

난소의 Sertoli-Leydig 세포 종양과 동반된 Brenner 종양

— 1예 보고 —

계명대학교 의과대학 병리학교실 및 산부인과학교실*

배지연 · 김상표 · 박관규 · 차순도*

Sertoli-Leydig Cell Tumor with a Coexisting Brenner Tumor of the Ovary

Ji Youn Bae, M.D., Sang Pyo Kim, M.D., Kwan Kyu Park, M.D.
and Soon Do Cha, M.D.*

Department of Pathology and Obstetrics & Gynecology*
Keimyung University School of Medicine, Taegu, Korea

Sertoli-Leydig cell tumor or Brenner tumor is a relatively rare ovarian tumor. Other associated elements in the form of epithelial, mesenchymal, and tumor components of each tumor have been reported. The Sertoli-Leydig cell tumor with a Brenner tumor element has not been documented in the literature, so we are reporting on a case of Sertoli-Leydig cell tumor coexisting with a Brenner tumor. This 62-year-old woman presented with a 4 year history of lower abdominal mass and vaginal bleeding. Exploratory laparotomy was done. The left ovary showed a multiseptated, cystic, yellow-white solid mass, measuring $17.0 \times 13.0 \times 5.0$ cm and weighing 985.0 gm. Microscopic examination revealed a tubular or trabecular arrangement of the Sertoli cells and variable numbers of Leydig cells. There were several tumor nests with cystic spaces composed of ovoid cells showing longitudinal nuclear grooving. Sarcomatoid or heterologous elements were not found. (*Korean J Pathol* 1996; 30: 266~268)

Key Words: Sertoli-Leydig cell tumor, Brenner tumor, Ovary

난소 성착-기질성 종양중 하나인 Sertoli-Leydig 세포종양은 다양한 단계의 고환 분화를 보이고 전체 난소 종양중 0.5% 이하의 빈도를 가지며, 남성 호르몬 분비로 인한 여러 임상 증상을 보일 수도 있다¹. Sertoli-Leydig 세포종양은 1930년 Meyer²가 남성배세포종(arrhenoblastoma)으로 처음 보고한 이후 여러 예가 보고되어 있으며 1973년 Scully에 의해

접 수 : 1995년 3월 2일, 제재승인 : 1995년 7월 14일

주 소 : 대구시 중구 동산동 194, 우편번호 700-310

계명의대 병리학교실, 배지연

Sertoli-Leydig 세포종양으로 처음 불리워 졌다. 또한 Sertoli-Leydig 세포종양은 WHO 분류에 따라 고분화형, 중등도 분화형, 저분화형 및 이종성분을 가진 군으로 나뉘어지며, 특히 이종성분으로는 1930년 Meyer가 처음으로 점액상피를 발견했으며, 이때 동반될 수 있는 이종성분으로는 위장관상피, 유암종성분, 연골 그리고 골격근 등을 들 수 있다. 문헌고찰상 Sertoli-Leydig 세포종양에서 Brenner 종양이 동반되어 보고된 예는 찾을 수 없었고, 역시 1.7%의 낮은 빈도를 가지는 Brenner 종양에서도 장관상피등과 동반된 소수의 증례 밖에 없었다³. 최근 저자들은

62세 여성의 좌측 난소에서 중등도 분화를 보인 Sertoli-Leydig 세포종양에 부분적으로 Brenner 종양이 동반된 1예를 경험하였기에 보고하고자 한다.

증례: 62세 여자 환자로 4년전부터 지속되는 질 출혈과 복부 종괴가 촉지되어 복부 초음파촬영상 자궁근종 의심하에 개복수술을 시행했다. 남성호르몬분비에 의한 증상은 나타내지 않았다. 수술 소견상 좌측 난소의 낭성 종괴가 관찰되어 자궁적출술과 함께 양측 부속기제거술과 전이병소로 의심되는 좌측 대장 장벽의 생검을 실시했다. 육안소견상 좌측 난소의 무게는 985.0 gm이었고 크기는 17.0×13.0×5.0 cm이었다. 종괴의 외부표면은 매끈했으며

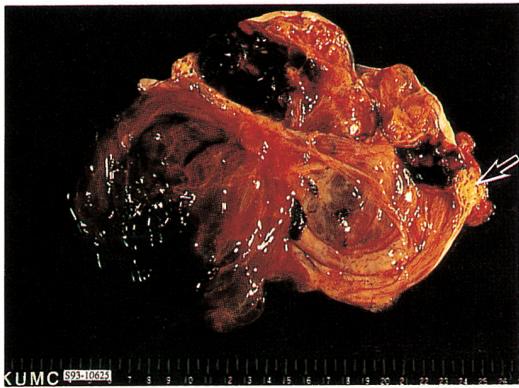


Fig. 1. Cut surface of left ovarian mass: Multiseptated cystic and focally yellow to white solid mass with containing Brenner tumor area(arrow).

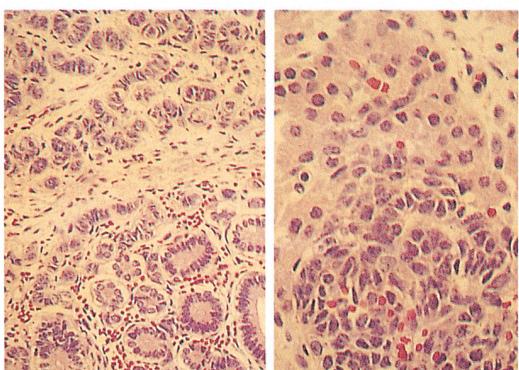


Fig. 2. Tubules and cords of Sertoli cells with scattered nests of Leydig cells in the ovarian stroma.

절단면은 다수의 격막을 가진 낭성 종괴로서 일부에서 연황색의 고형부위가 관찰되었고, 낭성구조들은 다량의 점액을 함유하고 있었다(Fig. 1). 자궁은 장벽 우각부분에 직경 5.0 cm의 고형의 둥근 장막하 종괴외에 특별한 것은 없었다.

현미경 소견상 좌측 난소의 낭성 부위 및 일부 고형 부위에서 Sertoli 세포들이 관상, 육주상 혹은 성기삭과 유사한 배열을 이루며 증식해 있었고 이들 사이에 Leydig 세포가 산재되어 있었으며 육종양 혹은 이종성분은 존재하지 않았다(Fig. 2). 또한 종괴의 일부 고형부위 가장자리에서 섬유성 기질내에 경계가 분명한 등글거나 다각형의 상피세포의 군집이 관찰되었으며 주위에는 소형의 낭성구조도 관찰되었다. 각각의 상피세포경계는 뚜렷했으며 난원형의 핵과 핵내 종형의 흄구조를 보여주어 Brenner 종양에 합당하였으며 유사분열은 관찰되지 않았다(Fig. 3).

면역조직화학 검사상 Cytokeratin(Pan)에 대해 Brenner 종양세포와 Sertoli세포 모두에서 미만성으로 세포질내 양성 염색을 보였고 androgen receptor에 대해서는 일부의 Sertoli세포와 Leydig세포 그리고 Brenner 종양의 일부세포에서 핵내에 양성으로 염색되었다. 자궁의 우각부분의 장막하 종괴는 양성근종의 소견을 보여 주었다.

고찰: 난소의 Sertoli-Leydig 세포종양은 매우 빈도가 낮은 난소종양으로 0.5% 이하의 발생률을 보이고 95% 이상에서 한쪽 난소에 국한되어 발생하며 단지 2.0% 미만에서만 양측성으로 발생되는 것으로 알려져 있다⁴. 평균 발생 연령은 대개 25세 전후이며 75% 이상에서 30세 이전에 발생한다고 보고되어

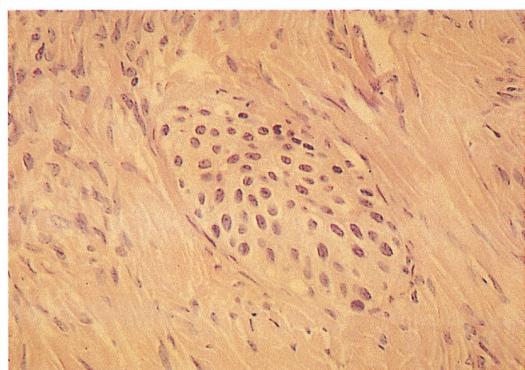


Fig. 3. Nests of Brenner tumor adjacent Sertoli-Leydig cell tumor component.

있지만¹ 본 증례는 62세의 여성으로 평균 발생연령 보다 훨씬 고령이었다.

임상적으로 남성호르몬 분비에 의한 증상이 약 반수에서 나타나며 그외 복부팽창과 통증, 무월경증, 폐경후 질출혈등이 있을 수 있다. 본 증례의 경우도 복부종괴와 질출혈이 동반되었다.

Sertoli-Leydig 세포종양의 육안소견은 약 반수에서는 낭성과 고형의 부분이 공존하는 형태이며 종괴 전체가 낭성인 경우는 매우 드물고 부분적으로 출혈과 괴사의 소견을 동반할 수 있다. 대부분 예에서 종괴 표면은 매끈하며 소수에서 파열된 증례가 있었다. 현미경소견상 Sertoli-Leydig 세포종양은 WHO 분류에 따라 저분화형, 중등도 분화형, 고분화형, 그리고 이종성분을 동반하는 4가지로 분류될 수 있다. 고분화형인 경우는 Sertoli 세포가 대부분 관상의 형태를 취하며 군데군데 소량의 Leydig 세포를 포함하며, 중등도 분화 이상인 경우 Sertoli 세포가 미만성으로 증식하여 소, 섬, 혹은 다발형태를 취하며 때로는 관상구조를 보일 수도 있다. 저분화형인 경우 대부분의 종양세포가 미성숙 생식선의 간엽조직처럼 방추형 그리고 육종양형태를 보여준다. 이종성분을 동반하는 경우는 대부분 중등도 분화 이상인 경우이며 위장관 상피, 유암종, 골격근, 신경아세포종 성분, 간조직 등이 출현한다^{4,5}. Brenner종양은 1899년 Orthmann이 처음 기술한 이후 여러 증례가 보고되어 있다. 특히 다른 병변으로 수술하게 되는 경우 절제된 난소에서 우연하게 발견되는 경우가 많으며 1971년 Silverberg가 보고한 60례중 17례에서 자궁근종을 제거하기 위하여 수술을 받은 것이며, 그외 다른 원인은 난소낭종 혹은 다른 난소종양 이었다⁶. 본 증례 역시 좌측 난소의 낭성종양을 제거한 후 현미경소견상 우연히 발견된 것이다. Brenner 종양의 호발연령은 40~49세이며 대부분 단일병소를 가지는 것으로 되어있고 드물게 양측성으로 발생한다. 본 증례에서는 낭성구조옆에서 몇개의 세포소로 발견되었으며 악성의 근거는 없었다. Brenner 종양에서도 다른 종류의 병변이 동반될 수 있는데 점액성

및 장액성의 낭성선종, 배아성 봉입낭, 단순낭, 여포성 낭, 낭성 기형종, 문세포증식, 그리고 갑상선 조직성분⁷이 동반될 수 있는 것으로 보고되어 있다. 본 증례는 난소의 Sertoli-Leydig 세포종양에 부분적으로 Brenner 종양이 동반된 경우로써 난소 성선-기질성 종양과 상피 유래성 종양이 서로 상존할 수 있다는 것을 보여주는 증례로 생각된다.

본 환자는 술후 특별한 임상증상 없이 퇴원했으며 이후 임상적인 추적이 중단되었다. 이 환자에서는 Brenner 종양이 동반되었지만 일부분이며 악성의 소견이 없으므로 예후는 통상의 Sertoli-Leydig 세포종양에 따른 것으로 사료된다.

참 고 문 헌

- Roth LM, Anderson MC, Govan ADT, Langley FA, Gowing NFC, Woodcock AS. Sertoli-Leydig cell tumors. A clinicopathological study of 34 cases. Cancer 1981; 48: 187-97.
- Meyer R. Tubulare(testikulare) und solide Formen des Andreioblastoma ovarii und ihre Beziehung zur Ver-mannlichung. Beitr Z Path Anat Allg Path 1930; 84: 485-520.
- Silverberg SG. Brenner tumors of the ovary. A clinicopathologic study of 60 tumors in 54 women. Cancer 1971; 28: 588-96.
- Young RH, Scully RE. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors. A clinicopathological analysis of 207 cases. Am J Surg Pathol 1985; 9: 543-69.
- Young RH, Prat J, Scully RE. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors with heterologous elements. I. Gastrointestinal epithelium and carcinoid: A clinicopathologic analysis of thirty-six cases. Cancer 1982; 50: 2448-56.
- Prat J, Young RH, Scully RE. Ovarian Sertoli-Leydig cell tumors with heterologous elements. II. Cartilage and skeletal muscle: A clinico-pathologic analysis of twelve cases. Cancer 1982; 50: 2465-75.
- Moon S, Waxman M. Mixed ovarian tumor composed of Brenner and thyroid elements. Cancer 1976; 38: 1997-2001.