

샘근육종 과증식을 동반한 십이지장 구부 거대 Brunner선 과증식

연세대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과, 소화기병연구소, 진단병리학교실*

정주원 · 서주희 · 박승우 · 송시영 · 정재복 · 김상겸* · 김호근* · 방승민

A Case of Giant Brunner's Gland Hyperplasia Combined with Adenomyomatous Hyperplasia

Joo Won Chung, M.D., Joo Hee Seo, M.D., Seung Woo Park, M.D.,
Si Young Song, M.D., Jae Bock Chung, M.D., Sang-Kyum Kim, M.D.*,
Ho Keun Kim, M.D.*, and Seungmin Bang, M.D.

Division of Gastroenterology, Departments of Internal Medicine and Pathology*,
Institute of Gastroenterology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Brunner's gland hyperplasia is a rare tumor of the duodenum and might also be an unusual cause of gastrointestinal bleeding. In symptomatic patients, treatment requires either surgical resection or endoscopic polypectomy. We report a case of upper gastrointestinal bleeding from a pedunculated Brunner's gland hyperplasia in the duodenal bulb. Endoscopic resection using the detachable snare and hemocliping was instituted to remove a large pedunculated polyp. The pathologic diagnosis was Brunner's gland hyperplasia with adenomyomatous hyperplasia. (Korean J Gastroenterol 2008;52:384-388)

Key Words: Brunner's gland hyperplasia; Adenomyomatous hyperplasia; Endoscopic polypectomy; Gastrointestinal bleeding

서 론

Brunner선은 위 유문부에서부터 드물게는 공장 근위부에서 발견되나 주로 십이지장 구부에 분포하며, 알칼리 점액을 분비하여 위산으로부터 십이지장 점막을 보호하는 작용을 한다. Brunner선 과증식은 십이지장 종양의 약 11%를 차지하며 대부분 증상이 없어 치료가 필요하지 않으나, 위장관 출혈이나 장 폐쇄를 유발하고, 악성 변화가 의심될 경우에는 치료가 필요하다. 최근에는 수술 절제 대신에 내시경 절제가 선호되고 있으며, 출혈 및 천공 등의 합병증을 줄이

기 위해 다양한 방법의 내시경 절제가 시도되고 있다. 저자들은 상부 위장관 출혈을 유발하고 샘근육종 과증식을 동반한 거대 Brunner선 과증식을 탈부착 올가미(detachable snare) 결찰 및 지혈클립을 이용한 내시경 절제술로 성공적으로 치료하였기에, 이를 관련 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

평소 건강하던 40세 남자가 8일간의 검은 변을 주소로 개인 의원에 내원하여 시행한 상부위장관 내시경 검사에서 십

접수: 2008년 6월 13일, 승인: 2008년 10월 7일
연락처: 방승민, 120-752, 서울시 서대문구 신촌동 134
연세대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과,
소화기병연구소
Tel: (02) 393-6884, Fax: (02) 2228-1995
E-mail: bang7028@yuhs.ac

Correspondence to: Seungmin Bang, M.D.
Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Institute of Gastroenterology, Yonsei University College of Medicine, 250, Seongsanno (134 Sinchon-dong), Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
Tel: +82-2-393-6884, Fax: +82-2-2228-1995
E-mail: bang7028@yuhs.ac

십이지장 구부에 4 cm 크기의 출혈반으로 덮인 종괴가 발견되어 본원 응급실로 전원되었다.

내원 당시 시행한 문진에서 어지러움과 경미한 호흡 곤란 및 복부 불편감을 호소하였다. 신체 검사에서 생체 활력 징후는 혈압 100/60 mmHg, 맥박수 74회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.6°C였고, 급성 병색을 보이며, 결막은 창백하였으나 그 외 특이 소견은 관찰되지 않았다. 일반 혈액 검사에서 백혈구 11,270/mm³, 혈색소 11.4 g/dL, 혈소판 211,000/mm³, 혈청 생화학 검사는 총 단백 6.4 g/dL, 알부민 4.3 g/dL, AST 191 IU/L, ALT 19 IU/L, 총 빌리루빈 0.5 mg/dL, 혈액 요소 질소 23.8 mg/dL, 크레아티닌 0.9 mg/dL이었다.

내원 당일 시행한 상부위장관 내시경 검사는 위 전정부 점막의 미만 발적과 경도의 부종이 관찰되었고, 십이지장 구부에 관강 대부분을 차지하는 3×4 cm 크기의 거대 유경성 용종이 관찰되었다. 용종 표면은 엷상으로 관찰되었고,

표면의 점상 출혈반이 보였으나 활동 출혈이나 궤양은 관찰되지 않았다. 또한 종괴의 기저부에 비교적 굵은 경부가 관찰되어 유경 거대 용종에 합당한 소견을 보였다(Fig. 1). 내원 2일째 내시경 용종절제술을 시행하였다. 십이지장 구부, 전벽에 위치한 용종 줄기를 탈부착 올가미를 이용하여 결찰하였고, 용종 절제용 올가미를 결찰부 상연에 위치한 뒤 종괴를 포획하고, 전기 소작술로 절제하였다. 절제부에 출혈이나 천공은 없었으나 출혈을 예방하기 위해 추가적으로 종괴 기저부에 지혈클립을 하였다.

용종의 육안 소견은 1 cm의 목부분과 2.9×2.7 cm의 몸통이 점막으로 덮여 있는 종괴였다(Fig. 2). 용종을 현미경으로 관찰하였을 때, 병변은 섬유격벽에 의해 소엽으로 나뉘어 있었고, 각각의 소엽은 팽창되어 점막 하층을 차지하며 내강 표면으로 돌출되어 있어 Brunner선 과증식에 합당한 소견을 보였다. 점막내 근육층 아래로는 근육성분과 포도상선

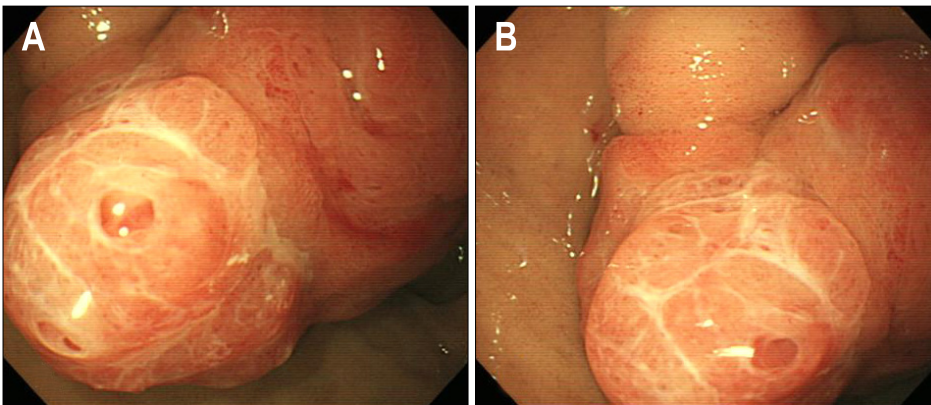


Fig. 1. Endoscopic findings. (A) The polyp is arising from the anterior wall of the duodenal bulb and near-completely occupying the lumen. (B) Its surface shows focal hemorrhagic mucosa without active bleeding.



Fig. 2. Gross findings. (A) It shows a well-circumscribed and polypoid mass, measuring 3.9×2.7 cm. (B) Cut surface of resected specimen shows soft and elastic tissue with multiple small lobules.

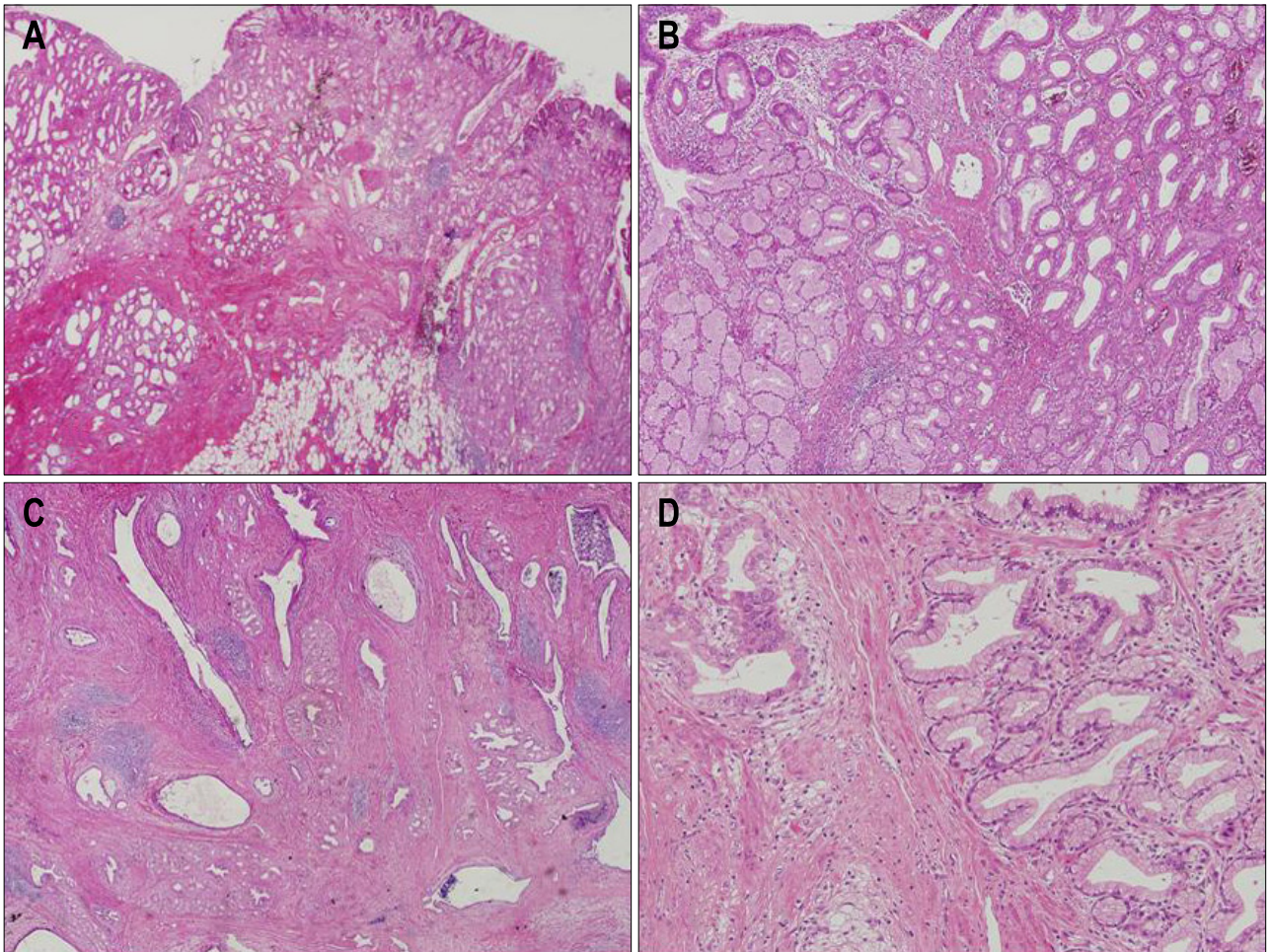


Fig. 3. Microscopic findings. (A) Brunner's gland hyperplasia. Retained lobular architecture with fibrous septa coursing through the lesion (H&E stain, $\times 12.5$). (B) Brunner's gland hyperplasia. Each of the lobules appears markedly expanded, occupying a widened submucosa and extending toward the luminal surface (H&E stain, $\times 40$). (C) Adenomyomatous hyperplasia. Mixtures of irregularly arranged muscular and glandular components without acinar are seen (H&E stain, $\times 12.5$). (D) Adenomyomatous hyperplasia. These lie beneath the muscularis mucosa and dilated glandular components show cystic appearance (H&E stain, $\times 100$).

이 없는 샘성분이 불규칙하게 분포되어 있었고, 이는 샘근육종 과증식에 합당한 소견이었다(Fig. 3).

환자는 시술 후 합병증은 없었으며 6개월 뒤 시행한 내시경 검사에서 Brunner선 과증식의 재발 없이 절제연은 완전히 치유되어 현재 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

Brunner선 과증식은 십이지장 종양의 약 11%를 차지하며,¹ 주로 십이지장 구부(57%)에 위치하고 제2부분(27%) 및 제3부분(7%), 드물게 위 유문륜(5%)과 공장 근위부(2%)에서 발견되기도 한다.² Park 등은 십이지장 제4부분에서 발견된 Brunner선 과증식을 보고하기도 하였다.³

Brunner선 과증식은 흔히 만성 미란 위염이나 십이지장 궤양 환자에서 위산과다와 연관되어 발견되어 이로 인한

만성 자극이나 만성 염증이 원인으로 제시되고 있다.⁴ 그 외에 만성 궤양염 환자에서도 높은 비율로 발견되어 궤양의 외분비 기능 장애도 중요한 원인으로 제시되고 있다.⁵

Brunner선 과증식은 대개 임상 증상이 없으나, 드물게 구역, 구토, 상복부 불쾌감 및 복통 등 비특이적인 증상이 나타난다. 유경 선종일 경우 장관 폐쇄 혹은 장중첩증을 유발할 수 있으며, 종양표면에 궤양이나 미란이 있는 경우 위장관 출혈(20-37%)이 동반된다.^{6,7} 종양이 바터 유두부 주위에 위치하는 경우 췌담관 폐쇄를 유발하여 황달, 췌장염 등이 발생할 수 있다.⁸

Brunner선 과증식과 과오종은 혼동되어 불리고 있으나, 조직학적으로 Brunner선 과증식은 Brunner선이 과성장하여 생긴 다발 결절 증식이며, Brunner선 과오종은 포도상선, 선관, 평활근, 지방세포와 림프구가 덩어리져 있는 단일 종괴로, 때로는 이소 췌장 포도상선과 선관이 보이기도 한다.⁹

비슷한 조직 소견이 샘근육종 과증식에서도 관찰되는데, 비후 근육섬유 다발에 둘러싸인 선관의 증식이 있으나 포도상선이가 없다는 점에서 구분된다.¹⁰ 샘근육종 과증식은 근육상피세포 과오종이라고도 불리며 발생학적으로 췌장원기(pancreatic anlage)에서 분화되어 주로 위장관, 소장 및 담낭에서 발견되며 십이지장에서 발견된 예는 드문 것으로 보고되고 있다.¹¹ 그러나 이번 증례는 흥미롭게도 Brunner선 과증식의 조직 특징과 샘근육종 과증식에 합당한 병리 소견이 동반된 소견을 보였다.

진단은 상부위장관 내시경이나 상부 위장관 조영술로 가능하나 종양이 십이지장의 원위부에 위치한 경우는 복부 컴퓨터 단층 촬영으로 확인이 필요하다.³ Brunner선 과증식의 내시경 소견은 주로 정상 점막 조직으로 덮여 있는 점막하 종양의 형태로, 내시경 점막 생검만으로는 조직 진단에 어려움이 있다.

Brunner선에서부터 기원한 종양은 대부분 양성으로 증상이 없는 환자에 있어서 치료가 반드시 필요한 것은 아니나, 장 폐쇄나 장출혈, 대량 출혈 등의 합병증이 있는 경우에는 치료가 필요하다.¹² 최근 들어 드물게 악성 변화가 보고되고 있어 무증상 환자에서도 절제 필요성이 요구되고 있다.¹³ 과거에는 주로 수술 절제가 이루어졌으나 치료 내시경 기술이 발달하면서 내시경 절제가 다방면으로 이루어지고 있다. 내시경 절제술은 수술에 비해 비용 및 재원 일수를 줄이고 개복 수술로 인한 위험성 및 절제 후 기능 장애를 줄일 수 있으나, 십이지장은 혈관 분포 및 협소한 공간으로 인해 내시경 조작에 어려움이 있어 출혈 및 장 천공 발생 위험이 높다.¹⁴ 저자들은 십이지장 구부에 위치하여 관강의 대부분을 차지하고 있으며 비교적 굵은 경부를 가진 종괴로 발견된 이번 증례를, 내시경 올가미 절제술만을 시행하였을 때 예상되는 출혈을 예방하기 위해 탈부착 올가미 결찰술을 먼저 시행하고, 내시경 올가미 절제술을 시행하였다. 내시경 절제술에 따른 출혈과 천공을 예방하기 위한 탈부착 올가미 결찰법은 Hachisu¹⁵에 의해 제안되었는데, 이들은 탈부착 올가미를 통한 결찰법을 통해 위장관의 커다란 유경 용종이나 기저부가 넓은 반 유경 용기 병변을 제거하는 데 있어 출혈의 합병증을 줄였다. 또한 Ohba 등은 올가미와 겸자(grasping forceps)를 사용하여 용종의 기저부를 결찰하고 칼로 주변부를 절개한 뒤 전기 소작술로 절제하는 변형 내시경 점막하 절개 방법을 개발하였고, 이를 이용하여 십이지장 구부에 위치한 거대 Brunner선 과증식을 제거하였다.¹⁶

이번 증례는 십이지장 구부에서 발생한 샘근육종 과증식을 동반한 거대 Brunner선 과증식을 탈부착 올가미 결찰법을 이용하여 출혈이나 천공 등의 합병증 없이 내시경 절제술을 성공적으로 시행하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고한다.

참고문헌

1. Tan YM, Wong WK. Giant Brunneroma as an unusual cause of upper gastrointestinal hemorrhage: report of a case. *Surg Today* 2002;32:910-912.
2. Walden DT, Marcon NE. Endoscopic injection and polypectomy for bleeding Brunner's gland hamartoma: case report and expanded literature review. *Gastrointest Endosc* 1998;47:403-407.
3. Park CH, Lee SJ, Park JH, et al. A case of Brunner's gland hamartoma presenting as obscure gastrointestinal hemorrhage. *Korean J Gastroenterol* 2004;43:211-214.
4. Chattopadhyay P, Kundu AK, Bhattacharyya S, et al. Diffuse nodular hyperplasia of Brunner's gland presenting as upper gastrointestinal haemorrhage. *Singapore Med J* 2008;49:81-83.
5. Stolte M, Schwabe H, Prestele H. Relationship between diseases of the pancreas and hyperplasia of Brunner's glands. *Virchows Arch A Pathol Anat Histol* 1981;394:75-87.
6. Park JH, Park CH, Park JH, et al. The safety and usefulness of endoscopic polypectomy for treatment of Brunner's gland adenomas. *Korean J Gastroenterol* 2004;3:299-303.
7. Levine JA, Burgart LJ, Batts KP, Wang KK. Brunner's gland hamartomas: clinical presentation and pathological features of 27 cases. *Am J Gastroenterol* 1995;90:290-294.
8. Mayoral W, Salcedo JA, Montgomery E, Al-Kawas FH. Biliary obstruction and pancreatitis caused by Brunner's gland hyperplasia of the ampulla of Vater: a case report and review of the literature. *Endoscopy* 2000;32:998-1001.
9. Patel ND, Levy AD, Mehrotra AK, Sobin LH. Brunner's gland hyperplasia and hamartoma: imaging features with clinicopathologic correlation. *Am J Roentgenol* 2006;187:715-722.
10. Vandelli A, Cariani G, Bonora G, Padovani F, Saragoni L, Dell'Amore D. Adenomyoma of the stomach. Report of a case and review of the literature. *Surg Endosc* 1993;7:185-187.
11. Ryan A, Lafnitzegger JR, Lin DH, Jakate S, Staren ED. Myoepithelial hamartoma of the duodenal wall. *Virchows Arch* 1998;432:191-194.
12. Hwang JH, Kim J, Moon SH, et al. A case of Brunner's gland hamartoma with severe anemia and intussusception. *Korean J Gastroenterol* 1997;17:691-695.
13. Akino K, Kondo Y, Ueno A, et al. Carcinoma of duodenum arising from Brunner's gland. *J Gastroenterol* 2002;37:293-296.
14. Matsumoto T, Iida M, Matsui T, Yao T, Fujishima M. A

- large Brunner's gland adenoma removed by endoscopic polypectomy. *Endoscopy* 1990;22:192-193.
15. Hachisu T. A new detachable snare for hemostasis in the removal of large polyps or other elevated lesions. *Surg Endosc* 1991;5:70-4.
16. Ohba R, Otaka M, Jin M, et al. Large Brunner's gland hyperplasia treated with modified endoscopic submucosal dissection. *Dig Dis Sci* 2007;52:170-172.
-