

위 사구종양 1예

이진성 · 최선택 · 이현욱 · 권병진 · 이지은 · 이시형¹
포항성모병원 내과, 영남대학교 의과대학 내과학교실¹

A Case of Gastric Glomus Tumor

Jin Sung Lee, Sun Taek Choi, Hyun Uk Lee, Byung Jin Kwon,
Ji Eun Lee, Si Hyung Lee¹

*Department of Internal Medicine,
Pohang Saint Mary's Hospital, Pohang, Korea*
¹*Department of Internal Medicine, College of Medicine,
Yeungnam University, Daegu, Korea*

— Abstract —

Gastric glomus tumor is a rare mesenchymal tumor that originates from modified smooth muscle cells of the glomus body. Glomus tumors are commonly observed in peripheral soft tissue, such as dermis or subungual region, but rarely in the gastrointestinal tract. A 39-year-old woman was admitted due to epigastric soreness. Upper gastrointestinal endoscopy revealed a subepithelial mass measuring 3.5 cm with central ulceration at the lesser curvature-posterior wall of the antrum. Characteristically, contrast enhanced abdominal computed tomography scan demonstrated high enhancement of the submucosal mass up to the same level of the abdominal aorta in the arterial phase; this enhancement persisted to delayed phase. Due to the risk of bleeding and malignancy, wedge resection of the submucosal tumor was performed. Histologic findings were compatible with a glomus tumor.

Key Words: Glomus tumor, Stomach, Submucosal tumor, Computed tomography

서 론

사구종양 (glomus tumor)은 온도 변화에 따라 혈류를 조절하는 사구체 (glomus body)의

변형된 평활근 세포인 사구세포 (glomus cell) 에서 발생하는 종양으로 주로 사지 말단에서 발생하며 특히 손톱 아래의 진피나 피하조직에서 많이 발생한다.^{1,2} 하지만 사구는 동정맥 문합이 있는 어느 곳에서도 볼 수 있기 때문에 신체 모든 부위에서 발생할 수 있으며 드물게 위장관에도 발생한다. 위장관에서는 위에서 가장 흔하게 발생하며 대개 유문륜이나 위전정부의 단발성 상피하 종양의 형태로 발견된다.1 위 사구종양은 1948년 De Busscher에 의해 처음 보고되었고 우리나라에서는 1970년 김 등이 보고 한 후 현재까지 23예가 보고되었다.^{3,4}

위에서 발생한 사구종양의 경우에는 대부분 양성인 경과를 보이므로 위 췌기 절제술이나 아전 절제술로 완치가 가능하나 전체 위장관 상피하 종양에서 차지하는 비율이 낮고 수술 전 진단이 어렵기 때문에 수술 후에 진단되는 경우가 많다.^{5,6} 저자들은 위 췌기 절제술 후 위 사구종양으로 확진된 환자에서 사구종양의 특징적인 복부 전산화단층촬영 소견을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

39세 여자 환자가 속쓰림으로 개인 내과의원에서 시행한 상부 위장관 내시경 검사에서 위 전정부에 상피하 종양이 발견되어 추가 검사를 위해 전원되었다. 환자는 과거력, 가족력에서 특이 사항은 없었고 내원 당시 활력 징후는 정상이었으며 의식은 명료하였다. 신체검진에서 결막과 공막은 정상이었으며, 두경부, 액와부 및 서혜부의 림프절 종대는 없었다. 복부 검사에서 장음은 정상이었고, 압통이나 반사통은 없었으며 만져지는 종괴나 비종대의 소견은 없었다. 말초 혈액 검사상 백혈구 6,000/mm³, 혈색소 12.2 g/dL, 혈소판 213,000 mm³이었고 AST 17 IU/L, ALT 9 IU/L, GGT 10 IU/L, T-bil 0.3 mg/dL, D-bil 0.1 mg/dL, BUN 10.9 mg/dL, Creatinine 0.84 mg/dL, PT 12.5 sec, PTT 30.9 sec로 정상 범위였으며, 소변검사, 흉부 X-선 및 복부 단순 촬영도 정상이었다.

상부 위장관 내시경검사서 위 전정부 소만과 후벽 사이에 약 3.5cm 크기의 둥근 상피

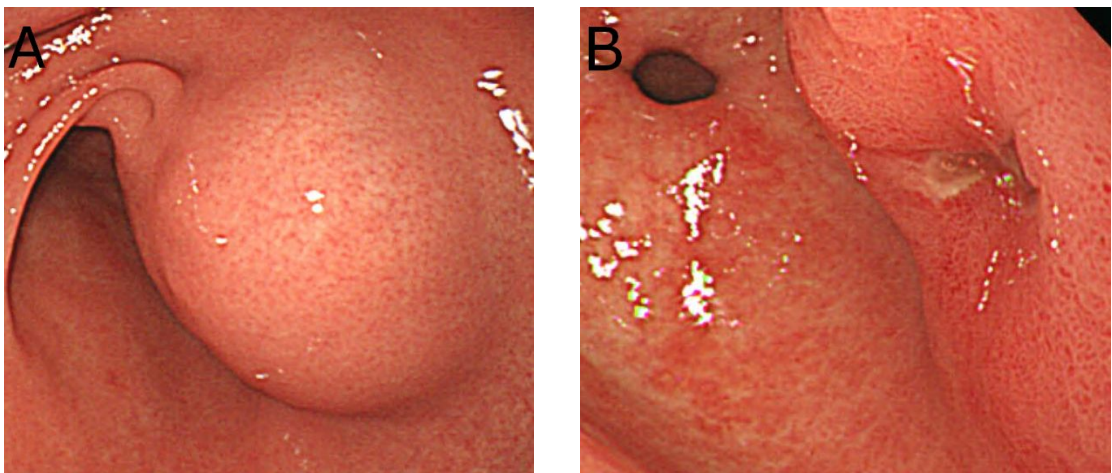


Fig. 1. Endoscopic findings. (A) There is a 3.5cm sized, subepithelial tumor at the lesser curvature-posterior wall of the antrum. (B) At the distal side of tumor, central ulceration is noted.

하 종양이 관찰되었고 종양을 덮는 정상 점막의 중심부에 궤양이 있었다 (Fig. 1). 생검검자

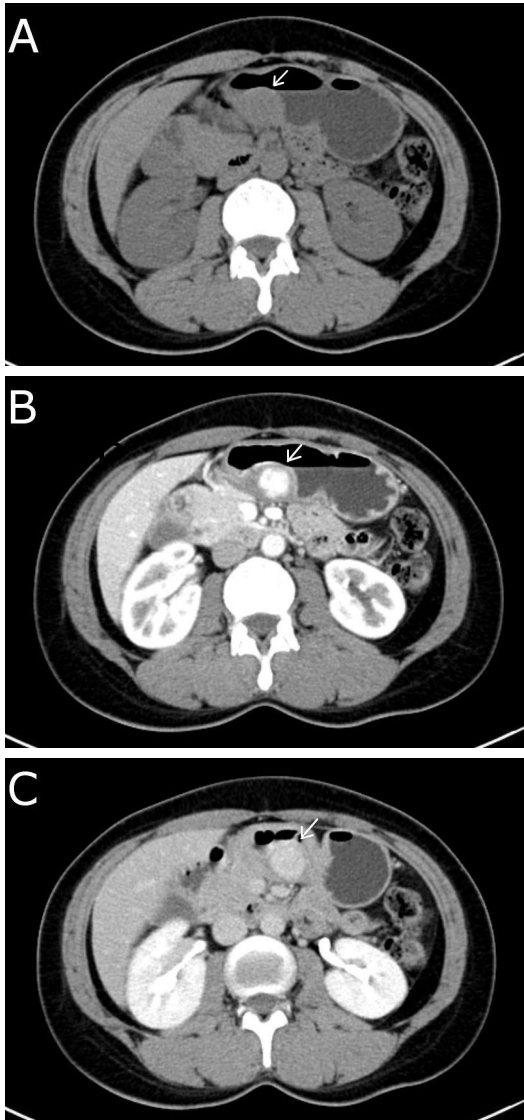


Fig. 2. Abdominal CT (A) Non-enhanced axial CT image shows a mass lesion (arrow) in the posterior wall of the gastric antrum. (B) Arterial phase axial CT image reveals a well-defined enhancing mass (30×25 mm sized, arrow). The density of the mass is similar to that of the abdominal aorta. (C) This enhancement (arrow) persists to delayed phase.

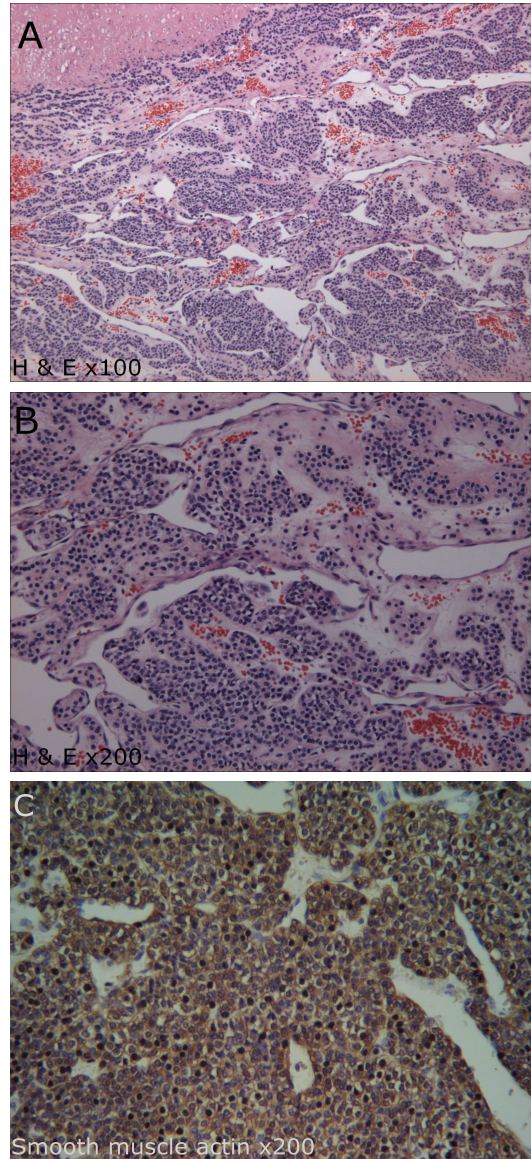


Fig. 3. Histologic findings. (A) The tumor is relatively well demarcated and is surrounded by smooth muscle fibers of the muscularis propria (H&E stain, ×100). (B) The tumor is mostly composed of solid area with many capillaries, which are surrounded by small uniform round cell with clear or eosinophilic cytoplasm and distinct membrane (H&E stain, ×200). (C) The tumor cells are positive for smooth muscle actin. (Immunohistochemical stain, ×200).

로 눌렀을 때 종양은 고정되어 있었고 쿠션 징후는 음성이었으며 내시경으로 궤양 부위에 반복적인 생검을 시행하였으나 조직 검사 결과는 만성 궤양의 소견만 보였다. 복부 전산화단층촬영에서는 위 전정부 후벽에 30×25mm 크기의 점막하 종양이 보였고 종양은 동맥기에서 대동맥과 비슷한 정도의 조영 증강을 보이고 조영 증강이 문맥기까지 지속되었다(Fig. 2). 위 점막하 종양 중에 고혈관성인 사구종양, 위 장관 간질성 종양, 유암종이 의심되었으며 위 출혈 및 악성의 가능성이 있어 진단 및 치료적 목적을 위하여 위 췌기 절제술을 시행하였다. 절제된 위 표본의 현미경 조직검사서 많은 혈관들 주위로 작고 둥근 형태의 균일한 세포들이 둘러싸듯이 배열되어 있었다. 개개의 세포들은 규칙적이고 균일한 모양의 핵을 가지고 있었고 세포질은 투명하거나 호산성을 띠면서 세포 분열은 보이지 않았다. 면역조직화학염색에서 smooth muscle actin에는 양성 반응을 보였으며 c-KIT, chromogranin에는 음성으로 나와 위 사구종양으로 진단되었다(Fig. 3). 환자는 수술 후 특별한 합병증 없이 외래에서 경과 관찰중이다.

고 찰

위장관의 사구종양은 전체 위장관 상피하 종양의 1% 미만일 정도로 매우 드물고 발생빈도도 위장관 간질 종양(gastrointestinal stromal tumor)의 100분의 1 정도이며 위장관 중에서는 위에서 많이 발생한다. 위 사구종양의 발생 연령은 다양하고 여성에서 더 호발하며 대개 단발성이나 드물게 다발성으로 발생하기도 한다. 종양의 크기는 대개 1cm에서 4cm이고,

20cm 이상인 경우도 있으며 종양의 크기가 큰 경우에는 점막의 궤양, 출혈 등이 동반될 수 있다.^{3,4,6} 약 15% 정도에서 무증상으로 우연히 발견되고 속쓰림이나 상복부 불편감, 오심, 구토, 식욕부진 등과 같은 비특이적 증세가 있을 수 있으며 종양을 덮고 있는 점막에 궤양이 있는 경우에는 혈변, 토혈, 흑색변이 동반 가능하다.⁵ 이 증례의 환자도 속쓰림의 증세가 있었으며 내시경상에서 위 전정부에 3.5cm 크기의 궤양을 동반한 상피하 종양으로 발견되었으나 출혈 징후는 없었다.

위 사구종양은 상피하 종양이므로 내시경 초음파 검사가 진단 과정에서 중요한 역할을 한다. 내시경 초음파 검사에서는 3층(점막하층)이나 4층(교유근층)에서 비교적 규칙적인 경계를 가지는 비균일 저에코 종양으로 나타나며 주변에 저에코 후광이 관찰된다. 그러나 위 장관 간질종양, 신경초종, 임파종도 비슷한 내시경 초음파 소견을 보여 내시경 초음파 검사로는 사구종양과 정확히 감별하기가 어렵다.^{2,5,7}

위 사구종양의 복부 전산화단층촬영 소견은 다른 점막하 종양들과 비교하여 강한 조영증강이 특징적이다. 종양을 덮고 있는 점막과 경계가 명확하고 균질하면서 강한 조영증강이 동맥기부터 지연기까지 이어지는데, 이는 사구종양이 혈관조직이 매우 풍부한 고혈관성 종양이라는 점에서 기인한다. Hu 등⁸은 동맥기에는 대동맥, 비장과 비슷한 조영증강이 있었고 문맥기에서 지연기까지는 간문맥, 하대정맥, 심지어 대동맥 수준의 조영증강을 보였다고 보고하였으며 국내에 발표된 다른 증례보고에서도 비슷한 소견을 기술하고 있다(Table 1). 복부 전산화단층촬영에서 고혈관성으로 보이는 점막하 종양으로는 사구종양, 위장관 간질 종양, 유암

Table 1. Summary of the case reports on gastric glomus tumor (published in Korea)

Reports	Clinical manifestation	Histologic findings	CT findings
Kim et al. 2009 ¹	Upper abdominal discomfort	Small uniform, round cell with uniform nuclei. Positive immunoreactivity for SMA*, vimentin.	High enhancement similar to aortic enhancement on arterial and portal venous phase.
	None	Positive immunoreactivity for SMA, vimentin.	High enhancement similar to portal venous enhancement on arterial phase.
	Epigastric soreness	Positive immunoreactivity for SMA, vimentin.	High enhancement similar to portal venous enhancement on arterial phase.
Park et al. 2008 ³	None	Immunochemical positivity for SMA, and negativity for chromograin A, synaptophysin.	High enhancement up to the same level of the portal vein in arterial phase, with persistent enhancement in the portal venous phase.
Shin et al. 2000 ⁴	Hematemesis	Variable sized vessels surrounded by collars of rounded regular glomus cell. Positive immunoreactivity for SMA, vimentin.	Well enhanced mass with some calcification.
Kim et al. 2009 ⁵	None	Uniform polygonal tumor cell with pale cytoplasm and round small nuclei. Immunochemical positivity for SMA and negativity for CD34, CD31, c-KIT, factor VIII.	High enhancement with the same level of enhancement as the portal vein for arterial phase, with persistent enhancement in the portal venous phase.
Kim et al. 2011 ⁶	Hematochezia	Solid sheets of round, uniform, glomus cells surrounding capillaries of varying shape. Immunochemical positivity for SMA, synaptophysin and negativity for chromograin A, c-KIT.	High enhancement similar to aortic enhancement on portal venous phase.
Yoon et al. 2011 ⁸	None	Polygonal tumor cell with capillaries of varying size. Immunochemical positivity for SMA and negativity for CD34, S-100 protein, c-KIT, desmin	Homogeneous high enhancement up to the portal venous scan.
	None	Positive immunoreactivity for SMA.	Well-enhanced tubular structure with calcified flecks and persistent enhancement in the portal venous phase.
	None	Positive immunoreactivity for SMA, vimentin.	Homogeneous high enhancement up to the portal venous scan.

SMA: smooth muscle actin.

중, 동정맥 기형, 이소성 췌 조직, 혈관평활근 중과 혈관지방증이 있어 감별 진단이 필요하다. 그 중 위장관 간질 종양은 조영변화 양상이 사구종양과 비슷하지만 전 조영기 동안 사구종양보다 낮은 조영증강을 보인다는 점에서 사구종양과 차이가 난다.^{2,9-11} 본 증례의 복부 전산화단층촬영에서 사구종양은 조영 전기에 38 ± 5.2 Hounsfield Unit (HU)에서 동맥기에는 199 ± 16.1 HU로 대동맥 수준의 강한 조영증강을 보였다. 지연기에서도 종양은 128 ± 9.6 HU로 복부 대동맥, 간문맥과 비슷한 수준의 지속적인 조영증강을 보였다. Lee 등¹²이 보고한 17명의 위장관 간질 종양환자의 복부 전산화 단층촬영 소견 분석에서 조영증강의 변화가 조영 전 30.41 ± 5.01 HU에서 조영 후 51.80 ± 9.24 HU로 본 증례의 환자의 조영증강의 변화와 비교해서 낮은 조영증강을 나타내므로 이런 조영증강의 차이는 위 사구종양과 위장관 기질 종양을 감별하는 데 도움이 될 수 있을 것으로 생각한다.

위 사구종양의 병리적 소견은 다양한 크기의 소엽을 형성하거나 혈관을 따라서 군집을 형성하는 사구세포와 불규칙한 혈관증식을 보인다. 면역조직화학염색으로는 smooth muscle actin, vimentin, laminin, type IV collagen에는 양성이나 c-KIT (CD117), CD34, S100, desmin, chromogranin, factor VIII related antigen, Ulexe uropareus antigen, cytokeratin에는 음성으로 다른 점막하 종양과 감별하는 데 도움이 된다.¹ 이 증례의 병리 조직 소견도 전형적인 사구종양의 특징을 보였으며 면역조직화학 검사 상에서 smooth muscle actin에 양성, c-KIT, chromogranin에는 음성이었다. 위에 발생한 사구종양은 부분 절제술로 완치가 되기

때문에 불필요한 광범위 위절제를 피하기 위한 수술 전 진단이 중요하다. 그러나 사구종양은 내시경 초음파, 영상학적 소견으로는 수술 전 진단에 한계가 있고 병변이 점막하에 위치함으로 내시경적 위조직 검사로는 적절한 조직을 얻기 어렵다. 미세침흡인세포검사를 통한 조직학적 진단도 유암종이나 평활근종으로 오진되기 쉬워 면역화학염색과 반복적인 세포흡인을 해야 확진할 수 있다.^{3,7,13-15}

사구종양은 대개 양성의 임상 경과를 보이거나 드물게 악성의 경과를 보이며 원격 전이를 일으킬 수 있다.¹⁶ Folpe 등¹⁷은 사구종양의 악성 진단 기준으로 종양의 위치가 깊으면서 병변의 크기가 2 cm 이상인 경우, 비정형 분열상 (atypical mitotic figure)이 있는 경우, 중등도 혹은 고도의 핵이형성이 있으면서 유사분열상 (mitotic figure)이 5/50 HPF 이상일 경우를 제시하고 있다. 위 사구종양에서는 3 cm의 종양 크기와 비정형 분열상을 보였던 환자에서 신장, 뇌전이가 발견된 증례가 있으며 크기만 큰 경우에도 간 전이가 보고된 예가 있다.^{2,18} 이 증례의 조직 소견에서도 유사분열은 거의 없으나 크기가 2 cm 이상이므로 좀 더 적극적인 추적관찰이 필요할 것으로 생각된다.

치료는 복강경을 이용한 췌기절제술과 같은 국소 절제술로 충분하며 재발이 잘 되기 때문에 음성 절제연을 확보해야 한다.¹ 내시경적 절제는 주위 조직과 유착으로 박리가 힘들고 고유근층에 종양이 있으면 천공의 위험도 크며 시술 중 환자에게 통증을 유발할 수 있다.^{3,5} 그러나 점막하층에만 국한된 위 사구종양을 내시경적 절제술로만 제거한 증례도 있으므로 내시경 초음파를 이용하여 종양의 위치와 크기를 확인 후 내시경적 절제술을 시도해 볼 수 있다.²

이 증례에서는 상부 위장관 내시경 및 복부 전산화 단층 촬영상에서 궤양을 동반한 30×25 mm 크기의 고혈관성 병변으로 악성과 위 출혈의 위험성이 있어 위 췌기 절제술을 시행하였다. 그리고 수술 후 조직소견에서 고유근층에 사구종양이 있어 내시경적 종양제거술은 어려웠을 것으로 생각한다.

위 사구종양은 임상적, 영상학적, 내시경적 특징들이 다른 점막하 종양들과 비슷하고 발생 빈도도 낮아 수술 전 진단이 어렵기 때문에 대개 수술 후 진단된다. 하지만 본 증례와 타 증례에서도 보였던 복부 전산화단층촬영상 고혈관성 종양의 특징으로 위 사구종양의 가능성을 염두에 둔다면 다른 점막하 종양과의 감별 진단 및 치료에 도움을 줄 것으로 생각한다.

참 고 문 헌

1. Kim DH, Jeon TY, Kim HS, Kim JH, Kim TO, Kim GH, et al. Gastric glomus tumor. *J Korean Surg Soc* 2009;77(Suppl):s9-12. Korean.
2. Cho KJ, Bag JS, Choi SO, Kim HJ, Park SM, Kim TH, et al. A gastric glomus tumor treated by endoscopic resection. *Korean J Gastrointest Endosc* 2009;38:343-7. Korean.
3. Park JP, Park SC, Park CK. A case of gastric glomus tumor. *Korean J Gastroenterol* 2008;52:310-4. Korean.
4. Shin HJ, Park KS, Yi JS, Kwon KS, Cho HG, Choi W, et al. A case of gastric glomus tumor with bleeding. *Korean J Gastrointest Endosc* 2000;20:123-6. Korean.
5. Kim MR, Kim GH, Song GA, Cheong JH, Park DY, Kim MH, et al. A case of a gastric glomus tumor with a positive cushion sign. *Korean J Gastrointest Endosc* 2009;38:294-8. Korean.
6. Kim SH. Gastric glomus tumor showing hepatic hemangioma-like enhancement pattern on CT. *Korean J Gastroenterol* 2011;57:134-7. Korean.
7. Shin HM, Ryu DY, Lee D, Kim JH, Hwang DI, Lee DJ, et al. A case of glomus tumor of the stomach: role of endoscopic ultrasonography. *Korean J Gastrointest Endosc* 2000;21:855-8. Korean.
8. Yoon HA, Choi SR, Lee JH, Jang JS, Baek YH, Lee JM, et al. Glomus tumor in stomach: 3 cases. *Korean J Med* 2011;80:571-7. Korean.
9. Hu XY, Hu CH, Fang XM, Zhang TH. Glomus tumor of the gastric body: helical CT findings. *Chin Med J (Engl)* 2007;120:1289-91.
10. Park SH, Han JK, Kim TK, Lee JW, Kim SH, Kim YI, et al. Unusual gastric tumors: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 1999;19:1435-46.
11. Patel TH, Horton KM, Hruban RH, Fishman EK. Glomus tumor of the stomach: depiction by multidetector CT and three-dimensional volume rendering imaging. *Case Report Med* 2010;2010:126095.
12. Lee CM, Chen HC, Leung TK, Chen YY. Gastrointestinal stromal tumor: computed tomographic features. *World J Gastroenterol* 2004;10:2417-8.
13. Vassiliou I, Tympa A, Theodosopoulos T, Dafnios N, Fragulidis G, Koureas A, et al. Gastric glomus tumor: a case report. *World J Surg Oncol* 2010;8:19.
14. Debol SM, Stanley MW, Mallery S, Sawinski E, Bardales RH. Glomus tumor of the stomach: cytologic diagnosis by endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* 2003;28:316-21.
15. Huang CC, Yu FJ, Jan CM, Yang SF, Kuo YT, Hsieh JS, et al. Gastric glomus tumor: a case report and review of the literature.

- Kaohsiung J Med Sci 2010;26:321-6.
16. Joung KO, Kim ST, Lee KH, Lee WY, Cheoi KS, Lee OJ. A case of malignant glomus tumor arising at the chest wall metastases to the lung. Korean J Med 2006;71(suppl3):1101-4. Korean.
 17. Folpe AL, Fanburg-Smith JC, Miettinen M, Weiss SW. Atypical and malignant glomus tumors: analysis of 52 cases, with a proposal for the reclassification of glomus tumors. Am J Surg Pathol 2001;25:1-12.
 18. Lee H, Choi YS, Oh SC, Park JJ, Kim CW, Kim HK, et al. Malignant glomus tumors of the stomach: a report of 2 cases with multiple metastases. Korean J Pathol 2009;43:358-63.