

성인의 악하부에 발생한 낭성 림프관종

단국대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *의과대학 진단방사선학교실

김은경·한원정·김상준*

Cystic lymphangioma in the submandibular triangle in the adult

Eun-Kyung Kim, Won-Jeong Han, Sang-Joon Kim*

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry,

*Department of Diagnostic Radiology, School of Medicine, Dankook University

ABSTRACT

Cystic lymphangioma is an uncommon benign developmental tumor of the lymphatic system, seen rarely in adults. A 23-year-old man visited DKUDH complaining of the painless swelling in the right submandibular triangle area. It was reported that swelling had increased since 5 months ago. Clinically, fluctuant and mobile mass was palpated at the right submandibular area. CT scan showed a large, well-defined, homogenous low density mass, measuring 5.0 × 2.5 × 4.0 cm. T1W MRI scan demonstrated a large, multiseptated homogenous low signal mass with septum and rim enhancement. Proton-density and T2W MRI scan showed mass of high signal intensity. MRI scan was able to delineate better the enhanced multiseptation and extent of the lesion. Histopathologically, a lobulated cystic mass lined by a layer of flattened endothelium was observed. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol 2001; 31 : 175-9*)

KEY WORDS : lymphangioma, cystic; neck; magnetic resonance imaging

낭성 림프관종은 림프관종의 일종으로 드물게 발생하는 림프성 종양(lymphatic tumor)이다. 이 질환의 약 50%는 태어나면서 발견되며 90%에서 2세 이전에 발견되고, 성인에서는 아주 드물게 발현된다.¹⁻⁷ 이들 병소 대부분은 통증이 없으며 압축할 수 있고, 두경부에서 호발하며 특히 목의 후방 삼각부에 주로 발생한다. 임상 경로는 자연적인 퇴축으로부터 인접 주위 조직으로 공격적인 침투까지 다양하다. 성인에서의 낭성 림프관종은 대개 환자가 병소를 인지하기 시작한 이후 급속히 성장하는 경향이 있으며, 외상이나 감염과의 연관성이 보고되기도 한다.⁸⁻¹⁰ 외과적인 적출이 일반적인 치료법이나 주요 해부학적 구조물에 인접해 있는 경우가 많아 병소의 완전한 적출이 어려워 재발률이 상당히 높다.^{5, 11, 12} 성인에서 경부에 낭성 종괴가 관찰되면 지방종, 경부 새열낭, 심부 하마종 등과 감별해야 한다.¹³

성인에서 발생한 낭성 림프관종이 아주 드물며, 특히 연

조직 병소의 감별진단에 효용성이 높은 자기공명영상 소견이 문헌에 보고^{14, 15}된 예가 많지 않아 저자들이 경험한 일례를 전산화 단층사진 및 자기공명영상 사진 소견과 함께 보고하고자 한다.

증례 보고

23세 남자 환자가 약 5개월 전부터 우측 악하선 부위에 서서히 크기가 증가한 종창을 주소로 단국대학교 치과병원에 내원하였다. 외상이나 감염의 병력은 없었으며 종창이 시작될 때부터 내원 당시까지 무증상이었다. 임상 검사 시 우측 악하선부와 우측 구강저 부위에 유동성 있는 종창이 관찰되었으며, 병소를 덮고 있는 피부는 정상 피부색을 보여 주었다. 전신 신체검사나 혈액 화학검사, 뇨검사 결과 모두 정상 범주 내에 있었다.

파노라마 방사선사진에서는 치아 우식증이 심한 하악 우측 제1대구치의 치근단 병소 외에 특이한 소견이 관찰되지 않았으며, 전산화 단층방사선사진에서 우측 하악골 내측 및 하방에서 우측 악하선의 전외방으로 약 5.0×2.5×4.0 cm 크기의, 근육이나 악하선보다 낮은 density의 병소가 관찰되었다(Fig. 1). 병소의 내부는 조영증강되지 않았

접수일: 2001년 6월 18일 채택일: 2001년 7월 13일
Correspondence to: Prof. Eun-Kyung Kim
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Dankook University, San 7-1, Shinbu-dong, Chunan, Choongnam, Korea
Tel) 82-41-550-1922. Fax) 82-41-553-3707
E-mail) ekkim@anse.dankook.ac.kr

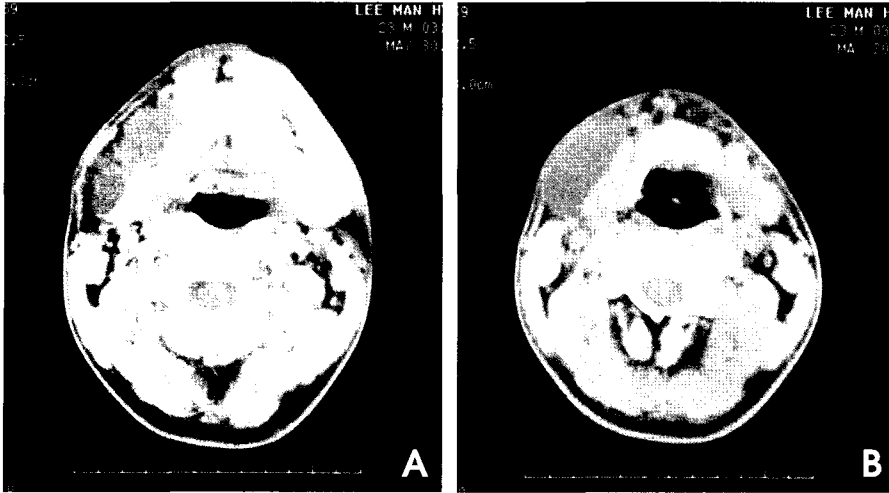


Fig. 1. A, B. Non-enhanced axial CT images show well-defined, low-density mass at the lateral portion of the right submandibular gland.

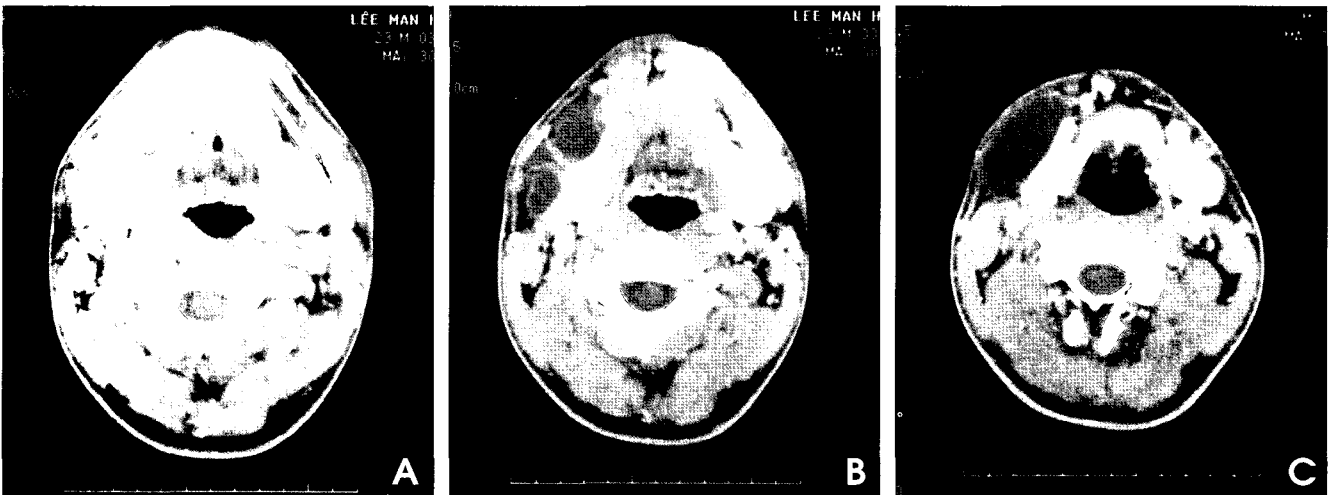


Fig. 2. A. Irregular enhancement at anterior portion of the lesion can be seen with thin internal septum enhancement. B, C. Contrast-enhanced axial CT images show no internal enhancement with thin rim enhancement.

으며 일부 증격과 변연부의 얇은 조영증강과 함께 병소의 상전방으로 불규칙하게 조영증강된 양상이 관찰되었다 (Fig. 2A). 또한 병소에 의해 우측 악하선이 약간 내측으로 변위되었으며, 악하선 주위의 혈관을 일부 둘러싸고 있는 양상을 볼 수 있었다 (Fig. 2B, C).

자기공명영상사진은 전산화 단층방사선사진보다 병소의 인접 조직으로의 확산 정도와 병소 내부의 증격을 더 명확하게 보여 주었다. T1-강조영상에서 근육과 유사한, 낮은 신호강도의 다중격성의 낭괴 병소를 보였고 (Fig. 3A), 조영증강영상에서 병소내부의 불완전한 격벽과 경계부는 조영증강을 보였으나 병소 내부는 조영증강을 보이지 않았다 (Fig. 3B). 특히 병소의 상전방으로 악설골근 주변에 강하게 조영증강된 부위가 관찰되었다 (Fig. 3C). Proton-density 영상과 T2-강조영상에서 높은 신호강도의 다방성 병소를 관찰할 수 있었으며 특히 병소의 상전방의 악설골근 주위로

T1-강조영상에서 강하게 조영증강된 부위가 높은 신호강도의 상으로 나타났다 (Fig. 4).

골스캔에서는 우측 하악 구치부에 hot spot이 관찰되었으나 이는 하악 우측 제1대구치의 치근단 병소에 의한 것으로 볼 수 있었다. 임상, 방사선학적 검사 결과 양성 림프관종의 진단으로 전신 마취 하에 외과적 적출을 시행하여 생검하였다.

수술시 양성 종괴는 우측 악하선과 함께 절제되었는데 낭의 내부는 blood-clot으로 채워져 있었으며 낭의 내부에서 solid한 부위는 관찰되지 않았다고 보고되었다. 조직병리학적으로 악하선은 이상 소견을 보이지 않았으며 낭 부위는 한층의 내피세포로 이장되어 있는 강이 관찰되었으며 낭벽의 결합조직 내에 거품성 조직구세포의 침윤과 군데 군데 출혈상을 보였다. 추가로 CD-34 염색을 하여 이장세포가 내피세포임을 확인하여 최종적으로 양성 림프

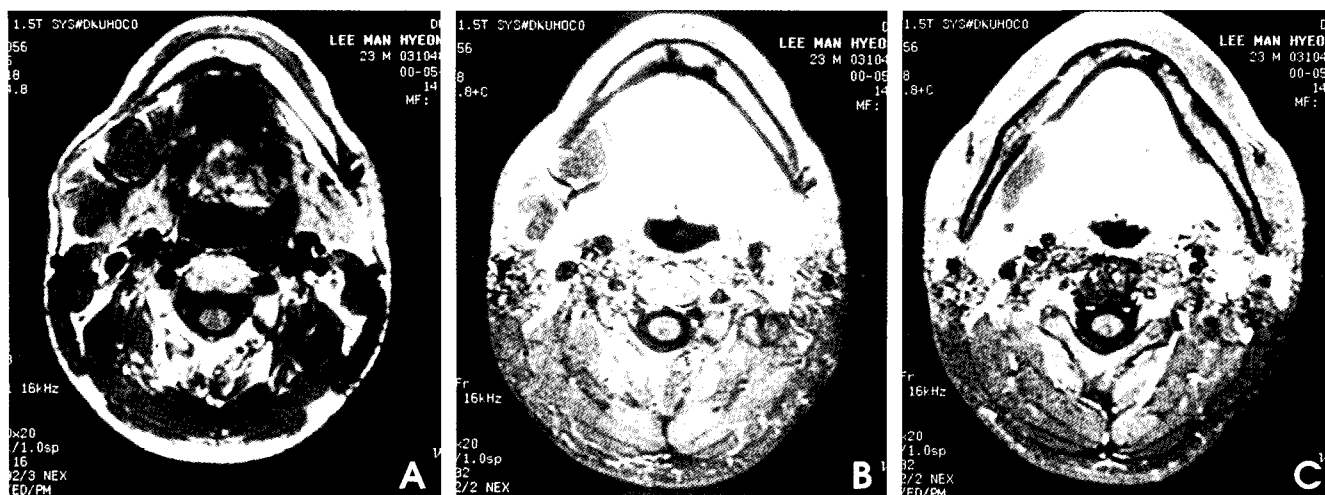


Fig. 3. A. Axial T1W MR image shows well-defined, multiloculated mass of low signal intensity. B. Contrast-enhanced T1W MR image shows clear enhancement of internal septa. C. Severe enhancement can be seen at anterior portion of the lesion.

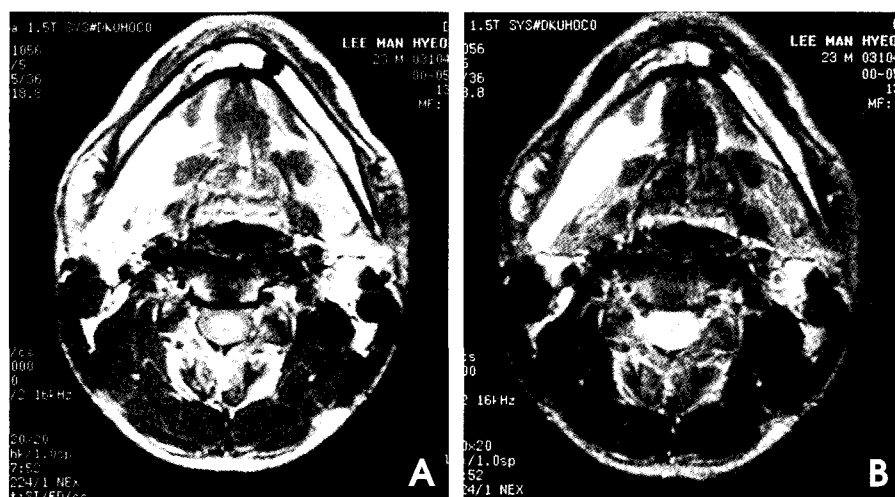


Fig. 4. A. Axial proton-density MR image shows well-defined mass of high signal intensity. B. Axial T2W MR image shows well-defined mass of high signal intensity.

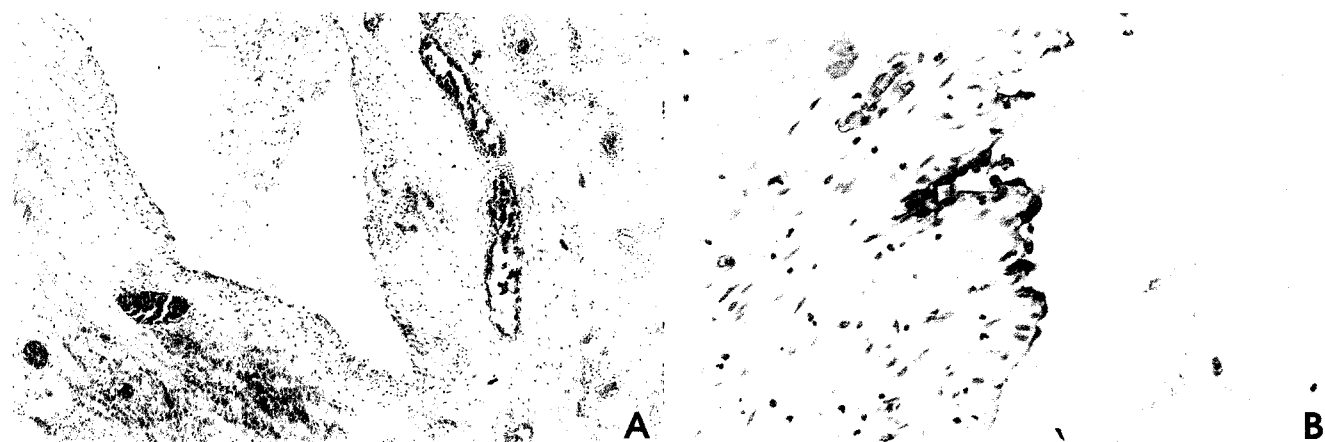


Fig. 5. A. Photomicrograph shows cystic space lined with a layer of endothelial cell (H & E stain, $\times 40$). B. Lining cells were stained with CD-34 stain for confirmation (CD-34 stain, $\times 400$).

관종으로 진단하였다(Fig. 5).

고 찰

태생기 임파조직의 비정상적인 발달로 인해 생긴 낭성 림프관종은 림프액으로 채워진 얇은 내피로 구성된 낭으로, 대부분의 경우 2세까지 발견되나 간혹 성인에서 경부의 후방 삼각부, 악하 삼각부 등에 발생한다. 대개는 증상이 없으나 크기가 큰 경우 연하장애와 불편감을 호소하기도 한다. 또한 종괴가 급속히 성장하는 경향이 있으며,⁹ 성장을 야기하는 자극이 명확하지는 않으나 국소적인 손상 또는 감염과 관련있는 경우가 보고되었다.^{8,10} 본 증례에서 병소는 약 5.0×2.5×4.0 cm 크기로 비교적 큰 편이었으나 증상은 없었으며, 국소적인 손상 또는 감염의 병력은 없었다.

성인에서 경부 악하부에 낭성 종괴가 관찰되면 지방종, 경부 세열낭, 심부형의 하마종 등과 감별해야 하며 또한 병소의 완전 적출을 위해 정상조직과 병소의 경계 및 침투 정도를 파악하는 것이 필요한데, 조영증강 전산화 단층방사선사진이 도움이 되나¹⁶ 자기공명영상사진이 병소의 경계나 낭성 병소를 다른 종괴와 감별하는데 더 많은 정보를 제공한다.¹⁷

지방종은 부드럽고, 유동적이며 피막화된 성숙한 지방세포의 집합체로, 전신 어느 부위에서나 발견되며 13% 정도가 두경부 그 중에서도 정중앙 등의 상부에서 주로 발생된다. 전산화 단층방사선사진에서 정상 피하 지방과 동일한 낮은 밀도를 보이며, 자기공명영상에서도 역시 정상 지방과 동일한 신호강도를 보인다. 즉 T1강조영상에서 높은 신호 강도를, T2강조영상에서 낮은 신호 강도를 보인다. 따라서 전산화 단층방사선사진에서 낭성 림프관종과 감별이 쉽지 않으나 자기공명영상에서 낭성 림프관종은 반대의 신호 강도를 보이기 때문에 감별이 용이하다.

경부 세열낭은 20-40대의 환자에서 발견되며, 특징적으로 하악 우각부 레벨에서 악하선 후방에 경동맥, 내경정맥의 외측에 흉쇄유돌근의 내전방 변연을 따라 발생한다. 전산화 단층방사선사진에서 얇은 rim을 가진 낮은 밀도의 내용물을 보이며, 감염이 되면 감염과 관련된 단백질 성분으로 인해 밀도가 증가되며 두껍고 불규칙하게 조영증강된 rim을 보인다.^{13,18} 자기공명영상에서 낭 액은 낮은 T1W와 높은 T2W를 보인다. 조영증강 후 낭 액은 증강되지 않으며 낭 벽은 증강된다. 따라서 낭성 림프관종과 유사한 전산화 단층방사선사진, 자기공명영상 사진을 보이나 발생 부위가 경부의 후방에 특징적으로 발생되기 때문에 본 증례와는 감별이 가능하였다.

설하선의 개구부가 막혀서 형성되는 점액저류낭인 하마종은 단순형과 심부형이 있는데, 단순형은 이장 상피를 가진 진성 낭으로 악설골근 상방으로 구강저에 용기된 종괴

로 나타나며 피개 점막은 종종 특징적인 청색을 띤다. 심부형은 단순형 하마종의 벽이 파괴되어 발생한 것으로 종종 악설골근 하방으로 파급되는 가성 낭이다. 심부형의 하마종은 임상적으로 경부의 악하부 또는 이하부 삼각형부위에 무통성 종괴로 발견되어 본 증례와 동일한 부위에 발생할 수 있기 때문에 낭성 림프관종과 감별을 요한다. 전산화 단층방사선사진에서 균일하게, 낮은 density의 경계 뚜렷한 둥근 형태의 종괴로 나타나며 종종 악하선의 하, 후방의 인접 조직 내로 침윤되고 전방으로는 반대측 구강저까지 확산되기도 한다. 특징적으로 악하선부에서 설하선부로 폭이 좁고 긴 가성 낭의 연장부가 관찰되며 이를 “꼬리 징후(tail sign)”라 한다.^{13,18,19} 자기공명영상에서는 T1강조영상에서 낮은 신호강도, proton density에서 중간 신호강도, T2강조영상에서 높은 신호강도를 보여 낭성 림프관종과 유사하나²⁰ 본 증례에서 다방성의 조영증강된 격벽을 가진 병소가 관찰되었고 심부형 하마종의 특징인 “꼬리 징후”는 보이지 않아 심부형 하마종을 배제할 수 있었다.

낭성 림프관종의 가장 바람직한 치료법은 외과적 절제이다.^{9,10} 특히 성인에서 병소의 침투가 일어나기 전 또 감염이 되어 섬유화와 반흔조직을 형성하기 전에 절제가 용이하기 때문에 조기 절제가 필요하다. 불완전하게 절제되었을 경우 재발률이 높다.⁹ 그러나 병소의 크기가 지나치게 크거나 주요 구조물에 인접해 있을 경우 완전 절제가 어려워 경화성 약제나 스테로이드의 병소내 주입²¹ 등도 보고되었다. 본 증례의 병소는 인접한 주요 구조물의 손상 없이 절제가 가능하였기 때문에 완전 절제술로 제거되었으며 수술 후 1년이 지난 시기까지 재발되지 않았다.

요약하면 23세 남자 환자에서 발생한 낭성 림프관종의 자기공명영상사진은 전산화 단층방사선사진보다 병소의 인접 조직으로의 확산 정도 및 조영증강된 증격을 더 명확하게 보여 주었고 기타 질환과 감별가능한 특징적 소견을 관찰할 수 있었다. T1-강조영상에서 낮은 신호강도의 경계가 분명한 다중격성의 낭 병소를 보였고 조영증강영상에서 병소내부의 불완전한 격벽과 경계부는 조영증강을 보였으나 병소 내부는 조영증강을 보이지 않았다. T2-강조영상에서 높은 신호강도의 다중격성 병소를 관찰할 수 있었다.

참 고 문 헌

1. Antonades K, Kiziridou A, Psimopoulou M. Traumatic cervical cystic hygroma. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2000; 29: 47-8.
2. Baer S, Davis J. Cystic hygroma presenting in adulthood. *J Laryngol Otol* 1989; 103: 976-7.
3. Emery PJ, Bailey CM, Evans JNG. Cystic hygroma of the head and neck. *J Laryngol Otol* 1984; 98: 613-9.
4. Kennedy TL. Cystic hygroma-lymphangioma: a rare and still unclear

- entity. *Laryngoscope* 1989; 99: 1-10.
5. Schefter RP, Olsen KD, Gaffey TA. Cervical lymphangioma in the adult. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1985; 93: 65-9.
 6. Thompson DM, Kasperbauer JL. Congenital cystic hygroma involving the larynx presenting as an airway emergency. *J Natl Med Assoc* 1994; 86: 629-32.
 7. Weissman JL. Nonnodal masses of the neck. In: Som PM, Curtin HD. *Head and neck imaging*. 3rd ed. St. Louis: Mosby-Year Book, Inc; 1996. p. 802-6.
 8. Scally CM, Black JHA. Cystic hygroma: massive recurrence in adult life. *J Laryngol Otol* 1990; 104: 908-10.
 9. Sherman BE, Kendall K. A unique case of the rapid onset of a large cystic hygroma in the adult. *Am J Otolaryngol* 2001; 22: 206-10.
 10. Wiggs WJ, Sismanis A. Cystic hygroma in the adult: two case reports. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994; 110: 239-41.
 11. Isenberg SF. Cystic hygroma: recurrence in an adult 34 years later. *Am J Otolaryngol* 1995; 16: 347-9.
 12. Topcu S, Soysal O, Balkan E, Yalcinkaya I, Demircan S, Gulhan E. Mediastinal cystic lymphangioma: report of two cases. *Thorac Cardiovasc Surgeon* 1997; 45: 209-10.
 13. Gossett JD, Smith KS, Sullivan SM, Harsha BC. Sudden sublingual and submandibular swelling. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57: 1353-6.
 14. Gleason TJ, Yuh WTC, Tali ET, Harris KG, Mueller DP. Imaging case study of the month: traumatic cervical cystic lymphangioma in an adult. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993; 102: 564-6.
 15. Tibesar RJ, Rimell FL, Michel E. Cystic hygroma of the skull base. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1999; 125: 1390-3.
 16. Mahboubi S, Potsic WP. Computed tomography of cervical cystic hygroma in the neck. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1989; 18: 47-51.
 17. Kransdorf MJ, Murphey MD. Radiologic evaluation of soft-tissue masses: a current perspective. *AJR Am J Roentgenol* 2000; 175: 575-87.
 18. 이지연, 이길준, 정성기 등. 남성 소견을 보이는 경부종괴의 전산화 단층촬영 소견과 감별진단. *대한방사선의학회지* 1995; 33: 513-9.
 19. Anastassov GE, Haiavy J, Solodnik P, Lee H, Lumerman H. Submandibular gland mucocele. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2000; 89: 159-63.
 20. Kurabayashi T, Ida M, Yasumoto M, *et al.* MRI of ranulas. *Neuroradiology* 2000; 42: 917-22.
 21. Farmand M, Kuttenger JJ. A new therapeutic concept for the treatment of cystic hygroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996; 81: 389-95.