

□ 증 례 □

## 양성 전이성 폐 평활근종 1예

가천의대 중앙길병원 호흡기내과, 방사선과\*, 흉부외과\*\*, 해부병리과\*\*\*

황재경, 박계영, 박정웅, 박재경, 정성환, 서준범\*

이한경\*, 이재웅\*\*, 오영하\*\*\*, 남귀현

= Abstract =

### A Case of Benign Metastasizing Leiomyoma in the Lung

**Jae Kyung Hwang, M.D., Kae Young Park, M.D., Jeong Woong Park, M.D.,**

**Jae Kyung Park, M.D., Seong Hwan Jeong, M.D., Jun Bum Suh, M.D.,**

**Han Kyung Lee, M.D., Jae Woong Lee, M.D., Young Ha Oh, M.D., Gui Hyun Nam, M.D.**

*Department of Internal Medicine, Department of Radiology, Department of Chest surgery,  
Department of Anatomical Pathology, Gachon Medical School, Gil Medical Center, Incheon, Korea*

Benign metastasizing leiomyoma usually occurs in women and is associated with a past hysterectomy in 80% of the cases, which is a rare entity. The patient was a 39-year-old woman who complained of cough and sputum. She underwent hysterectomy because of benign leiomyoma ten years ago. Chest X-ray showed nodular lesion in the left lung field. Chest CT showed a 3cm sized round well defined mass at left hilum with mild indentation of segmental bronchi of left upper lobe and a small tiny nodule in right lower lung field. Nodular lesion of left upper lobe was resected by thoracotomy. Pathological evaluation showed benign spindle-like cells having nuclei without cytotic atypia similar to those of benign leiomyoma. Immunohistochemical stainings for desmin and smooth muscle actin were positive. Therefore these nodules are considered as benign metastasizing leiomyoma from a uterine leiomyoma. We report this case with the review of literature. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 2000, 49 : 231-236)

---

Key words : Benign metastasizing tumor, Leiomyoma, Uterine myoma.

Address for correspondence :

Jeong Woong Park, M.D.

Department of Internal Medicine, Gachon Medical School, Gil Medical Center

1198 Kuwol-Dong, Namdong-Ku, Incheon, 405-760, Korea

Phone : 032-460-3212 Fax : 032-469-4320 E-mail : jwpark@ghil.com

## 서 론

양성 전이성 폐 평활근종은 자궁 유섬유종(fibroid tumor)에서 기인되는 조직학적으로 양성 종양을 의미한다. 병리학적으로 양성형태를 갖지만 전이를 하여 임상적으로 악성형태를 가진다. 전이병소는 다양하지만 여자에서는 주로 폐결절의 임상형태로 나타난다. 양성 전이성 평활근종은 1939년 Steiner에 의해서 처음 기술되었고<sup>1</sup> 이후 드물게 보고되고 있지만 양성 종양으로 간주되는 것에는 여전히 논란이 되고 있다<sup>2</sup>. 최근 저자들은 과거에 자궁근종으로 자궁전절제술을 받았던 39세 여자 환자에서 좌측 상엽과 우측 하엽에 발생한 양성 전이성 폐 평활근종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

## 증 례

환 자: 김○숙, 여자 39세

주 소: 기침, 가래

과거력: 89년 자궁근종으로 ○○○병원에서 자궁전절제술로 치료받은 기왕력 이 있음

현병력: 환자는 내원 2개월전부터 상기 주소로 개인 병원 및 약국에서 상기도 감염 병명하에 약물치료를 받았으나 증상의 호전이 없어 본원에 내원하였다.

가족력: 특이 사항 없음

이학적 소견: 입원 당시 혈압은 110/70 mmHg, 맥박수는 분당 80회, 호흡수는 분당 20회이었고 체온은 36.2℃였다. 의식은 명료하였고 결막의 창백이나 공막의 황달소견은 보이지 않았다. 흉부청진상 심음은 규칙적이었고 잡음은 관찰되지 않았으며 약간 거친 호흡음이 전 폐야에서 청진되었으며 복부에서 간이나 비장의 종대는 없었고 사지 소견상 부종은 없었다.

검사실소견: 입원당시 시행한 일반 혈액 검사는 혈색소 12.1 g/dl, 적혈구 용적률 34.1 %, 백혈구수 7630/mm<sup>3</sup>, 혈소판수 256,000/mm<sup>3</sup> 이었고, 일반 생화학검사, 소변검사는 정상이었다. 동맥혈 가스분석은 pH 7.465, 동맥혈 산소분압은 152.2 mmHg, 동

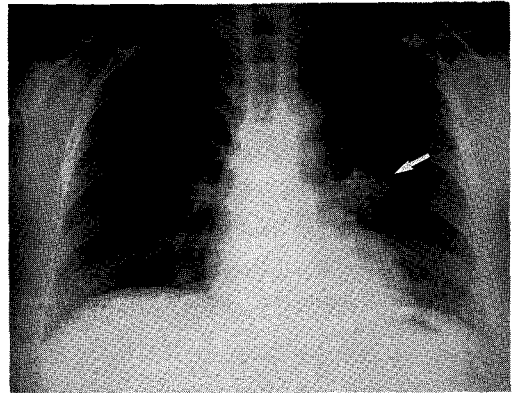


Fig. 1. Chest radiograph shows 2 cm-sized size round mass in Lt. hilum (arrow).

맥혈 이산화탄소분압은 31.8 mmHg, HCO<sub>3</sub><sup>-</sup> 23 mmol/L, 동맥혈 산소 포화도는 99.5 % 소견을 보였다.

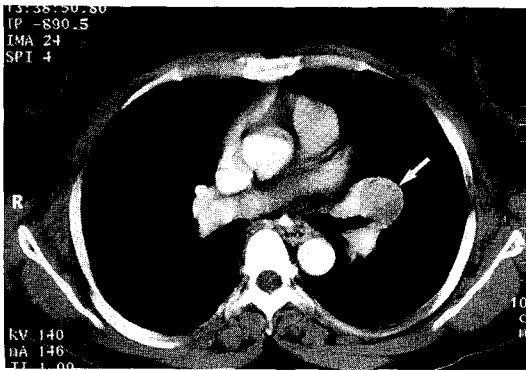
심전도소견: 정상소견이었다.

방사선학적 소견: 내원 당시 흉부 엑스선은 좌측 폐문부에 종양 음영이 있고(Fig. 1), 흉부 컴퓨터 단층 촬영 영상 좌측 상엽 기관지에 연하여 2cm되는 지점에 분명한 경계를 가지는 연조직 종괴가 보였고, 우하폐 기저부에도 5mm크기의 소결절이 있었다(Fig. 2 A, B).

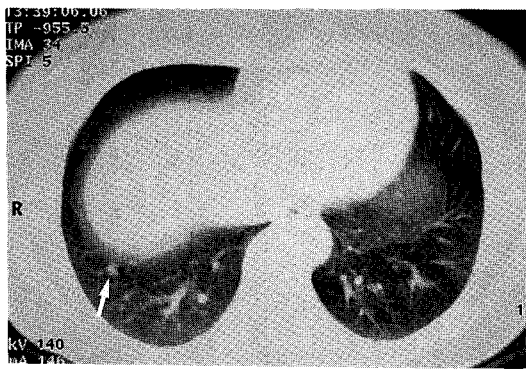
기관지 내시경: 종괴가 기관지의 바깥쪽에서 기관지 내경 내부로 돌출되어 기관지 좌측상엽설엽부분 내부가 눌러져 있는 소견이었다.

폐기능 검사: 노력성 폐활량(FVC) 3.16 L (예측치의 95%), 1초간 노력성호기량(FEV<sub>1</sub>) 2.42 L (예측치의 93%), FEV<sub>1</sub>/FVC 99%로 정상소견을 보였다.

임상경과: 환자는 진단 및 치료를 위하여 흉부의과로 전과되어 전신 마취하에 좌측 상엽 폐절제술 및 종괴 절제술을 성공적으로 시행하였으며, 조직검사상 평활근종으로 진단되었다. 크기가 약 3×4cm의 원형의 종괴가 좌측상엽 폐정맥 및 좌측 상엽 설엽에 인접해 있고, 비교적 모양이 잘 유지되는 형태를 가지고 있었다. 수술후 환자의 임상경과가 호전되어 수술 20일후



A

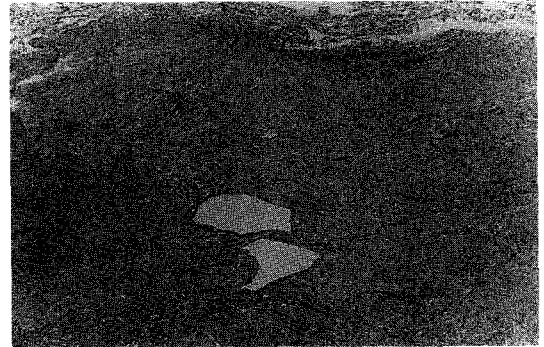


B

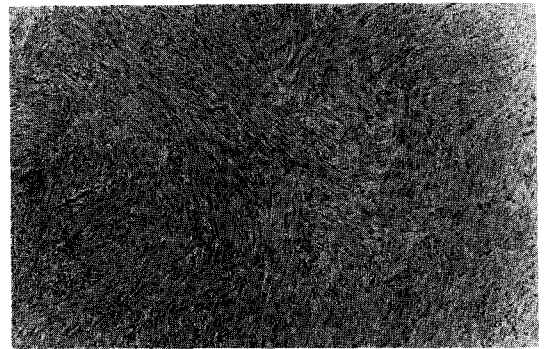
Fig. 2. CT Scan obtained at subcarinal level shows about 2.5cm-sized, well marginated, round, soft tissue mass (arrow) adjacent to left upper lobar bronchus (A). CT scan shows another small nodular opacity (arrow) in Rt. basal lung (B).

특별한 합병증이 없이 퇴원하였고 현재 외래에서 추적 관찰중이다.

병리학적 소견 : 육안소견상 단일종괴로서 크기는 4.0 × 3.0 × 2.5 cm 이었고, 피막에 의해 잘 둘러싸여 있었으며 폐홍막에 유착되어 있었고, 기관과의 연결은 없었다. 단면소견상 회백색 고형성 결절내에 국소적인 출혈 반점이 보였다. 조직학적 소견상 중등도의 세포 밀도를 보였으며, 방추형세포들이 다발성 배열을 하고 있었고 국소적으로 회오리바람과 같은 배열을 보였다 (Fig. 3 A,B). 종양세포는 방추형으로 호산성의 세포



A



B

Fig. 3. Discrete well-circumscribed nodule composed of benign-appearing smooth muscle cells. Entrapped alveolar spaces (arrow) lined by metaplastic epithelium are seen in the periphery of the nodule (H&E, ×40) (A). Interlacing bundles of smooth muscle cells having cigar shaped nuclei without cytotic atypia (H&E, ×200) (B).

질을 갖고 있었다. 핵은 길쭉하고 끝이 뾰족하여 평활근세포에 해당하였으며, 세포의 비정형성은 관찰되지 않았다. 유사분열은 50개 고배율시야당 2-3개 정도로 5개를 넘지 않았다. 면역조직화학적 염색소견에서 Vimentin, Desmin, Smooth muscle actin에 미반성 양성반응을 보였고, Cytokeratin, Cam 5.2, S-100 단백질, NSE, Factor VIII에 음성반응을 보여 분화가 좋은 평활근종양임을 알 수 있었다.

## 고 찰

양성 전이성 폐 평활근종은 자궁근종의 과거력을 가진 환자에서 폐에 발생하는 분화종은 전이성 평활근종으로 정의된다. 이 종양은 조직학적 소견상 악성을 시사하는 소견이 없어 양성종양에 합당한 소견을 보이지만 임상적으로는 다발성으로 발생하여 재발이나 전이를 할 수 있어 악성의 경과를 보인다. 양성 전이성 폐 평활근종은 1939년에 처음 기술된 후<sup>1</sup> 드물게 보고되고 있으나 병리생태기전에는 논란이 되어 왔으며 일부 보고자는 저급의 폐 평활근육종(low grade leiomyosarcoma)으로 분류하기도 한다<sup>2</sup>. 최근의 보고는 72세 여자환자에서 자궁근종으로 전자궁적출술 및 양측 난관난소절제술을 시행받고, 4년후 우연히 좌측상엽에 악성의심의 종괴가 있어 폐절제술을 받은 후 그 원발성 및 전이성 병변간에 조직학적 및 면역조직화학적 특성을 비교하여 두 병변이 모두 분열성은 다르나 평활근종이 같음을 보고한 증례가 있었다<sup>3</sup>.

폐의 양성종양은 비교적 발병율이 낮으며 대부분 무증상이고 단순 흉부 촬영상에서 우연히 발견되어 검사 및 치료를 받게 된다. 이러한 양성종양의 경우 진단은 개흉 및 종괴 절제로 이루어진다<sup>4</sup>. 양성 전이성 폐 평활근종은 주로 여자에게서 생기고 전에 자궁 평활근종으로 수술받았던 과거력이 있는 경우 우연히 흉부 사진상에서 발견되어 조직검사로 진단되는 경우가 대부분이다<sup>5,6</sup>. 주로 36세부터 64세까지의 연령분포를 보이며 조직학적으로 양성의 형태로 나타나며 만성적으로 증상이 없는 경우가 대부분이나 간혹 급격히 진행되어 호흡부전으로 진행되기도 한다<sup>7,8</sup>.

방사선학적으로 양성 전이성 폐 평활근종은 아주 경계가 잘 그려지고, 분엽화되며 균일한 밀도를 보이며, 때때로 공동이 관찰되기도한다. 종양의 크기는 0.5에서 5.0cm로 다양하며 양측성으로 나타나기도 하며 크기가 수가 증가되기도 하고, 새로운 결절이 나타나기도 하고 없어지기도 한다. 또한 폐결절은 임신 중반기(2 trimester), 임신 후반기(3 trimester) 및 출산 후 기간동안에 쇠퇴하는 경향을 보이며 폐경 전 여자

에서는 호흡부전이나 심지어 사망에 이르는 경우도 있는 반면, 폐경 후 여자에서는 무활동상태로 있는 것으로 보아 종양성장에 호르몬영향이 있음을 시사한다<sup>9</sup>. 에스트로겐의 종양 형성 자극에 대한 것은 명확하지는 않으나, 고농도의 에스트로겐이 종양 성장을 가속화시키고 에스트로겐을 제거하였을 때 종양이 줄어드는 것이 보고되어 에스트로겐이 종양 형성에 자극 역할을 하는 것으로 추정된다. 면역조직학적으로 양성전이성 평활근종이 프로그스테론 수용체와 에스트로겐 수용체가 많은 것으로 보고되었으며, Winter 등은 양성 전이성 평활근종 치료에 tamoxifen이 에스트로겐 작용을 차단함으로써 효과가 나타난다고 제시하였다<sup>10</sup>.

병리학적으로 폐실질 종양은 분엽화를 보이고 경계가 분명한 결절이나 종괴 형태로 나타나고 대개 폐의 원위부에 자리 잡게 되는 경우가 보통이다. 현미경학적으로 종양의 대부분은 방추세포속(fascicle)이 서로 얽혀지는 양상이고 다양한 정도의 핵의 이형성(atypism)을 갖는다. 양성종양의 유사분열 정도는 50개의 고배율시야당 5개 미만이며 그 이상은 악성종양으로 분류되는데 본 증례의 경우는 이러한 기준에서 합당한 소견을 나타내었다<sup>8</sup>.

표준 치료법은 잘 알려져 있지 않지만 이제까지 자궁전절제술, 개흉술, 호르몬적 치료, 세포파괴적 약물치료(cytotoxic drug therapy) 등이 행하여져 왔다. 자궁전절제술, 양측 난관 난소적출술이 일차적 근본치료법으로 시행되고 이로 인해 에스트로겐 소실로 종양이 줄어드는 효과를 가져왔다는 보고가 있다. Winkler 등은 폐 병변에 대해 개흉술을 시행하였고 전이성 폐 평활근종의 6년간 추적 경과 관찰에서 재발이 없었음을 보고하였으며<sup>7</sup> Banner 등은 42세 여자에게서 자궁적출술 및 양측 난관 난소 절제술 후 폐 양측 하부 간질침윤이 감소되는 것을 보고하였다<sup>11</sup>. 양성 전이성 폐 평활근종의 호르몬치료에 대해서 Hague 등은 Buserelin, 즉 황체 호르몬 분비호르몬(LHRH) 유사물질을 이용하여 에스트로겐을 낮추어 종양이 줄어드는 것을 관찰하고 이 종양이 에스트로겐 호르몬 수용체와 연관되어 있음을 보고하였다<sup>12,13</sup>. 한

편, 양성 전이성 폐 평활근종은 방사선요법 및 항암화학요법에는 효과가 있다고 밝혀진 바는 없다. 고용량의 ifosfamide 요법이 사용되어졌으나 효과는 적었다. 따라서 자궁평활근종이 있고 무증상의 폐병변을 가진 임상적으로 안정된 환자는 자궁적출술, 양측 난관 난소 적출술과 주의 깊은 관찰이 필요하고, 만약 증상이 있으면서 진행적이면 호르몬적 치료와 개흉술이 적절할 것으로 보인다<sup>14</sup>. 예후는 다양하여 예측하기가 어려운데 Bachman과 Wolff는 소수의 결절을 가진 환자에서 좋은 예후를 가졌으나, 광범위한 폐 전이 시에는 생존기간이 짧다는 것을 보고하였다<sup>15,16</sup>.

본 증례는 39세 여자환자로 10년전 자궁절제술을 받은 후 조직학적으로 자궁 평활근종으로 진단받은 과거력이 있다. 최초 내원당시 시행한 흉부방사선학적 소견상 좌측상엽 기관지에 연한 2cm 크기의 종괴와 우하폐 기저부의 5mm 크기의 소결절이 있어 좌측상엽 폐절제술을 시행 후 조직학적으로 양성 폐 평활근종으로 진단받았다. 추적 관찰도중 우측 폐에 새로운 결절이 발생하였으며 자궁 평활근종의 과거력과 함께 폐결절의 조직학적, 임상적 양상을 종합한 결과 양성 전이성 폐 평활근종에 해당하였다.

### 요 약

10년전 자궁근종으로 자궁전절제술을 시행받은 39세 여자환자로 기침을 주소로 내원하여 흉부 단순촬영, 흉부 전산화 단층촬영상 좌측상엽기관지에 연하여 3×4cm크기 종괴 및 우하부 기저부에 5mm크기의 소결절이 관찰되어, 좌측 상엽 절제술을 시행받았다. 종괴의 병리조직소견상 유사분열을 보이는 세포가 50개의 고배율시야당 2-3개 정도이었으며 세포의 이형성은 관찰할 수 없었고 면역조직화학염색상 Smooth muscle actin, Vimentin, Desmin에 양성반응을 보여 평활근종임을 확인하였다. 수술 후 별다른 증상의 호소는 없었고, 경과 추적 관찰중 우측 폐에 새로운 결절이 발견되어 양성 전이성 평활근종으로 확진하였으며, 이에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 참 고 문 헌

1. Steiner PE. Metastasizing fibroleiomyoma of the uterus. *Am J Pathol* 1939;15:89-109.
2. Wolf, M., Gordon, K., Silva, F. Pulmonary metastasis (with admixed epithelial elements) from smooth muscle neoplasms. *Am. J. Surg. Pathol* 1979;3:325-42.
3. Jose M. Esteban, MD, Warren M. Allen, MD. Benign Metastasizing Leiomyoma of the uterus. *Histologic and Immunohistochemical Characterization of Primary and Metastatic Lesions. Arch Pathol Lab Med* 1999;123:960-2.
4. Clark, D. H., Weed, J.C. Metastasizing leiomyoma : a case report. *Am. J. Obstet. Gynecol.* 1977;127:672-3.
5. Mikami I, Yamamoto M, Nishimura H et al. Multiple lungs tumors found 17 years after hysterectomy. *Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* 1998;46(7):634-8.
6. Vera-Roman JM, Sobonya RE, Gomez-Garcia JL, et al. Leiomyoma of the lung : Literature review and case report. *Cancer* 1983; 52:936-41.
7. Winkler TR, Burr LH, Robinson CLN. Benign metastasizing leiomyoma. *Ann Thorac Surg* 1987;43:100-1.
8. Fraser, R.G., Pare, J.A.P., Pare, P.D., et al. Neoplastic disease of the lungs. In *Diagnosis of Diseases of the Chest.* (3rd ed.);1989; p1651-2.
9. Horsmann JP, Pietra GG, Harman JA, et al. Spontaneous regression of pulmonary leiomyomas during pregnancy. *Cancer* 1977;39: 314-21.
10. Winter J. Oophorectomy in lymphangiomyo-

- matisis and benign metastasizing leiomyoma. *N Engl J Med* 1981;305:1416-7
11. Banner A, Carrington C, Emory W, Kittle F, Leonard G, Rengus J, Taylor P, Addington W. Efficacy of oophorectomy in lymphangioliomyomatosis and benign metastasizing leiomyoma. *N Engl J Med* 1981;305:204-9.
  12. Hague WM, Abdulwahid NA, Jacobs HS. Use of LHRH analogue to obtain reversible castration in a patient with benign metastasizing leiomyoma. *Br J Obstet Gynaecol* 1986;93:455-60.
  13. Cramer S, Myer J, Kramer J, Camel M, Mazur M, Tenenbaum M. Metastasizing leiomyoma of the uterus S-place fraction, estrogen receptor, and ultrastructure. *Cancer* 1980;45:932-7.
  14. Evans AJ, Wiltshaw E, Kochanowski SJ, Macfarlane A, Sears RT. Metastasizing leiomyoma of the uterus and hormonal manipulations. Case report. *Br J Obstet Gynecol* 1986;93:646-8.
  15. Bachman D, Wolff M. Pulmonary metastases from benign appearing smooth muscle tumors of the uterus. *Am J Roentgenol* 1976;127:441-6.
  16. Daniel J.P, Thomas F.M, James C. G. Benign Metastasizing Leiomyoma : A Case Report and Review of the Literature. *Respiration* 1992;56:347-50.