

상피하 종양으로 발현한 위저부의 중복 낭종 1예

민현준, 이병무, 김연수, 백광호, 김진봉, 한상학¹
한림대학교 의과대학 내과학교실, 병리학교실¹

A Case of Gastric Duplication Cyst at Fundus Presenting as a Large Subepithelial Tumor

Hyun Jun Min, Byoung Moo Lee, Yeon Soo Kim, Gwang Ho Baik, Jin Bong Kim, Sang Hak Han¹

Departments of Internal Medicine and Pathology¹, Hallym University College of Medicine, Chuncheon, Korea

Gastric duplication cyst is a congenital disease and an uncommon finding in adult patients. Presenting symptoms are often asymptomatic during adulthood. Most cases are discovered incidentally by radiological examination or gastric endoscopy. Preoperative diagnosis of gastric duplication is difficult because definitive diagnosis requires a well-developed coat of smooth muscle with an epithelial lining that represents some portion of the alimentary tract in the lesion. In majority of reported cases, the diagnosis is established by surgical exploration and the treatment is primarily managed by complete excision. We report a case of a gastric duplication cyst in a 40-year-old man. (**Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res 2012;12:256-259**)

Key Words: Stomach; Duplication cyst

서 론

위장관 중복낭종은 초기 배아 발달 이상으로 발생하는 매우 드문 선천성 질환으로, 영, 유아기에는 대부분 복부 종괴, 구토, 복통, 빈혈 등의 증상이 나타나지만 성인에서는 특이한 증상이나 징후가 없이 내시경검사 중 우연히 발견되기도 한다. 위의 중복낭종은 전체 위장관 중복낭종의 약 3.8% 정도를 차지하며, 주로 남자보다 여자에서 더 많이 발생, 소화관과 연결되지 않는 낭성 구조로 위 체부의 대만부에 잘 생기고, 여러 가지 소화관 기형 및 척추기형 등을 동반하기도 한다.

저자들은 건강검진에서 상피하 종양이 의심되어 내원한 40세 남자 환자의 위저부에서 발견된 중복낭종 1예를 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

40세 남자가 개인의원에서 건강 검진 목적으로 시행한 위장조영술에서 상피하 종양이 의심 된다고 하여 내원하였다. 환자는 약간의 소화 불량 증상이 있었으며, 과거력 및 사회력에서

특별한 소견은 없었다. 신체 검진에서 혈압 120/80 mmHg, 맥박수 72회/분, 체온 36.8°C였으며, 흉부 청진 및 복부 진찰에서도 이상 소견은 없었다.

일반 혈액검사에서 백혈구 9,270/mm³, 혈색소 15.5 g/dL, 혈소판 248,000/mm³로 정상 범위였고, 혈청 생화학검사에서 amylase 45 mg/dL, AST 31 IU/L, ALT 53 IU/L, ALP 159 U/L, GGT 90 U/L, 총빌리루빈 1.15 mg/dL이었으며 발암 배아성 항원(CEA) 및 당쇄 항원(CA19-9) 역시 정상범위로 특별한 이상은 발견되지 않았다.

입원 후 시행한 상부위장관 내시경검사에서 위저부에 약 3.8 cm×3.5 cm 크기의 상피하 종양이 발견되었다. 종양은 겹자로 눌러 보았을 때 부드러웠고 표면은 정상 점막으로 덮혀 있었다 (Fig. 1). 상피하 종양의 감별진단을 위해 시행한 초음파 내시경 검사에서 점막하층에 3층으로 보이는 낭성 종괴가 관찰 되었으며, 내부에 특별한 부유물질은 관찰되지 않았다(Fig. 2).

낭종벽과 주변 장기와의 관계를 확인하기 위해 복부 전산화 단층촬영을 시행하였다. 복부 전산화단층촬영에서 3.8 cm 크기의 단방성 낭성 종괴가 위 저부의 후벽으로 돌출되어 있는 상태로 지방종 혹은 위장관 기질 종양(gastrointestinal stromal tumor, GIST)이 의심되었으며, 간이나 폐로의 전이 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 3).

위장관 기질 종양, 위 중복낭종 및 양성종양, 중복낭종에 동반된 기형 혹은 악성 변화 가능성을 고려하여 복강경하 췌기 절제술을 시도하였다. 수술 후 병리학적 검사에서 낭종

Received: July 2, 2012 Accepted: August 29, 2012

Corresponding author: Yeon Soo Kim
Department of Internal Medicine, Hallym University Chuncheon Sacred Heart Hospital, 77, Sakju-ro, Chuncheon 200-704, Korea
Tel: +82-33-240-5646, Fax: +82-33-241-8064, E-mail: kimyeonsoo@hallym.or.kr

Copyright © 2012 Korean College of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research

© The Korean Journal of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research is an Open-Access Journal. All articles are 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.

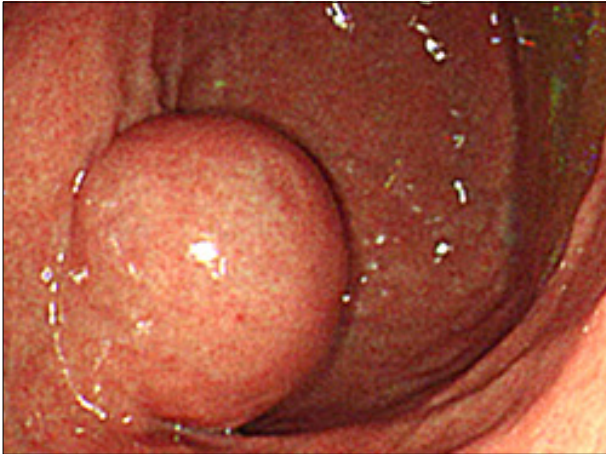


Fig. 1. Gastroduodenoscopic finding. A huge subepithelial tumor with smooth surface is noted at the posterior wall of the fundus.

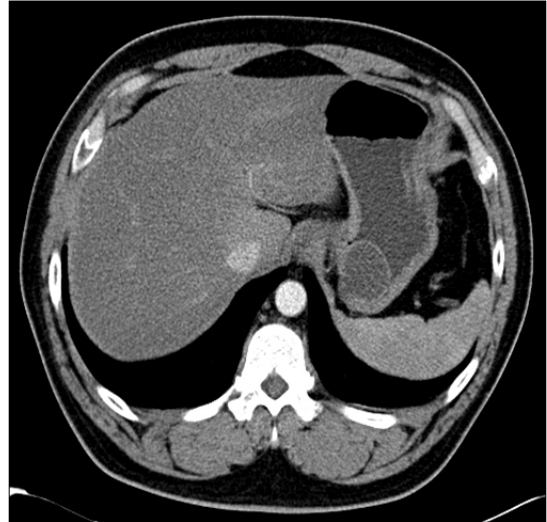


Fig. 3. Abdominal CT scan. It shows 3.8×3.5 cm well defined subepithelial tumor in stomach fundus, without definite additional contrast enhancement.

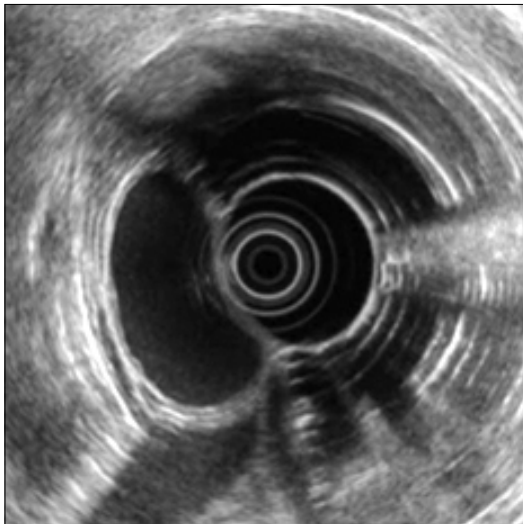


Fig. 2. Endoscopic ultrasound finding. Hypoechoic, uniloculated cyst with several layers in thin wall, consistent with a duplication.

의 내면과 외면이 각각 정상적인 위점막에서 볼 수 있는 원주 상피세포로 덮여있고 이들 사이에 고유근층으로 생각되는 두 개의 평활근층이 있었다. 외면의 점막과 고유근층 사이에 정상적인 점막근판과 점막하층이 있는 반면 내면의 점막은 점막근판과 점막하층 없이 직접 고유근층에 접해 있는 소견이었으며(Fig. 4) 위점막 상피를 확인 하기 위한 알시안 블루(Alcian blue) 염색에서 양성소견으로 중복낭종으로 최종 진단하였다. 수술 후 환자는 특별한 합병증 없이 퇴원하여 현재 경과 관찰 중에 있다.

고찰

소화관 중복증은 드문 선천성 기형으로, 혀의 기저부에서부터 항문까지 장관 내 어디에서나 발생할 수 있다.¹ 회장 말단부가 가장 흔한 호발 부위이며 그 외 식도, 공장, 대장, 위, 충수 돌기 순으로 발생하는 것으로 알려져 있다.²

상대적으로 여성이 남성에 비해 2배의 빈도로 발생하는 것으로 알려졌으며,² 위의 중복낭종은 전체 위장관 중복증의 3.8%이다. 국내 성인에서 위 중복낭종의 빈도는 총 14명(14명)으로(Table 1) 대부분 생후 첫 1년 이내 증상이 발생하기에 성인에서 발견되는 경우는 드물다.

위 중복낭종은 체부의 대만부가 가장 많으며 체부의 후벽, 소만부, 전벽 그리고 유문부의 순으로 발생한다.³ 본 증례에서는 중복낭종이 저부에 위치하고 있어 드문 증례로 생각한다.

중복낭종은 관상 혹은 낭종 형태로 나타나는데, 상대적으로 관상 중복은 드물며 위와 내강이 연결되어 있는 경우(교통성 중복낭종)가 있기는 하나 약 80%에서 위내강과의 연결은 관찰되지 않는다(비교통성 중복낭종).⁴ 발생기전은 정확히 알려져 있지 않지만 게실설(diverticular theory), 관강의 재소통 결손설(aberrant luminal recanalization theory), 척추이상과 동반된 신경-장 중복에서의 척삭분열설(the split notochord theory in neuroenteric duplication)으로 설명하고 있다.⁵

흔한 임상 증상으로는 복부 종괴의 촉진, 구토 그 외 빈혈, 흑색 변, 토혈, 고열 등이며,²⁶ 위치와 크기에 따라 다양하게 나타난다.⁷ 약 35% 정도에서 동반된 기형이 관찰되는데 이분척추(spina bifida)나 반척추(hemivertebra), 척추융합과 측만(vertebral fusion and

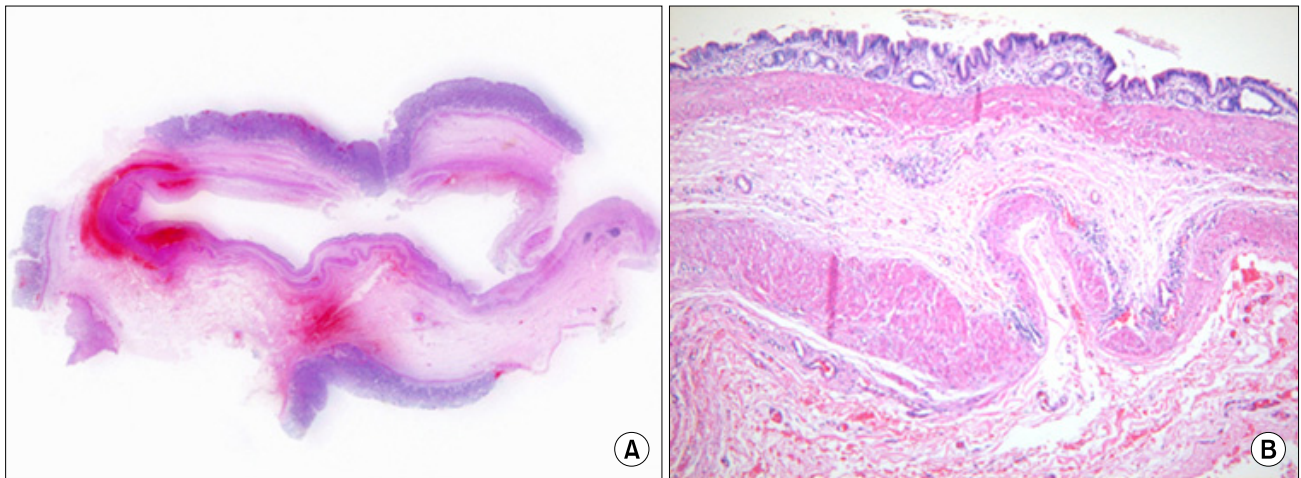


Fig. 4. Histopathologic findings of the resected specimen. (A) Pathologic examination revealed that submucosal mass was a cystic lesion (H&E, slide scan). (B) The cyst was lined by enteric type columnar epithelium with two layered smooth muscle (H&E, ×100).

Table 1. 10 Cases of Adult Gastric Duplication Cyst Reported in Korea

Author	Age/sex	Symptom	Accompanied malformation	Gastric duplication			Diagnostic tool	Treatment
				No	Location	Size (cm)		
Lee et al. ¹⁴	23/F	General weakness, amenorrhea	Gut malrotation	1	Fundus	No data	BE, EGD	No surgery
Moon et al. ¹⁵	51/M	Upper abdominal discomfort	No	1	LC of antrum	1×0.1	EGD	Open surgery
Yun et al. ¹⁶	45/F	Hematemesis	No	1	PW of HB	2×2	EGD	Open surgery
Hwangbo et al. ¹⁷	18/M	Epigastric pain	No	2	Fundus GC of MB	8×7×5 2×2	EGD, US, CT, EUS	Open surgery
Kim et al. ⁵	19/M	Epigastric pain	No	1	Cardia	4×10	EGD, CT	Open surgery
Lee et al. ¹⁸	29/M	Upper abdominal discomfort	No	1	Cardia	5×4×2.5	EGD, CT	Open surgery
Kim et al. ¹⁹	17/F	Postprandial distress, nausea	No	2	Fundus GC of MB	5×2 3×1.5	EGD, CT	Laparoscopic wedge resection
Lim et al. ⁷	17/F	Chronic cough	Dorsalpancreatic agenesis, pulmonary cyst	1	Fundus	9×7	CXR, EGD, CT	Laparoscopic wedge resection
Kang et al. ²⁰	14/M	Melena	No	3	Cardia GC of MB GC of HB	2.5×1.5×1.5, 10×7×6.5, 4×3.3×2	EGD, CT, EUS	Laparoscopic wedge resection
Present case	40/M	Dyspepsia	No	1	Fundus	3.8×3.5	EGD, CT, EUS	Laparoscopic wedge resection

No, number; BE, barium enema; EGD, esophagogastroduodenoscopy; LC, lesser curvature; PW, posterior wall; HB, high body; GC, greater curvature; MB, mid body; US, ultrasonography; CT, computed tomography; EUS, endoscopic ultrasonography; CXR, chest X-ray.

scoliosis) 등이며, 그 외에도 이소성 췌장이나 게실, 다른 소화기에서의 중복낭,⁸ 반복적인 췌장염이나 다낭성 신증과 생식샘 발생장애, 고가스트린혈증, 카르시노이드 등이 동반된 경우도 보고되고 있다.⁹ 중복 낭종에서 선암의 발생도 알려져 있으나, 진단되었을 때 악성 잠재력이 어느 정도인지는 아직 불확실한 상태이다.⁹

진단함에 있어 필요한 요소들로는, 우선 낭종의 벽은 위벽과

붙어있어야 하며, 낭종은 위근층의 연장인 평활근으로 싸여 있어야 하고, 낭종의 내벽은 소화기 장관의 상피세포로 덮여 있어야 한다.¹⁰

이전에는 수술 전 검사를 통한 감별이 어려워 개복술로 진단이 이루어지는 경우가 많았으나, 최근 CT, MRI, 초음파 등의 검사 방법 발달로 낭종의 진단과 감별에 도움을 받을 수 있게

되었다.^{11,12} 복부 초음파검사나 CT, MRI로 낭종벽의 성질을 파악하는 데 어려움은 있을 수 있으나, 취장에서 발생하는 낭종 혹은 가성낭종, 충담관 낭종 등과 감별할 수 있으며, 그 외 낭종벽과 주변 장기와의 관계를 확인할 수 있다. 내시경 초음파검사는 위벽 내, 외 병변의 감별의 도움 및 중복낭종과 평활근종 혹은 지방종과의 감별을 할 수 있고, 저에코의 근육층과 고에코의 점막층을 구분할 수도 있게 되었다.^{11,12} 내시경적 경피 낭종 흡인이 진단과 치료의 목적으로 시도가 되기는 하였으나 출혈, 감염, 루형성(fistula formation) 등의 합병증 및 낭종의 선암 가능성을 배제할 수 없다는 점에서 흡인 여부는 신중하게 결정하여야 한다.¹¹ 국외 문헌을 살펴보았을 때 위장관 중복낭종의 선암 혹은 악성으로 발견되어 보고된 증례는 총 9예로 흔하지 않다.¹³ 그래서 중복낭종에 동반된 기형 혹은 악성 변화에 의한 경우를 제외한다면 외과적 절제로 합병증 없이 치유가 된다고 하며 예후는 양호한 편이다.¹²

최근 건강검진 내시경이 보편화 되고 있는 시점에서 위상피종양이 우연히 많이 발견되고 있다. 본 증례에서는 우연히 발견된 위상피종양에서 흔하게 생각하지 못하는 위중복낭종을 접한 증례로, 위상피종양이 발견되었을 때 위장관기질종양, 평활근종, 지방종 등을 비롯 중복낭종 또한 배제를 하여야 한다는 점을 알릴 수 있는 증례이다. 또한 대부분의 위중복낭종이 생후 1년 내에 발견이 되어 성인에서는 발견하기 힘들다는 점, 체부의 대만부에 가장 많이 발생을 하나, 위저부에 위치하고 있었다는 점을 고려하였을 때 희귀성이 있다고 판단하였다.

최근 보고에 의하면 중복낭종도 내시경적 경피 낭종 흡인이 시도될 수 있으나 본 증례에서는 젊은 연령 및 추후 장기간 추적검사에 대한 환자의 부담감 및 절제하지 않았을 때의 합병증 및 낭종의 선암 가능성을 배제할 수 없어, 수술적 치료를 선택하게 되었으며, 복강경하 수술적 절제를 시행하였다.

참 고 문 헌

1. Park JC, Park JW, Bae IH, Kim SH, Koong SS. Retroperitoneal duplication cyst. *J Korean Surg Soc* 2004;67:256-259.
2. Blinder G, Hiller N, Adler SN. A double stomach in an adult. *Am J Gastroenterol* 1999;94:1100-1102.
3. Kim HJ, Lee BC, Kweon HJ, et al. A case report of gastric duplication cyst. *Korean J Gastroenterol* 1998;31:112-116.
4. Wieczorek RL, Seidman I, Ranson JH, Ruoff M. Congenital duplication of the stomach: case report and review of the English literature. *Am J Gastroenterol* 1984;79:597-602.
5. Bentley JF, Smith JR. Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations: the split notochord syndrome. *Arch Dis Child* 1960;35:76-86.
6. Soper RT, Selke AC. Duplication cyst of the duodenum: case report and discussion. *Surgery* 1970;68:562-566.
7. Lim SM, Lee H, Jeon EJ, et al. Gastric duplication cyst associated with dorsal pancreatic agenesis and a cystic pulmonary lesion. *Korean J Med* 2009;76:203-208.
8. Torma MJ. Of double stomachs. *Arch Surg* 1974;109:555-557.
9. Cunningham SC, Hansel DE, Fishman EK, Cameron JL. Foregut duplication cyst of the stomach. *J Gastrointest Surg* 2006;10:620-621.
10. Rowling JT. Some observations on gastric cysts. *Br J Surg* 1959;46:441-445.
11. Maeda H, Okabayashi T, Nishimori I, et al. Diagnostic challenge to distinguish gastric duplication cyst from pancreatic cystic lesions in adult. *Intern Med* 2007;46:1101-1104.
12. Kim PN, Kim IY, Lee BH. CT finding of an esophageal duplication cyst—a case report. *J Korean Radiol Soc* 1989;25:294-296.
13. Zheng J, Jing H. Adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst. *Surg Oncol* 2012;21:e97-101.
14. Lee WH, Yoon KL, Shin GJ, Lee SN, Lee YK. A case of duplication of gastric fundus associated with mal-rotation of the gut and anemia. *Korean J Med* 1983;26:312-318.
15. Moon SC, Kim BS, Kim DM, et al. A case of gastric duplication masquerading as gastric submucosal tumor. *Korean J Gastroenterol* 1997;29:118-121.
16. Yun JH, Choi DG, Oh SY, et al. A case of gastric duplication in adult. *Korean J Gastroenterol* 1997;29:836-840.
17. Hwangbo K, Lee CW, Yun SK, et al. A large gastric duplication cyst resembling a pancreatic pseudocyst in an adult: report of one case. *Korean J Gastrointest Endosc* 1998;18:719-725.
18. Lee HJ, Cho SJ, Yang HK, Lee KU, Choe KJ. Gastric duplication: a case report. *J Korean Surg Soc* 1999;57:909-913.
19. Kim HY, Park DJ, Lee HS, et al. Laparoscopic resection of multiple gastric duplication cysts in an adult. *J Korean Surg Soc* 2006;71:469-474.
20. Kang SH, Shim KN, Tae CH, et al. A case of multiple gastric duplication cysts presenting with melena. *Korean J Gastrointest Endosc* 2011;42:378-382.