

ORIGINAL ARTICLE

수술적 접근으로 치료한 식도 점막하종양의 임상적 고찰

조수연, 문현중¹, 김지원, 조석기², 김병관, 주세경, 김영훈, 박진선, 최원제, 김수환

서울특별시보라매병원 소화기내과, 흉부외과¹, 분당서울대학교병원 흉부외과²

Clinicopathologic Feature of Esophageal Submucosal Tumors Treated by Surgical Approach

Su Yeon Cho, Hyeon Jong Moon¹, Ji Won Kim, Suk Ki Cho², Byeong Gwan Kim, Sae Kyung Joo, Young Hoon Kim, Jin Sun Park, Won Jae Choi and Su Hwan Kim

Departments of Internal Medicine and Thoracic Surgery¹, SMG-SNU Boramae Medical Center, Seoul, Department of Thoracic Surgery, Seoul National University Bundang Hospital², Seongnam, Korea

Background/Aims: Submucosal tumors of the esophagus are rare lesions among all esophageal neoplasms. The purpose of this study was to evaluate the clinicopathologic features of esophageal submucosal tumors treated by surgical approach. **Methods:** We analyzed the clinicopathologic and endoscopic ultrasonographic features of 18 esophageal submucosal tumors which were treated by surgical approach at Boramae Medical Center and Seoul National University Bundang Hospital from January 2005 to June 2012.

Results: The mean age was 48.9 years old and male to female ratio was 2.6 : 1. Asymptomatic patients were most common (77.8%). In endoscopic ultrasonographic finding, the majority tumor arose in the middle (55.6%) and lower (44.4%) esophagus, and appeared as hypoechoic lesion (72.2%) in the 4th layer (83.3%). The most common indication for surgical approach was unclear biological behavior of the tumor. Minimally-invasive technique using thoracoscopy was applied for the enucleation (83.3%). The mean diameter of the tumor was 5.4 cm, and the final diagnosis was leiomyoma (89.9%) and gastrointestinal stromal tumor (11.1%).

Conclusions: Leiomyoma was the most common submucosal tumor in esophagus. However, endoscopic ultrasonography was not able to differentiate between leiomyoma and gastrointestinal stromal tumor. For more accurate diagnosis and treatment, minimally-invasive approaches may be suitable for the surgical enucleation of indicated esophageal submucosal tumor. (*Korean J Gastroenterol* 2013;61:71-74)

Key Words: Esophagus; Submucosal; Leiomyoma; Gastrointestinal stromal tumors; Enucleation

서론

식도의 점막하종양은 전체 식도 종양의 1% 미만을 차지하는 희귀한 질환으로, 전체 소화기관에서의 비율로 보더라도 점막하종양 전 소화기 점막하종양에서 3분의 1 정도를 차지하고 있다.^{1,2} 대부분의 식도 점막하종양의 경우 무증상이 대부분으로 내시경검사에서 우연히 발견되는 경우가 많다. 최대 직경이 2 cm 미만인 점막하종양의 경우 대부분은 경과 관찰

하는 것이 적합한 치료 방침이다.³ 하지만 5 cm 이상의 큰 종양의 경우 연하곤란, 폐쇄 및 통증과 같은 증상을 동반할 수 있으며, 생물학 양상이 확실치 않아 악성을 배제하지 못하는 경우 수술 접근의 적응증이 될 수 있다.^{4,5}

식도 점막하종양은 병리학 분류에서 평활근종(leiomyoma)의 비율이 가장 크고(70-80%),¹ 위장관 기질종양(gastrointestinal stromal tumor, GIST)은 위에 비해 식도에서 흔하지 않으며,⁶ 악성 평활근육종(malignant leiomyosarcoma) 및

Received December 15, 2012. Revised December 16, 2012. Accepted December 17, 2012.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

교신저자: 문현중, 156-707, 서울시 동작구 보라매로 5길 20, 서울특별시보라매병원 흉부외과

Correspondence to: Hyeon Jong Moon, Department of Thoracic Surgery, SMG-SNU Boramae Medical Center, 20 Boramae-ro 5-gil, Dongjak-gu, Seoul 156-849, Korea. Tel: +82-2-870-2292, Fax: +82-2-870-3866, E-mail: moon730@medigate.net

Financial support: None. Conflict of interest: None.

양성 지방종은 매우 희귀하다.⁷

식도 점막하종양은 유병률이 비교적 낮고 대부분 증상을 호소하지 않아 수술 절제를 시도한 경우가 많지 않다. 수술 접근법으로는 개흉술을 통한 적출법(enucleation)이 과거 많이 시행되었으나, 최근에는 흉강경을 이용한 최소 침습 수술(minimally-invasive surgery)이 비교적 안전한 수술법으로 여겨지고 있다.⁶ 이번 연구에서는 식도 점막하종양을 수술로 치료한 18예를 대상으로 식도 점막하종양의 양상과 최종 병리 소견을 바탕으로 임상 고찰을 하고자 하였다.

대상 및 방법

2005년 1월 1일부터 2012년 6월 30일까지 분당서울대학교병원과 서울특별시보라매병원에서 식도 점막하종양으로 수술을 받은 18명의 환자를 대상으로 후향적으로 의무기록을 분석하였다. 위 환자들은 건강 검진 목적 또는 위장관계 증상으로 시행한 상부위장관 내시경검사에서 식도 점막하종양으로 진단받았으며, 점막하종양의 특성을 파악하기 위하여 내시경초음파가 시행되었다. 치료 방침은 임상 판단과 환자의 의사를 종합하여 결정되었고, 수술 방법은 병변의 크기, 위치, 종류 및 환자 상태에 따라 흉부외과 전문의에 의해 결정되었다.

자료의 통계 분석은 IBM SPSS ver. 20.0 (IBM Co., Armonk, NY, USA)을 이용하였다.

결 과

1. 환자의 특성

환자의 연령은 20세부터 69세까지 분포하였으며, 40대가 7예(38.9%)로 가장 많았고, 그 다음으로 50대가 6예(33.3%)로 많았다. 60대는 3예(16.7%)였으며, 그 외 20대가 1예(5.6%), 30대가 1예(5.6%)였고, 평균연령은 48.9세였다. 성별은 남자가 13예(72.2%), 여자가 5예(27.8%)로 남자에서 많았다(Table 1). 환자의 증상은 무증상인 경우가 14예(77.8%)로

가장 많았으며, 역류 증상을 호소한 경우가 2예(11.1%), 흉통을 호소한 경우가 2예(11.1%)였다.

2. 상부위장관내시경 및 내시경초음파

식도 점막하종양의 위치는 중부 식도가 10예(55.6%), 하부 식도가 8예(44.4%)였고, 상부식도에서는 발견되지 않았다. 크기는 3-5 cm인 경우가 10예(55.6%)로 제일 많았고, 3 cm 이하인 경우가 6예(33.3%), 6-10 cm인 경우가 1예(5.6%), 10 cm 이상인 경우가 1예(5.6%)였다.

정상 점막 형태를 보이는 상피하 종괴의 형태 외에 특이소견이 없는 경우가 9예(50%)였으며, 역류성 식도염이 동반된 경우가 3예(16.7%), 미란성 위염이 3예(16.7%), 표재성 위염이 3예(16.7%)에서 동반되었다.

내시경초음파에서 종양은 4번째 층인 고유근층에서 관찰된 예가 15예(83.3%)로 가장 많았고, 세번째 층인 점막하층에서 관찰된 예가 3예(16.7%)였다. 종양이 저에코로 관찰된 경우는 13예(72.2%)였고, 고에코로 관찰된 경우는 2예(11.1%), 혼재된 에코로 관찰된 예는 2예(11.1%)였다. 내시경초음파에 의한 진단은 평활근종(leiomyoma)이 10예(55.6%)로 가장 많았고, 위장관 기질종양이 2예(11.1%)였으며 정확한 진단을 내릴 수 없는 경우가 6예(33.3%)였다.

3. 수술의 적응증과 수술 방법

수술의 적응증은 악성이 의심되었던 경우가 7예(38.9%)였고, 5 cm 이상으로 병변의 크기가 컸던 경우가 6예(33.3%)였다. 그 외 병변의 크기가 기존에 비해 증가한 경우가 2예(11.1%), 다발성으로 병변이 있었던 경우 1예(5.6%), 역류 증상을 동반한 경우 1예(5.6%), 환자가 수술을 요청한 경우가 1예(5.6%)였다.

수술을 시행한 18예 모두 수술법은 적출술을 시행하였다. 이 중 3예(16.7%)에서만 개흉술을 통한 적출술이 이루어졌으며, 나머지 15예(83.3%)에서는 흉강경을 이용한 적출술을 시행하였다.

4. 병리조직학 소견

병변의 크기는 6-10 cm인 경우가 7예(38.9%)로 가장 많았고, 그 다음으로 3-5 cm인 경우가 6예(33.3%)였으며, 3 cm 이하인 경우가 3예(16.7%), 10 cm 이상인 경우가 1예(5.6%)였고, 병변이 부서져서 정확한 크기를 측정할 수 없는 경우가 1예(5.6%)였다. 측정 가능한 17예 병변의 평균 크기는 5.4 cm였다.

최종 진단은 평활근종(leiomyoma)이 16예(88.9%)였고, 위장관 기질종양이 2예(11.1%)였다.

Table 1. Baseline Characteristics

Age (yr)	Gender		Total
	Male	Female	
20-29	1	0	1
30-39	1	0	1
40-49	5	2	7
50-59	3	3	6
60-69	3	0	3
Total	13	5	18

고 찰

식도 점막하종양의 발생 빈도는 비교적 낮은 편으로, 평활근종이 가장 많은 분포(70-80%)를 보이고 있으며, 그에 비해 위장관 기질종양(<5%)이 차지하는 비율은 낮다.^{1,2,8}

식도 평활근종은 대부분 20-50대에서 발견된다.⁹ 2 : 1의 비율 정도로 남성에서 더 호발하며, 80% 가량은 중, 하부 식도에서 호발한다.¹⁰ 이번 연구에서는 18예 중 16예(88.9%)가 평활근종이었고, 40대(38.9%), 50대(33.3%)에서 주로 발견되었으며, 남성과 여성의 비율이 2.6 : 1.0 정도로 남성에서 호발하였고, 병변의 위치 또한 중부 식도가 10예(55.6%), 하부 식도가 8예(44.4%)로 이전의 연구 결과들과 일치하였다.

보통 5 cm 미만의 평활근종의 경우 대부분 증상을 호소하지 않는다.¹¹ 이번 연구에서도 무증상이 14예(77.8%)로 가장 많았고, 역류 증상을 호소한 2예(11.1%)의 경우 병변의 크기는 3-5 cm이었으며 이 중 한 예는 역류성 식도염이 함께 존재하고 있었다. 흉통을 호소한 2예(11.1%)의 경우에는 크기가 6-10 cm으로 비교적 큰 편이었으며, 두 예 모두에서 역류성 식도염이 동반되었다. 3 cm 미만의 크기를 가진 3예(16.7%)에서는 모두 증상을 호소하지 않았고, 14 cm의 큰 병변을 갖는 1예(5.6%)에서도 별다른 증상을 호소하지 않았다. 이번 연구에서는 크기와 증상 유발의 관계가 명확치 않으나, 이것은 증례의 수가 제한되었기 때문으로 생각된다.

내시경초음파에서 대부분의 병변은 4번째 층(83.3%)에서 관찰되었고, 저에코성 병변(72.2%)으로 관찰되었다. 내시경초음파에서 평활근종은 두번째 또는 네번째 층에 위치하는 저에코성의 경계가 명확한 동그란 모양의 병변으로 보이며, 위장관 기질종양도 유사한 양상으로 관찰되어 감별이 어렵다. 위장관 기질종양에서는 병변의 크기가 3 cm 이상이고, 낭성인 부분을 동반한 이소성 경향을 보이거나 경계가 불명확하다면 악성을 시사하는 것으로 여겨지고 있다.¹²⁻¹⁶ 이번 연구에서는 혼재된 에코를 가진 3예 중 2예에서 내시경초음파로 악성 위장관 기질종양으로 진단하고 수술을 시행하였으나, 2예 모두 최종 병리조직학 진단은 평활근종이었다.

내시경초음파에서 위장관 기질종양으로 진단하여 수술한 2예는 최종적으로는 평활근종으로 진단되었고, 내시경초음파에서 평활근종으로 진단한 2예에서는 위장관 기질종양으로 최종 진단되었다. 이처럼 내시경초음파에서 명확히 평활근종과 위장관 기질종양을 구분짓기는 매우 어렵다. 발생률에 있어서 식도에서는 평활근종이 위장관 기질종양보다 월등히 높기 때문에 평활근종의 가능성이 높은 것이 사실이나, 위장관 기질종양의 가능성도 완전히 배제할 수 없음을 유념해야 한다.

무증상이면서 3 cm 이하의 식도 점막하종양은 경과 관찰

하는 것이 적합한 치료 방침으로 간주되지만, 연하곤란, 통증, 폐쇄 등의 증상을 동반하거나 생화학 양상이 확실치 않아 악성을 배제하지 못하는 경우에는 수술 접근의 적응증이 될 수 있다.⁴ 이번 연구에서는 악성이 의심되는 소견이 있거나 크기와 병변의 개수의 이유로 수술을 시행한 경우가 16예(88.9%)였고, 역류 증상이 존재하여 수술한 경우가 1예(5.6%)였다. 증상이 있었던 환자는 수술 후 증상이 약간 호전되었으나 완전히 없어지진 않았다. 나머지 1예(5.6%)는 환자가 암에 대한 공포심으로 수술을 위하여 시행한 경우로서, 이 또한 수술의 적응증이 될 수 있다.

식도 점막하종양의 수술 방법으로 오랫동안 개흉술을 통한 적출술이 표준 치료로 인정받아 왔다.⁷ 하지만 최소 침습적 접근으로의 흉강경 또는 복강경을 이용한 적출술이 개흉술과 동일하게 안전하며, 개흉술에서 일어날 수 있는 불편감과 합병증을 피할 수 있고, 수술 후 회복기간이 짧다는 장점이 있어 최근 우선적으로 시도되고 있다.⁴ 2 cm 이하의 점막하종양의 경우 흉강경 수술로 찾기 힘든 경우가 있으나 수술 시 내시경으로 위치 확인에 도움을 받을 수 있다.¹⁷

식도 점막하종양의 발생 빈도는 낮은 편이나 검진 목적의 위장관 내시경검사가 증가하고 있어 무증상의 식도 점막하종양이 진단되는 경우도 늘어날 것으로 생각된다. 2 cm 미만의 작은 무증상 식도 점막하종양의 경우 치료 없이 지켜 보는 경우가 대부분이므로 정확한 병리조직학 진단이 이루어지지 않는 경우가 많고, 내시경초음파로는 평활근종과 위장관 기질종양의 명확한 구분이 어려워 수술 접근 없이는 정확한 진단이 이루어지기 어려울 수 있다. 이 경우에는 내시경을 이용한 절제술도 적극적으로 고려해볼 수 있다.

결론으로 식도 점막하종양에서 가장 흔한 것은 평활근종으로, 크기가 작고 무증상인 경우 경과 관찰해볼 수 있으나, 크기가 커지거나 증상을 동반한 경우 및 악성을 배제할 수 없는 경우에는 수술 적출술이 적극적으로 고려되어야 하며, 최소 침습 수술로서의 흉강경을 이용한 적출술을 통해 합병증을 최소화할 수 있다. 향후 효과 및 안전성에 대해 흉강경을 이용한 적출술과 내시경을 이용한 절제술의 비교 연구도 필요할 것으로 판단된다.

요 약

목적: 저자들은 식도 점막하종양을 수술로 치료한 예를 분석하고 과거 보고와 비교하여 국내에서의 식도 점막하종양의 특성을 파악하고 이를 통해 향후 방침을 세우는 데 참고하고자 하였다.

대상 및 방법: 2005년부터 2012년까지 서울특별시보라매병원과 분당서울대학교병원에서 식도 점막하종양을 진단받고

수술을 시행받은 18예를 후향적으로 분석하였다.

결과: 환자의 평균 연령은 48.9세였고, 남녀 비는 2.6 : 1였고, 대부분 무증상(77.8%)이었다. 대부분은 중부(55.6%)와 하부 식도(44.4%)에 위치하였고, 크기는 3-5 cm (55.6%)과 3 cm 이하(33.3%)인 경우가 많았다. 내시경초음파에서 병변은 대부분 네번째 층(83.3%)에 존재하였고, 저에코(72.2%)로 관찰된 경우가 많았으며, 고에코(11.1%) 또는 혼재된 에코(11.1%)로 관찰된 경우도 있었다. 평활근종으로 진단한 경우가 가장 많았고(55.6%), 수술을 시행한 이유는 악성이 의심되거나(38.9%) 병변의 크기가 큰 경우(33.3%) 및 크기 증가(11.1%) 등이었다. 수술은 대부분 흉강경을 이용한 적출술(83.3%)을 시행하였고, 병변의 평균 크기는 5.4 cm였으며, 6-10 cm 사이인 경우(38.9%)가 가장 많았고, 3-5 cm 사이인 경우(33.3%)가 그 다음으로 많았다. 최종 진단은 평활근종이 대부분이었고(88.9%), 나머지는 위장관 기질종양(11.1%)이 차지하였다.

결론: 식도 점막하종양은 평활근종이 가장 흔하였으나, 내시경초음파로 위장관 기질종양과의 감별이 매우 어려웠다. 악성이 의심되거나 증상을 동반하는 경우에는 흉강경을 이용한 최소 침습 수술이 치료에 적절할 것으로 판단된다.

색인단어: 식도; 점막하; 평활근종; 위장관 기질종양; 적출술

REFERENCES

- Seremetis MG, Lyons WS, deGuzman VC, Peabody JW Jr. Leiomyomata of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 1976;38:2166-2177.
- Polkowski M, Butruk E. Submucosal lesions. *Gastrointest Endosc Clin N Am* 2005;15:33-54.
- Nishida T, Hirota S, Yanagisawa A, et al.; GIST Guideline Subcommittee. Clinical practice guidelines for gastrointestinal stromal tumor (GIST) in Japan: English version. *Int J Clin Oncol* 2008;13:416-430.
- von Rahden BH, Stein HJ, Feussner H, Siewert JR. Enucleation of submucosal tumors of the esophagus: minimally invasive versus open approach. *Surg Endosc* 2004;18:924-930.
- Levine MS. Benign tumors of the esophagus: radiologic evaluation. *Semin Thorac Cardiovasc Surg* 2003;15:9-19.
- Miettinen M, Sarlomo-Rikala M, Sobin LH, Lasota J. Esophageal stromal tumors: a clinicopathologic, immunohistochemical, and molecular genetic study of 17 cases and comparison with esophageal leiomyomas and leiomyosarcomas. *Am J Surg Pathol* 2000;24:211-222.
- Bonavina L, Segalin A, Rosati R, Pavanello M, Peracchia A. Surgical therapy of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 1995;181:257-262.
- Emory TS, Sobin LH, Lukes L, Lee DH, O'Leary TJ. Prognosis of gastrointestinal smooth-muscle (stromal) tumors: dependence on anatomic site. *Am J Surg Pathol* 1999;23:82-87.
- Mutrie CJ, Donahue DM, Wain JC, et al. Esophageal leiomyoma: a 40-year experience. *Ann Thorac Surg* 2005;79:1122-1125.
- Zwischenberger JB, Alpard SK, Orringer MB. Tumors of the esophagus. In: Sabiston DC, ed. *Textbook of surgery: the biological basis of modern surgical practice*. Philadelphia: W.B. Saunders Company, 1991:689-700.
- Wright CD, Gaissert HA, Puma F, et al. The oesophagus: benign and malignant tumours. In: Morris PJ, Malt RA, eds. *Oxford textbook of surgery*. Oxford: Oxford University Press, 1994:893-904.
- Nickl N. Endoscopic approach to gastrointestinal stromal tumors. *Gastrointest Endosc Clin N Am* 2005;15:455-466.
- Chak A. EUS in submucosal tumors. *Gastrointest Endosc* 2002;56(4 Suppl):S43-S48.
- Polkowski M. Endoscopic ultrasound and endoscopic ultrasound-guided fine-needle biopsy for the diagnosis of malignant submucosal tumors. *Endoscopy* 2005;37:635-645.
- Hwang JH, Rulyak SD, Kimmey MB; American Gastroenterological Association Institute. American Gastroenterological Association Institute technical review on the management of gastric subepithelial masses. *Gastroenterology* 2006;130:2217-2228.
- Bonavina L, Segalin A, Rosati R, Pavanello M, Peracchia A. Surgical therapy of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 1995;181:257-262.
- Lee LS, Singhal S, Brinster CJ, et al. Current management of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 2004;198:136-146.