

## 부고환의 유선종피종

— 1예 보고 —

인제대학교 의과대학 상계백병원 해부병리과

김연미 · 전이경 · 조혜제 · 고일향

### Adenomatoid Mesothelioma of the Epididymis

— A case report —

Younmee Kim, M.D., Yikyeong Chun, M.D., Hyejae Cho, M.D. and Illhyang Ko, M.D.

Adenomatoid tumors are well-recognized neoplasms generally to be of mesothelial derivation. We experienced a case of an adenomatoid tumor of the tail of the epididymis in a 56-year-old male. Grossly the tumor was firm and whitish gray, and microscopically it consisted of glandular, cord-like, microcystic structures which were lined by flattened endothelial like to plump cuboidal cells. Immunohistochemical stains showed positivity for keratin and negativity for factor VIII related antigen and carcinoembryonic antigen. Ultrastructurally, there were many long microvilli projecting into the glandular lumina and intracytoplasmic luminal spaces, desmosomes, and prominent cytoplasmic tonofilaments. Those findings strongly support the mesothelial origin of the adenomatoid tumor especially in the glandular type. It also lead us to suggest that the term adenomatoid tumor should be remain in use for light microscopic diagnosis, and that the term adenomatoid mesothelioma should be applied when the mesothelial nature of an adenomatoid tumor is proven by electron microscopy and immunohistochemical stains. (Korean J Pathol 1993; 27: 387~391)

**Key Words:** Adenomatoid mesothelioma, Epididymis

### 서 론

유선종은 남여 생식기계 즉 남자의 부고환, 고환피낭, 정삭 그리고 여자의 자궁, 난소, 난관에 국한되어 분포하여 주로 성인에서 발견되고 대부분이 특별한 임상증상을 나타내지 않는 양성 종양이다. 1945년 Golden과 Ash<sup>1)</sup>가 처음으로 이 종양을 유선종(adenomatoid tumor)으로 명명한 이래 그 기원에 관하여 광학현미경, 전자현미경, 면역조직화학적 연구 등으로 내피성, 중신성, 중피성, 필러관 기원설들을 주장하였다<sup>2,3)</sup>. Davy등<sup>12)</sup>은 부고환의 유선종 1예에서 전자현미경상 Multilayered basal lamina와 Wei-

del-Palade체를 증명하는 등 일부 학자들이 유선종의 중피성 기원을 주장하는 가설에 이견을 보였지만 1970년대 이후 전자현미경적 방법<sup>9-11)</sup> 또는 면역조직화학적 방법<sup>7,8)</sup>을 통하여 중피성기원을 증명하는 많은 연구들이 보고됨에 따라 대체적으로 중피성 기원을 인정하고 있다. 예를 들어 미세융모(microvilli), 확장된 세포내 공간(dilated intracellular luminal spaces), 소량의 미세포음 소포(scanty micropinocytic vesicles)등을 증명함으로써 유선종의 중피성 기원을 주장했고 1982년 Said등<sup>6)</sup>은 7예의 유선종의 면역조직화학적 연구에서 keratin에 강양성을 보이는 반면 내피성 세포 표지자인 factor VIII 연관인자에 음성임을 발표하면서 유선종의 중피성 기원을 강력히 주장하였다. 우리나라에서도 1978년 권등<sup>13)</sup>이 난소의 유선종 1예를 보고한 이후 이등<sup>14)</sup>이 부고환에서의 유선종 1예, 장등<sup>15)</sup>이 난관의 거대 유선종 1예, 손등<sup>16)</sup>이 자궁의 유선종의 조직화학적 소견을 발표하였다.

접 수: 1993년 1월 30일, 게재승인: 1993년 2월 17일

주 소: 서울시 노원구 상계동 210번지, 우편번호 139-201

인제대학교 의과대학 상계백병원 해부병리과, 김연미

최근 저자들은 56세 남자의 좌측 부고환 미부의 전형적인 종괴성 기원을 입증하는 우선 증괴종 1예를 경험하였고 과거 국내 보고에서 전자현미경 소견과 더불어 면역조직화학적 소견을 기술한 보고가 없었으므로 문헌고찰과 함께 본 예를 보고하되, 명칭에 있어서도 전형적인 종괴성 기원을 입증하는 경우에는 우선 증괴종으로 명명하는 것이 타당한 것으로 사료되어 보고하는 바이다.

## 증 례 보 고

### 1. 임상적 소견

56세 남자로 6개월 전부터 좌측 부고환 미부에 무통성의 종괴가 육지되어 내원하였다. 노검사와 기타 검사에서 이상 소견이 없었고 임상적으로 음낭 수종 의식하에 종괴거출이 시행되었다.

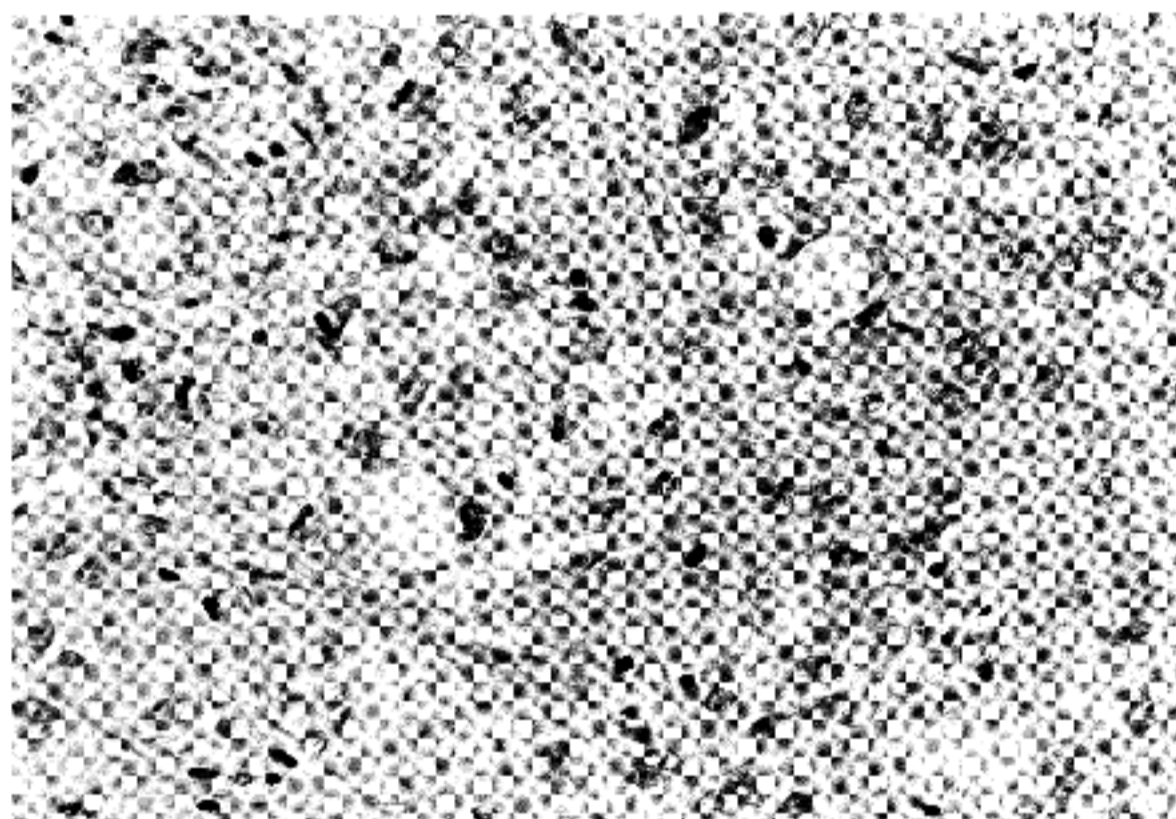


Fig. 1. Cord of cells forming tubular structures with a central lumen. Note the vacuoles which corresponds to intra- and intercellular lamina.

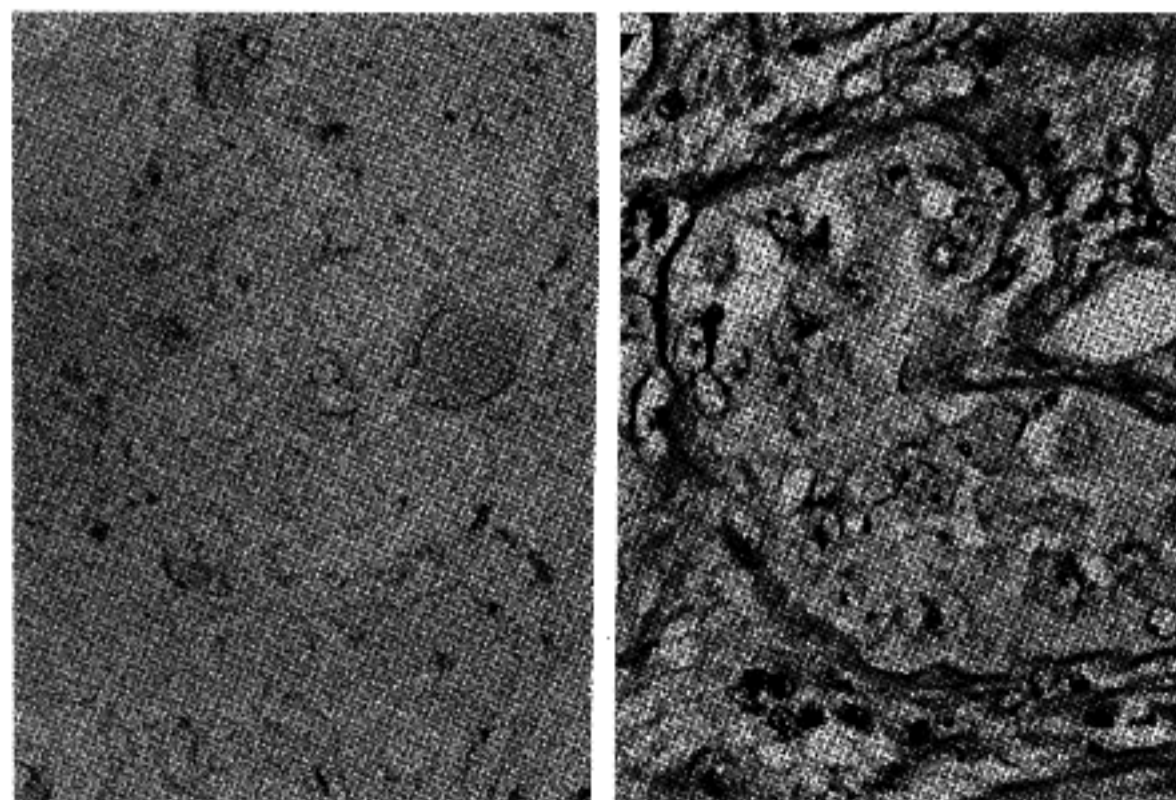


Fig. 2. The cytoplasm of the tumor cells stained with alcian blue(left). Weakly PAS positive material is seen in the cytoplasm of the tumor cells (right).

2. 병리학적 소견

1) 육안적 소견: 종괴는 1.7×1.3×1.5 cm 크기의 경계가 잘 지워지는 난원형 종양이었고 단면상 균질한 고형성의 연회색 조직이었다. 그의 출혈 및 괴사의 소견은 없었다.

2) 광학현미경적 소견: 종괴는 주위조직과 경계가 뚜렷하였으나 분명한 괴막은 없었고 내피양 세포, 지방형 세포, 낮은 키의 원주형 세포들이 모양과 크기가 다양한 관강을 형성하는 세낭성 또는 선상구조를 보이

거의 때로는 과상을 형성하지 않고 선모양의 엷은 띠들거나 소집단을 이루고 있었다. 색의 비정형성은 보이지 않았고 대부분 뚜렷한 핵의 작은 핵소체를 가지고 있는 원형 혹은 타원형의 핵을 관찰할 수 있었다. 대체로 풍부한 시포질내에는 공포를 많이 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 섬유성 결합조직의 간질은 적은 양으로 존재하였으며 선형 구조 및 세포의 소집단을 잘 보이지 않고 있었다. 이런 부분에서는 균질을 이루고 모여 있는 림프구를 관찰할 수 있었고 호중구, 호산구, 형질 세포 등은 관찰할 수 없었다. 일부 간질 조직에서는 평

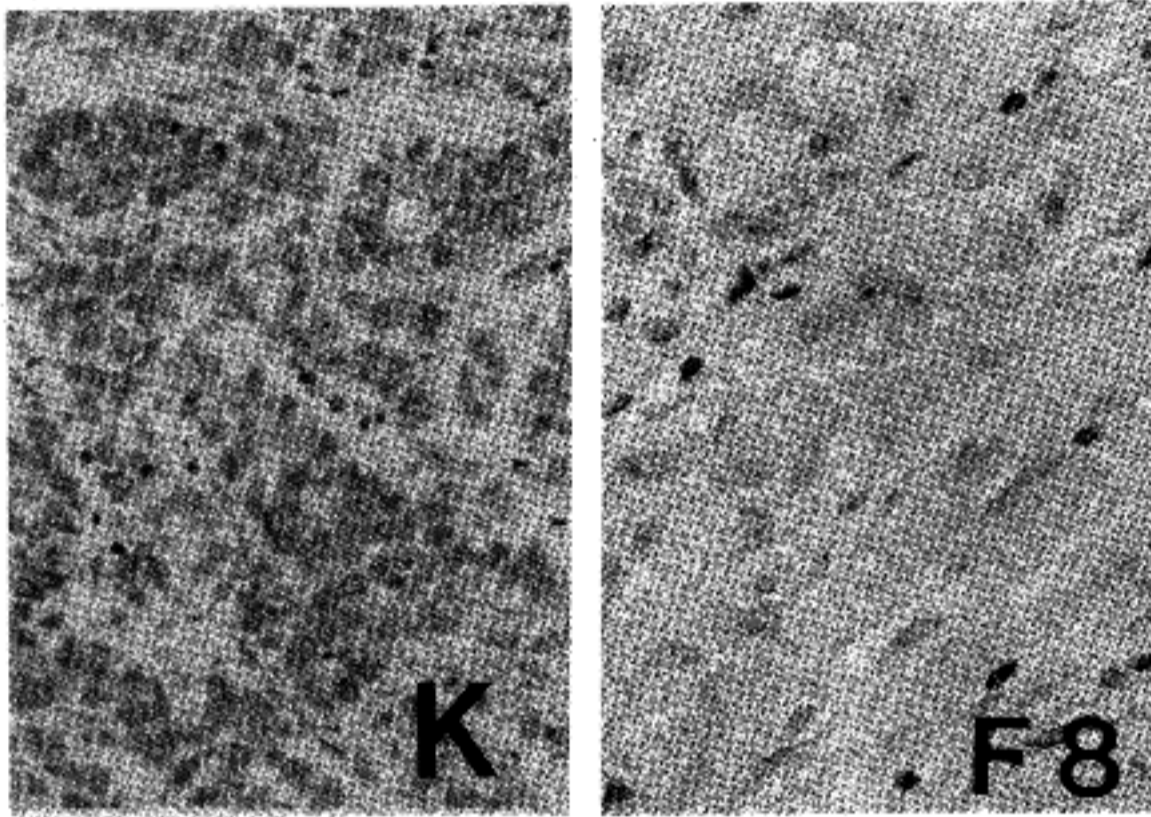


Fig. 3. Immunohistochemical staining for keratin shows diffuse strong positivity in the neoplastic cells and negative reaction for factor VIII-related antigen.



Fig. 4. Intracytoplasmic lumina lined by long and slender microvilli and the tumor cells were connected with each other by frequent desmosomes (×24,500).

황근도 관찰할 수 있었다. Masson trichrome 염색에서 망상섬유가 선상구조 및 세포소집단을 잘 둘러싸고 있음을 관찰할 수 있었고 세포질내 공포에서 PAS 및 diastase 처리 후 PAS 염색 상 국소적으로 약양성이었고 alcian blue 염색에서는 양성반응을 보였다(Fig. 2).

**3) 면역조직학적 소견:** 대부분 종양세포의 세포질에서 keratin에 강양성을 보였고 factor VIII 관련 인자와 CEA에는 음성반응을 보였다(Fig. 3). 그외 EMA (epithelial membrane antigen), desmin에도 역시 음성 반응을 보였고 vimemtin에 약양성을 보였다.

**4) 전자현미경적 소견:** 일부 세포군집을 이루거나 개개로 떨어져 있는 종양세포들은 잘 발달된 기저판(basal lamina)에 의하여 둘러싸여 있고, 각 세포들은 광학현미경적 소견과 마찬가지로 원형 내지 타원형의 핵을 볼 수 있었고 풍부한 세포질내에는 라이보솜(ribosome), short RER 그리고 많은 미세 필라멘트(micro filament)를 관찰할 수 있었다. 가장 특징적인 소견은 세포내 미세내강 혹은 세포간 내강에 길고 두꺼운 미세용모로 둘러싸여져 있는 소견으로 세포간 연결과 많은 교소체를 관찰할 수 있었다(Fig. 4). 이러한 소견을 종합해보면 종양세포들은 중피기원임을 알 수 있다.

## 고 안

1945년 Golden과 Ash<sup>1)</sup>에 의해 유선종이라는 용어가 사용되었으며 그 이후 Taxy등<sup>3)</sup>은 이 종양을 plexiform, tubular, canalicual type으로 나누었고 Quigley등<sup>18)</sup>은 adenoid, angiomatoid, solid, cystic type등의 형태로 나누었으며 대개는 이들 형태가 섞여서 나타난다. 또한 Yusuma등<sup>20)</sup>이 이 종양의 조직기원에 따라 mesothelial type과 adenomatoid type으로 나누었다. 최근 Bank등<sup>21)</sup>은 29세 남자의 고환에서 발생한 조직학적으로 유선종과 유사한 혈관종 1예를 발표하면서 유선종을 adenomatoid mesothelioma와 histiocytic(epithelioid) hemangioma로 따로 분리하였다. Table 1에 명기한 바와 같이 지금까지 여러 학자들이 이 종양의 명명법에 관하여 다양한 견해를 보여왔으나 저자들은 1990년 Bank등<sup>21)</sup>이 주장한 바처럼 조직학적, 면역조직화

학적 및 전자현미경 소견으로 분명한 중피성 기원을 확인한 경우의 유선종을 유선중피종으로 명명하고 factor VIII 관련 인자에 양성을 보이는 angiomatoid 또는 canalicual형은 그 조직기원이 다르므로 histiocytic(epithelioid) hemangioma로 따로 분리함이 타당하리라고 생각한다.

조직학적으로 이 종양을 구성하는 세포들은 풍부한 세포질을 가지면서 원형 혹은 난원형의 핵을 가지며 세포질내에 다양한 크기의 공포를 갖는 것이 특징적이다. 또한 이 종양은 오랫동안 그 조직발생의 기원에 관하여 많은 논란이 되어 왔는데 그 대표적인 가설로는 내피성, 중신성, 중피성, 윌러관 기원설 등이다<sup>19)</sup>. 하지만 최근 이 유선종에 대한 여러 발생기원설 중 임상적, 면역조직화학적 및 전자현미경적 소견에 의해 중피성기원으로 인정하고 있다. 1970년 Mackay등<sup>4)</sup>이 유선종의 구성세포에서 세포질내강의 미세용모, 교소체 등을 확인하고 중신성과 윌러관 기원세포에서는 발견될 수 없고 중피성 기원세포에서 나타나는 hyaluronic acid를 alcian blue로 확인함으로써 중피성 기원을 주장했다. Ferenczy등<sup>5)</sup>은 흉막중피와 유선종사이의 전자현미경적 소견과 조직화학적 소견에서 유사점을 발견하였다. 즉 미세용모, 세포내 사상체 집단, 확장된 세포간 간격, 소량의 미세 포음소포, hyaluronic acid, 세포내 붓입체 등이다.

그러나 정상 또는 종양 내피세포에서는 잘 발달된 micropinocytic activity를 볼 수 있으나 미세용모, 확장된 세포간 간격, hyaluronic acid 등은 없어 혈관종과의 감별은 용이하다. 또한 윌러관상피는 미세용모로 덮혀 있으나 확장된 세포간 간격은 볼 수 없다. 중신관 세포의 기저세포는 키가 큰 원주상피로 나열되어 있으며 세포간 간격은 좁아져 있고 hyaluronic acid등은 존재하지 않는다. 이로써 이 종양의 중피성 기원을 강력히 주장했다. 본 예도 전자현미경적 소견에서 역시 중피성 기원세포의 특징을 보여주는 긴 미세용모로 둘러싸여진 세포간 및 세포질내 공간들과 미세필라멘트, 세포간 연결을 관찰할 수 있었다. 1980년대 초반 Bolen등<sup>6)</sup>과 Mucientes등<sup>11)</sup>도 특징적인 전자현미경적 소견으로 중피성 발생유래를 지지했다.

한편 1980년대 들어서 면역조직화학적 방법으로 이러한 중피성 기원을 지지하는 연구가 활발히 이루어졌는데 Said등<sup>8)</sup>은 7예의 유선종에서 편평 상피암종,

Table 1. Subtypes of adenomatoid tumor

Daniel 1975 <sup>17)</sup>	Taxy 1974 <sup>3)</sup>	Quigley 1981 <sup>18)</sup>	Naobumi 1986 <sup>20)</sup>	Banks 1990 <sup>21)</sup>
solid	plexiform	solid	-	-
glandular	tubular	adenoid	mesothelial	ade. mesothelioma
angiomatoid	canalicual	angiomatoid	adenomatoid	hist. hemangioma
-	-	cystic	-	-

기저 상피암종 및 악성 종피종에서 강양성을 보이는 keratin 단백질 강양성으로 나타나는 것과 내피성 세포표지자인 factor VIII과 종피종에서는 음성인 CEA에 음성을 들어 종피성 기원임을 주장했다. 본 예에서도 면역조직화학적 염색에서 keratin에 강양성을, factor VIII 관련 인자와 CEA에 음성을, alcian blue 염색에서 세포질내 공포에 양성 반응을 나타내었다. 그의 Lehto등<sup>7)</sup>은 면역형광현미경법에서 antikeratin antibody에 강양성, antivimentin antibodies에 음성 반응을 보이고 antifactor VIII related antigen antibodies와 fluorochrome coupled UEA1(Ulex europaeus 1-lectin)에 음성을 확인했고 Mucientes등<sup>8)</sup>은 6예의 유선종종 5예에서 antimesothelial cell serum을 이용한 indirect immunoperoxidase technique에서 양성임을 나타냄으로써 유선종의 종피성 기원을 확인했다. Yushima등<sup>20)</sup>은 유선종의 이원성 기원 즉 생식관의 장막선(serosal lining)기원과 췌관 기원설을 주장했다. 유선종피종의 조직기원에 있어서 대부분 생식관과 연관되어 발생하고 흉강이나 복강에서 발생하지 않는 이유는 생식기계의 유선종과 흉강이나 복강에서의 종피종이 모두 체강성 상피(coelomic epithelium)기원이지만 유선종은 태생학적으로 원시성삭(primitive sex cord)을 둘러싸는 증식성 체강성 상피에서 유래되므로 이러한 조직학적인 차이점을 나타내고 이로써 유선종이 흉강이나 복강에서 발생하지 않고 대부분이 생식관과 연관되어 발생하는 원인이라고 생각한다. 본 예는 광학현미경 소견, 면역조직화학적 염색 및 전자현미경 소견으로 전형적인 종피성 기원임이 입증된 전형적인 유선종피종의 예이며 그 명칭도 통상적으로 불리워지고 있는 유선종(adenomatoid tumor)보다는 유선 종피종(adenomatoid mesothelioma)이라 함이 더욱 타당하리라고 생각한다.

### 결 론

저자들은 56세 남자의 부고환 미부에서 유선 종피종 1예를 경험하고 그의 임상적, 조직학적, 전자현미경적 소견 및 면역조직화학적 소견을 기술하고 본 질환의 발생기원에 관하여 재검토해 보았다. 본 예는 조직기원에 근거를 두어 분류한 명명법에서 유선 종피종에 타당한 예로 생각되며, 복강이나 흉강에서의 종피종과 조직병리 소견상 차이를 보이는 것은 그 조직기원에서 원시 성삭을 둘러싸고 있는 증식성 체강성 상피에서 발병되기 때문이라고 사료된다.

### 참 고 문 헌

1) Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. *Am J Pathol* 1945; 21: 63-79.  
 2) Rosai J. *Ackermans Surgical Pathology*, 7th ed. St.

*Louis Toronto Washington: Mosby Comp*, 1989; 983-5.  
 3) Taxy JB, Battifora H, Oyasu R. Adenomatoid tumors: A light microscopic, histochemical, and ultrastructural study. *Cancer* 1970; 34: 306-16.  
 4) Bruce M. The adenomatoid tumor: Fine structural evidence for a mesothelial origin. *Cancer* 1970; 27: 109-15.  
 5) Alex F. Observation on benign mesothelioma of the genital tract(adenomatoid tumor): A comparative ultrastructural study. *Cancer* 1971; 30: 244-60.  
 6) Said JW. Immunoperoxidase localization of keratin protein, carcinoembryonic antigen, and Factor VIII in adenomatoid tumor. *Hum Pathol* 1982; 13: 1106-8.  
 7) Lehto VP. Adenomatoid tumor: Immunohistochemical features suggesting a mesothelial origin. *Virch Arch(Cell Pathol)* 1983; 42: 153-9.  
 8) Francisco M. Immunoperoxidase study on adenomatoid tumor of the epididymis using antimesothelial cell serum. *Cancer* 1985; 55: 363-5.  
 9) John WB. Mesotheliomas: A light-and electron microscopic study concerning histogenetic relationships between the epithelial and mesothelial variants. *Am J Surg Pathol* 1980; 4: 451-64.  
 10) Karl OS. Origin of adenomatoid tumor: A comparison between the structure of adenomatoid tumor and epididymal duct cells. *Cancer* 1982; 49: 2349-57.  
 11) Francisco M. Adenomatoid tumor of the epididymis: Ultrastructural study of three cases. *Pathol Res Pract* 1983; 176: 256-68.  
 12) Davy CR. Are all adenomatoid tumors adenomatoid mesothelioma?. *Hum Pathol* 1981; 12: 360-9.  
 13) 권태정, 노재운, 이유복. 난소의 유선종 1예. *대한병리학회지* 1978; 12: 67-70.  
 14) 이명희, 전호중, 박영진, 지정희. 부고환에 발생한 유선종의 1예 보고. *대한병리학회지* 1981; 15: 277-80.  
 15) 장은덕, 김병기, 김선부, 이종무. 난관의 거대유선종 1예. *대한병리학회지* 1983; 17: 60-3.  
 16) 손진희, 안공환, 김용일, 이상국. 자궁의 유선종. *대한병리학회지* 1984; 18: 74-8.  
 17) Danial PK. Adenomatoid tumor(mesothelioma) of testicular and paratesticular tissue. *Urology*. 1975; 6: 635-41.  
 18) Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumors of the uterus. *Am J Clin Pathol* 1981; 76: 627-35.  
 19) Jacson JR. The histogenesis of the adenomatoid tumor of the genital tract. *Cancer* 1958; 11: 337-50.  
 20) Naobumi M. Adenomatoid tumor 2 cases. *Urology* 1986; 32: 611-4.  
 21) Banks ER. Histiocytoid(epithelioid) hemangioma of the testis: The so-called vascular variant of adenomatoid tumor. *Am J Surg Pathol* 1990; 14: 584-9.