

# 내시경적 부유두절제술로 확진된 십이지장 부유두의 이소성 췌장 2예

연세대학교 의과대학 내과학교실, 병리학교실<sup>2</sup>, 소화기병 연구소

김성애 · 방승민 · 박수영 · 김호근<sup>2</sup> · 박승우 · 정재복 · 송시영

**=Abstract=**

## Two cases of ectopic pancreas at minor duodenal papilla confirmed by endoscopic minor papillectomy

Sung Ai Kim, M.D., Seung Min Bang, M.D., Soo Young Park, M.D.,  
Ho Keun Kim, M.D.<sup>2</sup>, Seung Woo Park, M.D.,  
Jae Bock Chung, M.D. and Si Young Song, M.D.

*Division of Gastroenterology, Departments of Internal Medicine and Pathology<sup>2</sup>, Yonsei University  
College of Medicine, Seoul, Korea*

Tumors of the minor papilla of duodenum are so rare that only a few cases have been reported, with the exception of neuroendocrine tumor, gangliocytic paraganglioma, adenoma and adenocarcinoma. Because of its extreme rarity, there is no established standard therapy for tumors in the minor papilla. Endoscopic treatments, including endoscopic mucosal resection, have recently emerged as an alternative to surgery for the limited tumorous condition.

We came across the two cases of submucosal tumor on the minor papilla by performing esophagogastroduodenoscopy for routine check-ups. We performed endoscopic minor papillectomy for the confirmative histologic diagnosis of these submucosal tumors as well as for the treatment, and the ectopic pancreas of the minor papilla was confirmed histologically.

We report here on two cases of ectopic pancreas in the minor papilla that were diagnosed and treated by endoscopic minor papillectomy. (Korean J Med 71:S963-S968, 2006)

**Key Words** : Minor duodenal papilla; Ectopic, Pancreas; Endoscopic, Papillectomy

### 서 론

십이지장 부유두(minor papilla)에 발생하는 종양은 매우 드문 것으로 알려져 있으며, 카르시노이드, 성장억제호르몬종(somatostatinoma) 등과 같은 신경 내분비종양에 대한 보고가 대부분이고, 그 외 신경성 종양이나, 선종,

선암 등이 보고된 바 있다<sup>1-6)</sup>. 발생 빈도가 매우 드문 만큼 악성 종양의 치료에 있어서 가장 기본이 되는 수술을 통한 근치적 절제술 이외의 치료법에 대해서 아직 확립된 이론이 없는 상태이나, 최근에는 내시경 초음파 검사 등을 통해 주변 조직으로의 침습이 뚜렷치 않은 악성 종양 또는 양성 종양의 경우, 내시경적 절제술을

• Received : 2005. 7. 19.

• Accepted : 2005. 11. 8.

• Correspondence to : Dr. Si Young Song, M.D., Division of Gastroenterology, Institute of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Yonsei University College of Medicine, 134 Shinchon-dong, Seodaemun-gu, Seoul, 120-752, Korea E-mail : sysong@yumc.yonsei.ac.kr

통한 확진 및 치료도 시도되고 있다. 이에 저자 등은 십이지장 부유두에 발생한 점막하 종양에 대하여 내시경적 부유두 절제술을 시행하고 이소성 췌장의 조직학적 소견을 보인 2예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례 1

**환 자 :** 구○숙, 여자 49세

**주 소 :** 식후 복부 불편감

**현병력 :** 49세 여자 환자는 식후 복부 불편감을 주소로 내원 한달 전 ○○ 건강 검진 센터에서 시행한 상부 위장관 내시경 검사에서 십이지장 부유두 종괴가 의심되어 본원으로 전원되었다.

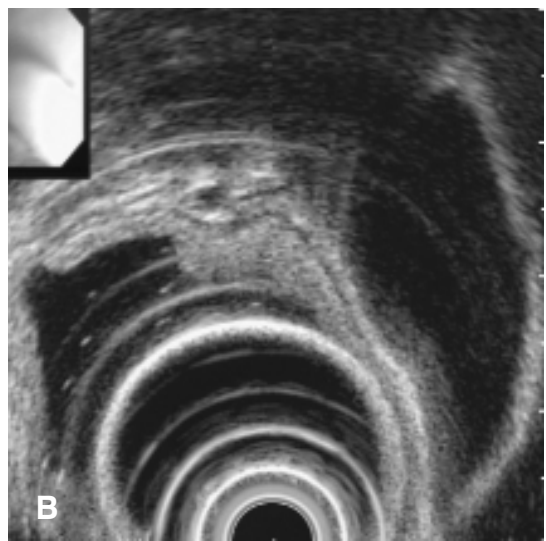
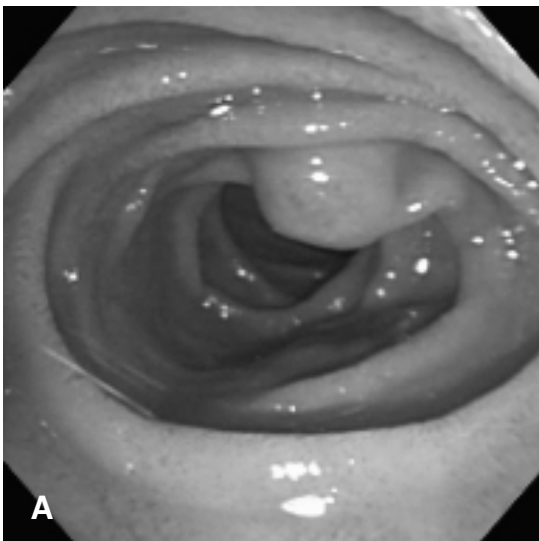
**과거력 :** 환자는 1년 전 갑상선 기능항진증으로 진단 받고 7개월간 항 갑상선제 투약 후 현재 약물 복용 없이 추적관찰 중이었다.

**가족력 :** 특이사항 없었다.

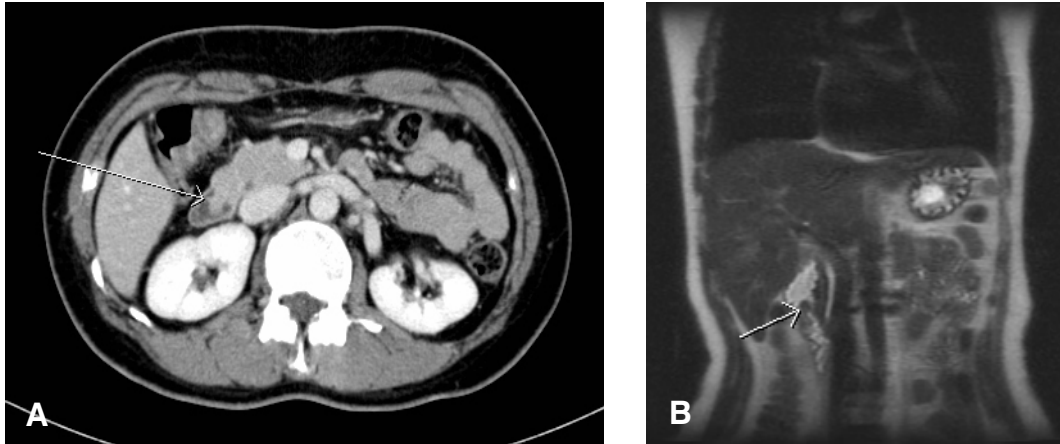
**이학적 소견 :** 내원 당시 혈압은 120/70 mmHg, 맥박은 90회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.7°C였고, 의식은 명료하였으며, 두경부 및 흉부 진찰에서는 특이한 소견이 발견되지 않았다. 복부는 부드럽고 편평하였으며, 장음은 정상이었고, 압통 및 반발통은 호소하지 않았으며, 그 외 이학적 검사상 특이소견은 보이지 않았다.

**검사실 소견 :** 말초 혈액 검사에서 혈색소 13.8 g/dL, 백혈구 7,200/mm<sup>3</sup> (호중구 58%, 림프구 22%, 단핵구 3.1%), 혈소판 302,000/mm<sup>3</sup>이었으며, 혈청 생화학 검사상 AST/ALT는 12/12 IU/L, alkaline phosphatase 62 IU/L, 총 빌리루빈 0.5 mg/dL, 콜레스테롤 167 mg/dL, 혈중요소질소 11.3 mg/dL, 크레아티닌 0.8 mg/dL이었고, 혈청 전해질 검사는 Na 138 mmol/L, K 4.3 mmol/L, Cl 103 mmol/L이었다. 종양 표지자 검사는 CEA 0.13 ng/mL, CA19-9 9.1 U/mL였으며, 갑상선 호르몬 검사는 free T4 1.2 ng/dL (0.89~1.76 ng/dL), TSH 16.2 uIU/mL (0.35~5.5 uIU/mL)이었다.

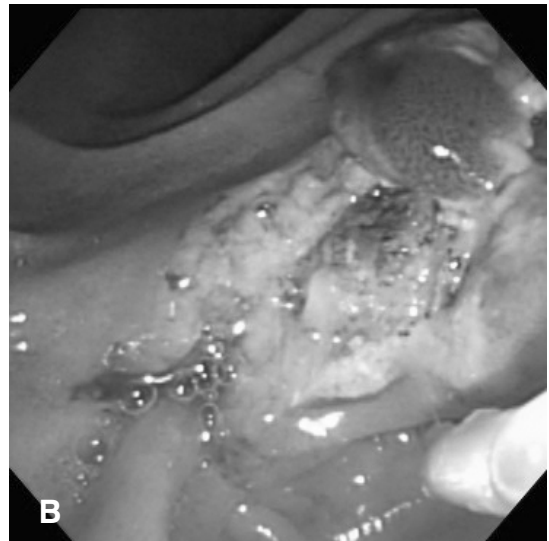
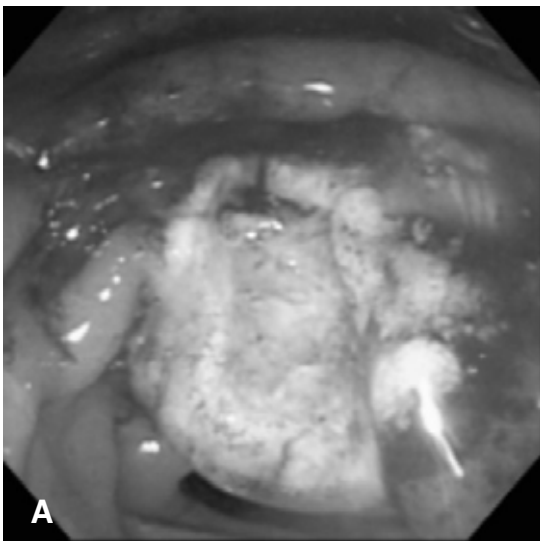
**내시경 및 방사선학적 소견 :** 내시경적 역행성 담췌관 조영술시 부유두는 돌출되어 있었고, 약 1 cm 크기의 점막하 종양이 관찰되었으며 점막은 정상 소견을 보였다(그림 1A). 조영제를 십이지장 주유두로 주입시 주 췌관은 정상 소견을 보였으며, 부유두로 조영제 주입을 시도하였으나 실패하였다. 내시경 초음파 검사상 부유두 점막 하층에 0.8 cm 크기의 중간 정도의 에코를 갖는 종괴가 관찰되었다(그림 1B). 종괴에 대한 방사선학적 평가를 위해 복부 전산화단층촬영 및 채담도 MRI 시행결과, 두 검사 모두에서 십이지장 부유두에 작은 용종성 병변이 관찰되었으며(그림 2A, 2B), 그 외 특이소견은 보이지 않았다.



**Figure 1.** (A) Duodenoscopic finding shows an 0.8cm sized submucosal tumor bulging on the minor papilla, (B) EUS (endoscopic ultrasonography) shows an isoechoic mass on the minor papilla in Case 1.



**Figure 2.** (A)(B) Abdomen CT (A) & MRI (B) finding shows about 1.1 cm sized small polypoid mass on minor papilla in case 1.



**Figure 3.** Duodenoscopic findings show the postpapillectomy crater in Case 1 (A) and Case 2 (B).

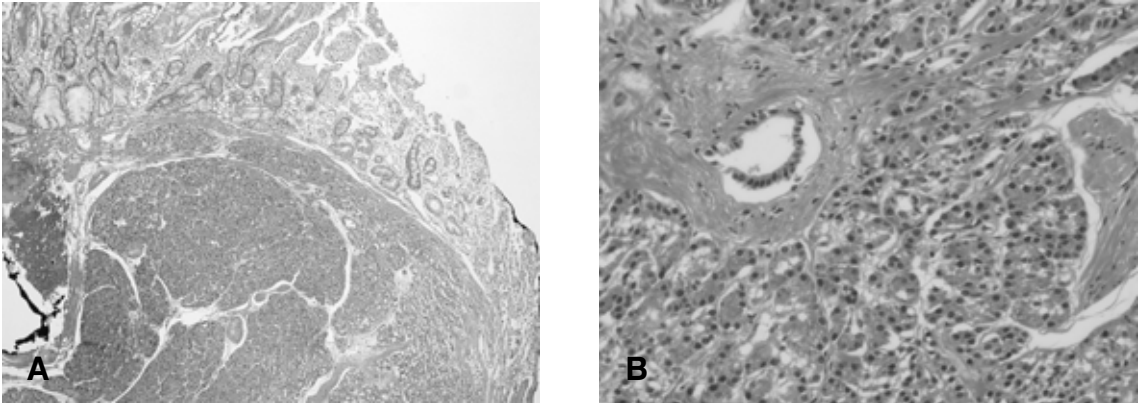
**치료 및 경과 :** 십이지장 부유두의 점막하 종괴에 대한 병리학적 확진 및 근치적 치료를 위해 내시경적 부유두 절제술을 시행하였으며(그림 3A), 절제 조직의 병리학적 검사상, 결절성의 경계가 분명한 췌장 조직에 의해 부유두 점막하층의 팽대가 관찰되고, 절제 조직 내 췌장 선포 및 췌관에는 정상 췌장과 비교시 특이할만한 소견은 보이지 않아 십이지장 부유두에 생긴 이소성 췌장으로 확진하였으며(그림 4A, 4B), 환자는 시술 후 특별한 합병증 없이 현재 외래에서 추적관찰 중이다.

## 증 례 2

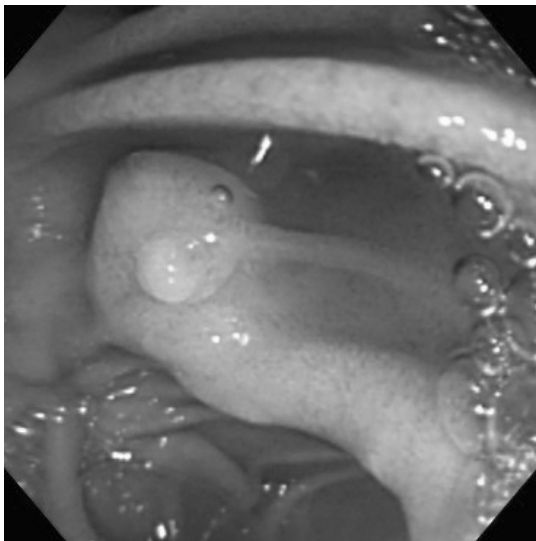
**환 자 :** 송○문, 남자 46세

**주 소 :** 2주간 지속된 식후 상복부 동통

**현병력 :** 본 49세 남자 환자는 1년 전 가족성 대장 용종증 진단받고, 3개월 전 시행한 상부 위장관 내시경 검사에서 십이지장 주유두 선종이 관찰되어 내시경적 주유두 절제술을 시행하였으며, 병리학적으로 관상 선종으로 진단되었다. 이후 환자는 대장 전 절제술 시행 받고



**Figure 4.** (A)(B) The submucosa is expanded by localized nodular and well-circumscribed pancreatic tissue that abuts the overlying muscularis mucosa in Case 1 (H&E stain, A  $\times 40$ ). The ectopic pancreatic tissue is composed of lobules of histologically unremarkable pancreatic ducts and acini in Case 1 (H&E stain, B  $\times 400$ ).



**Figure 5.** Duodenoscopic findings shows polypoid tumor bulging onto the minor papilla in Case 2.

경과관찰 중 내원 2주 전부터 발생한 식후 상복부 동통을 주소로 내원하였다.

**과거력 :** 2년 전 알코올성 급성 췌장염으로 입원 치료 받았다.

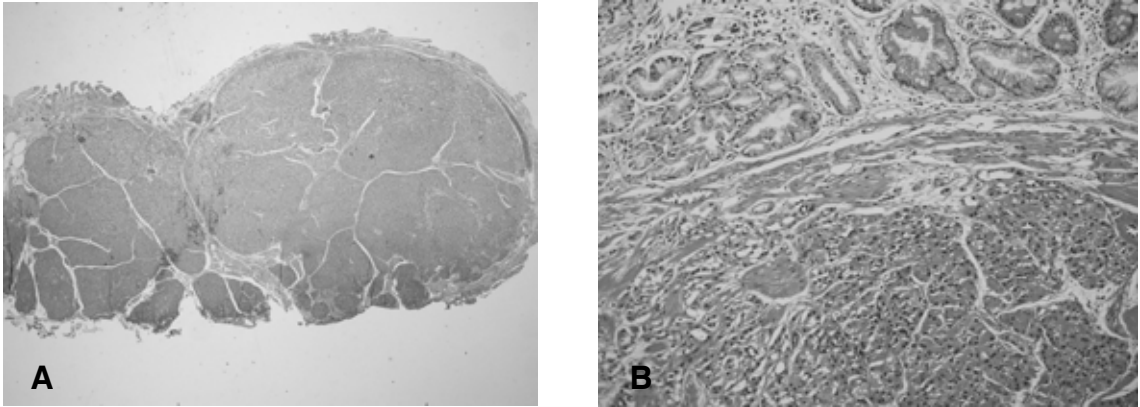
**가족력 :** 가족성 대장 용종증; 부모의 병력은 없었으며, 2남 4녀 중 환자 본인(둘째, 장남)과 남동생(넷째, 차남) 및 여동생(셋째, 여섯째)까지 총 4명이 가족성 대장 용종증 진단받고 대장 전 절제술 시행받았다.

**이학적 소견 :** 내원 당시 혈압은 130/90 mmHg, 맥박은 72회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.7°C였고, 의식은 명료하였으며, 두경부 및 흉부 진찰에서 특이한 소견이 발견되지 않았다. 복부는 유연하고 편평하였으나 경한 상복부 압통을 호소하였으며 반사통은 호소하지 않았고 그 외 이학적 검사상 특이소견 보이지 않았다.

**검사실 소견 :** 말초혈액검사에서 혈색소 12.3 g/dL, 백혈구  $5,690/\text{mm}^3$  (호중구 44%, 림프구 43%, 단핵구 2.9%), 혈소판  $373,000/\text{mm}^3$ 이었으며, 혈청생화학검사는 AST/ALT 33/48 IU/L, alkaline phosphatase 364 U/L,  $\alpha$ -GT 497 IU/L, 총 빌리루빈 1.1 mg/dL, 콜레스테롤 241 mg/dL, 혈중 요소 질소 7.7 mg/dL, 크레아티닌 0.9 mg/dL이었고, 혈청 전해질 검사는 Na 143 mmol/L, K 4.5 mmol/L, Cl 103 mmol/L이었다. 종양 표지자 검사는 CEA 0.54 ng/mL, CA19-9 0 U/mL이었다.

**내시경 및 방사선학적 소견 :** 내시경적 역행성 담췌관 조영술 검사상 십이지장 주유두는 이전에 시행한 내시경적 주유두 절제술로 인해 변형이 관찰되었으나 재발 소견은 없었다. 십이지장 부유두부에서는 정상 점막으로 덮힌 약 8 mm 크기의 부유두 종괴가 관찰되어 점막하 종양이 의심되었다(그림 5). 복부 전산화 단층 촬영 검사를 시행하였으나 특이소견은 관찰되지 않았다.

**치료 및 경과 :** 십이지장 부유두의 점막하 종양에 대해 병리학적 확진 및 근치적 치료를 위해 내시경적 부유두 절제술을 시행하였다(그림 3B). 절제 조직의 병리학적 검사상, 정상 췌장의 췌관 및 선포의 조직소견을 보



**Figure 6.** (A)(B) The submucosa is expanded by localized nodular and well-circumscribed pancreatic tissue that abuts the overlying muscularis mucosa in Case 2 (H&E stain, A  $\times 10$ ). The ectopic pancreatic tissue is composed of lobules of histologically unremarkable pancreatic ducts and acini in Case 2 (H&E stain, B  $\times 200$ ).

이는 결절성의 경계가 분명한 종괴가 점막하층에 관찰되어 부유두에 발생한 이소성 췌장으로 확진하였고, 환자는 시술 이후 특별한 합병증 없이 현재 외래 추적관찰 중이다(그림 6A, 6B).

## 고 찰

십이지장 부유두는 주로 주유두의 구부 쪽으로 1~2 cm 떨어진, 십이지장 전벽에 위치하며 등근 점막하 종괴 형태를 띠고, 구조는 부채관을 포함한 등쪽 췌장이 십이지장 고유 근층을 통과하여 주변 간질조직에 둘러싸인 것으로 부채관의 개구부가 열려 십이지장과 통하는 것과 개구부가 막혀 통하지 않는 경우가 있는데 주유두와의 위치가 가까울수록 개구부가 열린 예가 많고, 크기는 3~6 mm 정도이다<sup>7-10</sup>.

십이지장 부유두에 발생하는 종양은 발생 빈도가 매우 낮으며 성장억제호르몬종, 카르시노이드와 같은 신경내분비 종양과 유두상피세포 선암 등이 드물게 관찰적으로 보고되고 있다. 그 치료법으로는 주로 수술적 방법이 시행되어왔으나, 최근에는 선종, 신경절세포성 부신경절종 등이 발생한 예에서 내시경 초음파 검사를 통해 종양의 벽 내 위치, 내부 예코 정도 및 양상, 경계면의 성상, 발육 양상 등을 분석하여 점막하 종양인 경우, 내시경적 절제술을 시행한 예들도 보고되고 있다<sup>1-5</sup>. 하지만 십이지장 부유두에 발생한 종양의 치료적 접근법에 대해 일반화된 정론은 아직 없다. 본 예에서 저자 등은 우연히 발견된 십이지장 부유두의 점막하 종양 환자들

을 경험하였다. 증례 1의 경우, 부유두의 점막 표면이 충혈되고 두드러지게 팽대되어 있으며, 증례 2의 경우, 정상 점막으로 덮힌 약 8 mm 크기의 부유두 종괴가 관찰되어 점막하 종양이 의심되었다. 특히 증례 2의 경우 가족성 대장 용종증 및 바터씨 팽대부 선종의 과거력이 있고, 팽대부 주위에 발생하는 선종은 악성 선암과 빈번하게 혼재되어 있음을 고려할 때<sup>11</sup>, 부유두 종괴에 대한 조직학적 확인이 필요했다.

두 예 모두에서 내시경 초음파 검사 또는 십이지장경을 통해 부유두 점막 하에 존재하는 뚜렷한 종양이 관찰되었고, 생검만으로는 종양의 조직학적 확인을 얻기 어려우며, 두 환자 모두에서 부유두 종괴에 대한 많은 불안감을 호소하여 경과관찰을 통한 추적관찰을 권유하였으나, 종괴의 절제 및 확진을 위하여 내시경적 부유두 절제술을 시행하였다. 조직 검사 결과, 점막 하층 내 경계가 분명한 정상 췌장의 조직 소견을 보이는 종괴가 관찰되어 십이지장 부유두에 생긴 이소성 췌장으로 확진하였다.

이소성 췌장은 췌장조직이 원래의 위치가 아닌 다른 곳에 위치하여 고유의 췌장과 해부학적 또는 혈관적으로 직접적 연관성이 없으며 조직학적으로 췌장조직으로 확인된 것을 말하고<sup>12, 13</sup>, 모든 위 장관에서 발생이 가능한데, 가장 많이 호발하는 부위는 위(60~70%)이며, 그 외에도 십이지장, 공장(30~45%), 맥켄씨 계실, 바터씨 팽대부, 쓸개, 담도, 나팔관, 비장, 장간막, 대장, 중격동 등에서도 증례가 보고된 바 있다. 십이지장 부유두에서 병발한 경우는 본 증례 2예를 포함, 전 세계적으로 3예

의 보고가 있다<sup>12, 14-16)</sup>.

결론적으로 저자들은 본 증례를 통해 양성 종양 및 십이지장 부유두에 국한된 악성종양의 경우, 주유두의 내시경적 절제술과는 달리 췌장염, 담도 협착 등과 같은 합병증이 적은 내시경적 부유두 절제술을 조직학적 확진 및 근치적 치료의 목적으로 고려할 수 있고, 또한 부유두에 발생한 종괴에 대한 감별진단으로 이소성 췌장도 고려해야 함을 강조하고자 한다.

### 요 약

본 보고에서는 내시경에서 발견된 십이지장 부유두 종괴에 대해 내시경적 절제술을 시행하였고, 조직학적으로 췌장 실질의 소견을 보인 두 예에 대하여 이전에 십이지장 부유두에 발생한 종양으로 보고된 성장억제호르몬종<sup>2)</sup>, 카르시노이드<sup>1)</sup>, 거대세포 신경종<sup>6)</sup>, 신경절세포성 부신경절종<sup>3)</sup>, 선종<sup>4)</sup> 및 선암<sup>5)</sup> 이외에도 감별진단으로 이소성 췌장을 고려해야 하며, 내시경적 절제술이 조직학적 감별진단과 동시에 치료 방법이 될 수 있음을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

**중심 단어 :** 이소성 췌장, 내시경적 십이지장 부유두 절제술

### REFERENCES

- 1) Noda Y, Watanabe H, Iwafuchi M, Furtuta K, Ishihara N, Satoh M, Ajioka Y. *Carcinoid and endocrine cell micronests of the minor and major duodenal papillae. Cancer* 70:1825-1833, 1992
- 2) Stommer PE, Stole M, Seifert E. *Somatostatinoma of Vater's papilla and of the minor papilla. Cancer* 60:232-235, 1987
- 3) Nakamura T, Ozawa T, Kitagawa M, Takehira Y, Yamada M, Yusumi K, Tamakoshi K, Kobayashi Y, Nakamura H. *Endoscopic resection of gangliocytic paraganglioma of the minor duodenal papilla. Gastrointest Endosc* 55:270-273, 2002
- 4) Sugiyama M, Kimura W, Muto T, Yahagi N, Ichinose M, Miki K. *Endoscopic resection of adenoma of the minor papilla. Hepatogastroenterology* 46:189-192, 1999

- 5) Yamao K, Ohhashi K, Furukawa T, Mizutani S, Matsumoto S, Banno T, Fujimoto M, Hayakawa T. *Primary carcinoma of the duodenal minor papilla. Gastrointest Endosc* 48:634-636, 1998
- 6) Feyrter F. *The argyrophilia of macrocytic neuroma of the minor duodenal pailla (Santorini). Frankf Z Pathol* 77:160-167, 1967
- 7) Ohta T, Nagakawa T, Kabayashi H, Kayahara M, Ueno K, Konishi I, Miyazaki I. *Histomorphological study on the minor duodenal papilla. Gastroenterol Jpn* 26:356-362, 1991
- 8) Frierson HF Jr. *The gross anatomy and histology of the gallbladder, extrahepatic bile ducts, vaterian system, and minor papilla. Am J Surg Pathol* 13:146-162, 1989
- 9) Kimura W, Nagai H. *Study of surgical anatomy for duodenum-preserving resection of the head of the pancreas. Ann Surg* 221:359-363, 1995
- 10) Kamisawa T, Tu Y, Egawa N, Sakaki N, Ishiwata JI, Okamoto A. *Size, location and patency of the minor duodenal papilla as determined by dye-injection endoscopic retrograde pancreatography. Dig Endosc* 13:82-85, 2001
- 11) Kimura W, Ohtsubo K. *Incidence, sites of origin, and immunohistochemical and histochemical characteristics of atypical epithelium and minute carcinoma of the papilla of Vater. Cancer* 61:1394-1402, 1988
- 12) Lucena JF, Alvarez OA, Gross GW. *Endoscopic resection of heterotopic pancreas of the minor duodenal papilla. Gastrointest Endosc J* 46:69-72, 1997
- 13) Barbosa JJ, Dockerty MB, Waugh JM. *Pancreatic heterotopia: review of literature and report 41 authenticated surgical cases, of within 25 where clinically significant. Surg Gynecol Obstet* 82:527-542, 1946
- 14) Makhoulouf HR, Almeida JL, Sobin LH. *Carcinoma in jejunal pancreatic heterotopia. Arch Pathol Lab Med* 123:707-711, 1999
- 15) Pearson S. *Aberrant panceas: review of the literature and report of three cases, one of which produced common and pancreatic duct obstruction. Arch Surg* 63:168-186, 1951
- 16) Panc LC. *Pancreatic heterotopia: a reappraisal and clinicopathologic analysis of 32 cases. South Med J* 81:1264-1275, 1988