

다발성으로 폐에 발생한 양성 전이성 평활근종

전준경* · 이교선* · 나국주* · 송상윤* · 안병희*

Multiple Pulmonary Benign Metastasizing Leiomyoma

Joon-Kyung Chun, M.D.*, Kyo Seon Lee, M.D.*, Kook-Ju Na, M.D.*, Sang-Yun Song, M.D.*, Byoung-Hee Ahn, M.D.*

We report here a case of pulmonary benign metastasizing leiomyoma from the uterus in a 45 year old woman. The patient presented for investigation of multiple pulmonary nodules on a routine chest roentgenogram. The patient had undergone uterine myomectomy due to uterine leiomyoma 10 years earlier. We performed thoracoscopic wedge resection for definitive diagnosis. Histologically, spindle shaped smooth muscle cells appeared between collagen stroma, histology similar to that seen in uterine myoma. The tumor tissue tested positive for estrogen and progesterone receptors. The pathological findings were consistent with benign metastasizing leiomyoma. The patient was in pre-menopause. She received no specific treatment for lung tumors, and we did not found any changes in the lesions after one year follow up without any medication.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2007;40:789-792)

- Key words:**
1. Lung neoplasms
 2. Neoplasm metastasis
 3. Leiomyoma

증례

45세 여자가 건강 검진에서 실시한 흉부 단순 촬영상 양측 폐야에 다수의 비정상 음영이 보여 정밀 검사를 위하여 내원하였다. 과거력상 10년 전에 타병원에서 자궁근종으로 근종 절제술을 시행받은 적이 있었고 그 후 재발이나 이상 소견은 없었다고 하며, 그 외에 특이한 증상이나 이학적 소견은 없었다.

흉부 단순 촬영상 양측 폐야에 다수의 경계가 좋고 크기가 다양한 결절들이 보였고, 흉부 단층 촬영상으로도 다양한 크기의 폐결절들이 폐실질에 산재되어 있었으며 몇몇 병변은 흉막하부나 폐엽 부근에 위치하였다(Fig. 1). 이 결절들은 전신 양전자 방출 단층 촬영상 의미 있는 대사 활성도는 보이지 않았으며, 타장기에 비정상적인 종괴 소견은 없었다.

조직학적 진단을 위해 경피적 세침흡입을 시행하였으나 만족스런 조직을 얻지 못하여 흉강경하 폐생검을 시행하였다. 수술 소견상 흉막의 유착은 없었고 다수의 폐결절을 볼 수 있었으며 술 전 흉부 단층촬영에서 보였던 양측 흉막하 병변과 폐실질 병변 중 한 부위에 대하여 췌기 절제술을 시행하였다. 조직학적으로 콜라겐 간질 사이에 다발을 이룬 방추형의 평활근들이 분포하고 있었고 세포의 이형성이나 세포분열은 관찰되지 않았으며, 면역염색 소견상 에스트로겐과 프로게스테론 수용체 양성으로 전이성 자궁평활근종에 합당하였다(Fig. 2). C-kit는 음성, Ki-67은 index는 1% 미만이었다.

환자는 폐경 전이었으며 술 후 특별한 치료는 시행하지 않았고 수술 1년 후 실시한 흉부 단층 촬영상 임체적으로 비교하지는 못했지만 병변의 크기나 위치, 수적인 면에서

*전남대학교 의과대학 흉부외과교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Chonnam National University Medical School

논문접수일 : 2007년 8월 5일, 심사통과일 : 2007년 9월 11일

책임저자 : 나국주 (501-757) 광주시 동구 학동 8번지, 전남대학교병원 흉부외과

(Tel) 062-220-6546, (Fax) 062-227-1636, E-mail: kjna1125@hanmail.net

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

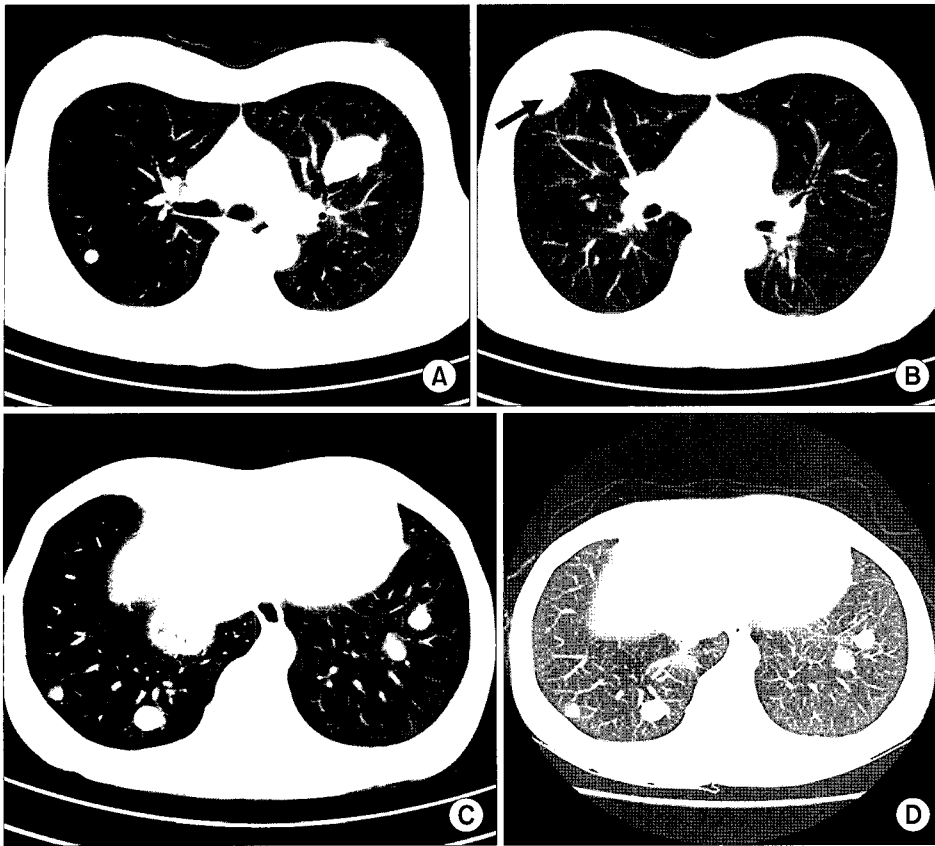


Fig. 1. (A, B, C) Preoperative chest CT image, multiple pulmonary nodules are scattered in both lungs. (D) Follow-up chest CT image after 1 year later. There is no interval change from image C. Arrow: resected lesion at operation.

차이가 없어 보였고 새로운 병변의 발생도 없었다.

고 찰

양성 전이성 평활근종은 자궁 절제술이나 자궁 평활근종 절제술 후 약 3개월에서 20년 정도에 주로 발생하고 35세에서 55세 여성에게 호발하며[1], 폐에 전이된 병변에 대한 수술적 절제가 국내에서도 2예 정도만 보고되고 있는 아주 드문 질환이다. 조직학적으로는 양성이나, 임상적으로는 타장기로 전이하는 악성의 특징을 가지며, 가장 흔하게 전이되는 부위는 폐이고 이외에도 림프절, 피부, 복강, 심장, 하대정맥, 뇌, 뼈 등에서도 전이가 보고되고 있다[2]. 대부분 혈행성 전이를 통해 발생하는 것으로 알려져 있으나, 골반부 정맥 채널(pelvic venous channel)을 통한 전파나 수술 중 기계적인 손상(surgical trauma)에 의한 색전(embolization)을 통해 발생한다는 주장도 있다[3,4]. 골반부 정맥 채널을 통한 전파는 혈관내 평활근종증(intravenous leiomyomatosis)에 의한 폐전이로 보는 설로 일부에서는 혈관 침습 등의 소견 자체가 악성도를 의미하

므로 양성 전이성 근종의 범주에서 제외시키기도 한다[2]. 또한 색전을 통해 발생한다는 주장은 수술 이전에 발생한 폐전이 보고에 대해서는 설명할 수 없어 골반부 정맥 채널을 통한 전파와 기계적인 손상으로 인한 색전에 의한 전파로 의심되는 증례의 경우는 다른 기전에 의해 발생하는 다른 질환일 가능성을 배제할 수 없다[5]. 일부 저자들은 모든 전이성 근종을 저분화 평활근종증(low-grade leiomyosarcoma)의 잘못된 진단에 의한 결과라고 주장하기도 하는데, 양성 전이성 근종의 확진은 이전 원발성 자궁평활근종의 수많은 조직절편에 대한 세심한 검사로 육종의 작은 증거도 놓치지 않아야만 가능하다[2]. 일반적으로 양성보다는 악성을 시사하는 소견으로는 세포충실도(degree of cellularity), 세포 괴사, 이형성 핵형(nuclear atypia), 세포분열 활성도(mitotic activity), 다양한 조직학적 형태 등이 있는데, 이 중 세포분열 활성도(mitotic activity)가 악성을 결정짓는 가장 중요한 요소이다[2]. 본 증례의 폐 병변에서는 세포 괴사나 이형성 핵형, 혈관 침범 등은 없었으며 100배율 현미경 소견상 0~2개의 세포분열만이 관찰되어 양성으로 판단하였다.

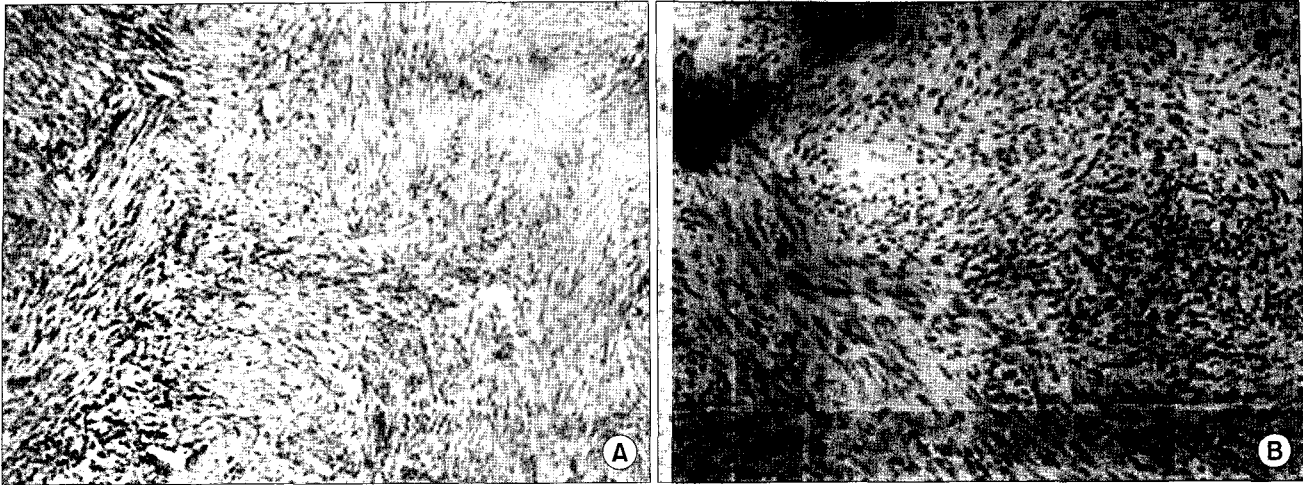


Fig. 2. (A) The tumor shows interlacing bundles of spindle smooth muscle cells, and intervening collagenous stroma. No cellular atypism, necrosis and mitotic figures are present. (H&E, $\times 100$), (B) Immunohistochemical staining for estrogen receptor ($\times 200$).

양성 전이성 평활근종의 폐결절은 수 mm에서 수 cm의 크기로 다발성인 경우가 많고 드물게 공동을 형성하거나, 간질성 폐질환 형태를 보이기도 하는데 결절 내의 석회화는 드물며 조영제에 대한 조영증강이 없다. 대개는 무증상이나 호흡곤란, 마른 기침, 흉통을 유발하기도 한다. 감별 질환으로는 폐의 원발성 평활근종(primary pulmonary leiomyoma), 과오종(bronchopulmonary hamatoma), 폐림프선 평활근종증(pulmonary lymphangioliomyomatosis) 등으로, 폐평활근종은 다발성이 드물고 남자에게 발생할 수 있으며 에스트로겐 및 프로게스테론 수용체에 음성이다. 과오종 역시 호르몬 수용체의 유무로 감별할 수 있으며, 폐림프선 평활근종증은 호르몬 수용체는 발견되나 임상 증상이나 방사선학적 소견, 그리고 조직학적 소견으로 구분할 수 있다.

환자의 임상 경과는 다양하며 주로 호르몬 상태에 의해 좌우된다. 특히 에스트로겐의 영향을 받기 때문에 폐경기의 여성에게는 거의 진행이 되지 않는 것으로 알려져 있으며 폐경 이후 자연적으로 크기가 감소되는 경우도 보고되고 있다[6]. 하지만 폐경 혹은 임신 중인 여성에게서 새로이 발생하는 경우도 있어 에스트로겐 이외에도 종양의 성장에 영향을 미치는 인자가 존재할 것으로 생각한다[7]. 호르몬에 의한 이러한 효과는 치료에도 이용되는데, 양측 난소절제술이나 난소억제효과의 황체형성자극호르몬(LHRH) 작용제인 Buserelin이나 에스트로겐 효과를 억제하는 tamoxifen 등이 종양 치료에 효과적임이 알려져 있다[8]. 수술적 치료는 양성 폐질환에 준하여 폐실질은 보호

하면서 완전 절제하는게 원칙이나 본 증례에서는 특이 증상이 없었으며, 병변이 양쪽 폐야에 산재되어 있어 완전 절제가 불가능하였으므로 흉강경하 조직검사 후 추적관찰하기로 결정하였다. 본 환자는 1년째 종양의 크기 변화 및 특이 증상이 없는 상태로 호르몬 치료는 시행하지 않고 있다.

저자들은 자궁 평활근종으로 근종절제술을 시행받은 기왕력이 있는 여성에게 발견된 다발성 폐결절에서 에스트로겐과 프로게스테론 수용체 양성이며, 조직학적 소견상 악성의 증거를 발견할 수 없는 양성 전이성 평활근종을 흉강경 수술을 이용하여 진단하였기에, 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Nasser R, Mahshid H, Maryam A, Mahmood S. *Benign metastasizing leiomyoma of the uterus*. Arch Iranian Med 2007;10:97-9.
2. Jose M, Esteban JM, Allen WM, Schaerf RH. *Benign metastasizing leiomyoma of the uterus: histologic and immunohistochemical characterization of primary and metastatic lesions*. Arch Pathol Lab Med 1999;123:960-2.
3. Harper RS, Scully RE. *Intravenous leiomyomatosis of uterus*. Obstet Gynecol 1961;18:519-29.
4. Abu-Rustum NR, Curtin JP, Burt M. *Regression of uterine low-grade smooth muscle tumor metastatic to the lung after oophorectomy*. Obstet Gynecol 1997;89:850-2.
5. Simeon A, Robert CG, Jeffrey DG, Pamela KW. *Benign*

- metastasizing leiomyoma*. Am J Roentgen 2001;176:1409-13.
6. Tadashi A, Yo Y, Tadatak T, Maroke S. *Natural decrease of benign metastasizing leiomyoma*. Chest 2000;117:921-2.
7. Goyle KK, Moore DF, Garrett C, Goyle V. *Benign metastasizing leiomyomatosis: case report and review*. Am J Clin Oncol 2003;26:473-6.
8. Arai T, Yasuda Y, Takaya T, Shibayama M. *Natural decrease of benign metastatic leiomyoma*. Chest 2000;117:921-2.

=국문 초록=

양성 전이성 평활근종은 조직학적으로는 양성이나 임상적으로 폐나 다른 장기로 원격전이를 하는 매우 드문 질환이다. 저자들은 10년 전 자궁평활근종 절제술을 시행한 환자의 폐에서 발견된 다발성 결절 일부를 흉강경 수술하에 절제하여 조직학적 및 면역염색검사로 양성 전이성 평활근종임을 진단할 수 있었다. 환자는 수술 후 종양의 크기 변화 및 특이 증상이 없으며 특별한 치료 없이 외래 추적관찰 중이다.

- 중심 단어 : 1. 폐종양
2. 종양 전이
3. 평활근종