

유방의 근육성 과오종

-1예 보고-

연세대학교 의과대학 병리학교실

민동원·성순희·최인준

Muscular Hamartoma of the Breast

-A case report-

Dongwon Min, M.D., Sun Hee Sung, M.D. and In Joon Choi, M.D.

Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine

Hamartoma of the breast is relatively rare benign tumor, which is a well-circumscribed mass mainly composed of fibrous stroma, adipose tissue, ducts and acini. Muscular hamartoma of the breast is mainly composed of smooth muscle, and is extremely rare because proper smooth muscle is normally absent in the breast except in the nipple. We describe a rare case of muscular hamartoma of the breast in a 38-year-old woman. This tumor was located in the upper outer quadrant and a $3 \times 2.5 \times 2$ cm sized, well-demarcated but not encapsulated mass. The mass consisted mainly of irregularly arranged smooth muscle bundles in the fibrous stroma with lobular units and admixed fat cells. The origin of smooth muscle in hamartoma is not well known. (Korean J Pathol 1994; 28: 86~89)

Key Words: Muscular hamartoma, Breast

유방의 과오종은 비교적 드문 양성 종양으로 조직학적으로 정상 유방조직을 구성하는 섬유성 조직과 선 및 도관의 소엽구조, 지방 조직등이 다양한 정도로 나타나서 정상 유방 조직과 유사한 형태학적 소견을 보이나 경계가 명확한 종괴를 형성하는 것이 특징이다^[1~3]. 유방에는 정상적으로 평활근 조직이 없기 때문에 대부분의 과오종에서는 평활근 성분이 나타나지 않으며 평활근 조직이 포함되어 있는 예는 드물게 기술되어 있고^[2~6] 더욱기 과오종의 주요 구성성분이 평활근이어서 근육성 과오종이라 이름붙일 수 있는 경우는 매우 드문 변형 형태이다. 문헌보고상 근육성 과오종 (muscular hamartoma 또는 myoid hamartoma)이라는 이름으로 보고된 예는 현재까지 외국 문헌에서 9예^[7~12]를 찾을 수 있었으며 국내 문헌보고에서는 아직 기록이 없다. 저자들은 38세 여자 환자에서 경험한

과오종으로 평활근 조직이 가장 많은 구성 성분이었던 유방의 근육성 과오종 1예를 보고한다.

환자는 1달전부터 우측 유방종괴가 만져져서 내원하였다. 과거력상 1회의 출산력이 있으며 월경력 및 그 외의 병력은 특이사항이 없었다. 종괴는 3 cm 크기로 외상부에 있었으며 단단하였으나 유동성이 있었고 암통은 없었다. 유두 및 유두륜에 이상은 없었다. 유방조영술을 실시하지 않았지만 바로 종괴를 적출하였고 종괴는 비교적 쉽게 주변 조직과 박리되었다. 적출된 종괴는 $3 \times 2.5 \times 2$ cm 크기로 절표면이 매끈하고 경계가 좋았으나 퍼막은 없었다. 절단면상 황백색의 균질성 종괴로 비교적 단단하였으나 섬유선종의 섬유성 조직에서 느끼는 것보다는 좀 더 고무양이고 연질성이었다. 부분적으로 물결치는 듯한 다발성의 모양이 있었으나 섬유선종에서 볼 수 있는 틈새는 관찰되지 않았다. 종괴의 일부에서는 회백색으로 단단하였으며 다른 일부에서는 황백색으로 부드러운 편이었다(Fig. 1). 현미경 소견상 섬유성 퍼막은 없었으나 경계가 명확한

종괴였으며 주변에는 정상 유방조직이 거의 없고 소량의 섬유조직만이 붙어 있을 뿐으로 종괴만 밖리되어 적출된 상태였다. 종괴는 주로 평활근 조직과 섬유 조직으로 구성되어 있었으며 서로 혼재되어 있었다(Fig. 2). 육안소견상 회백색으로 단단하였던 부위에서는 비교적 많은 양의 섬유성 기질내에 평활근 종식이 있었으며 이러한 부분의 섬유 조직은 초자양 변화를 동반하고 있었다(Fig. 3). 좀더 부드러웠던 종괴의 다른 부분에서는 섬유기질이 거의 없이 평활근의 종식이 많은 양상을 보였는데 종식된 평활근 조직은 다발을 형성하였지만 불규칙한 형태와 배열이었고 다발의 크기도 크고 작은 것이 서로 다양하였다(Fig. 4). Masson's

Trichrome 염색 및 Van Gieson 염색으로 평활근 조직과 섬유 조직을 확인할 수 있었으며 면역 조직화학적 염색으로도 smooth muscle actin 염색에 양성 반응을 보임으로써 평활근 조직을 확인할 수 있었다. 전자현미경 검색상 종양세포들은 방추형의 핵과 함께 세포질내 국소 전자밀도(focal density)를 동반한 근섬유세사(myofilament)를 관찰할 수 있어서 근세포임을 확인할 수 있었으며 세포간 접합구조는 없었다. 이를 종식된 평활근 조직과 섬유조직 사이에 선 및 도관이 소엽구조를 유지한 상태로 있었으며 부분적으로 소엽내의 선구조 사이에 섬세한 섬유화가 있었으나 종양성 종식은 아니었으며 이로 인해 소엽구조가 눌리는 등의 변화는 없었다. 종괴의 주변부에 있는 소엽구조에서는 소수의 도관에서 작은 크기의 확장성 변화도 관찰되었다(Fig. 5). 종괴의 전반에 걸쳐 지방조직이



Fig. 1. Gross appearance of the mass. Cut section of the resected mass showed well circumscribed, yellowish and gray, soft, and whorled surface.

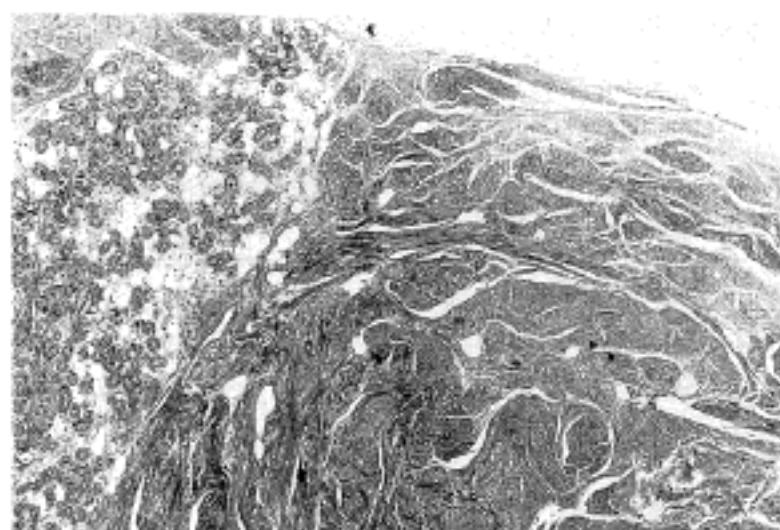


Fig. 2. Low power view of the mass shows well demarcated margin. It is composed of smooth muscle bundles in the fibrous stroma with scattered fat tissue and lobular unit of the breast(Masson's trichrome).

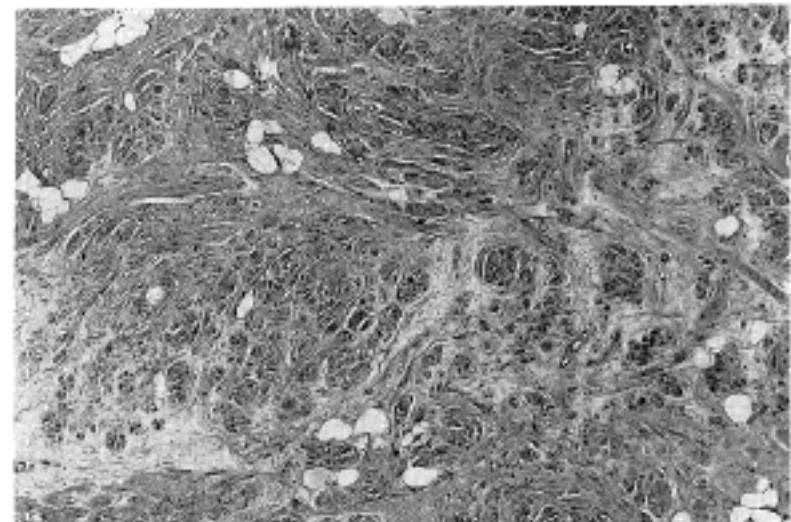


Fig. 3. Scattered smooth muscle bundles in the hyalinized fibrous stroma.

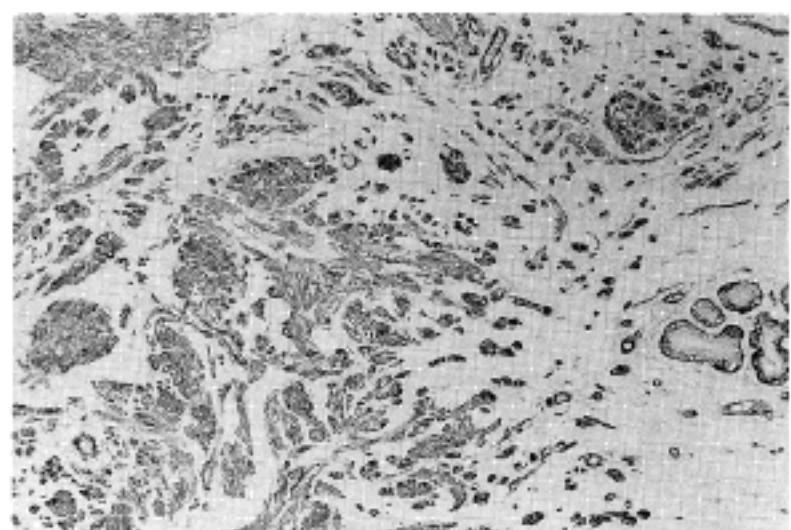


Fig. 4. Immunohistochemical stain for smooth muscle actin shows strong positivity in the proliferating bundles of spindle cells.

산재해 있었으며 이들은 섬유조직, 평활근조직 사이에 그리고 소엽구조내에도 있었으며 선구조와 바로 인접하여 존재하는 곳도 있었다.

유방에서 과오종이라는 병명은 1971년 Arrigoni 등¹¹⁾이 경계가 명확한 종괴로서 섬유성 기질조직내에 상피 성분과 지방 조직을 포함하는 병변에 대해 처음으로 명명한 것으로 이전에는 유방종(mastoma), 선지방종(adenolipoma), 섬유선지방종(fibroadenolipoma), 수유후 유방종양(postlactational breast tumor) 등으로 기술되었었다^{1,2)}. 조직학적으로는 정상적인 유방 조직을 구성하는 조직으로 종괴가 이루어져 있으면서 때로는 퇴행성 변화에서 보이는 소견을 보일 수도 있으나 주변의 유방 조직과 확실한 경계를 보이는 종괴로서 섬유선종을 비롯한 기존의 어떠한 양성 유방 종괴의 유형에도 해당되지 않는 병변에 대해서 총칭되는 복합적인 병명이라 하겠다²⁾. 일반적으로 종괴를 구성하고 있는 상피 성분이 소엽 구조를 잘 유지

하고 있는 등 구조상의 변형이 없다는 점과 선천성 병변이 아니라는 점에서 과오종이라는 진단명이 부적절하다는 지적도 있으나¹³⁾ 이들 구성성분이 정상적인 유방 조직을 구성하고 있는 조직이라는 점, 섬유 조직등의 기질 조직의 증식이 섬유선종의 경우와 같이 종괴를 구성하고 진정한 종양성 조직이 아니라는 점등에서 현재 과오종이라는 진단명이 가장 적절한 것으로 받아들여지고 있다. 유방의 과오종은 유방조영술상 특징적인 양상을 보이는 바¹⁴⁾ 주변과의 경계가 명확하여 마치 피막이 있는 듯이 보이고, 지방 조직과 섬유 조직과의 구성비의 차이에 따라 절상의 음영을 보일 수 있으며 주변의 유방조직을 대치시키는 것이 아니라 누르는 양상으로 보여 '유방내의 유방'¹⁵⁾이라는 표현으로 기술될 정도로 명확한 경계가 특징이다. 이러한 양상 때문에 적출도 매우 용이하며 섬유선종과는 달리 주변 조직과의 유착이 적은 것이 특징이다²⁾.

본 예는 경계가 명확한 종괴이고 섬유성 기질 및 소엽 구조를 유지하고 있는 상피 요소들, 산재된 지방 조직등이 유방에서 기술된 과오종에 적합한 소견이며 평활근 조직이 가장 많은 부분은 차지하는 요소였다는 점에서 근육성 과오종이라 부를 수 있다. 정상적으로 유방에서 평활근 조직이 있는 부위는 유두 부위이며 그외의 부위에는 평활근 조직이 없으며 따라서 과오종을 비롯한 유방 병변에서 평활근 조직이 관찰되는 경우는 비교적 드물다. 과오종의 병변에서 평활근 조직이 보고된 예로는 섬유선종의 기질내에 평활근 조직이 있었던 예¹⁶⁾, 유방의 평활근종의 예¹⁷⁾ 등이 있으며 과오종에서는 소량의 평활근 섬유가 포함된 예들의 보고가 드물게 있다^{2~6)}. 평활근 조직이 주요 구성 성분이어서 근육성 과오종이라 보고된 예는 1973년 Davies 등⁷⁾이 2예를 보고한 것이 처음이며 그후 총 9예가 보고되었다^{7~12)}. 이들의 연령분포는 34세에서 61세까지로 다양하였으며 종괴의 크기는 2.5 cm부터 8 cm 크기까지 다양하였으나 대부분 3 cm 정도의 크기였다. 위치

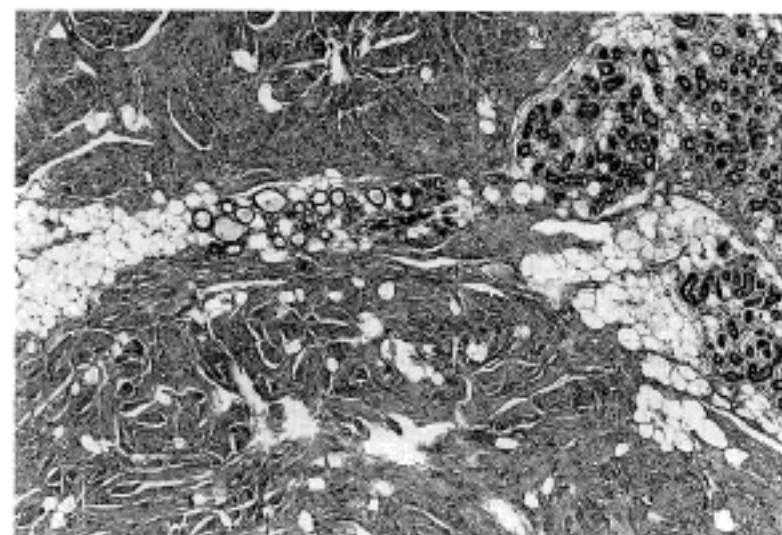


Fig. 5. Ducts and lobules with lipocytes admixed are present in the proliferating bundles of smooth muscle. Several ducts show cystic dilatation.

Table 1. Clinical summary of 9 reported and present cases of muscular hamartoma of the breast

	Age	Location	Size
Davies et al ⁷⁾	44	UOQ	7 cm
	48	lateral to the areola	3.5 cm
Huntrakoon et al ⁸⁾	34	upper central	8 cm
Bussolati ⁹⁾	44	subareola	5.5 cm
Daroca et al ¹⁰⁾	39	UOQ	3 cm
	61	lateral aspect	3.5 cm
	38	UOQ	2.5 cm
Shepstone et al ¹¹⁾	52	areolar region	7 cm
Fjirgaard et al ¹²⁾	47	UOQ	3.5 cm
Present case	38	UOQ	3 cm

UOQ: upper outer quadrant

상 유두 부위에 있었던 것은 2예뿐이고 대부분 유두 부위와 떨어져 있었던 종괴이었다(Table 1). 조직학적으로 대부분의 예에서 섬유성 기질내에 평활근 증식이 많았으며 그 사이에 지방세포들이 섞여 있었고 선 및 도관을 비롯한 소엽구조를 관찰할 수 있었다.

과오종을 비롯한 유방병변에서 평활근의 기원에 대한 의문에 대해서는 몇 가지 가설이 제시되고 있지만 아직 확실히 증명된 것은 없는 상태이다. 정상적으로 유두 부위에 평활근이 있기 때문에 유두를 부위에 생긴 과오종이나 평활근종의 경우 유두 부위의 근육 세포에서 기원했을 것이라는 설명⁹⁾이 가능하나 근육성 과오종의 예들 대부분이 유두 부위와는 떨어진 부위에서 발생했다는 점에서 이러한 설명을 모든 예에 적용시킬 수는 없다. 현재 제시된 가설을 종합하여 보면 혈관벽의 근육 및 미분화성 간엽 조직, 근상피 세포등에서 기원했을 것이라는 설명이 있다¹⁰⁾. 근육성 과오종이라는 이름을 처음 사용한 Davies 등은 위의 3가지 가능성중에서 유방의 양성 병변에서 근상피 세포의 증식이 있다는 보고들을 기초로 하여 근상피 세포 기원에 대한 가설을 주장하였으며 이에 대한 뒷받침으로써 평활근 섬유와 소엽을 구성하는 상피 세포들이 서로 밀접한 위치 관계를 보인 점 등을 지적하였으나 근상피 세포 기원을 증명하지는 못하였다¹¹⁾. 또한 Daroca 등¹⁰⁾은 myoid hamartoma라는 이름으로 3예를 보고하면서 그중 2예에서 전자현미경 검색상 근상피 세포의 양상을 관찰할 수 있다고 하여 Davies 등이 주장한 근상피 세포 기원설을 지지하였다. 그러나 Huntrakoon과 Lin¹²⁾은 근육성 과오종 1예를 보고하면서 전자현미경상 이들 근섬유를 구성하는 세포들이 근섬유모세포나 근상피 세포의 모양을 나타내지 않았고 평활근 세포로만 구성되어 있었다고 하였으며 동시에 증식한 근육 세포들이 유선의 도관 조직과 비교적 떨어져 존재하였기 때문에 근상피 세포에서 근육 세포들이 유래하였을 것이라는 가설을 증명할 수 없었다고 보고하였다. 미분화성 간엽조직에서 유래했을 것이라는 해석을 한 보고로는 Fisher 등의 보고¹³⁾가 있는데 이들은 35예의 유방 과오종의 검색에서 평활근 조직을 보인 예는 2예뿐이었으나 평활근이 없는 예에서도 전체 예의 58%에서 기질내에 산재되어 있는 방추형 세포가 actin과 desmin에 양성반응을 보였다고 보고하면서 이들 기질세포는 근섬유모세포이고 이러한 염색결과를 미분화성 간엽조직에서 근육 세포로의 분화를 보이는 것으로 해석하였다. 본 예의 경우 근육세포들이 완전한 다발을 이루었으며 Masson's trichrome 염색과 actin 염색에 양성을 보인 점 및 전자현미경 검색상 이들이 근육 세포라는 것을 확인할 수 있었으며 S-100 단백 염색에 음성인 점과 전자현미경 검색에서 근상피 세포 성상을 관찰하지 못하여서 완전한 근육으로서의 분화를 보인 세포라고 생각하였다. 이들 근육 세포의 기원에 대한 연구는 위낙 그 증례 수가 적기 때문에 확실

히 밝히기는 어렵겠으나 앞으로 더욱 연구가 이루어져야 되리라 생각한다.

참 고 문 헌

- 1) Arrigoni MG, Dockerty MB, Judd ES. *The identification and treatment of mammary hamartoma*. *Surg Gynecol Obstet* 1971; 133: 577-82.
- 2) Fisher CJ, Hanby AM, Robinson L, Millis RR. *Mammary hamartoma - a review of 35 cases*. *Histopathology* 1992; 20: 99-106.
- 3) Oberman HA. *Hamartomas and hamartoma variants of the breast*. *Semin Diag Pathol* 1989; 6(2): 135-45.
- 4) Metcalf JS, Ellis B. *Choristoma of the breast*. *Hum Pathol* 1985; 16: 739-740.
- 5) Benish B, Peison B, Sarno J. *Benign mesenchymoma of the breast*. *Mt Sinai J Med* 1976; 43: 530-3.
- 6) Wargotz ES, Weis SW, Norris HJ. *Myofibroblastoma of the breast*. *Am J Surg Pathol* 1987; 11: 493-502.
- 7) Davies JD, Riddell RH. *Muscular hamartomas of the breast*. *J Pathol* 1973; 111: 209-11.
- 8) Huntrakoon M, Lin F. *Muscular hamartoma of the breast. An electron microscopic study*. *Virchows Arch(A)* 1984; 403: 306-12.
- 9) Bussolati G, Ghiringhelli B, Papotti M. *Subareolar muscular hamartoma of the breast*. *Appl Pathol* 1984; 2: 92-5.
- 10) Daroca PJ, Reed RJ, Love GL, Kraus SD. *Myoid hamartomas of the breast*. *Hum Pathol* 1985; 16: 212-9.
- 11) Shepstone BJ, Wells CA, Berry AR, Ferguson JDP. *Mammographic appearance and histopathologic description of a muscular hamartoma of the breast*. *Br J Radiol* 1985; 58: 459-61.
- 12) Fiirgaard B, Kristensen S. *Muscular hamartoma of the breast. A case report*. *Acta Radiol* 1992; 33: 115-6.
- 13) Linell F, Osterg G, Soderstrom J, Andersson I, Hildell J, Ljungqvist U. *Breast hamartomas. An important entity in mammary pathology*. *Virchows Arch(A)* 1979; 383: 253-64.
- 14) Hessler C, Schnyder P, Ozzello L. *Hamartoma of the breast: Diagnostic observation of 16 cases*. *Radiology* 1978; 126: 95-8.
- 15) Riveros M, Cubilla A, Perotta F, Solalinde V. *Hamartoma of the breast*. *J Surg Oncol* 1989; 42: 197-200.
- 16) Mackenzie DH. *A fibroadenoma of the breast with smooth muscle*. *J Path Bact* 1968; 96: 230-2.
- 17) Craig JM. *Leiomyoma of the female breast*. *Archs Path* 1947; 44: 314-7.