

양성 식도 혈관종

- 1례보고 -

김진국* · 도한구* · 이재원* · 황일순**

- Abstract -

Esophageal Hemangioma-A Case Report

Jhngook Kim, M.D., Han Koo Do, M.D., Jae Won Lee, M.D., Il Soon Hwang, M.D.**

We are reporting a case of esophageal hemangioma, which is a very rare disease with only 24 cases having been reported.

A 31-year-old male with dysphagia was shown to have a hemangioma of the upper thoracic esophagus and resection of the lesion cured this problem.

Once diagnosed in symptomatic patient, treatment should be instituted because of followings : 1. growth potency to large size, 2. possible complications such as hemorrhage and obstruction, and 3. exclusion diagnosis of malignancy.

Surgery is the treatment of choice due to its effectiveness and safety, but endoscopic removal may be possible for small tumors and those on a pedicle.

1. 서 론

식도 혈관종은 식도내에서 발견되는 양성 종양중에 서도 아주 드문 질환으로 Sommer등(Hanel 등)¹⁾ 논문 인용)에 의해 1898년 보고된 이래, 현재까지 전세계적으로 단 24례의 문헌보고만이 있을 뿐이다. 저자들은 전흉부 불편함및 경도의 연하곤란을 호소하는 31세 남자 환자에 발생한 식도 혈관종을 진단하고 이를 외과적 절제하여 만족할 만한 결과를 얻었기에 이에 문

헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

2. 증 례

환자는 31세된 남자 환자로 1년전부터 연하 곤란과 전흉부 불편감을 주소로 내원하였다. 과거력상 별 특이한 소견은 없었으며 3년전 위내시경을 시행했던 바 정상이라고 들었다 하였다. 과거 흡연 경력은 있으나 4년전부터 금연을 하였었으며 음주 습관은 소량을, 주 3회정도로 즐기는 정도이나 정신을 잃을 정도의 과음은 않는다고 하였다. 직업은 회사원이었다. 환자는 일견 보기에 건강해 보였으며 이학적 소견상 이상소견을 발견할 수 없었다.

흉부 단순 촬영도이나 심전도 역시 이상 소견을 보이지 않았으며 단순 혈액검사(CBC)나 간기능 검사등 혈액 검사 역시 정상이었다.

* 중앙 길병원 흉부외과

* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Chung-ang Gil Hospital, Incheon, Korea.

** 중앙 길병원 내과

** Department of Internal Medicine, Chung-ang Gil Hospital, Incheon, Korea.

1990년 9월 29일 접수

식도내의 종양이나 역류성 식도염의 가능성을 생각하고 식도내시경을 시행 하였다. 식도 내시경 검사상 incisor부터 23cm부위에 난형의, 푸른 색조를 띤, 약 2-3cm크기의 종양이 돌출되어 관찰되었으며 식도 점막 자체는 정상이었다(그림 1). 또 매우 부드러운 느낌을 받았고 종양을 통해 하부 식도나 위장으로 내시경을 밀어넣기에 저항감을 느낄 수 없었다. 혈관계의 이상에 의한 종양이라고 생각되어 생검은 시행치 않았다. 바리움 식도조영술을 시행한 바 종양은 그림 2에서 보는 바와 같이 식도 내경의 2/3이상을 막고 있었으며 몇몇 구획을 가진(lobulated) 종양이었다.

이상의 검사등을 통해 식도 혈관종의 가능성을 먼저 생각함과 함께 기타 지방종등의 양성 식도 종양의 가능성을 함께 고려하고, 지속적인 연하곤란과 전흉부 불편감의 증상을 수술 적응증으로 하여 수술을 시행하였다. 개흉은 우측 4번째 늑간을 통해 시행하였다. 개흉소견상 늑막강이나 식도를 덮고 있는 종격동 늑막은 정상이었다. 기도 분지(carina)위치부터 상하로 종격동 늑막을 열고 관찰한 바, 식도의 외형은 정상적인 불그스레한 모양을 보이고 있었으나, 기도분지 상방 5cm 정도에서는 상하부의 정상부위보다 직경이 더 커 보였다. 이를 촉진하여보니 부드럽고 유동적이며 몇개의 구획을 가진듯한(multilobulated)종괴가 잘 만져졌다. 종양을 둘러싸고 있는 근육에 종으로 절개를 가하고 종양을 주위 조직으로부터 조심스럽게 분리하였다. 종양은 조금 짙은 청적색을 띠고 있었으며 아주



Fig. 1. Endoscopic photograph of esophageal lesion showing smooth contour and bluish discoloration.



Fig. 2. Radiograph taken during barium swallow examination displaying ovoid lesion in upper thoracic esophagus.

부드러운, 마치 얇은 정맥류 덩어리와 같이 보였는데 점막을 제외한 주위 조직과는 별 어려움없이 분리되었다. 그러나 점막의 일부와는 아주 단단히 유착되어 있어 핵적출은 어려웠다. 따라서 유착된 점막을 포함하여 제거할 수 밖에 없었다. 제거도중 내재한 혈액이 소실하자 종양은 아주 작은 혈관 내피 덩어리로만 보였다. 함께 절제한 식도 점막은 4-0 black silk를 이용하여, 종으로, 분리 종합(interrupted suture)하였고 근육층도 4-0 black silk로 분리 봉합하였다.

악성 종양의 가능성을 배제하고자 냉동 조직 검사(Frozen pathologic examination)를 시행한 바, 악성 세포는 발견되지 않았다. 고정과 H-E 염색을 통한 최종 조직소견(Final pathologic result)상 양성 혈관종, 특히 해면상 혈관종임을 알 수 있었다(그림 3).

환자는 술후 6일째 식도조영술후 새지 않음을 확인하고 식이를 시작하였고 별 문제없이 술후 14일째 퇴원하였다. 술후 1개월이 지나 시행한 식도 내시경이나 식도 조영상 식도 협착이나 종양의 재발등의 소견없이 양호하였으며 현재 식사에 불편감없이 3개월째 외래 추적 관찰중이다.

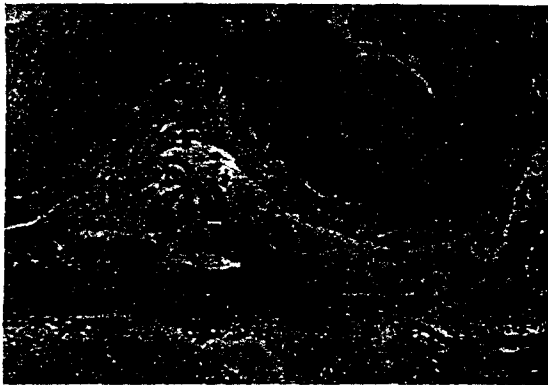


Fig. 3. Microscopic photograph of esophageal lesion showing typical cavernous hemangioma.

3. 고 찰

식도에 발생하는 양성종은 그 발생빈도가 아주 낮아, 전 인구 및 연령대비 0.5%미만이라고 알려져 있다²³⁾. 이들은 대개 근육종(leiomyoma)이며 식도경(esophageal polyp)이 간혹 발견된다. 식도에 발생한 혈관종은 아주 드물어, Plachta등³⁾은 50여년간 시행한 19,982건의 부검결과 90례의 양성식도 종양을 발견할 수 있었고 그중 단 3건만이 식도혈관종이었다고 보고하였다. 혈관종의 발생빈도를 전 소화기(gastrointestinal tract)에 대비하여 보아도, 식도에의 발생은 아주 드물다고 알려져 있어, Gentry등⁴⁾에 의하면 전 261례의 소화기 혈관종중 단 12례만이 식도혈관종이었다고 보고하였다.

현재까지 발견된 환자를 통하여 본 식도혈관종의 임상적 소견은, 주로 30대에서 60대사이는 남자에 호발하며, 증상이 없는 경우도 많으나, 출혈과 또는 연하곤란을 보인다는 것이다¹⁾. 소아에서 발견된 예에서도 출혈과 포유시 질식(choking at feeding)의 소견을 보였었다. 호발부위는 상, 중, 하부 식도에 거의 고르게 분포되어 보고되었다.

일반적으로 혈관종은 작은 모세 혈관부터 보다 큰 해면상의 구조까지 다양한 크기의, 혈관 내피 세포로 둘러 쌓인(endothelium-lined)종양이다. 분류상 가장 많은 것은 해면상 혈관종(cavernous hemangioma)으로 보고례중 거의 전부를 차지하며 본 증례도 이와 같았다. 보고된 바 그 크기는 매우 다양하나 대개

2-3cm 내외이며 가장 큰 것은 12×5×2.5cm였다¹⁾.

혈관종의 원인에 대하여는 아직 이론이 많으나 엄밀한 의미의 종양이라기 보다는 일종의 혈관기형(hamartoma)인, 즉 선천성의 혈관 비후라고 보는게 일반적이다⁵⁾. 그러나 본 증례와 같이 과거 검사에 발견할 수 없다가 뒤늦게 출현하거나 혹은 분명한 크기 증가를 발견할 수 있는 예가 있어 진정한 의미의 종양이라고 주장하는 의견도 많다¹⁾.

식도 혈관종의 진단은 다른 식도 종양의 경우와 마찬가지로 식도내시경과 바륨(barium)을 이용한 식도 조영검사에 의해 이루어 진다. 이역시 식도의 다른 양성 종양들처럼 주로 점막하(submucosal)에 발생하므로, 정상 점막조직에 의해 덮혀있어 발견되지 않을 수도 있고 다른 양성 종양과 감별 진단이 안될 수도 있으나, 대개의 경우 연청색(Pale bluish coloration)을 띠는 점막과 내시경을 통해 누르면 종괴가 소실함을 통해 큰 어려움 없이 진단이 내려질 수 있다고 본다¹⁾.

식도 내시경시 생검(biopsy)를 해야하는가에 대하여는 아직 의견이 분분하다. 일반적으로 식도 종양의 의심될 때 종양이 벽내(intramural)에 위치한 경우에는, 충분한 양의 채취물 획득이 어렵다는 점과 오히려 점막하 전이(submucosal contamination)을 시킬 수 있다는 단점때문에 생검을 시행치 않음을 원칙으로 하며, 관강내(intraluminal)나 점막하(submucosal)에 위치한 경우에는 별 어려움이나 합병증이 생검을 시행한다. 그리고, 비록 그 위치가 관강내나 점막하에 위치하더라도 혈관종의 경우에는, 심한 출혈의 위험성을 고려하여 생검을 하지않는 것이 일반적이다⁶⁾. 그러나 현재까지 보고된 24례중 9례에서 생검을 시도하였고, 이들 전례에서 아무런 문제가 없었다¹⁾. 따라서 만일 악성종양과의 감별이 안되는 경우에는 어느 정도의 위험성을 감수하며 생검을 시도해 볼 수 있다고 생각한다.

식도 혈관종의 치료는 외과적 절제가 원칙이라고 보는 것이, 현재까지의 많지 않는 증례를 통한 결론이다. 방사선 치료는 단지 역사적인 의미만을 가진다고 생각된다. 한편 내시경을 통한 절제는 1973년 Galliard de Collogne등⁷⁾이 성공을 보고하긴 하였으나 0.5cm미만의 작은 종양이었고, 대부분의 보고된, 2cm 이상의 종양의 경우에는 충분한 절제가 행해지기도 어렵고, 또 상대적으로 위험하여 널리 이용될 수 없었

다. 부검이 아닌, 환자에서 발견된 첫 증례인 1926년, Vinson 등의 예⁸⁾에서 환자가 경내시경 절제후 1년뒤 식도 폐색으로 사망하였다함은 내시경만을 이용한 절제의 위험성을 말해주는 방증이라 생각한다.

외과적 절제의 방법은 여타의 식도 양성종양과 동일하다. Boyd 등⁹⁾은 점막을 열지 않고 종양만을 핵적출술(enucleation)할 것을 주장했는데, 본 증례에서는 종양과 점막의 유착이 심하여 점막일부도 절제하지 않을 수 없었다. 그러나 절제된 점막은 그 크기가 크지 않으며, 식도협착없이, 일차 봉합하는데 아무런 문제가 없었다. Hanel 등¹⁾도 저자와 유사한 경험을 보고하였는데, 이는 핵적출을 할 수 있으면 이상적이나 불가피한 경우, 식도 점막의 일부를 포함한 절제도, 정확한 점막의 봉합만 시행된다면 예후에는 영향을 주지 않음을 말해 주는 것이라고 생각된다.

4. 결 론

저자들은 연하 곤란을 호소하는 31세 남자 환자에 서 양성 식도 혈관종을 발견, 진단하고 이를 성공적으로 외과적 절제하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Hanel K, Talley NA, Hunt DR : *Hemangioma*

of the esophagus: An unusual cause fo upper gastrointestinal bleeding. Dig dis Sci 26 : 275, 1981

2. Moersch HJ, Harrington SE : *Benign tumors of esophagus. ann Otol Rhinol Larngol* 53 : 800, 1944

3. Plachta A : *Benign tumors of the esophagus. Review of literature and report of 99 cases. Am J Gastroenterol* 38 : 639, 1962

4. Gentry RW, Dockerty MD, Clagett OT : *Vascular malformations and vascular tumors of the gastrointersinal tract. Int Abstr Surg* 88 : 218, 1949(Adapted from ref 1)

5. Evans RW : *Tumors of vasoformative tissue. Histologic apprearance of tumors. 3rd Ed, Edinburrgh, churchioll Livingston, 1978, pp 66-67.*

6. Shields TW. : *Benign tumors, cysts, and applications of the esophagus. In: Shields TW ed., General thoracic surgery. 3rd ed., philadelphia, Lea & Febiger, 1989 : 1035*

7. Galliard de Collogny L, Delage J, Fonck-cussac Y et al : *Hemangioma de l'oesophage. J FR Oto-Rhino-Laryngol* 22 : 272, 1973.

8. Vinson PP, Moore Ab, Bowing HH : *Hemangioma of the esophagus. Am J MEd Sci* 172 : 416, 1926(Adapted from 1)

9. Boyd DP, Hill LD : *Beingn tumors and cysts of the esophagus. Am J Surg* 93 ; 252, 1957.