

소아 양측고환에서 발생한 성숙 기형종 1예

영남대학교 의과대학 비뇨기과학교실, 병리학교실*
백운기 · 정석영 · 최우석 · 송필현 · 조철규 · 문기학 · 김동석*

A Case of Bilateral Testicular Teratoma Found in Infant

Un Gi Baek, Seok Young Chung, Woo Seok Choi, Phil Hyun Song,
Chul Kyu Cho, Ki Hak Moon, Dong Sug Kim*

*Department of Urology and Pathology**
College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea

—Abstract—

Testicular teratoma is characterized that has more than one germ cell layer in various stages of maturation and differentiation. The incidence of mature teratoma varies from 2 to 9% of all germinal testicular tumor. Only 3 cases of bilateral teratoma have been reported in the literature to date. The teratoma can occurs at all ages but is most common between the age of 15-35 year. It is relatively infrequently seen in childhood and infancy. In these age group, teratoma tends to be a benign. Recently, we experienced one case of bilateral testicular teratoma in 4 month-old infancy.

We report a case of bilateral testicular teratoma found infancy with review of related literatures.

Key Words: Teratoma, Testis, Infant

서 론

기형종은 여러 형의 조직으로 분화할 수 있는 능력을 가진 배아 세포에서 유래된 종양으로 내배엽, 중배엽 및 외배엽으로 구성되어 있

으며 정상 해부학적 위치와는 다른 장소에서 발생하여 그 곳 조직과는 별도의 성장 및 성숙을 보인다. 기형종은 소아 종양의 3%에 해당하고 고환종양의 10.4%를 차지하며(1,2) 소아고환 기형종은 발생률이 높다고는 하나 2세 미만

의 소아에서는 발생률이 매우 드문 종양이다(3). 특히 양측 고환기형종은 국내에서는 아직 보고되지 않았으며 외국에서는 3례 정도가 보고되고 있을 정도로 양측 발생비율은 드물다.

최근 저자들은 4개월 남아의 양측 고환에서 발생한 mature teratoma 1례를 경험하였는데 좌측 고환은 근치적 고환적출술을 그리고 우측 고환은 낭종 절제술을 시행하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

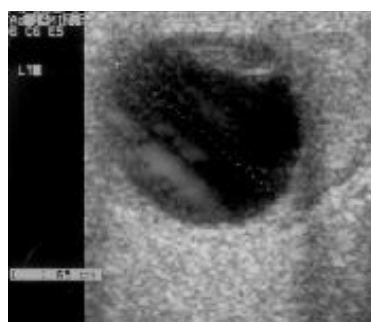
4개월 된 남아로 생후 2개월부터 좌측 고환의 무통성 종물과 최근 2주동 안의 우측 고환의 무통성 종물을 주소로 내원하였다. 환자의 과거력상 특이 사항은 없었으며 신체검사서 좌측 음낭에 작은 크기의 종물이 만져졌으나 고환과 뚜렷이 구별되지 않았고 투과성은 없었다. 우측 음낭에도 좌측과 비슷한 특성의 종물이 만져졌으나 좌측과 달리 고환과 잘 구별이 되었으며 투과성은 없었다.

일반혈액검사, 일반화학검사, 요검사 및 고환종양지표검사서 β -hCG는 정상이었으나,

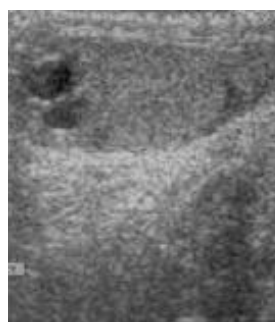
AFP과 LDH은 각각 95.04 ng/ml, 698 U/L로 증가된 소견을 보였다. 방사선학적 검사상 흉부단순촬영에서 특이 소견은 보이지 않았으나 음낭초음파 검사상 좌측 고환 내부에 1.7×1.5 cm 크기의 불규칙하게 두꺼워진 벽을 가진 낭성종괴가 있었으며 내부에는 다수의 석회화가 있었다. 우측 고환 내부에도 0.81×0.8 cm 크기의 불규칙하게 두꺼워진 벽을 가진 소엽으로 분할된 낭성종괴가 있었으나, 좌측과 달리 내부에 석회화는 없었다. 양측 음낭내에 음낭수종은 없었고 양측 부고환도 정상이었다(Fig. 1).

골반 자기공명영상에서 양측 고환의 낭성종괴는 주위와 경계가 명확하였으며, T1 강조영상에서는 저신호강도로 T2 강조영상에서는 고신호강도로 나타났으나 조영증강 T1 강조영상에서 종괴 내부에 조영증가는 나타나지 않았다(Fig. 2).

이상으로 양측 고환종물은 기형종으로 의심되어 좌측은 근치적 고환적출술을, 우측은 고환보존을 위해 고환 종괴 절제술을 시행하였다. 수술 소견상 좌측 고환종괴는 딱딱하게 만져졌으며 고환실질과는 구분이 잘되지 않았고 크기는 1.7×1.5 cm이었다. 우측 고환종괴는 구

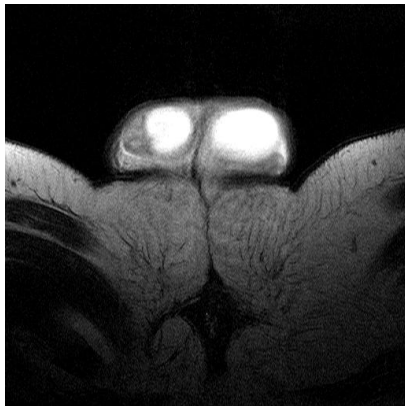


Left

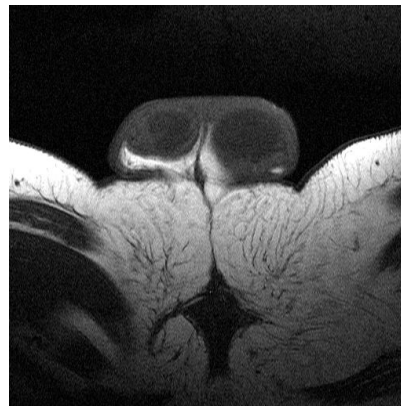


Right

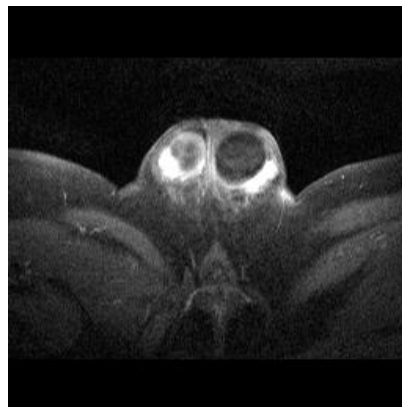
Fig. 1. Ultrasonogram shows multiseptated cystic lesion at bilateral testis.



T2W



T1W



T1W enhance

Fig. 2. Magnetic resonance image shows high signal intensity on T1W and low signal intensity on T2W at bilateral testis.

형으로 고환위에 위치하였으며 경계가 명확하였고 크기는 1.0×0.8 cm이었다.

절단면 소견상 좌측 고환종괴는 지름 2.0 cm 크기의 경계가 명확한 매끈한 낭종으로 낭종은 장액혈액상의 물질로 차있었고(Fig. 3) 우측 고환종괴는 지름 1.0 cm 크기의 소낭종이었으며 좌측과 동일한 물질로 차있었다(Fig. 4).

현미경 소견상 낭종은 내배엽성 기원의 단순 입방 또는 중층 입방상피구조로 구성되었고

이외 작은 크기의 단순 편평상피로 배열된 낭종도 발견되어 외배엽 기원으로 판단되었다. 이상의 소견으로 성숙된 내배엽기원과 외배엽 기원조직이 함께 나타나 성숙 기형종으로 진단하였다(Fig. 5).

술 후 1개월에 검사한 음낭 초음파상 재발 소견은 보이지 않았으며 혈청종양표지 검사로 시행한 α FP은 술전 95.04 ng/ml에서 39.76 ng/ml으로 술전보다 감소되었고, LDH는 527



Fig. 3. It consists of a mildly lobulated testicular lesion with attached spermatic cord. The testicular lesion measures 3.0×2.0×2.0 cm in size. It is a well demarcated smooth cystic lesion, measuring 2.0 cm in diameter. The cystic content is serosanguinous and there is no nodular lesion is present.

U/L으로 정상화 되었다. 술후 2개월에 검사한 혈청종양표지자인 αFP은 21.5 ng/ml로 여전히 높았지만 지속적으로 감소하는 추세를 보였고 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

고 찰

기형종은 생식성세포에서 발생한 종양에 포함되며 3배엽, 즉 내배엽(endoderm), 중배엽(mesoderm) 그리고 외배엽(ectoderm)으로 구성되어 있으며 3배엽의 성숙과 분화정도에 따



Fig. 4. It consists of a round smooth cystic lesion, measuring 1.3 cm in diameter. It is a small cystic lesion, measuring 1.0 cm in diameter. Cystic content is serosanguinous.

라 성숙 기형종(mature teratoma)과 미성숙 기형종(immature teratoma)로 나뉜다. 기형종은 소아와 성인 모두에서 발생하며 원래 세 층의 배엽에서 기원하는 조직 성분을 모두 가지고 있어야 하나 최근에는 두 층에서 기원한 조직 성분만을 가지고 있어도 기형종으로 취급하는 등 개념에 있어 변화를 가져오고 있으며 그 분화의 정도에 따라 아주 다양한 양상으로 나타나 원시적인 체성분(somatic element)에서부터 봉입기형태아(fetus-in-fetu)라는 말로 표현될 만큼 고도로 분화된 형태를 취하기도 한다(4).

고환에서 발생하는 기형종은 전체 고환 종양의 10.4%를 차지하며 그 중 성숙 기형종(mature teratoma)은 전체 고환기형종의 2~7% 정도이고(2,4) 10세 미만의 소아에서 주로 발생하며 소아에서는 양성종양이 대부분이다(1,5~7). 성숙 기형종이 청소년기나 성인기에

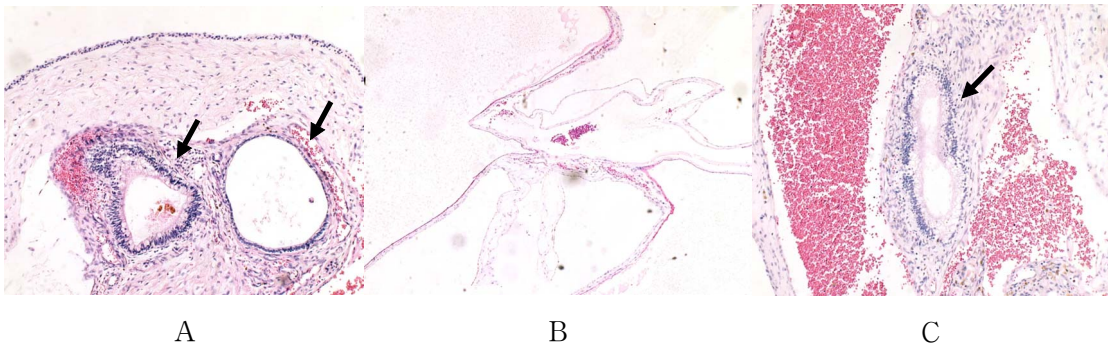


Fig. 5. A. It shows endodermal lining epithelium (arrow) surrounded by very minute immature stroma, which is negligible for diagnosis.
 B. It shows multilocular cystic strictures lined by simple squamous or non-descript epithelium (H & E, × 40).
 C. It represents endodermal lining epithelial structure (arrow) in very minute foci (H & E, × 100).

발생되면 2년 사망률이 30%인 악성 종양으로 될 가능성이 높다(8). 사춘기 전 소아에서 기형종으로부터의 전이는 보고되지 않았지만, 사춘기 후에는 기형종으로부터의 전이가 보고된 바 있다(9).

양측성 고환종양의 발생 빈도는 1% 정도이나 양측성 기형종의 발생 빈도는 매우 드물다. 고환종양은 좌측보다는 우측이 흔하다고 하는데 그 이유는 우측에 정류고환의 유병율이 약간 더 높기 때문이라고 하였다(1,10).

고환기형종의 발생원인에 관여하는 인자로는 연령, 인종, 지리적 요인, 유전적 요인 이외에 정류고환, 고환 위축, 외상, 염증, 화학물질, 내분비 이상, 방사선 조사 등이 있다(2).

고환기형종의 진단법은 무통성 종물의 촉진, 초음파 검사, 호르몬 검사 및 생검 등이 있는데 소아에서 AFP, β -hCG, LDH 등의 혈청종양지표가 정상이면서 초음파검사상 고환내에 국한된 낭종성 종괴와 함께 석회화 병변이 있다면 고환기형종을 강력히 의심해야 한다. 그

러나 고환기형종의 확진은 조직 병리학적 검사로서만 가능하다(11).

소아 고환기형종과 감별 진단을 요하는 질환중에는 고환염전, 부고환염 및 부고환-고환염, 음낭수종, 탈장, 정삭류 등이 있다. 특히 소아 기형종과 음낭수종은 가장 감별이 어려운데 그 이유는 투과성 검사나 고환촉지검사로써 고환종양과 음낭수종을 구별하기가 매우 어렵기 때문이다(11).

그러므로 초음파 검사는 감별진단에 매우 유용한 진단법이다. 그러나 고환종양과 음낭수종을 감별하기 위한 흡인천자는 수종액의 흡입천자로 종양세포가 파급이 될 수 있으므로 가급적 피해야 한다.

일반적인 병리학적 소견에서 성숙 기형종은 6% 미만에서 막을 침범하나 피막에 잘싸여진 종양이고 표면은 다결절성, 낭성이며 크기가 더 적다는 것을 제외하고는 기형암종과 유사하여(2) 현미경학적 소견에서 편평상피세포인 외배엽과 호흡기 또는 위장 상피세포인 내배엽으

로 배열된 다낭종이 특징이다(2,9).

고환기형종의 병기는 고환종양의 병기와 같으며 치료계획을 세우는데 필요하고 병기 A는 전이가 없고 B1은 2.5 cm보다 적은 후복막 종양 또는 5개보다 적은 림프절 침범, B2는 2.5 cm보다 크고 10 cm보다 적은 후복막 종양 또는 5개 이상의 림프절 침범, B3는 10 cm이상의 후복막 종양, C는 후복막을 넘어서 전이가 있거나 내장 전이가 있는것으로 구분한다. 본 증례의 경우에는 전이가 없으므로 병기 A에 해당하였다.

고환기형종의 치료는 다른 종양과 달리 화학요법, 방사선요법 등이 필요 없으며 일반적으로 단순 고환 적출술과 함께 정삭의 고위절단제거법을 시행하지만 최근에는 정상 고환 조직 보존 수술법이 소아 고환 기형종에서 대두되고 있다(11). 양성인 사춘기전 종양의 고환 보존 술식은 발달하는 어린이에게 심리적이고 미용적인 이점을 가지고 더욱이 수정과 정액양 때문에 기능적 이점이 있다(12). 고환 보존 술식을 할때에 라이디히세포(Leydig cell)와 지주세포(Sertoli cell)의 기능을 보존하기 위해 저온 허혈상태에서 시행하는 것이 바람직한데, 이는 지주세포(Sertoli cell)는 실온 허혈상태에서 30분이상이 되면 생식표피 세포층의 평균수의 심각한 감소를 가져오는 형태학적 변화를 가져오기 때문이다(13). Rushton 등(14)은 14개월에서 6.5세 까지 5명의 소아 고환기형종 환아들에게 고환보존술식으로 시행하였으며 평균 96개월까지 추적 관찰하였으나 전이나 재발은 없었다고 보고하였다.

본 증례에서는 병기 A에 해당하여 좌측은 단순 고환 적출술을 우측은 고환 보존술을 시행하였으며, 술 후 1개월에 실시한 음낭 초음

파촬영에서 재발소견은 관찰되지 않았다. 하지만 기형종은 악성의 가능성이 잠재해 있으므로 주기적인 추적관찰이 필요할 것으로 생각되고 술 후 고환보형물 삽입과 사춘기 후 불임의 가능성에 대해서 추적 조사하여야 한다.

참 고 문 헌

1. 류수방, 노준화, 권동득, 오봉렬, 박광성, 박양일, 박영경, 정문기, 박윤규, 설종구: 고환종양 121례의 치료 경험. 대한비뇨기과학회지 40(11): 1465-1470, 1999.
2. Mostofi FK: Testicular tumor: Epidemiologic, Etiologic and Pathologic Features. Cancer 32:1186-1201, 1973.
3. Spitalny A, Bronstein B: Teratoma of testis in infant. J Urol 85: 63-64, 1961.
4. Tapper D, Lack EE: Teratomas in infancy and childhood: A 54-year experience at the children's hospital medical center. Ann Surg 198: 398-410, 1983.
5. 곽상인, 김동한: 고환종양의 임상적 고찰. 대한비뇨기과학회지 27(1): 111-117, 1986.
6. 황인철, 윤동진, 전성현, 김철수, 장성구, 이순주: Testis tumor. J Korean Cancer Assoc 33(2): 178-182, 2001.
7. Richie JP: Neoplasm of the testis. In: Walsh PC, Retik AB, Vaughan ED, Wein AJ, editors. Campbell's urology. 8th ed. Saunders, Philadelphia, 2002, pp. 2876-2919.
8. Collins DH, Pugh RC: The pathology of Testicular Tumors. The Williams & Wilkins Co, Baltimore, 1965.

9. Dixon FJ and Moore RA: Testicular tumors: a clinicopathological study. *Cancer* 6(3): 427-454, 1953.
 10. Cheon J, Kim CS, Lee ES, Hong SJ, Cho YH, Shin EC, Lee WC, Yoon MS: Survey of incidence of urological cancer in South Korea: A 15-year summary. *Int J Urol* 9: 445-454, 2002.
 11. 안성수, 박철보, 이용휘, 장양일, 오경준, 김규환: 수술중 우연히 발견된 소아 고환기형종 1례. *대한비뇨기과학회지* 37(5): 603-605, 1996.
 12. Shah KH, Maxted WC, Chun B: Epidermoid cysts of the testis: A report of three cases and an analysis of 141 cases from the world literature. *Cancer* 47(3): 577-582, 1981.
 13. Middleton WD, Bell MW: Analysis of intratesticular arterial anatomy with emphasis on transmediastinal arteries. *Radiology* 189(1): 157-160, 1993.
 14. Rushton HG, Belman AB, Sesterhern I, Patterson K, Mostofi F: Testicular sparing surgery for prepubertal teratoma of the testis. *J Urol* 144: 726-730, 1990.
-