

## 난소에 발생한 평활근육종

- 1예 보고 -

가톨릭대학교 의과대학 병리학교실

박원상 · 이성범 · 이정용 · 김상호 · 김주성

### Primary Ovarian Leiomyosarcoma

- A case report -

Won Sang Park, M.D., Seong Beom Lee, M.D., Jung Yong Lee, M.D.  
Sang Ho Kim, M.D. and Choo Soung Kim, M.D.

Department of Pathology, Catholic University Medical College

Primary leiomyosarcoma is a rare tumor of the ovary. We experienced a case of primary ovarian leiomyosarcoma in a 68 year old woman. Microscopically, the tumor was characterized by interlacing bundles of plump spindle cells that showed immunoreactivity for alpha-smooth muscle actin, pleomorphic multinucleated giant cells and an increased mitotic rate. Ultrastructural features included abundant smooth muscle type filaments and irregular bodies. Consequently, this case has led us to propose ultrastructural and immunohistochemical criteria for primary ovarian leiomyosarcoma. (*Korean J Pathol*; 30: 548~550)

**Key Words:** Leiomyosarcoma, Primary, Ovary

난소에 발생한 원발성 육종은 그 발생빈도가 전 난소 종양의 3%<sup>1</sup>로서 매우 드문 악성종양이며 그 중에서도 원발성 평활근육종은 1951년 Istre<sup>2</sup>가 처음 보고한 이래 외국 문헌에만 보고되었을 뿐<sup>1-4</sup> 국내 문헌에는 아직 보고된 바 없다. 이에 저자들은 최근 68세 여자환자의 난소에 생긴 원발성 평활근육종 1예를 경험하여 병리학적 소견과 문헌고찰을 함께 보고하는 바이다.

환자는 68세 여자환자로 수 주전부터 복부팽만을 동반한 복부통증을 주소로 본원에 내원하였다. 과거력 및 가족력상 특이사항은 없었다. 이학적 검사상 우하복부에서 딱딱한 종괴가 촉진되었으며 복부초음파 검사와 복강경 검사상 자궁의 오른쪽 부속기에 생긴 것으로 보이는 종괴를 확인할 수 있었다. 수술 소견상 자궁, 왼쪽 부속기 및 오른쪽 난관에는 이상소견이 없었으며 오른쪽 난소가 커져 있었다. 오른쪽 난소 절제술이 시행되었다. 절제된 오른쪽 난소의 크기는 9×8×5 cm 이었으며 무게는 160 gm 이었다. 난소의 표면은 비교적 부드럽고, 매끈하였다. 절단면상 난소는 비교적 균일한 회백색의 단단한 조직으로 이루어져 있었으며 많은 부위에서 출혈과 괴사를 관찰하였으나 낭성변화는 관찰할 수

접 수 : 1995년 8월 10일, 게재승인 : 1995년 10월 28일  
주 소 : 서울시 서초구 반포동 505번지, 우편번호 135-701  
강남성모병원 병리학교실, 박원상

\* 본 논문은 가톨릭 중앙의료원 학술연구 조성비로 이루어졌음.

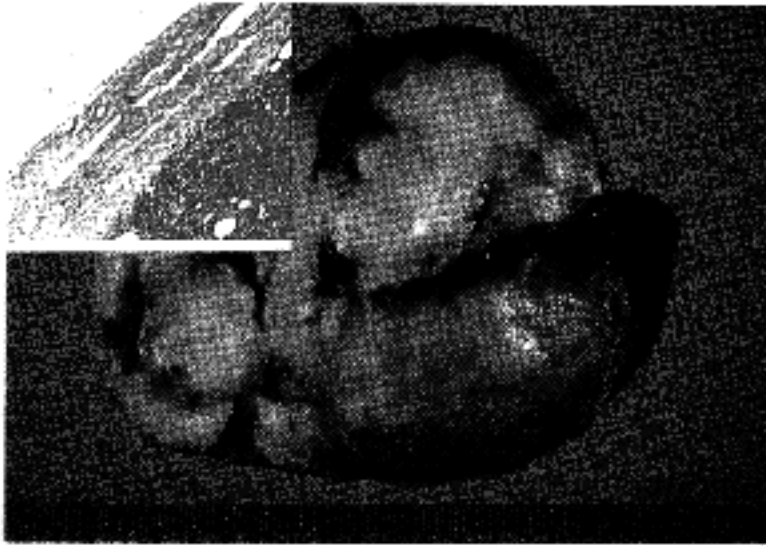


Fig. 1. The tumor has smooth surface. Microscopically, the ovarian stroma and follicles are nearly almost replaced by the tumor cells.(inlet).

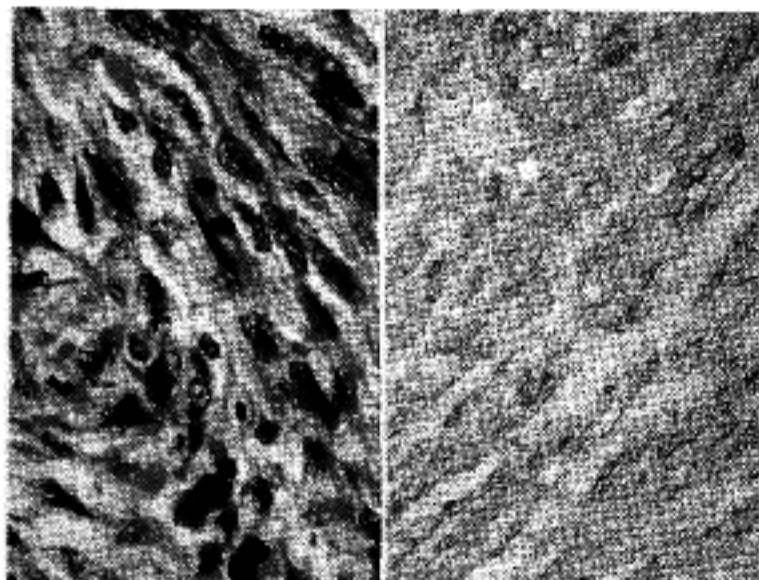


Fig. 2. The high-power photomicrography shows plump spindle cells with cigar-shaped nucleus, mitotic figure (2A). The cytoplasm of tumor cells demonstrate diffuse reactivity for alpha-smooth muscle actin(2B).

없었다(Fig. 1). 광학 현미경적 소견에서 난소는 대부분 종양세포로 대체되어 있었으며 난소막 밖으로 종양세포의 침윤은 관찰할 수 없었다(Fig.1 inset). 종양은 방추형 세포들의 집단들이 서로 교차하거나 소용돌이를 형성하고 있었다. 각개의 방추형세포들은 핵의 다형성을 보였으나 주로 양쪽 끝이 무딘 타원형 또는 결린 모양의 핵을 가지고 있었으며 일부에서는 비정형 또는 거대핵 세포들도 관찰할 수 있었다(Fig. 2A). 세포 분열상 가장 세포분열이 활발한 부위를 고배율로 80시야를 조사한 결과 10 고배율 시야당 9개의 세포분열이 관찰되었다.

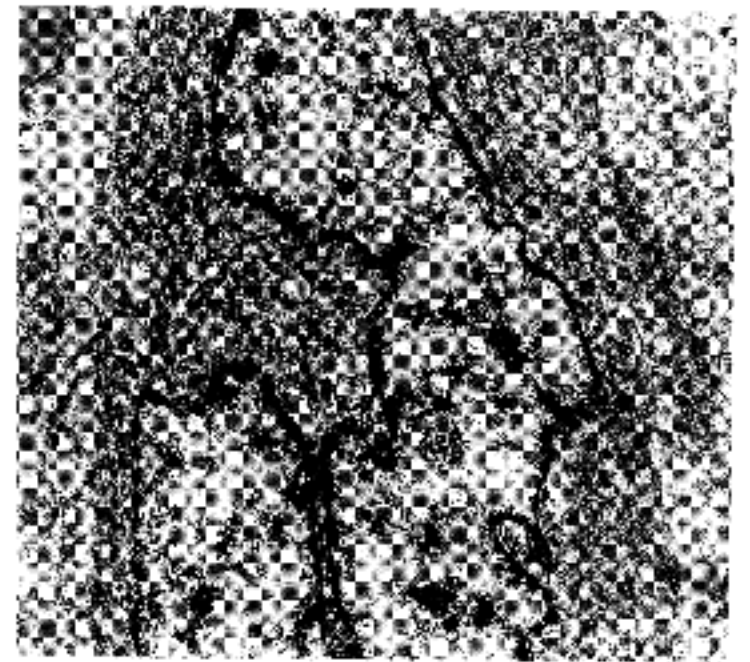


Fig. 3. Electron micrography shows indented nucleus and bundles of thin myofilaments with irregular dense bodies ( $\times 20,000$ )

Masson's-trichrome 염색상 종양세포의 세포질은 신흥색으로 염색되었으며 Phosphotungstic acid-hematoxylin 염색상 세포질은 자주빛으로 염색되었다. 면역조직화학적 검사상 종양세포들은 alpha-smooth muscle actin에 대하여 양성 반응을 나타내었으며(Fig. 2B), cytokeratin, S-100 protein, desmin, myoglobin, vimentin에 대하여 음성이었다. 전자현미경 검사는 포르말린에 고정된 조직을 채취하여 실시하였다. 종양세포의 세포질내에서 핵의 종축과 평행으로 배열되는 미세한 근원섬유를 관찰함으로써 평활근세포 기원의 종양임을 확인할 수 있었다(Fig. 3).

난소에 발생한 평활근육종은 매우 드문 종양으로 본 예를 포함하여 지금까지 21예<sup>1-4</sup>가 보고되었다. 그 중 순수한 원발성 평활근육종은 본예를 포함하여 18예였으며 다른 종양에 동반된 경우가 3예로써 Dermoid cyst, serous cystadenoma, papillary serous cystadenocarcinoma 가 각각 1예이었다. 환자의 나이는 평균 55세로 17세에서 84세까지 이었으며 1예를 제외하고는 대부분 병변이 한쪽의 난소에 국한되어 발생하였다. 본예도 68세의 여자 환자로 종양은 오른쪽 난소에 국한되어 있었으며 임상적, 방사선과적으로 이 종양이 다른 곳에서 전이된 소견은 관찰할 수 없었다.

본 증례에서는 면역 조직화학적 검사상 종양 세

포들이 alpha-smooth muscle actin에 대하여 양성이었으며 전자현미경 검색에서도 종양 세포내의 미세한 근원섬유를 확인함으로써 본 종양이 평활근 세포 기원의 종양임을 확인할 수 있었다. 난소에 발생한 평활근 세포 종양의 기원에 대한 연구에서 평활근종과 평활근육종은 자궁인대(broad ligament), 중신관 잔유물(wolffian duct remnants)의 혈관의 평활근 세포에서 기원하는 것으로 보고되고 있다<sup>3</sup>. 또한 최근에는 난소의 간질 조직 세포 가운데는 평활근 세포와 같은 전자현미경, 면역조직학적 양상을 가지고 있는 세포들이 존재함이 보고되기도 하였다<sup>5</sup>.

본질환과 감별해야 할 질환으로는 난소에 생길 수 있는 방추형 세포로 이루어진 종양들을 감별해야 하는데 fibroma, fibrosarcoma는 면역화학적으로 alpha-smooth muscle actin에 대하여 음성이며 전자현미경적으로도 평활근 세포의 특이한 근원섬유를 볼 수 없는 점으로 감별할 수 있다<sup>6</sup>.

평활근종과 평활근육종을 감별하는데 있어서 가장 중요한 평활근육종의 악성도의 판정기준은 학자에 따라 논란이 아직 많아 결정하기 어려우나 일반적으로 종양의 크기, 유사분열의 정도, 세포형태의 다양성의 정도, 진기한 세포의 존재 유무 등에 따라서 결정된다. 그중 유사분열의 정도는 가장 중요한 진단기준으로 세포 유사 분열상의 수가 10 고배율 시야당 5개 이상이면 평활근육종으로 분류하고 있다<sup>7</sup>.

Matamala등<sup>7</sup>은 난소에 발생한 원발성 평활근종 3예를 보고하면서 이 종양 세포들이 세포형태의 이형성을 보이기도 하지만 모두 1.2 cm 보다 작은 크기였고, 유사분열도 관찰할 수 없었다고 보고하였다.

본 예에서는 크기가 9 cm 이었으며 조직학적으로

도 비정형 또는 거대핵 세포들도 관찰할 수 있었으며, 유사분열도 가장 활동적인 부위에서 10 고배율 시야당 9개의 세포분열상이 관찰되어서 평활근종과 감별할 수가 있었다.

치료는 난소 적출술이 주된 치료방법이며 보조적인 방사선 치료 및 화학 요법등이 환자의 치료에 도움이 되는 것으로 알려져 있다<sup>3</sup>. 본 예에서는 난소적출술을 시행하고 화학요법 6회를 실시한 후 환자는 비교적 건강한 상태로 외래에서 추적 검사중에 있다.

## 참 고 문 헌

1. Shakfeh SM, Woodruff JD. Primary ovarian sarcomas; report of 46 cases and review of the literature. *Obstet Gynecol Surv* 1987; 42: 331-49.
2. Istre B. Sarcoma of the ovary. *J Oslo City Hosp* 1951; 1: 231-7.
3. Friedman HD, Mazur MT. Primary ovarian leiomyosarcoma; an immunohistochemical and ultrastructural study. *Arch Pathol Lab Med* 1991; 115: 941-5
4. Nogales FF, Ayala A, Ruiz-Avila I, Sirvent JJ. Myxoid leiomyosarcoma of the ovary; analysis of three cases. *Hum Pathol* 1991; 22: 1268-73.
5. Lastarria D, Sachdev RK, Rabury RA, Yu HM, Nuovo GJ. Immunohistochemical analysis for desmin in normal and neoplastic ovarian stromal tissue. *Arch Pathol Lab Med* 1990; 114: 502-5.
6. Prat J, Seully RE. Cellular fibromas and fibrosarcomas of the ovary. *Cancer* 1981; 47: 2663-70
7. Matamala MF, Nogales FE, Aneiros J, Herraiz HA, Caracuel MD. Leiomyomas of the ovary *Int J Gynecol Pathol* 1988; 7: 190-6