

우연히 발견된 부신의 지방종성 종양 2례

건양대학교 의과대학 내과학교실, 내분비대사학교실

조성우·김지영·윤혜진·장석현·임동미·박근용·김병준

Two Cases of Incidentally Discovered Adrenal Lipomatous Tumors

Sung Woo Cho, Ji Young Kim, Hye Jin Yoon, Suk Hyun Jang, Dong Mee Lim,
Keun Yong Park, Byung Joon Kim

*Division of Endocrinology and Metabolism, Department of Internal Medicine,
Konyang University College of Medicine, Daejeon, Korea*

Abstract

Fatty tumors of the adrenal gland are uncommon. Several types of lipomatous tumors can be found in the adrenal gland. They are usually asymptomatic and incidentally detected. Current imaging techniques cannot reliably distinguish the different type of adrenal lipomatous tumors from other adrenal functioning tumors. We report two cases of two adrenal lipomatous tumors found incidentally. Surgical treatment were performed to rule out malignant tumors due to large tumor size. The surgical pathology was confirmed an adrenal angiomyolipoma and myelolipoma.

Key Words : Adrenal lipomatous tumors, Angiomyolipoma; Myelolipoma

서론

최근 진단영상법의 발달로 부신과 연관없는 목적으로 시행된 초음파 촬영, 전산화 단층촬영, 자기

공명영상에서 우연히 부신의 종양이 발견되는 빈도가 증가하는 추세이다. 복부 전산화 단층 촬영의 0.42~1.9%에서 부신 종양이 발견되고, 이 중 비기능성 종양이 71.2%로 많은 수를 차지하기에 부신의 종양은

교신저자: 김병준, 302-718 대전광역시 서구 가수원동 685, 건양대학교 의과대학 내분비대사학교실

Byung Joon Kim, M.D., Division of Endocrinology and Metabolism, Department of Internal Medicine,
Konyang University College of Medicine, 685 Gasuwon-dong, Seo-gu, Daejeon 302-718, Korea

Tel: +82-53-600-8857 E-mail: kbjoon4u@hananet.net

우연히 발견되는 경우가 증상을 호소하여 발견되는 경우보다 흔하다[1].

부신에서 발생하는 종양 중 지방종성 종양은 4.8% 가량을 차지하는 드문 질환이다. 이는 조직학적으로 5가지 형태로 분류되며 골수지방종 55%, 지방종 15%, 기형종 15%, 혈관근육지방종 10%, 지방육종이 5%를 차지한다[2].

부신의 지방종성 종양 중 상피성 혈관근육지방종(epitheloid angiomyolipoma)과 기형종(teratoma)의 경우 잠재적으로 악성변화 가능성이 있으며, 대부분 비기능성 종양이지만 크기가 크면 자발적으로 터지거나 주변 압박에 의한 증상이 발생할 수 있으므로 부신의 지방종성 종양은 정확한 진단과 치료가 필요하다.

이에 저자는 진단영상법으로 우연히 발견된 부신의 지방종성 종양으로 수술적 절제술을 시행하였고 각기 다른 조직학적 소견이 관찰된 2가지 증례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례

증례 1

환자: 52세 여자

주증상: 기침과 가래

현병력: 내원 수일 전부터의 기침과 가래를 주증상으로 방문하였으며, 폐렴 진단 하에 입원하여 항생제 치료하던 중 시행한 흉부 전산화 단층촬영상 좌측 부신에 종양이 관찰되어 이에 대하여 추가적인 검사를 시행하였다.

과거력: 3년 전 자궁근종으로 자궁 적출술을 받았으며 그 외 특이 사항은 없었다.

신체검진 소견: 키 159 cm, 몸무게 56 kg, 내원 당시 활력 증후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박 86회/분, 호흡수 16회/분, 체온 36.4°C으로 안정된 소견 보였다. 의식은 명료하였으며 두경부 검사상 정상이었으며 흉부청진상 심음은 정상이었고 호흡음은 우하엽에서 수포음이 청진되었다. 복부 검사상 압통이나 만저지는 종괴는 없었다.

검사실 소견: 말초 혈액 검사에서 백혈구 4700/mm³, 혈색소 13.8 g/dL, 혈소판 246,000/mm³ 이었다. 생화학검사상 혈액요소질소 11.3 mg/dL, 크레아티닌 0.75 mg/dL, AST 17 IU/L, ALT 7 IU/L, 나트륨 139 mEq/L, 칼륨 3.79 mEq/L 이었으며 소변검사상 특이 사항 없었다.

내분비검사 소견: 부신우연종에 대하여 기능성과 비기능성 종양의 감별을 위해 내분비검사를 시행하였다. 혈청 레닌 8.16 ng/ml/hr(참고치: 누웠을때: 0.20~2.70, 서있을때: 0.20~3.90), 혈청 알도스테론 57.2 pg/mL(누웠을때: 10~160, 서있을때: 40~310), 24시간 뇨채집(24 hr urine creatinine 0.58 g/24hr, urine volume 1100 mL/day)에서 VMA 1 mg/day(참고치: 0~8), metanephrine 11.90 ug/day(참고치: 52~341), free cortisol 24.2 ug/day(참고치: 20~90), urine 17-ketosteroid 3.3 mg/day(참고치: 10~25), urine 17-OHCS 1.6 mg/day(참고치: 5~23), serum cortisol 16.81 ug/dL(참고치: 6.7~22.6), serum ACTH 14.16 pg/mL(참고치: 5~60), serum epinephrine < 15 pg/mL(참고치: 0~120), serum norepinephrine < 25 pg/mL(참고치: 100~410), overnight dexamethasone 억제검사 0.69 ug/dL 으로 비기능성 종양 소견을 보였다.

방사선 소견: 전산화 단층촬영상 좌측 부신에 불균일하게 조영되는 5.3 cm 크기의 종양이 보였다(-95~82 HU)(Fig. 1-A).

치료 및 임상경과: 부신 호르몬 검사결과 특이 사항은 없었지만, 방사선 소견상 종양의 크기가 크고 부신 암종을 배제할 수 없어 복강경을 통하여 수술적 절제를 시행하였으며 수술 후 특별한 합병증은 없었다. 수술결과상 종양은 육안적으로 지방을 많이 함유하고 있었다(Fig. 2). 조직검사상 혈관, 평활 근육세포, 지방세포로 구성 되어 있었으며(Fig. 3) 이로써 좌측 부신의 혈관근육지방종을 진단하였다.

증례 2

환자: 33세 남자

주증상: 복강 내 종양 의심되어 정밀한 평가

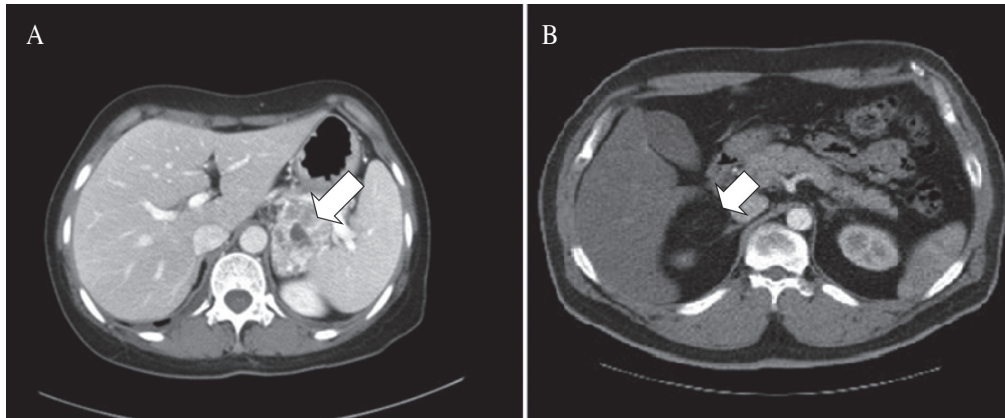


Fig. 1. Both abdomen CT scan showed adrenal lipomatous tumors. about 5.3 cm sized heterogeneously enhancing mass in left adrenal gland, -95~82 HU (A, arrowed). about 4.5×4.0 cm sized circumscribed fat containing mass with high attenuation myeloid tissue within the mass, mean -103 HU (B, arrowed).

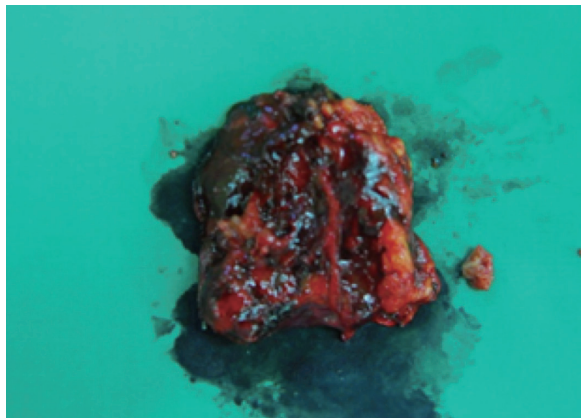


Fig. 2. Gross finding of the mass showed irregular surface and fatty nature.

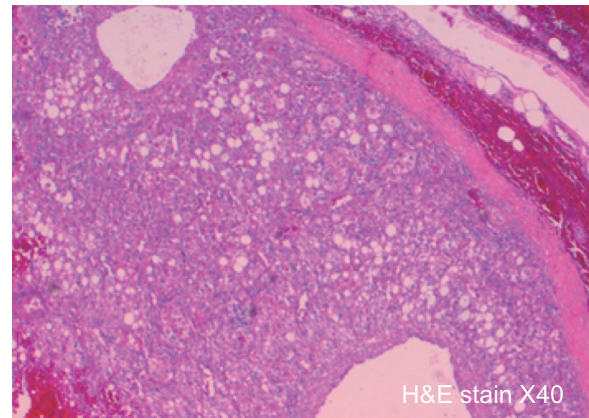


Fig. 3. Histologic finding confirmed the diagnosis angiomyolipoma. The tumor was consisted of fatty tissue, vessels and smooth muscles (H&E stain, ×40).

현병력: 건강검진 목적으로 시행한 복부 초음파상 우측 부신의 종양이 관찰되어 이에 추가적인 검사 위해 내원하였다.

과거력: 3년 전 당뇨병 진단 받았으나 약물치료 하지 않았고, 그 외 특이 사항은 없었다.

신체검진 소견: 키 181 cm 몸무게 110 kg, 내원 당시 활력증후는 혈압 140/80 mmHg, 맥박 82회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.4℃로 안정된 소견 보였다. 의식은 명료하였으며 두경부 검사상 정상이었으며

흉부청진상 심음은 정상이었고 청진음은 정상이었다. 복부검사상 압통이나 만저지는 종괴는 없었다.

검사실 소견: 말초 혈액 검사에서 백혈구 6000/mm³, 혈색소 15.0 g/dL, 혈소판 156,000/mm³ 이었다. 생화학검사상 혈액요소질소 15.3 mg/dL, 크레아티닌 0.86 mg/dL, AST 24 IU/L, ALT 46 IU/L, 나트륨 133 mEq/L, 칼륨 4.40 mEq/L 이었으며 소변검사상 단백뇨 소견보였다.

내분비검사 소견: 부신우연종에 대하여 기능성과

비기능성 종양의 감별을 위해 내분비검사를 시행하였다. serum rennin 2.89 ng/ml/hr(참고치: 누웠을때: 0.20~2.70, 서있을때: 0.20~3.90), serum aldosterone 85.3 pg/mL(누웠을때: 10~160, 서있을때: 40~310), 24시간 뇨채집(24hr urine creatinine 1.68 g/24hr, urine volume 2,300 mL/day)에서 VMA 7.84 mg/day(참고치: 0~8), metanephrine 67.02 ug/day(참고치: 52~341), free cortisol 52.4 ug/day(참고치: 20~90), urine 17-ketosteroid 35.7 mg/day(참고치: 10~25), urine 17-OHCS 0.1 mg/day(참고치: 5~23), serum cortisol 0.82 ug/dL(참고치: 6.7~22.6), serum ACTH 11.3 pg/mL(참고치: 5~60), serum epinephrine < 15 pg/mL(참고치: 0~120), serum norepinephrine 217 pg/mL(참고치: 100~410), overnight dexamethasone 억제검사 0.45 ug/dL 으로 비기능성 종양 소견을 보였다.

방사선 소견: 전산화 단층촬영상 우측 부신에 표면이 비교적 매끄러운 4.5×4.0 cm 크기의 중심에 골수양조직의 소견을 보이는 종양이 보였다(mean -103 HU)(Fig. 1-B).

치료 및 임상경과: 내분비적 호르몬 검사상 비기능성 종양을 진단하였지만, 크기가 크고 부신암종을 배제할 수 없어 복강경을 통하여 수술적 절제를 시행하였으며 수술 후 특별한 합병증은 없었다. 조직검사상 성숙한 지방세포와 여러 단계의 조혈세포들이 섞여있었다(Fig. 4). 이로써 우측 부신의 골수지방종을 진단하였다.

고 찰

최근 진단영상법의 발달로 우연히 부신의 종양을 발견하는 빈도가 증가하고 있지만 부신의 종양 중 지방종성 종양은 4.8%가량을 차지하는 드문 질환이다[1]. 각각의 진단영상법에서 지방종성 종양은 특징적인 소견을 보인다. 초음파영상에서 고반향성 음영을 보이며, 전산화 단층촬영에서는 밀도를 Housefield units (HU)으로 표현하는데 물을 0 HU이라 하며 이것을 기준으로 저밀도 조직은 음의 값으로, 고밀도 조직은 양의 값으로 표현하여 지방종성

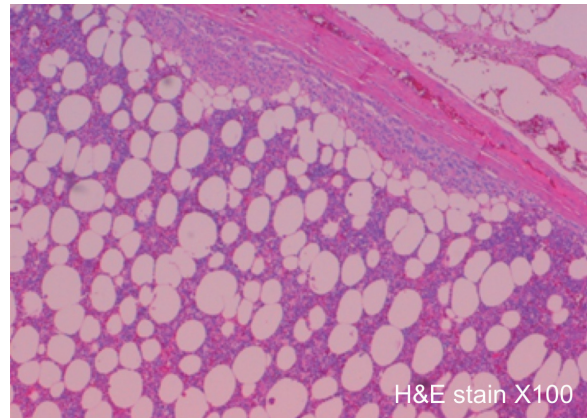


Fig. 4.The tumor consisted of mature fat cells and hematopoietic cells(H&E stain, 100).

종양의 경우 저밀도 음영으로 음의 HU값을 갖는다. 자기공명영상에서 지방종성 종양은 T1, T2 강조영상 모두에서 강한 신호를 보인다[3]. 하지만 진단영상법에서 지방종성 종양의 소견을 보인다 하더라도 다양한 조직학적 소견(골수지방종 55%, 지방종 15%, 기형종 15%, 혈관근육지방종 10%, 지방육종 5%)을 보이므로 진단영상법만으로는 부신의 지방종성 종양의 정확한 감별진단이 어렵다.

혈관근육지방종(angiolipoma)는 지방세포, 평활근, 혈관으로 구성된 양성 중간엽 종양이다. 이는 혈관주위의 상피양세포(perivascular epitheloid cell)에서 기원하며 신장에서 가장 흔하게 발생한다. 신장 외에도 간, 췌, 대장, 심장, 폐, 피부, 이하선, 정삭, 부인과 장기, 후복막강에서 발생 가능하며 이중에서도 부신에서의 혈관근육지방종은 매우 드물다[4]. 전산화 단층 촬영상에서 선형 혈관상(linear vascularity), 동맥류성 혈관확장(aneurysmal dilatation), 연결혈관(bridging vessel sign), 부리징후(beak sign), 지방종양의 구획화(discrete intraadrenal fatty tumors)등은 혈관근육지방종의 특징적 소견이다. 부신 혈관근육지방종은 통증, 압박증상이 있거나 악성의 가능성 배제할 수 없는 경우, 크기가 커져 자발적으로 터져 후복강내 출혈을 유발할 가능성이 있는 경우에 수술적 절제가 필요하다[5~7]. 또한 생명을 위협할 정도의 출혈시에는 응급 치료(색전술 또는 수술)가

필요하다[8]. 반대로 진단영상법에서 크기가 작고 혈관근육지방종의 특징적인 소견의 경우에는 경과 관찰하며 정기적인 추적관찰이 가능하다[9]. Pankaj 등은 복부 통증과 구역, 구토를 동반한 8×5 cm 크기의 부신 혈관근육지방종을 보고하였으며 증상과 큰 크기로 인해 수술로 제거하였다[6]. Stolle 등은 부신 혈관근육지방종의 자연 파열로 인한 후복막 출혈이 발생하였고 수술로 제거한 증례를 보고하였다[8]. 본 증례의 경우 특이 호소증상은 없었으나 부신 혈관근육지방종의 크기가 커서 추후 이로 인한 합병증의 발생 가능성이 있어 수술적 절제를 시행하였다.

골수지방종(myelolipoma)은 부검시 0.08~0.2%에서 발견되며 부신의 지방종성 종양 중 가장 흔하다. 조직학적으로 골수세포와 성숙된 지방세포로 구성되어 있다. 주로 40~50대에 호발하며 발생 빈도상 남녀 비는 비슷하고 좌우 부신에서의 발생 빈도 또한 비슷하다[10]. 대부분의 골수지방종은 지름이 4 cm 미만으로 작지만 그보다 큰 경우도 드물게 있다. 무게는 최고 5,900 g까지 보고되었다[1]. 임상증상으로는 대부분 무증상으로 종양이 큰 경우 출혈 또는 괴사로 인한 동통, 출혈성 쇼크도 생길 수 있다. 부신 골수지방종의 치료에 대해서 명확히 정립된 것은 없으나 우연성 종양의 치료에 준하고 있다. 작고 무증상인 경우 3개월 간격으로 추적관찰을 하며 증상이 있거나 크기가 큰 경우(> 4 cm)에는 수술적으로 제거해야 한다[11]. Patel 등은 골수지방종에 의해 복통이 발생하여 수술로 제거한 증례를 보고하였다[12]. Ishikawa 등은 골수지방종에 의해 후복막 출혈이 발생하여 수술로 제거한 증례를 보고하였고 Nakajo 등은 골수지방종에 의한 후복막 출혈에 대하여 경도관 동맥 색전술을 시행한 증례를 보고하였다[13,14]. 본 증례의 경우 통증이나 출혈 등과 같은 특이 증상은 없었으며 골수지방종의 크기가 커서 수술적으로 제거하였다.

부신의 지방종(lipoma)은 지방으로 구성된 양성 종양으로 1988년 처음 기술되었다. 대부분은 무증상이며 비기능성 종양이나 크기가 클 경우 신장을 압박하여 통증이나 고혈압을 유발할 수 있으며 드물게 혈뇨를 보이는 경우도 있다. 이에 발견 시 수술적

절제를 권한다[15].

기형종(teratoma)은 종양이 있는 기관에서는 존재하지 않는 외배엽, 중배엽, 내배엽에서 분화된 다양한 조직을 포함하는 종양이다. 기형종은 주로 생식샘, 전방 종격동, 후복막, 천미골, 두개골에서 발생하며 그 중 생식샘에서 가장 흔히 발생한다. 주로 아동기에 진단하게 되며 무증상에서 비특이적인 허리통증까지 다양한 증상을 보인다. 진단영상학적으로 지방조직과 뼈 또는 석회화로 구성된 종양 소견을 보이며 조직학적으로 지방조직, 뼈, 석회화, 모발등의 다양한 조직이 혼재하는 소견을 보인다. 치료는 주변 조직의 압박에 따른 증상 유발과 악성으로 진행될 가능성이 있기에 발견 시 수술적 절제를 권한다[16].

지방육종(liposarcoma)의 조직학적 소견은 다양하여 점액성(myxoid), 고분화(well differentiated), 원형세포(round cell), 다형성(pleomorphic) 그리고 역분화성(dedifferentiated)의 아형으로 구분된다. 임상증상은 육종의 위치와 크기에 따라 무증상에서 두통, 심와부 동통, 하복부 동통까지 다양하다. 복부 전산화 단층촬영소견은 조직병리학적 소견과 연관이 있어 고분화형은 지방조직이 풍부하여 저음영이 많이 나타나며 다형성형은 지방조직이 적어 균질성의 음영을 보인다. 점액성의 경우 중간 정도의 음영을 보인다. 지방육종은 조직학적 소견에 따라 임상양상이나 예후가 다르다. 점액성과 고분화성 지방육종은 예후가 양호하여 완전 절제 후에 재발이 드물지만 원형세포와 다형성, 역분화성 형태는 국소 재발과 원격전이를 잘 초래하여 예후가 나쁘다. 지방육종의 치료는 수술적 절제술을 시행하는 것이 가장 좋은 치료 방법이나 경우에 따라 방사선 치료나 항암치료를 시도해 볼 수 있다[17].

본 증례의 경우 우연히 발견된 부신의 종양으로 복부 단층촬영에서 HU이 낮은 지방종성 종양 소견을 보였다. 하지만 부신에서 발생하는 종양자체가 지방을 많이 함유하는 경우가 많고 지방종성 종양의 종류가 다양하기에 진단영상학적 방법만으로는 감별함에 어려움이 있었다. 또한 종양의 크기가 커 추후에 주변 압박에 의한 증상과 자연 파열, 출혈과 같은 부작용을 유발할 가능성이 있어 수술적인 절제를 시행하였고,

수술 후 얻은 조직검사 결과 각각 혈관근육지방종과 골수지방종으로 다른 소견을 보였다.

참 고 문 헌

1. Barzon L, Sonino N, Fallo F, Palu G, Boscaro M. Prevalence and natural history of adrenal incidentalomas. *Eur J Endocrinol* 2003;**149**:273-85.
2. Lam KY, Lo CY. Adrenal lipomatous tumours: a 30 year clinicopathological experience at a single institution. *J Clin Pathol* 2001;**54**:707-12.
3. Gopan T, Remer E, Hamrahian AH. Evaluating and managing adrenal incidentalomas. *Cleve Clin J Med* 2006;**73**:561-8.
4. Godara R, Vashist MG, Singla SL, Garg P, Sen J, Mathur SK, et al. Adrenal angiomyolipoma: A rare entity. *Indian J Urol* 2007;**23**:319-20.
5. Kim SK, Lee WS, Jeong GH, Kim HK, Myung DS, Chung JO, et al. A case of adrenal angiomyolipoma. *Endocrinol Metab* 2007;**22**(5):371-5.
6. Pankaj G, Sandeep G. Adrenal angiomyolipoma: A case report and review of literature. *Res. J. Med. Sci* 2011;**5**(5):243-6.
7. CH Chee Kong, I Mohamed Rose, P Singam, G Eng Hong, L Boon Cheok, ZM Zainuddin. Angiomyolipoma of the adrenal gland: A case report. *IRCMJ* 2010;**12**(4):489-91.
8. H Stolle, L Jonetz-Mentzel, AW Krautschick-Wilkens. Spontaneous rupture of an adrenal angiomyolipoma. *Aktuel Urol* 2006;**37**(6):443-4.
9. Grumbach MM, Biller BM, Braunstein GD, Campbell KK, Carney JA, et al. Management of the clinically inapparent adrenal mass ("incidentaloma"). *Ann Intern Med* 2003;**138**:424-9.
10. Repassy DL, Csata S, Sterlik G, Ivanyi A. Giant adrenal myelolipoma. *Pathol Oncol Res* 2001;**7**:72-3.
11. Han M, Burnett AL, Fishman EK, Marshall FF. The natural history and treatment of adrenal myelolipoma. *J Urol* 1997;**157**:1213-6.
12. Patel, Vijaykumar G. Adrenal myelolipoma: Report of a case and review of the literature. *Am Surg* 2006;**72**(7):649-54.
13. Ishikawa H, Tachibana M, Hata M, Tazaki H, Akatsuka S, Iri H. Myelolipoma of the adrenal gland. *J Urol* 1981;**126**(6):777-9.
14. Nakajo M, Onohara S, Shinmura K, Fujiyoshi F, Nakajo M. Embolization for spontaneous retroperitoneal hemorrhage from adrenal myelolipoma. *Radiat Med* 2003;**21**(5):214-9.
15. Shah S, Bhatti SU. Primary adrenal lipoma. *J Coll Physicians Surg Pak* 2009;**19**:450-1.
16. Hui J, Luk W, Siu C, Chan J. Teratoma in the region of an adrenal gland in a 77-year-old man. *J Hong Kong College Radiol* 2004;**7**:206.
17. Cho YJ, Chun HJ, Park DK, Kim YB, Koh DW, Choung RS, et al. A case of dedifferentiated liposarcoma in retroperitoneum. *Korean J Med* 2002;**62**:552-6.