

담췌관 확장을 동반한 바터 팽대부의 선근종 1예

국립암센터 간암센터 hepatobiliary클리닉

김선아 · 우상명 · 홍은경 · 한성식 · 박상재 · 고영환 · 이주희 · 이우진

Ampulla of Vater Adenomyoma with Dilatations of Biliary and Pancreatic Duct

Seon A Kim, Sang Myung Woo, Eun Kyung Hong, Sung-Sik Han, Sang-Jae Park, Young Hwan Koh, Ju Hee Lee, Woo Jin Lee

Pancreato-biliary Cancer Clinic, Center for Liver Cancer, National Cancer Center, Goyang, Korea

Adenomyoma is a non-neoplastic lesion that frequently occurs in the gallbladder, but it's rarely found at the ampulla of Vater. When it develops at the ampulla of Vater, it may be mistaken for a periampullary malignancy. A 64-year-old asymptomatic male patient visited to our hospital with abnormal sonogram findings. Abdominal computed tomography and magnetic resonance cholangiopancreatography showed dilatations of common bile duct and main pancreatic duct. However, there was no definite ampullary mass. We performed endoscopic biopsies and endoscopic ultrasonography-guided fine needle aspiration. But the results were negative for malignant cells. Because we could not completely rule out malignancy, pylorus preserving pancreato-duodenectomy was performed. Histologically, hyperplastic components are intermixed with smooth muscle fibers in the subepithelial portion of ampulla of Vater. Awareness of adenomyoma of the ampulla of Vater is very important because of their clinical and endoscopic similarities to ampullary tumors.

Korean J Pancreatobiliary 2016;21(1):29-33

Received May. 28, 2015
Revised Sep. 30, 2015
Accepted Oct. 22, 2015

Corresponding author: Woo Jin Lee

Pancreato-biliary Cancer Clinic, National Cancer Center, 323 Ilsan-ro, Ilsandong-gu, Goyang 10408, Korea
Tel. +82-31-920-1612 Fax. +82-31-920-1138
E-mail; lwj@ncc.re.kr

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.

Copyright © 2016 by The Korean Journal of Pancreas and Biliary Tract

Keywords: Adenomyoma, Adenomyomatous hyperplasia, Ampulla of Vater

서론

선근종(adenomyoma, adenomyomatous hyperplasia)은 간담도계와 위장관계의 양성 병변으로 주로 담낭에서 발생하나 간외담관, 십이지장, 소장 등에서 발생한 증례가 보고된 바 있고 바터 팽대부에서 발생하는 경우는 매우 드물다.¹ 이 병변은 조직학적으로 평활근 세포의 과증식을 포함하면서 관이나 선 모양의 상피 조직의 증식이 함께 보이는 것이 특징이다.² 대부분은 비특이적으로 우연히 발견되지만 발생 위치에 따라 상복부 통증이나 황달 등의 증상이 나타날 수도

있다. 이 질환 자체는 양성이나 악성 종양과 감별이 어려워 수술에 이르게 되는 경우가 많다.^{3,4} 저자들은 무증상 환자에서 담췌관 확장과 종괴를 동반한 바터 팽대부의 선근종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례

64세 남자 환자가 건강검진시 복부 초음파에서 발견된 담췌관 확장 소견으로 내원하였다. 과거력에서 1년 전 당뇨와 이상지질혈증 진단받고 약물 복용 중이었다. 환자는 현재 흡

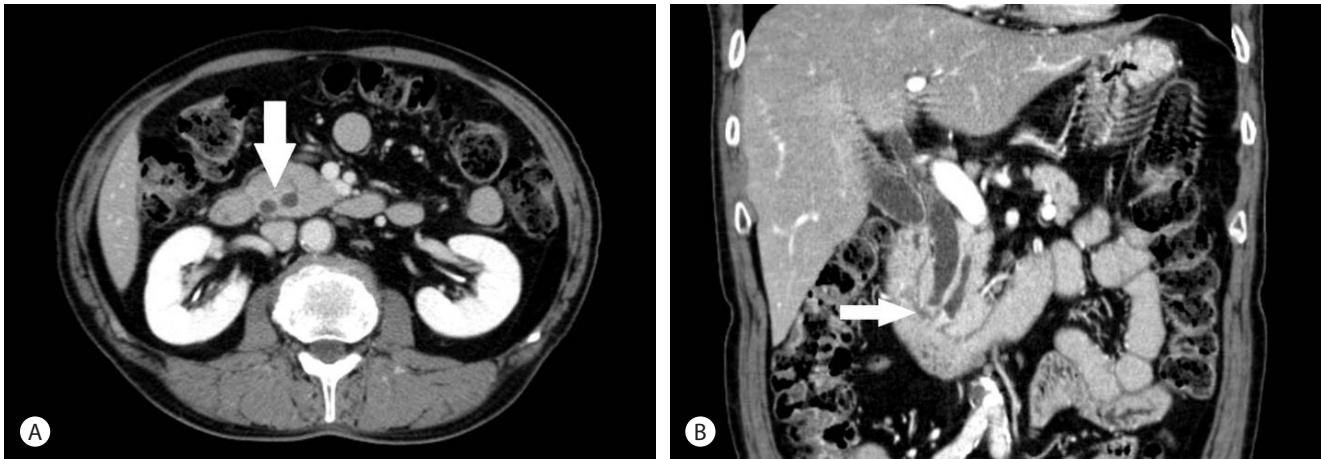


Fig. 1. Abdomen computed tomography findings. (A, B) It shows dilations of common bile duct and main pancreatic duct and abrupt cut-off at the distal common bile duct and main pancreatic duct (arrows). However, there is no definite mass.

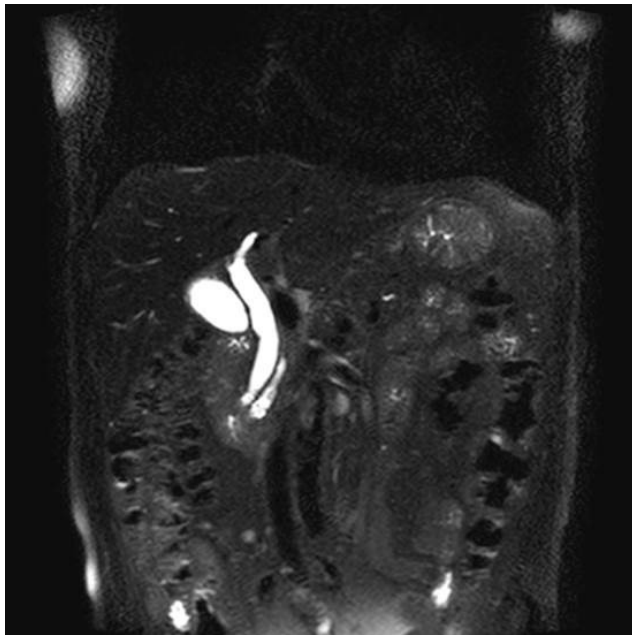


Fig. 2. Abdomen magnetic resonance imaging findings. It shows common bile duct and main pancreatic duct dilations. However, there is no definite mass.



Fig. 3. Duodenoscopic finding. There is no definite ampullary mass or ulcer.

연자로서 20갑년의 흡연력이 있었고, 소주 1병씩 주 1-2회 가량 35년의 음주력이 있었다. 추가적인 검사 및 치료 위해 입원하였으며 입원시 생체 활력 징후는 혈압 109/65 mmHg, 맥박수 84회/분, 호흡수 18회/분, 체온 36.3°C였다. 신체 검사에서 복부 압통이나 반발통 및 만져지는 종괴는 없었다. 말초혈액검사에서 백혈구 8,040/mm³, 헤모글로빈 13.7 g/dL, 헤마토크리트 38.9%, 혈소판 255,000/mm³였다. 간기능 검사에서 총빌리루빈 0.5 mg/dL, AST 11 IU/L, ALT 7 IU/L, 알칼리성 포스파타제 40 IU/L, GGT 26 IU/L, amylase 51 U/L

였고 종양표지자는 CA 19-9 < 5 U/mL, CEA 2.4 ng/mL였다.

내원하여 시행한 복부 전산화 단층촬영(computed tomography, CT) 사진(Fig. 1)과 자기공명 영상(magnetic resonance imaging, MRI) 사진(Fig. 2)에서 간내담관과 총담관, 주췌관의 확장 및 바터 팽대부 근처에서 급격한 절단(abrupt cut-off) 소견이 관찰되었다. 하지만 뚜렷한 종괴는 의심되지 않았다. 십이지장경 소견에서 유두부 점막은 정상으로 종괴는 보이지 않았으며, 검자로 눌러보았을 때 딱딱하지 않았다. 내시경적 역행성 담췌관조영술(endoscopic retrograde

cholangiopancreatography, ERCP)을 시행하였고 개구부 (orifice)를 찾지 못하여 누두절개술(infundibulotomy) 후 췌관 배액관을 삽입하고 담관 조영을 시도하였으나 담관 삽입에 실패하여 조직검사만 하였다(Fig. 3). 결과에서 만성 염증 소견을 보였다. 초음파 내시경(endoscopic ultrasonography)에서 담관의 확장과 원위부 담관의 급격한 절단 소견이 관찰되었으나 종괴는 명확하지 않았다. 원위부 담관의 급격한 절단 부위를 집중적으로 세침흡인술을 시행하였으나 역시 악성 세포는 관찰되지 않았다(Fig. 4). 조직학적으로 암이 확진되지는 않았지만 영상학적 소견 등을 미루어 볼 때



Fig. 4. Endoscopic ultrasonographic finding. Common bile duct dilatation and abrupt cut off is shown. There is no definite ampullary mass.

팽대부 주위암을 완전히 배제할 수 없다고 판단되어 유문 보존 췌십이지장절제술(pylorus preserving pancreato-duodenectomy)을 시행하였다. 수술 조직의 육안소견에서 원위부 총담관과 주췌관의 확장을 보이고 내강으로 약간 융기된 결절성 병변이 관찰되나 뚜렷한 종괴는 아니었다(Fig. 5). 현미경소견에서 바터 팽대부는 십이지장 점막으로 잘 덮여있고 내강 내에 상피세포 증식을 보이는 종괴를 확인할 수 있으며 고배율에서 보았을 때 불규칙한 상피세포 증식을 보이는 선조직이 평활근 세포 사이에 산재되어 있었다(Fig. 6). 그러나 악성 세포는 관찰되지 않았다. 따라서 이형성증보다는 비중

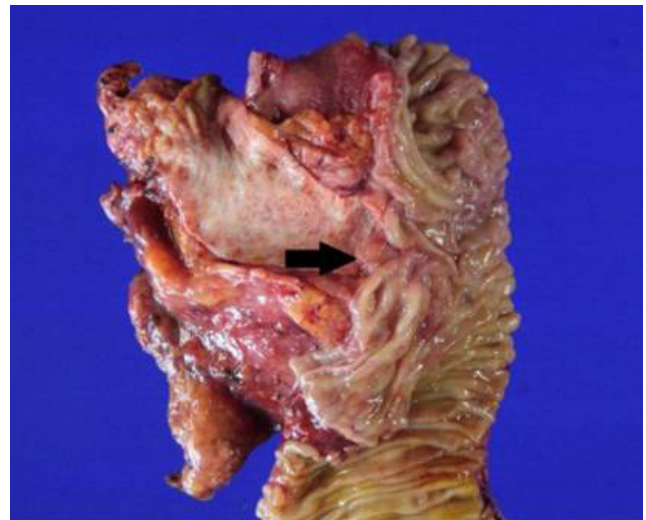


Fig. 5. Gross finding of surgical specimen. It shows dilations of common bile duct. There is a slightly elevated nodular lesion (arrow).

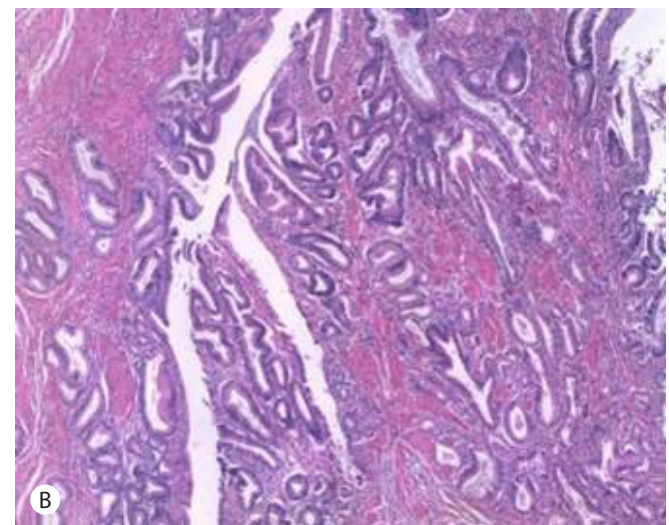
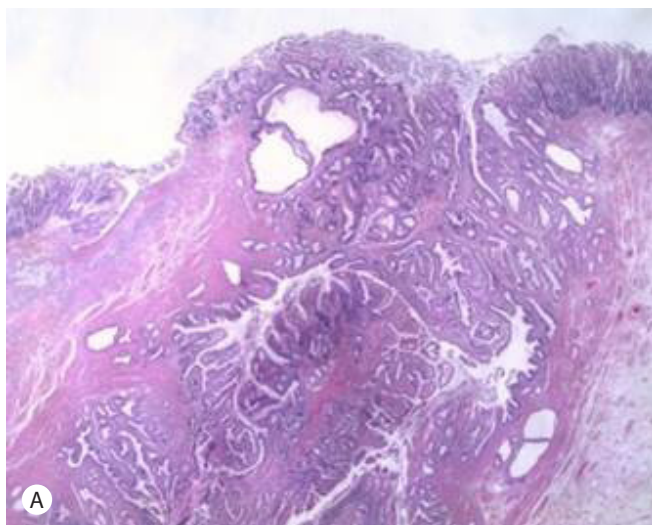


Fig. 6. Microscopic findings. (A) Proliferated glandular components are intermixed with smooth muscle fibers in the subepithelial portion of the ampulla of Vater (Hematoxylin and eosin stain, $\times 12.5$). (B) The mucosa of ampulla of Vater is composed of irregularly branched hyperplastic glands of pancreatobiliary type epithelium (Hematoxylin and eosin stain, $\times 40$).

양성 선근종에 합당한 소견이었다. 환자는 수술 후 9개월째 외래에서 추적관찰 중이다.

고 찰

선근종은 상피와 평활근 조직의 증식을 보이는 결절성 병변으로, 악성 전환을 하지 않는 양성 질환이다. 간담도계와 위장관의 어디에서나 발생할 수 있으나 담낭 기저부에서 흔하게 발생하고 바터 팽대부를 포함한 간외담도에서는 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다.^{1,2} 바터 팽대부의 선근종은 주로 복통이나 폐쇄성 황달로 발현하지만³⁻⁶ 급성 췌장염으로 발현한 증례가 보고된 바 있고,^{7,8} 복통을 동반한 만성 췌장염으로 발현하기도 하였으며,⁹ 본 증례와 같이 무증상으로 건강검진시 우연히 발견되기도 한다.^{1,10}

영상학적인 검사에서는 담관의 확장 및 팽대부 주위에 1-2 cm 크기의 종괴 소견으로 관찰되지만 병변이 작아 수술 전에는 양성과 악성의 명확한 감별이 어렵다.¹ 이전 증례에서 명확한 종괴 없이 담관의 확장만 보였던 경우도 있고,⁴ 췌두부의 종괴나 원위부 총담관의 종괴가 수술 후 바터 팽대부의 종괴로 최종 진단된 경우도 있다.¹² 드물게 췌관 확장이 동반되는데,^{9,11-13} 이는 종괴가 커지면서 발생하는 것으로 여겨진다. 본 증례에서는 CT 및 MRI에서 간내담관, 총담관뿐만 아니라 주췌관의 확장이 동반된 이중관 징후(double duct sign)를 보여 악성 종양의 가능성을 배제할 수 없었으나 종괴가 뚜렷하지는 않았다.

선근종의 경우 십이지장 내로 돌출되어 있지 않으면 ERCP로 진단이 어렵다. 본 증례에서도 비노출형으로 명확한 형태를 보이지 않아 ERCP를 시행하였을 때 개구부를 찾을 수 없어 삽관에 실패하였다. 선근종은 조영시 담관 또는 담체관의 동시 확장, 충만 결손(filling defect), 지연 배출(delayed passage) 및 폐쇄를 보인다는 점에서는 악성 종양과 유사하다. 그러나 크기가 비교적 작고 종괴가 불분명하며 육안 소견에서 표면 점막이 매끈하고 생검 검자로 눌러보았을 때 딱딱하지 않다는 점에서 차이가 있다. 또한 궤양이나 자발성 출혈이 없다. 그러나 이와 같은 ERCP 소견이 확정적인 것은 아니며 확진을 위해서는 조직 검사가 필수적이다. 선근종은 크기가 비교적 작고 점막하층이나 근육층에 위치하고 궤양을 형성하지 않아 생검을 통한 진단율은 낮다. 따라서 조직검사 결과는 점막하층이 포함되지 않고 염증이거나 궤양 또는 저등급 이형성으로만 나올 수 있다. 그러므로 내시경적

유두괄약근절개술(endoscopic sphincterotomy) 후 내시경적 유두절제술(endoscopic papillectomy)이나 올가미 절제술 등을 시행하고 여러 개의 조직을 얻어야 한다. 한 보고에 의하면 ERCP를 시행한 3,131명의 환자 중 4명에서 바터 팽대부의 선근종이 진단되었으며 이 중 2명만이 내시경으로 진단되었다.³ 본 증례의 내시경하 생검 결과에서도 만성 염증 및 섬유화 소견만 관찰되었다.

감별 진단 및 조직 검사를 위해 내시경초음파 유도하 세침흡인술을 시행할 수도 있다. 내시경초음파에서는 비교적 작은 크기의 경계가 불분명한 병변으로 보이기도 한다. 본 증례에서는 담체관의 확장 및 급격한 절단 소견이 동반된 것을 확인할 수 있다.⁷

비노출형 유두부 선근종은 담석 및 십이지장염과 관련된 만성 유두염과도 감별해야 한다. 만성 유두염의 조직학적 소견은 섬유화 및 만성 염증을 동반한 선모양의 관조직의 증식으로 나타날 수 있는 반면, 본 증례와 같은 선근종에서는 명확한 섬유화보다는 소관(ductule)과 평활근 세포의 증식이 혼재된 양상으로 관찰되며 장막(serosa)까지 침범하기도 한다.⁶ 이러한 선구조의 증식이 침윤성 선암과 감별을 어렵게 하는 것이 광범위한 절제술을 시행하게 되는 이유이다.

최근에는 면역조직화학염색을 통해서 선근종 및 선근종성 증식증과 악성 종양을 감별하는데 도움이 될 수 있다는 보고도 있다.¹⁴

내시경적 유두절제술 및 잔류 종양에 대한 분할 절제, 올가미 절제술로 절제수술을 피한 예도 있고,^{8,10,13} 내시경하 생검에서 국소적 선종이 의심되어 내시경적 유두절제술을 시행한 결과 바터 팽대부의 선근종으로 진단되어 수술을 피한 증례도 보고된 바 있다.¹³

수술 중 냉동 조직 절편 검사는 병변의 악성 여부를 판별할 수 있으므로 이를 통해 광범위 수술을 피할 수 있었다는 증례가 있다.⁵ 그러나 냉동 조직 절편 검사를 시행하였음에도 불구하고 진단할 수 없어 췌십이지장절제술 후 최종 진단이 된 증례도 보고되어 있다.^{2,11} 또한 냉동 조직 절편 검사에서 악성을 배제할 수 없었으나 팽대부 종괴가 형태가 명확하고 총담관의 침범 증거가 없어서 팽대부 절제술만 시행한 경우도 있다.¹⁵

바터 팽대부의 선근종은 양성 질환이지만 임상상 및 내시경적, 영상학적 검사 소견으로는 선종 또는 악성 종양으로 오인할 수 있으므로 유두부절제술 등을 시행하여 감별진단을 하려는 노력이 필요하다. 그럼에도 불구하고 악성 종양과

감별되지 않으면 췌십이지장절제술과 같은 광범위 절제술이 불가피하므로 임상적으로 중요한 의의를 가진다. 저자들은 담관 뿐만 아니라 췌관의 확장을 동반하여 팽대부 주위암과 감별이 어려웠던 바터 팽대부의 선근종 증례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

요 약

선근종은 간담도계와 위장관계의 양성 병변으로 주로 담낭에서 발생하며 바터 팽대부에서 발생하는 경우는 매우 드물다. 본 증례는 64세 남자 환자의 검진 초음파에서 우연히 발견된 담췌관 확장 소견으로 CT 및 MRI 검사를 시행하여 바터 팽대부의 암종을 의심하였고, 내시경 조직검사와 초음파 유도하 세침흡인술에서 악성 세포가 발견되지 않았으나 팽대부 주위암을 완전히 배제할 수 없어 유문 보존 췌십이지장절제술을 시행하여 병리학적 검사 결과에서 선근종으로 최종 진단된 예이다. 바터 팽대부의 선근종은 팽대부 주위암과 감별이 어려워 임상 의사의 주의를 요구되며 악성 종양의 가능성을 배제할 수 없는 경우 수술적 절제를 통해 최종 진단이 가능하겠지만 내시경적 유두절제술 등의 적극적인 검사를 통해 불필요한 수술을 피하려는 노력도 필요하겠다.

국문 색인: 선근종, 선근종성 증식증, 바터 팽대부

Conflicts of Interest

The author has no conflicts to disclose.

REFERENCES

1. Handra-Luca A, Terris B, Couvelard A, Bonte H, Flejou JF. Adenomyoma and adenomyomatous hyperplasia of the Vaterian system: clinical, pathological, and new immunohistochemical features of 13 cases. *Mod Pathol* 2003;16:530-536.
2. Ulich TR, Kollin M, Simmons GE, Wilczynski SP, Waxman K. Adenomyoma of the papilla of Vater. *Arch Pathol Lab Med* 1987;111:388-390.
3. Hammarstrom LE, Holmin T, Stenram U. Adenomyoma of the ampulla of Vater: an uncommon cause of bile duct obstruction. *Surg Laparosc Endosc* 1997;7:388-393.
4. Kumari N, Vij M. Adenomyoma of ampulla: a rare cause of obstructive jaundice. *J Surg Case Rep* 2011;2011:6.
5. Kayahara M, Ohta T, Kitagawa H, Miwa K, Urabe T, Murata T. Adenomyomatosis of the papilla of Vater: a case illustrating diagnostic difficulties. *Dig Surg* 2001;18:139-142.
6. Narita T, Yokoyama M. Adenomyomatous hyperplasia of the papilla of Vater: A sequela of chronic papillitis? *Ann Diagn Pathol* 1999;3:174-177.
7. Kwon TH, Park do H, Shim KY, et al. Ampullary adenomyoma presenting as acute recurrent pancreatitis. *World J Gastroenterol* 2007;13:2892-2894.
8. Rafiullah, Tanimu S. Adenomyomatous hyperplasia of the ampulla of Vater presenting as acute pancreatitis. *BMJ Case Rep* 2014;2014.
9. Moyana TN, Miller GG, Keith RG. Sporadic ampullary hamartoma simulating cancer. *Can J Surg* 1997;40:227-230.
10. Choi YH, Kim MJ, Han JH, et al. Clinical, pathological, and immunohistochemical features of adenomyoma in the ampulla of vater. *Korean J Gastroenterol* 2013;62:352-358.
11. Bedirli A, Patiroglu TE, Sozuer EM, Sakrak O. Periampullary adenomyoma: report of two cases. *Surg Today* 2002;32:1016-1018.
12. Kim JW, Jang JY, Han SS, Choi MK, Kim SH, Park YH. Adenomyoma of the Vaterian ampulla. *Korean J Hepatobiliary Pancreat Surg* 2004;8:258-261.
13. Lee BU, Bang JS, Yang SH, et al. A case of ampullary adenomyoma associated with dilatations of pancreatic and biliary ducts. *Korean J Gastrointest Endosc* 2010;40:391-395.
14. Higashi M, Goto M, Saitou M, et al. Immunohistochemical study of mucin expression in periampullary adenomyoma. *J Hepatobiliary Pancreat Sci* 2010;17:275-283.
15. Jang KT, Heo JS, Choi SH, et al. Adenomyoma of ampulla of Vater or the common bile duct. *Korean J Pathol* 2005;39:59-62.