

췌장의 고형 가성유두상 종양 진단 6년 후의 F-18 FDG PET/CT 소견

계명대학교 동산의료원 핵의학과
최병욱 · 김해원 · 원경숙 · 전석길

F-18 FDG PET/CT Finding in Solid Pseudo-papillary Tumor of the Pancreas 6 years After Initial Diagnosis

Byung Wook Choi, M.D., Hae Won Kim, M.D., Kyoung Sook Won, M.D., and Seok Kil Zeon, M.D.
Department of Nuclear Medicine, Keimyung University, School of Medicine, Daegu, Korea

Solid pseudo-papillary tumor (SPT) is a rare pancreatic neoplasm with low malignant potential, which tends to occur predominantly in younger females. Only a few cases of SPT seen on F-18 FDG PET scan have been reported, and the findings are not fully evaluated. A 33 year-old woman underwent F-18 FDG PET/CT study for staging of renal cell carcinoma. She was diagnosed with SPT of the pancreas 6 years ago, and has not had any treatment so far. Recent PET/CT showed marked F-18 FDG uptake in the peripheral solid portion and relatively less F-18 FDG uptake to the central calcified portion of SPT. We report one case of SPT of the pancreas on F-18 FDG PET/CT. (Nucl Med Mol Imaging 2009;43(6):577-581)

Key Words: F-18 FDG PET/CT, solid pseudo-papillary tumor, pancreatic tumor

서 론

췌장에서 생기는 고형 가성 유두상 종양(solid pseudo-papillary tumor, SPT)은 1959년 V.K Frantz가 처음 보고한 이후 췌장의 유두상 상피성 종양, 고형 낭성 종양, 유두상 낭성 종양, 고형 유두상 상피성 종양 등으로 불리다가 1996년 WHO의 정의에 의하여 췌장의 고형 가성 유두상 종양으로 불리게 되었다.¹⁻⁵⁾ 이 종양은 주로 젊은 여성에서 발생하는 매우 드문 양성 또는 저 악성도의 종양으로 췌장에서 발생하는 종양의 약 0.13~2.7%를 차지하며, 세계적으로 약 300여 예가 보고되었다.^{6,7)} 국내에서도 60 예 정도의 사례가 산발적으로 보고되었으며 그 발생 기원은 아직 밝혀지지 않고 있다.⁸⁻¹²⁾ 조직학적으로 SPT는 주위 조직과 경계가 뚜렷하고 피막으로 싸여 있으며 출혈성 괴사를 동반한 낭성 부분과 고형 부분의 복합 소견으로 보이

며,¹⁾ 전산화단층촬영(CT)과 자기공명영상진단(MRI), 및 복부초음파(US) 등이 진단에 도움을 줄 수 있다. 수술적 절제가 치료의 원칙으로 알려져 있고 술 후 예후도 좋은 것으로 되어 있다.

췌장의 SPT에서의 F-18 FDG 섭취에 대하여서는 아직 논란이 있으며, 저자들이 아는 한, 국외에서 SPT에서 PET를 시행한 사례들이 몇 차례 보고되었으나,¹³⁻¹⁵⁾ 아직까지 국내 보고는 없다. 이에 저자들은 젊은 여성의 췌장에서 발생한 SPT의 F-18 FDG PET 소견을 보고하는 바이다.

증 례

2009년 33세의 젊은 여성이 1개월 전부터 발생한 양쪽 하지의 약해짐과 아린감, 다음과 다갈 증세로 외부 병원에서 제2형 당뇨병으로 진단받고 치료를 받았으나 상기 증상이 지속되어 본원에 내원하였다. 과거력상 2003년 급성 간염 증세를 보여 시행한 복부 초음파에서 췌장에 종괴가 보였고, 이어 시행한 복부 CT에서 췌장의 두부와 구상돌기에 걸쳐서 중심부에 석회화를 동반하는 약 3.6 cm 크기의 종괴가 있었으며, 다른 장기나 국소 림프절로의 전이는 없었다. 이 종괴에서 CT 유도 세침흡인천자생검을 시행하였

- Received: 2009. 7. 29. • Revised: 2009. 9. 11.
- Accepted: 2009. 10. 23.
- Address for reprints: Kyoung Sook Won, M.D., Department of Nuclear Medicine, Keimyung University, School of Medicine, 194 Dongsan-dong, Jung-gu, Daegu 700-712, Korea
Tel: 82-53-250-7022; Fax: 82-53-250-8128
E-mail: won@dsmc.or.kr

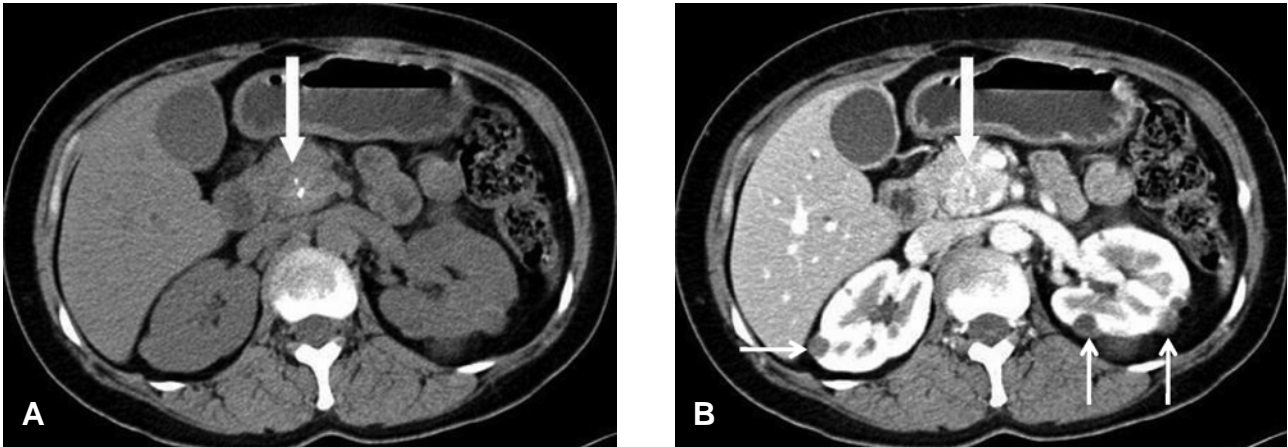


Figure 1. Present non-enhanced (A) and enhanced (B) abdominal axial CT images show a 3.6 cm sized, slightly hypoattenuating mass (thick arrows) with central calcification in the head and uncinate process of the pancreas with strong enhancement on arterial phase and several cysts of both kidneys (thin arrows). There is no definite interval change in this pancreatic mass compared with the dynamic abdominal CT on 2003. Incidentally two new lesions are noted in the lower pole of right kidney on the contrast-enhanced abdominal axial CT image of lower level, which are highly suspicious for small renal cell carcinomas (not shown here).

고 조직학적 소견상 SPT로 진단받았으나 환자의 개인적인 사정으로 수술적 절제를 하지 않기로 하고 외래 추적 관찰하던 중이었다.

이번에 내원하여 시행한 혈액 검사상 CEA, CA19-9, AFP 등의 종양표지자들은 정상이었다. 이어 시행한 복부 CT에서 췌장 종양의 크기나 양상은 6년 전의 복부 CT와 비교하여 변화가 없었으나(Fig. 1), 우연히 새로 발생한 우측 신장의 콩팥세포암종(renal cell carcinoma)이 진단되어 병기설정을 위하여 F-18 FDG PET/CT를 시행하게 되었다. F-18 FDG PET/CT는 discovery STE PET/CT scanner (General Electronic Systems, Milwaukee, WI, USA)를 이용하였다. F-18 FDG 투여 전 6시간 동안 금식하였고 공복 혈당은 149 mg/dL 이었다. F-18 FDG는 400 MBq (10.8 mCi)을 주사하고 60분 후에 머리끝에서 허벅지의 근위부까지 CT 와 PET 영상을 촬영하였다. F-18 FDG PET/CT에서 췌장의 두부와 구상돌기에 주변부로는 높은 F-18 FDG 섭취 증가를(SUVmax: 5.0) 보이면서 중심부로는 상대적으로 낮은 F-18 FDG 섭취를(SUVmax: 3.6) 보이는 두 종괴(Fig. 2)가 보였으며, 이들이 연결되어 있는 부위에 가장 높은 FDG 섭취가 관찰되었다(SUVmax: 9.3). 복부 CT 발견된 우측 신장의 콩팥세포암에는 FDG 섭취가 보이지 않았고, 나머지 부위에서도 비정상적인 F-18 FDG 섭취는 관찰되지 않았다.

환자는 콩팥세포암에 대하여서는 수술을 받을 계획이나, 췌장의 SPT에 대하여서는 비록 F-18 FDG PET/CT에서 높은 섭취를 보이지만 다른 부위의 전이가 없고, 복부 CT 추적 검사에서 이전과 변화를 보이지 않아 수술적 절

제는 하지 않고 이전과 마찬가지로 외래 추적 관찰만을 계획하고 있다.

고 찰

췌장의 SPT는 전 세계적으로 드물게 보고되는 췌장의 종양이다.^{6,7)} 외분비췌장 종양의 1~2% 가량을 차지하는 것으로 보고되고 있으며, 최근 윤 등이 국내 30여 개의 대학병원의 암센터에서 보고한 외분비췌장의 양성 종양 1,064 예를 분석한 것에 따르면 1,064 예 중 194 예(18.3%)가 SPT였다.^{6,16)} 발생 기원에 대해서는 아직 명확히 밝혀진 바가 없으나, 면역 조직화학염색과 전자현미경 소견상 외분비세포 기원설, 내분비기원설, 내분비와 외분비 세포 모두 분화가 가능한 다기능성 원시세포 기원설 등이 제시되고 있으며, 이 중 다기능성 원시세포설이 좀 더 설득력을 가지는 것으로 알려져 있다.⁷⁾ 대부분이 양성 또는 저 악성도를 보이나, 췌장의 바깥쪽으로 자라는 경향이 있어 십이지장, 간문맥으로의 국소 전이 및 원격 전이를 보이기도 하지만 양성 경과를 취하며 파종성의 경우에도 근처적 절제술을 시행할 경우 좋은 예후를 보이는 것으로 알려져 있다.^{2,7,17-19)} Lam 등은 452 예의 SPT 중에서 66 예에서 악성화와 함께 주변 조직으로의 전이나 침범을 보였다고 하였고²⁾ 나이가 많거나 남자에 발생한 경우에서 악성화의 경향이 더 나타난다고 하였다.^{14,19)}

SPT는 주로 20~30대의 젊은 여성에서 발생하며, 주 증상으로는 상복부의 종괴와 복통이 가장 흔하고 무증상으로 우연히 발견되는 사례도 있었다.^{7,16,18,20)} 발생하는 부위는

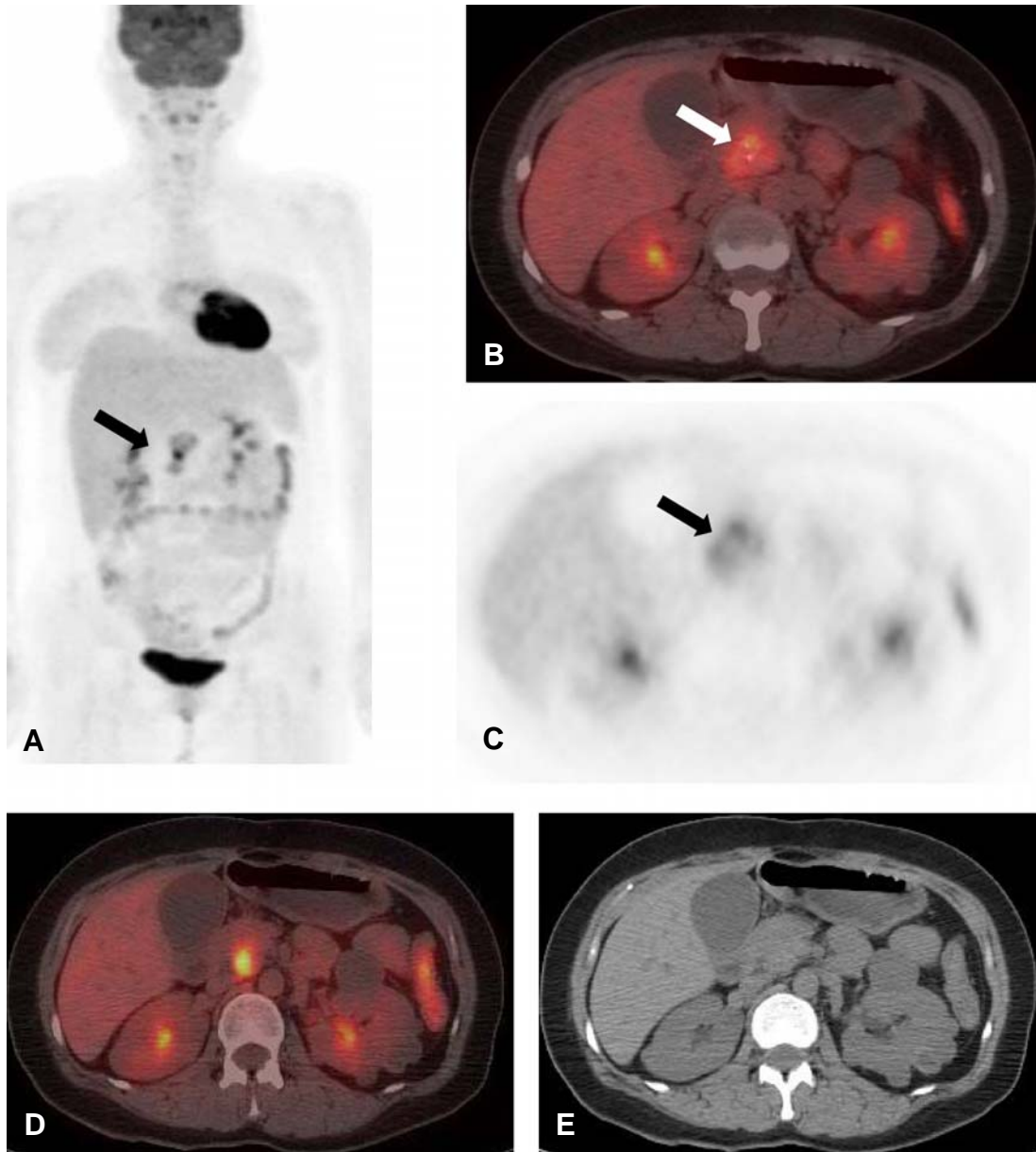


Figure 2. MIP (A) image of F-18 FDG PET/CT shows a vertically aligned bow tie shaped hypermetabolic lesion in the upper abdomen. Transaxial fusion (B) and PET (C) images depict moderate F-18 FDG uptake in the peripheral solid portion (SUVmax: 5.0) and relatively less F-18 FDG uptake in the central some calcified portion (SUVmax: 3.6) of the mass. The highest FDG uptake (SUVmax: 9.3) is noted in the small bridging area (D) without calcification (E) between masses of uncinete process and head of the pancreas. Corresponding contrast enhanced CT images show diffuse well enhancement on it (not shown here).

췌장의 어느 부위나 가능하며, 일반적으로는 두부보다는 체부나 미부에 발생한다고 알려져 있으나^{2,12,16)} 또 다른 국내 보고에 따르면, 강 등은 12 예 중 7예에서, 안 등은 7예 중 3예, 하 등은 8예 중 4예에서 두부에 발생하였다고 하였다.^{1,8,9)} 종양의 크기는 Lam 등은 452 예의 문헌 고찰에서 평균적으로 약 9.3 cm으로 보고 하였고 국내 보고에서도 평균 8~10 cm로 비슷한 결과를 보고하고 있다.^{2,7-9)} 육안

적 조직소견에서 종괴는 주위 조직과 경계가 뚜렷하고, 출혈성 괴사를 동반한 낭성 부분과 고형 부분이 혼합되어 피막으로 싸여 있다고 하였다.^{7,14)}

방사선학적 소견으로 복부 초음파 소견에서 주위 조직과 경계가 분명한 비 균질성의 종괴를 보이고, 후위증폭은 드문 것으로 알려져 있으며,^{21,22)} 복부 CT와 MRI로 췌장의 SPT와 비기능성 도세포종, 점액성 낭성종양(mucinous

cystic tumor), 단방 낭선종 및 염증성 또는 석회화된 가성 낭종(pseudocyst) 등과 같은 다른 췌장의 질환과 감별하는데 도움을 받을 수 있다. CT에서는 보통 고형과 낭성이 혼합된 종괴로 출혈성 괴사를 동반하고 피막으로 둘러싸여 있으며, 종종 석회화를 동반한다.^{4,7,15,17)} 고형 부분은 조영 증강이 되고 전형적으로 주변부에 분포하며, 낭성 부분은 중심에 위치한다.^{7,23)} MRI는 T1-과 T2-weighted 영상에서 췌장 내에 균일하지 않은 신호강도를 보이는 경계가 명확한 종괴 소견을 보인다.^{7,14,23,24)}

치료는 수술이 원칙으로 되어 있으며 보통 재발 없이 좋은 예후를 보이고, 드물게 수년 후에 전이가 나타날 수 있으나 전이가 있더라도 긴 생존 기간을 보이는 것으로 알려져 있다. Lam 등은 문헌 고찰에서 5년 생존율을 97%로 보고 하였고, 다른 보고에서도 역시 우수한 장기 생존율을 보고하였다.^{2,7,25)}

췌장에서 발생할 수 있는 여러 양성 또는 악성 질환들에서 F-18 FDG PET 소견은 다양한 것으로 알려져 있다. 췌장샘암은 주로 증가된 F-18 FDG의 섭취를 보이나, 췌장염에서도 미만성 또는 국소적인 F-18 FDG의 섭취를 보일 수 있으며, 췌장의 도세포종(islet cell tumor)과 점액성 낭성 종양의 경우에도 다양한 F-18 FDG의 섭취를 보일 수 있다. Nakamoto 등은 췌장에서 생기는 양성과 악성 질환을 감별하기 위하여 SUV의 제한값을 2.5와 2.8로 설정하였을 때 진단의 정확도가 각각 83%와 87%라고 보고하였다.²⁶⁾

PET에서의 췌장의 SPT의 FDG 섭취에 대해서 아직 명확하지는 않으나, SPT가 조직학적이거나 방사선학적으로 악성과 양성을 구별하기 어렵기 때문에 종양의 악성도와 FDG 섭취와의 관계를 알아보는 것이 필요하다. Lee 등은 3.2 cm 크기의 SPT에서 SUVmax 2.6의 FDG 섭취를 보고하였고, Sato 등은 2 예의 SPT에서 각각 4.2와 3.0, Shimada 등은 1예의 SPT에서 3.6으로 보고하였으며, 수술적 제거 후 조직학적 소견상 양성으로 진단되었고 추적 관찰에서도 재발이 없었다고 하였다.^{15,16,27)} Roldan-Valadez 등도 우연히 발견된 췌장 체부의 15 cm가량의 SPT를 수술하지 않고 5년 동안 추적관찰을 하고 있는 68세의 남자 환자에서 SPT를 평가하기 위해 시행한 F-18 FDG PET/CT에서 종괴의 크기는 이전의 복부 CT와 비교하여 변화가 없고 다른 장기나 국소 림프절로의 전이 소견 역시 없었으며, SPT의 가장자리에서 측정된 SUVmax 값은 16.5, 중심 부분에서는 1.2를 보였다고 보고하였다.¹³⁾ 이 증례는 췌장에서 발생한 SPT를 외래 추적 관찰하던 중에 F-18 FDG PET/CT를 시행하여 높은 SUVmax 값을 보

였고, 악성화나 다른 장기 또는 주위조직으로의 전이가 보이지 않았다는 점에서 본 증례와 아주 흡사하다고 할 수 있겠다.

SPT는 주로 젊은 여성의 췌장에서 발생하는 드문 종양으로, F-18 FDG PET/CT에서 높은 FDG 섭취를 보일 수 있어 췌장에서 발생하는 기타 다른 양성이나 악성 질환과 감별이 어려울 수 있다. 따라서 젊은 여성에서 췌장의 종양에서 높은 FDG 섭취를 보이는 경우 췌장 샘암종과 췌장염, 도세포종, 점액성 낭성 종양 등과 함께 SPT도 고려해야 할 것이다.

References

1. Kang H, Song YJ, Koh YS, Joo JK, Kim JC, Cho CK, et al. Clinical features and surgical treatment of solid pseudopapillary tumor of pancreas. *J Korean Surg Soc* 2005;68:492-7.
2. Lam KY, Lo CY, Fan ST. Pancreatic solid-cystic-papillary tumor: clinicopathologic features in eight patients from Hong Kong and review of the literature. *World J Surg* 1999;23:1045-50.
3. Schwartz DC, Campos MA. A woman with recurrent abdominal pain. *Am J Med Sci* 2001;321:352-4.
4. Klöppel G, Solcia E, Longecker DS, Capella C, Sobin LH. Histologic typing of tumors of the pancreas. In: World Health Organization Histological Classification of Tumors. Berlin:Springer; 1996.
5. Ohiwa K, Igarashi M, Nagasue N, Nagasaki M, Harada T. Solid and cystic tumor of the pancreas in an adult man. *HBP Surg* 1997;10:315-21.
6. Kay Washington. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: challenges presented by an unusual pancreatic neoplasm. *Ann Surg Oncol* 2002;9:3-4.
7. Chung JC, Choi SH, Jang KT, Chang WY, Jo SH, Heo JS, et al. Clinicopathological analysis of solid pseudopapillary tumor (SPT) of the pancreas. *J Korean Surg Soc* 2006;70:385-9.
8. Ahn DH, Noh SH, Kim BR, Min JS, Hong SW. Papillary cystic neoplasm of pancreas. *J Korean Surg Soc* 1990;38:217-23.
9. Ha WH, Seo YJ, Won YS, Lee YB, Oh SJ, Park IY, et al. Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas. *J Korean Surg Soc* 1999;56:403-9.
10. Kim SY, Lee SW, Lee SI, Park CY, Sohn JI, Kim BI, et al. A case of a solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas associated with malignant change. *Korean J Gastrointest Endosc* 2000;20:239-42.
11. Lee BK. Papillary cystic neoplasm of pancreas, report of one case and review of the literature. *J Korean Surg Soc* 1989;37:260-4.
12. Madan AK, Weldon GB, Long WP, Johnson D, Raafat A. Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas. *J Surg Oncol* 2004;85:193-8.
13. Roldan-Valadez E, Rumoroso-Garcia A, Vega-Gonzalez I, Valdivieso-Cardenas G, Morales-Santillan O, Osorio-Cardiel L. Non-resected solid papillary epithelial tumor of the pancreas: F-18 FDG PET/CT evaluation at 5 years after diagnosis. *Rev Esp Med Nucl* 2007;26:160-4.
14. Sato M, Takasaka I, Okumura T, Shioyama Y, Kawasaki H,

- Mise Y, et al. High F-18 fluorodeoxyglucose accumulation in solid pseudo-papillary tumors of the pancreas. *Ann Nucl Med* 2006;20:431-6.
15. Shimada K, Nakamoto Y, Isoda H, Maetani Y, Yamashita R, Arizono S, et al. F-18 fluorodeoxyglucose uptake in a solid pseudopapillary tumor of the pancreas mimicking malignancy. *Clin Nucl Med* 2008;33:766-8.
 16. Yoon WJ, Lee JK, Lee KH, Ryu JK, Kim YT, Yoon YB. Cystic neoplasms of the exocrine pancreas an update of a nationwide survey in Korea. *Pancreas* 2008;37:254-8.
 17. Huang HL, Shih SC, Chang WH, Wang TE, Chen MJ, Chan YJ. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: clinical experience and literature review. *World J Gastroenterol* 2005;11:1403-9.
 18. Mao C, Guvendi M, Domenico DR, Kim K, Thomford NR, Howard JM. Papillary cystic and solid tumors of the pancreas: a pancreatic embryonic tumor? Studies of three cases and cumulative review of the world's literature. *Surgery* 1995;118:821-8.
 19. Tang LH, Aydin H, Brennan MF, Klimstra DS. Clinically aggressive solid pseudopapillary tumors of the pancreas: a report of two cases with components of undifferentiated carcinoma and a comparative clinicopathologic analysis of 34 conventional cases. *Am J Surg Pathol* 2005;29:512-9.
 20. Kitajima T, Tomioka T, Tajima Y, Yamamoto O, Sasaki M, Kanematsu T. Small nonfunctioning endocrine tumor. Comparison with solid cystic tumor. *Gastroenterology* 1998;33:129-33.
 21. Friedman AC, Lichtenstein JE, Fishman EK, Oertel JE, Dachman AH, Siegelman SS. Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas. *Radiology* 1985;154:333-7.
 22. Kim SY, Lim JH, Lee JD. Papillary carcinoma of the pancreas: finding of US and CT. *Radiology* 1985;154:338.
 23. Cantisani V, Mortelet K J, Levy A, Glickman JN, Ricci P, Passariello R, et al. MR imaging features of solid pseudopapillary tumor of the pancreas in adult and pediatric patients. *Am J Roentgenol* 2003;181:395-401.
 24. Coleman KM, Doherty MC, Brigler SA. Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas. *Radiographics* 2003;23:1644-8.
 25. Compagno J, Oertel J. Solid and papillary neoplasms of the pancreas probably of small duct origin: a clinicopathologic study of 52 cases. *Lab Invest* 1979;40:248.
 26. Nakamoto Y, Higashi T, Sakahara Hi, Tamaki N, Kogire M, Doi R, et al. Delayed F-18 fluoro-2-deoxy-D-glucose positron emission tomography scan for differentiation between malignant and benign lesions in the pancreas. *Cancer* 2000;89:2547-54.
 27. Lee JK, Tyan YS. Detection of a solid pseudopapillary tumor of the pancreas with F-18 FDG positron emission tomography. *Clin Nucl Med* 2005;30:187-8.