

무증상의 부신 골수 지방종 1예

A Case of an Asymptomatic Adrenal Myelolipoma

Adrenal myelolipoma is a rare benign, non-functioning tumor that is frequently discovered incidentally. We report here on a case of a 47-year-old woman with an incidentally found adrenal tumor. She was slightly obese and had been diagnosed with diabetes. Her blood sugar level was well-controlled with oral hypoglycemic agents. All the laboratory test results were within normal limits. The abdomen CT scan revealed a well-demarcated homogenous solid mass that was 9cm in diameter, and it consisted of fat tissues. The differential diagnosis for malignant tumors was necessary, so we performed complete surgical excision. The patient recovered well without any major complications. If the diagnosis of adrenal myelolipoma is definite, then regular follow-up of this type of patient is sufficient. However, as the differential diagnosis with malignant tumors is rather difficult and as spontaneous hemorrhage can persist in the giant myelolipomas that are greater than 10cm in diameter, performing complete surgical excision is inevitable.

Key Words : Myelolipoma; Adrenal Gland Neoplasm

중심 단어 : 골수지방종, 부신종양

이형순, 최세별, 김경식

연세대학교 의과대학 외과학교실

Hyung Soon Lee, M.D., Sae
Byeol Choi, M.D., and Kyung Sik
Kim, M.D.

Department of Surgery, Yonsei
University College of Medicine,
Seoul, Korea

책임저자

김경식

120-752, 서울 서대문구 성산로 250

연세대학교 의과대학 외과학교실

Tel: (02) 2228-2125

Fax: (02) 313-8289

E mail: kskim88@yuhs.ac

Received: 2008. 9. 22

Accepted: 2008. 11. 20

서 론

골수 지방종은 지방과 조혈조직으로 구성되어 있는 비기능성(non-functioning)의 비교적 드문 양성 종양으로 알려져 있다.¹ 이 질환은 대부분 부신에 발생하고 위, 간, 임파절, 종격동, 두개골 등에도 생기는 것으로 알려져 있으나, 부신 이외에 발생한 증례의 반 수 이상이 전천골 부위(presacral region)에 발생한 것으로 보고되었다.² 과거에 부검에서 발견되는 경우가 0.08-0.2%였으나³ 최근 영상의학적 기술의 발달로 우연히 발견되는 경우가 늘어나고 있다.⁴ 현재 비기능성 부신 종괴에 대해서는 크기가 5cm 이상인 경우 25%의 악성 가능성이 있어 부신 절제술이 권장되고 있으나,⁵ 우연히 발견된 부신 골수 지방종의 경우 아직 확실한 진단 방법과 치료 원칙에 대한 합의가 없는 실정이다. 저자들은 우연히 발견된 우측 부신 종양을 수술적으로 절제하여 골수

지방종으로 진단된 환자를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고 치료 원칙에 대하여 논의하려 한다.

증 례

47세 여자 환자가 건강 검진을 목적으로 시행한 복부 전산화 단층촬영(CT)에서 우측 부신 종양이 우연히 발견되어 추가 검사와 치료를 위하여 본원으로 전원 되었다. 과거력상 33년 전 교통사고로 좌측 다리 절단 수술을 받은 기왕력이 있으며, 3년 전 당뇨 진단받고 경구 혈당 강하제인 Diabex[®] 250mg을 아침 식전에 복용 중이었다. 신장 151cm, 체중 61kg의 BMI 27.19kg/m²의 비만한 여성이었다. 내원 당시 활력 징후 검사상 혈압은 140/80mmHg, 호흡수 20회/분, 맥박수 70회/분, 체온은 36.5°C였다. 이학적 검사상 장음은 정상이었으며 복부 장기나 종괴는 촉진되지 않았고 이동탁

음도 없었다. 복부에 압통 및 반발통은 없었다. 혈액검사에서 혈색소 15.0g/dL, 백혈구 5,480/mm³ (호중구 49.7%, 림프구 43.1%), 혈소판 161,000/mm³ 이었고, 혈청 화학 검사상 혈당 135mg/dL, 총단백 /알부민 7.4/4.8g/dL, 총빌리루빈 0.8mg/dL, AST/ALT 17/14 IU/L, ALP 98 IU/L 로 특이 소견 없었다. 일반노 검사 결과도 정상 범주였다.

복부 전산화 단층 촬영에서 9 x 4.5cm 의 저밀도의 종양이 우측 전방 콩팥주위공간(Right anterior pararenal space)에서 관찰되었고 경계가 비교적 분명하고 종양의 대부분이 지방으로 구성되어 있어 골수 지방종, 분화가 좋은 지방육종(liposarcoma) 또는 혈관근지방종(angiomyolipoma) 과의 감별이 필요하였다. 고분화 지방육종(High grade liposarcoma) 등의 악성종양과의 감별을 위해 시행한 양전자 방출 단층촬영(Positron emission tomography, PET) 검사상 대사항진 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1).

수술은 우측간하 절개를 시행하여 종양을 노출하였으며 우측 부신 종양은 주변 조직과의 유착이 심하지 않고 피막이 잘 발달되어 있었으며, 우측 부신은 종양으로 인해 위축된 소견을 보여 부신의 일부와 함께 종양을 절제하였다. 종양은 타원형의 표면이 불규칙한 모양이었으며, 절제된 종양의 크기는 9 x 5.5 x 2.5 cm 였고, 무게는 95g 이었다. 종양의 절단면은 황색의 고형 종양(solid mass) 이었으며, 부분적으로 출혈성 병변이 혼재된 소견이었다(Fig. 2).

조직소견상 저배율에서(x40) 부신 피막 아래 피질의 사구층(zona glomerulosa)을 구성하는 세포층이 관찰되며 그 아래 쪽으로 지방세포와 조혈세포로 구성된 종양이 관찰되

었고, 고배율에서(x200) 골수전구세포, 적혈구전구세포, 거대핵세포로 구성된 조혈세포들이 관찰되었다(Fig. 3). 수술 후 환자는 합병증 없이 8 일째 퇴원하여 현재 외래 추적중으로 재발의 소견은 없다.

고 찰

1905년도에 Gierke⁶에 의해 처음 보고 된 이래 1929년에 Oberling에 의해 골수 지방종 이라 명명된⁷ 이 질환은 무증상의 우연히 발견되는 종양으로 알려져 있었으며, 복부 압통, 측복부 통증과 같은 비특이적인 복부 증상을 주소로 내원한 환자를 검사하는 과정에서 발견되곤 하였다.⁸ 이전에는 종양에 의한 기계적 압박, 괴사와 출혈에 의해 증상이 유발될 수 있다고 설명하고 있으나,¹⁰ 최근의 연구에서는 종양의 크기와 증상의 유무와는 상관 관계가 전혀 없다고 보고하였다.¹⁷

골수 지방종은 비기능성 선종, 크롬 친화성 종양, 신경절 신경종, 부신 낭종, 부신피질암종, 악성종양의 부신 전이와 감별 해야 한다. 복부 전산화 단층촬영에서 -30 HU(Hounsfield units) 보다 낮은 밀도의 성숙한 지방을 포함하며 치밀한 골수조직이 산재되어 있는 모습의 불균질한 종양의 모습을 보여 복부 전산화 단층촬영이 가장 좋은 영상 검사로 알려져 있지만, 다른 종양과의 감별이 필요하거나 진단이 어려울 경우에는 자기공명영상 검사를 추가하여 시행할 수 있다.^{9,10} 자기 공명영상에서는 비 지방억제 T1 강조

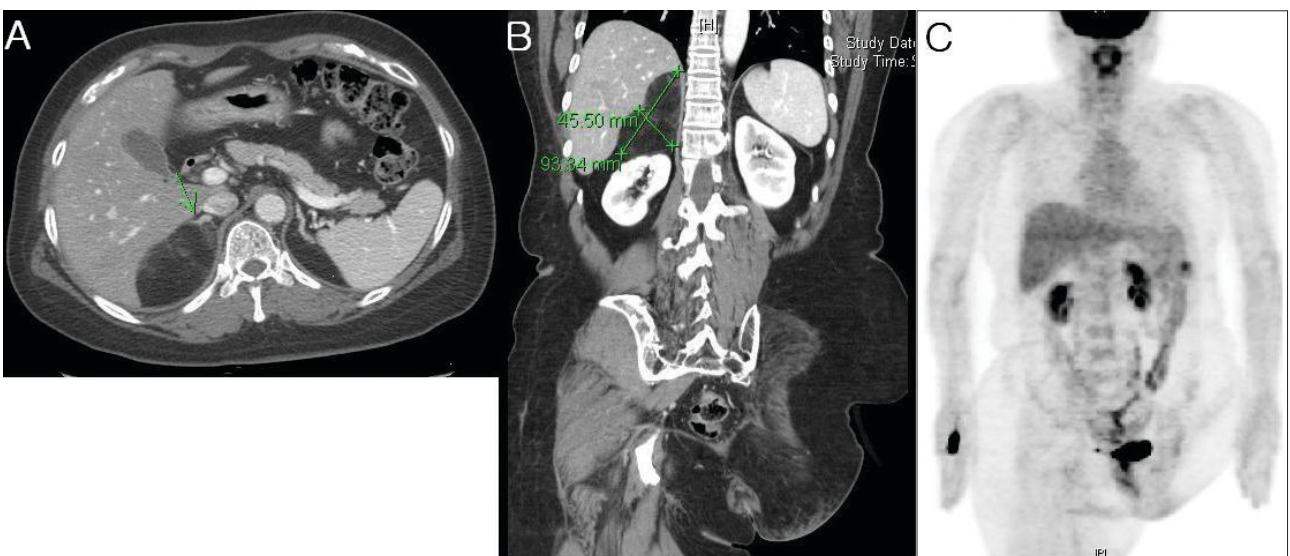


Fig. 1. (A) Abdomino-pelvic CT shows about 9 x 4.5 cm fatty mass in right anterior pararenal space. (B) The mass abutts right adrenal gland and diaphragm but invasion is not definite. (C) No definite hypermetabolic lesion in the PET scan.

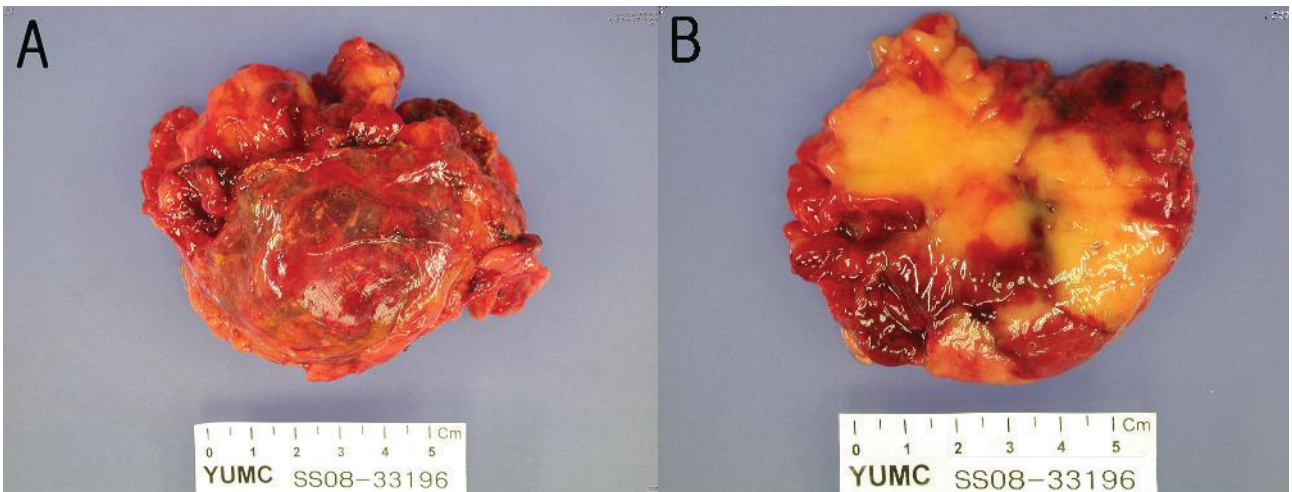


Fig. 2. (A) Grossly, a 9 x 5.5 x 2.5 cm sized round mass is noted. (B) It shows an adrenal gland with fat tissue and brownish hemorrhagic material. The mass is encapsulated by thin fibrous capsule.

영상(non-fat-suppressed T1-weighted images) 에서 중등신호강도(intermediate signal intensity) 를 보이고 T2 강조 영상(T2-weighted images) 에서 높은 조영 증강 소견을 보이며, 지방억제스캔(Fat suppression scan) 을 시행하면 지방 성분의 조영 증강 소견이 없어지게 되어 확진 하는데 도움을 준다. 석회화, 괴사, 중앙내 출혈은 거의 찾아 볼 수 없으며, 이러한 소견이 나타날 경우, 진단에 혼란을 주 게 된다.⁹

다른 부신 악성종양과 감별을 위해 양전자 방출 단층촬영 을 시행할 수 있다. 골수 지방종은 양전자 방출 단층 촬영상 FDG 섭취가 보이지 않는 것으로 알려져 있으나 소수의 증

례에서 선종성이거나 조혈 세포 분획이 많은 경우 대사항진 소견이 보이는 것으로 보고되었다.¹¹ 또한 고분화된 지방육 종과 감별이 가능하여 양전자 방출 단층 촬영은 다른 부신 악성종양과의 감별에 도움을 줄 수 있을 것이다.¹² 영상의학 적인 소견으로 진단이 의심스러운 경우 세침흡인생검을 시 행하여 볼 수 있으나 세침흡인생검은 침습적인 방법으로 종 양의 파열이나 출혈의 원인이 될 수 있어 다른 영상의학적 인 검사가 우선시 되어야 할 것이다.^{10,13} 골수 지방종은 비기 능성 종양이므로 여러가지 내분비 검사를 통상적으로 시행 할 필요는 없으나 이전의 연구에서 호르몬을 분비하는 선 종과 같이 공존하는 경우가 보고된 적이 있어 24시간 소변

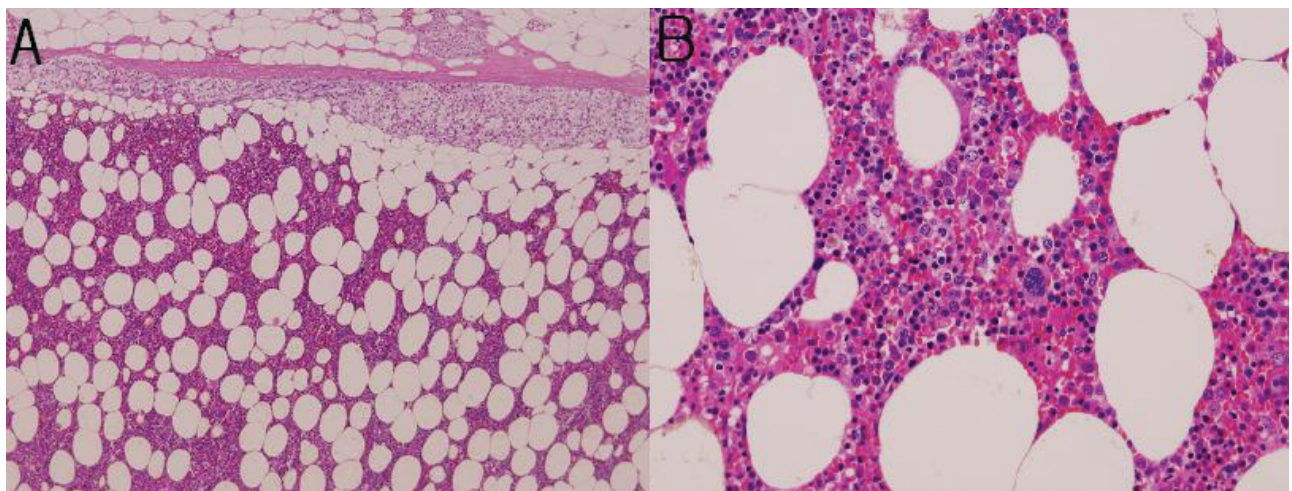


Fig. 3. (A) Microscopic finding shows adipocytes and hematopoietic cell (H&E stain, x40). (B) Hematopoietic cells consist with myeloid precursor, erythroid precursor, and megakaryocyte (H&E stain, x200).

metanephrine, catecholamine 등의 내분비 검사가 필요하다고 할 수 있다.^{8,17}

우연히 발견된 부신 종양에서 종양 크기와 악성도 사이에 강한 상관관계가 있기 때문에, 많은 저자들은 부신 종양의 크기가 4-6cm 이상인 경우 수술적인 절제를 권장하고 있다.⁵ 그러나 골수 지방종의 경우 양성이고, 비기능성 종양이며 평균 지름이 7.6cm 정도로 비교적 크기 때문에 이와 같은 원칙이 적용되지 않는다.^{8,14} 따라서 무증상의 우연히 발견된 골수 지방종의 경우 정기적인 추적관찰을 통하여 크기가 커지거나 증상이 발생하는 환자에서는 수술적인 절제가 필요하고, 그렇지 않은 군에서는 정기적인 추적관찰로 충분하다고 하겠다. 10cm 이상의 골수 지방종은 자연 출혈을 일으켜 복부 압통, 쇼크를 일으킬 수 있기 때문에 증상이 없더라도 수술적인 치료가 반드시 필요하다.^{15,16}

수술적인 방법으로는 개복 또는 복강경 부신절제술을 선택할 수 있다. 영상의학적 검사에서 골수 지방종으로 확진된 경우는 복강경 부신 절제술이 추천되지만, 크기가 큰 경우, 여러 호르몬을 과분비하는 경우, 영상의학적인 검사에서 혈관침범, 인접 림프절병증이 있는 경우, 전이된 부위가 존재할 경우 등의 악성 종양의 소견을 보이는 경우는 개복 부신 절제술을 시행하여야 한다.^{18,19} 그러나 이러한 소견을 보이는 종양의 경우에도 양성 종양이 더 많고¹⁹, 부신피질암종과 같은 악성종양에서 개복수술을 받은 군과 복강경 수술을 받은 군 사이에 생존률, 국소재발, 원격 전이 비율에 큰 차이가 없었다는 여러 연구결과를 고려하면,²⁰ 수술적인 치료가 필요한 골수 지방종에서 복강경 부신 절제술이 우선될 수 있겠다.

결 론

우연히 발견된 골수 지방종은 증상이 없는 경우 정기적으로 추적관찰하고, 증상이 있거나 크기가 10cm 이상일 경우에는 복강경 또는 개복 부신 절제술로 절제 하는 것이 필요할 것으로 사료된다.

참고 문헌

1. Ide H, Terado Y, Nakagawa T, et al. *Incidentally discovered adrenal myelolipoma associated with hyperthyroidism. Int J Clin Oncol* 2007;12:379-381.

2. Aneesh K. Singla, Gregory Kechejian, Marvin J. Lopez, et al. *Giant presacral myelolipoma. American Surgeon* 2003;69:334-338.

3. Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC, Selikowitz SM. *Adrenal myelolipoma. Surgery* 1973; 73:665 - 670.

4. Porcaro AB, Novella G, Ficarra V, Cavalleri S, Antonioli SZ, Curti P. *Incidentally discovered adrenal myelolipoma. Report on 3 operated patients and update of the literature. Arch Ital Urol Androl* 2002;74:146 - 151.

5. Sturgeon-C,-Kebebew-E. *Laparoscopic adrenalectomy for malignancy. Surg Clin North Am* 2004;84:755-774.

6. Gierke E. *Über knochenmarksgewebe in der nebenniere.beitr. Pathol Anat.* 1905;7: 311 - 324.

7. Oberling C. *Les formations myelolipomateuses. Bull.Assoc Fr Etude Cancer* 1929;18:234 - 236.

8. Han M, Burnett AL, Fishman EK, Marshall FF. *The natural history and treatment of adrenal myelolipoma. J Urol* 1997;157:1213 - 1216.

9. Guo YK, Yang ZG, Li Y, et al. *Uncommon adrenal masses: CT and MRI features with histopathologic correlation. Eur J Radiol* 2007;62:359 - 370.

10. Meyer A, Behrend M. *Presentation and therapy of myelolipoma. Int J Urol* 2005;12:239 - 243.

11. Elaini AB, Shetty SK, Chapman VM, et al. *Improved detection and characterization of adrenal disease with PET-CT. RadioGraphics* 2007;27:755 - 767.

12. Ludwig V, Rice MH, Martin WH, Kelley MC, Delbeke D. *2-deoxy-2-[18F]fluoro-d-glucose positron emission tomography uptake in a giant adrenal myelolipoma. Mol Imaging Biol* 2002;4:355 - 358.

13. El-Mekresh MM, Abdel-Gawad M, El-Diasty T, El-BazM, Ghoneim MA. *Clinical, radiological and histological features of adrenal myelolipoma: review and experience with a further eight cases. Br J Urol* 1996;78:345 - 350.

14. Sharma MC, Kashyap S, Sharma R, Chumber S, Sood R, Chahal R. *Symptomatic adrenal myelolipoma. Clinicopathological analysis of 7 cases and brief review of the literature. Urol Int* 1997;59:119 - 124.

15. Sanders R, Bissada N, Curry N, Gordon B. *Clinical spectrum of adrenal myelolipoma: analysis of 8 tumors in 7 patients. J Urol* 1995;153:1791 - 1793.

16. Kenney PJ, Wagner BJ, Rao P, Heffess CS. *Myelolipoma: CT and pathologic features. Radiology* 1998;208:87 - 95.

17. Dieckmann KP, Hamm B, Pickartz H, Jonas D, Bauer HW. *Adrenal myelolipoma: clinical, radiologic, and histological features. Urology* 1987;14:1 - 8.

18. Kebebew E, Siperstein AE, Clark OH, et al. *Results of laparoscopic adrenalectomy for suspected and unsuspected malignant adrenal neoplasms. Arch Surg* 2002;137:948 - 51.

19. Bernini GP, Miccoli P, Moretti A, et al. *Sixty adrenal masses of large dimensions: hormonal and morphologic evaluation. Urology* 1998;51:920 - 925.

20. Vassilopoulou-Sellin R, Schultz PN. *Adrenocortical carcinoma. Clinical outcome at the end of the 20th century. Cancer* 2001;92:1113 - 1121.