

CASE REPORT

## 식도의 점막표피모양암종 1예

신상윤, 채민규, 곽민섭, 윤진영, 전정원, 차재명

경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 소화기내과

### Mucoepidermoid Carcinoma of the Esophagus

Sang Youn Shin, Min Kyu Chae, Min Seob Kwak, Jin Young Yoon, Jung Won Jeon and Jae Myung Cha

Department of Internal Medicine, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, Seoul, Korea

Mucoepidermoid carcinoma is a malignant tumor that occurs mainly in the salivary glands of adults and children, but rarely in the esophagus. A surgical resection is the primary treatment for mucoepidermal carcinoma, and the prognosis has been reported to be poor. A 61-year-old man was diagnosed with an esophageal nodule in upper gastrointestinal endoscopy for the purpose of a medical examination without any special symptoms and an endoscopic resection was performed for an accurate diagnosis. An endoscopic mucosal resection was performed using a band ligation for a complete resection and continuous follow-up with no evidence of recurrence or metastasis. The unknown prognosis of endoscopic resection makes it necessary to follow the patient carefully. (**Korean J Gastroenterol 2019;74:159-162**)

**Key Words:** Esophagus; Endoscopic mucosal resection; Carcinoma, mucoepidermoid

## 서론

점막표피모양암종(mucoepidermoid carcinoma)은 성인 과 어린이의 타액선에 주로 발생하는 악성 종양으로, 점액을 생성하는 원주세포와 표피세포 그리고 다각형 중간 세포(intermediate cell)의 혼합물로 구성된 악성 종양이다.<sup>1-3</sup> 이 종양의 주된 호발 부위는 타액선이지만 그 외에 기관지, 눈물샘, 갑상선과 같은 다른 기관에서도 발견될 수 있는데, 드물게는 식도에서 발생할 수도 있다. 식도에 발생하는 일차성 점막표피모양암종은 매우 드문 악성 종양으로, 편평세포종과 선암종의 형태 모두를 가진 혼합 세포 종양이 특징이다. 일본의 보고에서는 점막표피모양암종이 전체 식도암의 0.04-0.1%를 차지하고 있었지만<sup>4,5</sup> 질병의 희귀성으로 국내에서 보고된 적

은 없었다. 점막표피모양암종의 치료는 외과적 절제술이 일차 치료법이며, 예후가 좋지 않다고 보고되고 있다. 하지만 조기에 발견된 점막표피모양암종의 내시경 절제술에 대한 국내 증례는 보고된 적이 없었다. 이에 저자들은 61세 남성에서 상부 위장관 내시경으로 확인된 식도 점막표피모양암종 1예를 내시경 절제술로 치료하고 추적한 증례를 보고한다.

## 증례

61세 남자 환자가 특별한 증상 없이 건강 검진 목적으로 시행한 상부위장관 내시경 검사에서 상악 전치 31 cm 부위에 식도 결절이 관찰되어 조직 검사를 시행하였고, 조직 검사 결과 점막표피모양암종으로 의심되어 추가적인 치료를 위하여

Received May 10, 2019. Revised June 8, 2019. Accepted June 13, 2019.

© 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 © 2019. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 차재명, 05278, 서울시 강동구 동남로 892, 경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 소화기내과

Correspondence to: Jae Myung Cha, Department of Internal Medicine, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, 892 Dongnam-ro, Gangdong-gu, Seoul 05278, Korea. Tel: +82-2-440-6113, Fax: +82-2-440-6295, E-mail: drcha@khu.ac.kr, ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-9403-230X>

Financial support: This study was supported by a grant from the National R&D Program for Cancer Control, Ministry of Health & Welfare, Republic of Korea (1720230).

Conflict of interest: None.

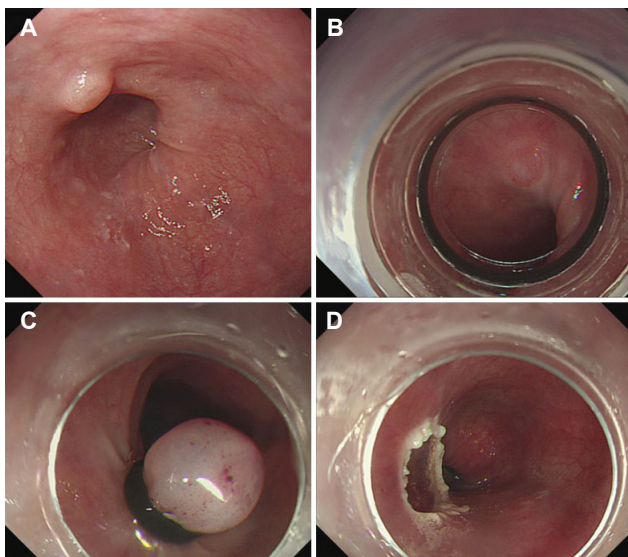
내원하였다. 환자는 음주와 흡연을 하지 않았지만 10년 전에 고지혈증과 협심증을 진단받고 이에 대한 약물 치료를 시행하고 있었다. 가족력에 특이사항은 없었다. 내원 당시 환자의 활력 징후는 혈압 135/74 mmHg, 맥박수 53회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.8°C였다. 의식은 명료하였으며, 연하 곤란 및 복통을 포함한 소화관 증상은 호소하지 않았고, 체중 감소도 없었다. 복부 신체 검사에서도 특이 소견은 없었고 그 외 전신의 이학적 검사에서도 특이사항은 없었다. 내원 당시 말초혈액 검사 소견에서 백혈구 8,500/mm<sup>3</sup>, 혈색소 15.9 g/dL, 혈소판 282,000/mm<sup>3</sup>였다. 생화학 검사에서도 간기능과 신장기능 검사는 정상이었으며, 요 검사도 정상이었다. 심전도와 흉부 사진에서도 특이 소견은 없었다. 흉부 전산화단층촬영에서는 유의미한 임파선 이상, 결정성 병변을 보이지 않았다.

상부위장관 내시경에서는 상악 전치 31 cm 위치에 7×6 mm 크기의 납작한 식도 결절이 관찰되었으며, 비교적 정상 점막으로 덮여있었다. 검사로 눌러보았을 때에는 살짝 단단하게 만져졌고, 좌우로 밀어보았을 때에는 밀리지는 않았다. 상부 위장관 내시경 조직 검사에서는 점막표피모양암종이 의심되었지만 이 질환이 매우 드물고, 육안적으로는 어금니 모양과도 비슷하여 과립세포종도 감별해야 했기 때문에 정확한 진단 목적으로 내시경 절제술을하기로 결정하였다. 크기가 크지 않았기 때문에 점막하박리술보다는 점막절제술로 절제하기로 결정하였지만 완전 절제를 위하여 밴드결찰술을 이용하여 내

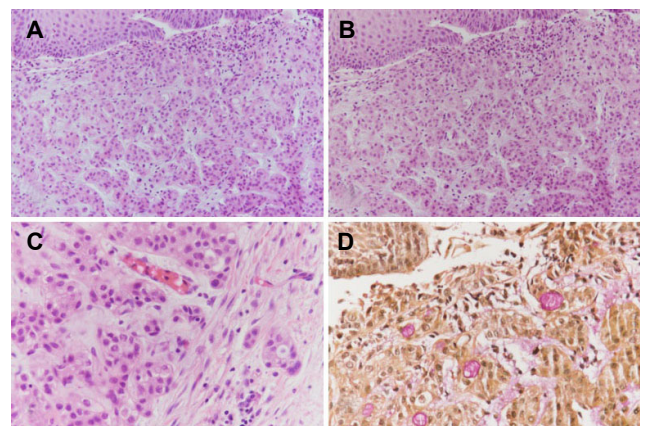
시경 점막절제술을 시행하였다.

먼저 식도 결절 주변 점막 부위에 생리식염수를 충분히 주입하여 병변이 융기되는 것을 확인하였다. 그 후 식도 정맥류 결찰에 이용되는 밴드(Endoscopic Ligator, Sumitomo Bakelite Co., Ltd., Kobe, Japan) 안으로 충분히 흡인하여 결절이 충분히 밴드 상부로 올라오는 것을 확인한 후 결찰하였다. 밴드결찰술 시행 후 올라미를 밴드 직상부에 위치시키고, 적당히 조인 후에 좌우로 흔들어 종양 이외의 다른 조직이 올라미 내로 함입되는 것을 방지한 후 전기소작술로 내시경 점막절제술을 시행하였다(Fig. 1). 제거 직후 종양 단면을 확인한 육안 소견에서 완전 절제를 확인할 수 있었고, 시술 중 특별한 합병증은 관찰되지 않았다.

병리학 검사에서 절제된 조직의 크기는 12×8×4 mm였고, 악성 종양의 크기는 3×2 mm였으며, 점막하층 침범은 있었지만 주변 림프관 침윤은 없었고, 측면 및 심부 절제면은 완전 절제가 확인되었다. 종양은 편평 상피세포, 점액 생산 세포 및 중간 세포로 이루어져 있었고, 특수 면역화학염색 결과 D-PAS (+), mucicarmine (+)가 확인되어 점막표피모양암종에 합당한 소견이었다(Fig. 2). 시술 후 환자는 급성기 합병증이 없음을 확인한 후 시술 2일째 퇴원하였다. 외래에서 최종 병리 결과를 확인하고, 림프절 전이 여부를 확인하기 위하여 시행한 흉부 컴퓨터단층촬영에서 잔존 종양이나 유의한 림프절 종대는 관찰되지 않았다. 병변이 내시경 절제술로 완전 절제되었기 때문에 추가적인 항암 화학 치료나 방사선 치료 없이 외래에서 추적 관찰하였다. 치료 종료 후 6개월에 시행한 상부위장관 내시경 및 흉부 전산화단층촬영에서 재발이나 전이의 증거가 없는 상태로 지속적인 추적 관찰 중이다.



**Fig. 1.** (A, B) Esophagogastroduodenoscopy showing a 6-7 mm sized esophageal nodule 31 cm from the upper incisor. The surface of the nodule was flat and the consistency was firm. (C, D) Standard endoscopic variceal ligation was used to aspirate the target lesion and apply a band around it. After removing the banding device, a separate snare was used to resect the lesion with an endoscopic mucosal resection.



**Fig. 2.** Microscopic findings showing a mucoepidermoid carcinoma consisting of squamous cells, mucus-producing cells and intermediate cells (A, B, H&E, ×200; C, H&E, ×400). Positive reaction to mucin in the mucicarmine stain (D, mucicarmine stain, ×400).

## 고 찰

점막표피모양암종은 점액 생산, 중간 및 표피세포가 혼재되어 나타나는 것을 특징으로 하는 악성 종양이다.<sup>6,7</sup> 이 종양은 타액선의 가장 흔한 악성 신생물로 타액 악성 종양의 약 1/3을 차지하지만<sup>8</sup> 식도에 원발성으로 발생하는 경우는 매우 드물어 전체 식도암의 약 1% 미만을 차지하고 있다.<sup>1,2</sup> 식도 점막표피모양암종의 기원은 불분명하지만 식도 점막표피모양암종의 조직학적 특징이 타액선의 점막표피모양암종의 조직학적 특징과 형태학적으로 유사하기 때문에 식도선에서 유래하였다는 이론이 널리 받아들여지고 있다.<sup>9</sup> 그러나 Mafune<sup>10</sup>은 식도의 점막표피모양암종이 조직학적으로 유사한 특징을 가지는 타액선의 점막표피모양암종과는 임상 양상이 다를 뿐만 아니라, 대부분의 종양에서 종양에 인접한 점막에서 상피내암변화가 관찰되기 때문에 점액 분비 암세포가 편평세포에서 비롯된 것이라고 주장하였다.

식도의 점막표피모양암종의 임상 양상은 다른 식도 종양들과 유사하다. 이번 증례처럼 초기 표재성 종양일 경우에는 대부분 크기가 작아 증상이 없지만 진행성 암으로 발전할 경우에는 일반적으로 연하 곤란, 가슴(복흉근) 통증, 상복부 통증, 식도 협착으로 인한 역류 또는 구역감, 체중 감소 등을 유발할 수 있다.<sup>11</sup> 기존의 문헌보고에서는 주로 병리학적 특징들에 대하여 기술되어 있었고, 진행된 종양으로 발견되어 특징적인 내시경 소견이 보고되지 않았다.<sup>9-12</sup> 점막표피모양암종의 최종 진단에는 조직 병리 검사가 필수적이지만 조직학적으로 점액 양성 세포가 있는 편평세포 암종과 감별해야 하고, 때로는 관상 조직으로 구성되어 있어 선편평상피암으로 오인될 수도 있다.<sup>13</sup> Ozawa 등<sup>12</sup>은 식도 생검에서 편평상피암으로 오진된 점막표피모양암종 2예를 보고하였으며, Chen 등<sup>11</sup>도 내시경 생검을 시행한 20예 중 편평상피암으로 오진된 18예와 선편평세포암으로 오진된 2예를 보고하였기 때문에 주의가 필요하다. 정확한 진단과 감별 진단을 위해서는 periodic acid-Schiff 염색, alcian blue 염색 및 mucicarmine 염색이 도움이 될 수 있다.<sup>9,12</sup>

식도의 점막표피모양암종의 일차 치료는 수술적 절제이며, 대부분 악성도가 높고 진행이 빨라 예후가 불량하다. 이전에 보고된 점막표피모양암종 환자의 5년 생존율은 0-25.8%로<sup>1,9,11,14,15</sup> 같은 기간 동안 치료받은 편평상피암 환자의 5년 생존율보다 더 낮았다. Kumagai 등<sup>9</sup>에 따르면 수술적 절제가 가능하였던 환자의 5년 생존율은 수술적 절제를 시행하지 않고 방사선 치료, 화학 요법 또는 항암 방사선 치료를 받은 환자들에 5년 생존율에 비하여 높은 생존율을 보였으나(29.6% vs. 0.0%) 수술을 받은 환자의 소집단 분석에서 수술만 시행 받은 환자들과 수술 치료와 항암 치료 및 방사선 치료 등을

병합한 환자들 간의 생존 기간 차이는 없었다. Hagiwara 등<sup>1</sup>은 수술 전 항암 치료 또는 방사선 치료 효과가 거의 없다고 보고하였으며, Chen 등<sup>11</sup>도 보조 항암 치료 또는 방사선 치료도 생존 기간 연장 효과가 없다고 보고하였다. 이번 증례는 매우 초기에 발견되어 내시경 점막절제술로 완전 절제가 가능하였지만 식도 점막표피모양암종의 예후가 불량하기 때문에 6개월 후에 추적 관찰을 하였고, 국소 재발 등의 소견이 관찰되지 않아 6개월 간격으로 추적할 예정이다. 최근 이번 증례와 유사하게 전신 상태가 수술을 받기에 적합하지 않은 2명의 표재성 점막표피모양암종 환자를 대상으로 내시경 점막절제술이 보고되었다.<sup>9</sup> 하지만 아직까지 내시경 점막절제술의 시행 기준이 정립되어 있지 않고, 시술 후 예후에 대해서도 알려진 바가 없기 때문에 주의하여 추적 관찰해야 한다.

일반적으로 식도 점막표피모양암종은 악성도가 높고 진행이 빨라 예후가 좋지 않아 수술적 절제가 주요 치료법이다. 하지만 이번 증례와 같이 초기에 발견되는 점막표피모양암종에 대해서는 내시경 절제술을 시행할 수 있으나 주의 깊게 추적 관찰해야 한다.

## REFERENCES

1. Hagiwara N, Tajiri T, Miyashita M, et al. Biological behavior of mucoepidermoid carcinoma of the esophagus. *J Nippon Med Sch* 2003;70:401-407.
2. Ghaffarzadegan K, Malekifar Z, Haghi Z, Farahmand MJ, JafariRad M. Mucoepidermoid carcinoma of the esophagus (case report). *Iran J Otorhinolaryngol* 2006;18:79-81.
3. Koide N, Hamanaka K, Igarashi J, et al. Co-occurrence of mucoepidermoid carcinoma and squamous cell carcinoma of the esophagus: report of a case. *Surg Today* 2000;30:636-642.
4. Ozawa S, Tachimori Y, Baba H, et al. Comprehensive registry of esophageal cancer in Japan, 2004. *Esophagus* 2012;9:75-98.
5. Suzuki H, Nagayo T. Primary tumors of the esophagus other than squamous cell carcinoma—histologic classification and statistics in the surgical and autopsied materials in Japan. *Int Adv Surg Oncol* 1980;3:73-109.
6. Tekade SA, Chaudhary MS, Gawande MN, Bagri K. Correlation between mucoepidermoid carcinoma grade and AgNOR count. *J Oral Sci* 2010;52:275-279.
7. Ozawa H, Tomita T, Sakamoto K, et al. Mucoepidermoid carcinoma of the head and neck: clinical analysis of 43 patients. *Jpn J Clin Oncol* 2008;38:414-418.
8. Rapidis AD, Givalos N, Gakiopoulou H, et al. Mucoepidermoid carcinoma of the salivary glands. Review of the literature and clinicopathological analysis of 18 patients. *Oral Oncol* 2007;43:130-136.
9. Kumagai Y, Ishiguro T, Kuwabara K, et al. Primary mucoepidermoid carcinoma of the esophagus: review of the literature. *Esophagus* 2014;11:81-88.
10. Mafune K. Histochemical study of adenocarcinomatous compo-

- nents in carcinoma of the esophagus. *Nihon Geka Gakkai Zasshi* 1988;89:162-172.
11. Chen S, Chen Y, Yang J, et al. Primary mucoepidermoid carcinoma of the esophagus. *J Thorac Oncol* 2011;6:1426-1431.
  12. Ozawa S, Ando N, Shinozawa Y, et al. Two cases of resected esophageal mucoepidermoid carcinoma. *Jpn J Surg* 1989;19: 86-92.
  13. Takubo K. Carcinomas other than squamous cell carcinoma and adenocarcinoma. In: Takubo K, ed. *Pathology of the esophagus: an atlas and textbook*. New York: Springer, 2007:212-225.
  14. Lieberman MD, Franceschi D, Marsan B, Burt M. Esophageal carcinoma. The unusual variants. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1994;108:1138-1146.
  15. Fegelman E, Law SY, Fok M, et al. Squamous cell carcinoma of the esophagus with mucin-secreting component. Mucoepidermoid carcinoma. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1994;107:62-67.