

이소성 췌장을 동반한 후복막의 중복낭

- 1예 보고 -

전북대학교 의과대학 병리학교실

오소영 · 정명자 · 이동근 · 최호열

Retroperitoneal Duplication Cyst Associated with Heterotopic Pancreas

- A case report -

So Yeong Oh, Myoung Ja Chung, Dong Geun Lee, and Ho Yeul Choi

Department of Pathology, Chonbuk National University Medical School
Chonju, Chonbuk 560-182, Korea

Occurrence of a retroperitoneal duplication cyst associated with a heterotopic pancreas is rare. We report a case of a retroperitoneal duplication cyst associated with a heterotopic pancreas. A 35-year-old male was admitted, presenting with back pain. A pelvic computed tomographic scan disclosed a 10 cm-sized cystic mass filling the lower pelvis and displacing the rectosigmoid colon anteriorly. Histologically, the cyst wall was lined partly by mucin-secreting columnar epithelium, showing atypical hyperplasia and partly by a gastric fundic-type and a colonic-like mucosa. Beneath the epithelium, organized bundles of smooth muscle were arranged in two layers analogous to smooth muscles layers of the bowel and a small piece of pancreatic tissue were present in the smooth muscle wall of the cyst. (Korean J Pathol 1998; 32: 687~690)

Key Words: Retroperitoneum, Duplication cyst, Heterotopic pancreas

서 론

중복낭은 장관성 낭 (enteric cyst, enterogenous cyst)으로도 불리며 소화기계를 따라 어느 부위에서도 발생할 수 있으나 말단 회장을 포함한 소장에서 가장 흔하며 후복막의 중복낭은 매우 드물게 보고되어 있다.^{1~4} 또한 척수에서 장의 근육층에 이르기까지 어느 부위에서도 발생할 수 있으나 주로 장간막측에서 장에 인접하여 위치하는 단방성의 낭성 구조물로서 나타난다. 그 내용물은 점액성 또는 혈성물질이며 내강으로 점액이

분비됨에 따라 크기가 증가한다. 중복낭의 벽은 한층 내지 두층 또는 세층의 평활근층으로 구성되고 점막은 위점막이 흔히 나타나며 여러 형태의 점막이 하나의 중복낭에서 존재할 수 있다. 중복낭과 이소성 췌장에 대한 각각의 보고는 다수가 보고되어 있으나 이 두 가지가 같이 동반되어 나타나는 경우는 매우 드물다.^{5,6}

최근 저자들은 35세 남자의 후복막에서 이소성 췌장을 동반한 중복낭 1예를 경험하였기에 그 희귀성에 비추어 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

35세 남자 환자가 배뇨 및 배변곤란을 주소로 내원하였다. 수술전 시행한 골반부 전산화 단층 촬영 소견상 하부골반에 S상결장 및 직장을 전방으로 전위시키는 장경 10 cm 크기의 종괴가 있었고 종괴의 내부는 물과 같은 밀도를 보여 (Fig. 1) 낭성 기형종 의진하에 종괴

접수: 1998년 4월 8일, 개재승인: 1998년 6월 13일
주소: 전북 전주시 덕진구 금암2동 634-18, 우편번호 560-182
전북대학교병원 해부병리과, 오소영
ISSN : 0379-1149
*본 논문은 1997년도 전북대학교병원 임상공동연구비에 의해 이루어졌음.

적출술을 시행하였다. 종괴는 장경 10 cm 크기의 낭종으로 낭벽의 두께는 최대 0.8 cm이었고 내강은 투명한 점액성 물질로 차있었으며 주변 장기와 연결은 없었다

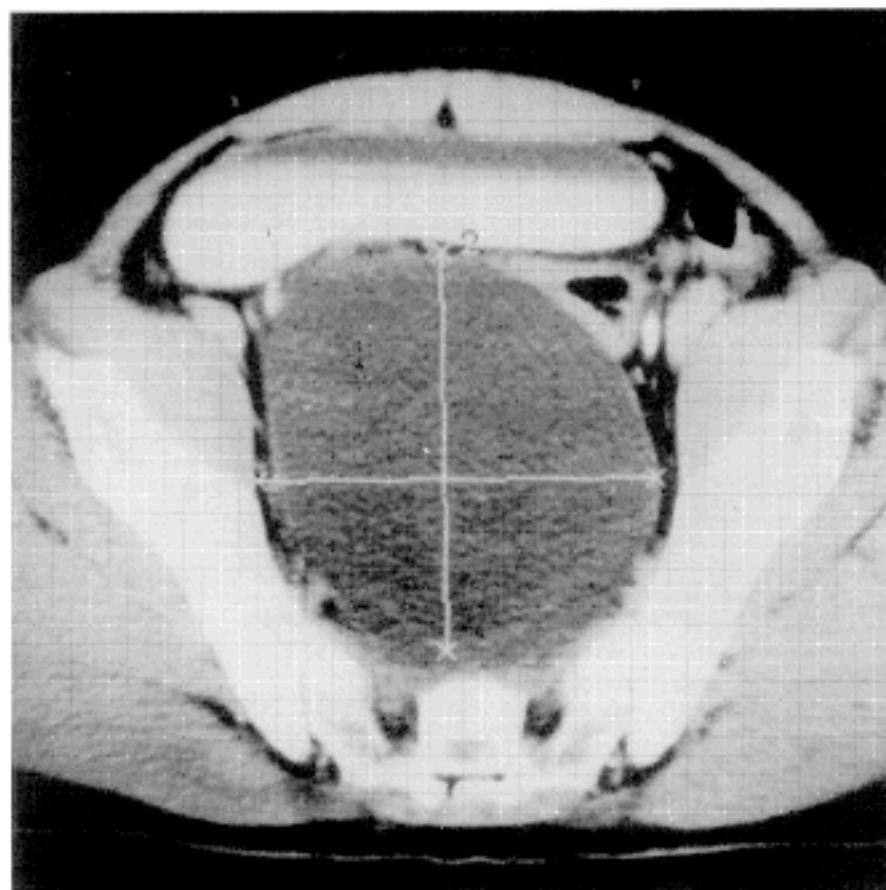


Fig. 1. Contrast enhanced computed tomography scan obtained at the level of the pelvis reveals a 10×10 cm-sized well defined water density mass filling the lower pelvis and displacing the rectosigmoid colon anteriorly.

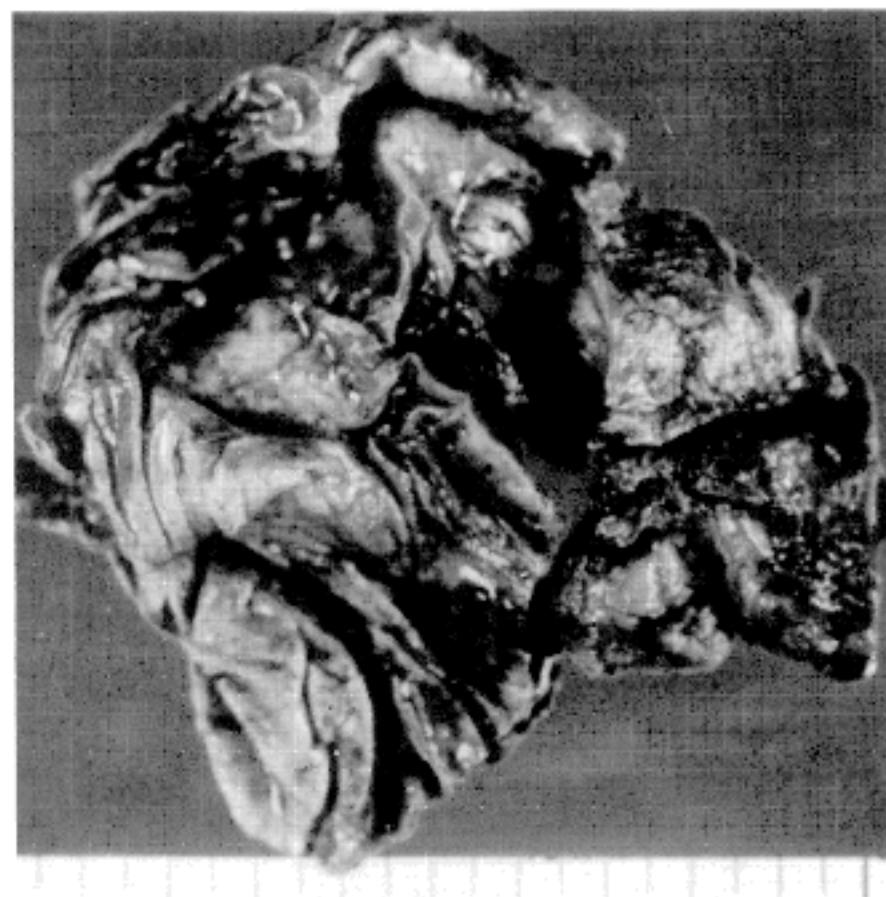


Fig. 2. Opened unilocular cyst shows relatively smooth inner surface and the residual mucinous material.

(Fig. 2). 낭내벽은 매끈한 부분과 마치 위장관 점막과 같이 주름진 부분으로 구성되어 있었다. 조직학적 소견상 낭벽은 대부분 점액을 분비하는 원주상피로 피복되

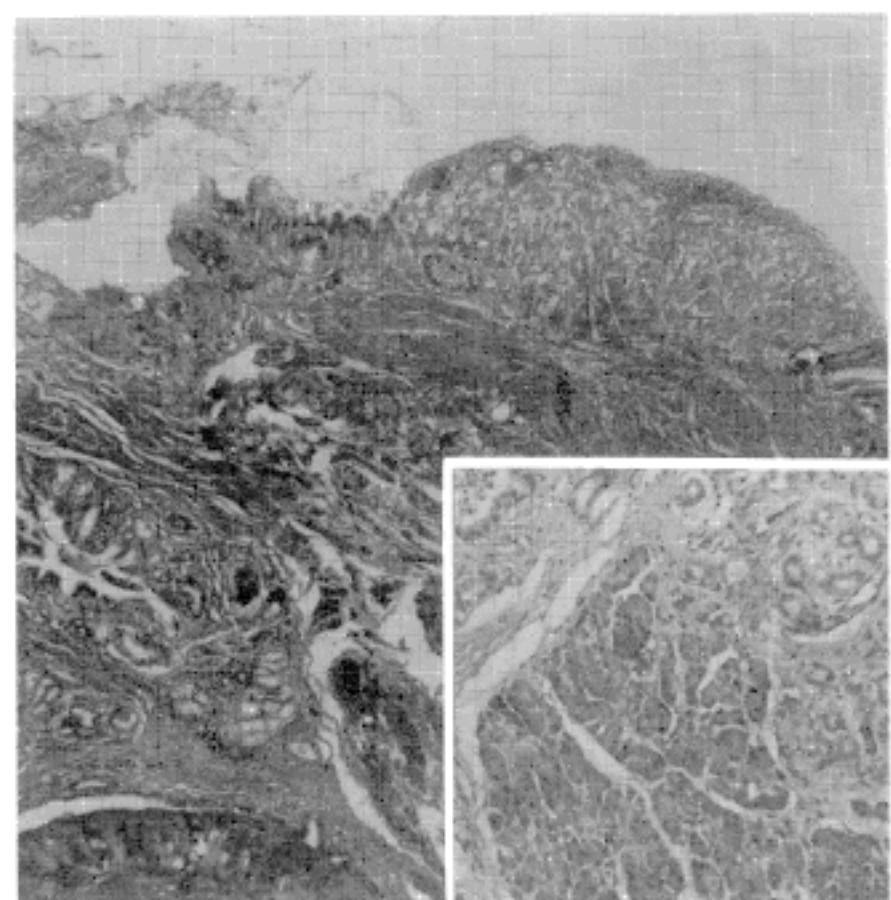


Fig. 3. Gastric mucosal epithelium with fundic glands, and smooth muscle are recognized. Inset: Pancreatic duct and acini are observed in the muscle layer.

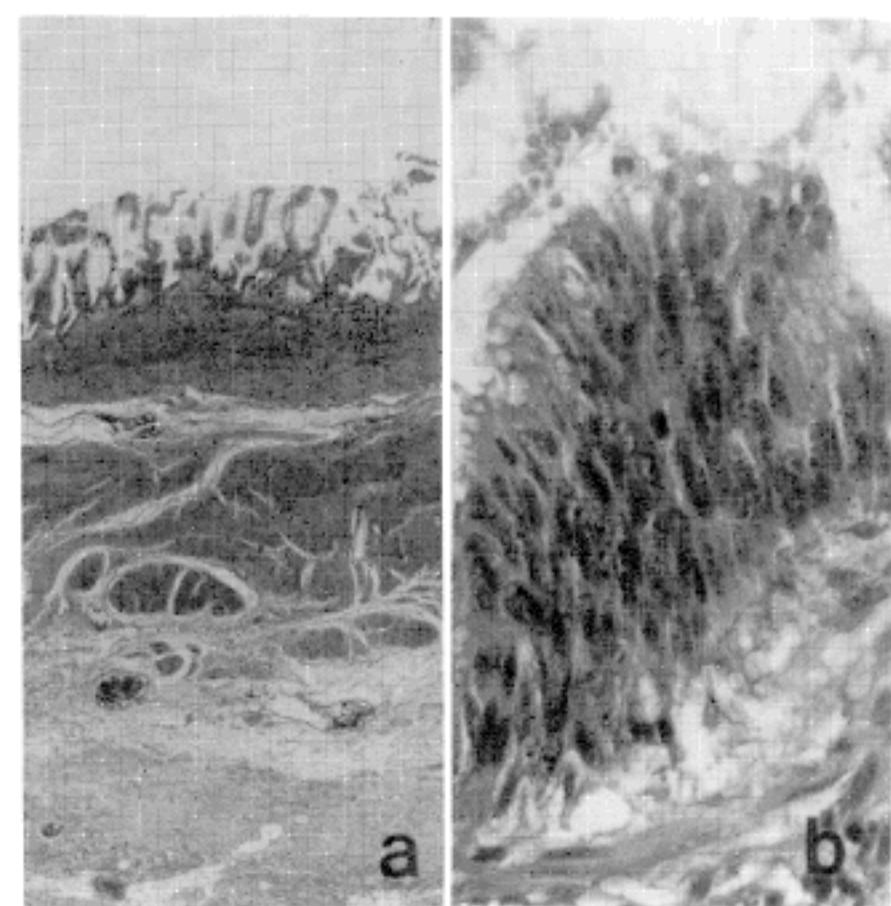


Fig. 4. a) The cyst wall is lined partly by delicate papillary and complex glands. Beneath the epithelium smooth muscle coat is seen. b) The epithelium shows two or three layers of mucin-containing epithelial cells with atypia.

어 있었다. 일부에서는 대장의 점막과 유사한 소견을 보였고, 국소적으로 위저부 점막조직과 유사한 소견을 보이는 부위도 있었고 점막이 탈락된 부분이 관찰되었다. 점막 하방에는 잘 형성된 두층의 근육층이 관찰되는 부분과 근육층없이 섬유성 조직으로만 구성된 부분이 있었다. 위점막으로 보이는 조직의 하방에 위치한 근육층내에서는 훼장선방과 훼장관으로 구성된 이소성 훼장조직이 국소적으로 관찰되었다 (Fig. 3). 그러나 이 소성 훼장에 의한 임상증상은 없었다. 점액을 분비하는 원주상피의 대부분은 한층의 원주상피였으나 일부에서는 세포의 중층화 및 유두상 증식과 함께 이형성을 보이고 있었다 (Fig. 4). 그러나 하방으로의 침윤은 관찰되지 않았다.

고 찰

후복막의 낭종은 그 기원에 따라 중피성 낭종, 중신기원의 낭종, 물려관 낭종, 낭성 기형종 등이 기술되어 있으며 1928년 Salvin에 의해 일부 후복막 낭종에 대하여 장관성 기원의 가능성이 제시되었다. 중복낭의 진단기준은 1953년 Gross가 제안한 바에 따르면 1) 인접한 장관 일부에 부착되어 있어야 하고, 2) 장관의 점막과 유사한 점막으로 피복되어 있어야 하며, 3) 평활근층이 존재하여야 한다고 하였다.⁷ 그러나 최근에는 위장관에 부착되지 않거나 호흡기 상피로 피복되어 있는 중복낭이 다수 보고되고 있어 위장관 부착여부나 점막상피의 종류에 관계없이 장관에서 관찰되는 것과 유사한 평활근층의 존재 여부가 중복낭의 진단에 있어 더 중요한 판정기준으로 제시되고 있다.^{1,8} 본 예의 경우 위장관에 부착되어 있지는 않았으나 대장 및 위저부점막으로 피복되어 있었으며 두 층의 근육층이 관찰되어 그 외의 중복낭 진단기준에 합당하였다. 중복낭은 태생기 발달장애와 관련이 있는 것으로 알려져 있으며 그 정확한 기전은 밝혀지지 않았으나 제시되고 있는 이론으로는 소화기 장관의 발달에 있어 정상적인 재관통의 장애에 의한다는 설과, 신경장관 기원설, 계실 기원설, 그리고 자궁내 허혈과 관련된 이론 등이 있다.^{1,2,9} 이들 중 원시성 내배엽관의 고형기 후반에 낭성공간이 융합되어 장관을 형성하게 되는데 이의 융합시 재관통에 장애가 일어남으로써 중복낭이 형성된다는 첫번째 이론과 장관과 척삭이 완전히 분리되지 않음으로써 척추결손을 동반하는 중복낭이 발생한다는 두번째 이론이 최근 받아들여지고 있다. 본 예에서는 훼장조직이 점막하층에서 관찰되었는데 훼장은 장관과 같이 전장 (foregut)에서 기원하기 때문에 발생학적으로 훼장조직이 중복낭과 같이 동반되어 나타날 수 있으나 실제 이들의 보고는 극히 드물다.^{5,6}

후복막의 중복낭은 때로 후복막의 낭성 기형종과 혼동이 되기도 하여 감별이 필요하다. 기형종에서는 세 가지의 배엽에서 기원하는 다양한 조직이 함께 나타나며

이들 성분간에 조직화된 관계가 유지되지 않는 반면, 중복낭은 피복상피와 근육층의 구조가 체계화되어 장관벽과 유사한 구조를 이루는 점으로 감별이 가능하다.

중복낭은 일반적으로 소아기에 증상을 나타내어 발견되고 성인에서는 드물게 발견된다. 후복막의 중복낭은 그 해부학적 위치상 크기가 충분이 커질때까지는 대부분 특별한 증상을 나타내지 않기 때문에 다른 부위에 발생한 중복낭에 비해 본 예와 같이 좀더 늦은 나이에 발견된다. 중복낭의 임상증상으로는 중복낭내의 점막에서 분비물이 분비되어 크기가 증가되고 주변조직을 압박하거나 폐쇄시킴으로써 증상을 야기할 수 있다. 또한 이소성 위점막의 소화성 궤양에 의해 출혈이나 천공과 같은 합병증을 야기하기도 한다. 본 예에서는 S상결장, 직장 및 방광을 압박하여 배뇨 및 배변곤란의 증상을 나타냈다. 중복낭에서의 종양성 변화는 매우 드문 일로 문헌상 소수가 보고되어 있으며 이의 대부분은 대장의 중복낭에서 발생하는 것으로 보고되어 있다.³ 악성 변화는 주로 선암종이며 드물게 식도점막과 관련되어 평평상피암종이 보고되어 있다. 일부 예에서 분명한 침윤을 보이는 암종과 함께 세포 이형성 및 상피내 암종이 동반되었는데 문헌에 따르면 이러한 악성 변화의 기전으로는 낭내의 분비물이 오랜 기간 축적으로 인하여 발암효과를 갖게되고 중복낭내의 상피가 이에 노출되어 증식 및 이형성 변화를 거쳐 악성 종양성 변화를 일으킬 것으로 추정하고 있다.¹⁰ 본 예에서 점액을 분비하는 원주상피의 대부분은 한층의 원주상피였으나 일부에서는 세포의 중층화 및 유두상 증식과 함께 이형성을 보여 악성 변화의 가능성을 시사하였다. 후복막의 중복낭은 늦은 발견시기로 인하여 악성 변화를 비롯한 이차적인 변화를 수반하기 쉬우리라고 생각된다. 따라서 증상이 없는 장 중복낭인 경우에도 소아나 젊은 환자에서 우연히 발견되었을 경우 예방적인 절제가 필요할 것으로 생각된다.

참 고 문 헌

- Dardik H, Klibanoff E. Retroperitoneal enterogenous cyst: report of a case and mechanism of embryogenesis. Ann Surg 1965; 162: 1084-6.
- Govoni AF, Burdman D, Teicher I, et al. Enterogenous cyst of the colon presenting as a retroperitoneal tumor in an adult. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1975; 123: 320-9.
- Marrogi AJ, Chehval M, Martin SA. Adenocarcinoma arising in retroperitoneal enterogenous cyst presenting as a renal cyst: report of an unusual case. Eur J Surg Oncol 1991; 17: 300-7.
- 심정연, 김호근. 혀에 발생한 장관성 낭종 1예 보고. 대한병리학회지 1997; 31: 1237-9.
- Sato T, Oyamada M, Chiba H, et al. Ileal duplication cyst

- associated with heterotopic pancreas: report of a case and literature review. *Acta Pathol Jpn* 1993; 43: 597-602.
6. Ueda D, Taketazu M, Itoh S, Azuma H, Oshima H. A case of gastric duplication cyst with aberrant pancreas. *Pediatric Radiol* 1991; 21: 379-80.
 7. Gross RE. The surgery of infants and childhood. Philadelphia: WB Saunders, 1954; 221.
 8. Schiller AL, Schantz A. A caecal enterogenous cyst lined by ciliated epithelium, a case report. *Am J Clin Pathol* 1970; 53: 418-22.
 9. Ming SC, Goldman H. Pathology of the gastrointestinal tract. Philadelphia: WB Saunders, 1992: 133-5.
 10. Chuang MT, Barba FA, Mamoru K, Teirstein AS. Adenocarcinoma arising in an intrathoracic duplication cyst of foregut origin; a case report with review of the literature. *Cancer* 1981; 47: 1887-90.
-