

부신에 발생한 상피성낭종*

--1 예 보고--

가톨릭대학 의학부 임상병리학교실

강창석·김병기·심상인·김선무

= Abstract =

Epithelial Retention Cyst of the Adrenal Gland

—Report of a case—

Chang Suck Kang, M.D., Byung Kee Kim, M.D., Sang In Shim, M.D. and Sun Moo Kim, M.D.

Department of Clinical Pathology, Catholic Medical College, Seoul, Korea

Because adrenal cysts are rare condition, they are often misinterpreted and misdiagnosed. Here we report one case of epithelial retention cyst of the adrenal gland. This 63-year-old male patient was admitted due to abdominal distension and retroperitoneal huge cystic mass for 2 months.

Gross examination revealed a huge unilocular cyst, measuring 18×16×12 cm in dimension. Within the wall, compressed adrenal gland was noted. Histologically, fibrous wall surrounded the adrenal parenchyme and cuboidal to low columnar cells lined the inner surface of the cyst. On the basis of these findings, a diagnosis of adrenal cyst, epithelial retention cyst, was made.

We reviewed literature of the adrenal cyst and discussed on the incidence, classification, pathogenesis, and pathologic findings.

서 론

부신에 발생하는 낭종은 대단히 희귀하여, 1670년에 Greiselius가 부신낭종의 파열로 사망한 부검례를 보고한 이래로 최근까지 약 250예가 보고되었다¹⁾.

부신낭종은 임상 증상이 분명치 않을 뿐더러 일정하지도 않아 수술전 진단은 어렵다.

Abeshouse²⁾들은 부신낭종의 방사선학적 진단을 정리 보고하였으며, Kearne³⁾들에 의해 부신의 기능성 낭종에 대한 생화학적 연구가 이루어졌고, Scheible⁴⁾들에 의해 부신낭종의 경피 흡인술에 의한 세포학적

검색이 이루어졌다. 1978년에 Gross⁵⁾들에 의해 부신 스캔에 의한 낭종의 증명이 이루어져, 최근에는 CT 스캔에 의해 거의 완벽한 진단을 내리기에 이르렀다.

한편 Terrier와 Lecène⁶⁾가 부신낭종을 기생충성 낭종(parasitic cyst), 진선낭종(true glandular cyst), 낭성선종(cystic adenoma), 장액성 또는 림파관성 낭종(serous or lymphatic cyst), 또는 위낭종(pseudo-cyst)으로 분류한 이래로, 여러 저자들이 부신낭종의 분류와 병인론을 발표하였다. 1979년에 Mnaymney⁷⁾들은 부신낭종의 분류, 각 분류간의 감별 진단 그리고 병인론에 대하여 좀더 명확한 발표를 하였다.

국내에서는 염상균⁸⁾, 황규철⁹⁾등, 그리고 이경식, 지계근¹⁰⁾들에 의해 각각 1예씩의 부신낭종이 보고되었다.

접 수: 1982년 12월 7일

* 본 논문은 가톨릭중앙의료원 학술연구조성비로 이루어졌음.

저자들은 가톨릭의대 부속 성모병원에서 부신의 상피성 낭종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

본 증례는 63세된 남자 환자로 2개월전부터 복부 팽만과 함께 후복막 종괴가 만져져 내원하였다. 진찰 소견상 후복막의 거대한 낭성 종괴에 파동이 촉진되었다. 이학적 소견에는 특이한 소견이 없었다. 복부 단순 X선촬영에는 비교적 경계가 불명확한 종물의 음영을 우복부에서 볼 수 있었고, 상부 위장관 촬영에서 위와 십이지장에 기질적 변화없이 종물의 압박에 의하여 위장관이 좌하방으로 변위되었다. 간이 비대된 것처럼 보였고, 대장도 좌하방으로 변위되었다. 임상적으로, 간낭종과 췌장 위낭종을 의심하고 개복수술을 하여 후복막의 낭종을 제거하였다. 수술후 환자는 1달 후에 완쾌되어 퇴원하였다.

병리학적 소견

육안적 소견 : 크기가 18×16×12 cm 인 단방성 낭성 조직으로 외면은 회백색으로 윤활하고 광택이 있었다. 황색의 결절이 외면에서 촉진되었고, 얇은 섬유막이 결절을 싸고 있었다. 낭종내면은 회백색으로 윤활하고, 여러곳에서 주름이 잡혔지만 석회 침착이나 출혈은 관찰되지 않았다. 낭벽에 있는 결절은 3.0×1.5×1.0 cm 크기로 부신 특유의 황갈색 단면을 보였고, 낭벽의 두께는 0.2 mm~0.5 mm 였다(Fig. 1).

현미경적 소견 : 낭벽의 여러부분에서 채취한 조직절편들은 대부분 비슷한 소견을 보였다. 낭벽을 이루고 있는 섬유 조직속에서 밝고 과립성 세포질을 가진 부신피질 세포가 관찰되었다(Fig. 2). 또한 상피세포로 이루어진 소낭포(microcyst)가 섬유조직안에서 관찰되었고(Fig. 3) 낭벽의 내면은 부분적으로 입방 상피세포로 피복되었다. 상피세포가 없는 부분은 단순히 섬유조직으로 낭벽이 이루어졌고, 만성 염증 세포들이 주로 낭벽의 외부에서 관찰되었다(Fig. 4).

고 찰

부신에 발생하는 낭종은 대단히 희귀하며, 외국의 보고에는 대개 부검예가 더 많으나, 국내에서 이미 보고된 것은 모두 수술 2예로 1예는 위낭종이었고, 1예는 임파관종성 낭종이었다.

저자들의 예는 상피성 부성 부신피질낭종 선 정체낭종(glandular retention cyst)이었으며, 이와 관련하여 일반적인 부신피질낭종의 분류, 빈도 그리고 병인론에 관하여 고찰하고자 한다.

1) 분 류

Terrier 와 Lecène⁶⁾가 기생충성 낭종, 진선낭종, 낭성선종, 장액성 또는 임파관성 낭종 그리고 위낭종으로 분류하였다.

Hodges¹¹⁾들은 진낭종과 위낭종으로 분류하여, 진낭종에는 선낭종, 임파관종 그리고 혈관종을 포함시키고 위낭종에는 출혈, 원발성 종양의 괴사와 낭성 변성(cytic degeneration) 그리고 기생충성 낭종을 포함시켰다.

근래 많은 저자들이 사용하는 분류는 Terrier 와 Lecène⁶⁾에 의한 분류를 Abeshouse²⁾등 및 Barron 과 Emanuel¹²⁾이 수정한 것으로 다음과 같다.

- (1) 기생충성 낭종(parasitic cyst)
- (2) 상피성 낭종(epithelial cyst)
 - ① 배아성 낭종(embryonal cyst)
 - ② 부신 선종에서 생긴 낭종(cyst forming in adrenal adenoma)
 - ③ 선정체낭종(glandular retention cyst)
- (3) 내피성 낭종(endothelial cyst)
 - ① 임파관종성 낭종(lymphangiomatous cyst)
 - ② 혈관종성 낭종(hemangiomatous cyst)
- (4) 위낭종(pseudocyst)

2) 빈 도

Greiselius 에 의한 첫 보고 이후, 1959년 Abeshouse²⁾들이 부검 88예와 수술 67예, 도합 155예를 집계하였다. 이에 의하면 부신피질낭종은 출생시부터 76세까지 발견되었으나, 40~50대에 호발한다. 남녀의 비율은 1:3으로 여자에서 더 많이 발견되었다. 또한 부신피질 낭종은 일측성으로 오나 8%에서 양측성이었으며, 53%가 우측에 45%가 좌측에 생겼다.

각유형간의 빈도를 보면 내피성 낭종이 45%로 가장 많았으며 그 다음으로 위낭종이 39%, 상피성 낭종이 9%, 기생충성이 7%이었다.

3) 병 인 론

부신피질낭종을 4가지 유형으로 분류하는 때는 큰 이의가 없으나, 이들간의 감별점과 병인론에는 혼돈이 많다.

(1) 기생충성 낭종 : 가장 적은 유형이며, Abeshouse 등이 10예의 echinococcus 낭종을 보았으나, Miallerat의 수술예를 제외하고 모두 부검예였다³⁾.

대부분의 원인이 echinococcus이며, 두절(scolex)이나 층판성 초자질무세포 내낭종(lamellated hyaline acellular endocyst)을 확인하는 것이 진단에 필요하다²⁾. 이 낭종은 벽이 두껍고, 석회 침착이 있기도 하고, 벽속에 기생충이 있다^{1,2,7,12)}.

(2) 상피성 낭종 : 이것 역시 적은 유형으로 약 9%를 차지한다¹¹⁾. 이 낭종은 이름 그대로 상피외복이 특징이다. 조직학적으로 쉽게 판명되지만, 기원에 대해서는 의견이 다양하다. Foster¹³⁾는 선천성 선낭종(congenital glandular cyst)을 배아성 낭종과 선 정체 낭종으로 분류하였다. 병인론에 따라서 상피성 낭종은 배아성 낭종, 부신 선종에서 생긴 낭종 그리고 선 정체 낭종으로 분류된다²⁾.

① 배아성 낭종 : 대부분의 상피성 낭종은 원주 상피로 피복되었고, 비뇨 생식기 원기(urogenital anlage)로부터 변위된 부신에서 봉입(inclusion)이 낭성 변성하거나, 배아성 변형으로 생긴다고 생각된다²⁾. 그러나 그것은 가설적 가능성이며 아직 증명하기는 어렵다²⁾. 만일 낭종이 부신과는 다른 세포, 즉 심모상피로 피복되어 있으면 변위된 배아세포로 설명될 수 있다. 이런 예는 아주 드물고, 단지 1예만 보고되었다²⁾.

② 부신 선종에서 생긴 낭종 : 부신의 양성 종양이 2차적으로 낭성 변성하여 생긴다¹²⁾. 이 유형은 선종내의 출혈이나 괴사에 의한 위낭종과 구분되어야 한다²⁾. 드문 예이나 낭종이 주위의 선종의 상피 세포로 피복될 때 낭선종(cystadenoma)을 형성하나 이때는 상피성 낭종에 넣어야 한다²⁾.

③ 선정체낭종 : 부신피질은 선방(acinus)을 형성할 수 없다는 관점때문에, 인간에서의 선 정체낭종의 존재여부가 의문시되어 왔다. Foster¹³⁾가, 부신피질 세포에서 생산되는 호르몬은 직접 혈류로 분비되므로, 내강을 가진 선방이 생길 수 없다고 주장하였고, 지금까지 여러 저자들이 이에 동조하고 있다^{2,3,12)}.

Mnaymney⁷⁾들은 선 정체낭종 2예를 보고하면서 지금까지의 논문을 인용하여 부신피질에 소낭종이 생길 수 있음을 지적하였는데 첫째로, Rich¹⁴⁾는 감염으로 사망한 사람의 부신중 속상대에서 세포의 索狀이 관상구조로 전환된다고 기술하였다.

둘째로, 미숙아와 신생아의 50%이상에서 부신피질의 피막하 조직에서 낭종형성이 관찰되었다^{15,16)}. Oppenheimer¹⁶⁾는 이를 자궁내에서의 긴장에 대한 반응으

로 설명한 반면에, Rodin¹⁶⁾들은 부신피질의 정상 성장으로 생각하였다. 특히 Rodin¹⁶⁾들은 274예의 부검을 통하여 부신피질의 소낭종이 감염이나 긴장과는 상관관계가 없음을 밝혔다. 그러므로 선 정체 낭종은 정상 성장과정에서 생길 수 있다. Mnaymneh⁷⁾는 부신피질에서 선방 형성이 이루어지고 낭종이 형성하는 것을 밝혔다. 따라서 섬유성 낭벽과 주위의 부신조직에서 소낭종과 선방을 증명하는 것이 선 정체낭종을 증명하는 단서가 된다.

(3) 내피성 낭종 : 전기한 바와같이 내피성낭종은 가장 많은 유형이며 임파관종성 낭종과 혈관종성 낭종으로 나눈다. 임파관종성 낭종은 42%이며 혈관종성 낭종은 3%로 임파관종성 낭종이 훨씬 많다²⁾.

① 임파관종성 낭종 : 낭종성 임파관 확장증, struma mdullaris, 정체 낭종 그리고 수혈액낭종(hygrota)으로 불렸던 것들이 모두 여기에 포함된다^{2,13)}. 낭종성 임파관확장증은 부검에서 많이 발견된다. 이는 보통 그 크기가 직경 1 mm~5 mm이며, 직경 10 cm 이상의 것은 아주 드문 까닭에 종물의 촉지가 어렵고 임상 증상이 뚜렷하지 않아 생존시의 발견이 어려운 때문이 아닌가 생각된다¹⁰⁾. Rabson과 Zimmerman¹⁷⁾은 정상 부신피질과 외막에는 임파동이 존재하고 피질에는 없다고 하였다. 이 작은 임파동이 큰 임파관의 연결이 불완전하게 형성되는 경우 다방성 낭성 변화를 일으킨다¹⁷⁾.

한편 Barron과 Emanuel¹²⁾ 그리고 Gorden¹⁸⁾은 임파관확장증은 태생시의 분화과정의 장애 혹은 과오종내에서의 낭성 변화때문에 초래된다고 하였다. 이 낭종의 조직학적 특징은 편평한 내피세포의 피복이며 낭종 내부는 투명하거나 우유빛 액체로 차 있다²⁾. 특히 내피의 증식이 없기 때문에 림프아세포종(lymphoblastoma)과 감별진단이 가능하다. 낭벽에 지방 또는 혈철소(hemosiderin) 침착 거대세포가 관찰되고 초자질이 보여지나, 아밀로이드 침착은 1예에서만 보고되었다¹⁸⁾.

② 혈관종성 낭종 : 아주 드문 유형으로 Abeshouse²⁾에 의하면 4예만 보고되었다. 혈관종성 낭종은 간과 두개골의 혈관동과 잘 동반된다고 한다¹³⁾. 몇몇 저자^{2,13)}에 의하면 이낭종은 부신피질사이의 확장된 모세혈관과 동양구조(sinusoid)에서 생긴다하며 Probstin과 Blumenthal¹⁹⁾은 그들이 보고한 낭종이 부신의 선천성 기형으로 생긴 동맥류에서 생겼다고 하였다.

(4) 위 낭종

이 낭종은 두번째로 많으나 수술에서 발견되는 것으

로는 가장 많다(60%)¹³⁾. 부신의 정상적 또는 병적 혈관의 출혈로 위낭종이 발생한다. 출혈된 부위의 기질화(organization), 즉 액화, 흡수, 피낭화가 결국 하나의 낭종형성을 초래하는 것이다^{10,13)}.

최초의 출혈과정은 다음과 같은 병에서 올 수 있다. 급성외상, 화상, 심한 쇼크, 당뇨병의 중독, 요독증, 임신중독증, 독혈증, 부신정맥의 전색, 출혈성질환, 동맥경화증이나 동맥류가 동반된 경색, 매독, 백혈병, 부적합한 수혈등이다. 부신 종양으로써 출혈이나 괴사를 일으키는 것으로는 선종, 혈관종, 갈색세포종, 악성 혈관내피종이 있다. 위 낭종은 양성 또는 악성부신 종양내의 출혈로 생긴 것보다는 외상이나 심한 독소성 감염에 의한 것이 더 많다¹⁰⁾.

위낭종은 대개 크기가 크며 단방성 낭종으로 혈액상의 갈색액체가 차 있다. 피복세포는 없으며 두꺼운 섬유성 낭벽에 석회침착, 초자질, 아밀로이드 침착 또는 콜레스테롤 침착이 보인다.

부신피질 조직이 낭벽에 파묻혀 있고 낭벽의 두께는 1 mm~3 mm 로 대개 1 mm~5 mm 이다.

본 증례는, 낭벽의 내면중 일부가 단층 입방 상피세포로 피복되었기에, 일단 상피성 낭종으로 생각하였고, 낭벽을 이루는 섬유조직안에서 소낭포를 관찰할 수 있었으므로 선경계 낭종으로 진단하였다.

결 론

저자들은 복부팽만과 후복막 종괴를 주소로 한 63세 남자에서 부신의 선 경계 낭종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 아울러 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Incze IS, Lui PS, Merriam JC, Austen G, Widrich WC and Gerzof SG: *Morphology and Pathogenesis of Adrenal Cysts. Am J Pathol* 95:423, 1979
- 2) Abeshouse GA, Goldstein RB and Abeshouse BS: *Adrenal cysts: Review of the literature and report of three cases. J Urol* 81:771, 1959
- 3) Kearney GP, Mahoney EM, Maher E and Harrison JH: *Functioning and nonfunctioning cysts of the Adrenal Cortex and Medulla. Am J Surg* 134:363, 1977

- 4) Scheible W, Coel M, Siemers PT and Siegel H: *Percutaneous Aspiration of Adrenal Cysts. Am J Roent* 128:1013, 1977
- 5) Gross MD, Reitas JE and Silver TM: *Documentation of Adrenal Cyst by Adrenal Scanning Techniques. J Nucl Med.* 19:1092, 1978
- 6) Terrier F and Lecène P: *Adrenal cysts. Cited by Hodges FV, Ellis FR and Mich E; Arch Path* 66:53, 1958
- 7) Mnaymney LG, Slim Mand Muakassa K: *Adrenal Cysts: Pathogenesis and Histological identification with a report of 6 cases. J Urol* 122:87, 1979
- 8) 염상균: 부신피질 낭종의 1예. *대한병리학회지* 1:69, 1967
- 9) 황규철, 윤기호, 김진호: 부신낭종. *대한외과학회지* 9:231, 1967
- 10) 이경식, 지계근: 임파관종성 부신낭. *대한외과학회지* 10:181, 1968
- 11) Hodges FV, Ellis FR and Mich E: *Cystic Lesions of the Adrenal Glands. Arch Path* 66:53, 1958
- 12) Barron SH and Emanuel B: *Adrenal cyst. J Pediatrics* 59:592, 1961
- 13) Foster DG: *Adrenal cysts. Arch Surg* 92:131, 1966
- 14) Rich AR: *A peculiar type of adrenal cortical damage associated with acute infections and its possible relation to circulatory collapse. Bull Johns Hopkins Hosp* 74:1, 1944
- 15) Oppenheimer EH: *Cyst formation in the outer adrenal cortex. Arch Path* 87:653, 1969
- 16) Rodin AE, Hsu FL and Whorton EB: *Microcysts of the permanent adrenal cortex in perinates and infants. Arch Path* 26:869, 1938
- 17) Rabson SM and Zimmerman EF: *Cystic lymphangiectasia of the adrenal. Arch Path* 26:869, 1938
- 18) Gordon SK: *Cystic Hametoma of the adrenal gland. Boston Med Quart* 11:85, 1960
- 19) Prostein JC and Blumenthal HT: *Adrenal cyst with extensive intracystic hemorrhage. Arch Surg* 73:1026, 1956

Explanation of Figures

- Fig. 1.** Glandular retention cyst of the adrenal gland. Fibrous wall contains yellowish brown adrenal gland.
- Fig. 2.** Photomicrograph showing adrenal parenchyma within the fibrous wall and diffuse infiltration of chronic inflammatory cells.(H&E, $\times 40$)
- Fig. 3.** Photomicrograph showing microcyst formation in the fibrous wall.(H&E, $\times 100$)
- Fig. 4.** Photomicrograph showing cuboidal epithelial cells lining the inner surface of the cyst.(H & E, $\times 400$)