

CASE REPORT

10년 동안 추적 관찰한 심재성 낭종성 위염에 동반된 위선종의 내시경 점막하박리술 1예

김정희, 장성열, 황정아, 하승혜, 최원규, 박주상, 한은미¹

분당제생병원 내과, 병리과¹

A Ten-year Follow-up of a Case with Gastric Adenoma Accompanied with Gastritis Cystica Profunda Treated by Endoscopic Submucosal Dissection

Jung Hee Kim, Sung Yeol Jang, Jeong Ah Hwang, Sung Hae Ha, Won Gyu Choi, Ju Sang Park and Eun Mee Han¹

Departments of Internal Medicine and Pathology¹, Bundang Jesaeng General Hospital, Seongnam, Korea

Gastritis cystica profunda (GCP) is an uncommon hyperplastic benign lesion, and histologically characterized by hyperplasia and cystic dilatation of the gastric glands extending into the submucosal layer. GCP usually occurs at a gastroenterostomy site, although it can occasionally be found in an unoperated stomach. GCP is thought to be a possible precancerous lesion, since a few early gastric cancers associated with it were reported. Herein, we report a case of gastric adenoma associated with GCP in an unoperated patient. The sizes of both the GCP and adenoma overlying it have increased during a 10 year follow-up period. Adenoma on the latest biopsy showed low grade dysplasia, and it was successfully treated by endoscopic submucosal dissection. (**Korean J Gastroenterol 2012;59:366-371**)

Key Words: Gastritis cystica profunda; Gastric adenoma; Endoscopic submucosal dissection

서론

심재성 낭종성 위염(gastritis cystica profunda)은 위선상 피세포의 과형성 및 낭성 확장을 보이는 조직학적 특징을 지닌 비교적 드문 양성 증식성 병변으로, 1972년 Littler와 Gleibermann¹이 소화성 궤양으로 국소적 위 절제술 및 위 소장 문합술을 받았던 환자에서 위 소장 문합부에 발생한 용종양 병변을 발견하여 용종성 낭종성 위염(gastritis cystica polyposa)으로 보고하면서 알려졌고, 이후 1981년 Franzin과 Novelli²가 점막하층까지 침범한 경우를 심재성 낭종성 위염으로 명명하였다.

심재성 낭종성 위염은 주로 위 소장 문합술을 시행받은 환자에서 발생하는 것으로 알려져있으나 2001년 Kim 등³이 위

수술 기왕력이 없는 환자에서 발생한 심재성 낭종성 위염 예를 보고하는 등, 드물지만 위 절제와 관련 없이도 발생할 수 있다. 심재성 낭종성 위염은 대부분 양성질환이지만, 위 절제의 기왕력이 있는 환자의 잔존 위에서 심재성 낭종성 위염과 위암이 동반된 예가 보고되면서 심재성 낭종성 위염의 전암성 병변에 대한 가능성이 제기되었다.⁴ 그러나 심재성 낭종성 위염이 전암성 병변보다는 암 주위 병변이라는 의견이 아직까지는 더 우세하다.

저자들은 위 수술 기왕력이 없는 환자에서 선종을 동반한 심재성 낭종성 위염을 10여 년간 추적 관찰하던 중 심재성 낭종성 위염과 그 표면에 위치한 선종의 크기가 증가하고 추적 조직검사에서 저도 이형성을 보여 이를 내시경 점막하박리술로 치료한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received September 22, 2011. Revised December 12, 2011. Accepted December 12, 2011.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

교신저자: 박주상, 463-774, 성남시 분당구 서현동 255-2, 분당제생병원 내과

Correspondence to: Ju Sang Park, Department of Internal Medicine, Bundang Jesaeng General Hospital, 255-2 Seohyeon-dong, Bundang-gu, Seongnam 463-774, Korea. Tel: +82-31-779-0209, Fax: +82-31-779-0975, E-mail: parkjs@dmc.or.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

증 례

84세 여자 환자가 10년 전부터 발생한 심와부 및 우상복부 통증과 설사 및 변비로 수 차례 입원하여 역류성 식도염, 장결핵, 과민성 장증후군 진단 하에 약물치료를 받았으나, 퇴원 때마다 추적이 소실되어 증상이 되풀이되었다. 처음 내원 당시 시행한 상부위장관 내시경검사에서 1 cm 크기의 점막하종양에 동반된 선종을 진단받고 추적 관찰하던 중 병변 크기가 점차 증가하고 저도 이행성을 동반하여 내시경적 치료를 권유 받았으나 거부하고 추적 소실되었다가, 최근에 심와부 통증이 재발하여 입원하였다. 과거력으로 고혈압, 당뇨, 급성심근경색의 기왕력이 있으나 약물 복용 없이 조절되는 상태이며, 3년 전 장결핵을 진단받고 항결핵약을 1개월 간 복용하였으나 약제 부작용으로 자의 중단하였다. 위 절제술의 기왕력은 없었다.

내원 당시 혈압이 90/60 mmHg, 맥박수가 72회/분, 호흡수는 20회/분, 체온은 36°C였다. 결막은 창백하지 않았고, 촉진되는 경부 림프절은 없었으며 흉부 청진에서 호흡음과 심음은 정상이었고, 복부 촉진에서 압통이나 반발통은 관찰되지 않았으며 만저지는 종괴도 없었다. 말초혈액검사에서 백혈구 7,100/mm³, 혈색소 13.7 g/dL, 혈소판 221,000 mm³였고, 혈청생화학검사에서 AST 15 IU/L, ALT 7 IU/L, 총빌리루빈 0.59 IU/L, 총단백 8.3 g/dL, 알부민 4.4 g/dL, 콜레스테롤 169 mg/dL, 공복혈당 113 mg/dL, BUN/creatinine 15.2/0.88 mg/dL, 종양 표지자 검사에서 CEA 4.92 ng/mL (참고치: 0.0-5.0 ng/mL)였다. 흉부 X-선 촬영은 정상이었으며 3년 전 시행한 위 전산화단층촬영검사에서 일부 조영 증강을 보이는 점막을 보유한 점막하층에 위치한 3×2.7 cm 크기의 경계가 분명한 저밀도의 낭성 종괴가 위 체부 소만부에서 관찰되었다(Fig. 1A). 주변의 림프절과 주변장기에는 특이소견이 없었다.

10년 전 상부위장관 내시경검사에서는 위 하부체부 소만부에 1 cm 크기의 약간 융기된 백색의 타원형 병변이 관찰되었고, 조직검사에서 관상선종으로 진단되었다. 3년 전 시행한 내시경검사에서는 이전과 같은 위치에 반투명의 점막하종양이 3 cm로 크기가 증가하였으며(Fig. 2A) 조직검사에서 저도 이행성을 동반한 관상선종으로 진단되었다. 2년 전 상부위장관 내시경검사 및 조직검사에서도 이전과 같은 소견을 보였다. 금번 시행한 내시경검사에서는 점막하 종양의 병변 크기가 4 cm 정도로 증가하였고 그 표면에 위치한 선종이 이전에 비해 더욱 융기되고 결절성이 확대된 양상을 보였으며(Fig. 2B), 내시경 초음파에서 위 하부체부 소만부에 점막하층에 국한된 격막이 형성된 4 cm 크기의 무에코성 병변과 그 상층부의 점막층 비후가 관찰되었다(Fig. 1B). 내시경 초음파와 복부 전산화단층촬영에서 선종이 점막하층에 위치한 점막하종양 내부까지 침범한 소견이 관찰되지 않아 크기가 증가하는 저도 이행성을 가진 관상선종에 대해서만 내시경 점막하박리술을 시행하였다. 먼저 아르곤전리기체응고기(APC300; ERBE Elektromedizin GmbH, Tübingen, Germany)를 이용하여 선종의 바깥 경계를 표시하고(Fig. 2C), sodium hyaluronate (Unylone®; UNIMED, Seoul, Korea)를 점막하층에 주입하여 점막 병변을 거상시킨 후 표시된 지점을 따라 IT (insulation-tipped electrosurgical) knife 2 (DK-611L; Olympus Co. Ltd, Tokyo, Japan)를 이용하여 근위부에서부터 변연부 절개를 시행하였다. 선종 밑의 점막하층에 낭성 병변이 위치해 있어, 변연절개시 불가피하게 심재성 낭종성 위염의 일부가 함께 절개되어 섬유성 격벽구조를 포함한 낭성병변이 노출되었다(Fig. 2D). 그 뒤 점막 및 점막하층의 표층을 심부 점막하 낭성 병변으로부터 박리하여 일괄절제하였으며 선종 제거 직후 점막하 낭성조직의 대부분이 남게 되었다(Fig. 2E-H). 내시경 점막하박리술로 절제된 병변은 3.2×2.5×0.3 cm 크기로 육안상 융기된 결절 소견을 보였다(Fig. 3A). 조직학적

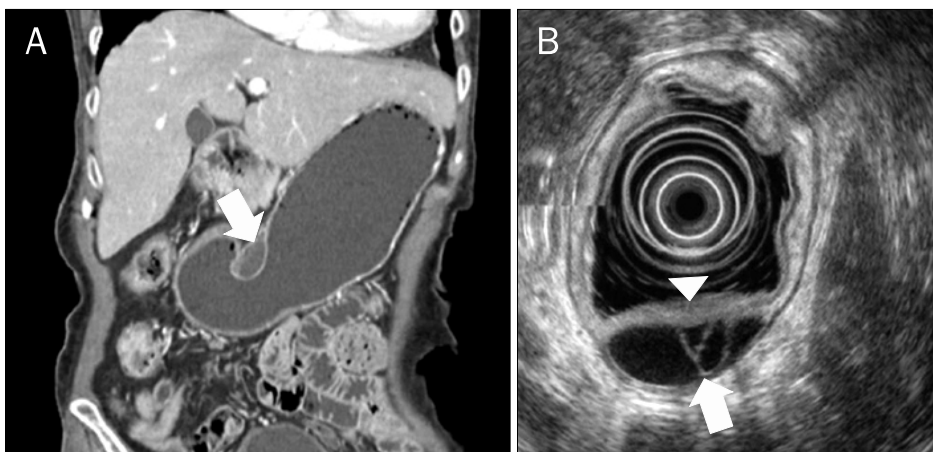


Fig. 1. (A) Stomach CT finding (3 years ago). It showed an about 3×2.7 cm sized relatively well-defined low density cystic mass (arrow) in the submucosal layer with partly enhanced mucosal portion at the lesser curvature side of the low body. (B) Endoscopic ultrasonography findings. A multiseptated homogeneous anechoic lesion (arrow) originating from the third layer accompanied focal wall thickening (arrow head) of the first layer.

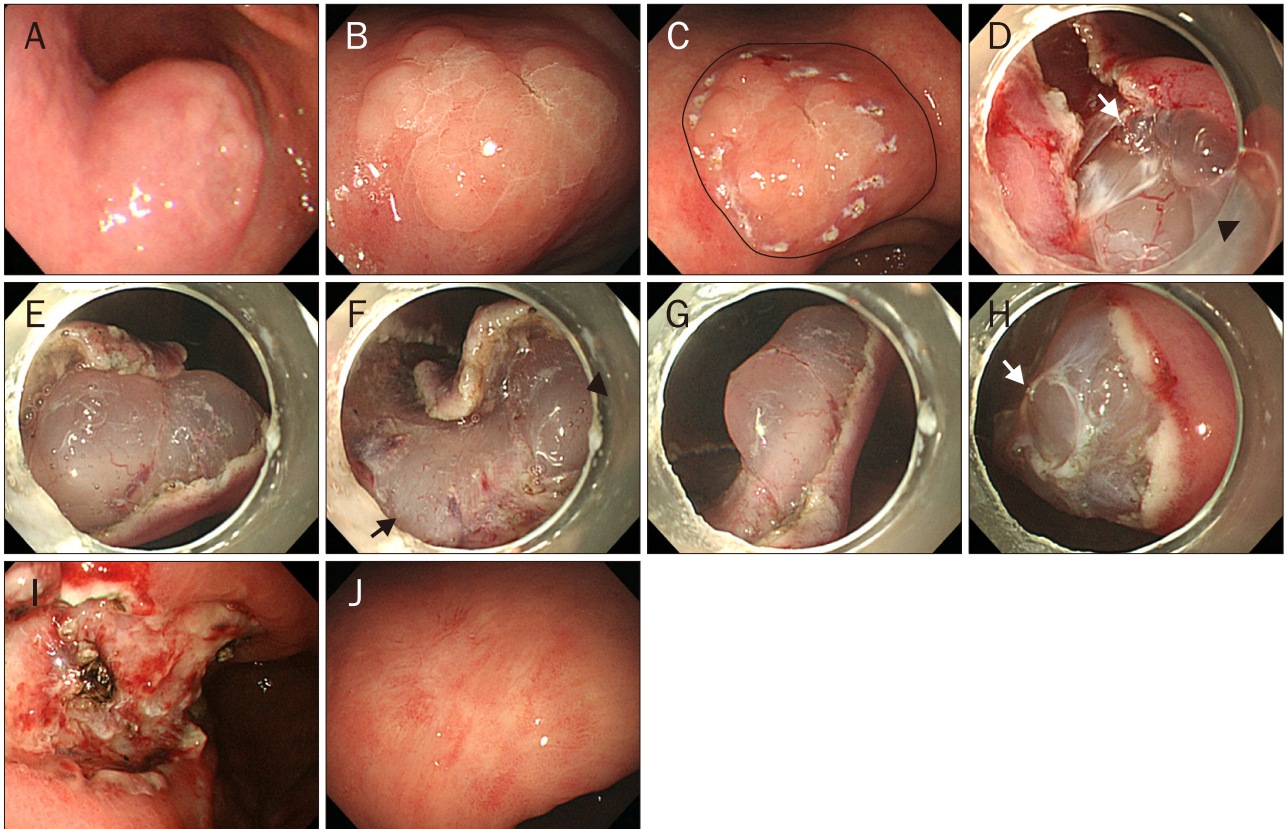


Fig. 2. Endoscopic images. (A) Endoscopy showed an about 3 cm sized slight translucent submucosal tumor accompanied with whitish geographic mucosal lesion on its surface at the lesser curvature side of the lower body (3 years ago). (B) It showed an 4 cm sized submucosal tumor at the same site, but the mucosal lesion has extended (current). (C) Marking. Circumferential marking were made at several points at least 2 mm apart from the outline of mucosal adenomatous lesion by APC within the margin of gastritis cystica profunda (solid line). (D) Submucosal injection and marginal incision. After submucosal injection with Unylone[®] to help lift the mucosal lesion, marginal incision was done around the lesion using an IT knife 2. Fibrous septum (arrow) and cystic lesion (arrow head) of gastritis cystica profunda were shown after the incision. (E) Submucosal dissection. It showed cystic lesion of remaining gastritis cystica profunda during the dissection. (F) Remaining deep layer of normal submucosa (arrow) and cystic lesion (arrow head) were shown during dissection. (G) Remaining cystic lesion of gastritis cystica profunda after dissection. (H) Partially resected submucosal cystic lesion with fibrous septal structure (arrow). (I) A post-endoscopic submucosal dissection (ESD) active ulcer without remnant cystic lesion (the day after ESD). (J) A post-ESD ulcer scar without remnant cystic lesion or recurrence of adenoma (6 months later after ESD).

검사에서 점막층에 증식된 위선이 낭종성 확장을 보여 심재성 낭종성 위염으로 진단하였고, 그 표층부에 저도 이형성을 보이는 관상선종 소견이 관찰되었다(Fig. 3B, C).

다음날 시행한 추적내시경검사(Fig. 2I)에서 전날 시술 직후에 남아 있었던 점막하 낭성 병변이 자연소실되어 관찰되지 않았고, 박리된 절제면이 깨끗하고 출혈, 천공 등의 합병증이 없어 이를 후 퇴원하였다. 입원 당시 호소하였던 심와부 통증은 역류성 식도염이 악화된 것으로 양성자펌프차단제 복용 후 호전되었다. 6개월 후에 시행한 추적내시경검사 및 조직검사에서 잔존 낭성 병변이나 선종의 재발 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2J).

고 찰

심재성 낭종성 위염의 발생기전은 명확하지 않으나 점막층의 탈락과 재생과정에서 일어난 변화로서, 만성위염, 허혈에 의한 위 점막의 염증, 수술 자체 또는 봉합물질 등에 의해 이러한 과정이 유발되어 발생하는 것으로 알려져 있다.⁴ 위 수술력이 없는 환자에서는 이전의 위궤양이나 선천적인 요인으로 발생한다고 추측한다.⁵ 대부분의 경우 무증상이거나 상복부 불편감 등 비특이적 증상을 호소하여 우연히 발견되는 경우가 많다. 이번 증례의 경우 내원 시 심와부 통증을 호소하였으나 양성자펌프차단제 투여 후 증상 호전을 보여 환자의 증상은 역류성 식도염으로 생각되며 심재성 낭종성 위염은 무증상이었을 것으로 생각된다.

진단은 상부위장관 내시경, 내시경 초음파, 복부전산화단

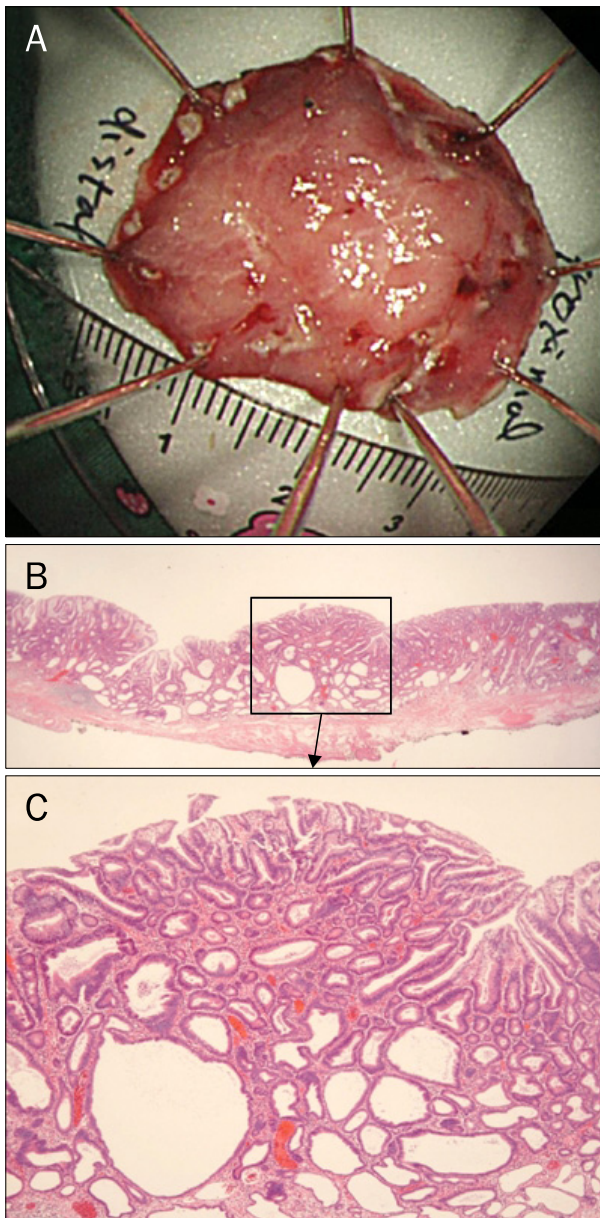


Fig. 3. (A) Gross finding. The endoscopic submucosal dissection (ESD) specimen measured 3.2×2.5×0.3 cm. It contained an elevated nodular lesion. (B) Microscopic finding. The ESD specimen showed many cystic glands lined by flattened epithelium within the mucosa and low grade tubular adenoma in the surface (H&E, ×40). (C) A low grade tubular adenoma was found and the mucosa showed cystic dilatation of gastric glands (H&E, ×100).

충혈 등으로 가능하며 수술 또는 내시경적 용종절제술 등을 통한 조직검사로 확진할 수 있다. 대부분 상부위장관 내시경 검사에서 우연히 발견되는 경우가 많으며 발생부위는 대개 위 체부 전벽과 후벽이 가장 흔하고, 그 외에 소만부, 전정부에서도 발생한다.^{4,6} 내시경 소견만으로는 점막하 침윤을 유발하는 다른 질환들을 감별하기 어렵기 때문에, 최근에는 내시경 초음파가 심재성 낭종성 위염의 감별진단 및 치료방침을 결정하

는 데에 매우 유용하다는 보고들이 있다. 전형적인 내시경 초음파 소견은 다양한 크기의 다발성 무에코성 병변과 함께 가로지르는 고에코성 구조가 보이는 것이다.^{7,8} 복부전산화단층촬영으로는 용종양 병변의 크기와 표면 윤곽 뿐만 아니라 병변 내 낭성 변화도 확인할 수 있어 이는 기존의 검사방법과 함께 진단 및 수술적 치료계획을 세우는 데 도움이 될 수 있다.

이 증례의 경우 과거 세 차례의 내시경검사와 최근 내시경 검사에서 점막하 종양의 양상을 보이는 낭성 구조를 시사하는 병변이 위 하부체부 소만부에서 발생하였고 시간이 경과함에 따라 점막하종양 자체의 크기 증가 및 표면의 결절성 용기 병변도 그 크기가 함께 증가함을 보였다. 위 전산화단층촬영에서 경계가 분명한 저밀도의 점막하 병변임을 확인하였고, 내시경 초음파에서 점막의 비후를 동반한 점막하층에 국한된 격벽을 지닌 낭성 구조를 확인하였다. 조직학적으로는 점막 및 점막하층으로 확장된 낭종소견을 보여 심재성 낭종성 위염으로 진단하였고 그 표층부에 저도 이형성을 보이는 관상선종소견이 동반됨을 확인하였다.

심재성 낭종성 위염의 악성화 경향이나 악성종양과의 연관성에 대해서는 아직까지 논란이 많다. 술 후 잔존 위에서 발생한 심재성 낭종성 위염과 연관된 위암에 대한 보고들에 따르면 위 소장 문합부위에서 심재성 낭종성 위염이 위암과 함께 발생할 수 있는 장기적 합병증으로서의 각기 독립적인 병변이거나, 또는 잔여 위의 심재성 낭종성 위염으로부터 선암이 발생한 것이라는 의견이 있다.^{4,9} 그러나 위 수술의 기왕력이 없는 환자에서 선종 또는 선암에 동반된 심재성 낭종성 위염의 증례들이 보고되면서, 심재성 낭종성 위염 자체의 전암성 병변에 대한 가능성을 뒷받침하고 있다.^{3,6,8,10,11} 위 수술 기왕력이 없는 환자에서 심재성 낭종성 위염을 동반한 종양에 대한 국내 보고를 정리해보면, 심재성 낭종성 위염 표면에 선종이나 선암이 존재하여 심재성 낭종성 위염의 악성화 경향을 더욱 시사한다(Table 1). 선암 뿐 아니라, 전암 병변으로 알려져 있는 이형성을 동반한 선종이 발견된 증례는 심재성 낭종성 위염에서 선암까지의 진행성 경향을 추정하는 데 도움이 된다.¹⁰

이번 증례에서 저자들은 병변을 10년 이상 관찰하였는데, 점막하 종양처럼 보였던 심재성 낭종성 위염이 시간이 경과함에 따라 크기가 증가하고 그 표층의 선종도 함께 크기가 증가하여 심재성 낭종성 위염에서 악성화가 진행할 수 있음을 제시하는 예이며, 또한 저도 이형성이 동반된 선종을 내시경 점막하박리술로 치료한 첫 국내 보고이다. 국내 문헌 고찰 시 심재성 낭종성 위염에 고도 이형성을 동반한 선종과 조기위암이 보고된 바, 이번 증례가 저도 이형성 병변을 추가 보고하게 되면서 심재성 낭종성 위염이 전암성 병변으로 향후 위선암으

Table 1. Clinical Characteristics of Gastric Tumor Accompanied with GCP in Unoperated Korean Patients

Authors	Year	Age (yr)/sex	Presenting symptom	Location	Size (cm)	Endoscopic appearance	Diagnosis	Treatment
Kim et al. ³	2001	63/F	Epigastric soreness	Upper body GC side	2.2	SMT	EGC	Wedge resection
Cho et al. ⁶	2004	80/M	Melena	Cardia PW side	1.8	Polyp	EGC	Gastrotomy & polypectomy
Song et al. ¹⁰	2004	59/M	Epigastric discomfort, indigestion	Lower body AW side	4	Nodular elevation	TA with HGD	Subtotal gastrectomy
Park et al. ¹¹	2009	73/F	No symptom	Antrum PW side	3	Nodular elevation	EGC	ESD
		66/M	No symptom	Upper body AW side	1.5	Flat, depressed	EGC	ESD
Moon et al. ⁸	2010	77/M	Abdominal discomfort	1) Antrum 2) Lower body AW side	1, 1.5 0.6	Multiple smooth elevation	EGC	Total gastrectomy
		76/M	Anorexia	1) Antrum GC side 2) Lower body AW side	2.1 0.8	Nodular elevation with central depression Flat elevation	EGC	ESD
Present case	2011	84/F	Subxiphoid pain	Lower body LC side	3.2	SMT	TA with LGD	ESD

GCP, gastritis cystica profunda; M, male; F, female; GC, greater curvature; LC, lesser curvature; AW, anterior wall; PW, posterior wall; SMT, submucosal tumor; EGC, early gastric cancer; TA, tubular adenoma; HGD, high grade dysplasia; LGD, low grade dysplasia; ESD, endoscopic submucosal dissection.

로도 진행할 수 있음을 보여주는 중요한 증례라 할 수 있다.^{3,6,8,10,11}

현재까지 심재성 낭종성 위염은 양성질환으로 반드시 치료가 필요하지 않으며 장관 폐쇄나 출혈 등의 합병증이 동반된 경우에는 치료를 하고, 위암을 배제하지 못하는 경우 진단 목적으로 수술을 시행하기도 한다고 알려져 있다.⁶ 이번 증례의 경우 심재성 낭종성 위염의 동반된 합병증은 없었으나 추적관찰 도중 표층에 위치한 저도 이형성을 보이는 선종의 크기가 점점 증가하여 선종의 치료 목적으로 내시경 점막하박리술을 시행하였다. 심재성 낭종성 위염이 아직까지는 양성 병변으로 알려져 있으며, 점막하 낭성 병변 심부 변연과 근육층 사이의 점막하층의 두께가 얇아 낭성 병변을 모두 포함하여 절제할 경우 천공의 위험성이 높을 것으로 예상되어 점막하층에 위치한 낭성 병변의 표층을 따라 박리함으로써, 점막의 선종 병변만을 제거하고 심재성 낭종성 위염은 남겨두었다. 그러나 시술 다음날 시행한 추적 내시경검사서 그 전날 남아있던 점막하 낭성 병변이 모두 소실되었으며 이는 아마도 위산에 의한 자연소실로 생각된다. 6개월 후에 시행한 추적 내시경검사에서도 여전히 심재성 낭종성 위염은 관찰되지 않았다.

앞서 언급한 국내 보고들을 보면(Table 1) 이전에는 심재성 낭종성 위염과 동반된 고도 이형성이나 점막 또는 점막하 선암에 대하여 수술적 절제가 우선적으로 고려되었던 것에 비하여, 최근 들어서는 내시경 점막하박리술이 선호되는 경향이

다.^{3,6,8,10,11} 이는 내시경 점막하박리술이 기존 수술보다 상대적으로 덜 침습적이라는 장점 때문인 것으로 생각된다. 내시경 점막하박리술을 시행하였던 국내 보고에서, Park 등¹¹은 전정부와 상부체부의 점막에 국한된 2개의 위암 증례들에 대하여 내시경 점막하박리술을 시행하였으며, 절제된 조직에서 그 하부 점막 및 점막하층의 심재성 낭종성 위염 소견이 관찰되었다. 한편 Moon 등⁸은 한 환자의 전정부와 하부체부 전벽에 두 개의 위암이 동시에 발견되어 이를 내시경 점막하박리술로 제거하였는데, 두 병변 모두 위암 하부의 점막하층에서 심재성 낭종성 위염이 발견되었으며 위암은 점막하층까지 침범하였고, 잔존 다발성 점막 병변의 심재성 낭종성 위염 및 악성화 가능성을 고려하여 추가적으로 위전절제술을 시행하였다. 반면 또 다른 환자는 2개의 위암 병변을 동시에 가지고 있었으나 모두 점막층에 국한되어 있어 점막하박리술로 치료되었다. 두 문헌 고찰에서 심재성 낭종성 위염은 점막과 점막하층에 존재하였는데, 점막하층 병변까지 내시경으로 제거하지는 않았다.

이번 증례에서도 심재성 낭종성 위염의 표층에 동반된 저도 이형성 선종을 내시경 점막하박리술로 치료할 때, 심재성 낭종성 위염은 양성 병변이어서 남겨 놓았는데 자연소실되었던 점을 들어, 악성으로 진행되는 표층의 점막 병변에 대한 완전절제가 중요하며 심재성 낭종성 위염에 대한 절제는 불필요함을 조심스럽게 주장한다.

저자들은 위 수술의 기왕력이 없는 환자에서 점막하종양에 동반된 저도 이형성 선종을 장기간 경과관찰하던 중에 선종의 크기가 점점 증가하여 내시경 점막하박리술로 절제하였고, 조직검사에서 저도 이형성을 보이는 관상선종을 동반한 심재성 낭종성 위염 1예를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고한다.

REFERENCES

1. Littler ER, Gleibermann E. Gastritis cystica polyposa. (Gastric mucosal prolapse at gastroenterostomy site, with cystic and infiltrative epithelial hyperplasia). *Cancer* 1972;29:205-209.
2. Franzin G, Novelli P. Gastritis cystica profunda. *Histopathology* 1981;5:535-547.
3. Kim W, Park SC, Lee JY, et al. A case of gastric adenocarcinoma diagnosed after being followed up as submucosal tumor for 10 years. *Korean J Gastroenterol* 2001;37:291-295.
4. Iwanaga T, Koyama H, Takahashi Y, Taniguchi H, Wada A. Diffuse submucosal cysts and carcinoma of the stomach. *Cancer* 1975;36:606-614.
5. Chakrovorty RC, Schatzki PF. Gastric cystic polyposis. *Am J Dig Dis* 1975;20:981-989.
6. Cho HJ, Kim JE, Jeong BJ, et al. A case of gastric adenocarcinoma arising from gastritis cystica profunda. *Korean J Gastrointest Endosc* 2004;28:237-241.
7. Chung IK, Kim EJ, Kim DJ, et al. Clinical significance of endoscopic Ultrasonography in gastritis cystica polyposa. *Korean J Gastrointest Endosc* 2001;22:195-210.
8. Moon SY, Kim KO, Park SH, et al. Gastritis cystica profunda accompanied by multiple early gastric cancers. *Korean J Gastroenterol* 2010;55:325-330.
9. Aoyagi K, Koufuji K, Yano S, et al. Two cases of cancer in the remnant stomach derived from gastritis cystica polyposa. *Kurume Med J* 2000;47:243-248.
10. Song YL, Park JY, Kim YB, et al. A case of gastritis cystica profunda associated with high grade tubular adenoma. *Korean J Gastroenterol* 2004;43:52-55.
11. Park CH, Park JM, Jung CK, et al. Early gastric cancer associated with gastritis cystica polyposa in the unoperated stomach treated by endoscopic submucosal dissection. *Gastrointest Endosc* 2009;69:e47-e50.