

방광의 원발성 인환세포선암 2례

이화여자대학교 의과대학 비뇨기과학교실
장석훈 · 전준영 · 심봉석 · 권성원

= Abstract =

Primary Signet Ring Cell Adenocarcinoma of the Bladder — Report of Two Cases —

Seok Heun Jang · Jun Young Jeon · Bong Suck Shim · Sung Won Kwon
Department of Urology, College of Medicine, Ewha Womans University

Primary signet ring cell adenocarcinoma of the bladder accounts for less than 1 per cent of all primary bladder neoplasm. 19 cases have been reported in the literature.

This tumor is insidious because of its subepithelial infiltrative nature, which makes diagnosis possible only late in the course of the disease.

Survival is poor ; greater 50 per cent of the patients are dead within a year after diagnosis. Radical surgery offers the only hope of palliation ; irradiation and chemotherapy have not been effective.

We are reporting two cases of primary signet ring cell adenocarcinoma of the bladder treated with radical cystectomy with pathological findings and review of the literature.

서 론

방광암의 2% 정도를 차지하는 원발성 방광선암은 병리조직학적으로 선상 선암, 교질성 선암, 유두상 선암, 인환세포 선암, 투명세포 선암등 5가지 형태로 구분된다¹⁾.

이중 원발성 인환세포 선암은 1955년 Saphir가 2례를 보고한 이래 문헌상 19례가 보고 되었으며²⁾, 국내에서는 1986년에 2례만이 보고된 매우 드문 질환이다³⁾.

저자들은 68세된 남자에서 방광이행상피세포암으로 경요도적 전기 절제술 2년후 같은 위치에 재발된 방광 종양의 병리조직학적 검사 결과 원발성 인환세포 선암으로 진단된 경우와 31세 남자에서

방광의 원발성 인환세포 선암을 근치적 방광 적출술로 치료 했던 2례를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1 :

환 자 : 김○○, 남자, 68세.

첫번째 입원

주 소 : 간헐적 무통성 육안적 혈뇨.

기 간 : 3개월.

현병력 및 과거력 : 특이 사항 없음.

이학적 소견 : 특이 사항 없음.

검사 소견 : 요검사에서 고배율 검경하 다수의 적혈구가 보였으며, 요세포 검사에서는 이상 세포는 보이지 않았으며, 요배양 검사, 일반 혈액 검사, 생화학 검사 및 전해질 검사는 모두 정상 소견을 보였다.

방광경 검사 : 호두알 크기의 유두상 종괴가 방광의 우측 벽에 존재하였다.

흉부 촬영 : 정상 소견임.

배설성 요로 촬영 : 특이 소견 없음.

전산화 단층 촬영 : 우측 방광 측벽에 충만 결손을 보이며, 방광 주위 조직 침윤 및 임파선 전이 소견은 없었다(Fig. 1).

치 료 : 경요도적 전기 절제술후 예방적으로 방광 내에 BCG 주입을 실시했다.

병리조직학적 소견 : Grade II의 전형적인 유두상 이행상피세포암종의 소견을 나타내고 있었다(Fig. 2).

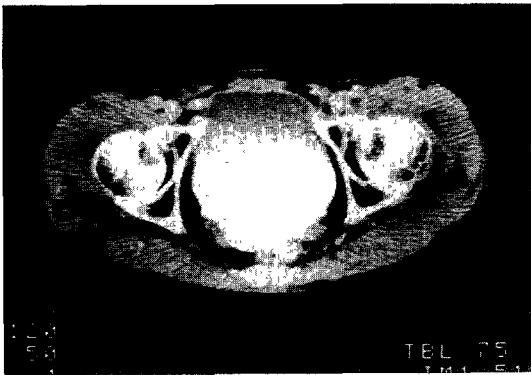


Fig. 1. CT scan of pelvis shows filling defect in right lateral wall of the bladder.

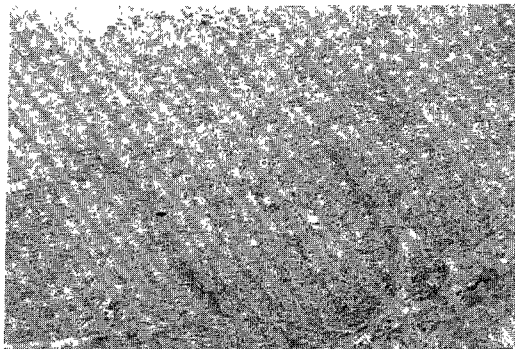


Fig. 2. Papillary transitional cell carcinoma(H & E, 100).

두번째 입원(첫 수술후 24개월)

주 소 : 간헐적 무통성 육안적 혈뇨 및 치골 상부 불쾌감.

기 간 : 1개월.

검사 소견 : 요검사에서 고배율 검경하 다수의 적혈구가 보이는 것 외에는 특이 소견이 없었다.

방광경 소견 : 우측 방광 측벽에 호두알 크기의

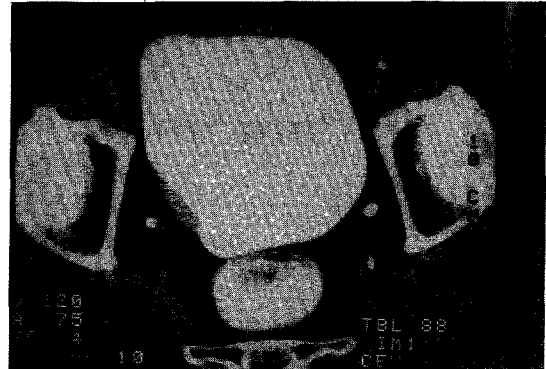


Fig. 3. CT scan of pelvis shows filling defect in right lateral wall of the bladder.



Fig. 4. UGI shows normal finding.

균상 종물이 존재하였다.

상부 및 하부 위장관 촬영: 정상 소견을 나타내었다(Fig. 4, 5).

전산화 단층 촬영: 우측 방광 측벽에 층만 결손을 보이며, 임파선 전이소견은 없었다(Fig. 3).

치료 및 추적관찰: 경요도적 전기 절제술후 원발성 인환세포 선암으로 진단하여 근치적 방광적출술 및 요로 전환술을 실시한후 퇴원하여 현재 외래에서 정기적인 추적관찰 중이다.

병리조직학적 소견:

육안적 소견: 우측 방광 측벽에 2×3cm 크기의 균상 종물이 존재하였다(Fig. 6).

현미경적 소견: 세포질 내에 풍부한 점액으로 인해 핵이 한쪽으로 치우친 인환세포선암종의 소견을 나타내고 있었다(Fig. 7).

증 례 2:

환 자: 김○○, 남자, 31세.

주 소: 간헐적 무통성 육안적 혈뇨, 빈뇨 및 치골상부 동통.

기 간: 1년.

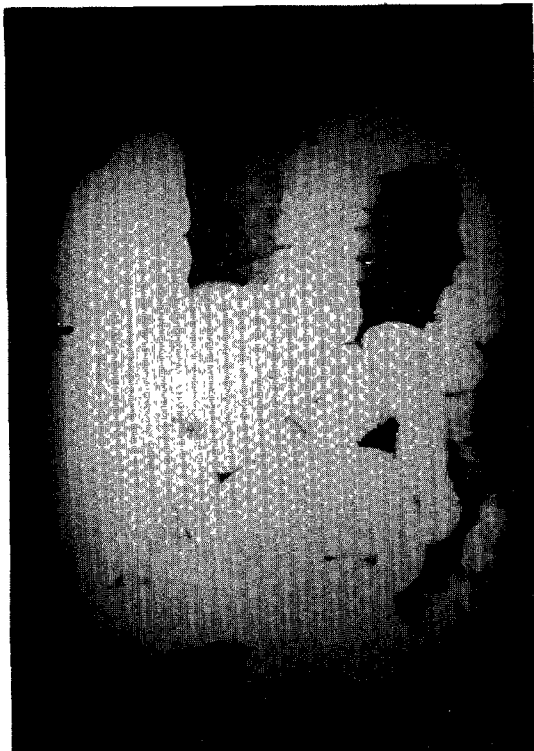


Fig. 5. Barium enema shows normal finding.

현병력: 약 1년전부터 육안적 혈뇨 및 빈뇨로 방광염 진단하에 개인병원에서 치료를 받아 왔으나, 호전이 없고 식욕부진과 치골상부 동통이 발생하여 본원에 내원 하였다.

과거력 및 가족력: 특이 사항 없음.

이학적 소견: 이상소견 없음.

검사 소견: 요검사에서 고배율 검경하 다수의 적혈구와 10~15개의 백혈구가 보였으며, 요세포 검사에서는 이상세포 소견은 보이지 않았고, 요배양검사, 일반혈액 검사, 생화학 검사 및 전해질 검사는 모두 정상 소견 보였다.

방광경 검사: 방광 용적은 200cc 정도였으며, 다수의 호두알크기의 유두상 종괴가 방광의 정부와 후측벽에 존재하였으며 양측 요관구의 요배출은 정상이었다.

흉부 X선 촬영: 정상소견임.

배설성 요로촬영: 상부요로는 정상이나, 방광조

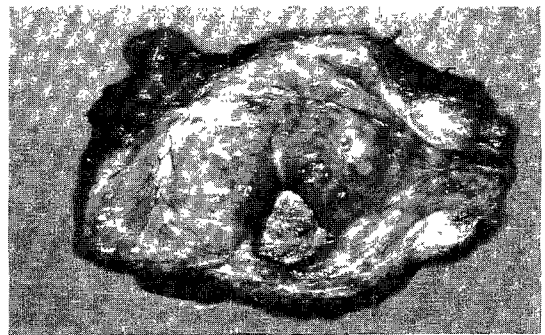


Fig. 6. Gross appearance of the bladder shows 2×3cm sized papillary mass in right lateral wall of the bladder.

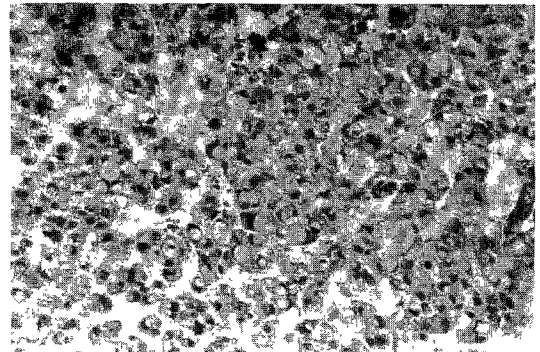


Fig. 7. Mucin producing tumor cells showing classical signet ring shape(H & E, 100).

영상에서 방광정부에 불규칙한 충만결손이 보였다 (Fig. 8).

상부 및 하부 위장관 촬영 : 정상 소견을 나타내었다.

전산화 단층 촬영 : 방광 정부로부터 들출된 저음영의 충만결손이 보이며, 전립선이나 정낭등 방광 주위 조직 침윤, 임파선 전이 소견, 타장기 전이 소견은 보이지 않았다(Fig. 9).

치료 및 추적관찰 : 경요도적 전기 절제술후 원발성 인환세포 선암으로 진단하여 근치적방광 적출술, 요로전환술을 실시한후 병용 보조화학요법 (fultraful, adriamycin, methotrexate) 6차례 1달 간격으로 시행후 현재 외래에서 정기적인 추적관찰 중이다.

병리조직학적 소견 : 세포질내에 풍부한 점액을 갖고 있으며, 이때문에 핵은 세포질의 한쪽으로 치우쳐 있는 인환세포선암종의 소견이 방광의 전층에 미만성으로 침윤되어 있었다(Fig. 10, 11).

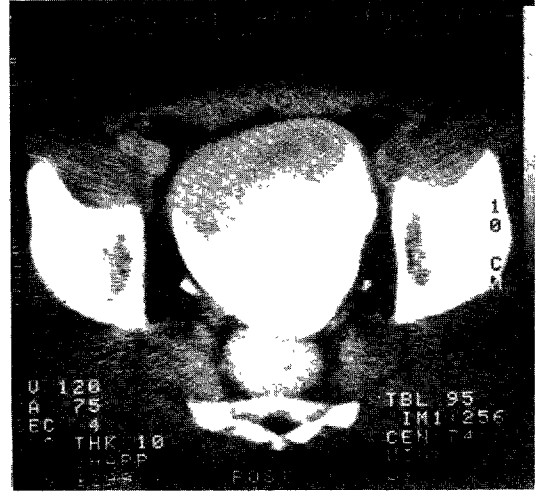


Fig. 9. CT scan of pelvis shows irregular diffuse mass on the dome of the bladder.

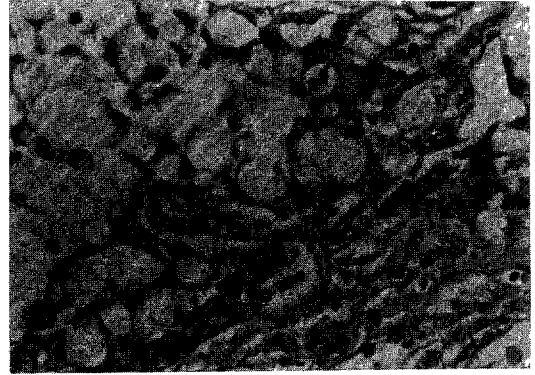


Fig. 10. Mucin producing tumor cells showing classical signet ring shape(H & E, 100).



Fig. 8. Excretory urogram shows irregular filling defect on the bladder dome.

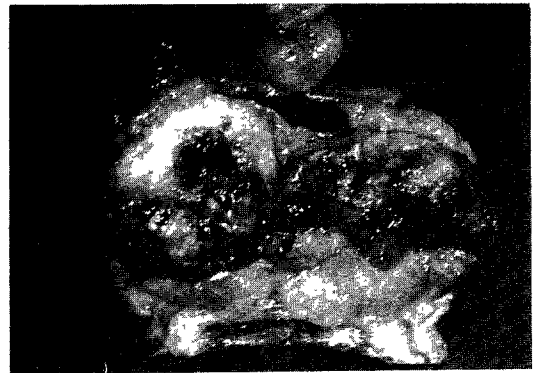


Fig. 11. Gross appearance of the bladder shows 5x4 cm sized mass on the bladder dome.

고 안

방광의 원발성 선암은 방광 외변증에서 가장 많이 발생하는 악성 종양으로 방광 종양의 0.5~2%를 차지한다¹⁾⁴⁾⁵⁾.

방광의 원발성 선암의 발생기전은 확실치 않으나 태생학적으로 총 배출강 잔존에서 발생한다는 설과 방광 상피 세포의 화생설 등 두가지가 있으나, 현재 후자가 더 널리 받아들여지고 있다. 그 이유는 첫째, 방광 외변증에서 선암이 호발하며 둘째, 드물기는 하나 총 배출강에서 발생되지 않는 요관이나 신우에서 원발성 선암이 발생하고 셋째, 만성적 염증에서 시작된 Brunn's nests에서 cystitis cystica를 거쳐 cystitis glandularis로 변하여 선암으로 발전된 예가 보고되었기 때문이다⁶⁾⁷⁾⁸⁾.

방광선암은 크게 원발성 선암과 요막관 선암으로 대별한다.

원발성 선암이 주로 발생하는 곳은 방광의 삼각부나 측벽으로 조직학적으로는 선상 선암, 교질성 선암, 유두상 선암, 인환세포 선암, 투명세포 선암 등 5종류로 분류된다¹⁾.

요막관 선암은 전 방광선암의 20~39%를 차지하며⁷⁾, 방광정부나 전벽에 호발하고 Mostofi가 내세운 다음과 같은 진단기준이 널리 이용된다⁸⁾. 종양의 방광정부에 위치하고, cystitis glandularis와 cystitis cystica의 흔적이 없고, 종양과 주위 상피세포와의 뚜렷한 경계가 있으며 방광근내에 확실한 침윤의 증거가 있고, 종양에 요막관 잔존의 증거가 있으며, 조양이 Retzius space, 전복벽 및 제부에 침투되어 있을 때 등이다.

성별분포와 호발연령은 이행상피세포암에서와 비슷하여 남자가 여자보다 2 : 1~3 : 1 정도로 많고 대부분의 40세 이후로서 평균연령은 65세 정도이다⁹⁾.

Jakse⁹⁾등은 방광암 715례의 보고에서 2.5%인 18례가 원발성 선암이었고, 그중 단 1례만이 인환세포선암으로 전 방광암의 0.14%, 전 방광선암의 5.6%였다고 하였으며, Anderstrom¹⁾등은 64례의 방광선암 중에서 단 1례만이 인환세포선암으로 전 방광선암의 1.56%였다고 보고하였다.

방광선암의 증상은 대개 무통성 혈뇨가 가장 많고

4)6)10), 빈뇨, 급뇨, 배뇨곤란등 방광자극 증상이 나타날 수 있다.

방광선암의 확실한 진단은 방광경 검사와 이에 따른 조직생검이 가장 중요하며⁷⁾¹⁰⁾¹¹⁾, 마취하 골반쌍합진, 배설성 요료조영상, 단순방광촬영, 초음파 검사, 전산화단층촬영 및 동맥촬영 등이 있다.

방광의 인환세포선암은 위장관, 폐, 담낭의 인환세포선암과 유사하기 때문에 인환세포선암의 방광 이외의 근원을 배제하는 것이 중요하며, 특히 남자에 있어서는 전립선암으로부터의 전이를 확인하는 것이 중요하다¹⁾²⁾.

선암의 치료는 수술요법으로 경요도적 전기 절제술, En Bloc segmental resection등이 있으며, 방광근육을 침윤한 원발성 선암인 경우 근치적 방광절제술 및 요료전환술을 실시하는 것이 가장 안전한 치료 방법이다⁵⁾. 방사선 치료와 화학요법은 선암에서는 대체적으로 효과가 없는 것으로 알려져 있으나, 방사선치료의 경우는 수술요법과 병행할 때 부분적인 효과를 기대할 수 있다⁵⁾⁷⁾¹¹⁾.

방광의 원발성 선암의 예후는 불량하여, Bennett⁶⁾등은 28례의 평균생존기간은 치료에 관계없이 21개월이었다고 하였다.

방광의 원발성 인환세포선암의 경우 1989년 Michael등이 보고한 1례에서는 근치적 방광절제술 및 요료전환술을 실시한 후 33개월동안 생존하고 있다고 하나²⁾, 대부분의 인환세포선암은 초기에 점막층 및 근육층을 침윤하기 때문에 예후가 매우 불량하다.

결 론

저자들은 방광 이행상피세포암으로 경요도적 전기 절제술 2년후 같은 위치에서 원발성 인환세포선암으로 재발한 경우 1례와 원발성 인환세포선암 1례를 근치적 방광 적출술로 치험하였기에 조직학적 소견 및 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) Claes Anderstrom, Sonny L, Johansson, and Lilian von Schultz : *Primary adenocarcinoma of the urinary bladder. Cancer 1983 ; 52 : 1273-1280*

- 2) Michael L Blute, Donald E Engen, William D Travis and Larry K Kvols : *Primary signet ring cell and adenocarcinoma of the bladder. J Urol* 1989 : 141 : 17-21
- 3) 천 준 · 신영국 · 조재홍 · 김세영 · 원남희 : 방광의 원발성 *signet ring cell* 선암 2례. 대한비뇨학회지 1986 : 27 : 489-494
- 4) Jacobo E, Loening S, Schmidt JD and Cupl DA : *Primary adenocarcinoma of the bladder ; A retrospective study of 20 patients. J Urol* 1977 : 117 : 54-58
- 5) Thomas DC : *A study of 52 cases of adenocarcinoma of the bladder. Brit J Uro* 1971 : 43 : 4-8
- 6) Bennett JK, Wheatley JK and Walton KN : *10 years experience with adenocarcinoma of the bladder. J Urol* 1984 : 131 : 262-267
- 7) Sheldon CA, Clayman RV, Gonsalez R, Williams DR and Fraley EE : *Malignant uracal lesions. J Uro* 1984 : 131 : 1-4
- 8) Mostofi FK, Thomason RV and Dean AL : *Mucous adenocarcinoma of the urinary bladder. Cancer* 1955 : 8 : 741-758
- 9) Jakse G, Schneider HM and Jacob GH : *Uracal signet ring cell carcinoma, a rare variant of vesical adenocarcinoma : Incidence and pathological criteria. J Uro* 1978 : 120 : 764-769
- 10) Johnson DE, Swanson DA and Eschehbach A : *Tumors of genitourinary tract. General Urology, Edited by Smith, D.R., 12th ed. Los Altos, Cakiforina : Lange Medical Publications, 1988 : pp330-434*
- 11) Droller MJ : *Transitional cell cancer : Upper tracts and bladder. Cambell's Urology, Edited by Walsh, 5th ed. Philadelphia : W.B. Saunders Co, 1986 : pp 1343-1440*
- 12) Gonzalez E, Fowler MR and Venable DD : *Primary signet ring cell adenocarcinoma of the bladder (linitis plastica of the bladder) : report of a case and review of the literature. J Urol* 1982 : 128 : 1027-1032