



# 식도 중복 낭종으로 오인된 식도 평활근종 1예

서원용<sup>1</sup>, 김광하<sup>1,2</sup>, 이호석<sup>2,3</sup>부산대학교 의과대학 내과학교실<sup>1</sup>, 부산대학교병원 의생명연구원<sup>2</sup>, 부산대학교 의과대학 흉부외과교실<sup>3</sup>

## An Esophageal Leiomyoma Mistaken as an Esophageal Duplication Cyst

Won Yong Seo<sup>1</sup>, Gwang Ha Kim<sup>1,2</sup>, Hoseok I<sup>2,3</sup>Department of Internal Medicine, Pusan National University School of Medicine<sup>1</sup>, Biomedical Research Institute Pusan National University Hospital<sup>2</sup>, Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Pusan National University School of Medicine<sup>3</sup>, Busan, Korea

Esophageal leiomyoma is a benign tumor that accounts for two-thirds of esophageal benign tumors. In general, patients with esophageal leiomyoma are asymptomatic; however, as the tumor grows in size, symptoms such as dysphagia, chest discomfort, obstruction, or bleeding can appear. A 65-year-old man visited our clinic to receive treatment for a subepithelial tumor in the lower esophagus, which was incidentally found during endoscopy for work-up of chest discomfort and indigestion. On endoscopic ultrasonography (EUS), the tumor was 2.6×1.9 cm in size, with a cystic lesion located in the submucosal and proper muscle layers and thick cystic wall. Therefore, it was highly likely to be a duplication cyst. As the patient had symptoms such as chest discomfort, surgical resection was performed. The tumor was finally diagnosed as a leiomyoma with cystic degeneration. Leiomyoma with cystic change that has similar EUS features to duplication cyst is rare. Thus, we report the case with a literature review. (**Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res 2021;21:152-155**)

**Key Words:** Esophagus; Duplication cyst; Endosonography; Leiomyoma

### 서 론

식도 평활근종은 식도 양성 종양의 2/3를 차지하는 종양으로, 56%는 식도 하부 1/3에 위치하며 약 97%에서 벽내성(intramural) 병변으로 나타난다.<sup>1</sup> 식도 평활근종은 흔히 건강검진 내시경검사 시 우연히 발견되는 경우가 많으며, EUS에서 점막하층(muscularis mucosa)이나 고유근층(muscularis propria)에서 기원하는, 경계가 명확한 균질성의 저에코 병변으로 관찰된다.<sup>2</sup> 평활근종은 양성 종양이므로, 대부분은 내시경검사로 추적 관찰한다. 하지만 추적검사 시 크기가 커지는 경우나 증상이 있는 경우 내시경 절제 또는 외과적 절제가 필요하며,<sup>3</sup> 드물게는 평활근종으로 의심되지 않았던 병변이 수술 후 진단되는 경우도 종종 있다.<sup>4</sup> 저자들은 하부 식도 상피하종양으로 내원한 환자에서 EUS검사 시 중복 낭종으로 의심되어 수술적 치료를 시행하였으나 최종적으로 평활근종으로 진단된 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

65세 남자가 1년 전부터 시작된 흉부 불편감과 소화불량으로 근처 병원에서 시행한 내시경검사서 하부 식도의 상피하종양이 발견되어 본원에 내원하였다. 기저 질환으로 당뇨가 있었으며 사회력 및 가족력에서 특이 소견은 없었다. 흉부 불편감을 호소하였으나 신체진찰에서 이상 소견은 관찰되지 않았다. 말초혈액검사서 백혈구 5,470/mm<sup>3</sup>, 혈색소 15.0 g/dL, 혈소판 193,000/mm<sup>3</sup>였고, 혈청 생화학검사서 AST/ALT 32/45 IU/L, BUN 14.3 mg/dL, 크레아티닌 0.9 mg/dL였다. 내시경검사 시 3 cm 크기의, 정상 식도 점막으로 덮인 상피하종양이 관찰되었으며(Fig. 1A), 조직 검사로 늘렸을 때 부드럽게 눌러지지는 않았다. EUS에서는 2.6×1.9 cm 크기의 종양으로 점막하층과 고유근층에서 기원하고 있었으며, 무에코성의 낭종성 병변이 관찰되었다(Fig. 1B). 낭종성 병변의 벽이 두껍고 낭종성 병소 내에 지저분한 고에코 부유물도 관찰되어 중복 낭종 가능성이 높을 것으로 판단되었다. 흉부 CT에서는 하부 식도벽이 비대칭적으로 두꺼워져 있었으며(Fig. 1C), 기관용골하(subcarinal) 및 식도 주위(paraesophageal) 림프절의 경한 종대가 관찰되었다. EUS에서 낭종성 병변이었기 때문에 감염의 위험성을 고려하여 EUS 유도하 세침흡인검사(fine-needle aspiration)를 시행하지

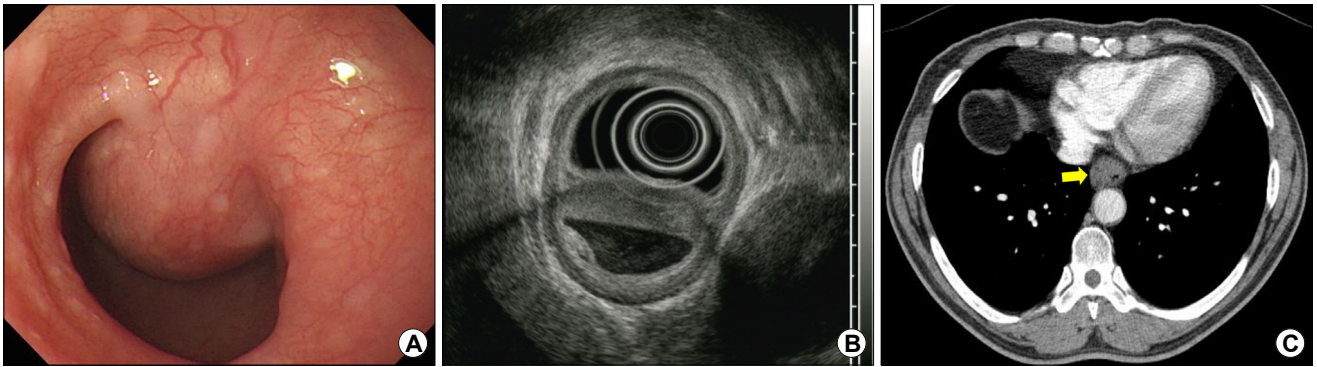
Received: July 10, 2020 Revised: July 14, 2020 Accepted: July 15, 2020

Corresponding author: Gwang Ha Kim

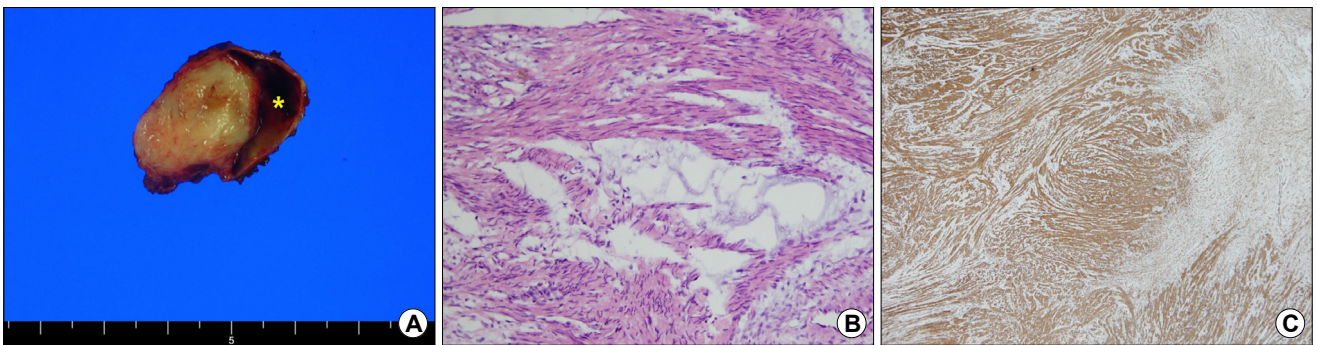
Department of Internal Medicine, Pusan National University School of Medicine and Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 49241, Korea

Tel: +82-51-240-7869, Fax: +82-51-244-8180, E-mail: doc0224@pusan.ac.kr

Copyright © 2020 Korean College of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research© The Korean Journal of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research is an Open-Access Journal. All articles are 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.



**Fig. 1.** (A) An approximately 3-cm-sized subepithelial tumor in the lower esophagus. (B) EUS image showing the tumor as a cystic lesion with thick wall in the submucosal and muscularis propria layers. (C) Chest CT image showing asymmetrical wall thickening of the distal esophagus (arrow).



**Fig. 2.** (A) Gross findings of the resected specimen. A 3.2-cm-sized whitish-to-yellow well-circumscribed tumor shows cystic degeneration (asterisk). (B) The tumor consists of intersecting fascicles of smooth muscle cells with cigar-shaped nuclei and eosinophilic cytoplasm (hematoxylin-eosin staining, original magnification  $\times 400$ ). (C) Smooth muscle cells are positively stained with smooth muscle actin (original magnification  $\times 100$ ).

않고 바로 수술적 치료를 시행하기로 결정하였다. 비디오 보조 흉강경 하에 식도 종양 절제술을 시행하였고 수술에 따른 합병증은 없었다. 절제된 종양은 3.2×2.2 cm 크기의 낭성 변성을 가진 고형성 종양이었으며(Fig. 2A), hematoxylin-eosin 염색에서 호산구형 세포질과 시가(cigar) 모양의 핵을 가진 평활근 세포의 다발들이 교차하는 양상을 보였다(Fig. 2B). 면역조직화학적 검사에서 Ki-67 증식 지수(proliferation index)는 1% 미만이었으며, smooth muscle antigen (SMA)과 desmin에 양성(Fig. 2C), S-100, CD34, C-kit에는 음성 소견을 보여 최종적으로 식도 평활근종으로 진단되었다. 수술 6개월 뒤 추적 흉부 CT에서 재발 소견은 없었으며, 현재까지 경과 관찰 중이다.

## 고 찰

식도 평활근종은 식도의 가장 흔한 양성 종양으로,<sup>1</sup> 일반적으로 서서히 자라며 무증상인 경우가 많고 크기가 커짐에 따라 삼킴곤란 증상이 나타나게 된다. 이외에도 흉부 불편감 및 통

증, 식도 폐쇄 및 역류, 드물게는 위장관 출혈 증상을 동반할 수 있다.<sup>5</sup> 종양의 크기가 평균적으로 5.3 cm 정도인 경우 상기 증상들이 발생할 수 있다고 보고되고 있다.<sup>5</sup> 본 증례는 3.2 cm 크기의 평활근종으로, 흉부 불편감 증상은 보였으나 삼킴곤란 및 위장관 출혈 증상 등은 보이지 않았다.

내시경검사는 평활근종을 발견하고 진단하는 데 유용한 검사 방법으로, 완만한 상승을 보이는 벽내성 병변 및 무경성 소견, 검사 압박 시 딱딱한 경우 평활근종을 의심해 볼 수 있다.<sup>6</sup> 내시경검사 시 조직검사는 대개 시행하지 않는데, 그 이유는 조직검사를 시행하더라도 대부분 종양을 덮고 있는 점막층 조직만 나와 진단이 되지 않기 때문이다. 따라서 EUS가 위장관 상피하 종양의 진단에 가장 유용한 진단 방법으로 알려져 있다. EUS에서 평활근종은 점막근층 또는 고유근층에서 기원하며, 경계가 뚜렷한 균질성의 저에코 병변으로 보인다.<sup>2</sup> 내부에 낭종성 변화를 동반한 경우는 드물다. 중복 낭종 역시 경계가 뚜렷한 저에코성 병변으로 주로 보이나, 내부에 액체 성분이 있어 낭성 변화도 같이 관찰된다.<sup>7</sup> 내부의 낭성 변화는 무에코 혹은 저에코

병변으로 관찰되며, 때때로 밀집한 고에코 병소들도 관찰되어 평활근종과 같은 연조직 종괴나 악성 병변과 혼동될 수 있다.<sup>8,9</sup> 본 증례에서는 EUS에서 병변이 점막하층과 고유근층에 위치한 낭종성 병변으로, 낭종성 병소 내에 지지분한 고에코 부유물도 관찰되어 중복 낭종이 의심되었으며, 이러한 소견은 평활근종에서는 매우 드문 소견이다. 하지만 본 증례를 후향적으로 분석해보면 낭종성 병변이었지만, 낭종벽이 많이 두꺼웠다는 점과 조직 검사로 압박 시 딱딱하였다는 점이 전형적인 중복 낭종 소견과는 다른 소견이었다. 그러므로 본 증례와 같이 비전형적인 낭종성 병변이 관찰되는 경우, 드물지만 낭성 변화를 동반한 평활근종이나 위장관간질종양과 같은 중간엽종양(mesenchymal tumor)을 감별진단에 포함시켜야 하겠다.

상피하중양에서 CT는 일반적으로 종양의 해부학적 관계를 명확하게 하고, 벽내 병변을 외인성 병변과 구별하는 데 사용될 수 있다. 조영증강 CT에서 식도 평활근종은 균일한 저음영 또는 주위와 비슷한 음영을 보인다.<sup>6</sup> 하지만 평활근종은 본 증례와 같이 CT로 정확한 진단을 내리기 어려우며 상기에 언급된 바와 같이 EUS를 통해 보다 정확한 진단을 내릴 수 있다.

조직학적으로 평활근종은 호산구성 세포질과 함께 시가 모양의 핵을 가진 평활근 세포의 다발들이 교차하는 양상을 보이며, SMA와 desmin 염색에 양성이다.<sup>10</sup> 부분적으로 비전형성 양상을 보일 수 있으나 유사분열을 보이는 경우는 거의 없다.<sup>10</sup> 그리고 드물게 본 증례와 같이 종양 내에 출혈 소견이나 점액변성이 일어난 경우는 낭성 변화가 관찰될 수 있다.

식도 평활근종으로 인한 증상이 심한 경우, 종양의 크기가 지속적으로 커지는 경우, 표면에 궤양이 동반된 경우, 조직병리학적으로 악성 변화가 의심될 때에는 수술적 치료가 필요하다.<sup>5</sup> 대부분은 종양 부분의 절제만으로 충분하지만, 만약 크기가 8 cm 이상인 경우에는 식도 절제술이 필요할 수 있다.<sup>11</sup> 또한 종양이 점막에 밀착되어 있거나 절개 중 광범위한 점막 손상이 있는 경우에도 식도 절제술이 권장된다.<sup>11</sup> 종양의 크기가 4 cm보다 작은 경우에는 최근 내시경 절제술, 특히 점막하 터널 내시경 절제술(submucosal tunnel endoscopic resection)로 절제가 가능하다.<sup>12</sup> 반면, 무증상 및 증상이 경한 환자들은 절제술을 시행받지 말고 1~2년 간격으로 내시경검사를 이용해 정기적으로 추적 관찰할 것을 권고한다.<sup>11</sup>

식도 중복 낭종은 무증상인 경우 수술적 치료가 필요 없이 관찰할 수 있지만, 삼킴곤란이나 흉부 불편감과 같은 증상이 있거나 낭종 내에 감염이나 출혈이 발생한 경우는 절제가 필요하다.<sup>13</sup> 이전에는 개흉술을 통한 완전 절제가 표준 치료법이었으나, 최근에는 비디오 보조 흉강경 하에 절제하는 경우가 많다.<sup>14</sup> 본 증례에서는 삼킴곤란은 없었지만 흉부 불편감이 있었고 EUS에서 전형적인 중복 낭종과는 달리 낭종성 병변의 벽이 두



껍고 낭종성 병소 내에 지지분한 고에코 부유물이 관찰되어 비디오 보조 흉강경 하에 절제하게 되었다.

비록 EUS가 위장관 상피하중양의 진단에 가장 유용한 검사법이지만, 전형적인 소견을 보이지 않을 경우 잘못된 진단을 내리는 경우가 종종 있을 수 있다.<sup>15,16</sup> 저지들도 EUS에서 평활근종의 전형적인 소견 대신 낭종성 병변으로 관찰되어 중복 낭종을 의심하였고, 동반된 흉부 불편감이 있어 세침흡인검사 없이 바로 수술적 치료를 시행하였으나 최종적으로 평활근종으로 진단된 드문 형태의 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## CONFLICT OF INTEREST

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

## ORCID

Won Yong Seo  <https://orcid.org/0000-0002-0924-762X>  
 Gwang Ha Kim  <https://orcid.org/0000-0001-9721-5734>  
 Hoseok I  <https://orcid.org/0000-0001-8930-8148>

## REFERENCES

- Seremetis MG, Lyons WS, deGuzman VC, Peabody JW Jr. Leiomyomata of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 1976;38:2166-2177.
- Xu GQ, Zhang BL, Li YM, et al. Diagnostic value of endoscopic ultrasonography for gastrointestinal leiomyoma. *World J Gastroenterol* 2003;9:2088-2091.
- Priego P, Lobo E, Alonso N, Gil Olarte MA, Pérez de Oteya J, Fresneda V. Surgical treatment of esophageal leiomyoma: an analysis of our experience. *Rev Esp Enferm Dig* 2006;98:350-358.
- Ivanov K, Ignatov V, Shterev S, et al. Esophageal leiomyoma as unexpected finding during laparoscopic hiatal hernia repair. *Adv Res Gastroentero Hepatol* 2017;7:555718.
- Mutrie CJ, Donahue DM, Wain JC, et al. Esophageal leiomyoma: a 40-year experience. *Ann Thorac Surg* 2005;79:1122-1125.
- Yang PS, Lee KS, Lee SJ, et al. Esophageal leiomyoma: radiologic findings in 12 patients. *Korean J Radiol* 2001;2:132-137.
- Bhatia V, Tajika M, Rastogi A. Upper gastrointestinal submucosal lesions--clinical and endosonographic evaluation and management. *Trop Gastroenterol* 2010;31:5-29.
- Fazel A, Moezardalan K, Varadarajulu S, Draganov P, Eloubeidi MA. The utility and the safety of EUS-guided FNA in the evaluation of duplication cysts. *Gastrointest Endosc* 2005;62:575-580.
- Liu R, Adler DG. Duplication cysts: diagnosis, management,

- and the role of endoscopic ultrasound. *Endosc Ultrasound* 2014; 3:152-160.
10. Lee SJ, Hwang CS, Kim A, Kim K, Choi KU. Gastrointestinal tract spindle cell tumors with interstitial cells of Cajal: prevalence excluding gastrointestinal stromal tumors. *Oncol Lett* 2016;12: 1287-1292.
  11. Mainieri-Breedy G, Mainieri-Hidalgo JA. Esophageal leiomyoma: experience with nine surgical patients. *Acta Med Costarric* 2012;54:165-169.
  12. Wang XY, Xu MD, Yao LQ, et al. Submucosal tunneling endoscopic resection for submucosal tumors of the esophagogastric junction originating from the muscularis propria layer: a feasibility study (with videos). *Surg Endosc* 2014;28:1971-1977.
  13. Park TI, Kim PJ, Kim GH, et al. An esophageal duplication cyst that presented with sudden-onset dysphagia. *Korean J Med* 2008;75:444-448.
  14. Marshall MB, DeMarchi L, Emerson DA, Holzner ML. Video-assisted thoracoscopic surgery for complex mediastinal mass resections. *Ann Cardiothorac Surg* 2015;4:509-518.
  15. Park JW, Gong EJ, Seo M, et al. An esophageal squamous cell carcinoma with lymph node metastasis presenting as a small subepithelial tumor. *Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res* 2019;19:272-276.
  16. Ahn SW, Cheung DY, Cho JY, et al. Superficial esophageal cancer with deep submucosal invasion misdiagnosed as a subepithelial tumor. *Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res* 2019;19:193-197.