

## 자궁의 거대낭성 샘모양종양 -1예 보고-

김미진 · 구미진<sup>1</sup>

영남대학교 의과대학 병리학교실  
대구파티마병원 병리과

접 수 : 2004년 6월 2일  
게재승인 : 2004년 8월 30일

책임저자 : 김 미 진  
우 705-717 대구광역시 남구 대명동 317-1  
영남대학교 의과대학 병리학교실  
전화: 053-620-3334  
Fax : 053-656-1429  
E-mail: mjkap@med.yu.ac.kr

### Giant Cystic Adenomatoid Tumor of the Uterus - A Case Report -

Mi Jin Kim and Mi Jin Gu<sup>1</sup>

Department of Pathology, College of Medicine, Yeungnam University, Daegu;  
<sup>1</sup>Department of Pathology, Daegu Fatima Hospital, Daegu, Korea

Adenomatoid tumor of the uterus is a rare benign tumor of the uterine serosa and myometrium. It usually appears as a small nodular lesion having a distinctive histologic appearance. We describe a case of 67-year old female with a large, grossly cystic adenomatoid tumor 7 × 7 cm in dimension that was located at the right uterine cornus. Microscopically the tumor had unusually extensive solid proliferation of signet ring cells with large vacuoles in their cytoplasm. Also, adenoid and honeycomb-like cystic patterns were observed. The immunohistochemical and ultrastructural studies demonstrated the mesothelial origin.

**Key Words** : Adenomatoid tumor; Uterus; Cysts; Carcinoma, signet ring cell

자궁의 거대낭성 샘모양종양은 샘모양종양의 매우 드문 유형으로, 낭성, 거대, 혹은 거대 낭성 샘모양 종양이라는 용어로 문헌상에 9예 정도가 보고되어 있다. 저자들은 우측 자궁각에 위치하며 육안으로는 크고 낭성을 띠며, 조직학적으로는 반지 모양 세포로 구성된 거대낭성 샘모양종양 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

### 증 례

환자는 67세 여성으로 하복부 통증을 주소로 내원하였다. 과거력으로는 12년 전에 우측 신장의 투명세포 신장암으로 신절제술을 받은 적이 있었다. 골반의 전산화 단층촬영에서 경계가 잘 지어진 7 cm 크기의 낭성 종괴가 골반강내에 관찰되어 우측 난소암 의심 하에 개복술을 시행하였다. 수술 소견상 낭성 종괴는 우측 자궁내에 위치하고 있었고 양측 난소에도 낭성 종괴가 관찰되어 전자궁 절제 및 양측 부속기 절제술을 시행하였다. 자궁의 절단면상 종괴는 점액물질로 가득 차 있었고 내강에 스폰지 모양의 고형 성분이 떠 있는 양상이었다. 피사나 출혈 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 그 외 자궁 근층에서 3.5 cm 크기의 평활근종이 관찰되었고, 우측 난소에는 4.0 cm 크기의 맑은 장액을 가진 단방성 낭종이, 좌측 난소에는 6.0 cm 크기의 내면에 작

은 유두상 돌기를 가진 낭종이 관찰되었으며, 이들은 각각 조직학적으로 장액종양 및 경계영역성 장액종양이었다.

조직소견에서 자궁 종괴의 낭벽은 위축된 자궁근층으로 둘러싸여 있었고 고형부분에서도 크고 작은 낭성 병변이 입방형 혹은 납작한 세포로 피복되어 있었다(Fig. 2). 종양세포의 대부분은 세포 밀도가 높은 상피세포 모양의 세포로서 미만성 판상 증식을 하고 있었고, 관 구조를 만드는 샘모양 패턴도 드물게 관찰되었다. 상피세포 모양의 종양세포는 고배율에서 특징적으로 반지 모양 세포형태로 투명하거나 옅은 호산성의 공동을 가진 세포질을 가지고 있었다(Fig. 3). 핵은 입방형 혹은 난원형으로 세포질의 한 쪽에 치우쳐 있었고, 염색질은 균일하였으며 핵소체는 불분명하였다. 유사분열은 관찰되지 않았다. 간질은 양성하며 혈관이 증식되어 있었다. 염색세포, 포말세포의 침윤은 관찰되었으나 평활근속이나 종양세포 주위에 결합조직형성은 관찰되지 않았다. 면역조직화학 검사에서 종양세포는 EMA, cytokeratin 20, CEA, CD31, smooth muscle actin (Dako, Glostrup, Denmark), factor 8, HMB-45 (Dako, Carpinteria, CA, USA), desmin (Zymed, San Francisco, USA)에 음성인 반면, cytokeratin 7, vimentin, calretinin (Dako, Glostrup, Denmark), cytokeratin (AE1/AE3), HBME-1 (Dako, Carpinteria, USA)에 양성이었다(Fig. 4). 전자현미경 검사상 가늘고 긴 미세융모의 돌출과 결합체, 기저막, 세포질내에서 다량의 당김미세섬유가

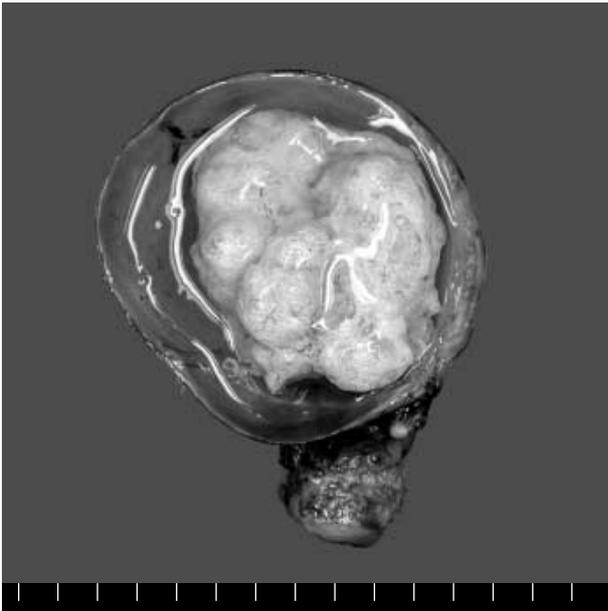


Fig. 1. The cut section of the uterine tumor shows a large cystic mass containing mucoid material and central pinkish white, sponge-like solid portion.

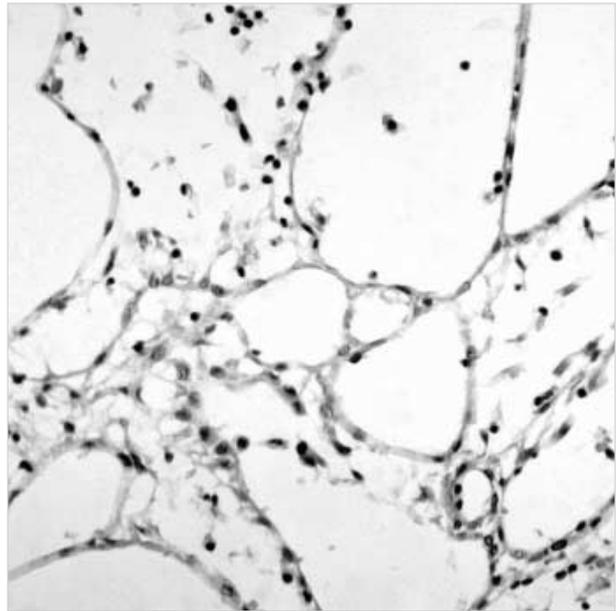


Fig. 2. Partly noted are variable sized cystic spaces lined by flat and cuboidal neoplastic cells in the peripheral portion of solid tumor component.

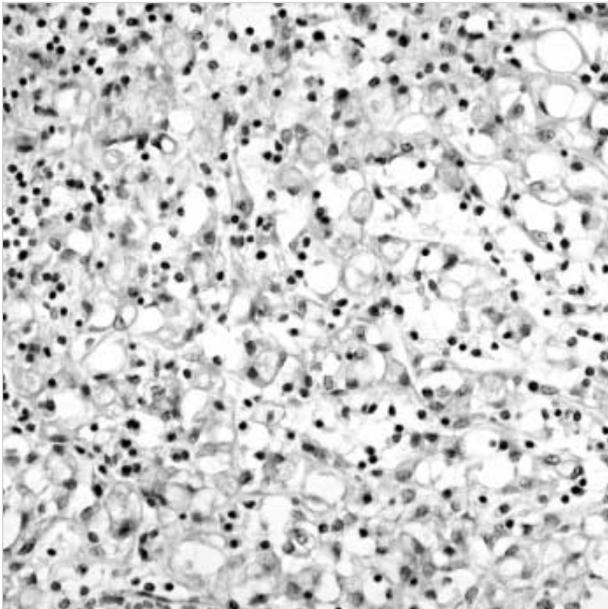


Fig. 3. The tumor shows solid proliferation of epithelioid tumor cells with signet ring shaped large vacuoles in most parts.

관찰되어(Fig. 5) 중피세포 기원임을 확인하였다.

## 고 찰

샘모양종양은 주로 작은 결절형의 양성 종양으로, 남자에서는 부고환, 여자의 경우 자궁관의 장막층에서 흔히 발생한다.<sup>1</sup> 자궁

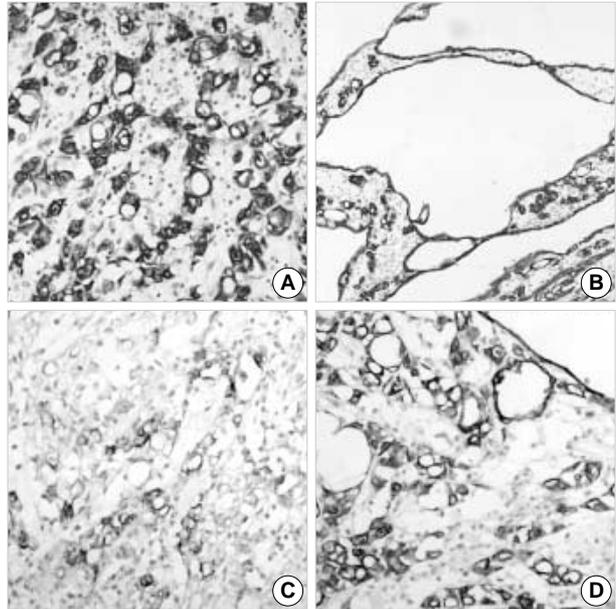


Fig. 4. Space-lining tumor cells as well as signet ring cells show strong positivity for cytokeratin (A, B), HBME-1 (C), and calretinin (D).

의 샘모양종양은 비교적 드문 종양이며 크기가 크고 육안으로 낭성을 띠는 경우는 매우 드물다.<sup>1,2</sup> 남성 샘모양종양은 일찍이 Quigley 등이 보고한 네 가지 조직학적 유형 중의 하나로 기술된 바 있으나, 육안 소견은 일반적인 샘모양종양과 다르지 않아 주목받지 못하였다. 그 후 Bisset 등이 육안 및 조직학적으로 독특한 형태로서 거대낭성 샘모양종양을 처음 보고한 바 있으며

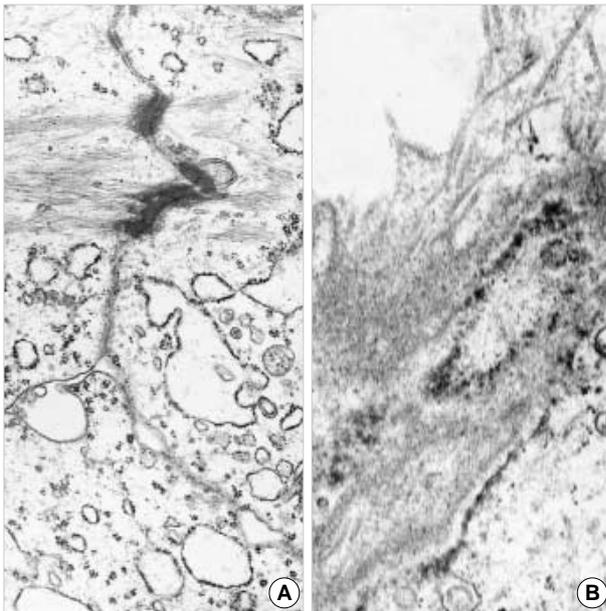


Fig. 5. Ultrastructurally, (A) the tumor cells have prominent desmosomal junctional complex and microfilaments in their cytoplasm ( $\times 12,000$ ). (B) The cellular surface shows long, slender microvilli ( $\times 17,000$ ).

지금까지 9 증례가 개개 증례로 보고되어 있다.<sup>3-10</sup> 최근 자궁의 샘모양종양을 대량 분석한 연구에 의하면 60예의 자궁 샘모양종양 가운데 4예가 남성형이라고 하였다.<sup>11</sup> 이들 종양은 4-13 cm으로 크기가 크고 육안적으로 낭성을 보이며 오른쪽 자궁각 부위에 발생하는 경향이 있다. 발생 연령은 32세에서 50세까지로 주로 중년 여성이었고 평활근종이나 샘근증 등의 자궁내 병변과 동반되어 있었다(Table 1). 본 증례의 경우 크기가 7 cm이고 낭성이며 오른쪽 자궁각에 치우쳐 있으며 평활근종이 동반되어 있는 점 등은 다른 증례들의 육안 소견과 유사하였다. 그러나 본 증례는 노년에서 발생하였고 양측 난소에 각각 양성 및 경계영역성 장액종양을 동반하고 있었다. 거대낭성형의 샘모양종양은 방사선학적으로 흔히 자궁근종이나 난소 종양으로 오진하기 쉬우며,<sup>10,11</sup> 실제로 본 증례도 수술 전 난소종양으로 간주되었다. 이러한 오류는 Nogales 등<sup>11</sup>이 제안한 바와 같이 자궁 샘모양종양의 두 가지 육안적 분류, 즉 작고 고형성인 것과 크고 낭성인 유형의 존재를 인식한다면 크게 줄어들 가능성이 있다.

조직학적으로는 샘모양, 혈관모양, 고형성과 낭성의 네 가지 양상이 있으며 보통 이들 양상이 혼합되어 나타난다.<sup>3</sup> 샘모양 양상이 가장 흔히 보는 유형이며 낭성 양상이 가장 드물다. 종양 세포는 입방형 혹은 편평한 상피세포 모양의 세포로서 샘이나 혈관모양, 낭의 내면을 피복하고 있다. 고형성 양상에서 종양 세포는 좀더 풍부한 호산성의 세포질을 갖는다. 낭성 샘모양종양은 조직학적으로도 주로 낭성 양상을 나타낸다. 본 예에서 납작하거나 입방형의 세포로 피복된 낭성 소견도 관찰되었으나, 종양세포의 대부분은 반지 모양 세포로 본 종양의 고형성 부분은

Table 1. Summary of clinicopathologic features of uterine cystic adenomatoid tumors

Cases	Age	Tumor size (cm)	Tumor location	Major histologic type	Other lesions
Quigley	49	2.5	right cornu	cystic	adenomyosis
Iwasaki	32	?	right cornu	adenoid	?
Bisset	45	10.0	right intramural	cystic (papillary)	leiomyoma
Palacios	38	8.0	right cornu	cystic/solid	-
Rosa (1)	40	12.0	lateral wall	cystic	leiomyoma
(2)	50	13.0	posterior wall	cystic	-
Livingston	39	4.0	right anterior	cystic	-
Choi	49	10.0	posterior wall	cystic	-
Kim	40	5.2	left side	cystic	-
Present case	67	7.0	right cornu	signet ring/cystic	leiomyoma, ROST, LOSBT

Cases are numbered by first author; ROST, right ovarian serous tumor; LOSBT, left ovarian serous borderline tumor.

이들 세포의 미만성 판상 증식으로 구성되어 있었다. 반지 모양 세포는 전이된 인화세포암과의 감별이 필요한데, 세포의 비정형성이 없고 유사분열이나 결합조직형성을 볼 수 없는 점 등으로 감별하였다. 종양세포의 세포질내 공포형성은 샘모양 양상에서 종종 관찰되며 간혹 반지 모양 세포가 관찰되기도 한다.<sup>3</sup> 그러나 본 예와 같이 종양의 대부분에서 광범위한 반지 모양의 세포 증식은 매우 드문 조직 소견이며 전이암과의 감별이 중요하다. 또한 본 환자의 병력상 신장암의 전이 가능성도 배제할 수 없었는데, 특히 두 종양 모두 세포질내 공포를 보이고 있어 감별이 필요하였지만, 세엽구조를 보이는 전형적인 투명세포 신장암의 소견이 없고 EMA에 대한 면역염색에서 음성반응을 보여 감별하였다. 림프관종 또한 감별 대상이었지만 반지 모양 세포의 증식과 cytokeratin 면역조직화학 검사로 배제할 수 있었다. 그 외 면역조직화학 검사상 calretinin, HBME-1, vimentin에 양성인 반면 factor 8, CD31, CEA, actin, desmin, HMB-45에 음성이었으며, 전자현미경 검사상 길고 가는 미세융모, 당김 미세섬유 다발 등이 관찰되어 중피세포 기원임을 확인하였다.

저자들은 육안적으로 드문 낭성 소견과 현미경적으로도 특이한 반지 모양의 세포로 구성된 거대낭성 샘모양 종양 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

## 참고문헌

- Zaloudek C, Norris HJ. Mesenchymal tumors of the uterus. In: Kurman RJ, ed. Blaustein's pathology of the female genital tract. 3rd ed. New York: Springer-Verlag, 1987; 373-408.
- Tiltman AJ. Adenomatoid tumors of the uterus. Histopathology 1980; 4: 437-43.
- Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumor of the uterus. Am J Clin

- Pathol 1981; 76: 627-35.
4. Bisset DL, Morris JA, Fox H. Giant cystic adenomatoid tumor (mesothelioma) of the uterus. *Histopathology* 1988; 12: 555-8.
  5. Iwasaki I, Yu TJ, Tamaru J, Asanuma K. A cystic adenomatoid tumor of the uterus simulating a lymphangioma grossly. *Acta Pathol Jpn* 1985; 35: 989-93.
  6. Palacios J, Suarez MA, Ruiz VA, Burgos LE, Gamallo AC. Cystic adenomatoid tumor of the uterus. *Int J Gynecol Pathol* 1991; 10: 296-301.
  7. De Rosa G, Boscaino A, Terracciano LM, Giordano G. Giant adenomatoid tumors of the uterus. *Int J Gynecol Pathol* 1992; 11: 156-60.
  8. Livingston EG, Guis MS, Pearl ML, Stern JL, Brescia RJ. Diffuse adenomatoid tumor of the uterus with a serosal papillary cystic component. *Int J Gynecol Pathol* 1992; 11: 288-92.
  9. Choi YH, Chae SW, Ahn HK, Lee MC, Park YE. Giant cystic adenomatoid tumor of the uterus: A case report. *Korean J Pathol* 1993; 27: 85-7.
  10. Kim JY, Jung KJ, Sung NK, Chung DS, Kim OD, Park S. Cystic adenomatoid tumor of the uterus. *Am J Roentgenol* 2002; 179: 1068-70.
  11. Nogales FF, Isaac MA, Hardisson D, *et al.* Adenomatoid tumors of the uterus: an analysis of 60 cases. *Int J Gynecol Pathol* 2002; 21: 34-40.