

## 거대 식도평활근종의 수술치험 1례

계명대학교 의과대학 흉부외과학교실

금동윤·박창권

### Giant Leiomyoma of the Esophagus: 1 Case Report

Dong Yoon Keum, M.D., Chang Kwon Park, M.D.

*Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, Keimyung University School of Medicine,  
Daegu, Korea*

#### Abstract

Although leiomyoma of esophagus is the most common benign esophageal tumor, it is still a rare condition. Most tumors are small in size and a few patient present symptoms like dysphagia, substernal chest pain, pyrosis. Most leiomyomas are diagnosed on contrast esophagography, chest radiography and computed tomography. Endoscopy and endoscopic ultrasonography are useful techniques for the diagnosis and making treatment related decision. Resection of tumor is recommended in symptomatic patient. Herein we discuss giant leiomyoma that is annular encircling and serpiginous extending to esophagus during work up of patient with dysphagia. After successful enucleation of mass through transthoracic approach, we report a case of giant leiomyoma with clinical, radiological and pathological review of this disease.

**Key Words :** Esophagus, Leiomyoma

## 서 론

평활근종은 식도에서 가장 많이 발생하는 양성종양이다. 이들은 식도의 평활근에서 발생하며 부검상 0.005-5.1%의 발생빈도를 보인다[1,2]. 대부분의 환자에서 단일 종양을 발견할 수 있는데 다발성의 종양을 보고한 경우도 있다. 식도평활근종은 그 크기가 대개 5 cm 이하이나 종종 그 이상의 큰 종양이 발견되기도 한다. 크기가 10 cm 이상이면 거대 평활근종이라 정의하는데 이 경우 연하곤란, 흉골 뒤 통증, 작열감 등의 증상이 많이 발생한다[3]. 종양의 모양은 대부분 둥글고 돌출성이며 주위와 경계가 뚜렷하다. 그러나 일부 평활근종은 그 모양이 특이하여 수술 시 점막손상을 방지하기 위해서는 많은 노력이 필요할 수 있다.

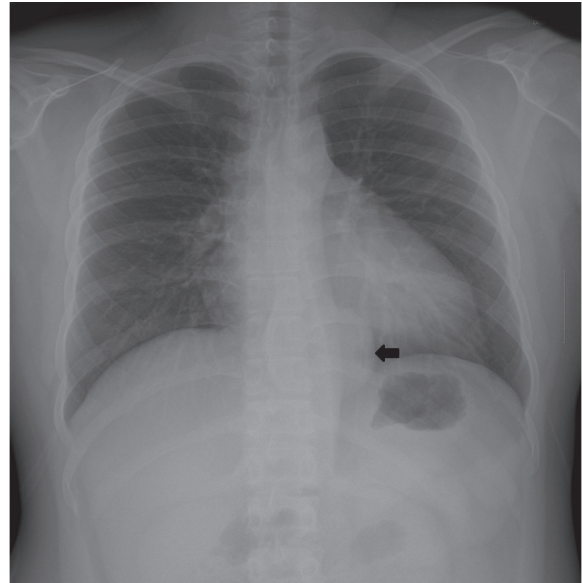
저자들은 최근 하부식도와 위 분문까지 연결되는 윤상형의 거대 식도평활근종을 경험하고 성공적으로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

## 증 례

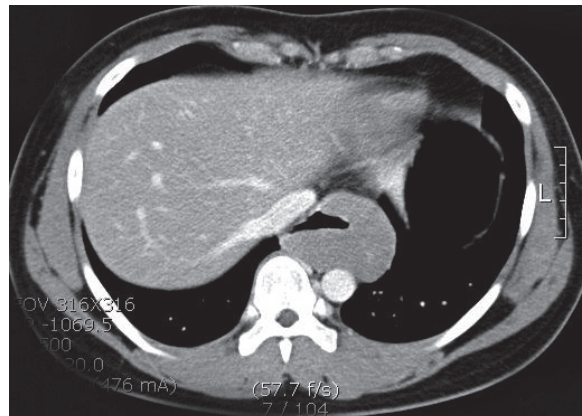
인슐린 의존성 당뇨병과 정신지체를 가진 23세 남자가 연하곤란과 소화불량을 주소로 입원하였다. 환자는 입원 6개월 전부터 간헐적인 구토가 있었으나 오심, 체중감소 등의 증상은 없었다. 최근 구토의 빈도가 증가하고 연하곤란이 심해져 내원하게 되었다. 단순흉부사진에서 하부 종격동에 척추음영과 겹치는 종괴 소견이 보였다(Fig. 1).

전산화 단층촬영에서 식도 하부와 위 분문부를 감싸면서 조영 증강이 덜되고 균질한 성질의 10 × 8 cm 크기의 종괴 소견이 보였으며, 점막이 잘 보존되어 점막 하 종양을 의심하게 되었다. 주위의 림프절 종대소견은 없었다(Fig. 2).

식도조영술은 시행하지 않았다. 상부위장관 내시경검사서 하부식도에서 위 분문부까지 연결되는 점막 하 종괴가 발견되고, 종괴를 눌렀을 때 본래의 모습으로 돌아오는 스펀지 같은 징후(쿠션 징후)를 보였다. 역류성식도염의 징후가 동반되어 있었다. 내시경을 통한 조직검사는 시행하지 않았다.



**Fig. 1.** Chest PA shows well demarcating mass shadow on lower mediastinal area (arrow).



**Fig. 2.** Computed tomography of chest reveals homogenous, less enhancing, encircling mass at the lower esophagus and cardia with intact mucosa, suggesting submucosal tumor.

내시경초음파검사서 고유근층과 연결된 균질한 저에코 음영의 종양이 보였으며 직경은 약 60 mm였다(Fig. 3).

종양의 위치가 하부식도와 분문에 위치하고 있었고, 종양이 식도를 윤상형으로 완전히 감싸는 모양이었으며 또한 그 크기가 거대하여 점막손상을

방지하면서 종양을 완전히 적출하기 위해 좌측 개흉을 계획하였다. 종양은 하부식도와 분문을 감싸는 형태로 크기가 약  $10 \times 10$  cm 였고, 육안 소견상 종양은 식도의 상하부로 사행성 양상으로 뻗어나가는 망상형태를 나타내었다. 점막층과 접하는 종양의 단면은 돌기형 다발형태를 띄고 있었다(Fig. 4).

종양적출 중 식도위문합부에서 약 2 cm 길이의 식도점막 손상이 발생하였는데 일차봉합을 시도하였다. 종양의 크기가 너무 커서 종양적출 후 식도계실을 방지하기 위한 근육봉합은 할 수 없었으며, 종격흉막은 닫았다. 코위관을 삽입한 후 고정하였으며 흉관을 거치한 후 수술을 마무리 하였다. 환자는 술 후 일주일 동안 금식하면서 경정맥 영양 공급을 하였고, 이후 시행한 식도조영술 검사상 점막손상 부위의 누출 소견이 없어 식사를 시작하였다. 현미경 소견상 종양은 호산구성 방추세포 다발로 구성되어 있었다. 세포충실성은 낮았으며, 유사분열 활동, 주위조직으로의 침윤, 핵주변의 공포화, 변성화 등의 소견은 발견할 수 없었다(Fig. 5).

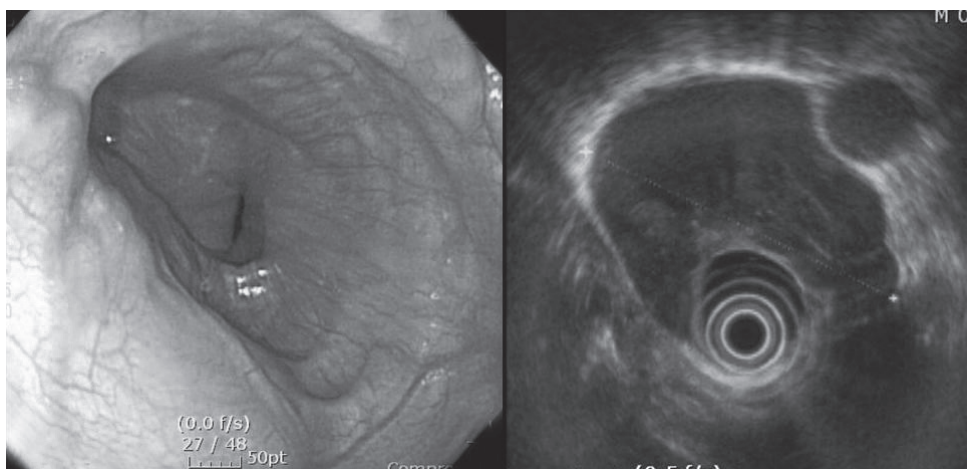
## 고 찰

평활근종은 식도에서 발생하는 가장 흔한 양성

중간엽 종양이다. 대개 중년의 남자에서 많이 발견되며, 식도의 어느 부분에서나 발생할 수 있으나 하부 1/3지점에서 많이 발생한다[4]. 이들의 모양은 대체로 구형이나 계란형의 모양새를 보이며 식도벽 내에 위치한다. 그러나 종양의 모양이 망상형이거나 락모양으로 커져 보고되는 경우도 있다[5,6].

이번 증례의 경우 종양의 크기가 10 cm 이상이었으며 점막과 접하는 부분은 돌기형의 다발형태를 띄고 일부는 사행성 양상을 보여주었다. 식도평활근종은 천천히 성장하며 점막 내로 크기 때문에 다양한 증상을 나타낼 수 있으나, 과반수 이상의 환자에서는 증상이 없다[3]. 식도평활근종의 크기와 증상 발현기간 사이에 직접적인 연관은 없는 것으로 알려져 있다[1,2]. 많은 환자에서 증상 없이 지내는 경우가 있으나, 가장 흔한 증상은 연하곤란이며 흉골 하 통증을 호소하는 경우도 많다. Priego 등은 이 질환이 열공탈장, 위 식도역류, 이완불합증, 식도계실 등과 연관이 많다고 보고하였다[7].

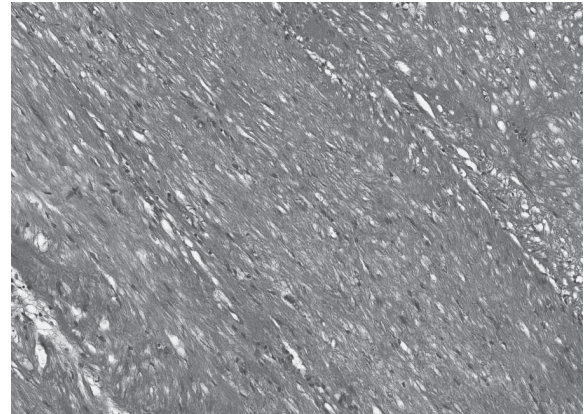
식도에서 발생한 평활근종은 궤양을 일으키는 경우가 드물어 출혈의 경향이 적다. 반면 위장에서 발생한 평활근종은 출혈 성향이 많은 것으로 알려져 있다[4]. 이 질환은 증상이 없는 경우가 많기 때문에 단순 흉부사진상 후종격동 종양처럼 보여 우연히 발견되는 경우가 많다. 본 증례의 경우도 단순



**Fig. 3.** Endoscopic finding shows encircling submucosal tumor and well demarcated homogeneous hypoechoic mass on endoscopic ultrasonography reveals giant leiomyoma of esophagus.



**Fig. 4.** Gross examination of leiomyoma shows 10 X 10 cm sized irregular shaped firm mass with interlacing nature that is encircling the esophageal circumference. Serpiginous extension of mass is seen.



**Fig. 5.** Microscopic findings of mass show bundles of eosinophilic spindle cells.

흉부사진에서 하부 흉추와 겹쳐 보이는 종격동내 종괴 소견을 나타내었다. 이 질환의 영상의학적 진단으로 식도조영술이 가장 많이 이용되는데, 바륨 조영제를 이용할 경우, 점막의 이상 소견 없이 매끄러운 식도 내경의 초승달모양 충만결손 소견을 볼 수 있다. 전산화 단층촬영에서 손상 없는 점막과 함께 식도 내강의 일부를 부드럽게 막는 균질성의 외인성 종괴 소견을 볼 수 있다. 또한 혈관 조영제 투여 때 조영증강이 적고 균질한 음영을 보여 식도의 신경섬유종, 혈관종, 섬유종 등과 감별이 필요할 수도 있다[8].

자기공명영상에서는 T2 가중영상에서 점막하 병변의 균질한 음영증강 소견을 보인다. 이 질환의 진단에 내시경 검사가 많이 이용되는데, 종양이 점막 하에 위치하므로 일반적인 내시경으로 정확한 진단이 어려운 경우가 있다. 특히 종양의 크기가 작거나, 식도 내강으로 돌출이 저명하지 않는 경우 진단이 어려울 수 있다. 최근 내시경초음파를 이용할 경우, 주위와 경계가 뚜렷하고 균질성의 저에코성 병변을 나타내어 다른 영상의학적 검사보다 더 정확한 진단을 얻을 수 있다. 또한 이를 통해 점막근층에서 발생한 식도평활근종과 고유근층에서 발생한 것을 명확히 구분할 수 있다[9].

최근에는 내시경초음파를 이용하여 생검을 시행하기도 한다. 정확한 진단을 위해서는 생검을 할

수 있으나, 술 전 생검으로 인해 이차감염, 출혈, 식도 점막천공 등의 술 후 합병증을 야기할 수 있어, 관례적인 생검은 권하진 않으며, 만약 생검을 한 경우 약 한달 이상의 기간을 두고 수술을 권하고 있다[10]. 조직학 및 면역조직화학적 검사는 확진을 위해 매우 중요한 검사이다. 조직학적으로 이 종양은 낮은 세포충실도를 가진 가지 다발 모양의 평활근 세포들로 구성되어 있으며, 세포는 풍부한 호산성 세포질과 긴 담배모양의 핵으로 구성되어 있다. 핵의 비정형성이 적고 분열활동은 거의 관찰되지 않는다.

전형적인 평활근종은 desmin과 SMA (smooth muscle actin)에 강양성을 보이며 CD34에 음성을 나타낸다[1,7]. 종양의 크기가 크거나 망상형의 경우 평활근종증(leiomyomatosis)과 구별이 필요하다. 식도의 평활근종증은 특징적으로 근육층의 광범위한 비대 소견을 보인다. 이는 하부식도에 잘 발생하며 위장까지 진행을 하는 경우가 많고, 식도 둘레를 감싸면서 커지는 양상을 보인다[11]. 이번 증례의 경우 식도 둘레를 대부분 감싸고 고유층의 광범위한 비대소견을 보이거나 종양이 단일성으로 나타나 평활근종증과는 구분이 되었다. 이 질환은 Alport 증후군과 동반되어 보고되기도 한다. 식도평활근종은 증상이 없거나 그 크기가 작은 경우 주기적인 관찰을 할 수 있다. 최근 내시경초음파 검사에서 점막근층에서

발생하여 식도 내강으로 돌출한 작은 종양의 경우, 내시경적 절제술을 많이 보고하고 있다[12]. 그러나 고유근층에서 발생한 종양의 경우 식도 파열의 위험성이 있어, 절제가 필요한 경우 수술적 절제를 요한다. 수술적 치료는 증상이 있거나 보존적 치료에 반응이 없는 경우, 종양의 크기가 점차 커지는 경우, 점막 궤양이 있는 경우, 혹은 악성질환이 완전히 배제되지 않을 때 필요하다. Glaz와 Grunebaum은 이 종양은 아주 천천히 자라고 악성으로의 이행이 적으며 수술에 의한 손상이 더 클 수 있어, 증상이 없거나 경미한 경우 수술보다는 1-2년 마다 내시경과 영상의학적 검사를 시행할 것을 권유하였다[13]. 반면 Kuwano 등은 식도평활근종의 악성화를 보고하였으며, 평활근종과 악성종양이 같이 발생한 증례를 보고한 연구도 있다[14].

가장 표준적인 수술법은 점막손상 없이 개흉 하 종양절제술이다. 그러나 종양이 너무 크거나 식도위접합부에 위치한 경우 식도절제술이 시행되기도 한다. Karaculle 등은 하부식도에 위치한 거대 평활근종을 흉부 및 복부 접근을 통해 식도절제술 및 식도위문합술 시행 후 보고하였다[11]. 최근 종양의 크기가 5 cm 미만인 경우 수술장에서 내시경의 도움 하에 흉강경을 이용한 종양절제술이 많이 시행되고 있다[15]. 종양이 원위부에 위치한 경우 복강경을 이용한 종양절제술도 보고되고 있는데, 특히 역류방지 수술을 같이 시행하여야 할 경우 복강경수술이 더욱 효율적인 것으로 알려져 있다[16].

식도 절제는 8 cm 이상의 거대 종양, 식도를 윤상으로 감싼 경우, 다발성인 경우, 혹은 술중 광범위 식도 손상이 있는 경우 시행할 수 있다[2]. 이번 증례의 경우 종양이 매우 크고 식도와 분문을 감싸고 있었으나 종양의 대부분이 흉강내 위치하여 개흉을 통해 수술을 진행하였으며 횡격막하부 위분문부까지 진행된 종양을 충분히 제거할 수 있었다. 또한 술 중 약 2 cm 정도의 점막 파열이 있었으나 식도 절제 없이 파열 점막의 단순봉합만으로 치료가 가능하였다.

결론적으로 이번 증례에서는 식도하부에 위치하며 위분문부까지 진행된 평활근종을 내시경과 영상의학적 검사를 통해 진단할 수 있었으며 이 종양은 망상형의 거대 종양이었으나 위 분문까지 진행한 경우에도

개흉만을 통해 거대 종양을 안전하게 제거할 수 있을 것으로 판단된다.

## 참 고 문 헌

1. Seremetis MG, Lyons WS, deGuzman VC, Peabody JW, Jr. Leiomyomata of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 1976;**38**:2166-77.
2. Lee LS, Singhal S, Brinster CJ, Marshall B, Kochman ML, Kaiser LR, *et al.* Current management of esophageal leiomyoma. *J Am Coll Surg* 2004;**198**:136-46.
3. Aurea P, Grazia M, Petrella F, Bazzocchi R. Giant leiomyoma of the esophagus. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002;**22**:1008-10.
4. Asteriou C, Konstantinou D, Lalountas M, Kleontas A, Setzis K, Zafiriou G, *et al.* Nine years experience in surgical approach of leiomyomatosis of esophagus. *World J Surg Oncol* 2009;**7**:102.
5. Jaroszewski DE, Lam-Himlin D, Gruden J, Lidner TK, Etxebarria AA, De Petris G. Plexiform leiomyoma of the esophagus: a complex radiographic, pathologic and endoscopic diagnosis. *Ann Diagn Pathol* 2011;**15**:342-6.
6. Cheuk W, Chan JK, Liu JY. Cotyledonoid leiomyoma: a benign uterine tumor with alarming gross appearance. *Arch Pathol Lab Med* 2002;**126**:210-3.
7. Priego P, Lobo E, Alonso N, Gil Olarte MA, Perez de Oteyza J, Fresneda V. Surgical treatment of esophageal leiomyoma: an analysis of our experience. *Rev Esp Enferm Dig* 2006;**98**:350-8.
8. Yang PS, Lee KS, Lee SJ, Kim TS, Choo IW, Shim YM, *et al.* Esophageal leiomyoma: radiologic findings in 12 patients. *Korean J Radiol* 2001;**2**:132-7.
9. Xu GQ, Zhang BL, Li YM, Chen LH, Ji F, Chen WX, *et al.* Diagnostic value of endoscopic ultrasonography for gastrointestinal leiomyoma. *World J Gastroenterol* 2003;**9**:2088-91.
10. Mutrie CJ, Donahue DM, Wain JC, Wright CD, Gaissert HA, Grillo HC, *et al.* Esophageal leiomyoma: a 40-year experience. *Ann Thorac Surg* 2005;**79**:1122-5.

11. Karagulle E, Akkaya D, Turk E, Gokturk HS, Yildirim E, Moray G. Giant leiomyoma of the esophagus: a case report and review of the literature. *Turk J Gastroenterol* 2008;**19**:180-3.
12. Nagashima R, Takeda H, Motoyama T, Tsukamoto O, Takahashi T. Coexistence of superficial esophageal carcinoma and leiomyoma: case report of an endoscopic resection. *Endoscopy* 1997;**29**:683-4.
13. Glanz I, Grunebaum M. The radiological approach to leiomyoma of the oesophagus with a long-term follow-up. *Clin Radiol* 1977;**28**:197-200.
14. Kuwano H, Sadanaga N, Watanabe M, Yasuda M, Nozoe T, Sugimachi K. Esophageal squamous cell carcinoma occurring in the surface epithelium over a benign tumor. *J Surg Oncol* 1995;**59**:268-72.
15. Jiang G, Zhao H, Yang F, Li J, Li Y, Liu Y, *et al.* Thoracoscopic enucleation of esophageal leiomyoma: a retrospective study on 40 cases. *Dis Esophagus* 2009;**22**:279-83.
16. Bardini R, Asolati M. Thoracoscopic resection of benign tumours of the esophagus. *Int Surg* 1997;**82**:5-6.