

식도에 발생한 거대 해면혈관종 수술치험

-1례 보고-

이 창민*·박성달*·조성래*·허방**

=Abstract=

Giant Cavernous Hemangioma of the Esophagus

-One Case Report-

Chang Min Lee, M.D. *, Sung Dal Park, M.D. *, Sung Rae Cho, M.D. *, Bang Huh, M.D. **

Esophageal hemangioma is an extremely rare benign tumor that causes dysphagia and massive upper gastrointestinal bleeding. Although certain abnormalities seen on a barium swallow esophagography or at endoscopy may suggest an esophageal hemangioma, a contrast CT and radionuclide angiography using a blood-pool radiopharmaceutical can characterize the intense vascularity of the tumor. We experienced the case of a 7×7×3.5 cm in size giant cavernous hemangioma of the lower 1/3 of esophagus in a 40 year old man. A mural cavernous hemangioma was diagnosed with a barium swallowed esophagography, endoscopy, and a contrast CT. It was treated successfully by transthoracic esophagectomy including the tumor and esophagogastrostomy.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1998;31:324-28)

Kew word : 1. Esophageal neoplasm
2. Esophagogastrostomy

증례

환자는 40세 남자로서 2~3주일 동안 지속되는 연하장애를 주소로 내원하였다. 내원 약 2개월전 식후 잦은 설사와 소화 불량으로 타 병원에서 시행한 식도 및 위내시경 검사상 하부식도에 정맥류의 소견이, 그리고 대장경 검사상 상행결장의 근위부에 지방종의 소견이 보였고 흉부 전산화 단층촬영상 하부식도에 점막하 종양의 소견이 보여 수술을 권유 받은 적이 있었다. 내원당시 연하장애 외에 전신쇠약 및 소화 불량을 호소하였으나 설사, 위-식도 역류, 토혈, 혈변, 그리고

체중감소등은 보이지 않았다. 환자의 직업은 회사원으로 2홉 짜리 소주 1병씩 10년간 거의 매일 마셨다고 하며 음주후 구토를 자주하는 편이었다고 한다. 담배는 20년간 하루 1갑씩 피웠다고 한다. 그 외 과거력이나 가족력상 특이 소견은 없었다. 이학적 검사에서 복부촉진상 경도의 상복부 압통이 있었으나 간이나 비장은 촉진되지 않았으며 혈액검사상 빈혈등 기타 이상소견은 관찰되지 않았다. 본원에서 시행한 식도 및 위내시경 검사상 중앙 문치에서 부터 34 cm에서 40 cm까지의 부위에서 식도점막 외부에서 푸른빛을 띄는 결절성의 종괴가 식도내강을 압박하고 있었으나 식도점막은 혈

* 고신대학교 의학부 흉부외과학교실

Dept. of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Kosin Medical College, Pusan, Korea

** 고신대학교 의학부 병리학교실

Dept. of Pathology, Kosin Medical College, Pusan, Korea

논문접수일 : 97년 6월 30일 심사통과일 : 97년 10월 11일

책임저자 : 이창민, (602-702) 부산광역시 서구 암남동 34번지, 고신대학교 흉부외과학교실. (Tel) 051-240-6466, (Fax) 051-254-5446.

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

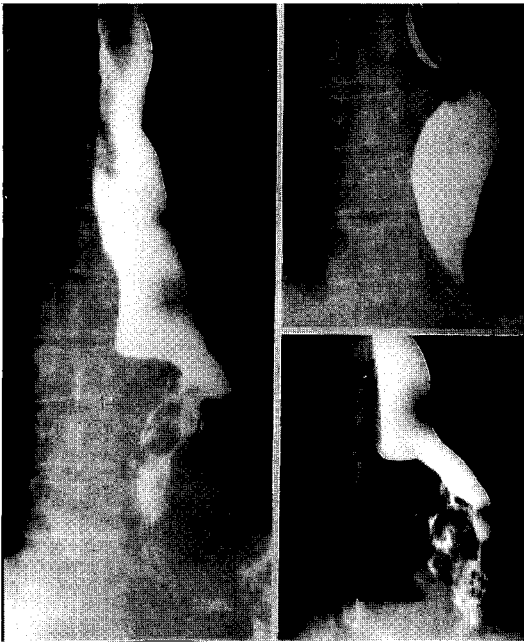


Fig. 1. The serial esophagography revealed several polypoid filling defects in the lower esophagus(left). The filling defects was losing by the passage of barium and esophageal mucosa was intact

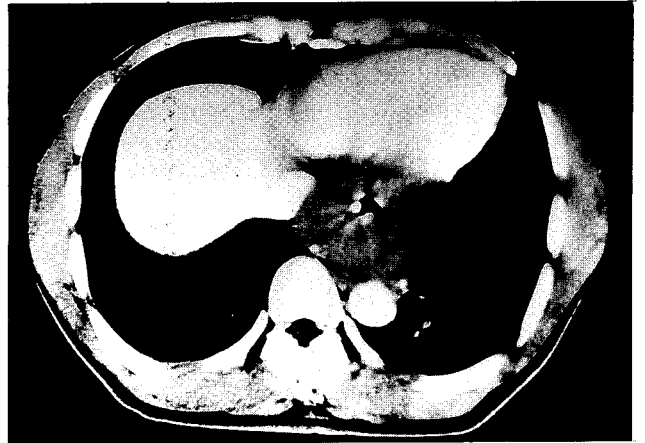


Fig. 2. The contrast enhanced CT scan enhanced slightly homogeneous mass in the lower one third of esophagus.

관이 풍부하게 발달되어 있는 점을 제외하고는 이상소견을 보이지 않았고 위의 체부와 각절흔(角切痕)부위에 미란이 있었다. 식도 조영술 소견상 식도의 하 1/3 부위의 우외측벽에 부분적으로 불규칙한 경계의 충만 결손이 보이면서 조영제가 통과할시 결손부가 충만되는 양상을 보여 비교적 탄력성이 있는 식도 점막하 종양의 소견을 보였다(Fig. 1) 혈관 조영제를 사용한 흉부 전산화 단층촬영 소견상 조영제가 그렇게 많이 충만되지 않는 하부식도에서 식도-위 문합부까지 거대종양이 식도를 둘러싸고 있으며 복부 대동맥을 따라 아래로 내려오고 있는 양상을 보였다(Fig. 2)

이상의 검사소견으로 식도 점막하 종양 특히 과혈관성 종양으로 추정하고 수술을 시행하였다. 수술은 좌측 제 7늑간으로 개흉하였다. 수술소견은 혈관성 종괴가 흉복부 대동맥을 따라서 식도-위 문합부 상방 4 cm 하부식도 부위에서 부터 식도-위 문합부 하부에 걸쳐서 식도와 위를 둘러싸고 있었으며 종괴가 주위조직과의 경계가 불분명하면서 식도 점막하층에서 부터 근육층 바깥으로 돌출되어 있고 과혈관성으로 인해 수술조작시 쉽게 출혈할 뿐만 아니라 우측 종격흉막과 심하게 유착되어 있어 종괴만의 적출이 불가능하여 종괴를 포함한 식도, 식도위 문합부, 종격흉막까지 절제하고 EEA 단단문합기를 이용하여 식도위 문합술을 시행하였다(Fig. 3) 육안소견상 하부식도와 같이 절제된 종괴는 7×7×3.5 cm의 크기였고, 질은 적갈색의 부드럽고 탄력성이 있었



Fig 3. The operative field revealed hypervascular, soft mass in the lower esophagus (M, mediastinum;D, Diaphragm; A, Aorta ; H, esophageal cavernous hemangioma)

으며(Fig. 4), 식도의 점막은 비교적 잘 보존되어 있었고 점막 표면에 점막내로 돌출된 직경 2×1.5 cm 크기의 푸른점과 절단면에서 점막 하층부터 식도외막(adventitia)에 이르는 다양한 크기의 많은 혈관내강들이 관찰되었으며 이러한 혈관내강들로 인해 식도근육층의 연속성이 끊어지는 소견을 보

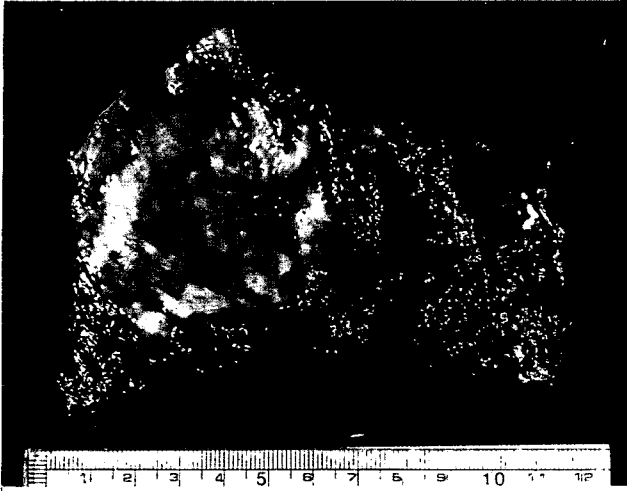


Fig 4. The cavernous hemangioma within resected lower esophagus was seen 7×7×3.5 cm in size and dark reddish colored esophageal mucosa on the cavernous hemangioma was intact but revealed bluish-grey color.



Fig 5. The cut-section of the lesion including esophageal mucosa : the multiple, various sized, dilatated vessels interrupted esophageal smooth muscle

여주고 있었다(Fig. 5) 현미경 소견상 점막 하층에 다양한 모양과 크기의 확장된 혈관들을 보였고 혈관내에는 적은수의 적혈구가 관찰되었다(Fig. 6). 또 식도 근육내에서 확장된 혈

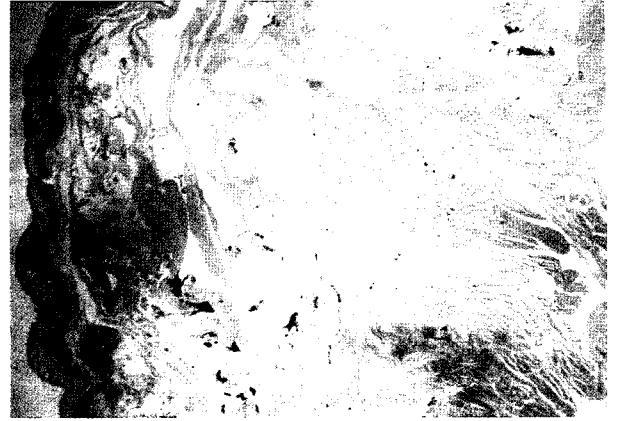


Fig 6. The low-powered photomicrography of the esophageal cavernous hemangioma : the multiple, various sized, dilatated vessels in cluding red blood cells were seen below the esophageal mucosa.

관들에 의해 평활근의 연속성이 끊어지는 소견을 보였고 혈관은 한층의 납작한 내피세포로 연결되어 있어 해면혈관종으로 판정되었다(Fig. 7)

환자는 별 문제없이 순조로운 경과를 취하였고 술후 제7일째 시행한 식도조영술 소견상 문합부 누출등 특이소견이 보이지 않아 음식물의 경구투여가 가능하였고 술후 14일째 퇴원하였다.

고 찰

식도 양성종양은 식도에 발생하는 신생물의 1% 이하를 차지하는 드문 질환이며, 식도 혈관종은 식도 양성종양중 2% 내지 3%를 차지할 정도로 매우 희귀하여 현재 국내 문헌에는 보고된 예가 없고 외국문헌에서도 보고된 증례수가 극히 제한되어 있다¹⁾. 식도 혈관종은 증상이 없는 경우가 많고 아무런 증상이 없는 사람에게서 우연히 발견되는 경우가 많이 있어 그 발생율이 축소되어 보고 되었을 것으로 주장하는 이도 있으나, Moersch와 Harrington²⁾의 보고에 의하면 Mayo Clinic에서 시행한 일련의 부검 7459례중 식도 양성종양이 44례 발견되었고 그 중 3례만이 혈관종 이었다고 하였으며, Gentry등³⁾은 역시 Mayo Clinic 분석에서 위장관에 발생한 106례의 혈관종양중에 5례는 식도와 타 위장관에 동시에 발병하였으며 단지 2례만이 식도에 국한하여 발생한 혈관종이었다고 보고하여 매우 드문 질환임에 틀림없다. 또 비교적 최근의 보고로 Sao Paulo 대학병원의 Cerri등⁴⁾은 방사선과에서 관찰된 828례의 식도종양중에 12례가 양성종양이었고 그 중 1례가 혈관종이었다고 보고하여 이를 뒷받침 하고 있다. 혈관종의 발병기전에 대해서는 일반적으로 혈관과오종

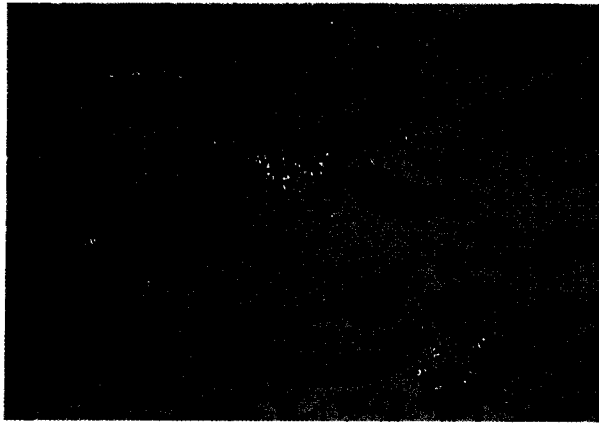


Fig 7. The high-powered photomicrography of the esophageal cavernous hemangioma : the multiple, various sized, dilatated vesseles interrupted esophageal smooth muscles

(vascular hamartoma) 혹은 종양양기형으로 받아들여 지고 있으나 여전히 논란의 대상이 되고 있다. Crawford⁹⁾는 혈관종을 모세혈관 혈관종(capillary hemangioma)과 해면혈관종(cavernous hemangioma) 또는 동정맥 혈관종(arteriovenous hemangioma)으로 분류하고 과오종 세포는 다른 조직세포와 마찬가지로 종양성 성장을 할수 있다고 언급하였다. 또 Gentry³⁾은 혈관종을 병리 조직소견에 기초하여 총괄적이고 실제적으로 분류하였다(Table 1) 식도 혈관종의 가장 흔한 임상증상은 출혈과 연하장애이다. 그 외 상복부 동통, 흉통, 후흉골통(retrosternal pain), 체중감소, 혈변등의 증상이 있을 수 있다. 본 증례에서는 경미한 정도의 연하장애는 있었으나 출혈등 다른증상은 없었다. 식도 혈관종의 진단을 위해서는 식도조영술과 식도내시경 검사가 널리 이용되고 있으나 확진에는 다소 한계점이 있다. 바륨을 이용한 식도조영술상 경계가 명확한 근육층내의 병변을 보이며 때로는 점막쪽으로 용종의 형태를 나타낼 수도 있다. 그러나 본 증례에서는 종양의 경계가 불규칙하여 악성종양과 감별이 용이하지 않았다. 또 혈관종은 종괴내에 혈액이 차 있는 부드러운 종양이기 때문에 본 증례에서 처럼 조영제가 식도의 종양이 있는 부위를 통과시 조영제의 압력에 의해 충만 결손부위가 작게 보일 수도 있다. 악성종양과 감별이 어려운 경우도 있으나 식도조영술과 내시경 검사로 대부분 정확한 진단을 할 수 있다. 또 최근 조영제를 이용하는 흉부 전산화 단층촬영과 동위원소를 이용하는 혈관촬영에 의해 혈관종의 진단에 많은 도움이 되고 있다. 내시경 검사상 상부나 중부 식도 점막하에 푸른 회색빛을 띄는 확장된 혈관들이 많이 분포되어 있는 소견은 혈관종을 강력히 시사하는 소견이지만 본 증례에서 처럼 하부식도에 이런 소견이 보일 때에는 식도정맥류

Table 1. Hemangiomas of the intestinal tract

Benign types

I. Telangiectasis

- A. Hereditary
- B. Nonhereditary forms

II. Hemangioma

- A. Capillary : simplex, more frequently single
- B. Mixed capillary and cavernous
- C. Cavernous
 - 1. Multiple phlebotaxis, small cavernous
 - 2. Simple polypoid, single cavernous
 - 3. Diffuse expansive, single contiguous
 - 4. Diffuse expansive, multiple contiguous

Malignant types

- I. Hemangioendothelioma
- II. Benign metastasizing hemangioma
- III. Kaposi's sarcoma
- IV. Angiosarcoma

Based on the classification of Gentry et al³⁾

와 감별이 요한다. 혈관종은 식도정맥류에 비해 정맥압이 낮기 때문에 출혈을 일으킬 가능성이 극히 낮고, 또 출혈이 있더라도 만성적이고 미만성으로 발생하므로 만성적인 빈혈등을 유발할수 있다. 식도 혈관종의 발생부위는 문헌에 보고된 28례를 대상으로 Govoni⁶⁾가 분석한 결과에 따르면 식도 하 1/3에 14례로 가장 많았고 그 외 중 1/3에 9례, 상 1/3에 7례, 그리고 경부식도에도 6례 있었다. 또 남녀 성별에 따른 발생의 차이는 없었다. 식도에 발생한 혈관종의 크기는 대부분의 보고에서 처럼 종괴의 크기가 그다지 커지 않고 주위조직과의 경계가 명확하기때문에 치료는 개흉술을 시행하여서나 식도내시경을 이용하여 종양의 국소적인 절제만으로 충분히 치유 가능한 것으로 알려져 있으나 본 증례에서와 같이 종양의 크기가 7×7×3.5 cm로 매우 크고, 또 종양의 형태도 경(pedicle)이 없이 식도의 점막 하층부터 근육층 밖으로까지 돌출되어 식도를 완전히 둘러싸고 있으면서 과혈관성으로 인한 출혈이 심한 경우에는 국소절제가 매우 어려울 것으로 사료되며 이러한 경우에는 본 증례에서 처럼 종양절제를 식도절제와 동시에 시행하는 것이 좋을 것으로 사료된다.

참고 문헌

1. Palchick BA, Alpert AA, Holmes RA, et al. *Esophageal hemangioma. Diagnosis with computed tomography and Radionuclide angiography.* South Med J 1983;76:1582-4.
2. Moersch HJ, Harrington SW. *Benign tumors of the esophagus.* Ann Otol Rhinol Laryngol 1944;53:800-17.
3. Gentry RW, Dockerty MB, Clagett OT. *Vascular mal-*

- formation and vascular tumors of the gastrointestinal tract.* Int Abstr Surg 1949;88:281-323.
4. Cerri GG, D'Avila, Magalhaes A Jr, et al. *Tumores benignos do esofago. Apresentacao de 12 casos.* Rev Hosp Clin Fac Med Sao Paulo 1980;35:110-3.
 5. Crawford T. *Arteries, veins and lymphatics.* Systemic pathology 2nd Ed. London Churchill Livingstone: 1976;161-2.
 6. Govoni AF. *Hemangioma of the esophagus.* Gastrointes Radiol 1982;7:113-7.

=국문초록=

식도에 발생하는 혈관종은 식도에 드물게 발생하는 양성종양의 2% 내지 3% 정도 차지할 정도로 매우 희귀하여 세계적으로 보고된 증례수가 많지 않다. 저자들은 식도에 발생한 매우 희귀한 해면혈관종 1례를 수술치험하였기에 문헌고찰과 더불어 보고하고자 한다. 환자는 40세 남자로 경미한 연하장애를 주소로 내원하여 식도조영술, 식도 내시경검사, 조영제를 이용한 흉부 전산화 단층촬영등을 시행하여 하부 식도의 점막하층에서 발생하여 근육층 밖으로 돌출되어 나온 식도 종양이 추정되어 수술을 시행하였다. 수술소견상 하부 식도 및 식도-위 문합부에 걸쳐 과혈관성의 7x7x3.5cm 크기의 거대한 종괴가 식도점막하층과 식도근육층 그리고 주위조직으로의 침범이 심하게 되어 있어 종양을 포함한 식도절제술 및 식도-위 문합술을 시행하여 병리 조직학적으로 해면 혈관종으로 확진되었으며 환자는 특별한 문제없이 술후 제14일째 건강한 상태로 퇴원하였다.