

대장암과 동시 발견된 충수돌기 점액성 낭선종 1예

지방공사 강남병원 내과, ¹일반외과, ²해부병리과

양상석 · 임선희 · 송찬호 · 신동혁 · 이지연 · 한윤주
임병철 · 김나영 · 이계희 · 양대현¹ · 최신은²

A Case of Appendiceal Mucocele with Concomitant Colon Cancer

Sang Seok Yang, M.D., Seon Hee Lim, M.D., Chan Ho Song, M.D.
Dong Hyuk Sheen, M.D., Jee Youn Lee, M.D., Yoon Ju Han, M.D.
Byeong Cheol Lim, M.D., Nayoung Kim, M.D., Kyeheui Lee, M.D.
Dae Hyeon Yang, M.D.¹ and Shin Eun Choi, M.D.²

Departments of Internal Medicine, ¹General Surgery and ²Anatomical Pathology
Kangnam General Hospital, Public Corporation, Seoul, Korea

The appendiceal mucocele is a rare disorder, usually found incidentally during ultrasonography or radiologic studies. Mucoceles of the appendix include benign or malignant disease. Both of benign cystadenoma and malignant cystadenocarcinoma are characterized by an obstructed, mucin-filled appendix displacing the cecum. We experienced a case of partial obstruction of large bowel who had a cystadenoma at appendix and a colon cancer at other site on operation field. Here in, we report a case of appendiceal mucocele and concomitant colon cancer with the review of literatures. (JKSCP 2000;16:346-350)

Key Words: Appendix, Mucocele, Cystadenoma, Colon cancer
충수돌기, 점액낭, 낭선종, 대장암

서 론

충수돌기에 있는 점액낭은 충수돌기 절제시 0.2~0.3%의 빈도로 발견되는 드문 질환이다.¹ 충수돌기 점액낭은 충수돌기 내강의 폐색으로 인해 점액이 쌓여 생기는데 그 원인 병변으로 과형성, 선종성 또는 선암성 상피가 존재할 수 있다. 저자들은 최근 대장의 폐색 소견을 보인 환자에서 수술 소견상 충수돌기 점액낭 및 상행결장 선암이 동시에 발견된 증례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

91세 남자 환자가 내원 1주일 전부터 식사를 못하고 만성적인 기침과 가래가 점차 심해져 내원하였다. 입원 시 오심, 구토, 변비, 설사 등은 없었고, 체중 변화는 확실치 않았다. 과거력과 가족력상 특이 사항은 없었다. 신체 검사에서 결막이 창백하였고 흉부는 청진상 이상 소견은 없었으며, 복부는 팽만하지 않았고 부드러웠으며, 압통이나 반발통은 없었고, 종괴도 만져지지 않았다. 그밖에 특이 소견은 없었다.

검사 소견상 혈액검사에서 백혈구는 정상 수치였고, 혈소판은 약간 증가하였고, 혈색소 5.2 g/dl (기준치; 13~17), 혈청철 56 µg/dl (기준치; 50~170), 철결합능 344 µg/dl (기준치; 280~400), 저장철 3.01 ng/

책임저자 : 양상석, 서울시 강남구 삼성동 171-1
지방공사 강남병원 내과의국(우편번호: 135-090)
(Tel: 3430-0476, Fax: 552-9012)

ml (기준치; 20~400), 망상적혈구 2.5% (기준치; 0.5~2.0), 말초혈액 도말에서 철 결핍성 빈혈, 출혈 등이 의심되었고, 그밖에 간기능, 신기능, 소변 등은 정상 소견이었다. 임상적으로 하부 기도 감염을 의심하여 항생제를 투여하였고, 입원 4일째부터 점액성의 묽은 변을 보면서 점차 심해져 시행한 직장경에서, 항문으로부터 30 cm 부위에 한 개의 용종과 60 cm 주변에 많은 황색 평판들이 흩어져 있었고, 조직검사상 각각 용모-관형 선종, 위막성 결장염이 나왔다. 입원 6일째 우하복부 통증, 압통, 종괴 축진이 있어 촬영한 단순 복부 방사선사진상 우하복부에 연부조직 음영과 기

계성 장 폐색 소견이 있었다. 복부 초음파에서 $8.9 \times 8.6 \times 7.2$ cm의 종괴가 보였고, 복부 컴퓨터단층촬영에서 맹장 부위에 8×6 cm의 낭종성의 둥근 종괴가 관찰되었는데 장의 내강과 분리되어 있지는 않고, 주위 임파절 비대도 관찰되지 않았다(Fig. 1). 따라서 낭성 종괴에 의한 장 부분폐색에 대해 수술을 권유했으나 보호자들이 노령의 이유로 거부하여 금식과 정맥 영양요법을 실시하였다. 종괴에 대해서는 배액술을 고려했으나 낭성 선암일 경우 주위로 퍼질 가능성이 있어 관찰하던 중 구토, 복부 팽만이 더 심해져 수술을 시행하였다. 수술 소견은 충수돌기에 점액이 가득한 9×9 cm 크기의 낭종이 상행결장과 붙어 있었고, 여기서 5 cm 떨어진 원위부 상행결장에 6

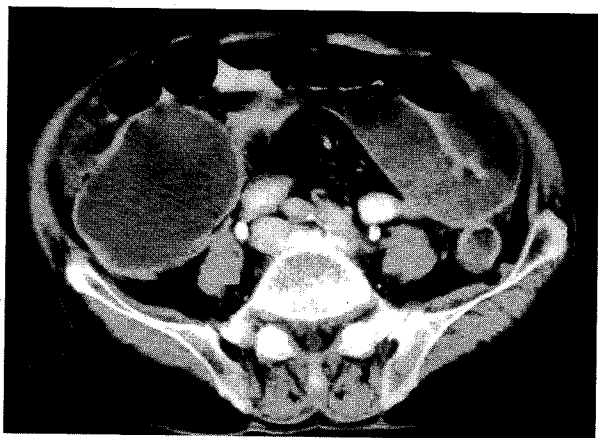


Fig. 1. A 8×6 cm sized, round, low attenuated mass has the enhancement of thin thin rim without the enhancement of solid portion at the low pole level of right level of right kidney. The dilated small bowel is also noted.

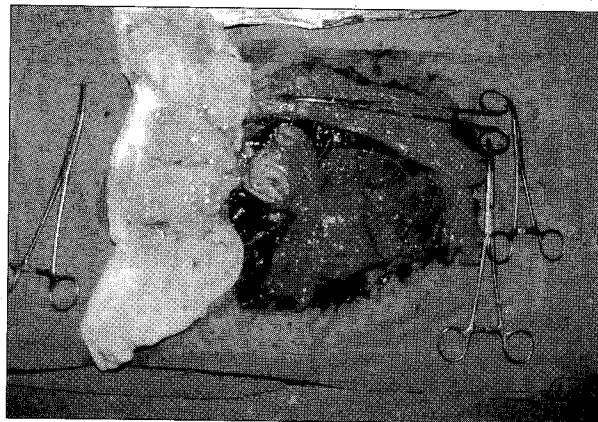


Fig. 2. A 9×9 cm sized, opened appendiceal cyst includes yellow mucin. A 6×6 cm sized, ulcerative mass is noted at the 5 cm apart from the cyst.

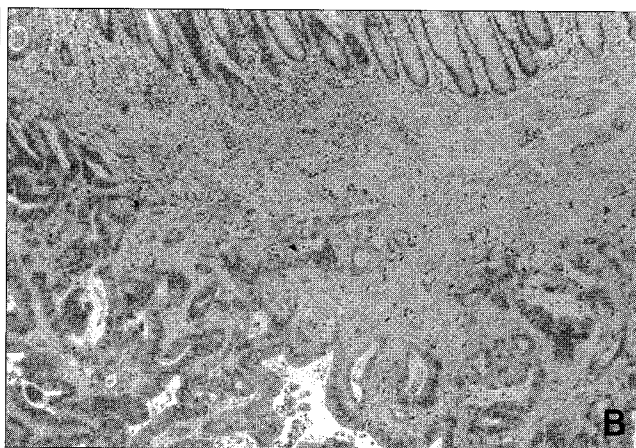
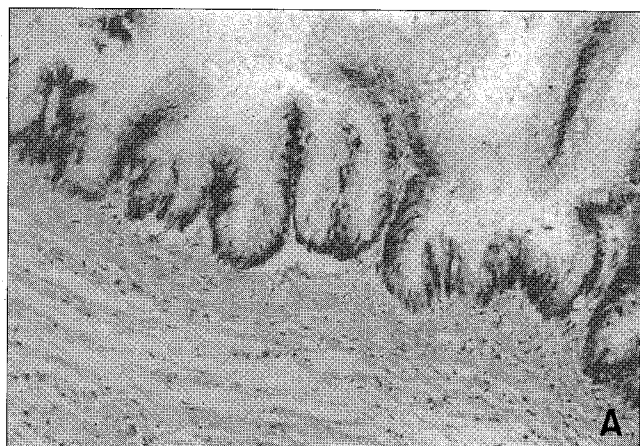


Fig. 3. A. The inner surface of the appendiceal cystic mass is lined by adenomatous mucinous epithelium with focal papillary configuration (H&E stain, $\times 200$). B. The right colonic mass shows well to moderately differentiated adenocarcinoma infiltrating into the proper muscle layer (H&E stain, $\times 100$).

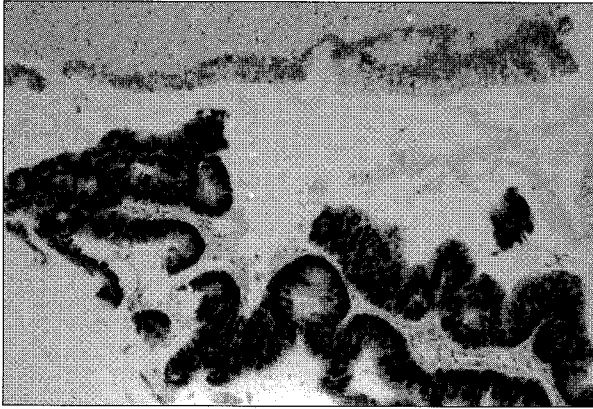


Fig. 4. The appendiceal adenomatous epithelium shows strong positivity in p53 stain.

×6 cm의 궤양성 종괴가 새로 발견되었는데, 이 종괴는 장 내공을 거의 막고 있었으며(Fig. 2) 장막 침범과 임파관 전이가 의심되었다. 병리조직조건상 충수돌기에서는 점액성 낭선종이, 상행결장에서는 분화성 선암종이 관찰되었다(Fig. 3). Dukes 분류법상 C단계였고, TNM분류법상 IIIa 단계였다. 이 조직들을 가지고 p53 단백질에 대한 면역조직화학적 검사에서 낭선종과 선암종 모두 양성반응을 보였다(Fig. 4). 환자는 수술 후 보존적 요법을 받고 퇴원하였다.

고 찰

충수돌기 점막의 염증성 또는 종양성 증식에 의해 충수돌기 내부에 점액성 물질이 축적되어 생기는 점액낭은 드문 병변으로, 가장 흔한 증상은 우하복부에 통증과 종괴의 촉지로 알려져 있다.¹ 복부 초음파와 컴퓨터단층촬영이 수술 전 진단에 유용한데 초음파에서는 다양한 상피증식을 동반한 저에코성 낭성 병변을 보여주며^{2,5} 컴퓨터단층촬영에서는 그 벽에 석회화 돌레를 가진 피막이 잘 발달된 낭성 종괴를 보여준다.^{6,7} 점액낭은 조직학적으로 저류낭종(retention cyst), 점막 과형성(mucosal hyperplasia), 낭선종, 그리고 낭선암 등의 다양한 소견을 보여주는 이질적인 병변으로 이러한 조직학적 분류가 병의 경과 및 예후에 중요한 관건이 된다.¹⁸ 그 중에서 낭선종이 가장 흔하고, 이 경우 충수돌기 절제로 치료될 수 있다.

충수돌기 점액낭과 대장의 악성 종양과의 관계는 이미 보고된 바 있는데^{8,9} 일본에서 대장암과 동반된 충수돌기 점액낭 2예를 보고했다.¹⁰ 1예는 우하복부 종괴를 주소로 내원한 63세 남자 환자로 방사선학적

검사에서 충수돌기 점액낭이 관찰되었고 술전 대장경 검사에서 회맹관 주위의 정상 맹장점막이 돌출된 것 외에 S자 결장에 용종이 있었고, 이는 조직검사에서 국소적 악성변화를 보이는 관상 선종으로 나타났다. 다른 1예는 역시 우하복부 종괴를 주소로 내원한 69세 여자 환자로 역시 컴퓨터단층촬영상 충수돌기 낭선종이 관찰되었고 술전 대장경에서 맹장 부위에 돌출된 종괴 이외에 우측 횡행결장에 대장암이 관찰되었던 예였다. 또한 Kulaylat등¹¹도 충수돌기 점액낭과 함께 맹장에 국소적 선암을 가진 선종을 관찰했다고 하였다. 본 증례도 충수돌기의 낭선종과 함께 상행결장에서 선암이 발견된 예로 우리나라에서도 충수돌기 점액낭과 대장의 악성종양이 동시 존재한 드문 증례이다.

대장 선종은 종종 생화학적, 유전학적 변화가 선암에서 보여지는 것과 유사하기 때문에 대부분의 대장암의 전암성 병변으로 받아들여지고 있다. 대장암은 정상 상피 세포에서부터 유전자 변이의 연쇄적 축적에 의한 것으로 추정된다.^{12,13} 그 중의 한 과정으로 생각되는 p53 종양억제 유전자의 비활성 변이는 여러 가지 종양에서 많이 관찰되는 유전적 변화로¹⁴ 대장암에서 흔히 보이며¹⁵ 면역조직화학적 검사로 알 수 있다.^{16,17} 일본의 두 증례에서 선암과 낭선종의 조직 표본에 p53 면역조직화학적 염색을 시행하였는데 두 증례 모두에서 선암에서는 양성소견을, 낭선종에서는 음성소견을 보였다. 이러한 결과로 그들은 선종과 동격으로 생각되는 충수돌기의 점액성 낭선종이 대장암의 암화 과정의 중간단계(intermediate step)일 것이라고 추측하였다. 즉 p53 종양억제 유전자의 비활성 변이는 대장암의 암화 과정 후기에 관여하리라는 견해와 일치되는 결과를 보였던 것이다. 저자들은 이를 확인하고자 선암과 낭선종의 조직 표본에 p53 면역조직화학적 염색을 시행하였다. 그 결과 본 증례에서는 선암 및 낭선종 모두에서 양성 소견을 보였는데 이러한 결과는 선암에서는 양성, 낭선종에서는 음성 소견을 보인 일본의 보고와는 다른 결과이다. Sinnicrope등¹⁸은 대장 선종 및 대장암의 p53 면역조직화학적 염색에서 각각 37% 및 48%의 양성 소견을 보였는데, 대장 선종의 37%의 양성률은 현재까지의 다른 보고보다 높은 수치이며 대장암이 동시에 존재할 때 더욱 높아진다고 주장하였다. 본 증례의 충수돌기 낭선종에서의 p53 양성 결과는 대장암과 동시 존재하는 선종에서 p53 종양억제 유전자의 비활성 변이가 더 높게 나타난다는 Sinnicrope 등의 보고와

일치하는 소견이다. 즉 충수돌기 낭선종의 p53의 비활성 변이의 존재는 대장내의 다른 부위에서 선암이 생겨 있을 가능성이 높다는 것을 시사한다고 할 수 있다. 한편 Carr⁸도 충수돌기의 비유암성 종양을 가진 환자에 있어서 동시성 대장암의 빈도가 높다고 언급한 바 있다.

충수돌기의 점액성 낭선종은 단순히 충수돌기 절제술만으로 제거가 가능하지만 치료 이전에 충수돌기 낭선종이 있을 때 장내에 동시성 혹은 이시성 암의 빈도가 높다는 것을 염두에 두어야겠다. 따라서 종양과 관계된 점액낭이 발견될 경우 대장 전체를 면밀히 검사하여 동시에 존재할 수 있는 대장암을 조기 발견하고 치료하는 것이 중요하리라 생각한다. 본 증례의 경우 환자의 임상 상태가 중하여 대장 내시경을 시행하지 못하고 곧바로 수술로 들어갔으나 이런 경우 수술 후에라도 대장 내시경 등으로 추적 관찰이 필요하리라 생각된다. 이에 저자들은 대장암을 동반한 충수돌기 점액낭 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Landen S, Bertrand C, Madden GJ, et al. Appendiceal mucoceles and pseudomyxoma peritonei. *Surg Eynecol Obstet* 1992;175:401-4.
2. Parulekar SG. Ultrasonographic finding in disease of the appendix. *J Ultrasound Med* 1983;2:59-64.
3. Samdler MA, Pearberg JL, Madrazo BL. Ultrasonic and computed tomographic features of mucocele of the appendix. *J Ultrasound Med* 1984;3:97-9.
4. Yen H, Shafir MK, Slater G, et al. Ultrasonography and computed tomography in pseudomyxoma peritonei. *Radiology* 1984;153:507-10.
5. Macek D, Jafri SZ, Madrazo BL. Cases of the day. *Radiographics* 1992;12:1247-9.
6. Horgan GL, Chow PP, Richter JO, Roosenfield AT, Taylor KW. CT and sonography in the recognition of mucocele of the appendix. *Am J Roentgenol* 1984;143:959-62.
7. Dachman AH, Lichtenstein JE, Friedman AG. Mucocele of the appendix and pseudomyxoma peritonei. *Am J Roentgenol* 1985;144:923-9.
8. Carr NJ, Path MR, McCarthy WF, Sobin LH. Epithelial noncarcinoid tumors and tumor-like lesions of the appendix. *Cancer* 1995;75:757-68.
9. Wolff M, Ahmed N. Epithelial neoplasm of the vermiform appendix (exclusive of carcinoid). *Cancer* 1976;37:2511-22.
10. Fujiwara T, Hizuta A, Iwagaki H, et al. Appendiceal mucocele with concomitant colonic cancer: report of two cases. *Dis Colon Rec* 1996;39:232-6.
11. Kulaylat MN, Doerr RJ, Satchidand S. Mucocele of appendix and colorectal neoplasms. *Dis Colon Rec* 1998;41:118-9.
12. Fearon E, Vogelstein B. A genetic model for colorectal tumorigenesis. *Cell* 1990;61:759-67.
13. Vogelstein B, Fearon ER, Hamilton SR, et al. Genetic alterations during colorectal development. *N Engl J med* 1988;319:525-32.
14. Hollstein M, Sidransky D, Vogelstein B, Harris CC. P53 mutations in human cancers. *Science* 1991;253:49-53.
15. Hamelin R, Laurent-Puig P, Olschwang S, et al. Association of P53 mutations with short survival in colorectal cancer. *Gastroenterology* 1994;106:42-8.
16. Campo E, de la Calle-Martin O, Miquel R, et al. Loss of heterozygosity of p53 gene and p53 protein expression in human colorectal carcinomas. *Cancer Res* 1991;51:4436-42.
17. Darmon E, Cleary KR, Wargovich MJ. Immunohistochemical analysis of p53 overexpression in human colonic tumors. *Cancer Detect Prev* 1994;18:187-95.
18. Sinnicrope FA, Ruan SB, Cleary KR, Steegebs C, Lee JJ, Levin B. Bcl-2 and p53 oncoprotein expression during colorectal tumorigenesis. *Cancer Res* 1994;55:237-41.

= 편집인의 글 =

충수의 점액성낭선종(mucinous cystadenoma)은 충수절제술만으로도 치료가 가능하나 충수점액낭을 가진 환자는 소화관에 동시성 혹은 이시성 악성종양이 빈발하기 때문에 수술 전에 충분히 검사할 필요가 있다. 대장선암은 어느 특정 부분의 유전적변이가 연속적으로 누적되어 발생한다고 알려져 현재는 선종-암종 순서의 기전이 지지받고 있다. 따라서 충수점액낭을 일으키는 점막증식과 낭선종은 대장의 과형성용종(hyperplastic polyp)이나 선종과 유사하다고 여겨지기 때문에 대장직장문 어디엔가에 선종이 공존해 있을 수 있으며 이 부분은 악성으로 이행될 수 있다. 알려진 바와 같이 대장직장암의 발암과정은 진행되며 p53 단백질이 과표현되어 대장암 조직표본에서 p53 면역염색이 양성으로 반응하며 절제된 충수돌기의 점액낭 조직표본에서도 발암과정에 진입했다면 p53의 양성염색이 예상된다고 한다. 대장암 조직표본에서 p53변이는 대장직장 발암과정의 후기에 발생하는 것으로 생각되었으나 최근 악성 전구단계인 선종에서도 p53변이가 일어나기도 한다고 알려져, p53변이로 보이는 낭선종을 발견하는 데는 더 많은 연구가 필요하다고 하였는데 저자들은 발암과정의 초기에 p53변이 발생을 보고하였다. 점액종의 원인이 되는 증식성 충수종양이 있으면 대장직장의 선종과 선암이 공존할 가능성이 높아져 원발성 산발성 대장암의 발생 빈도보다 6배까지 높아 11~23.8%에 이른다고 한다. 대장암의 대부분은 동시성이고 직장암보다 대장암이 많이 발생하며 이시성 대장암은 4~11년 후에 발생한다. 따라서 충수에 점액성 종양이 진단되면 대장 전체를 내시경으로 검사하는 것은 대단히 중요하며 반드시 추시도 하여야 한다. 대장내시경시 충수의 증식성 변화가 맹장과 퇴장 발단부에 확대되어 유사한 변화가 공존하는지 관찰하는 것이 중요하며 충수의 점액성낭선종은 정상 점막과 악성 사이의 중간과정이라는 인식이 필요하다. 요약하면 신생물과 관련된 충수점액낭이 발견될 때는 대장내시경으로 대장을 충분히 검사함으로써 충수점액낭을 가진 환자에서 공존할 수 있는 대장악성종양을 조기에 진단하고 치료할 수 있다는 것이다.

가톨릭대학교 의과대학 외과 유 승 진