

CASE REPORT

## 소장간막에서 발생한 해면상 림프관종 1예

홍인택, 차재명, 이정일, 주광로, 백일현, 신현필, 전정원, 임준욱

경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 내과학교실

### A Case of Cavernous Lymphangioma of the Small Bowel Mesentery

In Taik Hong, Jae Myung Cha, Joung Il Lee, Kwang Ro Joo, Il Hyun Baek, Hyun Phil Shin, Jung Won Jeon, and Jun Uk Lim

Department of Internal Medicine, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, Seoul, Korea

Lymphangioma is a benign vascular lesion with characteristics of subepithelial tumor which can proliferate in the lymphatic system. Lymphangioma of the small-bowel mesentery is rare, having been reported in less than 2% of all lymphangiomas. Lymphangioma does not require any specific treatment because it is absolutely a benign tumor. However, surgical exploration is rarely required for cases with disease-related symptoms or complications, or for those misdiagnosed as a malignant lesion. We recently experienced a case of mesenteric cavernous lymphangomas in a 53-year-old female who was misdiagnosed as having a liposarcoma. The final diagnosis was confirmed by a pathologic examination of the specimen that was obtained via laparoscopic exploration. Herein, we report a very rare case of mesenteric cavernous lymphangioma along with a brief review of relevant literature. (*Korean J Gastroenterol* 2015;66:172-175)

**Key Words:** Lymphangioma; Mesentery; Intestine, small; Neoplasms

## 서론

림프관종은 비교적 드문 양성 종양으로 선천적 기형, 염증, 외상, 또는 변성 후에 림프관의 폐쇄 때문에 발생할 수 있는 것으로 알려져 있으며, 주로 소아에서 발견된다.<sup>1,2</sup> 발생 부위의 대부분은 두정부와 액와부이며, 5% 정도가 종격동, 장막, 후복막, 음낭 등에서 발생한다.<sup>3</sup> 소장에는 발생하는 림프관종은 소아에서 발생하는 소장 종양 중 약 6% 정도를 차지하며, 성인의 경우에는 1.4-2.4%로 매우 드문 질환이다.<sup>4,5</sup> 림프관종은 발생 빈도가 매우 낮기 때문에 진단이 어려울 뿐만 아니라, 증상이 없어서 우연히 발견되는 경우가 많다.

저자들은 소장간막에서 발견된 해면상 림프관종을 악성 병변으로 오인하여 수술한 증례를 경험하여 이를 보고한다.

## 증례

평소 건강하던 53세 여자가 내원 8개월 전 타 병원에서 건강 검진 목적으로 시행한 내시경검사서 위 상피하 종양이 발견되었으며, 이때 시행한 복부 컴퓨터단층촬영에서 복강 내에 1.3 cm 크기의 지방성 종양을 진단받았다. 하지만, 7개월 후 추적검사한 복부 컴퓨터단층촬영에서 종양의 크기가 2 cm로 증가되어, 수술적 치료를 위해 본원으로 전원되었다. 환자의 가족력과 과거력에서 특이 사항은 없었다.

내원 당시 활력 징후는 혈압 120/70 mmHg, 맥박 수 68회/분, 호흡 수 20회/분, 체온 36.5°C로 정상이었다. 신체검사에서 병색은 없었고 의식은 명료하였으며, 복부 진찰에서 복부는 전반적으로 부드러웠고, 장 운동음은 정상이며, 만저지는 종괴도 없었다. 혈액검사서 백혈구 4,200/mm<sup>3</sup>, 혈색소

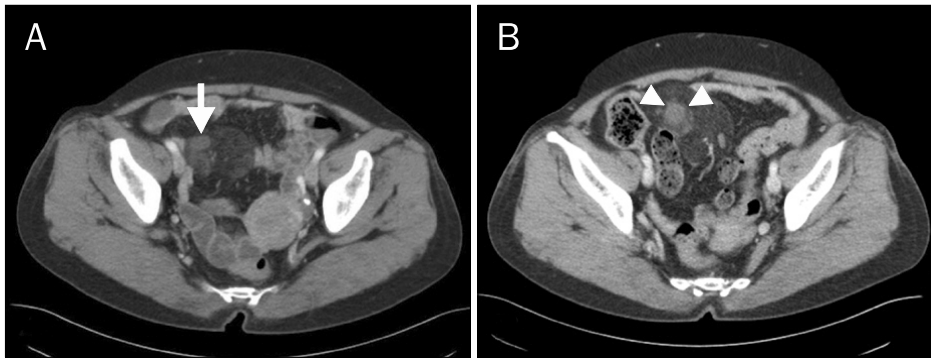
Received February 11, 2015. Revised March 24, 2015. Accepted April 1, 2015.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.  
Copyright © 2015. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 차재명, 05278, 서울시 강동구 동남로 892, 경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 내과학교실

Correspondence to: Jae Myung Cha, Department of Internal Medicine, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, 892 Dongnam-ro, Gangdong-gu, Seoul 05278, Korea. Tel: +82-2-440-6113, Fax: +82-2-440-6295, E-mail: drcha@khu.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.



**Fig. 1.** Abdominal CT findings. (A) Initial CT shows 1.3 cm sized soft tissue mass (arrow) in small bowel mesentery. (B) Follow-up CT shows increased size of the lesions from 1.3 to 2 cm (arrowheads) compared with previous CT scan performed 7 months ago.

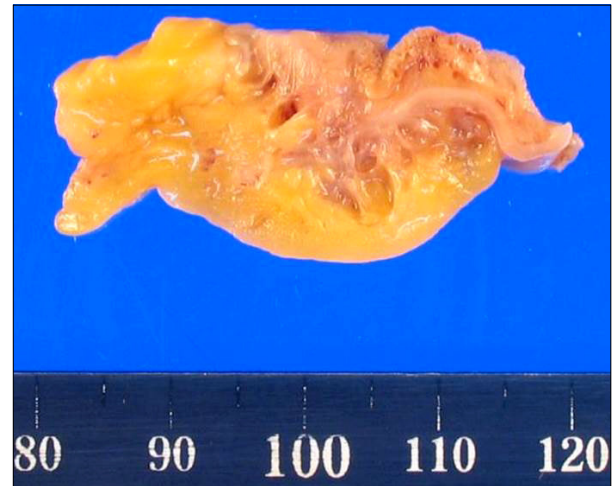


**Fig. 2.** Laparoscopic exploration demonstrates mesenteric fat thickening and cystic mass.

13.5 g/dL, 혈소판  $171,000/\text{mm}^3$ 로 정상 소견이었으며, 그 외 생화학검사, 소변 및 대변검사, 흉부 및 복부 단순 X-선검사와 심전도검사도 모두 정상이었다. 종양표지자인 혈액 발암배아성 항원은  $2.74 \text{ ng/mL}$ 로 정상 범위였다.

7개월 간격으로 외부 병원에서 시행한 복부 컴퓨터단층촬영을 다시 검토한 결과, 복강 내의 소장간막에 있던 종양의 하ouns필드 단위는 이전 검사(Fig. 1A)에서는 -3이었으나 추적검사에서는 39의 고음영으로 바뀌었으며, 크기도 1.3 cm에서 2.0 cm로 확연하게 증가되어(Fig. 1B), 악성 지방종의 가능성을 생각할 수 있었다. 따라서, 악성 지방종의 가능성을 배제하기 위하여 종양의 수술적 절제를 결정하였다. 시험적 개복술로 시행한 복강경 수술에서 두꺼워진 지방층과 장간막의 종괴가 발견되어(Fig. 2), 장간막을 포함한 소장절제를 시행하고 단단문합술을 시행하였다.

종양의 절단면상 육안 소견에서 여러 개의 낭종들로 구성된  $3.5 \times 1.5 \times 1.2 \text{ cm}$  크기의 종양이 관찰되었다(Fig. 3). 종양의 현미경 소견에서는 다수의 확장된 낭종성 공간과 낭종벽들이 관찰되었다. 낭종벽을 따라 얇은 내피세포막이 줄을 이루고 있었고, 이 내피세포들은 림프관 내피세포형체인 D2-40에



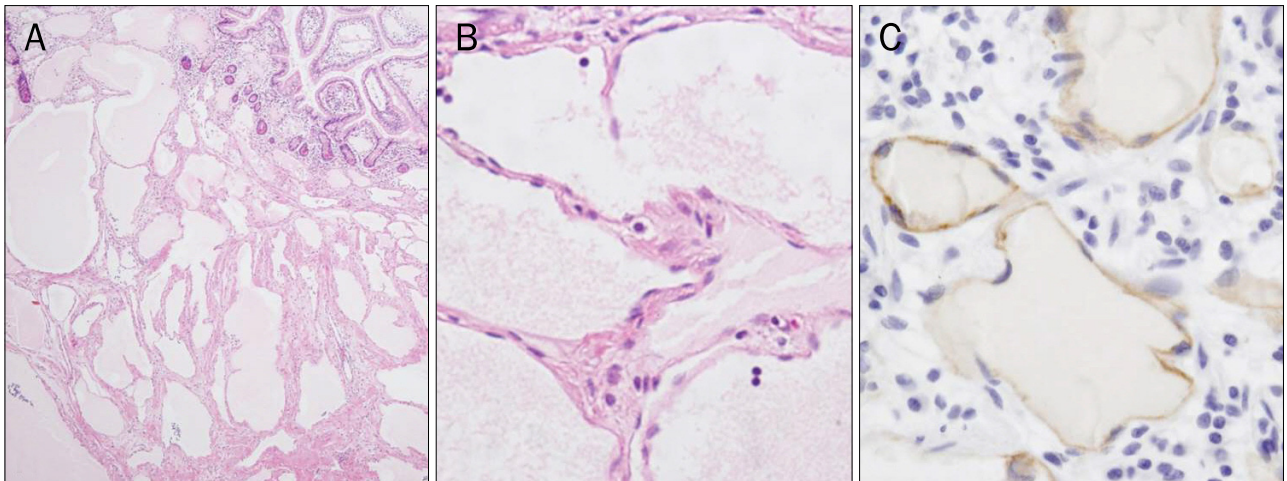
**Fig. 3.** Gross finding of resected specimen. Gross pathologic examination reveals a  $3.5 \times 1.5 \times 1.2 \text{ cm}$  sized mass composed of various-sized cysts.

양상을 보이고 있었으며(Fig. 4), 그 내부에는 여러 개의 림프성 여포들이 나타나고 확장된 낭종성 공간 안에는 단백질 성분의 액체가 들어있었다. 이와 같은 조건들을 종합하여 소장간막의 해면상 림프관종으로 진단하였다. 낭종성 공간 안의 단백질 성분의 액체 때문에 종양의 크기가 증가하고 종양의 하ouns필드 단위가 변화된 것으로 생각되었다.

환자는 수술 후 3일 후에 퇴원하였으며, 현재 외래에서 경과 관찰 중이다.

## 고 찰

림프관종은 림프계에 림프액이 비정상적으로 고여 다수의 림프관으로 구성된 양성 종양이다. 이 종양은 발생기에 유발된 림프관 형성 기형으로 발생한다고 추정하고 있지만 정확한 기전은 아직까지 밝혀지지 않았다.<sup>1,2</sup> 이 종양은 모든 연령층에서 발생할 수 있지만, 2세 이하의 소아에서 80-90% 정도가 발생하고 성인에서 발생하는 경우는 매우 드물며, 신체 기관



**Fig. 4.** Microscopic findings. (A) There are many dilated lymphatic vessels lined by a single layer of endothelium (H&E, ×40). (B) Dilated lymphatic vessels are filled with proteinaceous fluid (H&E, ×100). (C) The lining cells are positive for D2-40 (immunohistochemical stain, ×100).

어디에서나 발생할 수 있지만 대부분 두정부에서 발생하고 복강에는 드물게 발생한다.<sup>3-5</sup>

림프관종의 조직학적 분류는 Batsakis의 분류에 따라 크게 3가지 아형으로 나눌 수가 있는데, 모세관 림프관종, 해면상 림프관종, 낭종성 림프관종이다.<sup>6</sup> 모세관 림프관종은 벽이 매우 얇고 모세혈관 크기의 림프관들로 구성된 림프관종이며, 해면상 림프관종은 확장된 림프관들로 구성되어 있고, 낭포성 림프관종은 다양한 직경의 낭포들로 구성되어 있다.<sup>6</sup> 림프관종의 조직학적 소견은 혈관 내피에 의해 덮여져 있는 다수의 확장된 림프관들로 구성되어 있기 때문에 면역 조직화학 염색을 이용하는 것이 림프관종을 진단하는 데 도움이 될 수 있다.<sup>7</sup> 면역 조직화학 염색을 통해 내피세포를 구별하기 위하여 사용되는 염색 방법으로는 단일클론항체인 VIII 인자 연관 항원, CD31, CD34와 최근 새로이 사용되는 D2-40이 있다.<sup>8</sup> D2-40이 다른 염색법에 비해 림프관 내피세포에 대한 특이도가 높은 것으로 알려져 있기 때문에 이번 증례에서도 D2-40을 사용하여 진단하였다.<sup>8</sup>

과거에는 수술을 통해서만 복강 내의 림프관종을 진단할 수 있었지만, 현재는 영상학적 진단의 발전으로 인해 초음파, 컴퓨터단층촬영, 자기공명영상 등을 이용하여 수술 전에 진단할 수 있다.<sup>9</sup> 초음파검사서에서 림프관종은 격막에 의해 분리되어 있는 저에코성 종괴로 관찰된다.<sup>10</sup> 일반적으로 림프관종은 컴퓨터단층촬영에서 중격이 여러 개인 낭종이 비조영 증강으로 관찰되지만, 림프관종 내부가 출혈이나 단백성분으로 채워지게 되면 혈관종이나 고형종으로 오인될 수 있는데,<sup>11,12</sup> 이번 증례에서는 림프관종 내부가 단백질 성분의 액체로 채워져 종양의 크기도 증가하고 고음영의 연조직 종양으로 의심되었기 때문에 악성 지방종으로 오인되었다. 자기공명영상에서는 T1 강조 영상에서 근육과 비슷하거나 다소 높은 신호로 관찰되

며, T2 강조 영상에서는 이보다 더 높은 신호로 관찰된다.<sup>13</sup>

림프관종 환자들은 증상이 없는 경우가 대부분이기 때문에, 내시경이나 다른 영상학적 검사 도중에 우연히 발견되는 경우가 많다.<sup>5</sup> 하지만 림프관종의 크기가 커지면서 주변 조직을 압박하는 경우 증상을 유발할 수 있는데, 비강이나 부비동의 림프관종은 두통, 코막힘, 출혈 증상으로 나타날 수 있고,<sup>14,15</sup> 종격동의 림프관종은 기침, 호흡곤란, 객혈 등의 증상으로 나타날 수 있다.<sup>9</sup> 이번 증례와 같은 장간막의 림프관종은 복통, 혈변, 장중첩증, 소장 염전 등을 유발할 수도 있다.<sup>16-18</sup> 일반적으로 증상이 없고 크기가 작은 림프관종은 특별히 치료할 필요가 없다. 하지만 장간막 림프관종으로 인해 출혈이나 복통과 같은 증상이 유발되었거나, 주변 조직으로의 침범, 장중첩, 단백상실성 장병증 등과 같은 합병증이 초래된 경우에는 수술적인 치료가 필요하다.<sup>18</sup> 수술 외의 치료 방법으로는 알코올이나 경화제제를 이용한 치료법을 고려할 수 있다.<sup>19,20</sup>

이번 증례는 악성 지방종으로 오인된 장간막 종양에 대해 수술을 통해 소장의 장간막 해면상 림프관종으로 진단한 증례이다. 비록 성인의 장간막 해면상 림프관종은 매우 드물지만, 림프관종 내부가 단백질 성분의 액체로 채워질 경우 악성 종양으로 오인될 수 있기 때문에 임상 의사들의 주의가 필요하다.

## REFERENCES

1. Fonkalsrud EW. Congenital malformations of the lymphatic system. *Semin Pediatr Surg* 1994;3:62-69.
2. Tsukada H, Takaori K, Ishiguro S, Tsuda T, Ota S, Yamamoto T. Giant cystic lymphangioma of the small bowel mesentery: report of a case. *Surg Today* 2002;32:734-737.
3. Mosca RC, Pereira GA, Mantesso A. Cystic hygroma: characterization by computerized tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008;105:e65-e69.

4. Hanagiri T, Baba M, Shimabukuro T, et al. Lymphangioma in the small intestine: report of a case and review of the Japanese literature. *Surg Today* 1992;22:363-367.
5. Na WT, Lee TH, Lee BS, et al. Clinical aspects of intraabdominal cystic lymphangioma in Korea. *Korean J Gastroenterol* 2010;56:353-358.
6. Batsakis JG. Tumors of the head and neck: clinical and pathological consideration. Volume 1. 2nd ed. Baltimore: Williams & Wilkins, 1979:301-302.
7. Chung JH, Suh YL, Park IA, et al. A pathologic study of abdominal lymphangiomas. *J Korean Med Sci* 1999;14:257-262.
8. Kahn HJ, Bailey D, Marks A. Monoclonal antibody D2-40, a new marker of lymphatic endothelium, reacts with Kaposi's sarcoma and a subset of angiosarcomas. *Mod Pathol* 2002;15:434-440.
9. Jeung MY, Gasser B, Gangi A, et al. Imaging of cystic masses of the mediastinum. *Radiographics* 2002;22 Suppl 1:S79-S93.
10. Vargas-Serrano B, Alegre-Bernal N, Cortina-Moreno B, Rodriguez-Romero R, Sanchez-Ortega F. Abdominal cystic lymphangiomas: US and CT findings. *Eur J Radiol* 1995;19:183-187.
11. Kim HH, Hur YH, Park CY, et al. Splenic cavernous lymphangioma mimicking splenic hemangioma. *J Korean Surg Soc* 2009;77:434-437.
12. Hwang SS, Choi HJ, Park SY. Cavernous mesenteric lymphangiomatosis mimicking metastasis in a patient with rectal cancer: a case report. *World J Gastroenterol* 2009;15:3947-3949.
13. Iyer R, Eftekhari F, Varma D, Jaffe N. Cystic retroperitoneal lymphangioma: CT, ultrasound and MR findings. *Pediatr Radiol* 1993;23:305-306.
14. Beneck D, Abati AD, Greco MA. Lymphangioma presenting as a nasal polyp in an infant. *Arch Pathol Lab Med* 1985;109:773-775.
15. Price C. Cystic lymphangioma in the maxillary sinus: a case report. *Br J Oral Surg* 1976;14:41-46.
16. Chung WC, Kim HK, Yoo JY, et al. Colonic lymphangiomatosis associated with anemia. *World J Gastroenterol* 2008;14:5760-5762.
17. Lee JH, Lee SY, Lee JH, et al. A case of colonic intussusception caused by cystic lymphangioma of the colon. *Korean J Gastrointest Endosc* 2006;32:226-230.
18. Ha CY, Shim KN, Kang MJ, et al. A case of cystic lymphangioma of small bowel mesentery presented with small bowel volvulus. *Intest Res* 2008;6:76-79.
19. Saba C, Bossi MC, Barletta A. Therapy of subcutaneous cystic lymphangioma with ultrasound-guided puncture and alcoholization. *Radiol Med* 1992;83:270-272.
20. Okada A, Kubota A, Fukuzawa M, Imura K, Kamata S. Injection of bleomycin as a primary therapy of cystic lymphangioma. *J Pediatr Surg* 1992;27:440-443.