

□ 증 례 □

성인에서 진단된 종격동 해면상 임파관종 1예

연세대학교 원주의과대학 내과학교실, 방사선과학교실¹

김신태, 용석중, 리원연, 김미혜, 신계철, 김상하, 안민수, 성기준¹

= Abstract =

A Case of Cavernous Lymphangioma of the Mediastinum in Adult

Shin Tae Kim, M.D., Suk Joong Yong, M.D., Won Yeon Lee, M.D.,
Mi Hye Kim, M.D., Kye Chul Shin, M.D., Sang Ha Kim, M.D.,
Min soo Ahn, M.D., Ki Jun Sung, M.D.¹

Department of Internal medicine, Radiology¹, Yonsei University Wonju College of Medicine, Wonju, Korea

Lymphangiomas in the mediastinum are rare benign tumors, characterized by proliferating lymphatic vessels. They are usually found in children and young adults, but rarely in older adults. Most are located in the neck, with less than 1 percent found in the mediastinum, with mediastinal lymphangiomas comprising 0.7-4.5 percent of all tumors in this location. They are often classified pathologically according to the size of the cystic spaces within them, as simple or capillary, cavernous and cystic, or just cystic, hygromas. Of the 3 types above, the cavernous type of mediastinal lymphangioma is very rare.

We report a case of a mediastinal lymphangioma of the cavernous type that was confirmed from pathological findings, a CT and MRI scan. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 2002, 52 : 640-644)

Key words : Cavernous, Lymphangioma, Mediastinum, Adult.

서 론

임파관종은 임파관에서 기원하는 양성종양으로 증상

이 없는 경우가 많고 심부에 위치하며 소아에서 주로 발견되는 질환으로 성인에서는 드물게 발견된다(1% 이하). 임파관종의 대부분은 경부에 위치하며, 전체

Address for correspondence :

Suk Joong Yong, M.D.

Department of Internal Medicine, Yonsei University Wonju College of Medicine

162 Ilsan-dong, Wonju, Kangwon-do, 220-701, Korea

Phone : 82-33-741-1232 Fax : 82-33-746-4667 E-mail : sjyong@wonju.yonsei.ac.kr

임파관종의 1% 이하만이 종격동에 위치하고 전체 종격동 종양의 약 0.7-4.5% 정도를 차지하는 것으로 알려져 있다^{1,2}. 임파관종은 임파 통로의 크기에 따라 단순성 혹은 모세혈관성(simple or capillary), 해면상(carvenous), 낭포성(cystic) 혹은 낭포성 수혈액 낭종(cystic hygroma)으로 구분된다¹. 국내에서는 박³과 여⁴의 2예에서 낭포성 임파관종에 대한 보고가 있으며 성⁵과 정⁶의 2예에서 각각 소아의 액와부와 종격동의 해면상 임파관종에 대한 보고가 있었으나 성인에서 발견된 경우는 조⁷의 1례가 보고되었을 뿐이다.

저자 등은 기침을 주소로 내원하여 시행한 종격동경 검사상 전종격동 내 해면상 임파관종이 진단된 환자를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 임 준, 남자 77세

주 소: 1주일간의 기침

과거력: 10갑년의 흡연력, 50년전 우측 경골골절로 수술

가족력: 특이사항 없음

현병력: 환자는 평소에 특별한 증상없이 지냈으나 약 1주일의 기침을 주소로 개인의료원에 내원하여 시행한 단순 흉부방사선 촬영 소견상 종격동 종괴가 발견되어 본원으로 전원되었다.

이학적 소견: 내원 당시 혈압은 160/110mmHg, 맥박 72회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.5℃였다. 경부림프절은 촉지되지 않았고 흉부 청진상 호흡음은 정상이었다. 심음은 규칙적이었고 잡음은 없었다. 복부 진찰상 간, 비장은 촉지되지 않았다.

검사실 소견: 말초혈액검사상 혈색소 14.4g/dl, 혈소판 227,000/mm³, 백혈구 5,050/mm³ 이었고, 혈청 생화학검사, 혈청전해질검사 및 소변검사는 정상이었다. 객담 항산균 도말 검사 및 세균 배양검사, 세포진 검사등은 모두 음성이었다. 동맥혈 검사상 PH 7.43, PaO₂ 92.2mmHg, PCO₂ 35.5mmHg, HCO₃⁻ 23.8mEq/L, 산소포화도 97.4% 이었다.



Fig. 1. The chest X-ray shows tracheal deviation to the right side, with mediastinal widening.

방사선 소견: 단순 흉부 방사선 소견상 기관지의 우측 편향 및 종격동 종대 소견이 관찰되었다(Fig. 1).

흉부 전산화 단층촬영상 비교적 경계가 뚜렷한 원형의 다발성 종괴가 전종격동에서 관찰되었다. 종괴는 융합성으로 다양한 크기를 보이며 내부에는 석회화 음영이 동반되어 있었으며 조영제 주사 후 영상에서 다소의 음영증가 소견을 보였다(Fig. 2).

흉부 자기공명영상 소견상 좌상엽의 기관측면부 주위로 액체로 찬 임파절 또는 다발성 낭종을 형성하는 병변이 관찰되었다(Fig. 3). 폐관류 스캔상 이상소견은 없었다.

병리소견: 다양하고 불규칙한 모양의 확장된 림프관이 관찰되었으며, 국소적인 림프구의 응집이 동반되어 있어 해면상 임파관종에 합당한 소견을 보였다(Fig. 4).

임상적 경과: 환자는 내원 13일째에 전종격 절제술

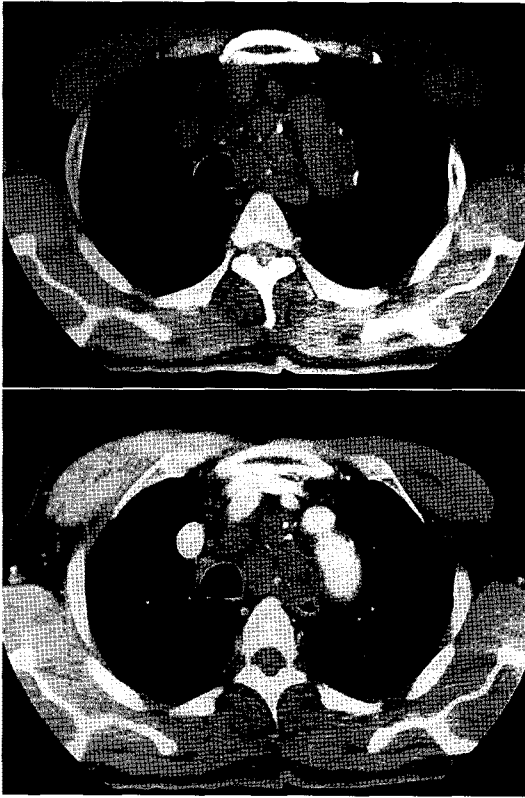


Fig. 2. The non-enhanced CT section shows a well-demarcated confluent round mass with calcification in the anterior mediastinum (upper). Following contrast enhancement, homogeneously attenuated variable sized masses are shown (lower).

및 부분적 흉골 절제술을 통한 종격동내 생검을 실시하였으며, 대증치료 후 증상이 호전되어 외래 추적 관찰중이다.

고 찰

임파관종은 증식성의 임파관으로 이루어진 양성종양으로 주로 소아에서 보이고 성인에서는 드물며 남성에서 여성보다 다소 많은 것으로 알려져 있다^{1,2,8}.

임파관종이 종격동에서 발견되는 경우는 전체 임파관종의 1%에 불과하며 전체 종격동 종양 중 0.7-4.5%



Fig. 3. A T2-weighted MR demonstrates a multi-septate cystic lesion affecting the left upper lobe paratracheal area, a mainly fluid filled lymph node or a fluid filled multicystic lesion.

를 차지한다. 이들은 상부와 전부 종격동에서 가장 많이 발견되고, 드물게는 심막, 폐문부, 폐실질 내에서도 발견되는 경우가 있다^{1,2}.

일반적으로 2살 이하의 소아에서 경부나 액외부에서 발견되고 이것이 종격동으로 확장되는 경우가 전체의 90% 이상이며 어른에서는 종격동에서 발견되는 경우가 소아의 경우보다 많다².

성인에서 발견된 임파관종은 소아기에 진단 후 적절한 절제가 되지 않은 잔여 임파관종이 재발하는 경우도 있으나, 79%에서는 본 증례에서와 같이 선행 임파관종의 과거력이 없었다^{2,12}.

분류는 다양하여 기원에 따라 발생성 (developmental), 과오종성 (hamartomatous), 종양성 (neoplastic)으로 분류하기도 하며⁸, 발생시기에 따라 선천성과 후천성의 2가지로 분류하기도 한다. 발생시기에 따라 해부학적 위치와 성상이 다르며 선천성의 경우에는 소아나 청소년기, 젊은 성인에서 발견되며 경부와 전종격동에서 보이는 경우가 많고 내부에 일부 조직을



Fig. 4. The pathological finding shows numerous irregularly shaped ectatic lymphatic, and focal lymphocytic, aggregations.

함유하고 있다. 후천성의 경우, 성인에서 나타나며 후 종격동이나 종격동 중앙을 차지하는 무조직성의 액상 낭(purely liquid cyst)으로 이루어진다². 또한, 낭성 구조의 크기에 따라 다음과 같이 3가지 분류가 가능하다. 첫째로 단순성 혹은 모세혈관성(simple or capillary) 임파관종은 모세혈관크기의 얇은 임파관으로 이루어져 있다. 둘째로 해면상(cavernous) 임파관종은 본 예에서처럼 보다 확장된 임파관을 갖고 있으며 때로는 부가적인 섬유성 막으로 둘러싸여 있기도 하다. 마지막으로 낭포성(cystic) 임파관종 혹은 낭포성 수혈액 낭종(cystic hygroma)은 수mm부터 수cm 까지 이르는 낭종으로 이루어져 있다^{1, 2, 12}.

증상은 본 증례에서와 같이 대개는 무증상이나, 무통성의 경부 종괴로 발견 되는 경우가 50% 정도이며, 30% 정도는 흉통, 기침, 호흡곤란 등을 보였고 심할 경우 성대마비, 상지이상감각 및 혈관 압박소견, 협착음이 청진된 경우도 관찰된 바 있다^{2, 10, 11}.

임파관종은 전산화 단층촬영상 63%에서는 본 예에 서처럼 부드러운 경계를 갖는 낭종성 종양으로 보이며 조영제에 의한 음영증가 소견은 확실하지 않으나 혈관종 성분(hemangiomatous component)을 갖는 경우나, 혈관 동맥류와 연관된 임파관종에서는 강한 음영증가를 보인다. 간혹은 본 예에서와 같이 석회화 소견을 보일 때도 있고 침상의 경계를 갖거나 균질의 연부조직 음영을 보이는 경우도 있다^{2, 10}. 본 증례에서와 같이 종양으로 인해 정상 구조물들이 밀리는 경우도 있으나, 심하지 않으며 대개 직접적인 침범이 없는 것으로 알려져 있다⁷. 방사선학적으로 감별해야 할 질환으로 피사성 종양, 기형종, 흉선낭종, 심막낭 혹은 기관지 낭종, 혈종, 갑상선종, 감염성 액체 저류등을 들 수 있으나², 영상소견에 근거한 확진은 어려워¹ 본 증례에서는 흉부 방사선촬영과 컴퓨터 단층촬영상 전종격동에 위치한 양성 종괴를 의심하고 수술적 생검을 통해 해면상 임파관종을 확진하였다.

흉부 자기공명영상 소견으로는 임파관종의 정확한 감별이 어려운 것으로 되어있으나 최근의 문헌에 의하면 특히, 해면상 임파관종에서 종괴내에 다방성의 격막을 형성하는 것이 중요한 소견으로 보고된 바 있으며, 본 증례에서도 이와 유사한 소견을 보여주고 있다¹³.

악성변화를 보이는 경우는 보고된 바 없으나, 자연 소실이 없는 것으로 알려졌으며, 대개 국소적 진행을 보이는 경우가 많아 발견당시에 수술 적으로 제거하는 것이 권장되고¹, 재발성의 경우, 저용량 방사선치료를 적용하여 효과를 볼 수도 있다¹⁴. 그러나 최근 보고에 의하면 수술하지 않는 경우, 대개의 경우 임상적 호전을 보이며 완전 관해되는 경우도 상당히 많은 것으로 알려져 있다¹⁵. 조⁷의 증례에서도 수술을 시행하지 않고 경과 관찰하였으나 증상과 크기의 변화를 보이지 않았으며, 본 예에서도 대증적 치료후 임상적 호전을 보였다.

본 예에서는 임상증상의 호전 소견과 고령인 점을 감안하여 단순 추적관찰중이다.

요 약

저자들은 성인에서는 드문 것으로 알려진 종격동 내에서 발생한 해면상 임파관종 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Yacoub MH, Lise M. Intrathoracic cystic hygromas. *Respir Med* 1969;63:107-11
2. Shaffer K, Rosado-de-Christenson ML, Patz EF Jr, Young S, Farver CF. Thoracic lymphangioma in adults: CT and MR imaging features. *Am J Roentgenol* 1994;162(2):283-9
3. 박이태: 종격동 종양 및 낭포. *대한흉부외과학회지* 1983;14:563-70
4. 여동승, 이동일, 이광욱, 강대환, 박순규, 신영기: 종격동 낭포성 임파관종 1예. *결핵 및 호흡기*

- 질환, 1992;39(4):361-5
5. 성시찬, 조성래, 우중수, 이성광: 해면양 임파관종. *대한흉부외과학회지* 1979;12:379-82
6. 정진기, 이상두, 박기용, 정덕용, 이미선, 김종건: 종격동 해면상 림프관종 1례. *소아과* 1993;36:417-22
7. 조상현, 한성구, 심영수, 김건열, 한용철, 김주현, 김철우: 종격동 임파관종 1예. *대한내과학회지* 1987;33:821-5
8. Nanson EM. Lymphangioma(cystic hygroma) of the mediastinum. *J Cardiovasc Surg* 1968;9:447-52
9. Saijo M, Monro IR, Mancer K. Lymphangioma: a long term follow-up study. *Plast Reconstr Surg* 1975;56:642-51
10. Daniel TM, Staub EW, Clark DE. Symptomatic venous compression from a mediastinal cystic lymphangioma. *Chest* 1973;63:834-5
11. Korman MJ, Steiner R, Fish FE. Dyspnea and stridor in a young woman. *Chest* 1986;89:579-81
12. Brown LR, Reiman HM, Rosenow EC, Glociczki PM, Divertie MB. Intrathoracic lymphangioma. *Mayo Clin Proc* 1986;61:882-92
13. Oshikiri T, Morikawa T, Jinushi E, Kawakami Y, Katoh H. Five cases of the lymphangioma of the mediastinum in adult. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2001;7(2):103-5
14. Johnson DW, Klazynski PT, Gordon WH, Russell DA. Mediastinal lymphangioma and chylothorax: the role of radiotherapy. *Ann Thorac Surg* 1986;41(3):325-8
15. Kennedy TL, Whitaker M, Pellitteri P, Wood WE. Cystic hygroma/lymphangioma: a rational approach to management. *Laryngoscopy* 2001;111:1929-37