내시경적 점막하박리술로 진단된 위 해면상혈관종 1예

김문철, 한상훈, 장미영, 유설봉¹, 성백진, 오왕국, 김지웅, 조진웅

예수병원 소화기내과, 병리과¹

A Case of Gastric Cavernous Hemangioma Diagnosed by Endoscopic Submucosal Dissection

Mun-Chul Kim, Shang Hoon Han, Mi Young Jang, Seol Bong Yoo¹, Back Jin Sung, Wang Guk Oh, Ji Woong Kim, Jin Woong Cho

Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Department of Pathology¹, Presbyterian Medical Center, Jeonju, Korea

Gastric cavernous hemangioma is a relatively rare benign gastric disease. Gastric hemangiomas are most commonly encountered in adulthood, although they can occur in any age group. While surgical resection is the curative treatment, endoscopic resection can be performed for treatment of selected cases. The patient was a 53-year-old male who was referred for evaluation of incidentally detected gastric subepithelial tumor with dense vascularity and oozing on the apex of the lesion. An EUS revealed a homogeneously hypoechoic mass confined to the submucosal layer that showed no continuity with adjacent vessels, and there was no regional lymphadenopathy. Endoscopic submucosal dissection was successfully performed with en bloc resection. The final diagnosis was benign cavernous hemangioma of the stomach. (*Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res* 2013;13:198-201)

Key Words: Hemangioma, Cavernous; Stomach; Endoscopic submucosal dissection

서론

복강 내 혈관종은 간에서 가장 호발하며, 간 외에서 발견되는 경우는 드물다.¹ 또한, 위장관에 발생하는 신생물 중 위 혈관종은 0.05%로 드문 질환이다.² 최근 내시경의 발달 및 대중화로 위 양성 종양에 대한 발견 빈도가 증가함에 따라 이에 대한 관심도 높아지고 있다. 위 혈관종은 어느 연령에서도 발생할 수 있지만 성인기에 호발한다.³ 대부분 무증상이지만 증상이 발생하는 경우 복통, 소화불량 또는 상부 위장관 출혈이 발생할 수 있다.⁴ 위 혈관종의 치료는 수술적 절제이나,⁵ 내시경 절제에 의한 성공적인 치료도 보고되고 있다(Table 1).⁶⁻⁸ 그러나 국내에서 내시경을 이용해 위혈관종을 치료한 증례는 보고된 바가 없다. 저자들은 위 체부의 상피하 종양을 진단 및 치료 목적의 내시경적 점막하박리술을 시행하고 조직검사서 해면상혈관종으로 진단된 예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

53세 남자가 내원 9개월 전 건강 검진 목적으로 시행한 위내시경에서 위 체부에 상피하 종양이 발견되었다. 내원 전 시행한 추적 위내시경에서 상피하 종양이 약 11 mm에서 15 mm로 크기가 증가하여 내원하였으며(Fig. 1), 특별한 증상은 호소하지 않았다. 환자는 특이 과거력이 없었으며, 흡연 및 음주력도 없었다. 가족력에서 종양이나 유전성 혈관 질환 등의 특이 사항은 없었다. 내원 당시 신체 활력징후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박수는 78회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.7°C였으며, 비교적 건강하였다. 복부 진찰에서 압통, 반발통을 호소하지 않았고 촉진되는 종괴는 없었으며, 피부 및 점막에 특별한 병변은 관찰되지 않았다. 입원 당시 시행한 말초혈액검사에서 백혈구 7,700/mm³, 혈색소 16.3 g/dL, hematocrit 46.2%, 혈소판 202,000/mm³였고, 혈청생화학검사에서 총단백 6.7 g/dL, albumin 4.2 g/dL, BUN

Table 1. Characteristics of the Cases That Gastric Cavernous Hemangioma Treated by Endoscopic Resection

Author	Year	Age (yr)	Sex	Symptom	Size (mm)	Complication
Wei et al. ⁶	1998	66	Male	None	20	None
Arafa et al. ⁷	2002	71	Male	None	18×9.5	None
Leonetti et al. ⁸	2007	84	Female	Abdominal pain	30	None

Received: May 20, 2013 Accepted: July 12, 2013

Corresponding author: Jin Woong Cho

Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Presbyterian Medical Center, 365, Seowon-ro, Wansan-gu, Jeonju 560-750, Korea

Tel: +82-63-230-1321, Fax: +82-63-230-1309, E-mail: jeja-1004@daum.net

Copyright © 2013 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/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Fig. 1. Endoscopic findings. (A) It showed a round subepithelial tumor of about 11 mm size at the greater curvature of the body. (B) The size of this subepithelial tumor increased to about 15 mm for nine months.

Fig. 2. EUS of the stomach. It showed a homogenous hypoechoic lesion originating from the submucosal layer at the greater curvature of the body.

22 mg/dL, creatinine 0.8 mg/dL로 이상 소견은 없었다. 뇨검사에서 단백뇨, 혈뇨 등은 없었고, 흉부와 복부 단순촬영에서도 특이소견이 관찰되지 않았다.

위내시경검사를 시행하였고 위 체부 대만에 상피하 종양이 관찰되었으며, 침부에 혈관확장과 출혈이 있었다. 내시경 검사로 병변을 눌렀을 때 쉽게 눌러지는 부드러운 성상을 보이고 고정된 양상을 보였다. 위내시경 초음파(UM-12R; Olympus, Tokyo, Japan)검사에서 점막하층에 경계가 명확한 얇은 피막을 가진 9.7×13.1 mm 크기의 균질한 저에코성 병변으로 관찰되었고 주변의 림프절 비대는 없었다(Fig. 2). 복부 전산화 단층촬영에서는 조영증강이 되지 않는 상피하 종양의 소견을 보였다(Fig. 3). 크기의 증가를 보이면서 침부에 소량의 출혈 소견이 있어 내시경적 점막하박리술을 시행하였다. 먼저 종양의 기저부 주

위의 점막하층에 epinephrine과 indigo carmine을 혼합한 생리식염수를 국소주입하여 충분한 용기를 형성하였고, 병변 주변에 2 mm 정도의 정상 조직을 포함하여 needle knife (KD-1L-1; Olympus)를 이용하여 절개를 시행한 후에 IT-II knife (KD-611L; Olympus)로 점막하층을 따라 박리하였다(Fig. 4). 박리 중 병변의 침부에서 소량의 출혈이 있었으나 특별한 치료 없이 호전되었다. 병리 소견에서 방추세포 및 불규칙한 모양과 다양한 크기를 가지는 혈관들이 정상 점막으로 둘러싸여 있었고, 이 혈관들은 적혈구 및 장액으로 채워져 있어 해면상 혈관종으로 진단되었다(Fig. 5). 환자는 내시경적 점막하박리술을 받은 후 출혈이나 천공 등의 합병증 없이 시술 후 6일째 날에 퇴원하였다. 2개월 후 실시한 추적 내시경에서 혈관종의 재발은 없었으며, 이전 시술 부위의 궤양 반흔만 관찰되었다.

고 찰

위 혈관종은 1893년에 Lammers에 의해 처음 보고되었고, 아직까지 매우 드문 질환으로 어느 연령에서나 발생할 수 있으나 성인기에서 더 많이 발견되었다.³ 위장관에 발생하는 혈관종은 모세혈관상, 해면상, 그리고 두 가지가 복합된 경우로 나눌 수 있고, 해면상 혈관종이 가장 흔하다.² 위 혈관종은 증상을 나타내는 경우에는 상부 위장관 출혈, 복통 또는 소화불량 등이 대부분을 차지하고,⁴ 위 폐쇄의 증상으로 나타난 경우도 보고된 바 있다.⁹ 그러나 본 증례처럼 증상 없이 우연히 발견된 경우도 있다.⁷

진단은 위 내시경, 내시경초음파 및 전산화 단층촬영검사를 통해 할 수 있으며, 다른 상피하 종양과의 감별이 필요하다. 내시경검사에서는 대부분 정상 점막으로 덮인 상피하 종양으로 관찰되나, 크기가 큰 경우에는 붉은 보라색 점막으로 덮인 용종 형태로 관찰될 수도 있다.³ 때때로 이 질환의 회소성과 점막 하

Fig. 3. Abdomen CT scans. (A) Non-enhanced CT scan showed a small round mass (arrow) with soft-tissue attenuation at the greater curvature of the body. (B) Enhanced CT scan revealed an isodense and smooth contoured mass lesion (arrow).

Fig. 4. Serial endoscopic images of endoscopic submucosal dissection. (A) It showed a round subepithelial tumor with vascular ectasia at the greater curvature of the body. (B) After injecting saline with indigo carmine into the submucosa beneath the lesion, the lesion became elevated. (C) A complete circumference incision was made using a needle knife. (D) The lesion was completely removed. The endoscopic submucosal dissection specimen was measured 15×15 mm.

에 위치하는 특성 때문에 완전 절제하기 전 정확한 진단이 어려운 경우가 있다.¹ 전산화 단층촬영이 혈관종의 진단에 사용될 수 있으며, 조영 전에는 이전 출혈이 있었던 경우에 고밀도의 병변으로 보일 수 있고,¹⁰ 조영 후에는 경계가 뚜렷한 연부조직 음영 안으로 조영제가 차오르는 양상으로 나타날 수 있고 주위의 조직 및 장기로의 침범 여부를 관찰할 수 있다.^{11,12} 그러나 본 증례와 같이 전산화 단층촬영에서 특징적인 소견을 보이지 않는 경우도 많아 이것만으로 혈관종을 확진할 수는 없다. 혈관

종은 내시경 초음파 검사에서 대부분 피막이 분명한 저음영의 종괴로 소엽성이나 매끈한 경계를 가진다.⁷ 최근 내시경 초음파 검사는 위장관 혈관종의 위치 및 깊이 정도를 알기 위해 많이 쓰이고 있다. 특히 내시경적 절제를 시행하기 전에 고유근층 이상의 침범 여부와 도플러 초음파를 통한 주위 혈관과의 연계성을 확인함으로써, 시술로 인한 출혈 및 천공을 예방할 수 있다.¹³ 위 혈관종이 대부분 점막하에 위치하는 특성과 생검 후 출혈 가능성 때문에 조직학적 진단을 위한 생검의 역할은 제한

Fig. 5. Histopathologic examination of the resected specimen. Numerous thick-walled vessels lined by endothelial cells and containing red blood cells were noted, and these were characteristic of cavernous hemangioma (H&E, $\times 100$).

적이다.¹⁴ 완전 절제된 조직의 병리소견에서 단층의 내피세포로 구성된 해면체 모양 및 불규칙한 혈관조직으로 적혈구가 채워져 있을 경우 해면상 혈관종으로 확진할 수 있다.¹⁵

치료는 증상이 없는 경우에는 경과 관찰이 원칙이다. 그러나 증상이 있거나 출혈 등의 합병증이 발생하는 경우에는 절제가 필요하다. 위부분절제술과 같은 수술적 절제가 표준 치료로 받아들여져 왔고,⁵ 그 밖에 단일성 병변의 경우에서 소작술과 경화성 물질의 주입에 의한 치료 등이 보고되었다.¹⁶ 그러나, 최근 점막하박리술의 발달로 2 cm 이하인 위 상피하 종양의 내시경 절제가 가능해져,¹⁷ 위 혈관종의 내시경적 절제가 보고되고 있다.⁶⁻⁸ 본 증례는 비록 증상은 없었지만, 진단이 불명확하고 종양의 크기가 증가하면서 소량의 출혈 소견을 보여 치료를 결정하였다. 2 cm 이하의 단일성 위 혈관종이고, 내시경 초음파 검사를 사용하여 점막하층에 국한되어 있어서 내시경적 점막하박리술로 안전하고 효과적으로 치료할 수 있었다. 내시경적 점막하박리술은 내시경적 점막절제술 또는 올가미제거술과 비교하여 병변의 완전 절제가 가능하고 병변의 크기가 커도 안전하고 효과적으로 절제할 수 있는 장점이 있다.

최근 국내에 내시경검사가 보편화되어 위 혈관종에 대한 보고도 늘어날 것으로 생각된다. 저자들은 본 증례와 같이 합병증이 있거나 예상되는 단일성 위 혈관종이 점막하층에 국한되고 주변 큰 혈관과의 연계성이 없는 경우 내시경적 점막하박리술이 수술적 절제술보다 합병증이 적고 침습적이지 않아 우선 고려해볼 수 있다고 생각한다. 향후 위 혈관종의 치료에 있어 내시경적 절제 적응증과 방법에 대한 더 많은 연구가 필요할 것으로 생각한다.

REFERENCES

- Bongiovi JJ Jr, Duffy JL. Gastric hemangioma associated with upper gastrointestinal bleeding. *Arch Surg* 1967;95:93-98.
- Wan YL, Eng HL, Lee TY, Tsai CC, Chen SM, Chou FF. Computed tomography of an exophytic gastric hemangioma with torsion and intratumoral hemorrhage. *Clin Imaging* 1993;17:210-212.
- Case Records of the Massachusetts General Hospital. Weekly clinicopathological exercises. Case 35-1999. A five-month-old girl with coffee-grounds vomitus. *N Engl J Med* 1999;341:1597-1603.
- Basbug M, Yavuz R, Dablan M, Baysal B, Gencoglu M, Yagmur Y. Isolated cavernous hemangioma: a rare benign lesion of the stomach. *J Clin Med Res* 2012;4:354-357.
- Nagaya M, Kato J, Niimi N, Tanaka S, Akiyoshi K, Tanaka T. Isolated cavernous hemangioma of the stomach in a neonate. *J Pediatr Surg* 1998;33:653-654.
- Wei SC, Wong JM, Shieh MJ, Sun CT, Wang CY, Wang TH. Endoscopic resection of gastrointestinal submucosal tumors. *Hepatogastroenterology* 1998;45:114-118.
- Arafa UA, Fujiwara Y, Shiba M, Higuchi K, Wakasa K, Arakawa T. Endoscopic resection of a cavernous haemangioma of the stomach. *Dig Liver Dis* 2002;34:808-811.
- Leonetti G, Paoletti M, Marcheggiano A, Forte A, Covotta A. Endoscopic resection of a gastric haemangioma: case report. *G Chir* 2007;28:327-329.
- Bank ER, Hernandez RJ, Byrne WJ. Gastrointestinal hemangiomatosis in children: demonstration with CT. *Radiology* 1987;165:657-658.
- Stillman AE, Hansen RC, Hallinan V, Strobel C. Diffuse neonatal hemangiomatosis with severe gastrointestinal involvement. Favorable response to steroid therapy. *Clin Pediatr (Phila)* 1983;22:589-591.
- Levy AD, Abbott RM, Rohrmann CA Jr, Frazier AA, Kende A. Gastrointestinal hemangiomas: imaging findings with pathologic correlation in pediatric and adult patients. *AJR Am J Roentgenol* 2001;177:1073-1081.
- Schlecht I, Hierholzer J, Mäurer J, Mau H, Stobbe H, Felix R. Gastric haemangioma: a rare cause of gastrointestinal bleeding. *Pediatr Radiol* 1999;29:63.
- Murata Y, Yoshida M, Akimoto S, Ide H, Suzuki S, Hanyu F. Evaluation of endoscopic ultrasonography for the diagnosis of submucosal tumors of the esophagus. *Surg Endosc* 1988;2:51-58.
- Medina V, Alarcó A, Martín A, et al. Gastric cavernous hemangioma as a cause of upper digestive hemorrhage. *Rev Esp Enferm Dig* 1995;87:323-326.
- Yoon HS, Ryu BY, Lee YJ, et al. Gastric cavernous hemangioma: a case report. *J Korean Surg Soc* 1993;45:586-591.
- Taylor TV, Torrance HB. Haemangiomas of the gastro-intestinal tract. *Br J Surg* 1974;61:236-238.
- Kawamoto K, Yamada Y, Furukawa N, et al. Endoscopic submucosal tumorectomy for gastrointestinal submucosal tumors restricted to the submucosa: a new form of endoscopic minimal surgery. *Gastrointest Endosc* 1997;46:311-317.