

위에 발생한 낭성 림프관종 1예

고신대학교 의학부 병리학교실

옥순애 · 정숙금 · 허 방 · 허만하

Cystic Lymphangioma of the Stomach

— A case report —

Soon Ae Oak, M.D., Sook Guem Jeong, M.D., Bang Hur, M.D. and Man Ha Huh, M.D.

Department of Pathology, Kosin Medical College, Korea

Cystic lymphangiomas of the stomach are extremely rare. These usually present as asymptomatic, polypoid lesion consisting of cystically dilated lymphatic vessels, which are submucosal in location.

We report a case of cystic lymphangioma of the stomach. The patient is a 55 year-old woman who has complained of dull pain on epigastrium for 10 years. The mass measures 6×5 cm in cross diameter and is mainly located in the subserosal layer along lesser curvature. Microscopically, the tumor reveals a large number of dilated lymphatic cysts containing serous fluid, lined by a layer of flattened endothelial cells. Ultrastructurally, lining endothelial cells show thin discontinuous basal lamina, in contrast to normal lymphatics. (**Korean J Pathol 1993; 27: 670~672**)

Key Words: Cystic lymphangioma, Gastric tumor

림프관종은 혈관종에 비해 드문 양성 종양이며, 림프관계 조직이 분포하는 신체의 어느 부위에서나 생길 수 있지만, 주로 두부, 경부 및 액와부에서 호발하는 것으로 알려져 있고, 드물게 내장장기에서 발생하기도 한다¹⁾.

위의 종양은 약 5%가 양성이며, 그중 림프관종의 발생빈도는 매우 낮은 것으로 알려져 있다²⁾. 위장관의 림프관종은 현재까지 드물게 외국 문헌에 보고되고 있으며, 국내에서는 1예가 보고된 바 있으나³⁾, 전자현미경적 소견은 기술되어 있지 않다. 전에 보고된 예들은 대체로 무증상이거나 내시경 소견상 위내강으로 돌출하는 점막하 종양의 형태를 보이는 경우가 대부분이었다⁴⁾.

그러나, 최근 저자들은 10년 동안 상복부 둔통을 앓아온 55세 여자 환자에서 위의 장막쪽으로 융기된 소

견을 보이는 림프관종 1예를 광학 및 전자현미경적으로 관찰하고, 본 종양의 회귀성에 비추어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

임상소견: 환자는 55세 여자로서 10년 전부터 있어온 상복부 둔통이 최근에 심해져서 본원 내과에 입원하였다. 이학적 검사상 좌상복부에 무통성의 종괴가 촉진되는 것 이외에는 특이소견이 없었다. 과거력상 10년전 다른 병원에서 내시경검사를 통해 만성위염으로 진단받고 약물치료를 받았으나, 상복부의 둔통은 경감되지 않고 간헐적으로 있었다. 입원 후 시행한 위내시경 검사에서 위의 유문부에 작은 궤양성 병변 이외에 특이 소견은 없었다. 상복부 초음파 검사상 췌장두부에 2×2 cm 크기의 무반향성 종괴가 인지되었다. 복부 전산화 단층 촬영소견상 위의 후측부와 췌장두부 사이에 저밀도 음영의 종괴가 관찰되어(Fig. 1), 췌장의 낭성종괴 의진하에 시험적 개복술을 시행하였다. 수술소견상, 위의 소만부위를 따라 체부에서부터 전정부에 걸쳐서 위치하며, 장막쪽으로 약간 돌출하는 다

접 수: 1993년 5월 31일, 게재승인: 1993년 7월 8일
주 소: 부산시 서구 암남동 34번지, 우편번호 602-030
고신의료원 해부병리과, 옥순애

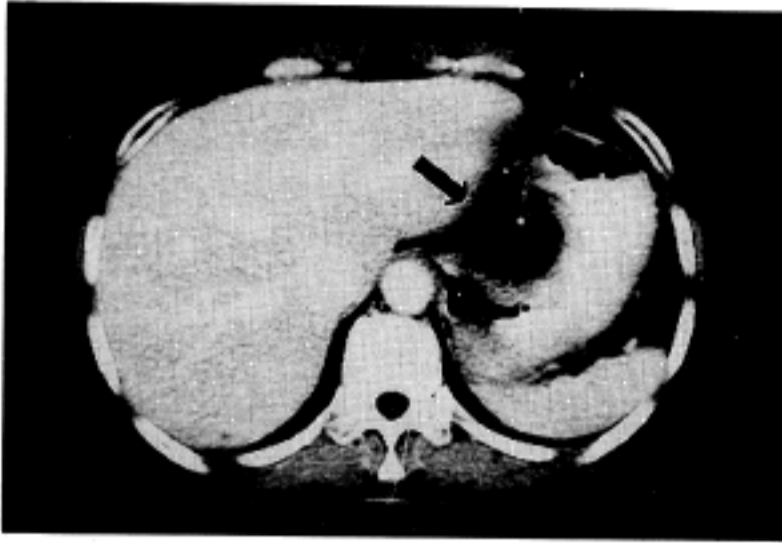


Fig. 1. The upper abdominal computed tomography shows an irregular homogenous soft tissue mass located between retrogastric portion and upper anterior portion of pancreas.

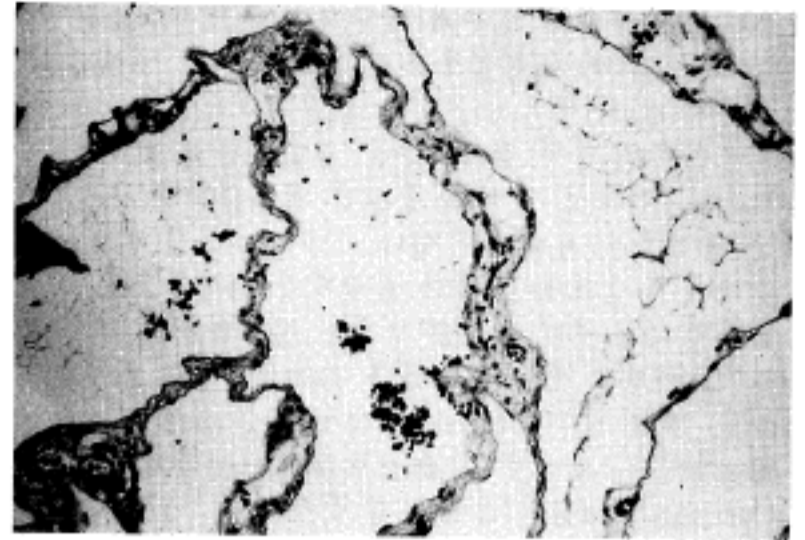


Fig. 3. Irregular sized lymphatic cysts lined by flattened endothelial cells are noted.



Fig. 2. Cut surface of the gastric wall shows a sponge-like mass consisting of variable sized cystic structures.

방성 낭성 종괴가 관찰되었다. 종괴는 장경 10cm 정도였으며, 주위조직과 비교적 경계가 잘 지워졌고, 췌장과는 무관하였다. 종괴를 포함한 위의 부분절제술을 시행하였다.

육안소견: 적출된 위 조직의 육안 검사상, 장막쪽으로 돌출하는 6×5cm 크기의 다방성 낭성 종괴가 약간 허탈된 상태로 관찰되었다. 종괴를 덮고 있는 점막층은 손상되지 않고 거의 정상이었다. 절단면상, 종괴는 위의 근육층에서부터 장막층에 걸쳐 위치하며, 장액성 물질을 포함한 다양한 크기의 낭성구조들이 해면양 구조를 보였다(Fig. 2).

현미경 소견: 불규칙한 크기와 모양의 림프관성 포낭들이 주로 장막하층에 분포하고 있으며, 근육층에 위치하는 포낭들은 허탈되어 드물게 관찰되었다. 점막

하층의 림프관도 미만성으로 확장되어 있었다. 이러한 포낭들은 한 층의 납작한 내피세포로 덮혀 있었고, 포낭 내에는 림프양 물질이 들어있는 곳도 관찰되었다. 작은 포낭들은 얇은 교원질 외막층으로만 둘러싸여 있으나, 큰 포낭들은 불규칙한 평활근 섬유다발을 함유한 분명한 결체조직을 가지고 있었다. 비교적 넓은 간질조직 내에는 국소적으로 림프구들이 침윤하고 있었다(Fig. 3).

전자현미경 소견: 파라핀 포매조직을 이용한 전자현미경적 검색소견상 림프관성 포낭을 피복하는 내피세포의 세포질에서 소수의 포음소포(pinocytotic vesicle), 사립체, 내형질 세망, 지방갈색소 과립 등이 관찰되었을 뿐만아니라 내피세포의 기저부에서 불연속적인 기저판이 관찰되었다. 간질부위에서는 교원섬유다발들이 관찰되었다.

위에 발생한 림프관종은 1953년 Stout가 케양 때문에 절제한 위 소만부 조직에서 우연히 점막하 림프관종을 발견하여 보고한 이래, 위를 비롯한 장관계에서 발생한 림프관종이 드물게 보고되어 왔다. 대부분의 예들은 부검시 우연히 발견된 것으로서 임상적으로 증상을 나타낸 예는 드물며, 종괴는 위장관의 점막하에 위치하여 내강으로 돌출하는 용종양의 형태를 보였다^{1,2)}. 본 증례의 경우, 전에 보고된 대다수의 예와는 달리, 환자가 10년 동안 간헐적으로 상복부 동통을 앓아왔으며, 내시경 소견상 내강으로 돌출하는 종괴는 관찰되지 않고, 복부 전산화단층촬영에서 위의 후측부와 췌장 두부사이의 종괴 형태를 보였다. 적출된 위의 절단면 소견상, 종괴는 장액성 물질을 함유한 크고 작은 포낭들로 이루어진 해면양 구조를 보였는데, 근육층의 포낭들은 허탈되어, 주로 장막하에 위치하는 소견을 보였다. 위장관계의 림프관종이 대부분 무증상인 이유에 대해서는 전의 보고에서도 설명되어진 바는 없

으나, 본 증례의 경우에 발현되어진 임상증상은 점막층에서 관찰된 염증반응으로 인해 야기된 증상으로 해석되어 진다.

대부분의 경우 림프관종을 진단하는데 별 어려움은 없으나, 이차성 출혈을 동반한 림프관종일 경우 해면상 혈관종과 혼동되기 쉽다. 그러나, 간질에 림프구의 침윤이 동반되거나, 좀더 불규칙한 낭성구조로 보이는 종양일 경우에는 혈관종 보다는 림프관종에 더 근접된 조직소견으로 인정되고 있다. 그외, 복강내 림프관종일 경우 낭성 중피종(cystic form of mesothelioma) 및 췌장의 소낭성 선종(microcystic adenoma of the pancreas)과 감별이 중요시 된다. 낭성 중피종은 림프관종의 낭포보다 크기변화가 심한 선양구조로 구성되며, 종양세포들은 수 많은 미세융모를 가진다. 반면에 림프관종의 세포들을 정상 내피세포와 유사하게 매끈한 윤곽을 보인다. 췌장의 소낭성 선종은 림프관종보다는 더 규칙적인 선양구조로 구성되며, 이들은 입방형 또는 낮은 키의 장방형 외피세포로 피복되며, 림프관종과는 달리 작은 모세혈관이 풍부한 간질조직소견을 보인다⁴⁾. 본 증례의 경우에도 임상외사가 종괴를 췌장의 낭성종양으로 의진하였으나, 병리조직학적으로 위에 발생한 낭성 림프관종으로 확진되었다.

림프관종의 발생기전은 아직 확실하게 정립되어 있지 않지만, 대부분의 보고자들은 림프관종을 림프관계와 정상적으로 교통하는데 실패한 림프관 조직의 분리편(sequestration)에서 기원한 일종의 기형종으로 이해하고 있다¹⁾. 그러나, Goetsch등²⁾은 림프관종은 진성 종양이며, 국소적으로 침윤하는 양상을 보일 수도 있다고 주장하기도 하였으며, 염증으로 인해 림프관의 폐쇄와 섬유화가 야기되어 생긴다고 주장하는 사람도 있다³⁾. Shilkin등⁵⁾은 위장관계에서 발생한 림프관종의 병인기전에 대해서 장관의 림프관 확장증과는 달리 림프관계의 폐쇄와는 무관하게 여기고 있다. Aase와 Gunderson등⁶⁾은 병인기전이 장벽의 노화현상과 관

련이 있을 것으로 추정하였는데, 그 근거로서 35세의 점막하 림프관성 낭종 가운데 55세이하의 환자는 한 예도 없었다고 주장하였다. Yamamoto등⁷⁾이 고찰한 27예에서 위의 림프관종 환자의 평균연령은 51세었다고 한다. 본 예의 연령도 55세로서 노년층에 속하지만, 병변이 장벽의 노화현상과 관련된 것인지에 대해서는 증례의 축적과 함께 연구가 필요한 것으로 사료된다.

참 고 문 헌

- 1) Fleming MP, Carlson HC. Submucosal lymphatic cysts of the gastrointestinal tract: A rare cause of submucosal mass lesion. *Am J Roentgen Radium Ther Nucl Med* 1979; 110: 842-5.
- 2) Colizza S, Tiso B, Bracci F, Cudemo RG, Bigotti A, Cristi E. Cystic lymphangioma of stomach and jejunum: Report of one case. *Journal of Surgical Oncology* 1981; 17: 169-76.
- 3) Kim YJ, Chung KS, Chang JB, Lee SI, Park IS, Choi HJ, Lee KS, Cho NH, Park CI. Submucosal Cystic lymphangioma of the stomach. *Yonsei medical journal* 1989; 30: 387-91.
- 4) Enzinger FM, Weiss SW. *Soft tissue tumor*. St. Louis: The C.V Mosby Company, 1988; 614-27.
- 5) Shilkin KB, Zermann BJ, Blackwell JB. Lymphangiectatic cysts of the small bowel. *J Path Bact* 1968; 96: 353-8.
- 6) Aase S, Gunderson R. Submucosal lymphatic cyst of the small intestine, an autopsy study. *Acta Pathol Microbio Immunol Scand Sect A*. 1983; 91: 191-4.
- 7) Yamamoto T, Takejima R, Takeishi H, Nishimura Y, Watanabe M, Ukyo S, Uchino H, Tobe R, Ishiki K. Lymphangioma of the stomach-report of a case and review of Japanese literature. *Gastroenterological Endoscopy* 1979; 21: 858-65.