

## 대장에 발생한 낭성 임파관종

울산대학교 의과대학 외과학교실, 방사선과학교실\*, 내과학교실\*\*,  
병리학교실<sup>†</sup> 및 영동방사선과의원<sup>‡</sup>

황대용 · 황원영 · 김진천 · 이문규\*  
김해련\*\* · 공경엽<sup>†</sup> · 이 용<sup>‡</sup>

= Abstract =

### Cystic Lymphangioma of the Colon

— case report —

Dae Yong Hwang, M.D., Won Young Hwang, M.D., Jin Cheon Kim, M.D., Moon Gyu Lee, M.D.\*  
Hae Ryun Kim, M.D.,\*\* Gyeong Yeob Gong, M.D.<sup>†</sup> and Yong Lee, M.D.<sup>‡</sup>

Department of Surgery, Radiology\*, Internal Medicine\*\*,  
Pathology<sup>†</sup>, College of Medicine, Ulsan University, Yong Dong Radiology Clinic<sup>‡</sup>

Lymphangiomas are benign tumors of lymphatic vessels, that are more commonly found in the pediatric age group. They most commonly occur in the region of the neck and skin. They can occur in the mesentery, omentum, retroperitoneum, and occasionally in the wall of the stomach, duodenum, and the small or large intestine.

The presence of lymphangioma in the colon is rare. Chisholm and Hillkowitz reported the first case of colonic lymphangioma of the rectum in 1931. Other reports, thereafter, appeared sporadically. We have recently encountered two patients in whom a cystic lymphangioma was found in the colon.

This paper reports the experience of the management of colonic lymphomgiomas in our patients along with a review of the literature.

**Key Words:** Cystic lymphangioma, Colon

경험하고 이에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 서 론

임파관종은 신체 어느 부위에서나 발생할 수 있는 양성종양으로 특히 목과 피부에 주로 발생한다. 대장에 발생하는 경우는 1931년 Chisholm등<sup>1)</sup>이 보고한 이후 드물게 보고되고 있다. 저자들은 69세 여자 환자와 47세 남자 환자에서 대장 조영술로 진단하고 수술 후 확진되었던 대장에서 발생한 낭성 임파관종 2예를

### 증 례

#### 증 례 1.

69세 여자환자가 변비와 간헐적 혈변을 주소로 내원하였다. 내원 당시 환자는 경미한 하복부 불편감을 호소하였고 오심, 구토, 발열등은 동반되지 않았다. 이학적 검사상, 우하복부에 경미한 압통이 있었고 종괴

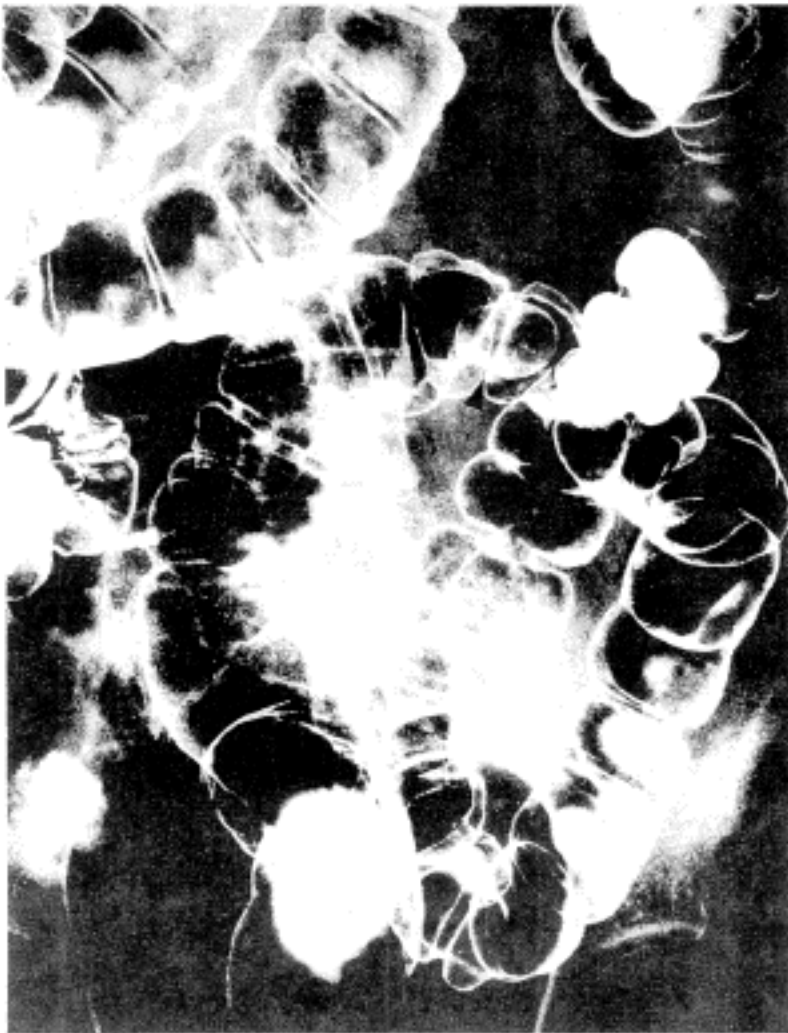


Fig. 1. Barium enema with double contrast study shows a round, well marginated, 2.3×2.6 cm sized intraluminal filling defect at the sigmoid colon.

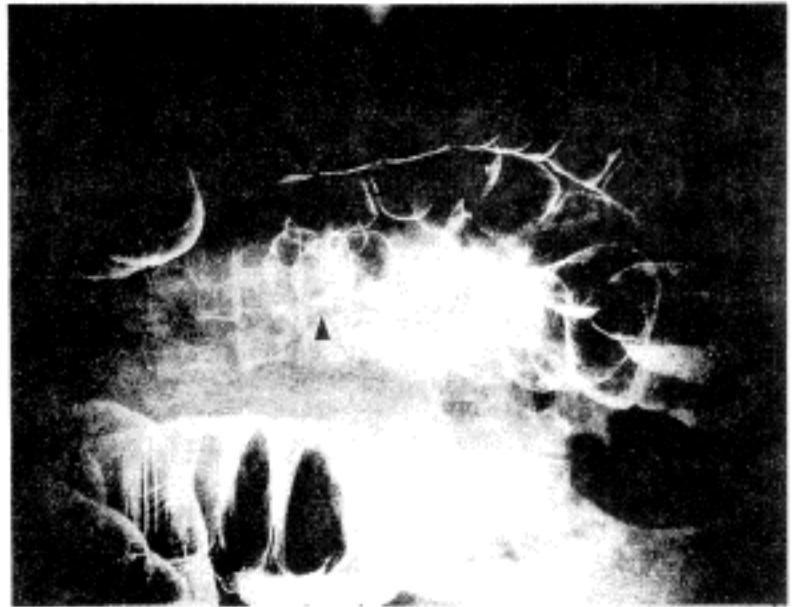


Fig. 2. Barium enema in decubitus view, showing a sharply well marginated polypoid mass.

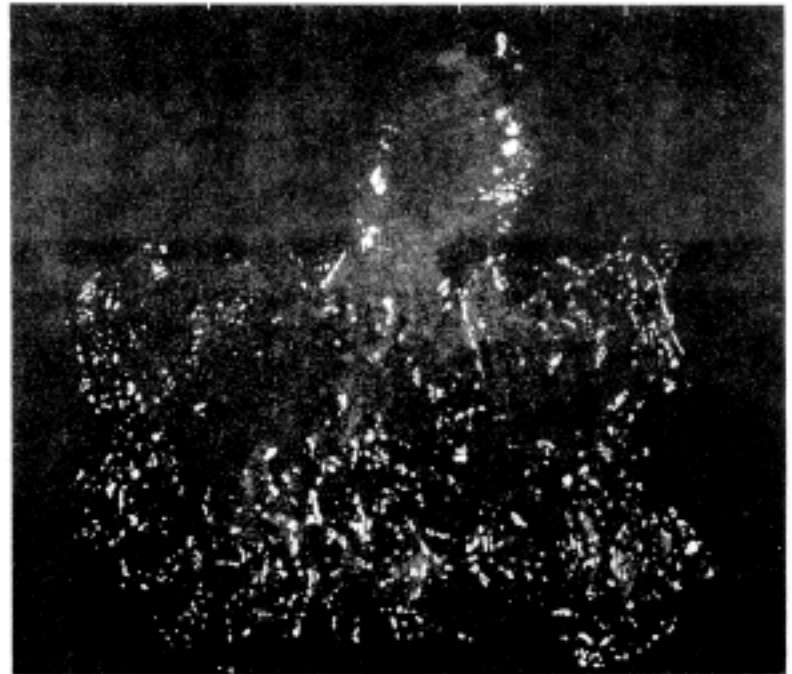


Fig. 3. A pedunculated polypoid mass in the mesenteric border of the sigmoid colon, measuring approximately 2 cm in length.

속지등의 이상소견은 보이지 않았다. 과거력상 10여년 전부터 경미한 변비가 있었고 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. 본원에서 시행한 대장조영술상 S상결장에 비교적 넓은 기저부(base)를 가지고 경계가 뚜렷한 2.3×2.8 cm 크기의 폴립양(polypoid)의 종괴가 발견되었다(Fig. 1, 2).

대장 내시경검사상 항문구(anal verge)에서부터 약 40 cm 상방에 넓은 기저부(base)를 가지는 약 3 cm 크기의 폴립양 병변이 관찰되었고 덮고 있는 점막은 비교적 깨끗하였으며 부분적으로 작은 미란(erosion)이 관찰되었다. 내시경과 시행한 조직검사상 만성 염증성 변화 소견을 보였다. 이후 시행한 CT검사서

특별한 소견은 보이지 않았다.

1992년 4월 13일 시행한 수술 소견상 복강내 복수나 협착은 없었고 병변은 복막반전(peritoneal reflexion) 약 20 cm 상방에서 속지되었고 장막침윤 소견은 보이지 않았으며 주위 림프절의 비대도 관찰되지 않았다. 수술은 S상 결장의 부분절제술을 시행하고 단단문합술을 시행하였다.

수술로 절제된 S상 결장의 육안적 소견은 점막하 종괴가 폴립양으로 결장내강으로 돌출되어 있었다. 크기는 2×2 cm이었으며 종괴를 덮고있는 점막은 정상

소견이었고 미란이나 출혈소견은 보이지 않았다(Fig. 3). 표본의 종절개상 다양한 크기의 낭을 가지는 낭종성 종괴가 관찰되었고 내부에는 비교적 맑은 장액이 함유되어 있었다(Fig. 4). 현미경 소견상 일부 점막층과 점막하층에서 amorphous eosinophilic materials을 함유하고 있고 한층의 편평 내피세포로 싸인 다양한 크기의 다수의 낭을 관찰할 수 있어서 이 낭은 확장된 임파관으로 생각할 수 있었다(Fig. 5, 6).

환자는 수술 후 10일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였

고 현재 추적 관찰중에 있다.

### 증례 2.

47세 남자환자가 1991년 초부터 시작된 하복부 불쾌감을 주소로 내원하였다. 1991년 초부터 변비와 설사가 교대로 나타나 여러병원에서 대장염진단하에 치료하였고 증상이 호전되지않아 방사선과의원에서 복부 초음파와 장조영검사를 시행하였다. 복부초음파상 우하복부에 장에서 기인하는 것으로 생각되는 5cm 크기의 낭성 종괴가 보였고 대장 조영술상에서는 상행결장 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).

본원 내원후 시행한 이학적 검사상 특이한 소견은 관찰되지 않았고 과거력상 10년전 치핵절제술을 받은 것 이외에 특별한 과거력은 없었다.

내원당시의 말초혈액검사, 일반화학검사, 소변검사에서 특이한 이상소견은 없었고 혈청 CEA치도 정상 범위내에 있었다. 1991년 9월 11일 시행한 수술소견상 상행결장 기시부에 궤양을 동반한 5cm 정도 크기의 낭종성 종괴가 관찰되었고 주위조직과 심한 혈착을 보였다. 종괴를 둘러싼 주위조직들은 심한 염증으로 인

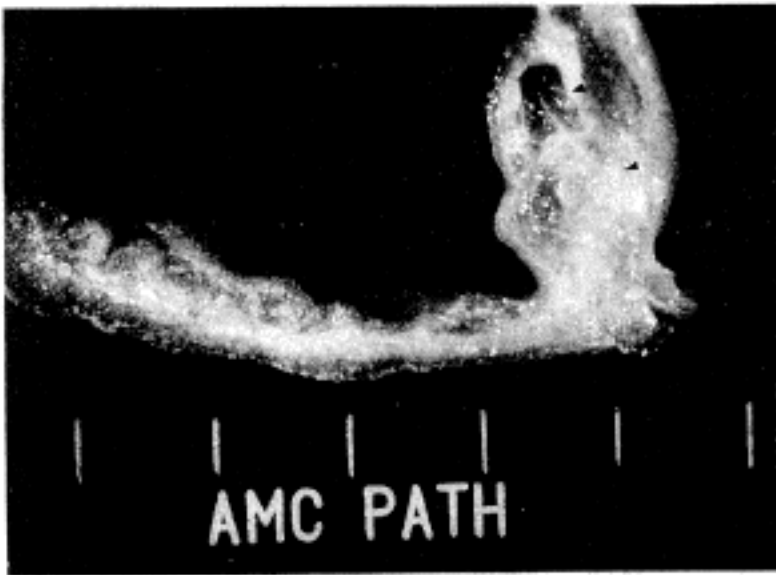


Fig. 4. The longitudinal section shows multilocular cysts in the submucosa.

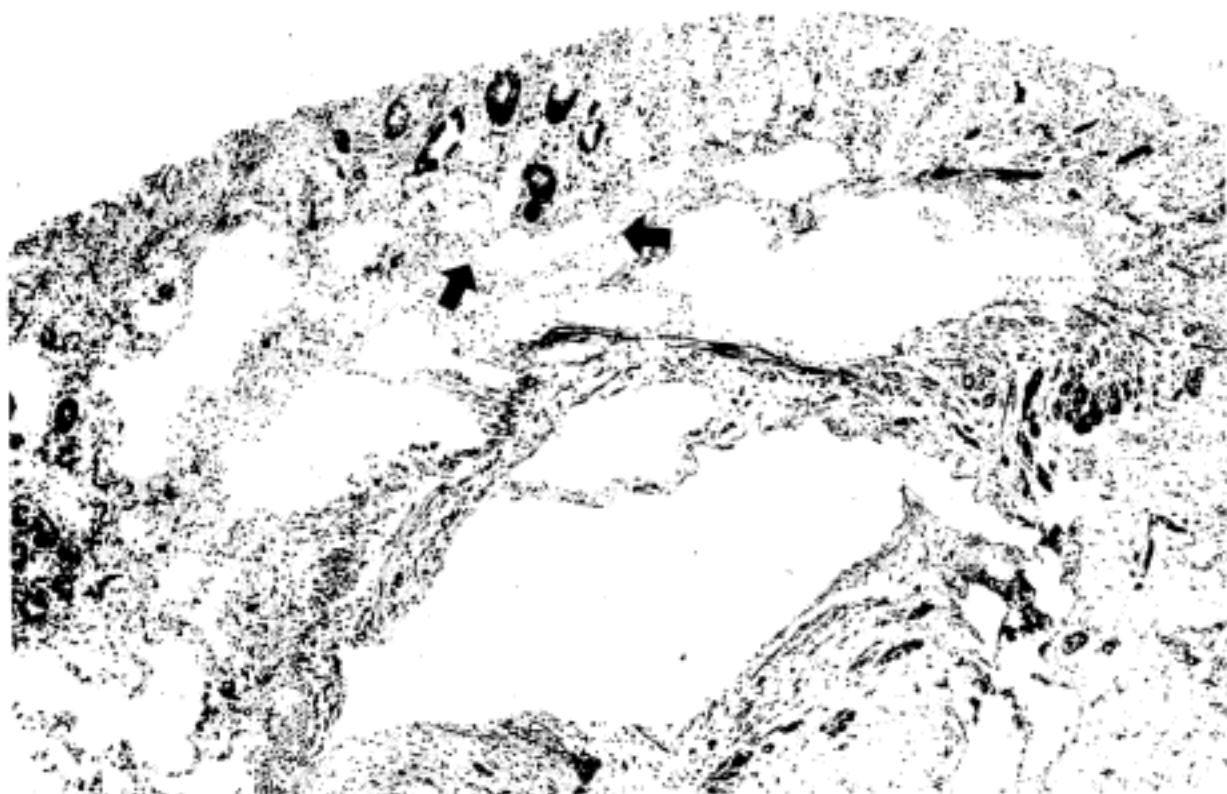


Fig. 5. Multiple, irregular cystic spaces in the mucosa and submucosa with loose stroma (×40, H-E).

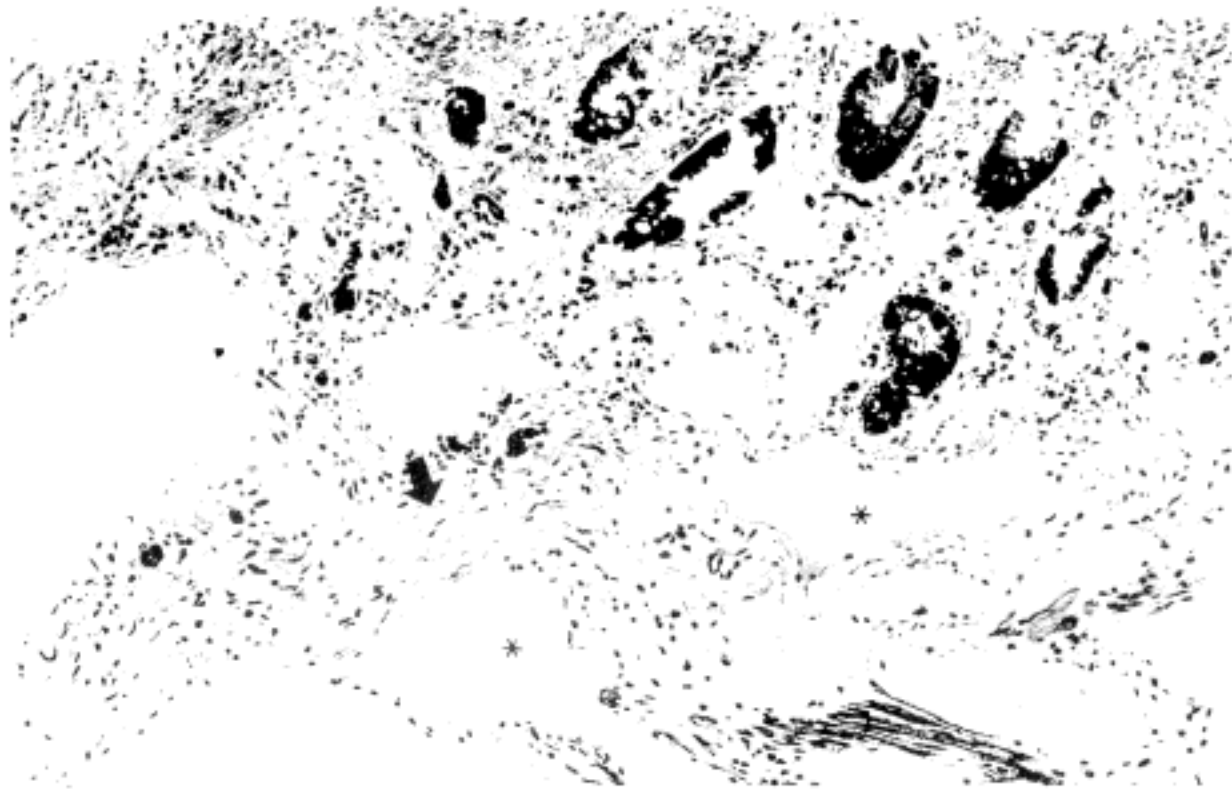


Fig. 6. Same section as Fig. 5. See cystic spaces lined by a thin layer of flattened endothelial cells. Note luminal amorphous material(asteriks). Disorganized muscularis mucosa muscle is also noted(arrow)( $\times 100$ , H-E).

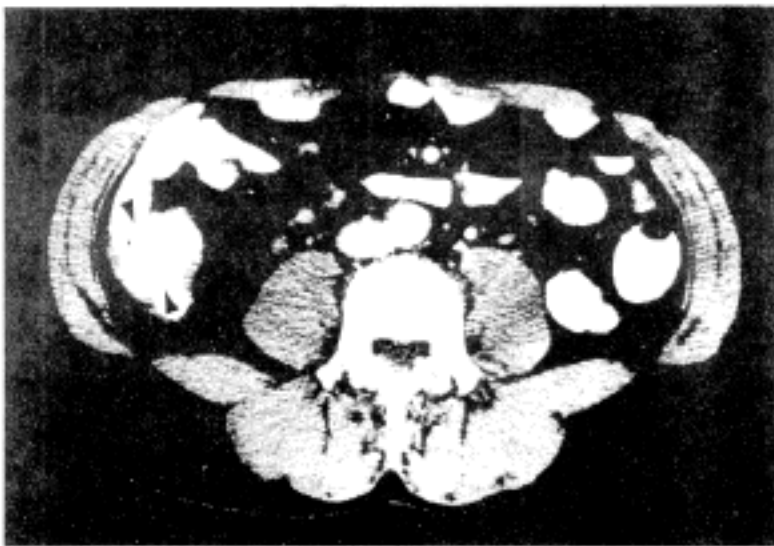


Fig. 7. CT of low abdomen shows irregular wall thickening is noted in the proximal portion of the ascending colon.

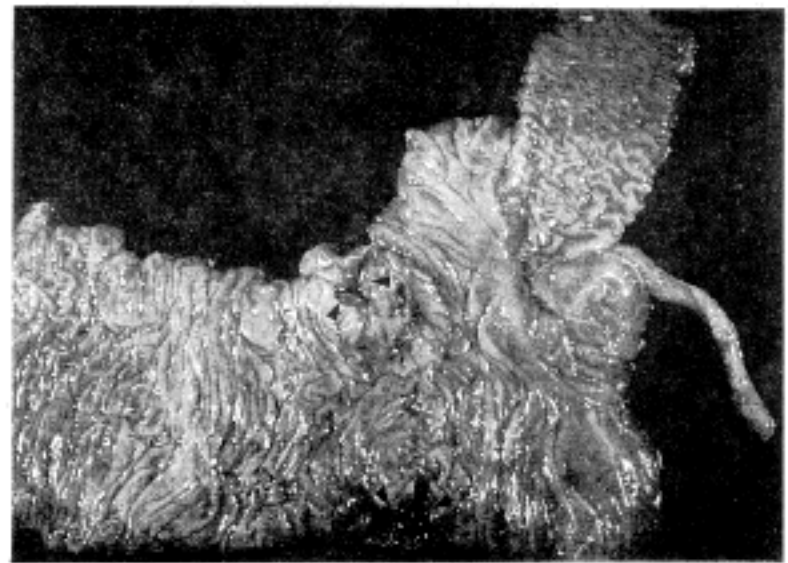


Fig. 8. The cyst, which is ruptured, is seen at the superior and inferior margin of the specimen at the junction of cecum and ascending colon.

해 암적색을 띠고 있었으며 표면은 염증성 삼출물로 보여지는 농막(pus coat)이 관찰되었다. 주위의 연부 조직, 상행 결장 및 말단부회장에 울혈 및 경도의 부종이 관찰되었고 주위 장간막 임파절의 비대를 볼 수 있었다. 복강내에는 비교적 투명한 선홍색의 장액이 소량으로 관찰되었고 그밖에 다른 장기에는 이상소견

이 발견되지 않았다.

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).

광학 현미경 소견상 병변은 한층의 편평 내피세포층으로 둘러 싸인 하나의 커다란 확장된 림파관이 근육층과 장막층에 걸쳐 존재하였다(Fig. 10).

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

## 고 찰

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

대장에 생긴 림파관종은 Chisholm등<sup>11</sup>이 직장에 생긴 것을 처음 보고하였고 이후, Arnett등<sup>12</sup>이 상행결장에, Alvich등<sup>13</sup>이 횡행결장의 우결장곡(hepatic flexure)에, Koenig등<sup>14</sup>, Higgason<sup>15</sup> 그리고 Greene등<sup>16</sup>이 각각 횡행결장에, Fleming등<sup>17</sup>이 하행결장에 생긴것들을 보고하였고, 그 외에도 몇 레가 더 보고되었다. 우리나라에서는 조등<sup>18</sup>이 하행결장에, 장등<sup>19</sup>이 횡행결장에 생긴 림파관종에 대하여 보고하였다.

일반적으로 선종상 용종양 종양(adenomatous polypoid tumor)을 제외하고 대장에 발생하는 양성종양은 드물며 특히 위장관에 발생한 림파관종은 극히 드문 양성종양으로 혈관종(hemangioma) 보다도 발생빈도가 낮다. Raiford<sup>10</sup>는 11,500예의 부검과

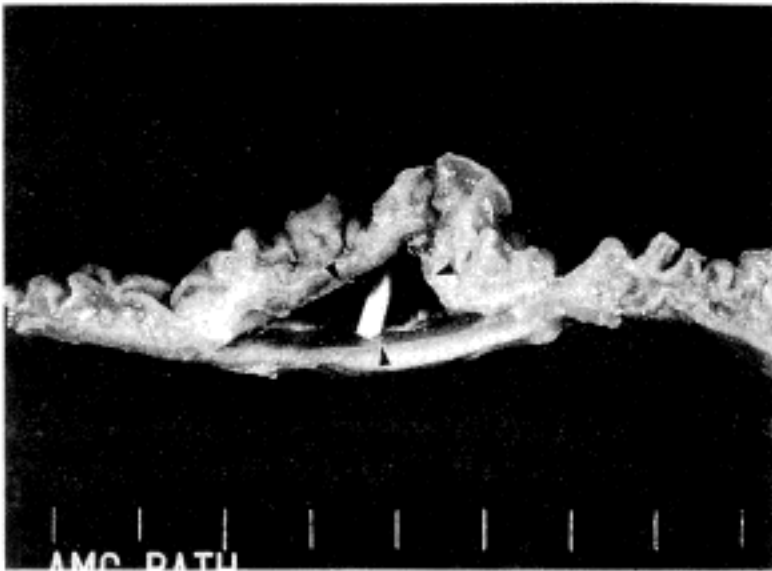


Fig. 9. The longitudinal section shows a large unilocular cyst in the muscle and serosa.

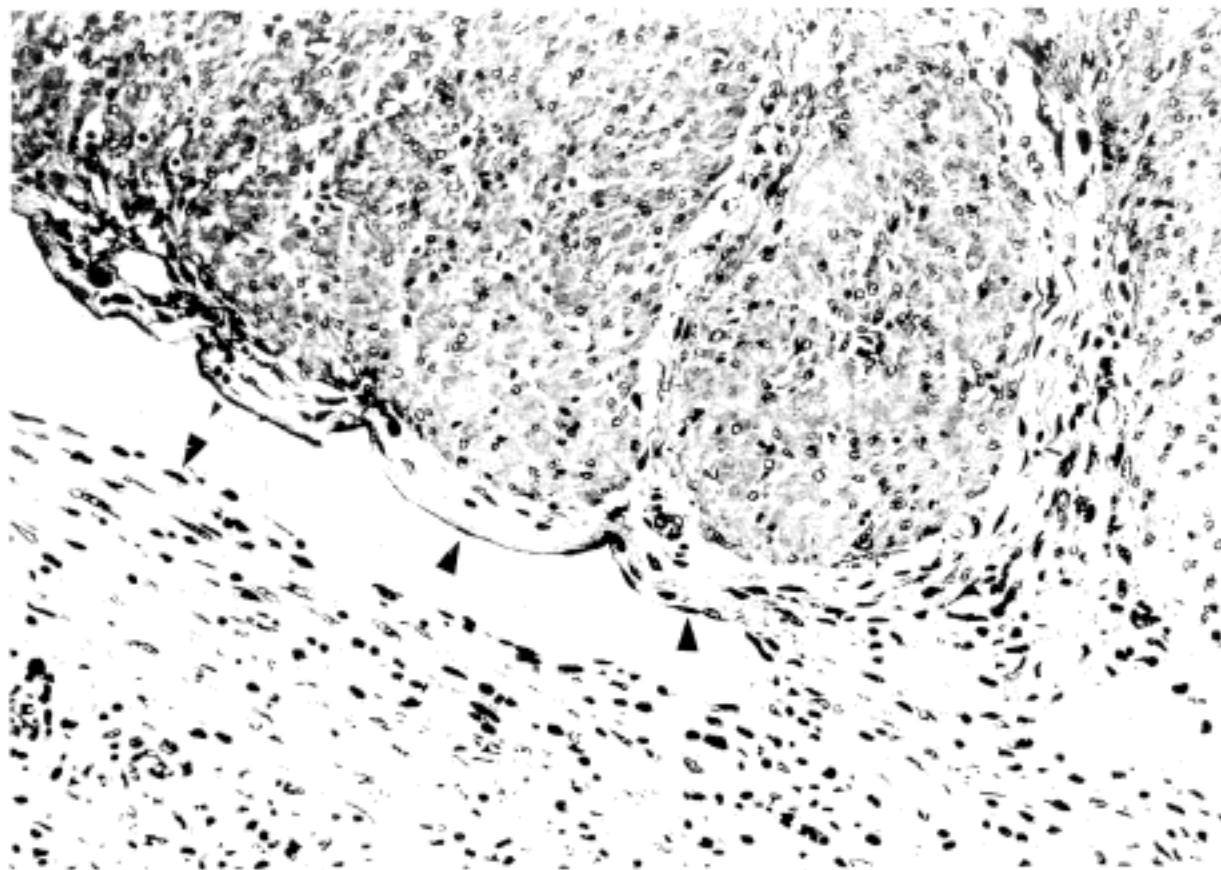


Fig. 10. Microphotography of the resected mass shows a large, widely dilated lymphatic space lined by single flattened endothelial cells involving the muscle and serosa. Note disproportionately a thin wall of the lesion(arrow)( $\times 200$ , H-E).

4,500건의 적출 표본의 분석을 통해 1예의 공장 임파관종(jejunal lymphangioma)과 88예의 위장관양성종양만이 발견되었다고 보고하였고, Helwig<sup>11)</sup>에 따르면 1460예의 부검에 근거한 154예의 양성대장종양중 대장의 임파관종은 한예도 발견되지 않았다고 보고했다. 또한, Stoud와 Turell<sup>12)</sup>은 결장과 직장에 생긴 292예의 종양중 4예의 임파관종이 발견되었다고 기술했으며, Nakagawara등<sup>13)</sup>은 미국과 유럽에서 21예와 일본에서 7예등 대장에서 생긴 임파관종을 모아서 보고 하였다.

1984년에는 Kuroda등<sup>14)</sup>이 14예를 추가하여 그당시까지 발생한 42예를 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.

임상증상은 특징적인 소견이 없이 다양하며 발병 이후 수년간 무증상으로 지내는 경우가 대부분이다. 대부분의 환자들이 내원 당시 복부 불쾌감을 호소하고, 변비, 설사 가끔 출혈소견을 보이기도 한다. 증례 2에서 술전 장중첩증이 의심되었던 것과 같이 비교적 심한 증상유발은 종괴 자체가 매우 크고 그로인해 장의 부분 또는 전폐색이 유발되거나 혹은 장중첩등이 발생하는 경우이다.

수술전 임파관종의 진단은 용이하지 않는데, Kuroda등<sup>14)</sup>이 보고한 42예중 36예에서 술전 다른질환으로 진단했음을 알 수 있다. 17예에서, 지방종, 평활근종 및 낭종을 포함한 점막하 종양으로, 11예에서 폴립으로, 5예에서 악성종양으로 진단하였고, 카시노이드종양(carcinoid), 점액류(mucocele) 및 심부 낭종성 대장염(colitis cystica profunda)이 각각 1예있었다.

이 종양의 다양한 형태와 낭성 특성때문에 방사선 검사로 진단하는 것이 용이하지 않으나 Arnett과 Friedman<sup>2)</sup>은 낭성임파관종의 방사선과적 측면에 대한 보고에서 대장조영술상 경계가 뚜렷한 난원형 또는 원형의 대장 결손(defect) 소견을 보이고 점막손상의 증거가 발견되지 않으면 종양이 장벽내에 위치함을 나타내고 이런 소견이 대장의 다른 종양과 감별할 수 있는점이라고 언급하였다. 또한 이런 소견은 부분적으로 조영제가 충만(filling)되었을때 가장 잘 볼 수 있으며

조영제에 의해 대장이 확장되면서 소실된다고 보고하였다.

하지만 실제로 이런 방사선검사로 지방종과 해면상혈관종(cavernous hemangioma)등과 같은 점막하종양과의 감별진단은 매우 어렵다.

1828년 Redenbacher에 의해 처음 기술된 임파관종은 조직발생학적으로 아직 완전히 알려져 있지 않은데, 주로 소아에서 목과 피부에 발생한 임파관종은 발생학적이상으로 태아기에 임파계와 정맥계사이의 연결결여에 의해 임파계의 낭성확장을 초래함으로써 생긴다고 생각하고 있다<sup>15,16)</sup>. 성인의 대장에서 발견되는 임파관종은 점막하층의 임파관에서 기인하는 것으로 생각되고 그의 발생에 대해서는 몇가지 가설이 있는데, 첫번째는 태아조직이 정상위치가 아닌곳에서 비후되어 발생된다는 발생학에 근거한 설이고, 두번째는 점막하층에 정상적으로 분포되어 있는 임파조직의 이상비후라는 설<sup>17)</sup>, 마지막으로 장간막 임파선의 어떤 원인에 의한 폐색으로 임파선내의 압력이 증가하고 그로인해 정체(stasis)와 확장이 유발되어 발생된다는 가설이 있는데, 마지막 세번째 가설이 가장 유력한 것으로 생각되고 있다.

Willis<sup>18)</sup>는 이 종양은 진정한 신생물(true neoplasm)이라기 보다 일종의 과오종(hamartoma)이며 조직 발생과정에서의 비신생물성 기형(nonneoplastic malformation)에 의한 병변이라고 설명하였고 Alvich와 Lepow<sup>3)</sup>는 임파선이 풍부한 곳에서의 조직의 비정상적인 성장과 혼합에 의해 발생한 과오종성격을 띤 병변일 것이라고 결론지었다. 임파관종에 가장 흔히 사용되는 분류에는 Wegner<sup>20)</sup>가 사용한 단순형(simple), 해면형(cavernous)과 낭형(cystic)이 있다. 종양의 크기는 그동안의 보고에서 0.5 cm에서 10.0 cm 크기까지 다양하며 반수이상에서 3.0 cm 이하의 크기를 보였다. 낭성 임파관종에서 낭(cyst)은 단실성(unilocular)과 다실성(multilocular)으로 나누는데 대장에서는 주로 다실성으로 발견된다. 해면상 임파관종은 조직학적으로 목과 액와부에 주로 발생하는 낭성히그로마(cystic hygroma)와 유사한점을 볼 수 있다.

조직학적으로 특히 낭성임파관종은 다수의 크고 작은 얇은 벽을 가진 임파구(溝)(lymphatic channels)와 임파강(lymphatic spaces)으로 구성되어 있

고 이들은 한층의 편평내피세포(flat endothelial cells)로 피복되어 있다. 또한 이런 벽들에서 섬유조직, 평활근 섬유 및 임파조직의 응집등을 볼 수 있고 그 주위에 분산된 임파구들을 관찰할 수 있다. 임파강 내에는 주로 황색의 장액이 함유되어 있고 간혹 유미액이 보이기도 한다. 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 해면상혈관종등이 있다.

치료는 임파관종 자체의 크기가 작고 폴립양 종괴(polypoid mass)인 경우 내시경적 제거술(endoscopic polypectomy)을 시행한 예도 있는데<sup>13, 21-23)</sup>, 이 경우 장벽의 약화에 의해 큰 게실이 생길 수도 있기 때문에 많은 예에서 볼 수 있듯이 종양을 포함한 장의 부분 절제술이 최선의 치료라고 생각된다.

## 결 론

저자들은 47세 남자환자와 69세 여자 환자에서 대장에 발생한 임파관종 2예를 경험하고 이 종양의 희귀성과 기원 및 조직학적 특징들을 과거 보고되었던 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) Chisholm AJ, Hillkowitz P: *Lymphangioma of the rectum. Am J Surg* 17: 281, 1932
- 2) Arnett NL, Friedman PS: *Lymphangioma of the colon. Roentgen aspects: A case report. Radiology* 67: 882, 1956
- 3) Alvich JP, Lepow HI: *Cystic lymphangioma of hepatic flexure of colon: A case report. Ann Surg* 152: 880-4, 1960
- 4) Koenig RR, Claudon DB, Byrne RW: *Lymphatic cyst of transverse colon: Arch Path* 60: 431-434, 1955
- 5) Higgason JM: *Lymphatic cyst of the transverse colon: Am J Roentgenol* 79: 850-853, 1958
- 6) Greene EI, Kirshen MM, Greene JM: *Lymphangioma of the transverse colon. Am J Surg* 103: 723-726, 1962
- 7) Fleming MP, Carlson HC: *Submucosal lymphatic cysts of the gastrointestinal tract. A rare cause of submucosal mass lesion. Am J Roentgenol* 110: 842-845, 1970
- 8) 조주영, 추원석, 이문성, 김진홍, 조성원, 심찬섭: 대장에 발생한 임파관종 1예. *대한소화기병학회지* 22: 982, 1990
- 9) 장용석, 유 희, 심찬섭, 진소영: 대장에 발생한 낭포성 임파관종 1예. *대한소화기병학회지* 24: 637, 1992
- 10) Raiford TS: *Tumors of the small intestine. Arch Surg* 25: 122-77, 1932
- 11) Helwig EB: *Benign tumors of the large intestine: incidence and distribution. Surg Gynecol Obstet* 76: 419-26, 1943
- 12) Stout AP, Turell R: *Diseases of the colon and anorectum: Philadelphia, WB Saunders, 305-19, 1969*
- 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* 24: 291-5, 1981
- 14) Kuroda Y, Katoh H, Ohsato K: *Cystic lymphangioma of the colon. Report of a case and review of the literature. Dis Colon Rectum* 27: 679-682, 1984
- 15) Godart S: *Embryological significance of lymphangioma. Arch Dis Childh* 41: 204-209, 1966
- 16) Singh S, Baboo ML, Pathak IC: *Cystic lymphangioma in children. Report of 32 cases including lesions at rare sites. Surgery* 69: 947-951, 1971
- 17) Ritvo M, Shauffer IA: *Gastrointestinal X-ray diagnosis: Philadelphia, Lea & Febiger 497-499, 1952*
- 18) Ruppel ID, Morris LE Jr: *Lymphangioma of the jejunum. Arch Path* 38: 410-412, 1944
- 19) Willis RA: *The borderland of embryology and pathology. London: Butterworth 348-50, 1958*
- 20) Wegner G: *Lymphangioma. Arch Klin Chir* 20: 641-707, 1877
- 21) Lawson JP, Myerson PJ, Myerson DA: *Colonic lymphangioma. Gastrointest Radiol* 1: 85-9, 1976
- 22) Geboes K, Wolf-Peeters CD, Rutgeerts P, Vantrappen G, Desmet V: *Submucosal tumors of the colon: experience with twenty-five cases. Dis Colon Rectum* 21: 420-5, 1978
- 23) Itoh T, Murakami T, Shiotani A, et al: *Lymphangioma of the colon: a case report. Rinsho Geka* 32: 515-8, 1977