



Multicentric Florid Cystic Endosalpingiosis in Different Anatomical Spaces: A Case Report

서로 다른 해부학적 공간에 발생한 다발성 개화성
낭성 내난관종: 증례 보고

Kyung Sik Kang, MD¹ , Jeong Sub Lee, MD^{1*} , Doo Ri Kim, MD¹ ,
Myeong Ju Koh, MD¹ , Sung Yob Kim, MD² ,
Young-Kyu Kim, MD³ , Chang Lim Hyun, MD⁴

Departments of ¹Radiology, ²Obstetrics and Gynecology, ³Surgery, and ⁴Pathology,
Jeju National University Hospital, Jeju National University School of Medicine, Jeju, Korea

Endosalpingiosis is a condition that causes the non-neoplastic proliferation of ectopic tubal epithelium. Florid cystic endosalpingiosis is an atypical subtype that is very rarely reported. It presents as a mass-like feature and therefore needs to be differentiated from tumorous conditions. Here, we report the imaging findings of a case of multicentric florid cystic endosalpingiosis in the extraperitoneal pelvic cavity and the retroperitoneal spaces.

Index terms Magnetic Resonance Imaging; Retroperitoneal Neoplasm;
Florid Cystic Endosalpingiosis of the Uterus; Computed X-Ray Tomography

서론

내난관종(endosalpingiosis)은 Müllerian 기원의 드문 질환으로 이소성 난관 상피의 비 종양적 증식으로 정의되며(1), 대부분 증상 없이 우연히 발견되는 경우가 많다(2). 비전형적인 형태로, 종괴 형태를 보여 종양성 병변과 감별을 필요로 하는 개화성 낭성 내난관종(flорid cystic endosalpingiosis)이 드물게 보고된 바가 있다(2-4). 하지만 대부분의 증례 보고는 단일 병변이거나 하나의 공간 내에서 발생한 다 병변에 한정되었다(3). 저자들은 서로 다른 해부학적 공간에서 동시에 발견된 개화성 낭성 내난관종 증례를 경험하여 보고하고자 한다.

Received May 18, 2020
Revised June 15, 2020
Accepted June 23, 2020

*Corresponding author

Jeong Sub Lee, MD
Department of Radiology,
Jeju National University Hospital,
Jeju National University
School of Medicine,
15 Aran 13-gil, Jeju 63241, Korea.

Tel 82-64-717-1373

Fax 82-64-717-1370

E-mail shinslee@naver.com

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

ORCID iDs

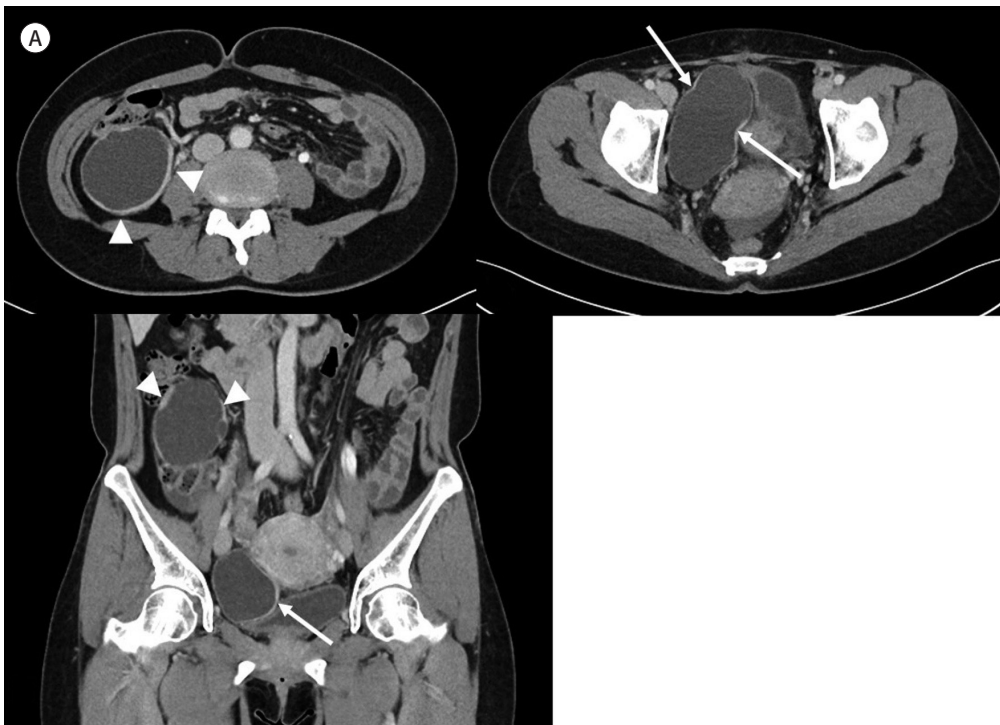
Kyung Sik Kang
<https://orcid.org/0000-0002-4711-8458>
Jeong Sub Lee
<https://orcid.org/0000-0002-4120-8655>
Doo Ri Kim
<https://orcid.org/0000-0001-5263-7693>
Myeong Ju Koh
<https://orcid.org/0000-0003-0883-8142>
Sung Yob Kim
<https://orcid.org/0000-0001-8424-7219>
Young-Kyu Kim
<https://orcid.org/0000-0001-6994-0517>
Chang Lim Hyun
<https://orcid.org/0000-0002-6740-1357>

증례 보고

48세 여자 환자가 건강검진에서 우연히 발견된 우측 난소 종괴로 본원에 내원하였다. 환자 과거력상 4년 전에 골반경을 이용한 자궁근종 절제술을 시행 받은 것 이외에 특이 병력 없었다. 본원에서 시행한 경질 초음파에서 우측 부속기에 장경 8.2 cm 크기의 단방성 낭성 종괴가 있었다. 이 병변은 조영증강 복부 전산화단층촬영에서 초음파 소견과 다르게 우측 난소와 떨어져 복막 외 골반강인 우측 방광 주위 공간에 위치하는 단방성 낭성 병변으로 나타났으며 국소적으로 두껍게 조영증강되는 벽을 가지고 있었다. 내부에 뚜렷한 벽 결절은 보이지 않았다. 이와 더불어 상기 병변과 상당히 떨어진 위치인 상행결장 뒤편의 후복막강 공간에 장경 4.8 cm 크기의 낭성 종괴가 하나 더 있었으며 큰 낭성 종괴 내부에 작은 낭성 벽 결절을 가지는 낭중-안-낭중(cyst-in-cyst) 양상으로 보였으며 두껍게 조영증강되는 벽이 비균질하게 분포하였다(Fig. 1A). 추가적인 평가를 위해 조영증강 골반 자기공명영상을 촬영하였다. T2 강조영상에서 골반강내 병변은 뇌척수액과 유사하게 균질한 고신호강도를 보였으며 내부에 층만결손은 없었다. T1 강조영상에서는 균질한 저신호강도를 보였다(Fig. 1B). 조영증강 T1 강조영상에서는 전산화단층촬영과 유사한 소견을 보였다(Fig. 1C). 확산강조영상에서 확산제한 소견은 보이지 않았다. 낭중 벽이 두껍게 조영증강되고, 서로 다른 해부학적 공간에 다발성으로 존재하는 병변으로 악성 종양의 전이 가능성을 배제할 수 없어 수술적 제거를 고려하였다. 수술 전 진단으로 낭성 변성을 동반한 신경성 종양, 중간엽조직 종양 등

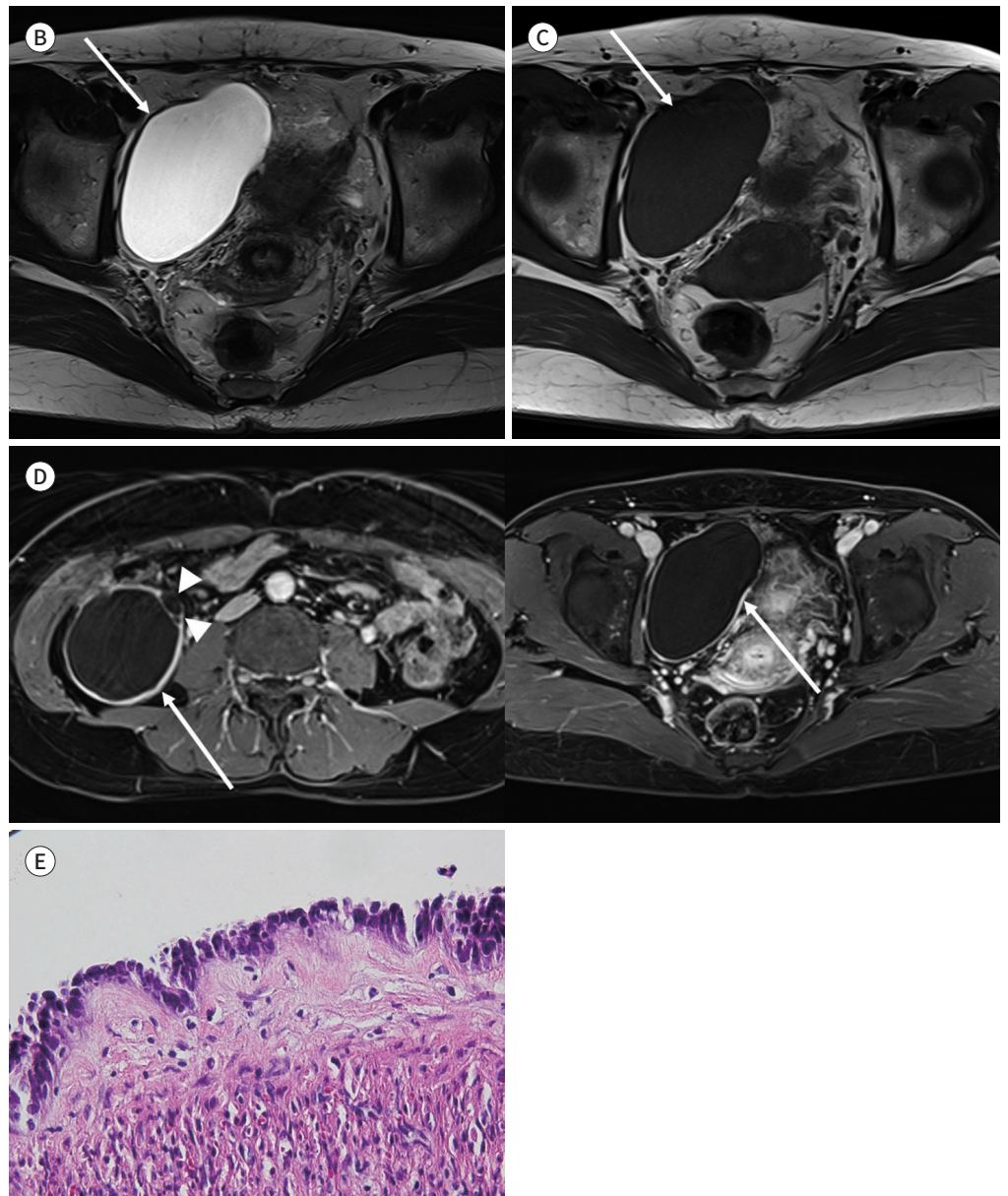
Fig. 1. Extraperitoneal and retroperitoneal florid cystic endosalpingiosis in a 48-year-old female.

A. Axial and coronal contrast-enhanced CT images show two cystic lesions in the retroperitoneal space (upper left image) and extraperitoneal pelvic cavity (upper right image). The cystic lesions display unevenly thick enhancing walls (arrowheads, the upper cystic lesion; arrows, the lower cystic lesion).



의 가능성을 고려하였다. 부인과와 외과가 협력 수술을 시행하였다. 수술 소견으로 자궁의 앞, 우측으로 복막 외 골반강에 자궁 및 부속기와 독립적인 낭성 종괴가 있었으며 내부 장액성 액체를 지녔다. 또한 상행결장 뒤쪽의 후복막강에 비슷한 양상의 낭성 종괴가 하나 더 관찰되었다. 병리

Fig. 1. Extraperitoneal and retroperitoneal florid cystic endosalpingiosis in a 48-year-old female.
B. The axial T2-weighted MR image shows a unilocular cystic lesion (arrows; **B, C**) with homogenous fluid signal intensity.
C. Axial precontrast T1-weighted MR image displays mass with homogenously low signal intensity.
D. Axial contrast-enhanced T1-weighted MR images show two extraperitoneal or retroperitoneal cystic lesions (arrows), including multifocal wall thickening with enhancement in the retroperitoneal space (left image) and the extraperitoneal cavity (right image). The upper cystic lesion shows a cyst-in-cyst feature due to small mural cysts (arrowheads, left image).
E. Histopathology confirms the lesions as endosalpingiosis, which are lined by ciliated cuboidal or columnar epithelium with a morphology resembling fallopian tube epithelium. Smooth muscle hyperplasia is also noted in the cyst wall (hematoxylin-eosin stain, $\times 400$).



결과 낭종은 섬모입방상피 또는 섬모원주상피로 구성되어 있었으며 형태학적으로 난관의 상피와 유사하였다. 평활근의 비후도 함께 관찰되어 최종적으로 Müllerian 기원의 내난관종으로 진단되었다(Fig. 1D).

고찰

내난관종은 가임기 여성에게서 발생하며 대부분 증상 없이 우연히 발견된다. Zinsser과 Wheeler (5)의 보고에 따르면 수술로 제거된 망(omentum)의 조직학적 검사에서 12.5%까지 발견된다.

개화성 낭성 내난관종은 내난관종의 매우 드문 형태로 내난관종이 낭성 종괴 형태로 나타나는 경우이다. 이러한 특징으로 종양으로 오인될 수 있으며 병인은 잘 알려져 있지 않다. Clement와 Young (6)은 4개의 내난관종을 모아 임상적, 병리학적 소견을 발표하였고, 하나의 개화성 낭성 내난관종이 포함되어 있었다. 이는 폴립양 종괴로 난관 형태의 상피, 평활근 비후, 근섬유성 기질로 구성된 다수의 낭종들로 이루어졌었다.

아직까지 개화성 낭성 내난관종의 진단에 특이적인 영상의학적 소견은 정립되지 않았다(3). 기존 보고들에 따르면 전산화단층촬영, 자기공명영상에서 불분명한 또는 분명한 경계를 보이는 종괴로 나타나고 고형성 부분과 낭성 부분이 다양한 비율로 혼재한다. 자기공명영상에서 낭성 부분은 T1 강조영상에서 저신호강도를 보이고, T2 강조영상에서 고신호강도를 보인다. 조영증강 후 검사에서 내부 고형성분은 비균질한 조영증강을 보인다(2, 7, 8).

개화성 낭성 내난관종의 주요 발생 위치로는 여성 생식기의 장막 쪽 또는 난소 주변이었고, 생식기 이외의 위치로는 방광, 대장, 충수돌기 등이 있었다(7). 대부분은 하나의 병변으로 나타났으며 일부 여러 개의 병변이 발현되는 경우에도 하나의 해부학적 공간에 국한되었다(3, 9). 우리의 조사에 따르면, 본 증례와 같이 두 개 이상의 해부학적 공간에서 동시에 발현되는 경우는 아직 보고된 바가 없었다.

본 증례는 두 개의 개화성 낭성 내난관종이 호발부위인 자궁 및 부속기와 떨어진 우측 방광 주변의 복막 외 골반강과 이와 상당히 떨어진 상행결장 뒤쪽의 후복막강 내에 독립적으로 위치하여 전이성 악성 종양으로 오인될 수 있다는 점에 의의가 있다. 감별하여야 할 질환으로, 신경성 종양 중 하나인 고대신경초종(ancient schwannoma)은 비교적 천천히 자라는 양성 종양이다. 신경이 병변 주변이나 병변과 연결하여 주행한다면 다른 중간엽 종양과 감별할 수 있다. 영상 검사에서 경계가 좋은 복합성 낭성 종괴로 나타나며 조영증강 시 다양한 양상을 보인다. 괴사성 또는 출혈성 변성으로 자기공명영상에서 비균질한 T1 저신호강도, T2 고신호강도를 보일 수 있다. 이 경우 같은 양상을 보이는 악성 말초신경종양과 감별이 어려울 수 있다(10). 후복막강에 생길 수 있는 낭성 종양으로 림프관종(lymphangioma)이 있다. 선천적인 양성 낭성 종양으로 대부분 목이나 액와부에서 발생하며 복부에서는 드물다. 영상 검사에서 거의 인지되지 않는 얇은 벽을 지닌 단방성 또는 다방성의 낭성 종괴로 나타난다(10). 위장관 기질 종양(gastrointestinal stromal tumor)은 드문 중간엽기원 종양으로 위장관 이외에서 발생하는 것은 매우 드물다. 위장관 이외에서 발생한 위장관기질종양은 위장관에서 발생한 것에 비하여 더욱더 공격적이고 악성 위험성도 높다. 영상

검사에서 과 혈관성 증폭로 보이며 크기가 클 경우 내부 낭성 또는 괴사 변성을 동반한다(10). 평활근종(leiomyoma)은 드물게 자궁과 연결성 없이 발생할 수 있으며 전이하는 경우도 있다. 후복막강에 위치할 수 있다. 낭성 변성을 할 수 있으며 특징적으로 고형성분이 T2 강조 자기공명영상에서 저신호강도를 보여 감별에 도움이 된다(10).

결론적으로 본 증례와 같이 드물지만 Müllerian 기원의 개화성 낭성 내난관종이 호발부위인 생식기 외의 복막 외 골반강과 후복막강에 다발성으로 발생할 수 있다는 점을 안다면 감별진단에 도움이 될 것이다.

Author Contributions

Conceptualization, L.J.S.; investigation, K.K.S., L.J.S.; methodology, K.K.S., L.J.S.; project administration, L.J.S.; resources, K.S.Y., K.Y., H.C.L.; supervision, L.J.S.; visualization, K.S.Y., K.Y., H.C.L., K.D.R., K.M.J.; writing—original draft, K.K.S., L.J.S.; and writing—review & editing, K.D.R., K.M.J.

Conflicts of Interest

The authors have no potential conflicts of interest to disclose.

Funding

None

REFERENCES

1. Bazot M, Vacher Lavenu MC, Bigot JM. Imaging of endosalpingiosis. *Clin Radiol* 1999;54:482-485
2. Taneja S, Sidhu R, Khurana A, Sekhon R, Mehta A, Jena A. MRI appearance of florid cystic endosalpingiosis of the uterus: a case report. *Korean J Radiol* 2010;11:476-479
3. Kaneda S, Fujii S, Nosaka K, Inoue C, Tanabe Y, Matsuki T, et al. MR imaging findings of mass-forming endosalpingiosis in both ovaries: a case report. *Abdom Imaging* 2015;40:471-474
4. Partyka L, Steinhoff M, Lourenco AP. Endosalpingiosis presenting as multiple pelvic masses. *J Obstet Gynaecol* 2014;34:279-281
5. Zinsser KR, Wheeler JE. Endosalpingiosis in the omentum: a study of autopsy and surgical material. *Am J Surg Pathol* 1982;6:109-117
6. Clement PB, Young RH. Florid cystic endosalpingiosis with tumor-like manifestations: a report of four cases including the first reported cases of transmural endosalpingiosis of the uterus. *Am J Surg Pathol* 1999; 23:166-175
7. Katre R, Morani AK, Prasad SR, Surabhi VR, Choudhary S, Sunnapwar A. Tumors and pseudotumors of the secondary müllerian system: review with emphasis on cross-sectional imaging findings. *AJR Am J Roentgenol* 2010;195:1452-1459
8. Lee SN, Cho MS, Kim SC, Han WS. Tumor-like multilocular cystic endosalpingiosis of the uterine serosa: possible clinical and radiologic misinterpreted. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2005;84:98-99
9. Im S, Park HS, Cho U, Yoo C, Jung JH, Yoo J, et al. Florid cystic endosalpingiosis associated with a retroperitoneal leiomyoma mimicking malignancy: a case report. *Int J Clin Exp Pathol* 2017;10:10112-10116
10. Shanbhogue AK, Fasih N, Macdonald DB, Sheikh AM, Menias CO, Prasad SR. Uncommon primary pelvic retroperitoneal masses in adults: a pattern-based imaging approach. *Radiographics* 2012;32:795-817

서로 다른 해부학적 공간에 발생한 다발성 개화성 낭성 내난관종: 증례 보고

강경식¹ · 이정섭^{1*} · 김두리¹ · 고명주¹ · 김성엽² · 김영규³ · 현창림⁴

내난관종은 이소성 난관 상피의 비종양적 증식으로 발생한다. 비전형적인 형태로 종괴 형태를 보여 종양성 병변과 감별을 필요로 하는 개화성 낭성 내난관종이 매우 드물게 보고되어 있다. 저자들은 복막 외 골반강과 후복막강에서 다발성으로 발생한 개화성 낭성 내난관종 증례의 영상의학적 소견을 보고하고자 한다.

제주대학교 의과대학 제주대학교병원 ¹영상의학과, ²산부인과, ³외과, ⁴병리과