

골반강에 발생한 감염된 거대 림프관종 1예

영남대학교 의과대학 비뇨기과학교실, 병리학교실*

최우석 · 이성호 · 정석영 · 송필현 · 백운기 · 조철규 · 박동춘 · 최준혁*

A Case of Infected Huge Lymphangioma in Pelvic Cavity

Woo Seok Choi, Seong Ho Lee, Seok Young Chung, Phil Hyun Song, Un Gi Baek
Chul Kyu Cho, Tong Choon Park, Joon Hyuk Choi*

*Departments of Urology and Pathology**

College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea

—Abstract—

Lymphangioma is a benign tumor resulted from abnormal communication between large dermal lymphatic channels and central lymphatic system. The tumor is encountered more often in the neck and axilla and less often in mediastinum, omentum, retroperitoneum, and scrotum. It rarely develops at urogenital system, and there has been no previous description of lymphangioma involving the bladder wall in Korea.

We report a case of 35-year-old female with infected huge lymphangioma arising from pelvic cavity and involving bladder wall.

Key Words: Lymphangioma, Infected, Pelvic cavity, Bladder

서 론

림프관종은 림프관의 선천적 기형, 외상, 염증, 또는 변성 후에 림프관이 폐쇄되어 발생하는 양성종양으로써(Koshy 등, 1978), 이중 95%가 경부나 액와부에서 발생하고 드물게 종격

동, 장막, 후복막, 음낭 등에서 발생할 수 있다. 비뇨생식기계에서 발생하는 림프관종은 매우 희귀하며 국내에서는 음낭, 후복막 등에서 발생한 림프관종에 대한 보고가 몇 예 있으나(강상재 등, 1988; 김상우 등, 1994; 서성원 등, 1995; 홍두선 등, 1995), 방광을 침범한 림프관

중은 보고된 예가 없다. 저자들은 복부 통증을 주소로 내원한 35세 여자에서 골반강에서 발생하여 방광을 침범한 감염된 림프관종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

35세 여자환자가 이틀 동안의 하복부 동통, 배뇨곤란을 주소로 응급실을 방문하였다. 환자는 평소 건강하게 지내오던 중 내원 이틀 전부터 고열, 하복부 동통, 배뇨곤란 등이 있어 가까운 병원에 들러 방광염으로 진단받고 치료하였으나 증상의 호전이 없어 내원하였다.

과거력상 2년전 제왕절개를 시행받은 것 외에는 다른 복부 수술의 기왕력이나 질병의 병력은 없었다. 내원 당시 이학적 소견은 혈압 140/80 mmHg, 체온 39.4 °C, 맥박 119 회/분, 호흡수는 22 회/분이었다. 의식은 정상이었으나 급성병색이었고, 두경부 진찰상 황달은 없었으며, 경부림프절도 만져지지 않았다. 흉부소견은 정상이었고, 복부소견은 좌하복부에 경한 압통이 있었다. 말초혈액검사에서 백혈구; 11630 /mm³, 혈색소; 11.7 g/dL, 혈소판; 271000 /mm³, Na; 136 mEq/L, K; 3.8 mEq/L, Cl; 101 mEq/L, BUN; 6.6 mg/dL, Cre; 0.8 mg/dL이었으며, 요 검사상 RBC 0-1/HPF WBC 0-1/HPF, β -hCG; 음성 소견을 보였다.

환자는 난소종양 의증, 골반농양 의증으로 입원하였으며, 입원 후 촬영한 전산화단층촬영과 자기공명영상에서 골반강에 불균일한(heterogeneous) 거대한 종괴가 발견되었다. 이 종괴로 인해 방광과 자궁이 좌측으로 밀려나 있었으며, 병소의 주변부를 따라 많은(multifocal) 출혈성 병소가 보였다(그림 1).

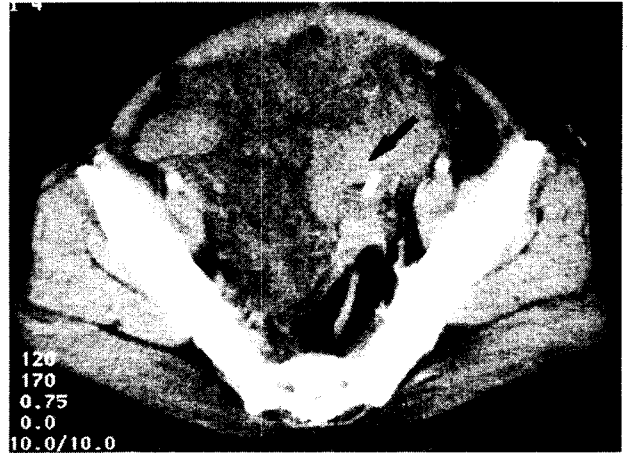


Fig. 1. Computerized tomogram shows a heterogeneous huge mass in pelvic cavity. Urinary bladder(arrow) and uterus are displaced left laterally. Multifocal hemorrhagic foci are seen along the periphery.

환자는 이후 골반농양 의증, 골반종양 의증으로 개복술을 시행 받았으며, 수술소견에서 거대한 염증성 종양(약 20×10 cm)이 골반강을 채우고 있었고, 종양은 방광의 일부분까지 침범하고 있었다. 종양절제술과 부분적 방광절제술을 시행하였다.

육안 병리 소견상 종양은 불규칙한 모양의 연조직(soft tissue)으로, 가장 큰 단면이 11.0×8.5 cm 이었으며, 외부표면은 부분적으로 근육양(muscle-like) 조직과 지방조직으로 둘러싸여 있었다. 종양의 단면상 다수의 다양한 크기의 낭성 공간에 응혈과 노란빛을 띤 피사 물질이 차 있었다(그림 2).

현미경적 병리 소견상 유미의 액체(chylous fluid)를 함유한 다양한 크기의 다발성 낭종들이 관찰되고 이 낭종들의 벽은 섬유성 지방조직, 림프성 조직으로 구성되어 있었다(그림 3).

술후 2개월에 실시한 배뇨중방광요도조영술(voiding cystourethrography)상 방광 용적은



Fig. 2. The mass consists of irregular huge soft tissue, measuring 11.0×8.5 cm in the largest dimension. The external surface is partially well circumscribed and surrounded by muscle-like tissue and fat tissue. On serial sections, the cut surface shows multiple variable sized cystic spaces containing blood clot, yellowish necrotic material and straw colored (or clear) chylous fluid.

약 230 cc였으며 방광 누출 소견은 없었고, 술 후 5개월에 촬영한 전산화단층촬영상 재발 소견은 없었다. 현재 환자는 경도의 빈뇨를 제외하고는 특이한 증상은 없으며 원격전이 또는 국소재발에 대하여 계속 추적 관찰중이다.

고 찰

원발성 림프관종은 진피층의 림프경로와 중앙 림프계의 연결이 비정상적으로 폐색되어 림프관내 압력이 증가하고, 표재성 림프계가 소낭성 확장을 일으켜 발생한다고 추정되는 질환이다(Whimster, 1976). 림프관종이 진성의 신 생물인지 종물을 형성하는 기형인지에 대해서는 논란이 많으나, 대부분은 림프계의 발생이

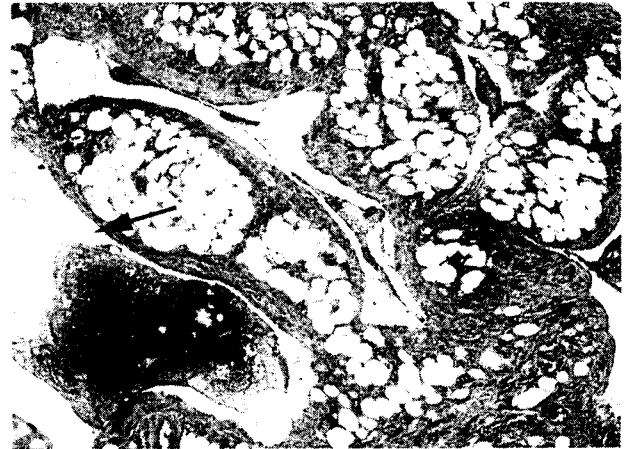


Fig. 3. The walls of cystic lymphangioma contain various amounts of fibrous adipose and lymphoid tissues. The chylous fluid(arrow) is present in the cystic spaces.(H & E, ×40).

상으로 인한 진피 림프계와 중심 림프계 사이의 비정상적인 교통에 의하여 생겨나며, 방사선 조사, 수술, 외상 등에 의해 이차적으로도 발생할 수 있다(Rabinowitz 등, 1977). 감염, 염증, 출혈 등으로 인해 수출성 통로(efferent channel)가 폐쇄될 수 있으며 이것으로 인해 종양의 크기가 급속히 증가하고 염증의 징후와 증상이 동반될 수 있다(Barnett와 Branch, 1960). 본 증례에서는 2년전 시행받은 제왕절개술로 인해 이차적으로 발생한 림프관종이 감염되어 염증징후와 증상을 보인 것으로 추정된다.

림프관종의 분류는 학자마다 차이가 있으나, 흔히 세 가지로 구분되는데 진피층의 상부까지로 한정되는 표재성의 국한성 림프관종과 진피층의 하부 및 피하 지방층까지를 포함하는 심부의 해면성 림프관종(lymphangioma cavernosum), 그리고 주로 경부와 액와부에 발생하는 낭종성 림프관종(cystic hygroma)으로 나눌 수 있다(Enzinger와 Weiss, 1988). 본 증례에서는

낭종성 림프관종에 해당한다.

호발 연령은 5세 이하에서 주정점을 형성하며, 17세에서 23세 사이에서 이차 정점을 이룬다고 한다(Flanagen과 Helwig, 1977). 남녀의 발생 빈도는 남자에서 약 3배 가량 많은 것으로 알려져 있으며 가족력은 없고 좌우의 차이도 없다고 한다(Peachey 등, 1970). 그러나 후복막에 발생한 낭종성 림프관종의 경우는 남녀의 차이는 없고 오른쪽에 잘 생긴다고 한다(Cunningham과 Winningham, 1972). 원발성 림프관종은 경부, 액와부 등에서 호발하지만 발가락을 제외한 모든 신체 부위에 생길 수 있다고 한다(Flanagen과 Helwig, 1977). 본 증례에서는 종양의 원발부위는 알 수가 없었으나 골반강의 오른쪽에서 생겨 방광을 침범한 것이 관찰되었다.

진단방법은 초음파 검사와 전산화단층촬영이 주로 이용되고 있다. 여러가지 검사를 통해 림프관종을 일차적으로 의심한 경우에는 림프관조영술을 시행한 예도 있으며, 직접 조영제를 낭종내에 주입하여 확인한 보고도 있다(Castellino와 Finkelstein, 1975). 본 증례에서는 전산화단층촬영과 자기공명영상을 실시하였으나 종양의 감염으로 인해 정확한 진단을 할 수 없었고 수술 후 병리소견에서 림프관종으로 진단되었다.

국한성 림프관종은 피부의 일부분에 퍼져서 다수의 작은 소포처럼 나타나며, 세포성 결합조직의 기질이 풍부한 확장된 림프관으로 구성되어 있다(Merka 등, 1984). 해면성 림프관종은 불규칙하게 확장된 림프종과 활동성으로 성장하는 림프양 기질로 구성되어 있고 림프종 내부는 비어있거나 혈액이나 림프액으로 차 있을 수 있으며, 대개 무통성이나 종양이 압력을

받거나 부딪힐 경우 통증을 나타낼 수 있다(Feldman과 Cotton, 1966). 낭종성 림프관종은 유미의 액체를 함유하거나 장액성, 혈액 장액성의 단일 또는 다양한 크기의 다발성 낭종들로 구성되어 있고, 낭종들은 서로 교통하거나 섬유성 종격에 의해 구분되며, 약 50%에서 복부통증과 손으로 만져지는 종괴가 관찰된다(Leonidas 등, 1987). 본 증례에서는 조직학적 소견상 유미의 액체를 함유한 다발성 낭종과 섬유성 지방조직, 림프성 조직 등으로 구성된 낭종벽을 관찰할 수 있어서 낭종성 림프관종으로 진단하였다.

완전한 외과적 절제가 치료의 원칙이며 림프종성 조직이 남게 되면 재발이 흔하다고 하는데, 국한성 림프관종의 경우 1회 단순절제만으로 약 75% 가량이 완치되며 재발률은 약 25%가량 된다고 한다(Flanagen과 Helwig, 1977). 해면성 림프관종은 70%에서 치료가 가능하다고 하는데, 재발은 술후 14개월 내에 나타나며 54%에서 3개월 이내에 발생한다고 한다(Flanagen과 Helwig, 1977). 수술의 합병증으로는 출혈, 2차 감염, 림프액의 누출, 재발 등이 보고되어 있다(Peachey 등, 1970). 낭종성 림프관종의 경우에도 완전한 외과적 절제술이가장 좋으나, 이것이 불가능한 경우에 조대낭술(marsupialization)이 재발방지에 효과적이라는 보고도 있다(Angel과 Noe, 1994).

본 증례에서는 종양절제술 및 방광 부분절제술을 실시하였으며, 완전한 외과적 절제는 되지 않았으나 술후 5개월에 실시한 전산화단층촬영에서 재발소견은 관찰되지 않았다. 하지만 추적 관찰한 기간이 짧음을 고려할 때 계속적이고 주기적인 추적관찰이 필요할 것으로 생각된다.

요 약

고열, 하복부 동통, 배뇨곤란을 주소로 내원한 35세 여자 환자에서 발생한 림프관종을 보고한다. 골반강에서 발생하여 방광을 침범한 감염된 낭종성 림프관종으로 그 발생부위가 매우 드문 예로서 수술 및 병리 조직학적으로 확진되었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

강상재, 한창섭, 이성영, 최성협: 음낭내 및 후복막강의 Cystic Lymphangioma 1예. 대한비뇨기과학회지 29(5): 885-887, 1988.

김상우, 박용진, 윤을로: 비뇨생식기계에 발생한 림프관종(Lymphangioma) 2예. 대한비뇨기과학회지 35(9): 1032-1035, 1994.

서성원, 성락희, 김원석, 지창하, 하태준, 정재용, 노충희: 음낭내 림프관종 2예. 대한비뇨기과학회지 37(5): 590-592, 1996.

홍두선, 이형래, 신처칠, 김진일: 음낭 낭포성 임파관종 1예. 대한비뇨기과 학회지 36(3): 331-333, 1995.

Angel CA, Noe HN: Paravesical cystic retroperitoneal lymphangioma presenting as recurrent vesicoureteral reflux. Urology 43: 880-882, 1994.

Barnett LA, Branch L: Retroperitoneal cystic lymphangioma. JAMA 173: 1111-1116, 1960.

Castellino RA, Finkelstein S: Lymphographic demonstration of a retroperitoneal lymphangioma. Radiology 115: 355-356, 1975.

Cunningham JJ, Winningham DG: Retroperitoneal cystic lymphangioma presenting

as an unusual pelvic mass. J Urol 108: 717-718, 1972.

Enzinger FM, Weiss SW: Tumors of lymph vessels. In Enzinger FM, Weiss SW: Soft tissue tumors. 3rd ed, Mosby, St. Louis, 1995, pp 679-700.

Feldman MA. and Cotton RE: Hygroma of the scrotum. Br J Surg 53: 642-645, 1966.

Flanagan BP, Helwig EB: Cutaneous lymphangioma. Arch dermatol 113: 24-30, 1977.

Godart S: Embryological significance of lymphangioma. Arch Dis Child 41: 204-206, 1966.

Koshy A, Tandon RK, Kapur BM, Rao KV, Joshi K. Retroperitoneal lymphangioma. A case report with review of the literature. Am J Gastroenterol 69: 485-490, 1978.

Leonidas JC, Brill PW, Bhan I, Smith TH: Cystic retroperitoneal lymphangioma in infant and children. Radiology 127: 203-208, 1978.

Merka ST, Bhatt KS, Wood FW: Cystic lymphangioma of the scrotum. J Urol 131: 1179-1181, 1984.

Peachey RDG, Lim CC, Whimster IW: Lymphangioma of skin. A review of 65 cases. Br J Dermatol 83: 519-527, 1970.

Rabionwitz R, Churchill BM, Alexis ME, Boxall L: Acquired vulvar lymphangiectasis in a child. Urology 10: 459-460, 1977.

Whimster IW: The pathology of lymphangioma circumscriptum. Br J Dermatol 94: 473-486, 1976.