

낭성중피종

- 1에 보고 -

조선대학교 의과대학 병리학교실 및 산부인과학교실*

임 성 철 · 정 유 경 · 이 미 숙
김 윤 신 · 박 현 종 · 최 상 준*

Benign Cystic Mesothelioma

- A case report -

Sung Chul Lim, M.D., You Kyung Jeong, M.D., Mi Sook Lee, M.D.
Yun Shin Kim, M.D., Hyun Jong Park, M.D. and Sang Joon Choi, M.D.*

Department of Pathology, and Obstetrics and Gynecology*, Chosun University, College of Medicine

Benign cystic mesothelioma (BCM) is a rare mesothelial lesion that forms multicystic masses in the upper abdomen, pelvis and retroperitoneum. Although it is categorized as a benign lesion, it has a tendency to recur. It is uncertain whether the nature of this lesion is reactive or neoplastic, but many articles support the conclusion that it is reactive rather than neoplastic. The majority of cases were associated with a history of a previous abdominal or pelvic operation, or an evidence of endometriosis or a pelvic inflammatory disease, or a combination of these findings. In a 26-year-old woman we experienced a case of BCM which was incidentally discovered at cesarean delivery revealing multilocular thin and translucent walled cysts in the pelvic cavity. Microscopic examination revealed a thin cyst wall that was composed of fibrous connective tissue and lined by internal stratified and external nonstratified single cuboidal epithelia. (*Korean J Pathol* 1997; 31: 595-597)

Key Words: Benign cystic mesothelioma, Multilocular cyst.

낭성 중피종은 골반강, 복강 및 후복막강에 발생하는 드문 낭성 중피세포 증식성 병변이며, 보고된 일부 예에서 재발이 있는 것을 제외하고는 양성 경과를 취한다¹. 이 병변은 1928년 Plaut²가 "benign cystic serosa-epithelioma of the peritoneum"이라는 진

단명으로 처음 보고한 이래 Lascano³은 "loose peritoneal cyst"로 명명하게 되었고, 최근에는 "multilocular peritoneal inclusion cysts", "benign cystic mesothelioma" 및 "so-called cystic mesotheliomas" 등으로 불리워지고 있다⁴. 이와같이 다양한 명칭을 부여받게 된 것은 이 병변에 대한 정확한 인식이 부족하여 반응성 병변인지, 또는 종양성 병변인지에 관한 의견일치를 보지 못함을 반영한다 하겠다. 보고된 문헌에 따르면 환자의 대부분은 여성이며, 만성적인

접 수: 1997년 2월 3일, 게재승인: 1997년 3월 14일
주 소: 광주시 동구 서석동 588, 우편번호 501-759
조선대학교 부속병원 해부병리과, 임성철

골반통이나 복통 그리고, 종불감(sensation of a mass)이 가장 흔한 증상인데, 간혹 우연하게 발견되기도 하였다. 또한 환자의 42% 가량에서 이전에 삼복부나 골반부의 시술 과거력이 있었고, 14%에서는 골반염증, 그리고 7%에서는 자궁내막증이 있었다^{1,3}. 또한 보고된 예들의 육안소견은 대부분 병변의 인접구조물에 단단히 부착되어 있었으나, 육경(pedicle)에 의해 매달려 있거나, 심지어는 자유로운 상태로 떠돌아 다니는 예도 있었다^{3,6}. 국내 문헌고찰 결과 1989년 서등⁵이 보고한 1례가 있었다.

저자들은 최근 26세 여성의 초산 제왕절개 분만도중 우연히 우측 골반 누두인대(infundibulopelvic ligament) 하방의 복막에 단단히 부착된 낭성 종괴종 1예를 경험하였기에 그 희귀성에 비취 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례: 산과력 0-0-0-0인 26세 여성이 협골반으로 만삭 제왕절개 분만도중 우측 골반 누두인대(infundibulo-pelvic ligament) 하방의 복막에서 우연히 3.5×3.0×1.0 cm 크기의 낭종을 발견하였다. 낭종은 최대 장경 1.0 cm 크기의 크고 작은 소낭 4개가 서로 붙어진 형태였으며, 매끈하고 얇은 투명막으로 구성되어, 낭 내부에는 장액성 액체로 채워져 포도알갱이와 같은 형태를 보였다. 환자는 병변과 관련된 특이한 증상을 보인적도 없었고, 과거력상 복부나 골반부 시술력 등을 포함한 특이한 사항은 없었다.

현미경적 소견상 낭의 내면을 대부분 피복하는 세포는 중층 입방상외세포인데 부분적으로는 단층으로 피복되며, 구두징(hobnail) 모습을 보이거나, 위축되어 납작해져 있었고, 곳에 따라서는 편평상외세포 화생을 보이고 있었다. 한편 낭의 외표면을 피복하는 세포는 거의 대부분이 납작해진 입방상외세포양상을 보였다. 기저막 하부에서 관찰되는 결체조직층은 곳에따라 두꺼워진 곳이 일부 존재하기는하나, 대체로 얇고 일정한 두께를 지니고 있었다. 다소 두꺼워진 곳을 자세히 관찰해 보면 증식된 다각형의 상외세포와, 섬유모세포가 배열되어 있었으며, 어느 곳에서는 내외층 모두 피복상외가 탈락된채로 결절양 또는 띠 모양으로 결체조직이 증식되어 있었다(Fig. 1). 상외세포 및 결체조직내의 세포 모두 과염색성을 부분적으로 보이나, 뚜렷한 이형성증이나 유사분열상은 없었다. 낭 내부의 내용물을 자세히 관찰해보면 풍부한 호산성의 부구조물과 이들 사이에 떠있는 상외양세포 집락들을 흔하게 찾아 볼 수 있었다. 이 세포들은 원형 내지 난원형이었으며, 풍부

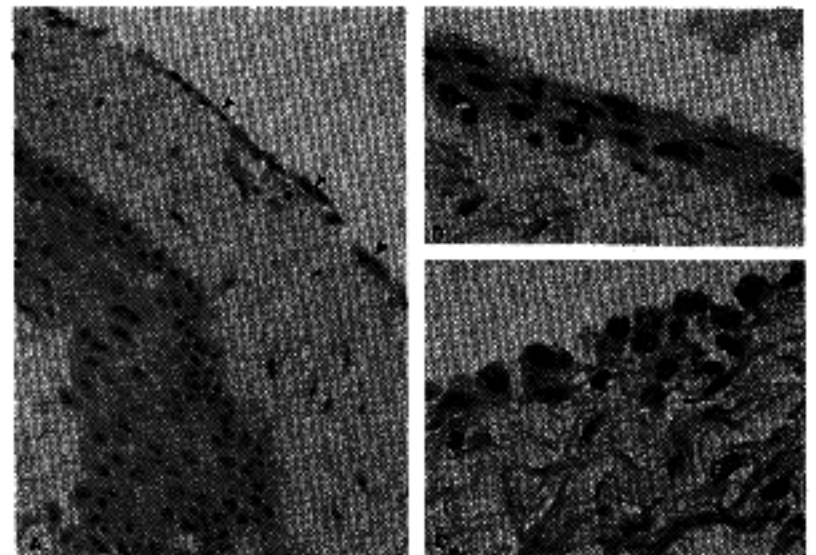


Fig. 1. Flat (B) to cuboidal (C) and squamous (A) metaplastic internal lining and single layer of external lining cells (arrow heads) separated by collagenous septa are seen.

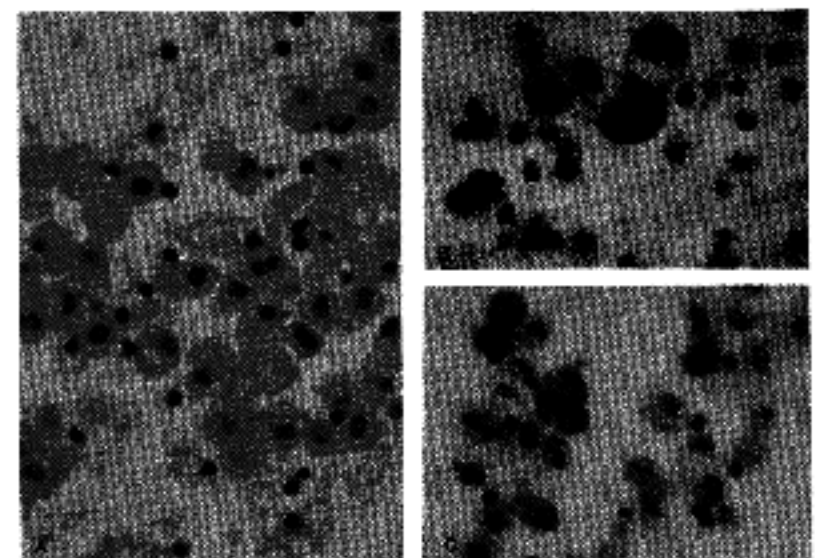


Fig. 2. Cytologic findings of the cystic content reveal polygonal to oval cells containing eccentric nuclei with conspicuous nucleoli. The cytoplasmic border is indistinct or ruffled (A). The cells are positive for cytokeratin (B) and vimentin (C). (ABC method)

한 호산성의 세포질을 갖고 있었다. 또한 핵은 둥글며 세포 중앙에 위치하고 가끔씩 핵소체를 지니며 염색질은 비교적 진하였다. 세포 변연을 자세하게 관찰해보면 매끈하고 뚜렷하기보다는 구겨진듯하고 불명확 하였다. 또한 이들은 cytokeratin 과 vimentin에 양성반응을 보였다(Fig. 2). 피복 세포에 대한 면역조직화학적 염색 결과 cytokeratin 및 EMA에 양성반응을 보였고, CEA 및 vimentin에 음성이었다(Fig. 3). 한편, 내외벽을 피복하는 상외양세포가 혈관내외세포와 일부 유사하게보여 Factor VIII-related

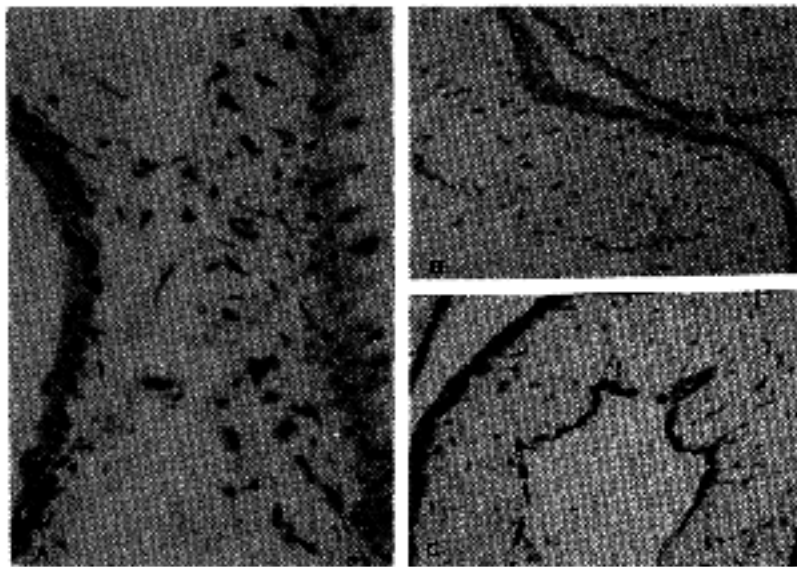


Fig. 3. The lining cells are negative for vimentin, but the intervening stromal cells are positive (A). The lining cells are positive for EMA (B) and cytokeratin (C). (ABC method)

antigen 에 대한 면역조직화학적 염색을 시행하여 보았으나 음성이었고, 낭벽의 결체조직내에 평활근의 존재이부를 보기위해 actin, desmin 염색을 시행해 보았으나 모두 음성이었다. 대부분의 내강내 피복 세포들은 vimentin에 음성이던 반면 탈락세포들은 양성인 것은 휴지기의 중피세포가 활성화되면 vimentin에 양성을 보이기 때문인 것으로 해석된다¹⁶. 따라서 회복하고 있는 세포의 성상은 중피세포 기원이며, 내강내로 탈락된 세포 역시 활성화된 중피세포임을 시사해 주었다.

고 찰: 다방성 복막 봉입낭으로 보고된 예들의 경우 발생 연령은 1세에서 73세로 광범위하지만, 평균연령38.1세였으며, 81.2%가 여성이었다. 또한 육인에 비해 백인에 절대우위의 발생율을 보였고, 53.1%에서 개복술의 과거력이 있었다¹. 많은 예들의 경우 임상증상으로는 복부나 골반부의 동통이나 불쾌감, 종물감을 갖고 있었으며 미전의 수술력, 골반 염증 질환이나 자궁내막증등의 과거력을 수반하여 진성 종양성 병변이라기 보다는 반복적인 복막자극에 대한 반응성 병변임을 시사해주는 임상소견들을 갖고 있었다¹. 그러나, 본 환자의 경우 젊은 여성이라는 점은 이들 보고 증례들과 일치되는 소견이지만 특이한 과거력을 갖고 있지는 않았다. 또한 병변과 관련된 임상증상을 호소함 없이 우연히 병소가 발견

되었으나, 이는 임신에 의해 증상이 감추어졌을 가능성도 있을 것으로 사료된다.

양성 중피종은 일반적으로 수술전 진단이 어려운데, 초음파나 전산화 단층 촬영 소견상 이상이 발견되어 병변을 의심할 수 있어도 확진은 수술에 의해서만 가능하다. 또한 임파관종과의 감별은 육안적으로는 물론 일반적인 조직검사만으로도 감별이 어려워 면역조직화학적 염색이 필요하다¹⁴.

이 병변은 대부분 양성 질환으로서의 임상 과정을 취하지만, 외과적 절제면에 병변이 있는 경우 재발을 잘하여 재발율이 50%에 이르기 때문에¹ 수술시 조직학적 및 면역조직화학적 귀색상 분 질환으로 최종 진단이 이루어지면 가능한 한 넓게 절제하여 추가적인 개복술을 최소화 할 것을 권하고 있다¹. 그러나, 병변이 국소화된 경우 보존적 절제술을 시행한후 경화성 화학 물질을 주입하여 재발없이 성공적인 치료를 했다는 보고⁷가 있어 재발을 방지하기 위한 보조적 경화요법이 추천된다.

저자들은 우측 골반 누두인데 하방의 복막에 부착된 양성 양성 중피종 1예를 경험 하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Takenouchi Y, Oda K, Takahara O, et al. Report of a case of benign cystic mesothelioma. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 1165-7.
2. Plaut A. Multiple peritoneal cysts and their histogenesis. *Arch Pathol* 1928; 5: 754-61.
3. Lascano EF, Villamayor RD, Llauro JL. Loose cysts of the peritoneal cavity. *Ann Surg* 1960; 152: 836-844.
4. Ross MJ, Welch WR, Scully RE. Multilocular peritoneal inclusion cysts. *Cancer* 1989; 64: 1336-1346.
5. Suh YL, Choi WJ. Benign cystic mesothelioma. A case report. *J Korean Med Sci* 1989; 4: 111-5.
6. Larocca PJ, Rheinwald JG. Coexpression of simple epithelial keratins and vimentin by human mesothelial and mesothelioma in vivo and culture. *Cancer Res* 1984; 44: 2991-5.
7. Lipitz S, Seidman DS, Schiff E, Achiron R, Menczer J. Treatment of pelvic peritoneal cysts by drainage and ethanol instillation. *Obstet Gynecol* 1995; 86: 297-9.