

혈청 CA 125가 상승된 Meigs씨 증후군의 1예

한림대학교 의과대학 산부인과학교실¹, 병리학교실²

지은정¹ · 한정미¹ · 문철용¹ · 정지윤¹
남은숙² · 장봉림¹ · 이근영¹ · 권용일¹

A case of Meigs' syndrome with elevated serum CA 125 level

Eun Jung Ji, M.D.¹, Jung Mi Han, M.D.¹, Cheol Yong Moon, M.D.¹,
Ji Youn Jung, M.D.¹, Eun Sook Nam, M.D.², Pong Rheem Jang, M.D.¹,
Keun Young Lee, M.D.¹, Yong Il Kwon, M.D.¹

¹Department of Obstetrics and Gynecology, ²Department of Pathology,
College of Medicine Hallym University, Seoul, Korea

Meigs' syndrome is a benign ovarian tumor associated with ascites and pleural effusion. Elevated CA 125 in Meigs' syndrome is unusual clinical condition reported in few cases. We report here, a 49-year-old postmenopausal woman with right ovarian fibrothecoma with ascites, right pleural effusion and high serum levels of CA 125. Although postmenopausal women with ovarian tumor, ascites, pleural effusion, and elevation of CA 125 levels probably have malignant ovarian tumors, Meigs' syndrome must be considered in the differential diagnosis.

Key Words: Meigs' syndrome, CA 125, Ovary, Fibrothecoma

폐경기 여성에서 복수와 흉수를 동반한 난소의 종양이 있는 경우 혈청 CA 125가 상승하였을 때 먼저 악성 난소종양을 의심할 수 있다. 그러나 복수와 흉수 및 혈청 CA 125의 상승은 양성 난소종양에서도 나타날 수 있다.

Meigs씨 증후군은 복수와 흉수를 동반한 난소의 양성 종양에서 종양을 제거한 후 복수와 흉수가 저절로 소실되는 것으로 정의된다. Meigs씨 증후군의 진단은 난소의 양성 종양을 조직학적으로 확인함으로써 이루어지며 종양을 제거하는 것만으로도 완치가 가능하다.

이에 저자들은 폐경기 여성의 난소 섬유낭포막종 (fibrothecoma)으로 인해 발생한 Meigs씨 증후군에서 혈청 CA 125가 상승된 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 최 ○ 숙, 49세.

주 소: 복부팽대.

출산력: 2-0-0-2.

월경력: 초경은 15세에 있었으며 폐경은 48세였다.

가족력: 특이 사항 없음.

기왕력: 특이 사항 없음.

현병력: 수 일전 하복부에 종괴가 촉지되고 최근 복부팽

접수일 : 2008. 6. 18.
채택일 : 2008. 8. 4.
교신저자 : 권용일
E-mail : kbgj@hallym.or.kr

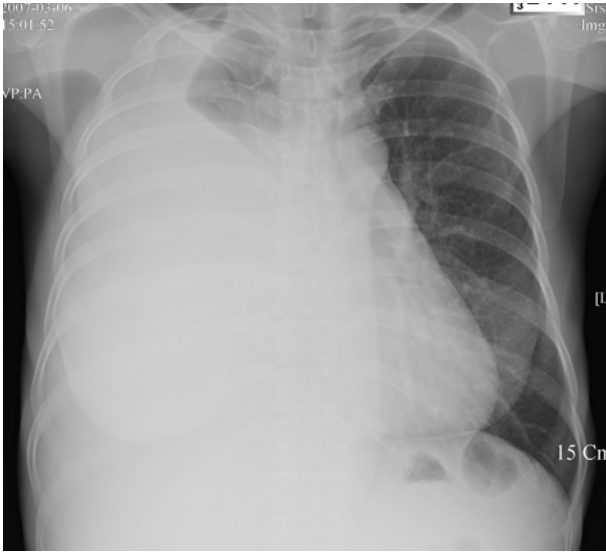


Fig. 1. Chest X ray showing the massive right pleural effusion.



Fig. 3. Pelvis MRI. Solid mass including multiple cystic portion with large amount of ascites are seen. There is no definitely enlarged lymph nodes in pelvis.

만이 지속되어 산부인과 의원을 방문하여 골반내 종괴가 있음을 발견하고 본원 산부인과로 전원되었다. 내원 당시 환자는 복부 불편감 및 소화불량을 호소하였으며 호흡곤란이 있었으나 심하지는 않았다.

이학적 소견: 입원 시 신장은 150 cm, 체중은 45 kg, 전신상태는 양호하였고 혈압은 90/60 mmHg, 맥박은 72/분, 체온은 36.7°C였으며 청진에서 우측 폐하부의 호흡음이 감소하였고 복부에는 복수와 제대 위 2 cm까지 이르는 딱딱한 종괴가 촉진되었다.

내진 소견: 자궁 및 자궁부속기는 종괴로 인해 촉진되



Fig. 2. Abdomen and pelvic CT showing the huge solid pelvic mass with massive ascites.

지 않았고 자궁경부는 정상의 크기로 특별한 이상소견은 없었다

검사 소견: 일반혈액검사에서 혈소판이 $506 \times 10^3 / \mu\text{L}$ 로 상승되었고, CA 125 (정상범위: <35 U/mL)는 600 이상으로 높았다.

흉부 X-선에서 우측 흉막 삼출액 및 무기폐가 관찰되었고 (Fig. 1) 골반초음파 및 복부, 골반CT와 MRI에서 직경 16 cm 크기의 종양과 다량의 복수가 확인되었다 (Fig. 2, 3).

수술 소견 및 경과: 입원 제2일째 흉수천자 및 복수천자를 시행하였고 흉수 및 복수세포검사에서 악성 세포는 발견되지 않았으며 다수의 중피세포만 있었다. 입원 제9일째 전신마취 하에서 개복 수술을 시행하였다. 개복 시 약 4,000 cc 가량의 적황색 복수가 있었으며 크기 16×14×13 cm의 견고한 우측 난소종양을 볼 수 있었고 자궁 및 반대측 난소에는 특이 소견이 없었다. 장간막에서는 약간의 출혈성 병변을 보이는 임파절이 관찰되었고 복대동맥 주위 임파절은 커지지 않았다.

수술은 우측 부속기 절제술, 충수절제술을 시행하였다.

수술 후 제2일째 우측 흉수는 급격히 감소하여 수술 후 제7일째 양호한 전신상태로 퇴원하였으며 수술 후 제13일째 외래에서 시행한 흉부X-선 소견상 더 이상의 흉막삼출액은 관찰되지 않았으며 복수도 더 이상 나타나지 않았다. CA 125는 수술 후 제8일째 361.4 U/mL, 수술 후 제14일

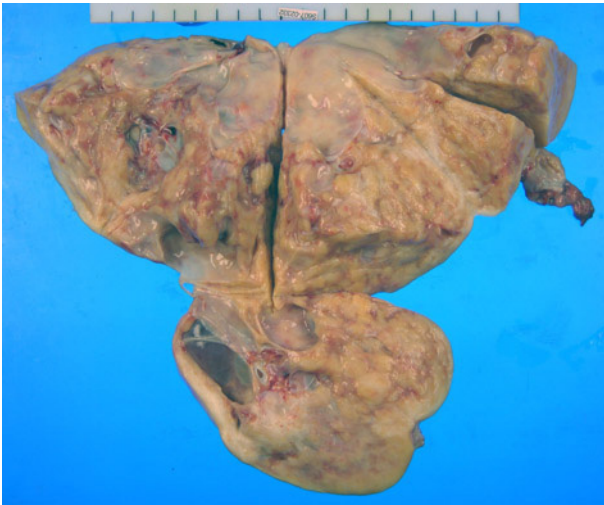


Fig. 4. Gross findings. The specimen consists of an enlarged well-encapsulated firm ovarian mass with attached right salpinx. The ovarian mass measures 16×14×13 cm and it is previously opened in four directions. The cut surface shows almost entirely solid whitish yellow fibrotic appearance with hemorrhagic fleshy and myxoid foci with cystic change. The salpinx measures 6×1×0.5 cm and it is grossly unremarkable.

째 242.7 U/mL, 수술 후 제21일째 106.6 U/mL로 감소하였으며 더 이상 추적 검사는 시행하지 않았다.

병리조직학적 소견: 육안 소견상 우측 난소종양의 크기는 16×14×13 cm으로 피막으로 잘 싸여 있었으며, 절단면은 거의 단단하였고 황색을 띠었으며 낭포성 변화를 동반한 출혈성 병변이 관찰되었다 (Fig. 4).

현미경 소견상 종양은 섬유아세포의 증식이 증가되고 방추형의 섬유세포에는 세포질이 풍부하였다 (Fig. 5). 악성 변화의 소견은 없었다. 절제된 충수 및 대망에서는 율혈 외에 특이 소견이 없었다.

고 찰

Meigs씨 증후군은 복수와 흉수가 동반된 양성 난소종양에서 종양을 제거한 후 복수와 흉수가 소실되는 것으로 정의하는데 1866년 Spiegelberg에 의해 처음으로 보고되었다. 이후 Tait가 복수와 흉수를 동반한 난소종양이 반드시 악성을 시사하는 것은 아니라고 주장한 바 있으며, 1903년 Demons는 난소종양적출 후 복수와 흉수가 소실된 예를 보

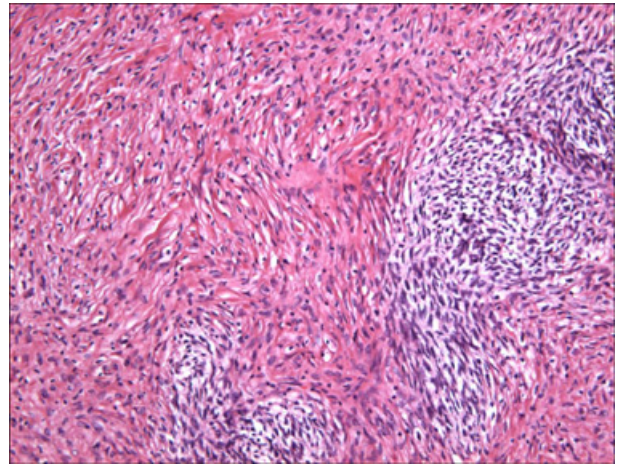


Fig. 5. Microscopic findings (H & E, ×100). The fascicles of benign spindle cells showing stromal hyperplasia. And high cellularity are noted with focal large area of hyalinization.

고 하였다. 1937년 Meigs와 Cass가 흉수와 복수를 동반한 난소 섬유종 환자에서 난소종양을 제거한 후 복수와 흉수가 소실된 7예를 보고하면서 Meigs씨 증후군이라 하게 되었고 처음으로 그 중요성이 강조되었다.¹

Meigs씨 증후군의 임상적 중요성은 복수와 흉수를 동반한 난소의 종양이 반드시 악성 종양은 아니라는 데 의의가 있다.² Meigs씨 증후군이 발생하는 흔한 난소종양으로는 섬유종, 섬유낭포막종이 있으며, 섬유종을 제외한 다른 난소종양에서도 흉수와 복수를 동반하는 경우가 있는데 이를 Pseudo-Meigs씨 증후군이라고 한다. 그 예로써 과립막세포종양, 브레너종양, 경화성 기질종양, 평활근종 등이 있다.^{1,3-5}

난소섬유종은 모든 난소종양의 2~5%를 차지하는데 그 중 10~15%만이 복수를 동반하고 1%에서 복수와 흉수를 동시에 동반하게 된다.^{6,7} 이 중 CA 125의 상승을 동반하는 경우는 더욱 드물며 문헌에서 27예가 보고된 바 있다.¹ 국내의 경우 1968년 오중건 등이 단순 전자궁적출술과 양측 자궁부속기절제술을 시행한 후 복수 및 흉수가 소실된 Meigs씨 증후군의 1예를 발표한 후 30예의 Meigs씨 증후군이 보고되었다.⁸

Meigs씨 증후군의 호발 연령은 주로 40세 이상의 폐경기 여성이나 어느 연령에서도 발생할 수 있다. 난소의 종양은 대개 일측성이며 흉수와 복수는 삼출액보다는 주로 여

출액으로 세포학적 검사 및 배양검사에서 악성 세포나 특정 균이 발견되지 않는다.⁹ 동반되는 증상으로는 복부팽창, 동통, 호흡곤란, 하지부종, 전신쇠약, 체중감소 등을 들 수 있으며, 임상양상이 전이성 골반내 선암과 유사할 수 있다.¹⁰ Meigs씨 증후군의 진단은 수술 전 임상적 자료, 초음파, CT, MRI 및 종양표지자를 참고로 하여 도움을 얻을 수 있으나, 확진은 수술 후 난소종양의 조직학적 진단을 통해 악성 여부를 확인하고 복수 및 흉수의 소실 여부를 관찰함으로써 가능하다. 치료는 자궁부속기를 절제하는 것으로 충분하며 수술 후 예후는 양호하다.

Meigs씨 증후군에서 복수와 흉수가 발생하는 기전은 아직 명확하게 밝혀지지 않았다. Meigs는 부종이 있는 섬유종에서 기원한 복수가 흉강 내로 새어나가 이차성으로 흉수가 발생한다고 제안한 바가 있다. 다른 가설로는 종양으로 인해 골반강 및 복강 내의 임파선에 압력이 가해짐으로써 임파선의 흐름을 막아 복강 내에 삼출액이 축적된다는 의견이 있다.² 최근에는 vascular endothelial growth factor (VEGF)가 염증성 질환이나 악성 종양에서의 복수 및 흉수의 생성과 연관이 있다는 보고가 있었는데 Osamu Ishiko 등은 Meigs씨 증후군에서 혈청, 복수, 흉수 내에서의 VEGF 상승이 종양에 의한 VEGF 생성에 기인한다고 주

장한 바 있으며¹¹ Yoram Abramov 등은 VEGF와 fibroblast growth factor와 같은 vasoactive factor와 염증성 cytokine (interleukin-6)가 Meigs씨 증후군의 병태생리와 연관이 있다고 하였다.^{12,13}

혈청 CA 125의 상승은 난소종양에 의해서라기보다는 복막의 반응에 의한 것이 원인일 가능성이 있다.³ Lin 등은 Meigs씨 증후군 환자들에서 혈청 CA 125의 상승이 섬유종이 아닌 중피세포에서 기원한 것이라고 제시한 바가 있다.¹⁴ 혈청 CA 125는 난소의 악성 종양뿐만 아니라 양성 종양 (낭선종, 점액성 낭선종, 섬유종, 난포막종, 섬유난포막종, 난소갑상선종, 선섬유종, 브레너종양), 기타 다른 부인과적 질환 (골반염, 자궁내막증), 비부인과적 질환 (췌장, 간, 유방, 대장, 폐), 췌장염, 복막염, 신부전, 간경화 등에서 모두 상승될 수 있는데 문헌에 따르면 흉수와 복수에서도 CA 125가 상승되었다는 보고가 있다.^{2,15-17} 따라서 혈청 CA 125의 상승이 반드시 악성 난소종양을 암시하는 것이 아님을 주의해야 한다.

흉수와 복수를 동반한 난소의 종양이 있는 폐경기 여성에서 혈청 CA 125가 상승되어 있을 때 난소의 악성 종양을 먼저 의심할 수 있으나, Meigs씨 증후군 역시 진단적 가능성이 있음을 반드시 염두에 두어야 하겠다.

참고문헌

- Morán-Mendoza A, Alvarado-Luna G, Calderillo-Ruiz G, Serrano-Olvera A, López-Graniel CM, Gallardo-Rincón D. Elevated CA125 level associated with Meigs' syndrome: case report and review of the literature. *Int J Gynecol Cancer*. 2006; 16 Suppl 1: 315-8.
- Meigs JV, Armstrong SH, Hamilton HH. A further contribution to the syndrome of fibroma of the ovary with fluid in the abdomen and chest; Meigs' syndrome. *Am J Obstet Gynecol* 1943; 46: 19-37.
- Takemori M, Nishimura R, Hasegawa K. Ovarian thecoma with ascites and high serum levels of CA125. *Arch Gynecol Obstet* 2000; 264: 42-4.
- Jung NH, Kim T, Kim HJ, Lee KW, Lee NW, Lee ES. Ovarian sclerosing stromal tumor presenting as Meigs' syndrome with elevated CA-125. *J Obstet Gynaecol Res* 2006; 32: 619-22.
- Kurai M, Shiozawa T, Noguchi H, Konishi I. Leiomyoma of the ovary presenting with Meigs' syndrome. *J Obstet Gynaecol Res* 2005; 31: 257-62.
- Abad A, Cazorla E, Ruiz F, Aznar I, Asins E, Llixiona J. Meigs' syndrome with elevated CA125; case report and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1999; 82: 97-9.
- Chan CY, Chan SM, Liauw L. A large abdominal mass in a young girl. *Br J Radiol* 2000; 73: 913-4.
- 오종건, 임중배, 유지선, 박용진. Meigs' syndrome 1예. *대한산부회지* 1968; 11: 529-33.
- 박철민, 김성엽. 현저한 혈중 CA125 증가를 보인 Meigs씨 증후군 1예. *대한산부회지* 2006; 49: 1125-30.
- 김기현, 이미숙, 신경재, 이용섭. 혈중 CA125 농도가 증가된 Meigs씨 증후군 1예. *대한산부회지* 2006; 49: 1359-63.
- Ishiko O, Yoshida H, Sumi T, Hirai K, Ogita S. Vascular endothelial growth factor levels in pleural and peritoneal fluid in Meigs' syndrome. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2001; 98: 129-30.
- Abramov Y, Anteby SO, Fasouliotis SJ, Barak V. Markedly elevated levels of vascular endothelial growth factor, fibroblast growth factor, and interleukin 6 in Meigs syndrome. *Am J Obstet Gynecol* 2001; 184: 354-5.
- Abramov Y, Anteby SO, Fasouliotis SJ, Barak V. The role of inflammatory cytokines in Meigs' syndrome. *Obstet Gynecol* 2002; 99(5 Pt 2): 917-9.

14. Lin JY, Angel C, Sichel JZ. Meigs' syndrome with elevated serum CA 125. *Obstet Gynecol* 1992; 80(3 Pt 2): 563-6.
15. Angeles RM, Salem FL, Sirota RL. A right ovarian mass in a 71-year-old woman with ascites and elevated CA125 level. *Fibrothecoma of the right ovary. Arch Pathol Lab Med* 2005; 129: 701-2.
16. Zakrzewska I, Borawska R, Poznanski J, Mackowiak B. Significance of some tumor markers in differential diagnosis of ovarian tumor. *Rocz Akad Med Bialymst* 1999; 44: 235-43.
17. Buamah PK, Skillen AW. Serum CA 125 concentrations in patients with benign ovarian tumours. *J Surg Oncol* 1994; 56: 71-4.

= 국문초록 =

Meigs씨 증후군은 흉수 및 복수를 동반하는 양성 난소종양으로 정의되는 질환으로, 1937년 Meigs와 Cass가 난소섬유종이 흉수와 복수를 동반한 7예를 보고하면서 난소종양을 제거한 후 복수와 흉수가 소실되는 것을 Meigs씨 증후군이라 하였다. Meigs씨 증후군에서 혈청 CA 125의 상승이 동반되는 경우가 있는데 세계적으로 드물게 보고되고 있다. 저자들은 흉수와 복수를 동반하고 혈청 CA 125가 상승된 난소의 섬유난포막종 (fibrothecoma)에서 섬유난포막종을 제거한 후 흉수와 복수가 소실되고 CA 125가 감소한 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

중심단어: Meigs씨 증후군, CA 125, 난소, 섬유난포막종
