다. 피지세포들은 기저양세포에 의해 둘러싸여 있으면서 대부분의 소엽의 중심부에는 이상각화증을 동반한 과각화증 소견을 보였다(Fig. 5). 각각의 피지 세포들은 매우 옅은 호산성의 공포성 및 포말성 세포질을 가지고 있었다. 기저양세포와 인접한 피지세포의 핵은 난원형이었으나 중심부와 가까운 피지세포의 핵은 크기가 작아지면서 핵막은 다소 불규칙하고 두꺼웠다. 소엽을 둘러싸는 얇은 섬유성 간질조직과 낭벽내에서는 많은 모낭이 관찰되었고, 이들 주위에서 만성 염증세포, 이물성 거대세포, 그리고 포말성 조직구가 침윤된 소견을 보였다. 그러므로 본 증례의 피지선종양은 난소기형종에서 발생한 피지선종양으로 생각되었다.

Fig. 3. The tumor showed necrosis and aggregates of keratinous material and sebum(A), and lobules composed of germinative and mature subaceous cells(B).

고 찰

난소의 기형종은 1659년 Johannes Schultetus가 난소 유피낭종을 처음 보고한 이후 1863년 Rudoff Virchow가 처음으로 난소 기형종이란 용어를 사용하였으며 지금까지 많은 예가 보고 되어 있다. 난소에서 기형종이 발생하는 기전으로 두가지 가설이 있다[7]. 첫째, 분할세포들이 발생후기에 불완전 성장에 의한다는 설과, 둘째, Linder등이 주장한 미수정란의 단성생식에 의해 기인한다는 단성생식설로서 2차 감수분열의 억제와 함께 1차 감수분열후에 기형종이 발생한다고 알려져 있으나, 최근에 Partington등[8]은 1차 혹은 2차 감수분열의 실패에 의해서 기형종이 발생한다고 주장하였다. 1946년 Blackwell[5]은 100예의 양성 낭성 기형종을 조사하여 100%에서 외배엽 조직, 93%에서 중배엽 조직, 71%에서 내배엽 조직이 관찰되었다고 보고하였으며 난소에서 낭성 기형종과 함께 거의 대부분이 피지선으로 구성된 예는 매우 드물어 문헌에 따르면 1964년 Strauss 및 Gates가 처음으로 보고하였다[6]. 그후 1987년 Kaku등[10]은 60세 환자의 난소에서 발생한 피지선 종양을 보고하였으며, 1991년 Chumas 및 Scully[11]가 난소의 유피낭종에서 발생된 피지선종양 8예를 고찰하였다. 본 증례는 피지선과 함께 주위에 모낭, 상피조직, 각질등이 공존하기 때문에 피지선 종양이 기형종에서 유래한 것으로 생각하였다. 기형종에서 피지선 종양이 발생되는 기전은 아직 확실히 밝혀지지 않았으나 Twort와 Bottomly[12]는 피지선의 분해물에서 발견되는 유산이 피지선을 호르몬이나 만성 자극에 대하여 더욱 더 민감하게 만드므로서 피지세포의 성장을 촉진한다고 하였다.

난소의 난소 기형종에 발생한 악성변성은 그 예후나 임상적 그리고 병리학적 성상이 양성기형종과는 현저히 다르므로 이를 간과해서는 안된다[13]. 난소의 기형종에의 악성변성의 빈도는 0.8%로 부터 8%까지 다양하게 보고되어 있다. 악성변성의 종류는 편편상피암외에 선암, 유암종, 흑색종, 난소갑상선종, 연골 육종을 비롯한 육종들이 있으며 이중 편편상피암이 가장 흔한 유형으로 약 80%를 차지하며 다음으로 선암과 육종이 많다[14,15].

본 종양은 양성의 낭성 기형종에서 발생하였으나 대부분이 피지선으로 구성된 종양으로서 많은 수의 세포분열, 이형성 소견 그리고 괴사 소견을 보이기 때문에 양성과 악성의 감별이 필요하였으나 난소에서 발생한 피지선 종양은 매우 드물어서 아직 양성과 악성 종양의 분류 기준이 정립되어 있지 않기 때문에 피부의 피

지병변과 비교하였다.

피부의 피지병변에는 양성종양으로 피지선종이 있고[16,17] 악성종양으로는 피지상피종과 피지선암종이 있다[18,19]. 피지선종은 육안적으로 막낭에 의해서 둘러싸인 1 cm이하의 양성 종양이며 현미경 소견상 정상보다 큰 피지 소엽으로 구성되어 있고, 이 소엽은 기저양세포와 피지세포로 구성되어 있다. 이 두가지 세포는 소엽에서 매우 다양하게 분포하며 세포분열은 매우 드므나 빠른 성장 기간 동안에는 일부에서 다수 관찰되기도 한다[6]. 피지선종은 분화정도에 있어서 피지선증식증과 피지 상피종의 중간에 해당한다. 피지상피종은 병리조직학적 소견상 특히 분화의 정도로 보아 학자에 따라서는 피지 분화성 기저세포 상피종으로 명명하기도 한다[5,20]. 피지선 암종은 미분화 세포와 피지세포로 이루어진 크기가 매우 불규칙한 소엽으로 구성되며, 이들 소엽을 구성하는 세포의 핵은 상당한 이형성 소견을 보인다. 피지선으로 구성된 종양에서 전이와 세포분열과 같은 악성의 특징을 갖는 종양을 피지선암종으로 분류할 수 있지만, 양성과 악성의 진단 기준이 확실하게 정립되어 있지 않다[19].

난소의 피지선종양에서는 Kaku등[10]은 핵의 이형성과 세포분열보다는 조직학적 소견상 피부의 피지선종과 유사한 점을 중시하여 양성으로 간주하였다. 그후 Chumas와 Scully[11]는 기저양 세포보다 성숙피지세포가 더 현저하고 주위 조직 및 피막으로의 침윤이 없는 경우를 양성으로 진단하고, 성숙피지세포보다 기저양세포가 더 현저하고 침윤성 경계, 정형 및 비정형의 세포분열상이 풍부한 경우를 악성으로 진단하였다.

본 종양의 경우는 세포의 다형성과 괴사가 관찰되어 피부의 악성 피지선암종의 소견과 유사하였으나, 본 종양은 난소의 낭성 기형종에서 발생한 피지선 종양이며, 보고에 따르면 난소의 피지선 종양은 크기가 크고 괴사가 관찰된다 하더라도 주위로의 침윤이나 전이가 없을 경우에는 양성으로 간주하는 것이 타당하다고 하였다[6]. 따라서 본 종양은 크기가 매우 크고 다수의 정형 및 비정형의 세포분열과 핵의 이형성, 그리고 괴사를 동반하였으나, 세포분열 상이 주로 기저양 세포에서 관찰이 되었고, 비교적 잘 보존된 소엽구조로 증식하였으며, 주위 난소조직과 피막의 침윤이 없었고 전이가 발견되지 않았으므로 이를 양성으로 간주하는 것이 타당하다고 생각되었다. 그러나 이와 같은 예가 매우 희귀하여 그 예후가 아직 확실히 정립되지 않은 실정으므로 본 증례와 같은 병변은 치료후 추적 관찰이 필요할 것이다.

결 론

저자들은 최근 78세 여자의 난소 기형종에서 생긴 피지선 종양 1예를 경험하여 보고하는 바이며 주로 피지선 성분의 증식을 보인 단엽성 기형종의 한 유형으로서 크기가 크고 세포의 다형성 및 다수의 세포분열이 관찰되고 괴사가 동반되었으나 주위 조직의 침윤과 전이가 없어 양성병변의 피지선종양으로 생각하였다.

참 고 문 헌

1) Scully RE. *Ovarian tumors. Am J Pathol 1977; 87: 686-720.*

2) Scully RE. *Tumors of the ovary and maldeveloped gonads. Atlas of tumor pathology. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, D. C., 979.*

3) Linn HJ, Ragins AB. *Dermoid cyst of the ovary. Am J Obstet Gynecol 1941; 41: 328-30.*

4) 장은숙. 양성 및 악성 난소 갑상선종 2예 보고. 대한병리학회지 *1981; 15: 282-7.*

5) 박명희, 김용일, 김정숙. 난소기형종을 동반한 원발성 난소유암종. 대한병리학회지 *1977; 11: 207-16.*

6) Strauss AF, Gates HS. *Giant sebaceous gland tumor of the ovary. Am J Clin Pathol 1964; 41: 78-83.*

7) Linder D, McCaw BD, Hecht F. *Pathenogenic origin of benign ovarian teratomas. New Engl J Med 1975; 292, 63-6.*

8) Partington JM, West LF, Povey S. *The origin of ovarian teratomas. J Med Genet 1984; 21: 6-12.*

9) Blackwell WJ. *Dermoid cysts of the ovary. Their clinical and pathologic significance. Am J Obstet Gynecol 1946; 51: 151-72.*

10) Kaku T, Toyoshima S, Hachisuga T. *Sebaceous gland tumor of the ovary. Gynecol Oncol 1987; 26: 398-402.*

11) Chumas JC, Sully RE. *Sebaceous tumors arising in ovarian dermoid cysts. Internat J Gyynecol Pathol 1991; 10: 356-63.*

12) Twort CC, Bottomly AC. *The etiology of breast cancer. Lancet 1932; 2: 776-80.*

13) Kelly RR, Scully RE. *Cancer developing in dermoid cyst of the ovary. Cancer 1961; 14: 989-1000.*
14) Climie ARW, Heath LP. *Malignant degeneration of benign cystic teratomas of the ovary-Review of the literature and report of a chondrosarcoma and carcinoid tumor. Cancer 1968; 22: 824-32.*
15) 이윤성, 안긍환. 난소 낭성 기형종에서 발생한 편평상피세포종. 대한병리학회지 *1982; 16: 398-403.*
16) Essenhigh DM, Jones D, Rack JH. *A sebaceous adenoma. Br J Dermatol 1964; 76: 330-40.*
17) Lever WF. *Sebaceous adenoma, review of the literature and report of a case. Arch Dermatol Syph 1948; 57: 102-11.*
18) Urban FH, Winkelman RK. *Sebceous malignancy. Arch Dermatol 1961; 84: 63-72.*
19) Welch JW. *Carcinoma arising in sebaceous cysts. A. M. A., Arch Surg 1958; 76: 128-32.*
20) Prioleau PG, Santa Cruz DJ. *Sebaceous gland neoplasia. J Cutan Pathol 1984; 11: 396-414.*