

직장과 S자 결장의 미란성 용종성 증식

- 2 중례보고 및 점막탈출증과의 관계에 대한 고안 -

연세대학교 의과대학 병리학교실

조남훈·안희정·박찬일

Eroded Polypoid Hyperplasia of the Rectosigmoid Colon

- Report of 2 cases with special reference to its relation to mucosal prolapse syndrome -

Nam Hoon Cho, M.D., Hee Jeong Ahn, M.D. and Chanil Park, M.D.

Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine

Polypoid prolapse of mucosal folds can occur at various sites and in various conditions predominantly associated with strain during defecation. There are two well known types of mucosal prolapse syndrome(MPS), the inflammatory cloacogenic polyp(ICP) and the mucosal redundant polyp associated with diverticular disease(MRPD). ICP is a mucosal prolapse of the anorectal junction and MRPD is a proximal analogue involving the sigmoid colon. We experienced two cases of eroded polypoid hyperplasia(EPH) of the rectosigmoid colon which manifested as a huge gyriform mass simulating the gross features of gastrointestinal lymphomas or other malignant tumors. The EPH consisted of confluent polypoid mucosal folds with rolled-up submucosa to form stalk. The polypoid lesion represented hyperplastic epithelium, erosion of the mucosal surface and congestive vascular ectasia of lamina propria and submucosa. To explain the whole morphologic features, the initial phenomenon should be the mucosal prolapse. Vascular stretching with ischemic erosion of the mucosal surface and compensatory epithelial hyperplasia ensue as the result. The ominous endoscopic and gross features of EPH should be kept in mind to avoid erroneous radical surgery. (Korean J Pathol 1994; 28: 297~301)

Key Words: Mucosal prolapse syndrome, Eroded polypoid hyperplasia, Mucosal redundant polyp, Inflammatory cloacogenic polyp, Rectosigmoid colon

서 론

S자 결장과 직장은 중력 방향으로 위치하고 있고 또한 배변시에 압력을 받는다. 그러므로 이 부위에는 점막이 하방으로 탈출되는 특수한 용종들이 발생할 수 있으며 이들은 모두 대장 다른 부위의 용종들과

접수: 1994년 1월 14일, 개재승인: 1994년 3월 24일

주소: 서울시 서대문구 신촌동 134, 우편번호 120-752,

연세대학교 의과대학 병리학교실, 박찬일

달리 배변과 밀접한 관계를 갖고 있다^{1~8)}. 점막탈출증(mucosal prolapse syndrome, MPS)이라고 불리는 이러한 용종에는 주로 직장과 항문의 연결부위(anorectal junction)에 발생하는 염증성 배설강 용종(inflammatory cloacogenic polyp, ICP)⁹⁾과 S자 결장에서 계실과 연관되어 발생하는 점막 과잉성 용종(mucosal redundant polyp associated with diverticular disease, MRPD)^{1,10~12)}이 포함되며, Burke와 Sabin¹³⁾이 최근에 기술한 미란성 용종성 증식(eroded polypoid hyperplasia, EPH)도 그 발생기전이 MPS와 같을 것으로 보인다.

저자들은 저알부민혈증 또는 직장의 완전탈출을 나타낸 환자의 S자 결장과 직장에서 EPH와 유사한 병변을 경험하였기에 그 용종의 특징을 기술하고, 아울러 EPH를 포함한 MPS의 실체 및 발생기전에 관하여 알아보고자 한다.

증례

증례 1.

임상소견: 환자는 34세 남자로서 2년간 좌하복부의 간헐적인 통증과 점액성 혈변을 주소로 내원하였다. 혈청검사상 저알부민혈증(총단백/알부민 : 3.7/2.3 g/dl)이 혼자하였다며, Widal 검사는 음성이었다. 대변에서 항산균 및 아메바를 비롯한 각종 세균검사는 모두 음성이었다. 직장경검사를 시행한 결과 항문강으로부터 약 20 cm 상부에 내면 전돌례를 침범하고 경계가 뚜렷한 용종성 병변이 관찰되어 장결핵이나 림프종을 의심하고 여러차례 생검을 시행하였으나 미란을 동반한 비특이성 염증소견만 보여 만성 비특이성 장염으로 진단하였다. 그러나 임상증세가 심하고 내시경검사소견이 종양을 강력히 의심케 하여 S자 결장과 직장을 포함한 부분 장절제를 시행하였다.

육안소견: 적출된 조직은 직장과 18 cm 길이의 S자 결장으로서 그 중앙부위에서 주변과의 경계가 명확하고 장경 7 cm 되는 종괴가 관찰되었다. 종괴는 장 주름이 비후되어 생긴 듯한 뇌의 회구조(cerebral gyrus) 모양을 취하고 있었다. 비후된 장 주름들은 정상 주름의 방향과 달리 불규칙하게 서로 융합하는

모습을 보였다. 점막표면에서 미란을 관찰할 수 있었으나(Fig. 1-A) 궤양은 발견되지 않았다. 종단면상 점막하층과 장막하층이 울혈에 의하여 암적색을 띠었다.

조직학적 소견: 정상 점막과 뚜렷하게 구분되는 비후된 점막들이 용종의 모습을 취하고 있으며, 점막하층이 고리형으로 말려 올라가 줄기(stalk)를 형성하고 있었다. 점막 표층의 미란과 함께 점막고유층과 점막하층에 있는 혈관들이 울혈성 확장소견을 보였다(Fig. 2). 음와(crypt)는 매우 깊고 분지를 내거나 불규칙하게 넓어진 곳도 있었다. 점막고유층에는 형질세포를 비롯한 급만성 염증세포들이 침윤되고 있었으며 점막근층이 다소 비후되어 있었다. 그러나 항-actin 항체를 이용한 면역조직화학염색으로도 점막근층이 고유층으로 갈라져 들어가는 소견은 볼 수 없었다(Fig. 3.). 정상대장의 상피세포에 존재하는 sulfomucin과 sialomucin을 동시에 검색하기 위하여 high iron diamine(HID)과 alcian blue(pH 2.5) 이중염색을 시행한 결과 비후된 점막의 대부분은 sialomucin을 함유하고 있는 반면 sulfomucin은 음와의 기저부에 있는 소수의 세포에서만 관찰되었다(Fig. 4).

증례 2.

임상소견: 환자는 38세 여자로서 직장의 완전 탈출을 주소로 내원하였으며, 직장경검사상 내강으로 돌출한 용기형 종괴가 발견되어 생검을 시행하였다. 간헐적인 점액성 설사외에 다른 증세는 없었으며, 혈

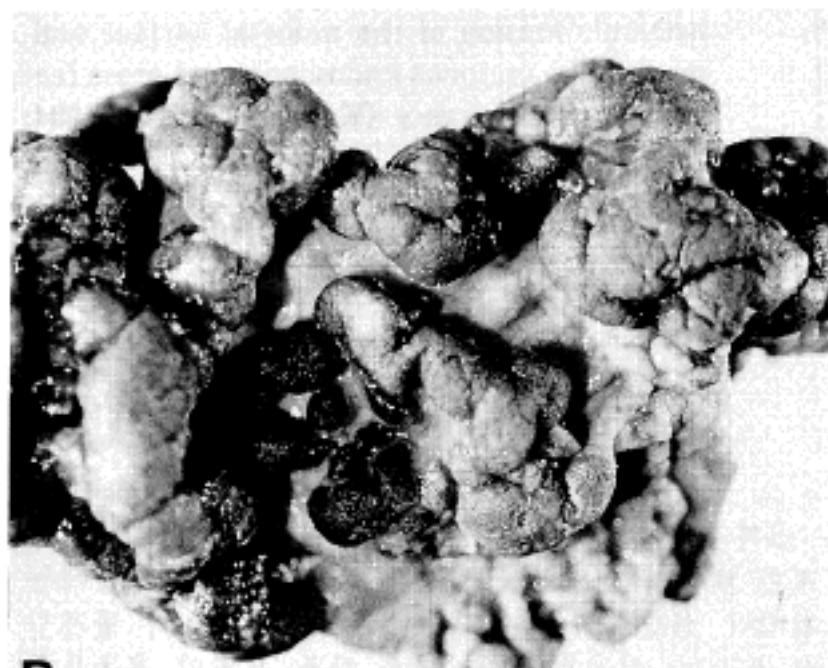
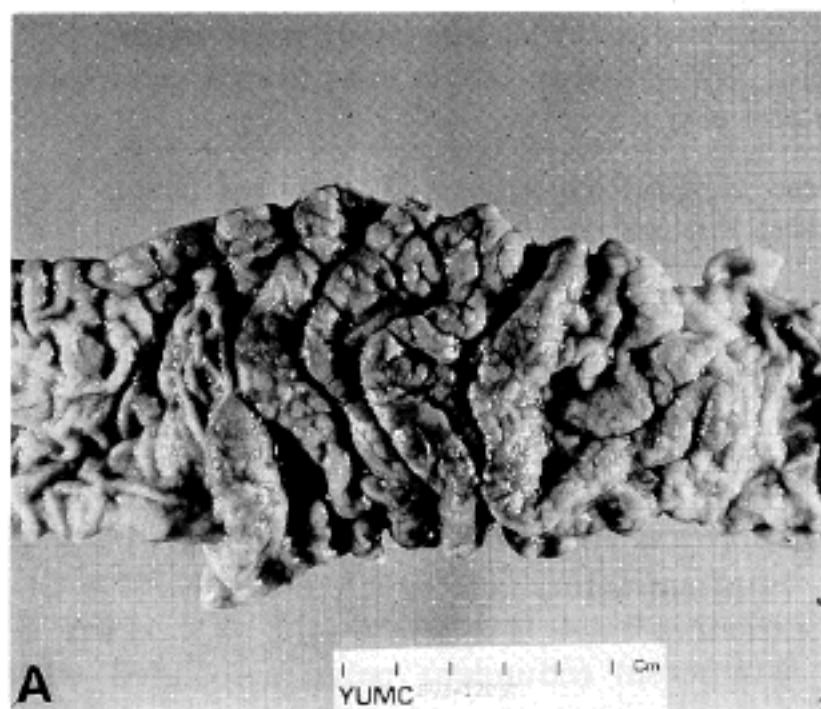


Fig. 1. Gross features of the eroded polypoid hyperplasia. (A) Mucosal aspect of the case 1. The involved segment demonstrates hypertrophic mucosal folds with diffuse erosion, giving the superficial resemblance to cerebral gyri. (B) A distinct lesion made of geographic, mulberry shaped folds with surface erosion is seen in case 2.

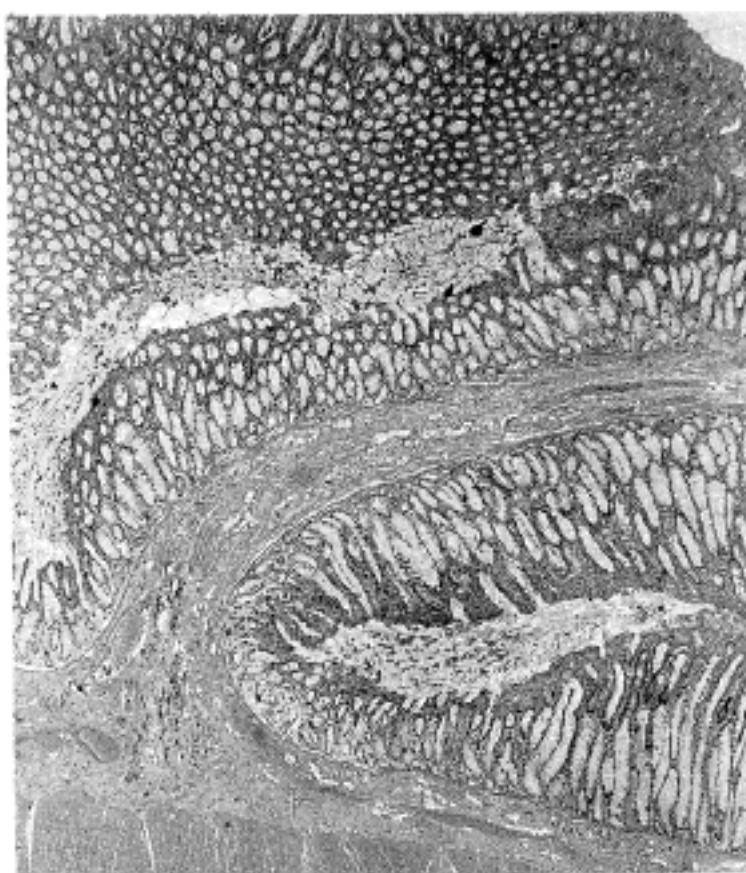


Fig. 2. Polypoid lesion having a stalk which is composed of submucosa drawn by the mucosal prolapse. Note the congestion and vascular dilatation.

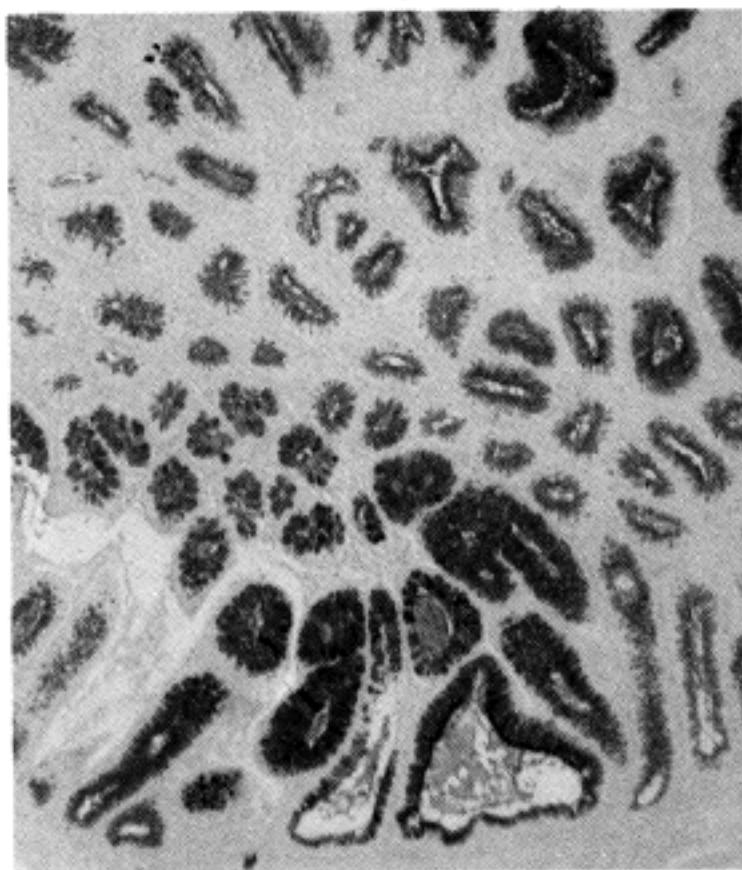


Fig. 4. The epithelial cells show strongly positive reaction to alcian blue(pH 2.5) except for a few cells at the crypt base which are positive for sulfomucin(HID/Alcin blue pH 2.5).

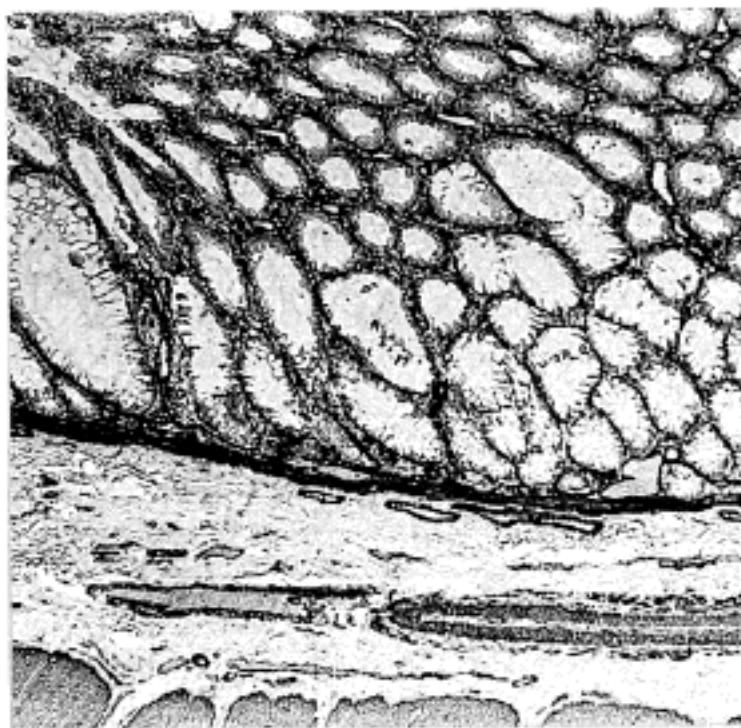


Fig. 3. The muscularis mucosa is somewhat thickened but does not insinuate the lamina propria (LSAB for actin).

청 및 대변검사에서도 이상소견이 없었다. 생검조직은 풍부한 점액분비를 동반한 음와 상피증식과 점막고유층에 심한 염증반응을 동반한 미란의 소견을 보

였다. 그러나 임상적으로 직장암종의 가능성이 높다고 판단하여 S자 결장과 직장의 점막절제술을 시행하였다.

육안소견: 절제된 조직은 S자 결장 16 cm와 직장이었다. 증례 1과 같이 비후된 장 주름들이 서로 융합하여 생긴 장경 8 cm의 병변이 종괴를 이루면서 내강으로 돌출하고 있었으며, 마치 오디(mulberry) 또는 상실과 같은 모습을 띠었다. 비후된 장 주름의 표면에는 미란성으로 미란이 초래되어 있었으나(Fig. 1-B) 죽양은 없었다.

조직학적 소견: 증례 1과 동일하였다.

이상과 같이 두 증례는 몇가지 공통점을 갖고 있다. 첫째, 환자들은 30대 연령층이고 병변이 S자 결장과 직장에 걸쳐 있으며, 둘째, 내시경검사상 병변이 악성 종양을 의심케 하는 종괴로 나타난 점, 셋째, 절제된 조직의 육안검사상 종괴가 매우 비후된 거대 장 주름으로 구성되어 있고, 넷째, 조직학적으로 음와상피의 증식, 풍부한 점액분비, 미란성 미란, 점막고유층의 비특이적 염증반응, 그리고 점막고유층과 점막하층에 울혈성 혈관확장을 보이는 점등이 공통적이다. 또한 환자들은 수술 후 6개월이 지난 현재까지 재발 없이 임상증상의 호전을 보이고 있다.

고찰

용종성 MPS는 배변시의 과도한 압력에 의한 항문 팔약근이나 장벽 근-신경기능의 장애때문에 발생하는 것으로 알려져 있다^{2,3,8)}. MPS의 정도는 점막만 강내로 솟아오르고 임상증상이 뚜렷하지 않은 잠재형부터 직장벽 전체가 항문으로 탈출하는 것까지 다양하다. 발생부위는 주로 직장-항문 경계부이지만 S자 결장에도 초래될 수 있으며, 직장-항문 경계부에 발생하는 ICP^{1,9)}와 S자 결장에 계실과 관련되어 발생하는 MRPD^{10~12)}가 MPS의 중요한 유형으로 기술되고 있다. ICP나 MRPD는 모두 과다한 점액분비를 동반한 점막비후와 음와의 확장, 점막표면의 미란, 점막고유층의 급만성 염증 및 육아조직 형성, 점막고유층 및 점막하층의 울혈성 혈관확장과 같은 공통적인 형태학적 특징을 보이기 때문에^{1~14)} 두 질환을 발생부위에 따른 MPS의 아형으로 여기고 있다¹¹⁾.

본 증례들에서도 여러개의 용종성 병변이 융합하여 종괴를 형성한 점, 그리고 조직학적 변화가 MPS의 소견과 일치하지만 병변이 S자 결장과 직장에 걸쳐 있음에도 불구하고 계실을 동반하지 않은 점이 통상적인 MPS와 다소 다르다. 1990년 Burke 및 Sabin¹³⁾은 계실을 동반하지 않으면서 S자 결장과 직장을 침범한 6예를 EPH라는 명칭으로 보고한 바 있는데 환자들이 모두 본 증례들과 마찬가지로 심한 복통과 점액성 설사를 호소하였고, 그 중 3예가 저알부민혈증을, 1예가 장탈출 소견을 나타낸 것으로 보아 EPH도 MPS의 또 다른 유형일 가능성이 많다.

EPH의 형태학적 특징을 마란과 음와상피증식으로 요약하면 그 가능한 발생기전으로 다음과 같은 3가지를 들 수 있다. 첫째는 선 증식-후 미란의 가설로서 과증식성 용종이나 과오종성 용종과 같이 음와상피의 증식이 선행하고, 증식이 심해지면 상대적으로 혈액공급의 부족현상이 초래되며 혈액공급이 가장 열악한 점막표층에 미란이 생기고 그 결과 염증과 육아조직형성이 초래된다는 개념이다. 그러나 점막하층이나 점막고유층의 울혈 및 혈관확장을 설명할 수 없고, 비후성 증식이 현저하지 않는 부위, 즉 정상점막과 두께가 비슷한 곳에도 예외없이 마란이 있는 점을 해석하기 어렵다. 뿐만 아니라 과증식성 용종에서는 마란이 생기는 일이 거의 없기 때문에 본 가설은 MPS의 발생기전을 설명하기에 불충분하다. 둘째 가설은 선 미란-후 증식으로서 배변시의 과도한 압력이나 다른 반복된 자극에 의해 점막에 미란이 발생하면 염증반응과 육아조직이 형성되고 그 수복현상의 일환으로 음와상피의 증식이 일어난다는 생각이다. 이러한 현상이 반복되면 점막상피가 과다하게 증식하여 용종의 모습을 보이겠지만 역시 점막과 점막하층의 혈관변화를 설명할 수 없다.

그러므로 혈관변화를 설명하기 위하여 “선 점막탈출-후 미란 및 상피증식”이라는 세째 가설의 설정이 필요하다. 즉 배변시의 과도한 압력으로 점막이 용기되고 이러한 현상이 반복되면 점막이 점차적으로 탈출될 수 있으며, 그 결과 점막하혈관이 견인되어 혈류의 원활한 유통에 장애가 초래된다. 혈류장애로 말미암아 근층이 이상 수축을 일으키고 결국 점막과 점막하층의 혈관이 울혈성으로 확장되며, 점막이 탈출되면 복강내압이 여과없이 직장에 미치기 때문에^{2~4,7,} 8) 장벽탈출이 더욱 심해지는 악순환이 이어진다. 이러한 기전은 MPS의 발생기전과 유사하며^{2,3,8)}, 따라서 EPH가 MPS의 제 3의 유형일 가능성을 강력히 시사한다. 혈류가 원활하지 못한 점막표층에 허혈성 미란이 생기고¹⁵⁾ 염증과 육아조직이 형성되며 미란에 대한 보상으로 상피세포의 증식이 일어나는 것은 당연한 현상이라 하겠다. 본 증례에서 근층의 허혈성 피사가 초래된 점과 육안적으로 병변의 구획이 명확했던 점도 혈류장애가 발생기전임을 지지하는 소견이라고 생각한다.

정상적인 대장점막의 배세포(goblet cell)들과 대장의 전형적인 과증식성 용종에서는 상피세포들이 주로 sulfomucin을 함유하는^{16~19)} 반면에 본 증례들에서 sialomucin이 주성분이었던 점은 과증식성 용종이 아니라는 증거의 하나라고 생각한다.

저자들은 임상적인 양상과 육안소견이 립프종을 비롯한 악성 종양을 의심케 하는 EPH 2예를 경험하고, 그 임상소견, 병리학적 소견 및 가능한 발생기전이 ICP 및 MRPD와 유사한 점을 들어 EPH의 실체가 MPS의 한 유형임을 강력히 시사하는 바이다.

참고문헌

- 1) Dean PJ. *Polypoid prolapsing mucosal folds in diverticular disease. US and Canadian Acad of Pathol. Speciality Conference Handout*, 1993.
- 2) Womack NR, Williams NS, Holmfield JHM, Morrison JFB. *Pressure and prolapse-the cause of solitary rectal ulceration. Gut* 1987; 28: 1228-33.
- 3) Lonsdale RN. *Microvascular abnormalities in the mucosal prolapse syndrome. Gut* 1993; 34: 106-9
- 4) Boulay CED, Fairbrother J, Isaacson PG. *Mucosal prolapse syndrome-a unifying concept for solitary ulcer syndrome and related disorders. J Clin Pathol* 1983; 36: 1264-8.
- 5) White CM, Findlay JM, Price JJ. *The occult rectal prolapse syndrome. Br JSurg* 1980; 67: 528-30.
- 6) Schweiger M. *Solitary-ulcer syndrome of the rectum; its association with occult rectal prolapse. Lancet* 1977; 22: 170-1.
- 7) Williams JG, Wong WD, Rothenberger DA, Goldberg SM. *Incontinence and rectal prolapse; A pro-*

- spective manometric study. *Dis Colon Rectum* 1991; 34: 209-16.
- 8) Sun WM, Read NW, Donnelly C, Bannister JJ, Shorthouse AJ. A common pathophysiology for full thickness rectal prolapse, anterior mucosal prolapse and solitary rectal ulcer. *Br J Surg* 1989; 76: 290-5.
- 9) Saul SH. Inflammatory cloacogenic polyp. *Hum Pathol* 1987; 18: 1120-5.
- 10) Franzin G, Fratton A, Manfrini C. Polypoid lesions associated with diverticular disease of the sigmoid colon. *Gastroint Endosc* 1985; 31: 196-9.
- 11) Mathus-Vliegen EMH, Tytgat GNJ. Polyp-simulating mucosal prolapse syndrome in (pre-)diverticular disease. *Endoscopy* 1986; 18: 84-6.
- 12) Kelly JK. Polypoid prolapsing mucosal folds in diverticular disease. *Am J Surg Pathol* 1991; 15: 871-8.
- 13) Burke AP, Sabin LH. Eroded polypoid hyperplasia of the rectosigmoid. *Am J Gastroenterol* 1990; 85: 975-80.
- 14) Bogomoletz WV. Solitary rectal ulcer syndrome, mucosal prolapse syndrome. *Pathol Ann Part 1*, 1992; 27: 75-86.
- 15) Boley SJ, Sammartano R, Adams A, DiBiase A, Kleinhaus S, Sprayregen S. On the nature and etiology of vascular ectasia of the colon. *Gastroenterology* 1977; 72: 650-60.
- 16) Franzin G, Grigioni WF, Dina R, Scarpa A, Zamboni G. Mucin secretion and morphological changes of the mucosa in non-neoplastic disease of the colon. *Histopathology* 1983; 7: 707-18.
- 17) Jass JR, Filipe MI, Abbas S, Falcon CAJ, Wilson Y, Lovell D. A morphologic and histochemical study of metaplastic polyps of the colorectum. *Cancer* 1984; 53: 510-5.
- 18) Franzin G, Dina R, Zamboni G, Iannucci A, Scarpa A, Novelli P. Hyperplastic (metaplastic) polyps of the colon. *Am J Surg Pathol* 1984; 8: 687-98.
- 19) Listinsky CM, Riddell RH. Patterns of mucin secretion in neoplastic and non-neoplastic disease of the colon. *Hum Pathol* 1981; 12: 923-9.