

고환의 원발성 유암종

-1예 보고-

인제의대 상계백병원 및 삼성의료원* 병리과

전 이 경·서 연 립*

Primary Carcinoid Tumor of the Testis

- A case report -

Yikyeong Chun, M.D. and Yeon-Lim Suh, M.D.*

Department of Pathology, Inje University, Sanggye Paik Hospital
and Samsung Medical Center*

Primary carcinoid tumors of the testis are exceedingly rare. They may originate as a pure form or as part of a testicular teratoma. To diagnose a testicular tumor as primary carcinoid, the possibility of metastasis must be carefully excluded. To our knowledge, none has been reported in Korean literature.

We present a case of primary testicular carcinoid in a 36-year-old man. He had a painless, palpable mass on the right scrotum for 4 years. He underwent a radical orchiectomy. He is free of disease during 20 months postoperatively. Histologically and ultrastructurally this tumor showed a typical feature of carcinoid tumor of midgut derivation. A flow cytometric DNA analysis of this mass contained an aneuploid cell population. (**Korean J Pathol 1995; 29: 228~231**)

Key Words: Carcinoid, Testis

서 론

고환의 유암종은 전체 고환종양의 0.23%를 차지하는 매우 드문 종양으로 원발성 및 전이성 유암종으로 이루어진다¹⁾. 원발성 유암종은 1954년 Simon 등²⁾이, 전이성 유암종은 1930년 Cope³⁾가 각각 첫 증례를 보고한 이래 66예가 외국 문헌에 보고되었으나 아직 국내에서는 보고된 바 없다. 원발성 유암종에는 기형종에서 발생하는 유형과 기형종과 관련없이 발생하는 순수한(pure) 원발성 유암종의 두가지 유형이 있고, 전이성 유암종은 원발병소의 위치와 관계없이 그 예후가 나쁘기 때문에 원발성 유암종과의 감별이

매우 중요하다.

저자들은 36세 남자의 우측 고환에 발생한 기형종과 관련이 없는 전형적인 순수한 원발성 유암종 1예를 경험하였기에 전자현미경, 면역조직화학적 염색 소견 및 DNA 유세포 분석 소견을 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자는 36세 남자로서 4년전 우측 고환에 무통성의 종괴가 처음 만져졌으며 점진적으로 크기가 증가하여 본원에 내원하였다. 기혼이며 자녀는 3세된 여아가 있고 카르시노이드 증후군에 해당하는 증상은 없었다. 혈청 α -fetoprotein 및 β -HCG를 측정하였으나 정상 범위였고 초음파 검사에서 부고환-고환염 또는 미만성 침윤성 종양이 의심되어 우측 고환 적출술을 시행하였다.

적출된 고환은 장경 7 cm, 무게 80 gm으로 커져

접 수: 1994년 9월 12일, 게재승인: 1994년 10월 26일
주 소: 서울시 노원구 상계 7동 761-1, 우편번호 139-201
인제의대 상계백병원 해부병리과, 전이경

있었고, 주위조직과 경계가 잘 지워지는 직경 5 cm의 원형의 고형성 종괴가 관찰되었다. 종괴는 절단면으로 돌출되었고, 황갈색으로 국소적인 출혈은 관찰되었으나 괴사는 없었다. 고환 백막이나 정맥, 부고환으로의 침습은 없었다(Fig. 1). 현미경 소견상 종괴는 섬유성 기질과 섬, 소 또는 소포를 만드는 둥글고 균일한 종양세포로 구성이 된 증장기원의 유암종의 소견을 보였고 소포의 내강에는 PAS 양성인 물질을 일부 함유하고 있었다. 종양세포는 다각형으로 경계가 비교적 분명하였고 과립상의 풍부한 세포질과 둥근 핵을 가지고 있었다. 섬, 소 또는 소포의 제일 가장자리에 있는 한

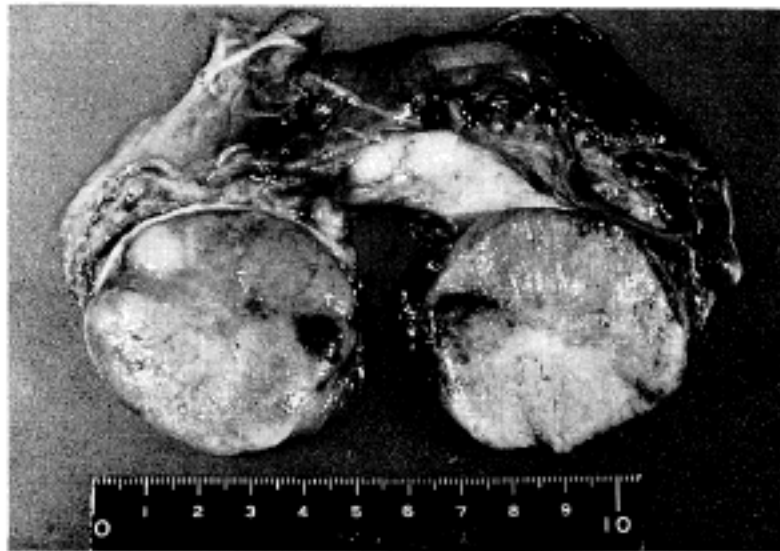


Fig. 1. The bisected testis reveals a well circumscribed homogeneous mass, 5 cm in diameter, without involvement of tunica albuginea. No teratomatous elements are seen.

층의 종양세포는 다른 종양 세포보다 더 진한 세포질을 가지고 있었다(Fig. 2). Cytokeratin과 chromogranin에 대한 면역조직화학염색에서 종양세포는 각각 강양성반응을 보였고 그밖에 Fontana-Masson과 Glimerius염색에서도 양성반응을 보였다. 전자현미경 소견에서 종양섬, 소 또는 소포들이 기저막에 둘러싸여 있었고 세포질 내에 많은 중간섬유와 둥근과립을 함유하고 있었다. 이 과립들은 150~350 nm 크기로서 막으로 둘러싸이고 사이에 투명한 윤이 있는 신경분비과립이었다(Fig. 3). 광학현미경에서 더 진한 세포질을 가진 것처럼 보였던 가장자리에 위치한 세포에서는 신경분비과립과 중간섬유, 미토콘드리아등의 소기관이 더 풍부하였다. 파라핀 포매조직으로 시행한 DNA 유세포분석에서 DNA aneuploidy를 보였고, DNA index는 0.83이었다(Fig. 4).

수술후 시행한 흉부 및 복부 전산화 단층 촬영에서 이상소견은 발견되지 않았다. 고환적출술 이외의 다른 치료는 시행하지 않았고 20개월이 지난 현재까지 재발 또는 전이의 증거가 없다.

고 찰

고환의 유암종은 매우 드물어 Berdjis와 Mostofi¹⁾는 AFIP의 자료에서 2000예의 기형종을 포함한 7000예의 고환종양을 검토하여 16예의 유암종을 찾고, 전체 고환종양 중 0.23%의 빈도로 발생한다고 보고하였다. 발생 연령은 10세에서 83세까지 다양하지만^{1,4)} 대부분의 원발성 생식세포종양보다 늦은 연령인 40~60대에 호발한다. 고환의 종물 이외의 다른 증상이 없는 경우가 대부분이지만 통증을 수반하기도 한



Fig. 2. Islands of uniform cells separated by bands of fibrous tissue.

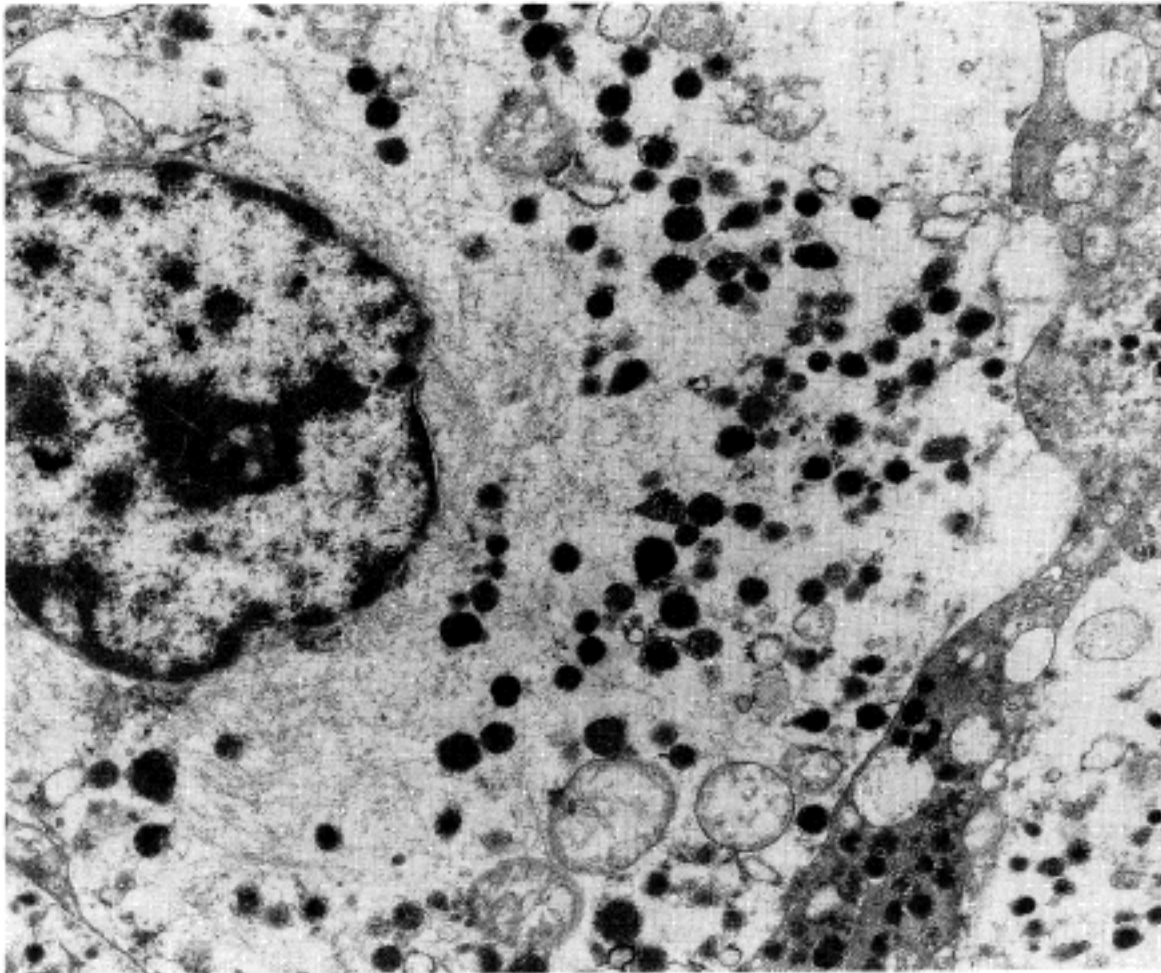


Fig. 3. Electron micrograph of tumor cell showing dense core granules, ranging from 150-350 nm($\times 16000$).

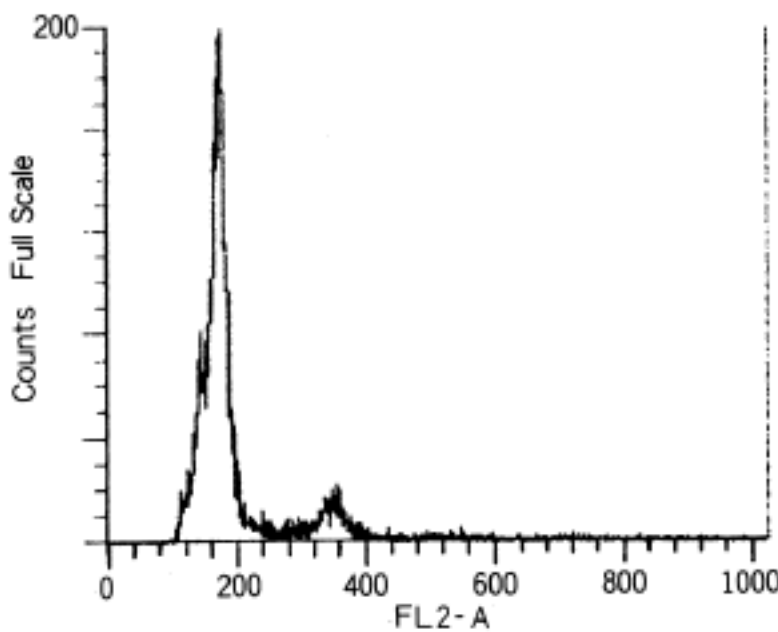


Fig. 4. DNA aneuploid with DNA index of 0.83.

다. 다른 고환 종양과 마찬가지로 왼쪽에 더 호발하는 경향이 있으나 본 증례는 오른쪽 고환에서 발생하였고, 정류고환⁵⁾과 양쪽 고환⁶⁾에서 발생한 예도 있다. 조직학적으로 모두 증장기원의 도(insular)유암종의 소견을 보이고 은친화성 과립이 검출되었다.

Zavala-Pompa 등³⁾은 발표된 64예에 2예를 새로 추가하여 66예의 고환유암종을 분석하였는데 이중 원발성 유암종이 57예, 전이성이 9예로 원발성 유암종이

더 많았다. 원발성 유암종 중 기형종에서 기원한 유형이 14예(24.6%)이며 기형종과 관련이 없는 순수한 원발성 유암종이 43예(75.4%)로 후자가 더 흔하였고 6예에서 전이가 보고되었는데, 그중 5예는 후자에서 관찰되었다. 전이한 6예의 종괴의 평균 크기는 7.3 cm으로 전이하지 않은 51예의 2.9 cm보다 컸고, 또한 전이한 군의 50%에서 카르시노이드 증후군을 나타내어 전이하지 않은 군의 6%와 큰 차이를 보여, 종양의 크기와 카르시노이드 증후군의 발현여부가 원발성 고환 유암종의 예후인자임을 시사하였다.

Talerman 등⁷⁾은 각각 14예의 순수한 원발성 유암종과, 3예의 기형종에서 기원한 원발성 유암종 및 6예의 전이성 유암종으로 구성된 23예의 고환유암종을 분석하였다. 추적조사가 가능했던 경우는 17예였는데, 그중 순수한 원발성 유암종 12예와 기형종에서 발생한 원발성 유암종 1예는 10개월에서 25년까지 전이나 재발없이 생존하였으나, 전이성 유암종 4예중 3예는 수개월 또는 12년후에 사망하고 1예만이 2년간 재발없이 생존하였다. 순수한 원발성 고환유암종은 예후가 좋기 때문에 치료로 고환적출술과 주의깊은 추적검사가 권장된다. 유암종이 기형종에서 기원하는 경우에는 그 치료는 고환의 기형종에 준하며, 예후는 기형종의 구성성분과 종양의 병기에 따라 달라진다. 전이성 유암종은 원발병소의 위치와 관계없이 예후가 나쁘다. 이와같이 고환의 원발성유암종과 전이성 유암종은 그 치료방침과 예후가 다르기 때문에 이들의 감별이 중요

하다. 유암종과 기형종이나 다른 종양성 생식세포가 공존하는 경우에는 쉽게 감별이 되나 순수 원발성 유암종과 전이성 유암종은 조직학적인 소견만으로는 감별이 되지 않기 때문에 위장관이나 기타 다른 부위의 가능한 원발성 병소를 임상소견과 방사선 및 생화학적 검사들 통해 찾아 보아야 한다. 본 증례는 기형종이나 다른 생식세포 종양이 동반되지 않았고 이학적 검사와 흉부 및 복부 전산화 단층촬영에서 이상소견이 없어서 순수 원발성 유암종으로 사료된다.

고환의 순수 원발성 유암종의 기원에 대하여 다음의 세가지 가설이 주장되고 있다⁷⁾. 첫째, 찾아내지 못했거나 소멸되어버린 작은 기형종에서 기원한다는 설. 둘째 일측면으로만 발달한 기형종(one-sided teratoma)에서 발생한다는 설. 셋째 생식선에 존재하는 은친화성 또는 장크롬 친화성 세포에서 기원한다는 설이다. 정상고환조직에서 은친화성 세포가 증명되지는 않았지만 totipotential한 생식세포가 어떤 세포유형으로라도 분화할 가능성이 있기 때문에 세번째 가설을 배재할 수 없다. 저자들이 태아와 성인의 정상고환조직에서 neuron specific enolase와 chromogranin에 대한 면역조직화학염색을 시행한 결과 양성반응을 보이는 세포는 관찰되지 않았다.

Zavala-Pompa등³⁾은 3예의 순수 원발성 고환유암종의 DNA 유세포 분석을 시행하였는데 모두 aneuploidy였고, DNA 지수가 1.15~1.3에 이르는 diploid peak와 aneuploid peak가 매우 근접하는 특징을 보였는데, 본 증례도 DNA 지수가 0.83인 aneuploid로 상기보고와 일치하는 소견이었다. 이러한 DNA histogram의 양상은 저등급 악성 종양에서 자주 관찰되는 것으로 원발성 고환유암종의 임상경과와 잘 부합하는 소견으로 생각된다³⁾.

고환과 난소는 상동기관이며 난소의 유암종도 순수 원발성 유암종, 기형종에서 기원하는 유형, 전이성 유암종의 세 종류가 있고 전이성인 경우 예후가 더 불량한 점등 고환의 유암종과 유사한 점이 많다. 그러나

서로 상이한 몇가지 특징이 있는데, 첫째, 고환유암종은 순수 원발성 유암종이 제일 흔하지만 난소 유암종은 대부분이 기형종에서 발생한다. 둘째, 고환유암종에서 카르시노이드 증후군이 동반된 예는 현재까지 3예³⁾에 불과하지만 난소의 유암종은 1/3에서 카르시노이드 증후군을 보이며 셋째, 고환유암종은 조직학적으로 모두 증장기원의 도형이지만 난소유암종에서는 도형과 전장과 후장기원의 육주형이 같이 관찰된다⁸⁾.

참 고 문 헌

- 1) Berdijis CC, Mostofi FK. *Carcinoid tumors of the testis. JUrol* 1977; 118: 777-82.
- 2) Simon HB, McDonald JR, Culp OS. *Argentaffin tumor(carcinoid) occurring in a benign cystic teratoma of the testicle. JUrol* 1954; 72: 892-4.
- 3) Zavala-Pompa, Ro JY, El-Naggar A, Ordonez NG, Amin MB, Pierce PD, Ayala AG. *Primary carcinoid tumor of testis. Cancer* 1993; 72: 1726-32.
- 4) Leake J, Levitt G, Ramani P. *Primary carcinoid of the testis in a 10-year-old boy. Histopathology* 1991; 19: 373-5.
- 5) Finci R, Gunhan O, Celasun B, Gungor S. *Carcinoid tumor of undescended testis. JUrol* 1987; 137: 301-2.
- 6) Saxena A, Watkin SW. *Bilateral malignant testicular carcinoid. Brit JUrol* 1990; 65: 302-3.
- 7) Talerma A, Gratama S, Miranda S, Okagaki T. *Primary carcinoid tumor of the testis. case report, ultrastructure, and review of the literature. Cancer* 1978; 42: 2696-706.
- 8) Scully RE. *Ovarian tumors. Am J Pathol* 1977; 87: 686-720.