

서혜부에 발생한 낭성 중피종 1예

중앙대학교 의과대학 병리학교실 및 비뇨기과학교실*

윤 임 중 · 조 남 복 · 이 태 진
김 미 경 · 김 세 철* · 송 계 용

A Cystic Mesothelioma in the Inguinal Area

— A case report —

Im Joong Yoon, M.D., Nam Bok Cho, M.D., Tae Jin Lee, M.D.
Mee Kyung Kim, M.D., Se Chul Kim, M.D.* and Kye Yong Song, M.D.

Departments of Pathology and Urology*, College of Medicine, Chungang University

The cystic mesothelioma is a very rare tumor which has a clinically and histologically benign nature. Here in reported is the case of a cystic mesothelioma presented as a palpable mass of the inguinal area in a 28-year-old male. Ultrasound showed a cystic tumor at the inguinal canal, and the other physical and laboratory examinations were within normal limits. Grossly, the tumor consisted of cysts containing clear serous fluid and focally solid areas. Microscopically, the tumor was encapsulated with fibrocollagenous wall, and the tumor cells were cuboidal or polygonal epithelial cells with single or multiple layers and had clear cytoplasm. Some areas showed thyroid follicle-like structures. The content of follicle-like structures showed eosinophilia in the H&E section, but positive in mucin stain. Neither cytologic atypia nor mitoses were present. Immunohistochemical staining revealed positive reaction for keratins of low molecular weight, while negative for the thyroglobulin and CEA. These findings suggested mesothelial in origin. We concluded that this tumor was primary rather than metastatic, because he had no evidence of a tumor in gastrointestinal, genitourinary tracts and scrotum. (*Korean J Pathol* 1997; 31: 284 ~ 287)

Key Words: Cystic mesothelioma, Inguinal, Keratin

서 론

중피종은 흉막, 심막, 복막의 장막층에서 기원하는 종양으로 매우 다양한 조직학적 소견을 보이기

때문에 다른 유형의 종양과 혼동하기 쉽다. 이전에는 중피종의 진단을 사후 부검을 통해서만 가능하다고 하였으나 현재는 면역조직화학적 염색과 전자현미경적 검색을 통하여 중피종의 진단이 용이해졌다. 낭성 중피종은 드문 종양으로 양성인 것으로 보고되었고 대개는 다낭성으로 복강이나 골반강 내에 위치한다. 낭종들은 중피세포로 피복되어 있으며 이 세포들은 정상적인 또는 반응성인 중피세포들인

접 수: 1996년 9월 12일, 게재승인: 1996년 11월 26일
주 소: 용산구 한강로 3가 65-207, 우편번호 140-756
중앙대학교 의과대학 부속 용산병원, 윤임중

것으로 밝혀졌다¹. 종괴종의 발생 빈도는 확실하지 않으나 대개 전체 암종 중 1% 미만인 것으로 보고되었다. 대부분은 복막에서 발생하고 흉막에서 일부가 발생하며 골반부 복막에서 발생하는 것은 매우 드문 것으로 보고되었으며 원인으로서는 석면과의 관련성이 잘 증명되었는데 아주 적은 미량으로도 발생이 가능하기 때문에 모든 석면 취급자는 위험군이라 할 수 있다¹. 저자들은 젊은 남자의 서혜부에서 발생한 낭종성 종괴종을 경험하고 병변의 발생 위치와 조직학적 유형이 매우 드문 것이기에 병리학적으로 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 보 고

28세 남자 환자가 서서히 커진 우측 서혜부의 종괴를 주소로 내원하였다. 환자의 병력상 발병 시기가 미상인 만성 활동성 간염이 있어서 치료를 받고 있으며 가족력상 특이한 질병은 없었고 전신상태는 건강하였다. 내원 당시 촉진된 우측 서혜부의 종괴는 만저볼 때 부드러웠으며 압통이 없었고 경계가 잘 지워지며 피하에 위치하였다. 초음파 검사 소견상 종괴는 크기가 3.6×2.6×4.0 cm으로 측정되었고 주변과 경계가 잘 지워졌으며 피하층에 있는 것이 확인되었다. 초음파 소견은 낭종과 고형성병변의 혼합형태이었으며 종괴는 대부분이 충실성인 것으로 관찰되었으나 낭종성 변화가 동반되어서 비특이적인 연부조직 종괴로 판독되었다(Fig. 1).

병리학적 소견

종괴는 경계가 분명하고 전이의 증거가 없으므로 양성 종양으로 생각하고 종괴적출술을 시행하였다. 수술 소견상 종괴는 주변 조직과의 유착이 없이 쉽게 적출이 되었으며 낭종성이었고 회색빛을 띠는 점액이 배출되었다. 적출된 종괴는 크기가 5×4 cm이었으며 낭종으로서 단방성이었고 표면은 매끈하였으며 낭종의 벽은 전반적으로 얇았고 내부에는 충실성인 곳이 여러 곳에서 관찰되었다. 충실성인



Fig. 1. Ultrasonography shows a round cystic mass at the right inguinal ring.

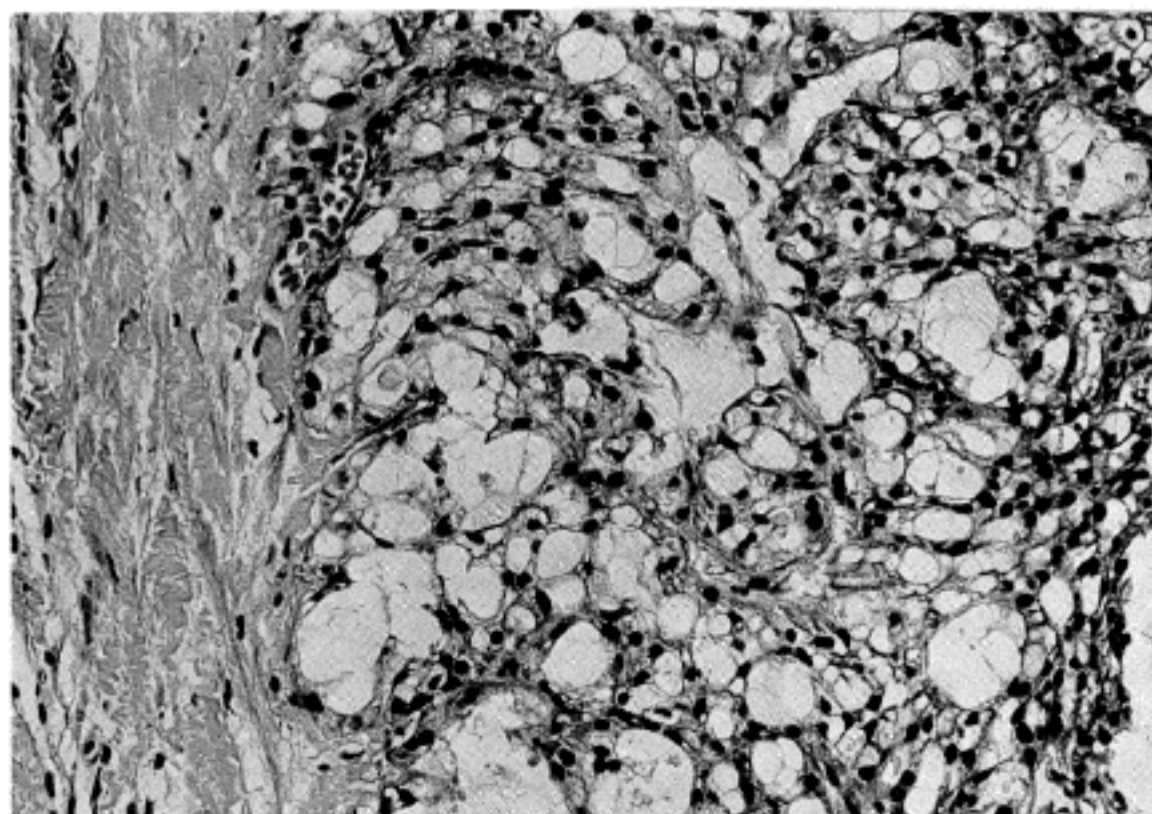


Fig. 2. The tumor is composed of adenoid arrangement of mesothelial cells with eosinophilic materials in it and encapsulated by fibrocollagenous wall.

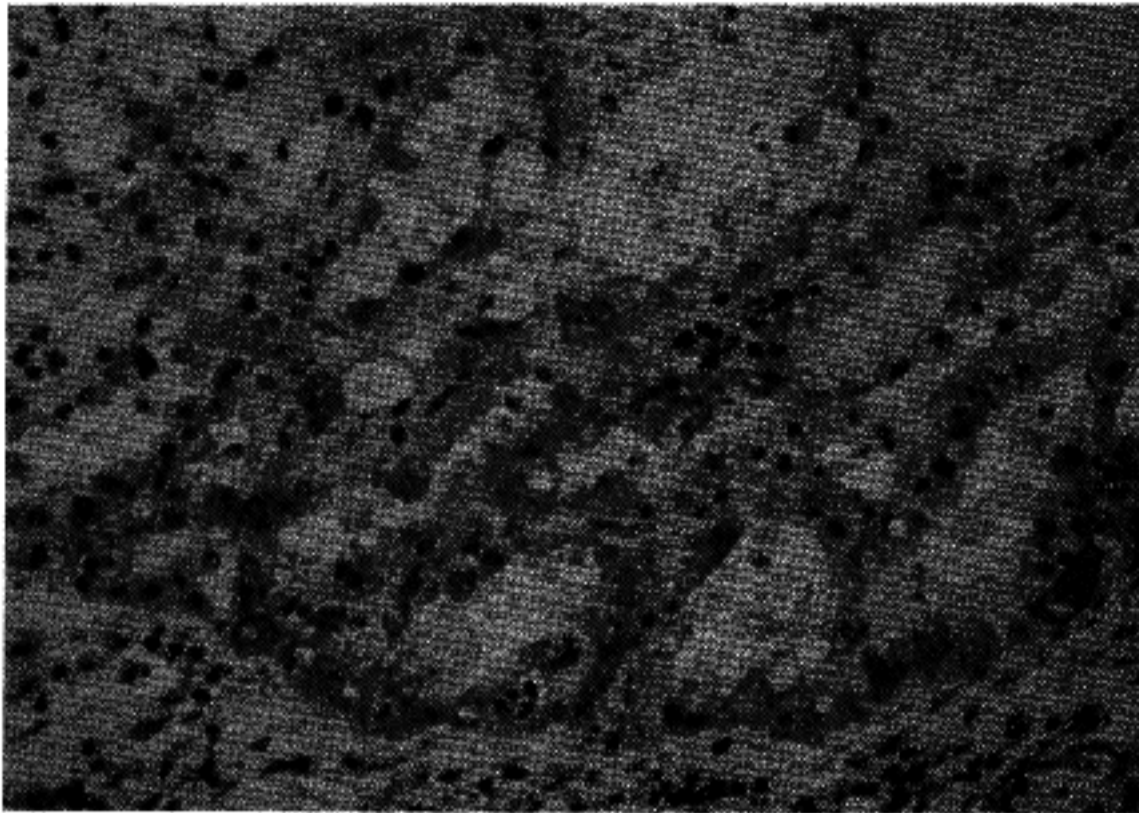


Fig. 3. Immunohistochemical staining for the low molecular weight keratin by CAM 5.2 shows positive reaction in the cytoplasm of tumor cells(Avidin Biotin Peroxidase Complex method).

곳에서는 유두상으로 증식하는 것이 육안으로도 관찰되었다. 광학현미경 소견상 종괴는 섬유성 조직으로 이루어진 피막을 가진 낭종이었으며 피막에 연하여 세포층이 존재하는데 일부에서는 단층인 곳이 있었으나 많은 부분에서는 여러층의 세포들이 층실성으로 때로는 소낭을 이루면서 증식하고 있었다. 개개의 세포들은 난원형의 핵을 가지며 염색질은 고르게 분포하였고 핵소체는 뚜렷하지 않았다. 유사분열은 관찰되지 않았고 세포간의 다형성이 거의 없는 양성인 세포들로 구성되어 있었으며 피막으로의 침윤성 성장도 보이지 않아서 양성으로 생각되었다. 세포질은 풍부한 호산성 물질을 함유하고 있는 것과 투명한 세포가 같이 있었으며 특이한 것은 세포들이 작은 낭을 형성하면서 내부에는 호산성의 물질을 함유하여 갑상선 여포와 같은 소견을 보여 주었다. 이 소낭에 가득 차 있는 물질들은 H & E 염색상에서 짙은 분홍색을 띠어서 갑상선의 콜로이드와 비슷하였다(Fig. 2). PAS 염색에서는 강하게 양성 반응을 보였고 Alcian blue 염색에서는 국소적으로 양성 반응을 나타내었다. 세포들의 내강쪽에서는 뚜렷하지는 않으나 미세섬유가 존재하는 것이 관찰되었다. 이상의 소견으로서 감별해야 할 질환은 갑상선에서 전이된 종양을 생각할 수 있는데 thyroglobulin을 이용한 면역조직화학적 염색을 시행한 결과 음성을 보였고 임상적으로도 갑상선의 크기가 정상이고 갑상선 주사 검사(thyroid scan)에도 정상소견을 보여 감별하였다. 투명한 세포들은 마치 신세

포암을 인상케 하였으나 역시 임상심사상 특이 소견이 없었다. 케라틴 염색에는 세포질에서 양성이었고(Fig. 3) 임태마항원(CEA)에는 음성이어서 부고환에서 발생한 유두상 선종과도 감별하였다. S-100 protein, vimentin 등에도 음성이었다. 이상의 조직학적 소견과 면역조직화학적 검사를 종합한 결과 종괴세포에서 기원한 종양으로 생각되어 낭종성 종괴종으로 진단하였다.

고 찰

종괴종은 흉막, 복막 심막 등의 종괴세포에서 유래하는 종양으로 발생 빈도는 흉막이 가장 많으며 복막, 심막순이다. 복막에서 발생하는 경우 중 복막이 연장된 시혜부와 음낭부에서도 발생한 종괴가 보고되었다¹. 종괴종은 매우 다양한 조직학적 양상을 보이기 때문에 다른 여러 종류의 악성 종양과 감별해야 한다. 종괴종을 조직학적으로 분류하면 국소형과 미만형으로 나누어지며 국소형에는 유선종 종양(adenomatoid tumor), 낭종성 종괴종, 종괴낭종(mesothelial cyst) 등이 속한다. 악성 종괴종은 주로 구성되는 세포에 따라 상피세포형 종괴종, 육종형 종괴종, 이상성(biphasic) 종괴종, 비분화형 종괴종 등으로 나누는데 이 중에서 상피세포형이 가장 많다. 국소형으로 본 종괴와 같은 낭종성 종괴종은 주로 골반복막에서 발생하며 자궁, 난소, 방광, 직장 또는 맹장(cul de sac)의 표면을 침범하기도 하며 때로는

거대한 낭종을 만들기도 한다. 낭종을 이루기 때문에 다낭성 복막 봉입낭(multilocular peritoneal inclusion cyst)로 불리워 오기도 했다. 양성인 것으로 인정되지만 재발을 잘하는 경향이 있어서 50% 정도가 재발하며 재발을 예측할 수 있는 인자는 없는 것으로 보고되었다²⁻⁶. 여러 연구들이 보고한 증례를 고찰해 보면 낭종성 중피종의 크기는 작은 소낭으로부터 다낭종성으로서 무게가 5.8 kg에 이르기까지 다양하고 크기도 수 mm에서 크게는 20 cm에 이르기까지 보고되었다^{5,6}. 남녀 분포는 대부분이 젊은 여자에서 발생하는 것으로 보고되었으나 발병연령은 유아에서 노인까지 다양하였다²⁻⁶. 악성 중피종과 달리 낭종성 중피종에서는 석면과의 연관성이 없는 것으로 보고되었다. 보고된 증례들의 임상양상은 만성적인 골반통이나 복통을 주소로 하며 이학적 검사상 종괴가 만져지고 부드러운 촉감인 것으로 되어 있다¹. 수술소견상 단일성 또는 다낭성이며 얇은 벽을 가진 낭종으로 발견되며 장막에 부착되거나 또는 복강내 떠다니는 형태로 보고되었다. 조직학적 소견으로서 공통적으로 관찰된 것은 낭종이 납작한 세포나 입방형 세포로 피복되며 자주 징 모양(hobnail)세포가 관찰되고 전자현미경적 소견은 미세섬모가 존재하는 것이 관찰되어서 기원이 중피세포임이 증명되었다. 상피세포들의 과증식이 일어난 부분이 국소적으로 관찰되며 편평화생도 드물게 나타난다. 낭종간의 증격은 다양한 두께의 결체조직으로 구성되었다. 면역조직화학적 염색결과는 악성 중피종에서는 keratin(CAM 5.2)과 epithelial membrane antigen(EMA)에 강양성을 보이나 낭종성 중피종에서는 케라틴에 약양성인 것으로 보고되었다⁷. 그러나 본 증례에서는 저분자량 케라틴과 EMA에 강양성으로 반응하였다. 암배아 항원(CEA)에는 악성 중피종이나 낭종성 중피종 모두 음성이었다⁷. 감별해야 할 질환으로는 낭종성 변화를 동반한 악성 중피종, 전이성 암종, 림프관종, 혈관종, 췌장의 미세낭종성 선종 등이지만 가장 감별하기 어려운 것은 중피낭종(mesothelial cyst)과 부정소의 유선종 종양(adenomatoid tumor)중 낭종성 변종이다. 낭종성 중피종은 유선종 종양과 악성 중피종의 중간 단계로 인식되고 있는데 유선종 종양은 작고 대개 증상이 없으며 일반적으로 여성의 난관이나 남성의 부고환에 국한되어 나타나며 재발하지 않는다¹. 이와는 달리 낭종성 중피종은 증상을 유발하는 경우가 많고 재발을 잘

하는 것으로 보고되었다²⁻⁵.

본 증례는 이미 보고된 문헌의 경우와 비교하여 여러 면에서 특이한 점을 나타내었는데 위치가 복막중에서 서혜부로 연장된 곳에서 발생하여 이 부위에서 잘 발생하는 종양들과 감별을 요했던 것과 조직학적 소견이 갑상선을 연상시키는 콜로이드같은 물질을 함유하여 갑상선에서 발생한 암종과의 구별이 필요했으며 투명한 세포들은 신세포암종과 유사하고 비슷한 부위에 발생하는 부정소의 유두상 선종과도 감별이 어려운 점이다. 또 대부분의 낭종성 중피종이 다낭성이고 거대한 종괴를 보이는 것과는 달리 작은 크기(5×4 cm)의 단방성 중피종이며 피복하는 세포들이 단층인 곳도 있었지만 많은 곳에서 중층을 보인 점도 특이하였다. 저자들은 면역조직화학적 염색을 통하여 이 종양이 중피세포에서 기원한 낭종성 중피종임을 밝혀내고 젊은 남자의 서혜부에 발생한 낭종성 중피종이 조직학적 유형과 발생부위 등이 특이하기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Battifora H, McCaughey WTE. Tumors of serosal membranes. third series Fascicle 15: 1994: 15-98 Armed Forces Institute of Pathology.
2. Miles JM, Hart WR, McMahon JT. Cystic mesothelioma of the peritoneum: report of a case with multiple recurrences and review of the literature. *Cleve Clin Q* 1986; 53: 109-14.
3. Katsube Y, Mukai K, Silverberg SG. Cystic mesothelioma of the peritoneum: A report of five cases and review of the literature. *Cancer* 1982; 50: 1615-22.
4. Moore JH, Crum CP, Chandler JG, Feldman PS. Benign cystic mesothelioma. *Cancer* 1980; 45: 2395-9.
5. Weiss SW, Tavassoli FA. Multicystic mesothelioma, An analysis of pathologic finding and biologic behavior in 37 cases. *Am J Surg Pathol* 1988; 12: 737-46.
6. Ross MJ, Welch WR, Scully RE. Multilocular peritoneal inclusion cysts(So called cystic mesotheliomas). *Cancer* 1989; 64: 1336-46
7. Sienkowski IK, Russel AJ, Dilly SA, Djazaeri B. Peritoneal cystic mesothelioma: an electronmicroscopic and immunohistochemical study of two male patients. *J Clin Pathol* 1986; 39: 440-5