폐에 발생한 낭성림프관종

-1예 보고-

윤용한* · 김광호* · 조정수* · 이경희** · 김루시아***

Pulmonary Cystic Lymphangioma

-A case report-

Yong Han Yoon, M.D.*, Kwang Ho Kim, M.D.*, Jung-Soo Cho, M.D.*, Kyung Hee Lee, M.D.**, Lucia Kim, M.D.***

Although pulmonary lymphangioma is very rare, it is usually discovered as cystic or cavitary or solitary pulmonary nodular shadow on radiological studies. The final diagnosis is usually made pathologically after surgical intervention. We report an unusual case of pulmonary cystic lymphangioma developed in the lingular segment of the left upper lobe which was diagnosed and treated by surgical resection.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2006;39:872-874)

Key words: 1. Lung pathology
2. Lung neoplasms
3. Lymphangioma

증 례

17세의 여자 환자로 약 2개월간의 경미한 흉통과 피로감을 갖고 있었으나, 그간 일상생활은 정상적으로 하여왔다. 학교의 신체검사에서 촬영한 흉부 X-선 사진에서 이상소견이 있다하여 내원하게 되었다. 내원 당시 이학적 검사에서 좌측 하 흉부에서 호흡음이 약간 감소된 것 이외에 이상 소견은 없었다. 흉부 X-선 사진에서 좌측 흉부 하부 늑골횡격막의 각이 둔해지면서 음영이 증가된 소견을 보였다(Fig. 1).

흉부 전산화 단층촬영에서 심장 좌측 하부 위치에 흉막액이 고여 있으며, 좌 하부 늑막에 작은 결절들이 있는 소견을 보였다(Fig. 2). 이상을 종합하여 국소 늑막 삼출액이 있는 늑막염 또는 폐에 발생한 낭성 종양으로 생각하게 되었다. 입원 후 실시한 혈액 검사에 이상 소견은 없었다. 늑막강 천자를 실시한 결과 맑고 노란색의 늑막 삼출액이 천자되었고, 늑막삼출액에서 적혈구 수는 20/mm^3, 백혈구 수는 790/mm^{3}이었다. 백혈구의 분포는 다형핵구 3%, 림프구 95%, 호산구 2%였다. 포도당은 113 mg/dL, 단백질 양은 3.9 g/dL, Lactic dehydrogenase는 167U/L였다. 늑막액에서의 Acid-fast bacilli 염색은 음성이었고, Adenosine deaminase (ADA)와 Tbc PCR-hybridization도 음성이었다. 세포진 검사에서 악성세포는 발견되지 않았다. 기관지경검사는 정상 소견이었다. 확진을 위하여 전신마취에서 이중구경의 기관삽관과 흉강경술을 실시하였다. 흉강경 소견

*인하대학교 의과대학 인하대병원 흉부외과
Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inha University Hospital, College of Medicine, Inha University
**인하대학교 의과대학 진단방사선과학교실
Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Inha University
***인하대학교 의과대학 병리학교실
Department of Pathology, College of Medicine, Inha University
논문접수일 : 2006년 6월 30일, 심사통과일 : 2006년 7월 18일
책임저자 : 김광호 (400-711) 인천시 중구 신흥동 3가 7-206, 인하대병원 흉부외과
(Tel) 032-890-3512, (Fax) 032-890-3099, E-mail: khkim@inha.ac.kr
본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

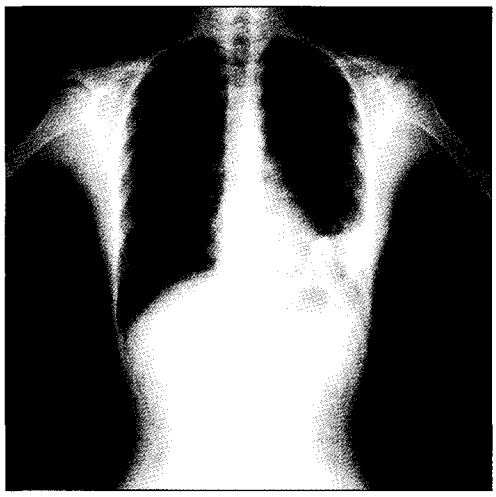

Fig. 1. Chest roentgenogram shows increased opacity in the left lower lung zone with blunted costophrenic angle, suggestive of loculated pleural effusion.

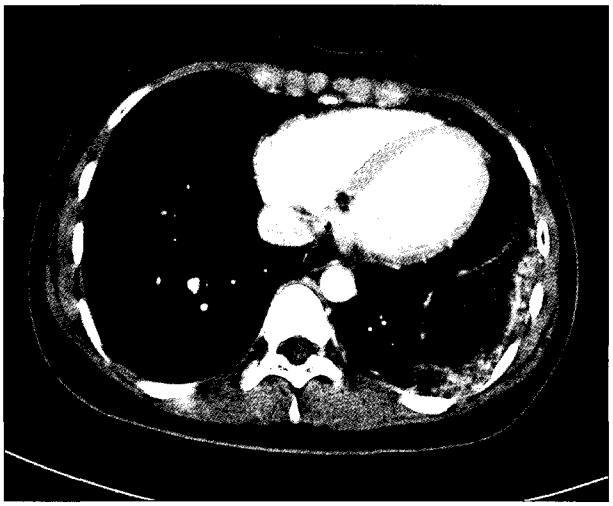

Fig. 2. Contrast enhanced computed tomographic chest scan at the level of the midventricle shows fluid attenuated lesion in the left lower thorax with peripheral enhancing small nodules. Both of loculated pleural effusion and cystic mass can be included in differential diagnosis.

에서 늑막강 내에 삼출액은 없었다. 그러나 상엽의 설상 구역의 측면에서 시작된 10×5×5 cm 크기의 옅은 분홍색의 낭성 종양이 후 측면의 늑막과 횡격막에 유착되어 있었으며, 유착이 있는 주위의 늑막에 많은 소 혈관들이 발달해 있었다. 좌폐 하엽은 종괴에 의하여 눌려 있었다. 유착부위의 박리와 많은 혈관의 발달로 인한 출혈을 효과적으로 대처하기 위하여 측면 수직 근육보존 개흉술로 전

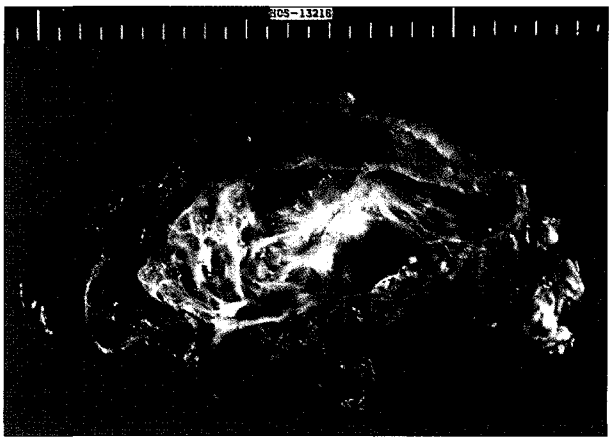

Fig. 3. Cut section of pulmonary lymphangioma. A large cyst containing fresh blood occupies predominant portion of lingular segments of lung. Ill-defined sponge-like lesions, which are composed of microscopic cysts as well as thick-walled small vessels, are seen in the cyst wall.

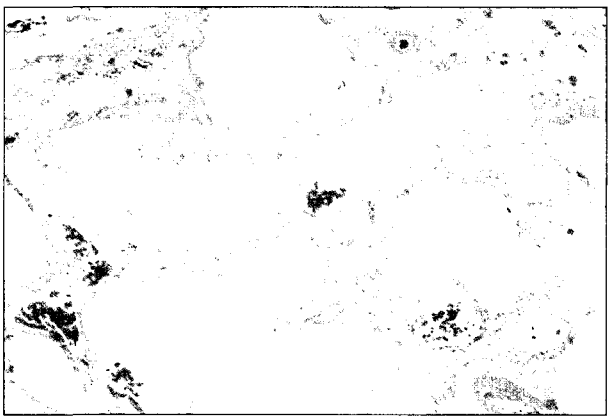

Fig. 4. Microscopic finding of pulmonary lymphangioma. Variable sized lymphatic spaces, which are lined by attenuated endothelium, and poorly developed smooth muscle fascicles are irregularly scattered in the fibrous stroma (H&E, ×40).

환하여 제 6 늑간을 통하여 개흉하였다. 유착을 박리하고 지혈을 하였으며 종괴를 포함한 설상엽을 Autosuture GIA 80 mm stapler (Tyco Health Care Group LP, Norwalk, CT, USA)를 이용하여 쐐기절제술로 제거하였다. 절제 후 종괴를 절단하여 관찰한 결과 낭성 종양으로 혈액을 포함하고 있었으며, 낭종의 내벽에는 스펀지 모양의 작은 낭종들이 존재하였고, 두꺼운 벽을 갖는 작은 혈관들이 발달되어 있었다(Fig. 3). 현미경 소견상 내피세포로 피복된 다양한 크기의 림프관들이 흉막 하 폐실질 내부에 불규칙하게 분포하고 있었으며, 몇 개의 두꺼운 벽을 갖는 비정상적인

주행을 보이는 동맥들이 흉막과 림프선 공간(lymphatic space) 사이에 위치해 있었다(Fig. 4).

환자의 수술 후 경과는 양호하였으며 수술 후 6일째 퇴원으며 수술 후 일년이 지난 현재 정상적인 생활을 영위하고 있다.

고 찰

림프관종은 정상 림프계로부터 분리된 림프계에 림프액이 비정상적으로 고여 종양의 형태를 보이게 된다. 흉부에 발생하는 림프관종은 주로 종격동에 발생하나 드물게는 폐 실질에서도 발생되며, 방사선촬영 소견에서 낭성 형태[1-3]나 단독 폐결절의 형태[4-7]로 발견된다. 본 예의 경우 단순 흉부 X-선 사진과 전산화 단층촬영에서 국소적 늑막삼출의 소견으로 오인될 수 있는 소견을 보였다. 그리하여 늑막강 천자로 노란색의 맑은 흉수를 천자하였는데, 흉수의 검사로는 감별 진단이 되지 않아 삼출액의 원인을 찾기 위하여 흉강경술과 개흉술을 시행하게 되었고, 이로써 진단과 치료가 이루어지게 되었다.

림프관종은 후천적인 요인 즉, 감염이나 방사선치료 후 또는 외과적 수술의 후유증으로 발생될 수 있으나, 대부분의 림프관종은 신생아나 소아기에 원기 림프낭(primordial lymph sac)이 존재하는 장소에 발생하게 된다[8]. 본 예의 경우는 청소년기에 발견되었고 후천적 원인으로 생각할 수 있는 병력이 없어, 선천적인 요인으로 발생된 것으로 추정된다. 낭성 림프관종은 육안 소견상 섬유화된 피막(capsule)에 둘러 싸인 다방성 낭종으로 형성되고 각각의 낭종은 2~3 mm에서 수 centimeter 크기로 낭종 내에는 장성액이 들어있게 된다[8]. 조직학적 소견에서 림프관종은 내피세포들로 이루어진 림프관들이 확장 발달되어 있다. 낭종 내의 장성액은 적혈구가 없는 단백질 액이 들어있다. 경우에 따라서 장성액은 수술 또는 손상으로 출혈이 되어 혈액화될 수도 있다[8]. 본 예에서 낭종의 벽은 늑막에 심하게 유착되고 혈관들이 다수 발달되어 있었으며, 낭종 내의 혈액은 수술 전에 시행한 흉부 천자에 의해 발생되었던 것으로 생각되었다. 이와 같은 소견은 확실한 이유는 알 수는 없으나 림프관종 자체에 이차적인 염증성 변화에 의한 것이 아닌가 생각되었다. 림프관종의 진단은 흉부 X-선 사진과 전산화 단층촬영술로 주로 진단이 되고 치료의 방침이 정해지게 된다. 핵자기공명술도 진단에 도움을 준다. 최종적인 진단은 외과적인 절제술로 조직학적인 확진과 더불어 치료를 하게 된다.

저자들은 17세의 여자 환자에서 좌폐 상엽 설상구역에 발생한 낭성 림프관종을 치험하였기에 문헌고찰과 더불어 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Kim WS, Lee KS, Kim I, et al. *Cystic intrapulmonary lymphangioma: HRCT findings.* Pediatr Radiol 1995;25:206-7.
2. Drut R, Mosca HH. *Intrapulmonary cystic lymphangioma.* Pediatric Pneumology 1996;22:204-6.
3. Lee CH, Kim YD, Kim KI, et al. *Intrapulmonary cystic lymphangioma in a 2-month-old infant.* J Korean Med Sci 2004;19:458-61.
4. Wada A, Tateishi R, Terazawa T, Matsuda M, Hattori S. *Lymphangioma of the lung.* Arch Pathol 1974;98:211-3.
5. Hamada K, Ishii Y, Nakaya M, et al. *Solitary lymphangioma of the lung.* Histopatholgy 1995;27:482-3.
6. Wilson C, Askin FR, Heitmiller RF. *Solitary pulmonary lymphangioma.* Ann Thorc Surg 2001;71:1337-8.
7. Nagayasu T, Hayashi, Ashizawa K, et al. *A case of solitary pulmonary lymphangioma.* J Clin Pathol 2003;56:396-8.
8. Faul JL, Berry GJ, Colby TV, et al. *Thoracic lymphangiomas, lymphangiectasis, lymphangiomatosis, and lymphatic dysplasia syndrome.* Am J Crit Care Med 2000;161:1037-46.

=국문 초록=

폐에 발생하는 림프관종은 매우 드물지만 낭성 형태나 결절 형태로 흉부 X-선 사진에서 발견되며 최종 진단은 절제술 후에 밝혀지게 된다. 저자들은 방사선 촬영 소견에서 국소적인 늑막삼출 형태를 보인 좌폐 상엽 설상구역에 발생된 낭성 림프관종 1예를 치험하여 보고하는 바이다.

중심 단어 : 1. 폐 병리
2. 폐신생물
3. 낭성 림프관종