

CASE REPORT

내시경 점막 절제술로 치료한 식도 혈관종: 증례 보고와 문헌고찰

김지혜, 정성우, 송종규, 최정완, 김승영, 현종진, 정영걸, 구자설, 임형준, 이상우

고려대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과

Esophageal Hemangioma Treated by Endoscopic Mucosal Resection: A Case Report and Review of the Literature

Ji Hye Kim, Sung Woo Jung, Jong Gyu Song, Jung Wan Choe, Seoung Young Kim, Jong Jin Hyun, Young Kul Jung, Ja Seol Koo, Hyung Joon Yim, and Sang Woo Lee

Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Hemangioma of the esophagus is a rare form of benign esophageal tumor. It usually presents as a single lesion located in the lower third of the esophagus and is mostly asymptomatic. However, it may occasionally cause hematemesis and/or obstruction. Surgical resection is the conventional treatment modality for managing esophageal hemangioma, but less invasive approaches such as endoscopic therapy are recently becoming more widely employed. Herein, we report a case of a 54-year-old man who presented with an esophageal hemangioma that was successfully treated by endoscopic mucosal resection without any complications. (*Korean J Gastroenterol* 2015;66:277-281)

Key Words: Hemangioma; Esophagus; Esophageal neoplasms; Endoscopy

서 론

식도에 발생하는 혈관종(hemangioma)은 매우 드물게 발생하는 양성종양으로, 대부분의 혈관종은 무증상인 경우가 많으나 간혹 출혈이나 연하곤란, 상복부 불쾌감 등을 호소할 수 있으며, 이러한 증상을 유발하는 혈관종의 경우 치료가 필요하다.^{1,2} 식도 혈관종의 치료는 과거에는 주로 수술 절제가 이루어졌으나, 개흉 및 식도의 동반 제거 등 매우 침습적이라는 점 때문에 최근에는 크기가 크지 않은 경우 내시경 절제술을 통한 치료가 점차 증가하는 추세이며,³ 현재까지 국내에서는 1예가 보고되었다.⁴

저자들은 상부위장관 내시경에서 관찰된 하부식도의 점막하 종양으로 보이는 병변에 대하여 추적 관찰 중, 크기가 점차 증가하는 양상을 보여 내시경 점막 절제술(endoscopic mu-

cosal resection)을 통해 출혈 및 천공 등의 합병증 없이 성공적으로 절제하였으며, 조직학적 진단을 통해 식도 혈관종으로 확인된 예가 있어 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

54세 남자 환자가 3개월 전 건강검진으로 개인의원에서 시행한 위 내시경에서 하부 식도에 종물로 의심되는 병변이 관찰되어 본원으로 의뢰되어 외래로 내원하였다. 환자는 5년 전 진단받은 고혈압의 병력 외에 다른 내과적 병력은 없었고, 가족력, 음주력, 흡연력 또한 없었다. 내원 당시 신체검진에서도 특이 증상이나 징후가 보이지 않았다.

상부위장관 내시경을 시행하였고, 절치하 38 cm 위치의 하부식도에서 약 1 cm 크기의 종물이 관찰되었다. 이 종물은

Received June 8, 2015. Revised June 17, 2015. Accepted June 22, 2015.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2015. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 정성우, 15355, 안산시 단원구 적금로 123, 고려대학교안산병원 소화기내과

Correspondence to: Sung Woo Jung, Department of Gastroenterology, Korea University Ansan Hospital, 123 Jeokgeum-ro, Danwon-gu, Ansan 15355, Korea. Tel: +82-31-412-5580, Fax: +82-31-412-5582, E-mail: sungwoojung@korea.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

타원형 모양으로 내강 내로 돌출되어 있었으며 정상 식도 점막으로 덮여 있었고, 겸자에 의해 쉽게 움직이며 모양이 변하는 양상을 보였다. 또한 내부에는 약간의 푸른 빛을 띠는 혈관상을 보이고 있었다. 이 무증상의 식도 양성종물에 대하여 6개월 후에 추적관찰을 시행하였으며, 상부위장관 내시경을 통하여 이전 검사에서 발견되었던 하부식도의 종물을 관찰하였을 때, 모양 및 특징은 큰 변화가 없었지만 크기가 약 1 cm에서 1.4 cm로 증가한 것으로 확인되어 이에 대한 추가적 검사 및 치료를 위해 입원하였다(Fig. 1).

입원 당시 활력징후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박 80회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.6°C였고, 신체검사상 특이소견은 없었다. 일반 혈액검사 및 소변검사 결과 모두 정상이었으며, 흉부 및 복부 단순 X선 검사 또한 이상 소견은 관찰되지 않았다.

복부 전산화단층촬영에서 하부식도에 약 1.5 cm 크기의 조영증강이 되지 않는 저음영의 병변이 관찰되었다(Fig. 2). 내시경 초음파를 시행하여 이 병변을 관찰한 결과 점막하층에서

기원한 비균질성 음영을 보이는 양성 종양으로, 크기는 1 cm였고 주위 조직과 경계가 명확한 둥근 모양이었다. 또한 고유근층의 침범이나 주위 림프절병증은 없었고(Fig. 3A), 도플러 초음파에서 종양과 연결되는 굵은 혈관은 없었다(Fig. 3B).

환자는 증상은 없었지만 경과 관찰 기간 중에 크기가 점차 증가하는 식도의 점막 하 종양에 대해 치료하기로 결정하였다. 종양과 연결되는 주위의 큰 혈관이 없고 병변이 고유근층 침범 없이 점막하층에 국한되어 있어 출혈과 천공의 위험성이 적을 것으로 생각되어, 내시경 점막절제술을 시행하였다.

내시경 점막절제술은 먼저 종양의 기저부 주위에 생리식염수를 충분히 주입하여 병변 부위를 들어올린 후에 올라미를 이용하여 종양을 절제하였다(Fig. 4A). 시술 중간 및 후에 출혈이나 천공 등의 합병증은 관찰되지 않았으나, 절제 부위에 금속클립(hemoclip) 결찰을 시행하여 지연 출혈 및 천공을 예방하였다. 절제된 조직은 14×14×8 mm 크기였으며, 절제된



Fig. 1. Endoscopic image showing a bluish soft round protruding submucosal mass in the lower esophagus.

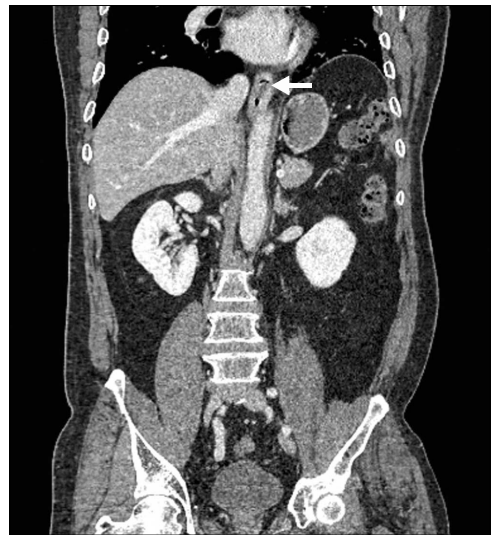


Fig. 2. CT finding. A poorly enhancing mass (arrow) is observed within the lower esophageal lumen.

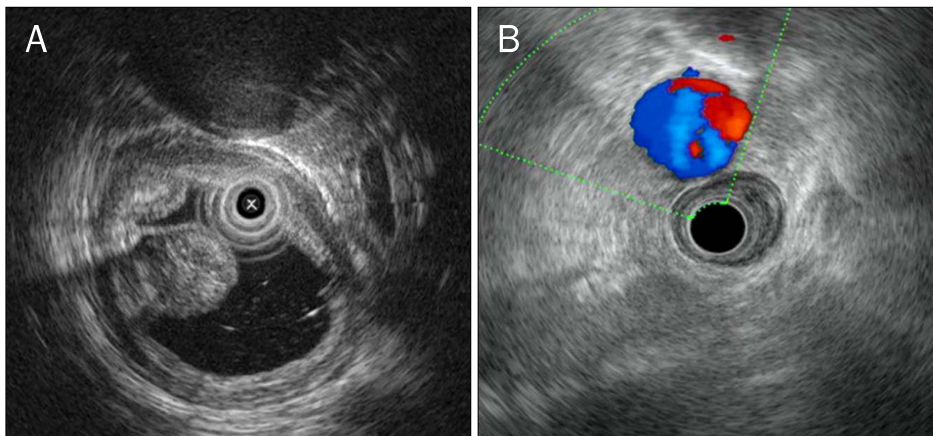


Fig. 3. EUS findings. (A) The tumor is located in the submucosal layer and shows heterogenous echogenicity that is well separated from adjacent tissue. (B) It has no continuity with adjacent vessels.

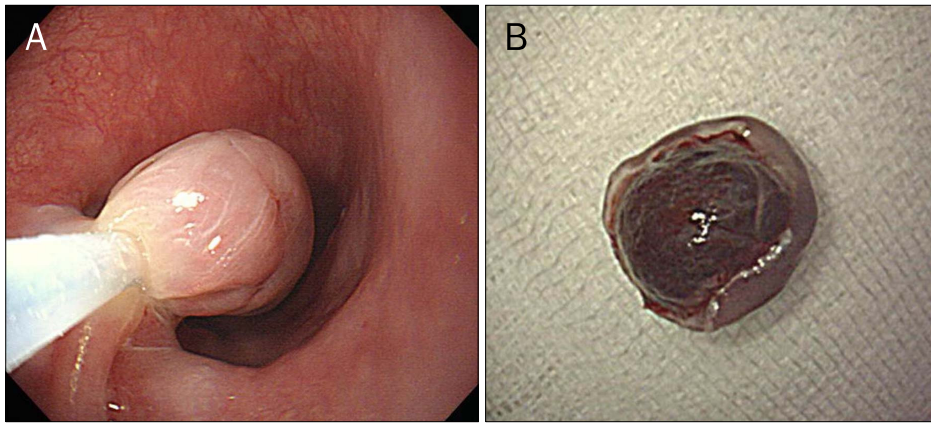


Fig. 4. (A) The lesion is being resected by conventional endoscopic mucosal resection technique after injecting saline into the base of the mass. (B) The resected specimen is a dark red colored mass that measures 14×14 mm in size.

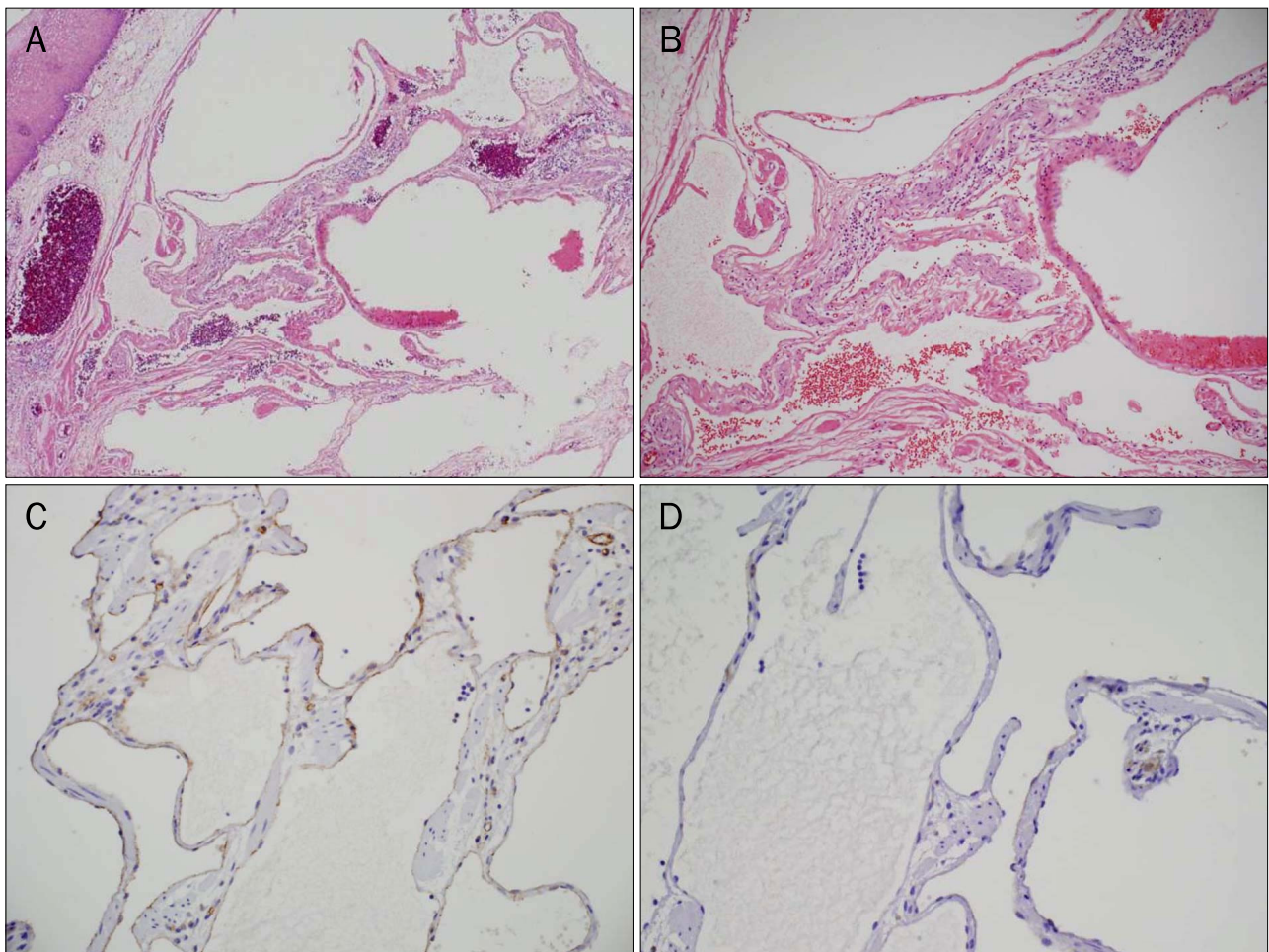


Fig. 5. Histopathologic findings. (A) Dilated blood vessels are surrounded by flat endothelial cells in the submucosa (H&E, ×40). (B) Dilated vessels lined by flattened endothelium show communication with each other (H&E, ×100). (C) The endothelial cells are positive for CD-31 and (D) negative for D2-40 on immunohistochemistry stain (×200).

면을 관찰하였을 때 내부에 붉은색을 띠며 주위 조직으로부터 잘 분리되어 있었다(Fig. 4B). 병리 소견에서 H&E로 염색하여 관찰하였을 때 식도의 점막 하층에 불규칙한 모양과 다양한 크기로 확장된 혈관들이 모여 하나의 종양을 이루고 있었

으며, 혈관 내부에는 적혈구들로 채워져 있었다. 감별진단을 위한 면역화학조직염색을 시행하였고, 혈관내피세포의 표지자인 CD-31에 양성 반응을 보이고, 림프관 내피세포의 표지자인 D2-40에 음성 반응을 보여 양성인 식도 점막하 혈관종

으로 확진되었다(Fig. 5). 환자는 내시경 시술 후에 안정적 상태를 보이며 특이 증상 및 합병증 없이 퇴원하였고, 현재 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

식도의 양성종양은 식도에서 발생하는 종양의 1% 이하를 차지하며, 그 중에서도 혈관종은 전체 식도의 양성종양의 2-3%의 빈도를 보이며 전체 식도 종양 중에는 0.5-0.6%의 빈도를 보이는 매우 드문 질환이다.¹ 한 연구에 의하면 전체 106예의 위장관계 혈관종 중 단 2예만이 식도 혈관종으로 확인되었고,⁵ 또 다른 연구에서는 10년간 19,982명의 환자의 부검 결과 단 3예만이 발견되었다고 보고하였다.⁶ 식도 혈관종은 남성에서 더 많이 발견되고 전 연령에 걸쳐 발생할 수 있으나 주로 40-70대의 나이에서 발생하며, 상·중부식도에 비해 하부식도에 많이 발생한다.⁷ 또한 식도의 혈관종은 조직학적으로 해면상 혈관종(cavernous hemangioma), 모세혈관 혈관종(capillary hemangioma), 동정맥 혈관종(arteriovenous hemangioma)으로 분류되는데, 이 중 해면상이 가장 흔한 것으로 알려져 있다.⁸ Hanel 등⁹은 24예의 식도 혈관종의 조직학적 특성을 분석하였는데 해면상 혈관종이 총 18예로 가장 많은 비율을 보였고, 모세혈관 혈관종과 동정맥 혈관종이 각각 1예씩 확인되었다.

식도 혈관종의 대부분은 증상이 없어 우연히 발견되는 경우가 많지만 식도 내 종양의 위치와 크기에 따라 증상이 발생할 수 있는데, 가장 흔한 증상은 연하 곤란(45.2%)과 출혈(25.8%)이다. 그 외에도 흉통(12.9%), 흑색변(12.9%)이나 연하 시 통증 등이 발생할 수 있으나 대부분 정도가 심하지는 않다.⁹⁻¹¹

식도 혈관종의 진단 방법으로는 주로 식도 내시경검사나 식도 조영술이 이용되나, 다른 점막하 종양과의 감별을 위해 추가적인 검사가 필요할 수 있다. 또한 하부식도에 위치할 경우에는 식도 정맥류와 비슷한 모양으로 관찰될 수 있어 감별이 필요하다. 식도 내시경검사에서는 표면에 푸른 빛을 띠고 확장된 확장된 혈관들이 많이 분포되어 있으며, 정상 점막으로 이루어진 점막하 종양 형태로 관찰된다. 혈관종은 종괴 내에 혈액이 차 있어 부드러운 성상을 갖기 때문에 겸자로 눌렀을 때 쉽게 눌리며 모양이 변하는 특징을 보이고, 일부에서는 궤양이 동반될 수도 있다.⁸ 식도 조영술에서는 내부 충만 결손으로 나타나는 경계가 명확한 점막하 종양으로 관찰되며, 때로는 점막 쪽으로 용종의 형태로 나타날 수도 있다. 보다 정확하게 다른 점막하 종양과의 감별을 위하여 전산화단층촬영이 도움이 될 수 있다. 전산화단층촬영에서 식도의 혈관종은 주로 균질성의 음영을 갖는 종물로 관찰되며, 조영제를 투

여하였을 때 주변부부터 조영되어 점차 중심부로 차 들어오는 양상을 보인다. 또한 주위 조직과의 관계를 파악할 수 있어 치료를 결정하는 데에 도움을 줄 수 있다.¹² 최근에는 내시경 초음파 검사가 식도 혈관종의 진단에 많이 이용되고 있다. 내시경초음파 검사에서 식도의 혈관종은 점막 하층에 위치하는 낭성(cystic)의 종양으로 관찰되며, 대부분 무음영 또는 비균질성 음영을 보인다. 내시경초음파 검사의 장점은 식도의 각 층을 관찰할 수 있기 때문에 고유근층 이상의 침범 여부와 도플러 초음파를 통한 주위 혈관과의 연계성을 확인함으로써, 내시경 절제 가능성 및 시술 후 발생할 수 있는 출혈이나 천공 등의 합병증을 미리 예측하는 데 도움이 된다는 것이다.⁸ 혈관 조영술은 혈관종 자체가 큰 공급 혈관을 가지고 있지 않는 경우가 대부분이기 때문에 진단에 크게 도움이 되지 않는다.¹³

무증상의 크기가 작은 식도 혈관종의 경우는 치료 없이 경과 관찰할 수도 있지만, 증상이 있거나 크기가 큰 혈관종의 경우는 치료가 필요하다. 출혈의 위험성을 고려하면 수술적 치료가 가장 최선이지만, 특히 하부식도에 위치한 경우 개흉이나 식도의 동반 절제가 필요하다는 단점이 있어 최근에는 직경 2.5 cm 이하의 점막 및 점막 하에 국한된 혈관종의 경우 내시경 점막 절제술이나 내시경적 경화 요법(endoscopic injection sclerotherapy) 등의 내시경을 이용한 치료법이 많이 시도되고 있다.^{14,15} 하지만 국내에서는 아직까지 내시경 점막 절제술을 통한 식도 혈관종의 치료는 1예만 보고되었으며,⁴ 그 이전에 보고된 식도 혈관종에서는 모두 수술 치료를 시행 받았다.

이번 증례는 우연히 발견된 하부식도의 혈관종으로 추적 관찰 중에 크기가 점차 증가하는 양상을 보여 출혈 등의 가능성을 고려하여 내시경 점막 절제술을 시행하였으며, 시술 후 부작용이나 합병증 없이 성공적으로 치료된 예이다. 내시경 점막 절제술을 통한 혈관종의 치료는 수술적 절제에 비해 덜 침습적이고 간편하며, 시술 후 합병증의 발생이 적은 것으로 알려져 있다. 또한 수술적 절제의 경우 평균 입원 기간이 5-6 일 정도인 것에 비하여 입원 기간이 짧다는 장점이 있다.¹⁶ 따라서 시술 전에 내시경초음파 등의 충분한 검사를 통하여 내시경 점막 절제술의 가능 여부 및 출혈이나 천공 등의 합병증 발생 가능성을 확인하고, 점막하층에 국한되고 크기가 3 cm를 넘지 않으면서 큰 혈관과의 연계성이 없는 혈관종이라면 수술적 절제보다는 내시경 점막 절제술을 우선적으로 고려해야 할 것이다.

REFERENCES

1. Choong CK, Meyers BF. Benign esophageal tumors: introduction, incidence, classification, and clinical features. *Semin Thorac Cardiovasc Surg* 2003;15:3-8.

2. Rice TW. Benign esophageal tumors: esophagoscopy and endoscopic esophageal ultrasound. *Semin Thorac Cardiovasc Surg* 2003;15:20-26.
3. Sogabe M, Taniki T, Fukui Y, et al. A patient with esophageal hemangioma treated by endoscopic mucosal resection: a case report and review of the literature. *J Med Invest* 2006;53:177-182.
4. Park SW, Moon JS, Lee SR, et al. A case of esophageal hemangioma treated by endoscopic mucosal resection. *Korean J Gastrointest Endosc* 2010;40:244-248.
5. Gentry RW, Dockerty MB, Glagett OT. Vascular malformations and vascular tumors of the gastrointestinal tract. *Surg Gynecol Obstet* 1949;88:281-323.
6. Plachta A. Benign tumors of the esophagus. Review of literature and report of 99 cases. *Am J Gastroenterol* 1962;38:639-652.
7. Shigemitsu K, Naomoto Y, Yamatsuji T, et al. Esophageal hemangioma successfully treated by fulguration using potassium titanyl phosphate/yttrium aluminum garnet (KTP/YAG) laser: a case report. *Dis Esophagus* 2000;13:161-164.
8. Rajoriya N, D'costa H, Gupta P, Ellis AJ. An unusual cause of dyspepsia: oesophageal cavernous haemangioma. *QJM* 2010;103:791-793.
9. Hanel K, Talley NA, Hunt DR. Hemangioma of the esophagus: an unusual cause of upper gastrointestinal bleeding. *Dig Dis Sci* 1981;26:257-263.
10. Tsai SJ, Lin CC, Chang CW, et al. Benign esophageal lesions: endoscopic and pathologic features. *World J Gastroenterol* 2015;21:1091-1098.
11. Araki K, Ohno S, Egashira A, et al. Esophageal hemangioma: a case report and review of the literature. *Hepatogastroenterology* 1999;46:3148-3154.
12. Ghiatas AA, Chopra S, Escobar B, Esola CC, Chintapalli K, Dodd GD 3rd. Esophageal hemangioma. *Eur Radiol* 1997;7:1062-1063.
13. Lee HJ, Kim YT, Sung SW, Kim JH. A case of long segment myomectomy for the treatment of esophageal hemangioma. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2003;36:206-210.
14. Raza W, Nasir H, Ilahi F, Zafar Z. Esophageal haemangioma: a case report and review of literature. *J Pak Med Assoc* 2010;60:310-311.
15. Aoki T, Okagawa K, Uemura Y, et al. Successful treatment of an esophageal hemangioma by endoscopic injection sclerotherapy: report of a case. *Surg Today* 1997;27:450-452.
16. Shin S, Choi YS, Shim YM, Kim HK, Kim K, Kim J. Enucleation of esophageal submucosal tumors: a single institution's experience. *Ann Thorac Surg* 2014;97:454-459.