

대장에 발생한 낭성 임파관종

울산대학교 의과대학 외과학교실, 방사선과학교실*, 내과학교실**,
병리학교실*, 영동방사선과의원[§]

황 대 용 · 황 원 영 · 김 진 천 · 이 문 규* · 김 해 련** · 공 경 엽* · 이 용[§]

=Abstract=

Cystic Lymphangioma of the Colon

Hwang Dae Yong, Hwang Won Young, Kim Jin Cheon, Lee Moon Gyu*,
Kim Hae Ryun**, Gong Gyeong Yeob*, Lee Yong[§]
Department of Surgery, Radiology*, Internal Medicine**, Pathology*
Ulsan of University College of Medicine, Yong Dong Radiology Clinic[§]

Lymphangiomas are benign tumors of lymphatic vessels, that are more commonly found in the pediatric age group.

The presence of a lymphangioma in the colon is rare. Chisholm and Hillkowitz reported the first case of colonic lymphangioma of the rectum in 1931.

We have recently encountered two patients in whom a cystic lymphangioma was found in the colon.

Key word: Cystic lymphangioma, Colon

I. 서 론

임파관종은 신체 어느 부위에서나 발생할 수 있는 양성종양으로 특히 목과 피부에 주로 발생한다.

대장에 발생하는 경우는 1931년 Chisholm¹ 등이 보고한 이후 드물게 보고되고 있다. 저자들은 69세 여자 환자와 47세 남자 환자에서 대장 조영술로 진단하고 수술후 확진되었던 대장에서 발생한 낭성 임파관종 2예를 경험하고 이에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례 1

69세 여자환자가 변비와 간헐적 혈변을 주소로 내원하였다. 이학적 검사상, 우하복부에 경미한 압통이 있었고 종괴촉지등의 이상소견은 보이지 않았다. 과거력상, 4년전에는 만성 변비로 다른병원에서 대장조영검사를 시행했으나 이상소견은 없었다고 하였다.

2년전부터는 배변시 간헐적 혈변을 보였고 경미한 동통이 동반되었다. 입원당시 시행한 말초혈액검사, 일반화학검사, 간기능검사, 소변검사상 특이한 소견이 없었고 혈청 CEA치는 정상 범위였다. 본원

에서 시행한 대장조영술상 S상결장에 비교적 넓은 기저부를 가지고 경계가 뚜렷한 2.3x2.8cm 크기의 폴립양(polypoid)의 종괴가 발견되었다. (Fig. 1, 2)

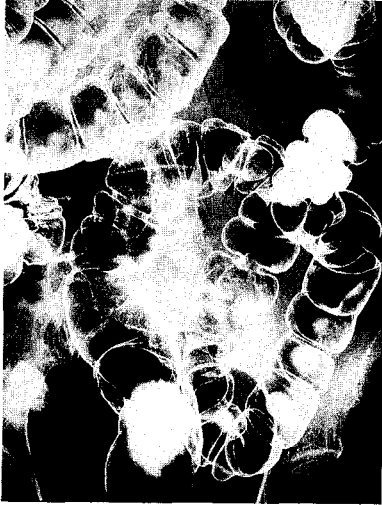


Fig 1. Barium enema with double contrast study shows a round, well marginated, 2.3x2.6cm sized intraluminal filling defect at the sigmoid colon.

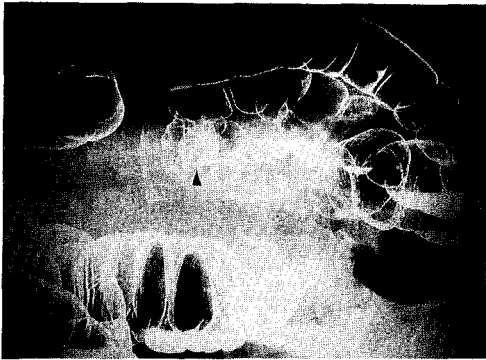


Fig 2. Barium enema in decubitus view, showing a sharply well marginated polypoid mass.

대장 내시경검사상 항문구(anal verge)에서부터 약 40cm 상방에 넓은 기저부를 가지는 약 3cm 크기의 폴립양 병변이 관찰되었고 덮고 있는 점막은 깨끗하였으며 부분적으로 작은 미란이 관찰되었다. 시행한 수술 소견상 복강내 복수나 협착은 없었고 병변은 복막반전(peritoneal reflexion) 약 20cm 상

방에서 축지되었고 장막침윤 소견은 보이지 않았으며 주위 임파절의 비대도 관찰되지 않았다.

수술은 S상 결장의 부분절제술을 시행하고 단단 문합술을 시행하였다.

수술로 절제된 S상 결장의 육안적 소견은 점막하 종괴가 폴립양으로 결장 내강으로 돌출되어 있었다. 크기는 2x2cm이었으며 종괴를 덮고 있는 점막은 정상소견이었고 미란이나 출혈소견은 보이지 않았다.(Fig. 3)

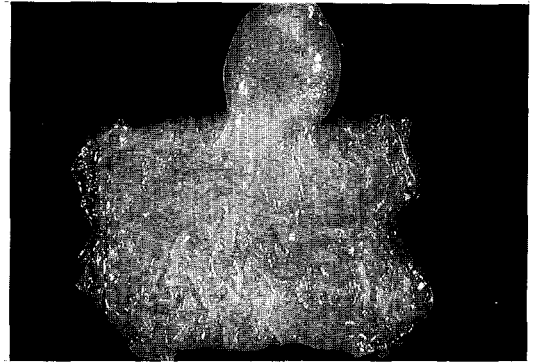


Fig 3. A pedunculated polypoid mass in the mesenteric border of sigmoid colon, measuring approximately 2cm in length.

표본의 종질개상 다양한 크기의 낭을 가지는 낭성 종괴가 관찰되었고 내부에는 비교적 맑은 장액이 함유되어 있었다.(Fig.4)

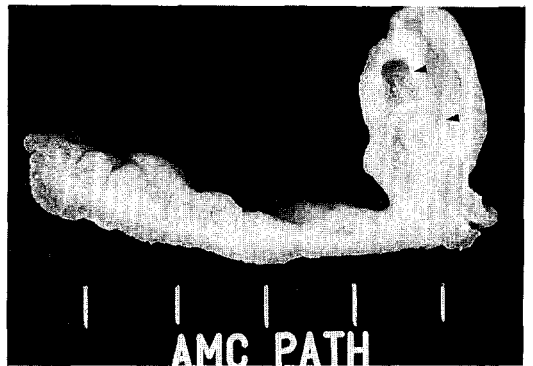


Fig 4. The longitudinal section shows multilocular cysts in the submucosa.

현미경 소견상 일부 점막층과 점막하층에서 Am-

orphous eosinophilic materials을 함유하고 있고 한 층의 편평 내피세포로 싸인 다양한 크기의 다수의 낭을 관찰할 수 있어서 이 낭은 확장된 임파관으로 생각할 수 있었다.(Fig. 5, 6)

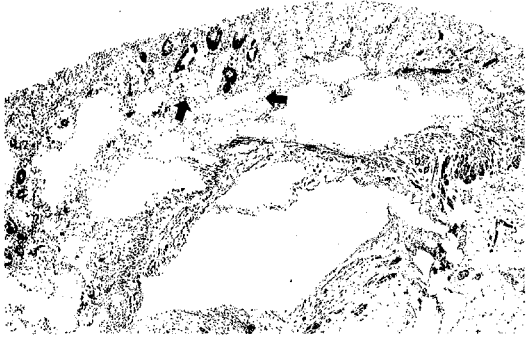


Fig 5. Multiple, irregular cystic spaces in the mucosa and submucosa with loose stroma. (x40, H-E)

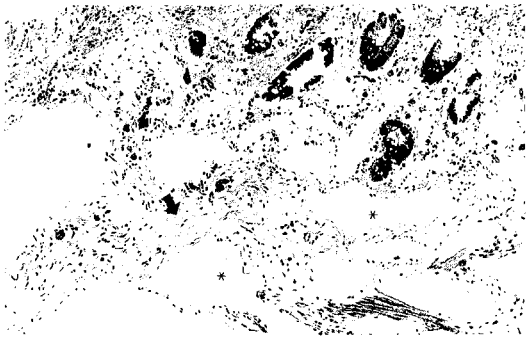


Fig 6. Same section as Fig.5. See cystic spaces lined by a thin layer of flattened endothelial cells. Note luminal amorphous material(asteriks). Disorganized muscularis mucosa is also noted (arrow). (x100, H-E)

환자는 술후 10일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였고 현재 추적 관찰중에있다.

Ⅲ. 증 례 2

47세 남자환자가 1991년 초부터 시작된 하복부 불편감을 주소로 내원하였다. 1991년 초부터 변비와 설사가 교대로 나타나 방사선과의원에서 복부초음파와 장조영검사를 시행하였다. 복부초음파상 우하복부에 장에서 기인하는것으로 생각되는 5cm 크기의 낭성 종괴가 보였고 대장 조영술상에서는 상행

결장 중간 부위가 좁아져 있고 장중첩증을 의심케 하는 약 5cm 크기의 나선형(coiled ring appearance) 종괴가 보였다. 또한 이어 시행한 CT 소견상 상행결장의 근위부에 종괴가 관찰되었다. (Fig. 7)



Fig 7. Ct of low abdomen shows that irregular wall thickening is noted in the proximal portion of the ascending colon.

내원당시의 말초혈액검사, 일반화학검사, 소변검사에서 특이한 이상소견은 없었고 혈청 CEA치도 정상 범위내에 있었다. 시행한 수술소견상 상행결장 기시부에 궤양을 동반한 5cm정도 크기의 낭종성 종괴가 관찰되었고 주위조직과 심한 협착을 보였다. 종괴를 둘러싼 주위조직들의 표면은 염증성 삼출물로 보여지는 농막(pus coat)이 관찰되었다. 주위의 연부조직, 상행 결장및 말단부 회장에 울혈및 경도의 부종이 관찰되었고 주위 장간막 임파절의 비대를 볼수 있었다. 그밖에 다른 장기에는 이상소견이 발견되지 않았다.

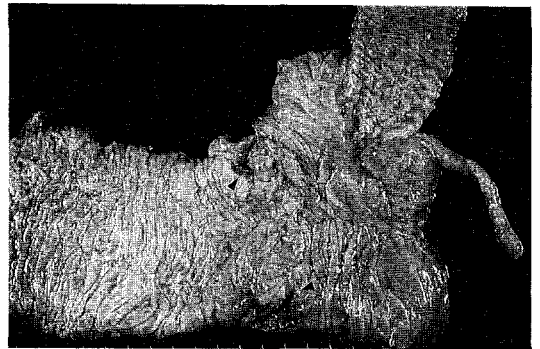


Fig 8. The cyst, which is ruptured, is seen at the superior and inferior margin of the specimen at the junction of cecum and ascending colon.

수술은 상행 결장 기시부에 발생한 만성 염증 혹은 악성 종괴로 생각되어 우반결장 절제술과 회장-결장 단단문합술을 시행하였다.

병리소견상, 적출된 표본의 육안소견과 종절개 소견상 근육층에 비교적 투명한 황색의 장액을 포함한 한개의 커다란 낭이 관찰되었고 장막(serosa)의 협착소견이 관찰되었다.(Fig. 8, 9)

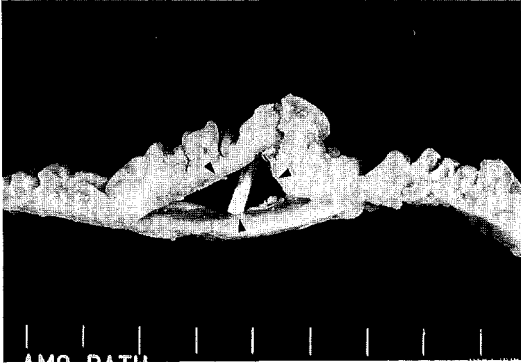


Fig 9. The longitudinal section shows a large unilocularcyst in the muscle and serosa.

광학 현미경 소견상 병변은 한층의 편평 내피세포층으로 둘러싸인 하나의 커다란 확장된 임파관이 근육층과 장막층에 걸쳐 존재하였다. (Fig. 10)

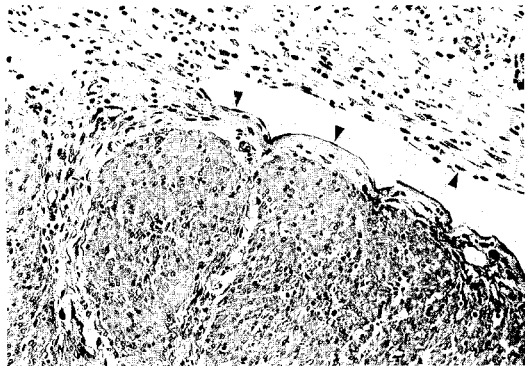


Fig 10. Microphotography of the resected mass shows a larg, wideil diated lymphatic space lined by a single langer offlatted endothelial cells involving the muscle and serosa Note a disproportionately thin wall of the lesion (arrows). (F-E, X200)

환자는 특별한 합병증 없이 퇴원하였고, 퇴원후 현재 외래에서 추적 관찰중에 있다.

IV. 고 찰

임파관종(lymphangioma)은 임파관에서 생기는 양성종양으로 주로 소아기에서 목과 피부에서 발견된다. 종종 복강내에서 발견되기도 하는데, 주로 장관막에 생기며 가끔씩 위장관에서도 발견되는데, 대장에 생기는 일은 매우 드문것으로 알려져있다.

대장에 생긴 임파관종은 Chisholm¹등이 직장에 생긴것을 처음 보고하였고 이후, Arnett²이 상행결장에, Alvich³이 횡행결장의 우결장곡에, Koenig⁴, Higgason⁵ 그리고 Greene⁶이 각각 횡행결장에, Fleming⁷이 하행결장에 생긴것들을 보고하였고, 그 외에도 몇례가 더 보고되었다. 우리나라에서는 조⁸등이 하행결장에, 장⁹등이 횡행결장에 생긴 임파관종에 대하여 보고하였다.

Raiford¹⁰는 11,500례의 부검과 4,500건의 적출 표본의 분석을 통해 1례의 공장 임파관종(jejunal lymphangioma)과 88례의 위장관 양성종양만이 발견되었다고 보고하였고, Helwig¹¹에 따르면 1460례의 부검에 근거한 154례의 양성대장종양중 대장의 임파관종은 한례도 발견되지 않았다고 보고했다.

또한, Stoud와 Turell¹²은 결장과 직장에 생긴 292례의 종양중 4례의 임파관종이 발견되었다고 기술했으며, Nakagawara¹³등은 미국과 유럽에서 21례와 일본에서 7례등 대장에서 생긴 임파관종을 모아서 보고 하였다.

1984년에 Kuroda¹⁴등이 14례를 추가하여 그당시까지 발생된 총 42례를 재검토하여 보고하였다. 이 보고에서 이 종양은 모든 인종군에서의 발생을 보였고 연령별로 보면 27세에서 77세까지 거의 모든 연령에서 이환됨을 보여 이 질병의 발생과 연령과는 관계가 없다고 하였다.

증례 2에서 술전 장중첩증이 의심되었던것과 같이 비교적 심한 증상유발은 종괴 자체가 매우 크고 그로인해 장의 부분 또는 전폐색이 유발되거나 혹은 장중첩등이 발생하는 경우이다.

수술전 임파관종의 진단은 용이하지 않은데, Kuroda¹⁴이 보고한 42례중 36례에서 술전 다른질환으로 진단했음을 알수있다.

이 종양의 다양한 형태와 양성 특성때문에 방사

신 검사로 진단하는것이 용이하지 않으나 Arnett과 Friedman²은 남성임파관종의 방사선과적 측면에 대한 보고에서 종양이 대장조영술상 경계가 뚜렷한 난원형 또는 원형의 대장결손 소견을 보이고 점막 손상의 증거가 발견되지 않으면 장벽내에 위치함을 나타내고 이런 소견이 대장의 다른 종양과 감별할 수 있는점이라고 언급하였다. 또한 이런 소견은 부분적으로 조영제가 충만 되었을때 가장 잘 볼수 있으며 조영제에 의해 대장이 확장되면서 소실된다고 보고하였다.

하지만 실제로 이런 방사선검사로 지방종과 해면상 혈관종(cavernous hemangioma)등과 같은 점막하 종양과의 감별진단은 매우 어렵다.

1828년 Redenbacker에 의해 처음 기술된 임파관종은 조직발생학적으로 아직 완전히 알려져 있지 않은데, 주로 소아에서 목과 피부에 발생한 임파관종은 발생학적이상으로 태아기에 임파계와 정맥계 사이의 연결결여에 의해 임파계의 낭성확장을 초래함으로써 생긴다고 생각하고 있다.^{15, 16}

성인의 대장에서 발견되는 임파관종은 점막하층의 임파관에서 기인하는것으로 생각되고 그의 발생에 대해서는 몇가지 가설이 있는데, 첫번째는 태아조직이 정상위치가 아닌곳에서 비후되어 발생된다는 발생학에 근거한 설이고, 두번째는 점막하층에 정상적으로 분포되어 있는 임파조직의 이상비후라는 설, 마지막으로 장간막 임파선의 어떤 원인에 의한 폐색으로 임파선내의 압력이 증가하고 그로인해 정체와 확장이 유발되어 발생된다는 가설이 있으며 마지막 세번째 가설이 가장 유력한 것으로 생각되고 있다.

Willis¹⁷에 의하면 이 종양은 진정한 신생물이라기보다 일종의 과오종이며 조직 발생과정에서의 비신생물성 기형(non-neoplastic malformation)에 의한 병변이라고 설명하였고 Alvich와 Lepow³는 임파선이 풍부한 곳에서의 조직의 비정상적인 성장과 혼합에 의해 발생한 과오종성 성격을 띤 병변일 것이라고 결론지었다.

임파관종에 가장 흔히 사용되는 분류에는 Wegner¹⁸가 사용한 단순형, 해면형과 낭형이 있다. 종양의 크기는 그동안의 보고에서 0.5cm에서 10.0cm 크기까지 다양하며 반수이상에서 3.0cm이하의 크기를

보였다. 남성 임파관종에서 낭은 단실성과 다실성으로 나누는데 대장에서는 주로 다실성으로 발견된다. 해면상 임파관종은 조직학적으로 목과 액와부에 주로 발생하는 낭성히그로마(cystic hygroma)와 유사한점을 볼수있다.

대장 임파관종의 악성변화는 없는 것으로 알려져 있고, 이 질환과 특히 감별이 어려운 질환들에는 선종성 용종(adenomatous polyp), 점막하 지방종(submucosal lipoma), 평활근종, 장관성 낭(enterogenous cyst)및 해면상 혈관종등이 있다.

치료는 임파관종 자체의 크기가 작고 폴립양 종괴(polypoid mass)인 경우 내시경적 제거술(Endoscopic polypectomy)을 시행한 경우도 있는데^{13, 19, 20} ²¹이 경우 장벽의 약화에 의해 큰 결실이 생길수도 있기 때문에 종양을 포함한 장의 부분 절제술이 최선의 치료라고 생각된다.

V. 결 론

저자들은 47세 남자환자와 69세 여자 환자에서 대장에 발생한 남성 임파관종 2예를 경험하고 이 종양의 회귀성과 기원및 조직학적 특징들을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Chisholm AJ, Hillkowitz P:Lymphangioma of the rectum. Am J Surg 1932, 17:281-282
2. Arnett. NL, Friedman PS:Lymphangioma of the colon, Roentgen aspects:A case report. Radiology 1956, 67:882-885
3. Alvich JP, Lepow HI:Cystic lymphangioma of hepatic flexure of colon :A case report. Ann Surg 1960, 152:880-884.
4. Koenig RR, Claudon DB, Byrne RW:Lymphatic cyst of transverse colon:Arch Path 1955, 60:431-434
5. Higgason JM:Lymphatic cyst of the transverse colon. Am J Roentgenol. 1958, 79:850-853
6. Greene EI, Kirshen MM, Greene JM:Lymphangioma of the transverse colon:Am J Surg 1962, 103:723-726
7. Fleming MP, Carlson HC:Submucosal lymphatic

- cysts of the gastrointestinal tract: A rare cause of submucosal mass lesion. *Am J Roentgenol* 1970, 110:842-845.
8. 조주영, 추원석, 이문성, 김진홍, 조성원, 심찬섭: 대장에 발생한 임파관종 1예: *대한소화기병학회지* 1990, 22:982-9869
 9. 장용석, 유 희, 심찬섭, 진소영: 대장에 발생한 낭포성 임파관종 1예: *대한소화기병학회지* 1992, 24:637-640.
 10. Raiford TS: Tumors of the small intestine: *Arch Surg* 1932, 25:122-177.
 11. Helwig EB: Benign tumors of the large intestine: incidence and distribution: *Surg Gynecol Obstet* 1943, 76:419-426.
 12. Stout AP, Turell R.: Diseases of the colon and anorectum: 2nd ed Philadelphia, WB Saunders: 1969, 305-319
 13. Nakagawara G, Kojima Y, Mai M, Akimoto R, Miwa K: Lymphangioma of the transverse colon treated by transendoscopic polypectomy: report of a case and review of literature: *Dis Colon Rectum* 1981, 24:291-295
 14. Kuroda Y, Katoh H, Ohsato K: Cystic lymphangioma of the colon: Report of a case and review of the literature: *Dis Colon Rectum* 1984, 27:679-682.
 15. Godart S: Embryological significance of lymphangioma: *Arch Dis Childh* 1966, 41:204-209.
 16. Singh S, Baboo ML, Pathak IC: Cystic lymphangioma in children: Report of 32 cases including lesions at rare sites: *Surgery* 1971, 69:947-951.
 17. Willis RA: The borderland of embryology and pathology. London, Butterworth, 1958; 348-350.
 18. Wegner G: Lymphangioma. *Arch Klin Chir* 1877; 20: 641-707.
 19. Lawson JP, Myerson PJ, Myerson DA: Colonic lymphangioma. *Gastrointest Radiol* 1976, 1:85-89.
 20. Geboes K, Wolf-Peeters CD, Rutgeerts P, Vantrappen G, Desmet V: Submucosal tumors of the colon: Experience with twenty-five cases. *Dis Colon Rectum* 1978, 21:420-425.
 - 21) Itoh T, Murakami T, Shiotani A, et al.: Lymphangioma of the colon: A case report. *Rinsho Geka* 1977, 32:515-518.