

사춘기에 발생한 부난소의 경계성 장액성 낭선종

계명대학교 의과대학 병리학교실

최미선

Parovarian serous borderline tumor in adolescence

Mi Sun Choe, M.D.

Department of Pathology, Keimyung University School of Medicine, Daegu, Korea

Abstract : Parovarian tumor comprises about 10% of uterine adnexal tumor and is probably of paramesonephric, mesothelial or mesonephric origin. Most of them are benign and malignant tumors occur very rarely. The tumor usually occurs in premenopausal woman and rarely in adolescence. We present a case of parovarian serous borderline tumor occurring in adolescence. As far as we know, this is the first case of parovarian serous borderline tumor of adolescence in Korean literature. A 16-year-old female underwent cystectomy for cystic mass in mesosalpinx, apart from ovary and fallopian tube. The inner surface of the cystic mass showed a cauliflower-like mural nodule, which was composed of papillary structures covered with atypical cells. Stromal invasion was not observed. The histologic features are similar to serous borderline ovarian tumor.

Key Words : Borderline, Parovarian cyst, Serous cystadenoma

서론

부난소 종양은 난소문 (hilum)과 난관 사이의 난관간막(mesosalpinx)에서 발생한 종양을 일컬으며 모든 자궁부속기 종괴의 약 10%를 차지하는

것으로 알려져 있다. 부난소 낭종의 발생기원은 아직 명확하게 밝혀져 있지 않으나 대부분은 부중신(mullerian duct)이나 중피(mesothelium)에서 그리고 드물게 중신(wolffian duct)에서 기원하는 것으로 생각된다[1]. 부난소 낭종은 대부분 양성으로

주로 30~40대의 가임기 여성에게 발생한다. 경계 영역성을 포함한 악성의 빈도는 3.0% 이하로 드물다[1,2]. 저자는 16세 사춘기에 부난소에서 발생한 경계성 장액성 낭선종을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

중 례

16세 여아가 4개월 동안 지속된 하복부통증을 주소로 내원하였다. 환자는 가족력이나 과거력, 이학적 검사상 특이소견은 없었다. CA19-9, CEA, CA125등 종양표지자에 대한 혈청검사를 포함한 혈액검사나 요검사에서 이상소견은 관찰되지 않았다. 골반 초음파와 방사선 자기공명영상검사상 왼쪽 난소위치에 약 9 cm 장경의 낭성 종괴가 관찰되었으며 이 낭성 종괴 내부는 고형성 결절을 동반하고 있었다 (Fig. 1). 소아 과립층세포종양 (Juvenile granulose cell tumor)이나 장액성 난소낭종 의진하에 개복술을 시행하였다. 수술소견상 왼쪽 난소와 나팔관 사이에 위치한 부난소낭종이 관찰되었다. 왼쪽난소는 정상크기였으며 단순낭으로 생각되는 병변 외에는 이상소견이 관찰되지 않았다. 왼쪽 난관 및 자궁과 오른쪽 부속기는 육안적으로 정상이었다. 수술 중 시행한 왼쪽 부난소낭종에 대한 동결절편검사상 경계성 유두상 장액성 낭종으로 진단되어 추가적으로 대망절제술과 충수돌기 절제술을 시행 하였다. 제거된 낭종은 370 gm, 장경 10 cm으로 겉 표면은 매끄러웠고 편평하였다. 낭종은 연한 노란색의 장액성 액체로 채워져 있었다. 내부표면에는 장경 약 3.5 cm크기의 큰 고형성 유두상 결절과 다초점성의 작은 유두상 결절성 병변들이 관찰되었다 (Fig. 2). 조직학적으로 낭벽은 치밀한 섬유성 조직과 약간의 평활근으로 이루어져 있었다. 내면의 대부분은 편평하였으나 육안적으로 결절을 이룬 부위에서는 현저하게 유두상 혹은 관상 성장을 보였다. 편평한 부위는 섬모가 잘 관찰되는 한 층의 원주형 상피로 덮여 있었으며 세포의 이형성은 미약하였다. 유두의 중심부는 치밀한 섬유성 조직과 혈관들로 이루어져 있었으며 바

깁쪽으로는 한층 또는 여러 층으로 이루어진 원주형 상피들로 덮여 있었다. 상피세포들은 경도 또는 중등도의 핵 이형성을 나타내었으며 매우 드물게 유사분열이 관찰되었다. 석회화는 관찰되지 않았다. 기질 내로의 침윤은 관찰되지 않아 경계성 유두상 장액성 낭선종으로 진단되었다.

고 찰

부난소 낭종은 사전적의미로 epoophoron에서 발생한 낭종으로 정의되어 왔으나 실제 임상적으로는 대부분 난소 근처의 난관간막(mesosalpinx)에서 발생한 낭종을 일컬으며 자궁부속기 종양의 약 10%를 차지한다. 난관간막에는 다양한 중신이나 부중신 등의 발생학적 잔재 구조물들이 남아 있을 수 있어 부난소 낭종은 이 들로부터 기원한 종양이나 이들의 단순한 낭성 확장에 의해 야기될 수 있다 [3]. 부난소 낭종의 정확한 발생기원은 아직 명확하게 밝혀져 있지 않으나 대부분은 부중신 (mullerian duct)이나 중피(mesothelium)에서 그리고 드물게 중신(wolffian duct)에서 기원하는 것으로 생각된다[1,4]. Genadry 등은 대부분의 부난소 낭종은 중피(mesothelium) (68%)나 부중신 (mullerian duct) (30%)에서 기원한 것으로 보고한 바 있다[1]. 부중신기원일 경우 상피는 많은 섬모원주상피와 분비세포로 구성되어 있고 내강쪽으로 유두상 돌기를 자주 형성한다. 주로 섬유성 피막으로 둘러싸이게 되며 평활근층의 발달은 미약하다. 중피기원일 경우 납작하며 섬모가 없는 상피로 이루어지며 섬유성 지방피막으로 덮여 있다. 반면에 중신기원일 경우에는 섬모의 발달이 미약하며 낮은 입방상피로 피복되어 있고 상대적으로 잘 발달된 기저막을 가지고 평활근층에 의해 둘러싸이는 특징이 있다[3-6]. 본 증례의 경우 섬모가 발달된 원주형 상피로 이루어져 있고 낭벽에 평활근이 잘 발달되지는 않았으나 관찰된다는 점에서 부중신형에 합당하다. 대부분의 종양성 부난소 낭종은 양성이며 또한 부중신형의 상피로 이루어진다. 부중신형 상피 종양의 경우 악성과 경계성, 양성의 분류는

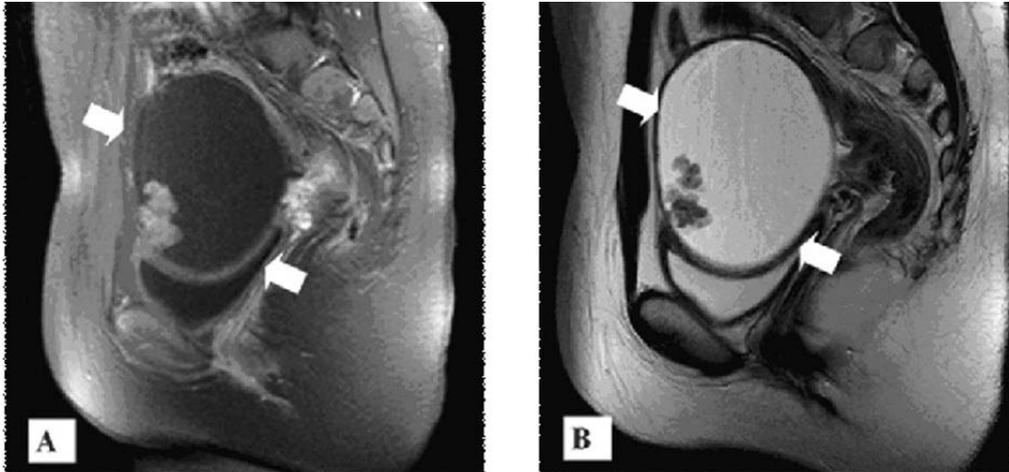


Fig. 1. MR image shows a well-demarcated cystic mass with papillary nodules (white arrow) along cystic wall on T1-weighted image (A) and on T2-weighted image (B).

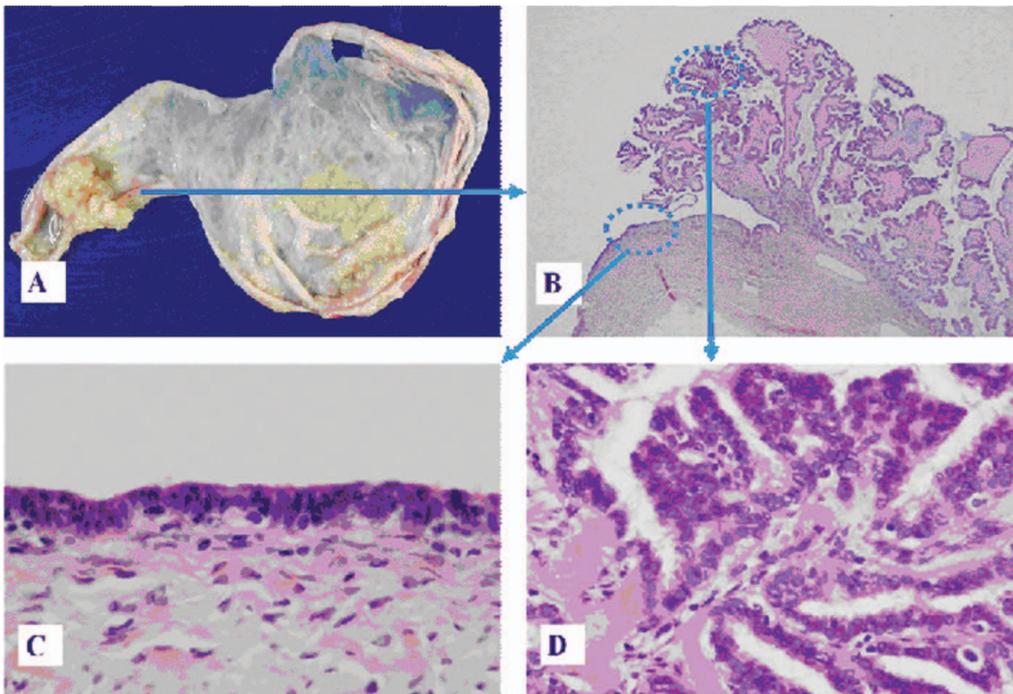


Fig. 2. On gross examination, the inner surface is mostly smooth and trabeculated but multifocally showed papillary mural nodules up to 4.5 cm in greatest dimension (A). Low magnification shows cystic wall with both smooth surface (left side) and papillary structure (right side) (B). The relatively smooth inner surface is lined by benign ciliated or non-ciliated columnar cells (C). The high-power view of papillary structure shows cellular piling up and cellular atypia (D).

난소의 부중신형 상피 종양에 준해서 이루어진다 [7]. 양성인 장액성 낭선종은 부난소 낭종 중 가장

흔한 종양으로 부중신형 상피로 이루어져 있으며 특히 난관상피와 유사한 소견을 보인다[3,7]. 장액

성 낭선종과 비종양성 장액성 낭과의 감별은 둘 다 난관상피와 유사한 소견을 보여 조직학적으로 경계가 불분명할 수 있으나 낭벽이 난소기질과 유사하거나 주름이 없으면 종양성 장액성 낭선종으로 판단할 수 있다[8]. 경계성 장액성 낭선종은 양성 장액성 낭선종에 비해서 세포의 이형성이 심하나 기질로의 침습이 없는 경우이며 반면 악성 장액성 낭선종인 장액성샘암종(serous adenocarcinoma)은 심한 세포의 이형성과 함께 기질로의 침습이 관찰된다[3,7]. 본 증례는 장액성 액체로 채워져 있으며 난관 상피세포와 유사한 부중신형의 세포로 이루어져 있고 유두상 성장을 하는 부위를 덮고 있는 상피세포들이 증첩되어 있으며 중등도의 이형성과 유사분열을 보이거나 기질 내로의 침윤이 없다는 점에서 경계성 장액성 낭선종에 합당한 소견을 보이고 있다.

부난소 낭종 전체 중 경계영역성을 포함한 악성 종양의 빈도는 3.0%이하로 매우 드물다[1,2]. 경계영역성으로는 경계성 장액성 낭선종이 가장 흔하며 악성으로는 장액성샘암종, 투명세포샘암종, 자궁내막모양샘암종이 가장 흔하게 보고되고 있다[7]. 우리나라의 경우 정확히 그 빈도는 조사된 바 없으나 문헌상 5례의 경계성 장액성 낭선종과 2례의 경계성 점액성 낭선종, 2례의 악성 점액성 낭선종, 1례의 이행상피암종이 보고된 바 있다[9-15]. 부난소낭종은 대개 폐경기 전의 가임기 여성에서 나타나며 청소년기나 영유아에서는 드물게 관찰된다. 현재 우리나라에서 보고된 5례의 경계성 장액성낭선종 모두가 20세 이후의 여성에서 진단되었다(20세~49세) [9,11,13-15].

부난소 낭종은 특별한 증상을 야기하지 않아 우연히 발견되는 경우가 많으며 드물게 염전이나 출혈, 파열등을 일으킬 수 있다[15]. 양측성이거나 다발성인 경우는 드물다. 임상적으로 수술전에 진단하는 것은 거의 불가능하며 수술 중에도 단순 낭종과의 구별이 어려운 것으로 알려져 있다[15]. Stein 등은 가임기 여성에서 5 cm이상이거나 유두상 성장을 하고 있을 때 악성을 의심할 수 있다고 보고 하였다[2]. 부난소의 경계성 장액성 낭선종의 생물학적인 행동양상은 아직 정확히 밝혀 지지 않

았으며 난소 종양에 준하여 병기를 정하고 치료를 하게 된다[15]. 치료는 환자의 나이가 많거나 더 이상 임신을 원하지 않는 경우 전자궁 적출 및 양측 난소난관절제술을 하고 필요에 따라 대망절제술과 임파선 제거술을 시행한다. 환자의 나이가 어리거나 차후 임신을 원하는 경우, 파열되지 않고 피막에 둘러싸여 있으며 유착이나 전이가 없고 겉면에 돌출성 종양의 성장이 없다면 자궁과 반대쪽 난소와 난관을 보존하고 철저히 추적관찰을 할 수 있다. 본 환자의 경우 나이가 어리고 피막이 보존되어 있었으며 다른 장기로의 전이소견이 없어 자궁과 반대쪽 부속기를 보존하였으며 3년이 지난 현재 질환의 재발이나 전이소견 등은 관찰되고 있지 않다.

저자는 매우 드문 부난소의 경계성 장액성 낭선종이 사춘기 여아에서 발생한 1례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

참고 문헌

1. Genadry R, Parmley T, Woodruff JD. The origin and clinical behavior of the parovarian tumor. *Am J Obstet Gynecol* 1977;**129**:873-80.
2. Stein AL, Koonings PP, Schlaerth JB, Grimes DA, d'Ablaing G, 3rd. Relative frequency of malignant parovarian tumors: should parovarian tumors be aspirated? *Obstet Gynecol* 1990;**75**:1029-31.
3. Scully R, Young R, Clement P. *Tumors of the Ovary, Maldeveloped Gonads, Fallopian Tube, and Broad Ligament*. In: J Rosai and LH Sobin, editors. Atlas of Tumor Pathology. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1998.
4. Gardner GH, Greene RR and Peckham B. Tumors of the broad ligament. *Am J Obstet Gynecol* 1957;**73**:536-54; discussion, 54-5.
5. Stenback F, Kauppila A. Development and classification of parovarian cysts. An ultrastructural study. *Gynecol Obstet Invest* 1981;**12**:1-10.
6. Chandraratnam E, Leong AS. Papillary serous cystadenoma of borderline malignancy arising in a

- parovarian paramesonephric cyst. Light microscopic and ultrastructural observations. *Histopathology* 1983;7:601-11.
- 2007;18:351-6.
7. Tavassoli FA, Devilee P. *Pathology and Genetics of Tumors of the Breast and Female Genital Organs*. In: P Kleihues and LH Sobin, editors. World Health Organization Classification of Tumors. Lyon: IARC Press; 2003, p. 212.
 8. Janovski N, Paramanandhan T. Ovarian tumors. Tumors and tumor-like conditions of the ovaries, fallopian tubes and ligaments of the uterus. *Major problems in obstetrics and gynecology* 1973;4:1.
 9. Jung JH, Lee YS, Kang SJ, Kim BK, Shim SI. Papillary Serous Cystadenoma of Borderline Malignancy Arising from a Paramesonephric Parovarian Cyst: A case report. *Korean J Pathol* 1999;33:457-9.
 10. Kim TJ, Chun YK, Lim KT, Jung HW, Lee KH, Park IS, *et al*. Clinicopathologic Analysis of Four Cases of Primary Ovarian and Parovarian Transitional Cell Carcinoma. *Korean J Gynecol Oncol Colposc* 1999;10:287-94.
 11. Kang HA, Kim HS, Jun LL, Kim JH, Park CS, Suh SS, *et al*. A Case of Parovarian Serous Tumor of Borderline Malignancy in Pregnancy. *Korean J Obstet Gynecol* 2001;44:409-12.
 12. Park JW, Koo TB, Park IS. A Clinical Study on Adnexal Tumors in Pregnancy. *Korean J Obstet Gynecol* 2003;46:719-24.
 13. Jeong MY, Seo KY, Kim JH, Lee YJ, Kim MJ, Hur SY, *et al*. A Case of Parovarian Serous Cystadenocarcinoma of Borderline Malignancy. *Korean J Obstet Gynecol* 2004;47:2485-9.
 14. Seo SK, Lee SH, Lee HJ, Cho HB, Won HJ, Hong SW. A case of primary parovarian cystadenocarcinoma of borderline malignancy. *Korean J Obstet Gynecol* 2005;48:204-9.
 15. Lee SY, Han KH, Cha DS, Kim HW, Kwon MS, Chong Y, *et al*. A case of parovarian tumor of borderline malignancy. *Korean J Gynecol Oncol*