

종격동 낭포성 임파관종 1예

부산대학교 의과대학 내과학교실

여동승 · 이동일 · 이광욱 · 강대환 · 박순규 · 신영기

= Abstract =

A Case of Mediastinal Cystic Lymphangioma

Dong-Seung Yeo, M.D., Dong-II Lee, M.D., Kwang-Uk Lee, M.D.

Dae-Hwan Kang, M.D., Soon-Kew Park, M.D. and Young-Kee Shin, M.D.

Department of Internal Medicine, College of Medicine, Pusan National University, Pusan, Korea

Lymphangiomas are rare benign slow-growing tumors composed of lymphatic channels. They are generally classified according to the size of their lymph channels as simple, cavernous, and cystic lymphangioma or cystic hygroma. The simple and cavernous types usually occur in the head, neck or axillae. About 75 percent of cystic lymphangioma occur in the neck and 20 percent in the axillae, the remaining 5 percent occur in the mediastinum, omentum, pelvis, groin, spleen, bone, and skin, etc. Purely mediastinal cystic lymphangiomas are very uncommon.

We report a case of purely mediastinal cystic lymphangioma confirmed pathologically and treated by operation, along with a review of the literature.

Key Words: Cystic lymphangioma, Mediastinum

서 론

임파관종은 임파관으로 구성된 서서히 성장하는 드문 양성종양으로서 일반적으로 임파통로의 크기에 따라 단순성(simple), 해면상(cavernous), 그리고 낭포성 임파관종(cystic lymphangioma) 또는 낭포성 수활액낭종(cystic hygroma)으로 분류된다¹⁾. 단순성과 해면상 임파관종은 주로 두경부, 액와부에서 발생하며, 낭포성 임파관종의 75%에서는 경부에 발생하고 20%에서는 액와부에서 발생하며²⁾, 나머지 5%에서는 종격동, 대망, 골반, 서혜부, 비장, 골, 피부등에서 발견된 것으로 보고되어 있으나 순수하게 종격동에서 발생한 낭포성 임파관종은 매우 드문 것으로 알려져 있다³⁾. 국내에서는 박⁴⁾의 종격동 종양 및 낭포에 관한 논문에서 1예에서 종격동 낭포성 임파관종에 관한 보고가 있었으나 상세한 임상적 특징, 발생부위등에 관한 기술은 없었다.

저자들은 개흉술로 확진 및 치료되었던 종격동에서 발생한 낭포성 임파관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자 : 김○자, 52세, 여자.

주소 : 종격동 종양에 대한 정밀검사위해 내원

현병력 : 평소 건강하던 환자는 직장에서 시행한 정기 신체검사시에 촬영한 흉부 X-선 소견상 종격동 종양이 의심되어 이의 정밀검사를 위하여 본원으로 전원되었으며, 기침, 발열, 흉통, 객담과 같은 증상은 없었다.

과거력 및 가족력 : 특이 사항 없음.

이학적 소견 : 내원 당시 환자는 혈압 110/70 mmHg, 체온 36.4°C, 맥박수 76회/분, 호흡수 20회/분, 체중 54 kg으로 전신상태는 양호하였으며, 경부에 종괴는 촉지되지 않았고, 흉부청진상 정상소견이었으며, 복부소

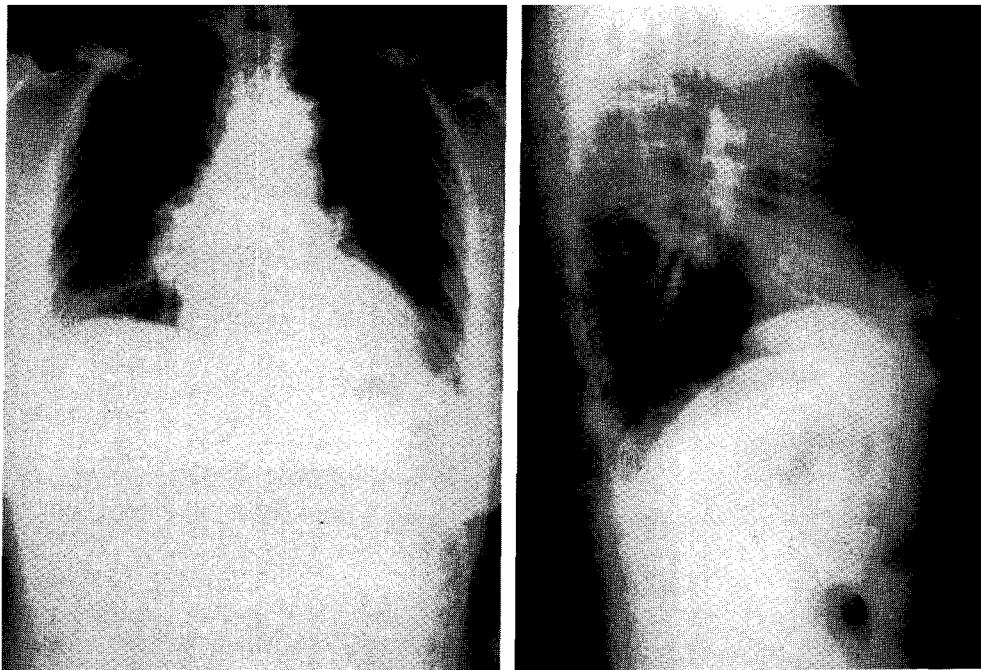


Fig. 1. Chest P-A and Right Lateral View. P-A view shows well marginated convex bulging at the right cardiac border. On the lateral projection, well circumscribed round homogenous mass is noted in the anterior mediastinum.

견상 간 및 비장은 촉지되지 않았고 임파절 종대는 없었다.

검사 소견 : 일반혈액검사, 소변검사, 신 및 간기능검사와 객담검사는 정상이었다. 폐기능검사상 경도의 제한성 환기장애의 소견을 보였으나 동맥혈가스분석 소견은 정상이었다. 흉부 X-선 소견상 전종격부에 경계가 명확한 둥근 종괴 음영이 보였고 석회침착은 보이지 않았다(Fig. 1). 전산화단층촬영상 흉선과 접하는 경계가 명확하고 균질한 저밀도의 종괴가 전종격동에서 관찰되었고 이로인해 상행대동맥이 내측으로, 상대정맥이 후방으로 전위되어 있었으나 흉벽침윤소견은 없었다(Fig. 2). 전산화단층촬영 유도하에 시행된 경피적 침흡인으로 약 100 ml의 장점액성 액체를 채취하였으며, 이의 분석 결과 세포수는 308/ml 이었고 이중 임파구가 99%를 차지하였다. 또한, pH는 8, 총단백치는 5 g/dl, 포도당치는 92 mg/dl, lactic dehydrogenase(LDH)치는 342 IU 였다. 결핵균 도말검사상 음성이었으며, 세포학적 검사상 악성세포는 관찰되지 않았다. 이후 실시한 단순 흉부 X-선 소견상 종괴의 음영이 보이지 않아 환자

는 퇴원하여 외래에서 경과관찰중 2주후 시행한 단순 흉부 X-선상 이전의 종괴음영이 다시 나타나 본원 흉부외과에서 개흉술을 시행하였다.

수술 소견 : 5×5×6 cm 크기의 연한종괴가 흉선과 유착되어 있어 종괴를 제거하고 흉선의 부분절제술을 시행하였다.

조직학적 소견 : 육안적 소견상 표면은 평활하고 지방조직이 부착되어 있었으며 내강은 깨끗한 장점액성 액체로 차 있었다. 혈액경소견에서 낭종은 입방상피로 둘러싸여 있었고 섬유혈관성 조직에 의해 지지되어져 있었으며 임파구양 세포들의 침윤 및 확장된 임파통로들이 보였다(Fig. 3).

임상 경과 : 술후 환자는 양호한 상태로 퇴원하였으며 6개월이 경과한 후에도 낭종의 재발소견을 보이지 않고 있다.

고 안

임파관종은 내피로 둘러싸여 있고 섬유혈관성의 격벽

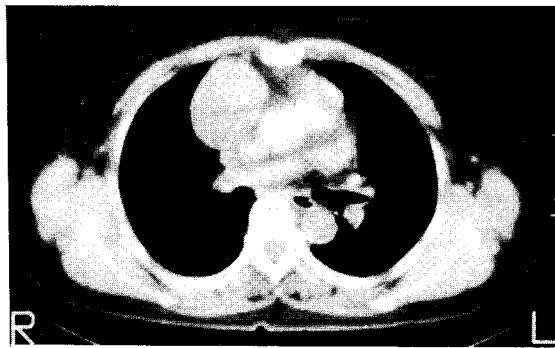


Fig. 2. CT scan shows well defined round homogenous mass with low attenuation in the anterior mediastinum. By this lesion, ascending aorta is displaced medially, and superior vena cava is posteriorly.

을 가지는 다수의 임파관들로 구성된 임파계의 양성 종양으로^{5,6,7)} 다음과 같은 3가지의 조직학적 형태로 분류된다. 첫째로, 단순성 임파관종은 모세혈관 크기의 얇은 벽을 가진 임파관 통로로 구성되어 있고 상당한 양의 결합조직기질을 가지고 있다. 둘째로, 해면상 임파관종은 활발히 자라는 확장된 임파관 통로 및 임파양 기질로 구성되어 있다. 셋째로, 낭포성 임파관종은 단방성 혹은 다방성의 낭종으로 나타나며 장액성 또는 우유빛깔의 액체를 함유하고 있고^{7,8)} 낭종은 한층의 편평한 상피로 둘러져있다⁹⁾.

종격동에 발생한 낭포성 임파관종은 흔히 경부에서 발생한 병변이 아령 모양으로 확장되어 종격동에 이르는 것으로 알려져 있으나¹⁰⁾ 순수하게 종격동 내에서만 발생

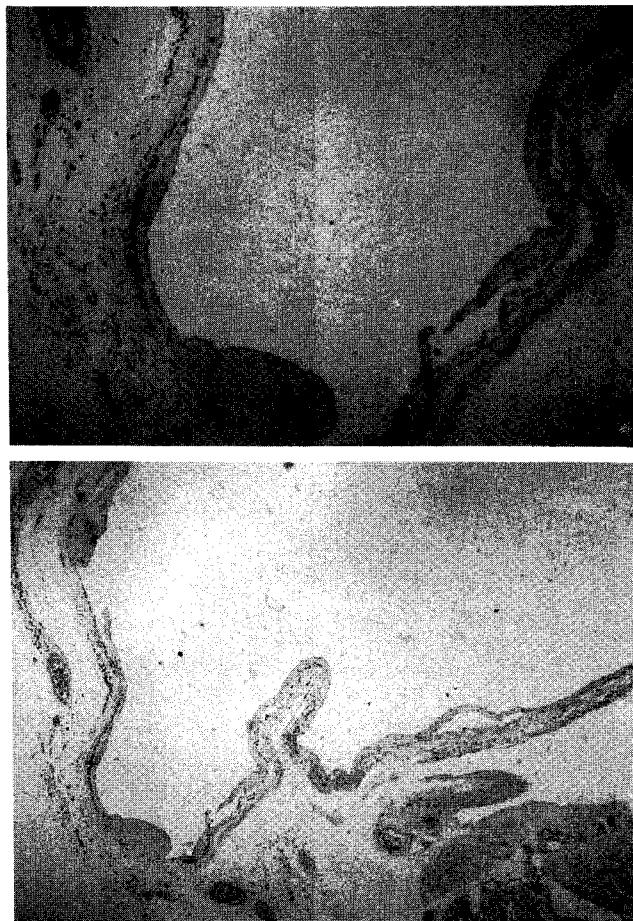


Fig. 3. The sections from cyst disclose cystic lymphangioma lined by cuboidal epithelium and supported by fibrovascular tissue. There are also lymphoid cell infiltrations and large lymphatic channels.

한 경우는 매우 드문것으로 보고되어져있고 대부분 상 혹은 전종격동에서 발생하고 후종격동에서 발생하는 예는 10% 미만이다¹¹⁾. 종격동내에서 발생한 낭포성 임파관종의 75%에서는 성인에서 발견되고 5%미만에서 1세 이하의 영아기에 발견된다¹²⁾. 종격동 낭포성 임파관종은 본 증례에서와 같이 흔히 무증상인 경우가 많은데 이는 구조물이 연하고 심부에 위치하는 데에서 기인하는 것으로 사료된다¹¹⁾. 또한, 악성변화는 보고되지 않았고 자연소실도 없는 것으로 알려져있다^{11,13)}.

낭포성 임파관종은 진정한 신생물이라기 보다는 발생학적 이상 즉 과오종의 일종으로 추측되나¹⁴⁾ 명확한 발생기원은 알려져 있지 않다. 그러나, 임파관들이 발생초기에 격리되어 정상적인 배출임파관과의 연결이 이루어지지 않아 임파액의 축적으로 인한 압력에 의하여 현저히 확장되어 발생한다는 설이 가장 널리 받아 들여지고 있다¹⁵⁾. 또한, 임파관종을 둘러싸는 주위 조직의 성상에 따라 즉, 주위의 근육조직에 의해 임파관낭포들의 확장이 제한되는 경우에는 해면상 임파관종이 발생하고 지방조직내에 혹은 근막면을 따라 위치하는 경우에는 낭포성 임파관종의 형태를 나타낸다는 설도 있다⁸⁾.

최근 새로운 진단방법의 발전에도 불구하고 종격동의 낭중성 병변에 대한 비수술적인 방법으로는 흔히 진단에 이르지 못하고 많은 경우에 있어서 확진을 위해 종격동경검사 혹은 개흉술을 필요로 한다^{16,17,18)}. Thomas 등¹⁹⁾은 전신화단층촬영상 종격동의 낭포성 임파관종의 소견을 기술하였는데 주위조직에 침윤없이 저밀도의 경계가 명확한 병변으로 대혈관을 둘러싸고 있는 소견은 진단적 가치가 있다고 하였으나 Robert 등¹⁰⁾은 생검을 하지 않고는 다른 낭중성 종양과의 감별이 어려운 경우가 흔하다고 지적한바 있다.

본 증례에서도 내원 당시의 단순 흉부 X-선, 컴퓨터 전산화단층촬영 소견상으로 흉선낭종, 흉선종의 낭포성 변화 혹은 기형종등으로 추정하였으나 술후 조직생검으로 낭포성 임파관종으로 확진되었다.

종격동에서 발생한 낭포성 임파관종의 치료는 조기의 수술적 절제인데 주위조직과의 밀접한 관련때문에 완전제거가 어려운 경우도 있고 절제시에 남은부분이 있는 경우에는 재발도 예상된다¹¹⁾.

요 약

저자들은 매우 드문 것으로 알려진 순수하게 종격동에서 발생한 낭포성 임파관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Edward PF, Heun YY, Isidore M, Richard EB: Intrathoracic cystic hygroma: A report of three cases. Radiology 108:61, 1973
- 2) Nanson EM: Lymphangioma (Cystic hygroma) of the mediastinum. J Cardiovasc Surg 9:447, 1968
- 3) Sadayuki M: Retroperitoneal cystic lymphangioma. Report of two cases and review of the literature. In: Rekhi BM, Esselstyn CB Jr, Levy I, Mercer RD. Clev Clin Q 39:125, 1972
- 4) 박이태: 종격동 종양 및 낭포. 대한흉부외과학회지 14:563, 1983
- 5) Henzel JH, Pories WJ, Burget DE: Intra-abdominal lymphangioma. Arch Surg 93:304, 1966
- 6) Larson DL, Myhre BA, Schmidt ER: Lymphangioma in unusual sites: Spleen, mesentery, retroperitoneum, mediastinum and the greater omentum. Wis Med J 60:279, 1961
- 7) Rauch RF: Retroperitoneal lymphangioma. Arch Surg 78:45, 1959
- 8) Bill AH Jr, Sumner DS: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynecol Obstet 120:79, 1965
- 9) Harrow BR: Retroperitoneal lymphatic cyst (cystic lymphangioma). J Uro 77:82, 1957
- 10) Robert MF, James SS, Sigmund HE: Mediastinal masses in infants and children. Pediat Clin North Am 26:677, 1979
- 11) Yacoub MH, Lise M: Intrathoracic cystic hygroma. Br J Dis Chest 63:107, 1969
- 12) Bratu M, Brown M, Carter M: Cystic hygroma of the mediastinum in children. Am J Dis Child 119:348, 1970
- 13) Pachter MR, Lattes R: Mesenchymal tumors of the mediastinum. III. Tumors of lymph and vascular origin. Cancer 16:108, 1963
- 14) Anderson WAD, Kissane JM. Pathology. 2nd ed, p 917, St. Louis, Mosby, 1977

- 15) Godart S: Embryological significance of lymphangioma. *Arch Dis Child* **41**:204, 1966
- 16) Oldham HN Jr: Mediastinal tumors and cysts. *Ann Thorac Surg* **11**:246, 1971
- 17) Benjamin SP, McCormack LT, Effler DB, Groves LK: Primary tumors of the mediastinum. *Chest* **62**: 297, 1972
- 18) Kalter YE, Liebermann Y, Pauzner YM: Pitfalls in diagnosis of mediastinal tumors. *Chest* **46**:174, 1964
- 19) Thomas JP, Michael KW, Murali S, Elisabeth H, John BS: CT evaluation of cystic lymphangioma of the mediastinum. *Radiology* **144**:841, 1982