

캡슐내시경과 단일풍선 소장내시경으로 진단된 공장의 간질종양 1예

송도경 · 심기남 · 태정현 · 김경진 · 송명은 · 송하음 · 윤혜원 · 정가영 · 정정화

이화여자대학교 의학전문대학원 내과학교실

A Case of Jejunal Gastrointestinal Stromal Tumor Diagnosed by Videocapsule Endoscopy and Single-Balloon Enteroscopy

Do-Kyeong Song, Ki-Nam Shim, Chung Hyen Tae, Kyeong Jin Kim, Myung-Eun Song, Ha Eung Song, Hye-Won Yun, Ka-Young Jung, Jung-Wha Chung

Department of Internal Medicine, Ewha Womans University School of Medicine, Seoul, Korea

Gastrointestinal stromal tumors (GISTs) are common mesenchymal tumors that arise in the wall of the gastrointestinal tract. We report a case of obscure gastrointestinal bleeding due to a GIST of the jejunum successfully documented by videocapsule endoscopy (VCE) and single-balloon enteroscopy (SBE). A 36-year-old man with hematochezia was referred for further evaluation of no evidence of bleeding focus on esophagogastroduodenoscopy and colonoscopy. A VCE showed a suspicious ulcerative hyperemic mass that located in about 1 hour apart from duodenal second portion. SBE revealed a nonbleeding 4×2 cm mass with an ulcer at the proximal jejunum. The patient underwent laparoscopic resection without complication. Histological examination revealed a well circumscribed, dumbbell-shaped firm mass comprised of spindle cells. Immunohistochemical staining for CD 117 was diffusely positive, whereas staining for S-100, CD 34 and MIB-1 was all negative. It was confirmed to be a low-grade GIST at the proximal jejunum. (**Ewha Med J 2012;35(2):114-118**)

Key Words: Capsule endoscopy; Enteroscopy; Gastrointestinal stromal tumor; Jejunum

서 론

위장관간질종양(gastrointestinal stromal tumor, GIST)은 비상피성 종양 중 간엽조직에서 기원하며 전체 위장관 악성종양의 1% 이하를 차지하고 이 중 20~40%가 소장에 발생한다. 위장관간질종양은 다른 목적의 수술 중에 우연히 발견되거나, 위장관 관련 증상이 있는 경우 원인을 찾기 위한 방사선 조영술이나 내시경

검사, 복부 전산화단층촬영 등에서 우연히 발견되는 경우가 많다. 임상증상은 종양의 위치에 따라 서로 다르게 나타날 수 있으며 복부통증, 소화불량, 체중감소 등 비특이적 증상이 대부분이나, 드물게는 장천공이나 출혈 등을 유발할 수 있다[1-3]. 저자들은 원인 불명의 위장관 출혈을 주소로 내원한 환자에서 캡슐내시경(capsule endoscopy)과 단일풍선 소장내시경(single balloon enteroscopy)을 통해 성공적으로 공장의 위장관간질종양을 진단한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: May 20, 2012, Accepted: July 8, 2012

Corresponding author: Ki-Nam Shim, Department of Internal Medicine, Ewha Womans University School of Medicine, 1071 Anyangcheon-ro, Yangcheon-gu, Seoul 158-710, Korea
Tel: 82-2-2650-2632, Fax: 82-2-2655-2076
E-mail: shimkn@ewha.ac.kr

증 례

평소 건강히 지내던 36세 남자 환자가 아침부터 시

작된 혈변을 주소로 내원하였다. 환자는 내원 전 방문한 개인 병원에서 상부 및 S상 결장경 검사를 시행하였으나 출혈 병소를 찾을 수 없었다. 내원 당시 혈압은 150/90 mmHg, 맥박 분당 120회, 호흡수 분당 22회, 체온 36.8°C이었다. 급성병색을 띠고 있었으며, 결막은 약간 창백한 소견을 보였다. 심음 및 호흡음은 정상이었으며, 복부 진찰에서 만져지는 종괴는 없었지만 직장수지 검사에서 혈변이 관찰되었다. 말초혈액 검사에서 혈색소 13.1 g/dL, 헤마토크리트 38.0%, 백혈구 11,600/mm³, 혈소판 312,000/mm³이었고, 혈청생화학검사서 혈청 총 단백 5.1 g/dL, 알부민 3.0 g/dL, 혈액요소질소 32 mg/dL, 크레아티닌 0.9 mg/dL이었



Fig. 1. Capsule endoscopic finding. It shows a suspicious huge ulcerative hyperemic mass that located in about 1 hour apart from duodenal second portion.

고, AST 15 IU/L, ALT 15 IU/L, 총 빌리루빈 1.4 mg/dL이었다. 혈변의 출혈 병소를 밝히기 위해 시행한 대장내시경 검사에서 특별한 출혈 소견이 없었고, 혈관조영술이 포함된 복부 전산화단층촬영에서도 특이 소견은 발견되지 않았다. 원인불명의 위장관 출혈 병소를 밝히기 위해 캡슐내시경 검사를 시행하였다. 캡슐내시경 검사에서 십이지장 2부로부터 1시간 떨어진 공장에 돌출되어 있는 궤양성 종양이 관찰되었다. 종양의 점막은 충혈되어 있었으며, 중심부에 비교적 평탄한 궤양이 회백색의 삼출물로 덮여 있었다(Fig. 1). 근위부 공장의 궤양성 종양을 출혈성 병변으로 의심하여 단일풍선 소장내시경을 시행하였다. 구강을 통해 접근한 단일풍선 소장내시경에서 Treitz 인대 약 140 cm하방에 4 cm가량의 중심에 평탄한 궤양을 동반한 관강 내로 돌출된 종괴가 관찰되었다(Fig. 2). 조직학적 진단과 치료를 위해서 복강경을 이용한 공장부분 절제술을 시행하였다. 병리학적 소견은 4.4×2.2 cm로 아령모양의 용종형 종괴로 단면에 중심부 괴사를 보였다. 현미경 소견에서 종양은 점막하에서 점막하층에 걸쳐 위치하고 있었으며, 방추세포형을 보였다(Fig. 3). 면역조직화학염색에서 c-kit 양성, S-100, CD 34는 음성이었으며, 유사분열은 1/50 HPF로 저악성도로 평가되어 저악성도의 소화관 간질종양으로 진단되었다. 환자는 수술 후 경과 양호하여 외래 관찰 중으로, 더 이상의 혈변은 없었다.

고 찰

위장관간질종양은 위장관에서 발생하는 가장 흔한 비상피성 종양이며, 순수한 평활근 또는 신경성 분화를 보이지 않는 kit (CD 117, stem cell factor receptor)

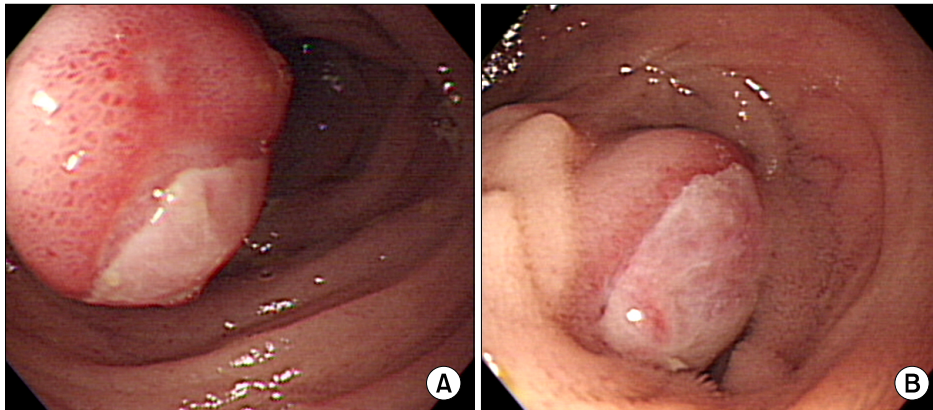


Fig. 2. Single balloon enteroscopic findings. (A) It shows a hyperemic ulcerative mass at proximal jejunum, and (B) the round central ulceration is covered with exudates.

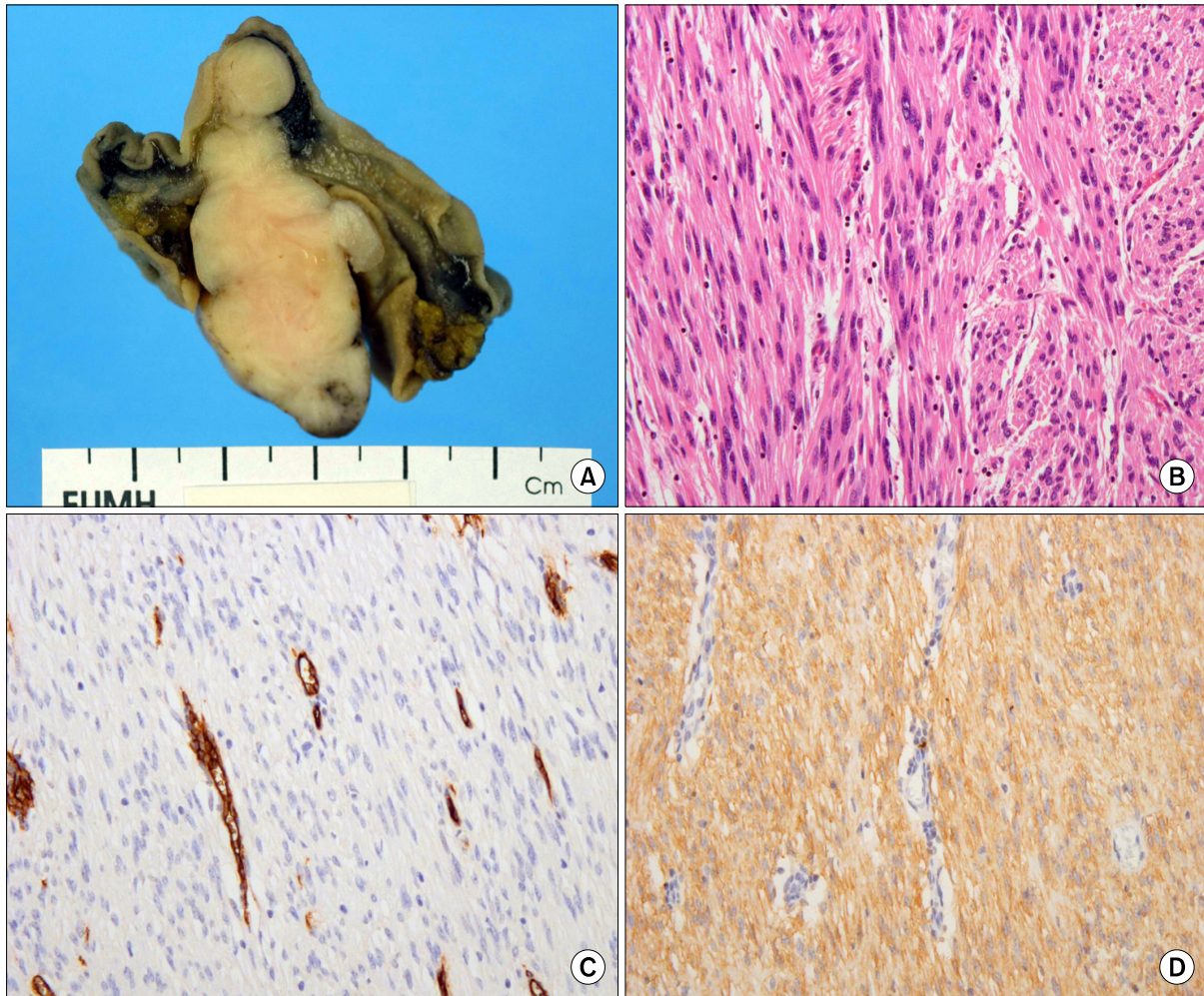


Fig. 3. Pathologic findings. (A) There is a 4.4×2.2 cm sized dumbbell shaped polypoid mass with well defined margin. (B) It is composed of spindle cells with a little mitotic activity (1 mitosis/50 HPF; H&E, ×400). (C) The staining of CD 34 is negative. (D) The staining of CD 117 (c-kit) is positive.

양성의 비상피성 중간엽 종양으로 정의되고 있다. 위장관의 근장신경총(myenteric plexus)과 평활근세포 사이에 위치하며 위장관의 연동운동을 조절하는 속도 조절(pacemaker)세포인 Cajal 간질세포(interstitial cell of Cajal)가 위장관간질종양과 동일하게 CD 117, CD 34, vimentin에 양성인 반면 근육과 신경특성을 동시에 가지고 있어 그 기원으로 인정되고 있다[2].

위장관간질종양의 발생빈도는 10만 명당 10~20명으로 매우 낮은 편이며 전체 위장관 악성종양의 1% 이하를 차지한다. 주로 55세에서 65세 사이에 호발하고 남녀 간의 발생빈도의 차이는 보이지 않으며, 위에서 60~70%, 소장에서 20~30%, 대장과 직장에서 5%

그리고 식도에서는 5% 미만으로 발생한다. 대부분은 무증상으로 우연히 발견되는 경우가 많고, 종양의 크기나 발생한 장기의 위치에 따라 증상은 매우 다양하게 나타날 수 있다. 위나 소장에서 발생한 경우는 식욕감퇴나 복부 불편감 등의 비특이적인 증상이 대부분이며, 대장이나 직장의 경우는 하부장관출혈, 장천공, 장폐쇄, 복통 등의 증상이 나타날 수 있다. 드물게 다량의 위장관 출혈이나 종양의 파열 등으로 인해 응급 수술이 필요한 경우도 있다.

위장관간질종양의 진단으로는 내시경검사, 위장관 조영술, 복부초음파검사, 내시경 초음파검사, 복부 전산화단층촬영 등이 이용될 수 있다. 내시경검사와 위

장관 조영술에서 관강 내로 돌출되는 종양과 종양 중심부의 궤양이 특징적인 소견이며, 초음파검사에서는 종양의 내부에 초생달 모양의 종양괴사와 같은 소견이 있는 경우 간질종양을 의심할 수 있다. 내시경 접근이 가능한 경우라도 생검으로는 점막조직만 얻어지는 경우가 대부분이어서 진단율은 50%를 넘지 않으며, 내시경 생검으로 종양의 악성도를 측정하는 것은 부적합하므로 확진을 위해서는 수술이 필요하다. 복부 전산화단층촬영에서 양성 위장관간질종양은 대부분 균질하며 근육과 비슷한 정도의 음영을 보이며, 악성일 경우에는 크기가 크고 종종 비균질성 음영 및 내부에 괴사 또는 낭성변성을 시사하는 저음영 부위를 포함하기도 한다. 내시경의 접근이 어려운 장관에 발생한 위장관간질종양의 경우에 혈관조영술이 진단에 이용될 수 있으며 과혈관성 종양의 형태를 나타낸다. 악성을 시사하는 소견으로는 불분명한 경계와 비균질성의 종양조영이 있으며, 반대로 분명한 경계를 가지며 균질한 종양조영을 보이는 경우에 양성을 예측할 수 있다[3,4]. 원인불명의 출혈 형태로 나타났을 때 기존의 상부위장관내시경과 대장내시경 검사로는 부분적인 검사만 가능하다. 이외에도 출혈의 병변을 찾기 위하여 고위관장법, 복부 전산화단층촬영, 혈관조영술, 적혈구 스캔과 같은 방사선학적, 핵의학적인 방법이 있으나 편평하고, 미세하고, 침윤형 혹은 염증성 병변이나 출혈량이 많지 않을 때 그 감수성이 떨어진다[5]. 밀기법 소장내시경 검사법이 유용한 진단방법으로 여겨졌으나 환자의 불편감이 심하고, 합병증의 위험이 있으며, 오랜 시간이 소요되며 전체 소장을 관찰할 수 없다는 한계점이 있다. 또한 수술을 통한 소장내시경은 침습적인 단점이 있다[6].

최근에는 캡슐내시경, 이중풍선 또는 단일풍선 소장내시경 등이 임상에 도입되었으며, 캡슐내시경의 경우 이중풍선 또는 단일풍선 소장내시경에 비해 덜 침습적이고 비교적 비용이 저렴하다는 장점이 있다[7]. 캡슐내시경은 소장전체를 관찰할 수 있고 원인불명의 위장관 출혈에 대한 초기 검사로 유용한데, 원인불명의 위장관 출혈에 대한 진단 및 치료에 있어서 조기 캡슐내시경 검사를 시행하여 근위부 소장의 병변을 발견한 경우 가압소장내시경으로 병변을 확인하여 치료를 시도할 수 있고, 원위부 소장에 병변이 있는 경우 수술 중 내시경 검사를 통하여 병변에 대한 접근 및 치료가 이루어질 수 있다[8]. Bailey 등[9]은 소장질환이 의심되는 환자에서 캡슐내시경을 시행했을 때 6.3%에서 소장 종양이 발견되었고, 질병의 진행을 막

기 위해 소장질환이 의심될 경우 캡슐내시경을 조기에 시행해야 한다고 주장하였다. 그러나 캡슐내시경은 생검을 통한 조직학적 진단이나 치료내시경 시술이 불가능하고 병변을 발견하더라도 수술 시 정확한 위치를 파악하기 어려우며[10], 크론병과 같은 경우에서 장폐색 의심 시 검사 시행이 어렵고 식도, 위, 대장에 대한 영상 획득의 어려움, 배터리 용량의 한계로 인해 일부에서 전 소장을 관찰할 수 없는 기술적인 문제가 있다[11,12].

이에 비해 이중풍선 또는 단일풍선 소장내시경의 경우 내시경 시행에 있어 금기사항이 비교적 적고, 위치추정이 용이하고, 내시경 조작이나 색소내시경 등을 통해 정밀한 관찰이 가능하고, 세경 초음파 탐촉자를 삽입해 내시경 초음파를 시행할 수 있고, 조직검사를 통해 확진이 가능하다[13]. 또한 이물 제거, 용종 절제, 지혈치료, 스텐트삽입, 협착부위 확장 등 다양한 치료 시술이 가능하다[14,15]. 단일풍선 소장내시경은 내시경 선단과 overtube에 각각 풍선이 장착된 이중풍선 소장내시경과 달리, 풍선이 overtube에만 장착되어 있어 구조가 간단하고, 이에 따라 준비 및 시술 시간이 짧다. 최근 연구에 따르면 이중풍선 소장내시경과 마찬가지로 진단뿐만 아니라 내시경 지혈술, 용종 제거술 등 치료내시경에 있어서도 동등한 효과를 보여 이중풍선 소장내시경과 더불어 안전하고 유용하게 사용할 수 있다고 보고되었다[16].

이번 증례는 복부 전산화단층촬영에서 진단되지 않은 위장관간질종양을 캡슐내시경과 단일풍선 소장내시경으로 진단하고 수술했던 예이다. 캡슐내시경 검사는 비침습적이며 안전하게 소장을 관찰할 수 있어 소장병변에 대한 진단율을 높고 특히 캡슐내시경 검사 시 흑색변이나 혈변을 보였던 경우에서 그 진단율이 높다[6]. 따라서 환자의 혈액학적 상태가 안정되어 있다면, 가능한 신속하게 캡슐내시경 검사를 시행하는 것이 치료 방향을 제시하고 적절히 대처하도록 할 수 있다. 그러나 생검을 통한 조직학적 진단이나 치료내시경 시술이 불가능하고, 병변을 발견하더라도 수술 시 정확한 위치를 파악하기 어려운 등 제한점이 있다. 이에 반해 이중풍선 또는 단일풍선 소장내시경은 경구 또는 경항문으로 삽입하여 전체 소장을 관찰할 수 있으며 조직 생검뿐 아니라 진단과 동시에 치료 내시경 시술을 할 수 있으므로 소장질환의 진단 및 치료에 매우 유용한 검사법이다[13]. 향후 이 두 가지 검사법은 상호 보완적인 검사법으로 자리할 것으로 생각한다.

참고문헌

1. Cho NY, Chun HJ, Kim YS, Jeon YT, Um SH, Kim CD, et al. Chronic bleeding due to jejunal gastrointestinal stromal tumor diagnosed by capsule endoscopy. *Korean J Gastrointest Endosc* 2004;28:141-145.
2. Jhu IK, Joo YE, Park GS, Park MH, Park SU, Lee NH, et al. A case of duodenal gastrointestinal stromal tumor presenting with gastrointestinal bleeding. *Korean J Gastrointest Endosc* 2005;31:121-125.
3. Gourgiotis S, Kotoulas D, Aloizos S, Kolovou A, Salemis NS, Kantounakis I. Preoperative diagnosis of obscure gastrointestinal bleeding due to a GIST of the jejunum: a case report. *Cases J* 2009;2:9088.
4. Kwon HJ, Cho HG, Kim MH, Ko GJ, Jeong JH, Song JS. A case of a duodenal gastrointestinal stromal tumor with a bleeding ulcer. *Korean J Gastrointest Endosc* 2009;39:42-45.
5. Lee JI, Song KY, Park CH, Kim SN, Lee IS. Hemorrhagic small bowel tumor diagnosed with using capsule endoscopy and it was treated with laparoscopic surgery: report of a case. *Korean J Gastrointest Endosc* 2006;32:53-56.
6. Kim HJ, Shim CS, Lee SH, Jung IS, Hong SJ, Ryu CB, et al. The usefulness of capsule endoscopy in patients with obscure gastrointestinal bleeding. *Korean J Gastrointest Endosc* 2005;31:140-146.
7. Spada C, Riccioni ME, Familiari P, Marchese M, Bizzotto A, Costamagna G. Video capsule endoscopy in small-bowel tumors: a single center experience. *Scand J Gastroenterol* 2008;43:497-505.
8. Rondonotti E, Pennazio M, Toth E, Menchen P, Riccioni ME, De Palma GD, et al. Small-bowel neoplasms in patients undergoing video capsule endoscopy: a multi-center European study. *Endoscopy* 2008;40:488-495.
9. Bailey AA, Debinski HS, Appleyard MN, Remedios ML, Hooper JE, Walsh AJ, et al. Diagnosis and outcome of small bowel tumors found by capsule endoscopy: a three-center Australian experience. *Am J Gastroenterol* 2006;101:2237-2243.
10. Postgate A, Despott E, Burling D, Gupta A, Phillips R, O'Beirne J, et al. Significant small bowel lesions detected by alternative diagnostic modalities after negative capsule endoscopy. *Gastrointest Endosc* 2008;68:1209-1214.
11. Schwartz GD, Barkin JS. Small-bowel tumors detected by wireless capsule endoscopy. *Dig Dis Sci* 2007;52:1026-1030.
12. Kameda N, Higuchi K, Shiba M, Machida H, Okazaki H, Yamagami H, et al. A prospective single-blind trial comparing wireless capsule endoscopy and double-balloon enteroscopy in patients with obscure gastrointestinal bleeding. *J Gastroenterol* 2008;43:434-440.
13. Jang HJ, Park CH, Han SY, Byun HW, Choi MH, Kae SH, et al. Comparison of double balloon enteroscopy and capsule endoscopy for patients with suspected small bowel diseases. *Korean J Gastrointest Endosc* 2007;35:379-384.
14. Chong AK, Chin BW, Meredith CG. Clinically significant small-bowel pathology indentified by double-balloon enteroscopy but missed by capsule endoscopy. *Gastrointest Endosc* 2006;64:445-449.
15. Almeida N, Figueiredo P, Lopes S, Gouveia H, Leitão MC. Double-balloon enteroscopy and small bowel tumors: a South European single-center experience. *Dig Dis Sci* 2009;54:1520-1524.
16. Lee Y, Jang JY, Ha SH, Dong SH, Kim HJ, Kim B-H, et al. A case of primary jejunal mucinous adenocarcinoma diagnosed by single balloon enteroscopy. *Korean J Gastrointest Endosc* 2010;40:199-202.