

원인 미상으로 Chylothorax와 Chyluria가 병발한 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 호흡기내과

최정민, 오형철, 이명준, 윤재필, 김재일, 김우성, 김동순, 김원동, 심태선

A Case of Idiopathic Chylothorax and Chyluria

Jung Min Choi, M.D., Hyoung-Chul Oh, M.D., Myung Zoon Yi, M.D., Jae Pil Yun, M.D., Jae Il Kim, M.D.,

Woo Sung Kim, M.D., Dong Soon Kim, M.D., Won Dong Kim, M.D., Tae Sun Shim, M.D.

Division of Pulmonary and Critical Care Medicine, University of Ulsan College of Medicine, Asan Medical Center, Seoul, Korea

We report a rare case of idiopathic chylothorax and chyluria. A 31 year-old woman was referred to our hospital with a right-sided pleural effusion. Cream-colored pleural fluid and urine were confirmed as chylothorax and chyluria, respectively, by a lipoprotein electrophoresis. Even though she had previously underwent surgery for pelvic fibrosarcoma and experienced its recurrence, there has been no change of mass size and no evidence of thoracic duct or urinary tract obstruction as of the moment. Hence, idiopathic chylothorax and chyluria was diagnosed. Because she responded poorly to conservative treatment, thoracic duct ligation and pleurodesis were performed; whereas chyluria was resolved spontaneously. (*Tuberc Respir Dis* 2004; 57:377-380)

Key words: Chylothorax, Chyluria, Fibrosarcoma, Pleural effusion.

서론

유미흉(chylothorax)은 흉관의 폐쇄 또는 손상에 의하여 흉강 내로 림프액이 고이는 흔하지 않은 질환이며, 대부분 외상 또는 수술과 관련된 손상 및 종격동 내 종양이 원인이다¹. 유미뇨(chyluria)는 사상충감염이 흔한 지역에서는 토착성으로 사상충에 의하여 요로계와 림프계의 누공형성에 의하여 잘 발생하며 그의 지역에서는 드물게 수술과 관련된 손상 및 종양 등의 원인으로 발생한다.

드물게 유미흉과 유미복수(chylous ascites)가 함께 발생한 예^{2,3}가 보고된 경우는 있으나 유미흉과 유미뇨가 함께 병발한 예의 보고는 없었다. 이에 저자들이 경험한 유미흉과 유미뇨가 병발하였던 1예를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자 : 이○○, 여자 31세

주소 : 2개월 전부터 시작된 호흡 곤란

현병력 : 내원 2개월 전부터 서서히 진행되는 호흡곤란을 주소로 인근 병원에서 시행한 단순흉부촬영에서 우측 흉수로 진단 받고 정밀검사 위하여 내원하였다.

과거력 : 6년 전 좌측 골반의 섬유육종(fibrosarcoma)으로 절제 수술을 시행 받았으며 4년 전 장골(ilium bone)과 요근(psoas muscle) 및 장골동맥(common iliac artery) 주위에 섬유육종이 재발하여 방사선 치료를 시행하면서 Tamoxifen을 복용하였다. 2년 전 수신증(hydronephrosis)이 발생하여 double-J 스텐트를 삽입하고 3개월마다 교체하였다. 신증후군 범위의 단백뇨가 발생하였으나 신장 조직검사는 거부하였고 Losartan을 현재까지 복용하고 있었다. 호흡곤란 이외에 기침, 객담 등의 호흡기 증상은 없었고, 최근 외상 등의 병력은 없었으나 혼탁뇨를 호소하였다.

사회력 : 흡연은 하지 않았다.

신체검사소견 : 혈압 130/80 mmHg, 맥박수 80회/분, 호흡수 24회/분, 체온 36.5°C이었다. 청색증은 없었고 흉부 청진상 우측 폐야에서 호흡음이 감소되어 있었다. 심잡음은 들리지 않았으며 간비대, 비장비대 및 경정맥 확장의 소견도 없었다. 림프절 비대는 없었으며 하지 부종이나 늑골척추각 압통은 없었다.

Address for correspondence : **Tae Sun Shim, M.D.**
Division of Pulmonary & Critical Care Medicine,
University of Ulsan College of Medicine, Asan Medical
Center, 388-1 Pungnap-Dong, Songpa-Ku, Seoul,
138-736, South Korea
Phone: 02-3010-3892 Fax: 02-3010-6968
E-mail: shimts@amc.seoul.kr
Received : Jul. 28. 2004.
Accepted : Aug. 19. 2004.



Figure 1. Gross appearance of pleural fluid (left) and urine (right). They appear as a yellowish, milky fluid.

검사소견 : 혈액검사상 백혈구 5,200/mm³ (호중구 74%, 림프구 11%, 단핵구 2%, 호산구 2%), 혈색소 15.5 g/dL, 혈소판399,000/mm³ 이었다. 혈액화학 검사상 혈청 콜레스테롤 154 mg/dL, 단백 4.4 mg/dL, 알부민 2.1 mg/dL, AST 13 IU/L, ALT 10 IU/L, 총 빌리루빈 0.7 mg/dL, BUN 8 mg/dL, 크레아티닌 0.4 mg/dL, lactate dehydrogenase (LDH) 183 U/L (정상: 120-250 U/L) 이었다. 흉수 및 소변은 육안적으로 크림색이었고(Fig. 1) 흉수 분석에서는 백혈구 250/mm³ (호중구 4%, 림프구 38%, 조직구 58%, 종양세포 0%), 총단백 1.5 g/dL, 포도당 106 mg/dL, LDH 72 U/L, 중성 지방 132 mg/dL, 콜레스테롤 29 mg/dL, adenosine

deaminase 6.1 U/L, 그람 염색 및 결핵균검사는 음성 이었다. 3차례에 걸쳐 시행한 흉수 세포진검사에도 종양 세포는 관찰되지 않았다. 소변 검사상 비중 1.020, PH 5.0, 요단백 2+였고 24시간 요단백은 9,198 mg/day이었다. 소변 화학검사에서 중성 지방이 5 mg/dL, 콜레스테롤은 매우 낮았다.

흉수 지질단백 전기영동검사(lipoprotein electrophoresis)에서 킬로미크론(chylomicron)이 관찰되었고 소변에서도 약하지만 정상 대조군에 비하여 킬로미크론의 증가(0.9% vs 11.9%)가 관찰되었다(Fig. 2).

복수 천자상 육안적으로 장액성(serous)이었고 복수 분석에서 백혈구 80/mm³ (호중구 32%, 림프구 49%, 조직구 19%, 종양세포 0%), 총단백 1.7 g/dL, 포도당 104 mg/dL, LDH 82 U/L, 중성 지방 8 mg/dL, 콜레스테롤 29 mg/dL로 유미복수의 기준에 맞지 않았다.

방사선 소견상 흉부 전산화단층촬영에서 폐실질 내 이상 소견은 없었으며, 우측 흉수 외에 림프절 비대나 종괴는 관찰되지 않았다. 복부 전산화단층촬영에서는 좌측 수신증 및 척추 주위에 생긴 섬유육종의 크기는 이전과 변화 없었다(Fig. 3). 99mTc-Tin colloid를 이용한 림프관 조영 스캔(lymphangiography scan)에서는 우측 흉강 내로 유미(chyle)의 유출이 관찰되었고 골반강 내로의 유출도 의심되었다(Fig. 4).

비노기계 검사로 방광경 검사상 double-J 스텐트

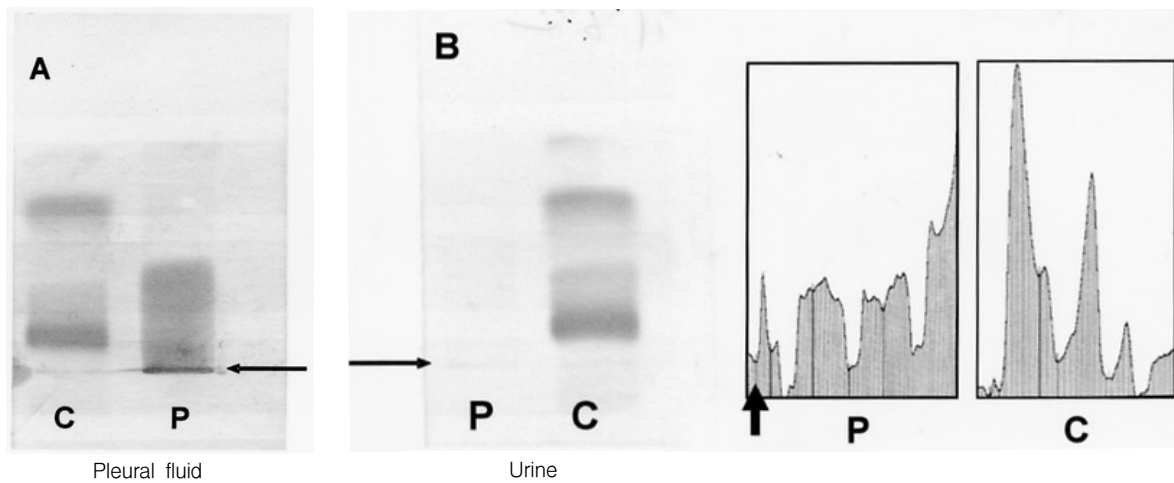


Figure 2. Lipoprotein electrophoresis findings. Chylomicron bands (arrow) are seen on pleural fluid (A) and urine (B) (P:patient, C:control).

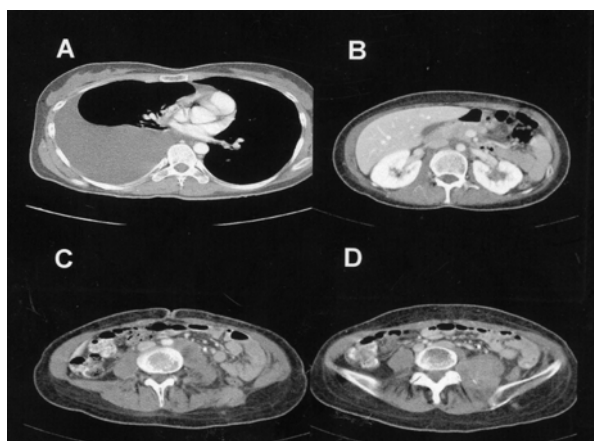


Figure 3. CT findings. Chest CT shows (A) large amount of right-sided pleural effusion. Abdomen and pelvic CT shows (B) left-sided hydronephrosis and (C, D) retroperitoneal paravertebral mass.

입구 주위에 부종 이외에 특이 소견 관찰되지 않았고 역행성 요관 신우조영술(retrograde ureteropyelography)에서 요로계와 림프계의 누공형성의 증거는 없었다. 이상의 검사 결과를 바탕으로 특발성 유미흉 및 특발성 유미뇨로 진단하였다.

치료 및 경과 : 유미흉에 대해 2주간 금식과 중심정맥 영양법을 시행하였으나 흉수가 감소하지 않아서 3주째 흉관을 삽입하여 배액하였다. 5주째 talc를 이용한 흉막유착술을 시행하였으나 흉수가 감소하지 않아서 7주째 비디오 흉강경 수술로 흉관 결찰 및 흉막유착술을 시행하였다. 8주째 한 번 더 흉막유착술을 시행 후 흉수액의 증가 소견 없이 퇴원하였다. 상기 시술 후 혼탁뇨는 자연히 감소하여 특별한 치료를 시행하지 않았다. 퇴원 5개월째 다시 좌측 흉수로 입원하여 유미흉 및 부폐렴성 흉수로 진단되었다. 흉관 삽입과 항생제 치료를 시행하였고 흉막유착술을 시행 받은 후 퇴원하였다. 현재 첫 입원후 13개월 시점에서 유미흉 및 유미뇨의 재발없이 외래 관찰 중이다.

고 찰

성인에서 유미흉의 원인은 절반 이상에서 악성 림프종 및 전이성 암 같은 종양이고 약 20%에서는 흉부 수술 이후에 생기는 외상이 원인이 된다. 흔하지 않은 원인으로는 상대정맥의 혈전, 간경화, 결핵, 유육

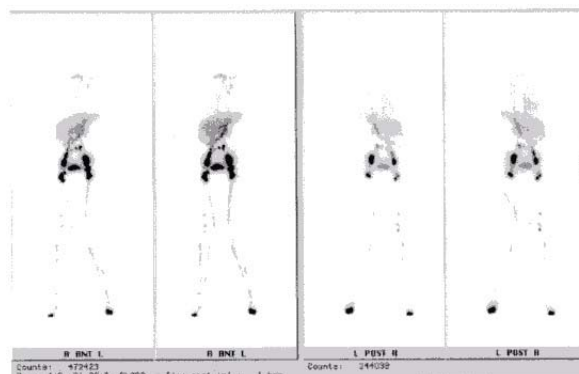


Figure 4. Lymphangiography scan shows hot uptake lesions in the right hemithorax and pelvic cavity, suggesting leakage due to lymphatic duct obstruction.

종증, lymphangioliomyomatosis⁴, 특발성 림프관 확장증 등이 있다. 원인을 찾을 수 없는 경우는 특발성으로 진단하는데 기침이나 딸꾹질 등 경미한 외상에서도 발생한다고 알려져 있으며¹ 국내에서도 특발성 유미흉에 대한 증례가 보고되었다⁵.

유미뇨는 주로 열대지방 및 인도 등지에서 사상충 같은 기생충 감염으로 인한 림프계의 폐쇄 및 파열로 요로계와 림프계 사이의 누공형성에 의하여 발생하며 사상충 열(filarial fever), 림프절 종대, 하지 부종 및 상피증(elephantiasis)을 동반할 수 있다⁶. 사상충의 호발 지역이 아닌 곳에서는 유미뇨가 매우 드문데 원인으로서는 악성 종양, 농양, 외상, 결핵 및 림프관 확장증 등이 있다⁶. 유미뇨의 진단을 위해서는 소변에서 중성 지방이 매우 증가되어 있는 것과 킬로미크론을 확인하여야 하며 방광경검사, 역행성 요관-신우 조영술 및 림프관 조영술 등으로 림프계와 요로계의 연결을 확인할 수 있다. 국내에서는 과거에 말레이사상충증(*Brugia malayi*)이 제주도 지역에서 호발하였으나 현재는 빈도가 매우 낮은 것으로 알려져 있다⁷. 대부분에서 말초 혈액검사상 호산구 증가와 면역글로불린 E의 증가소견을 보이며 혈액 도말검사에서 사상충을 확인하거나 ELISA검사로 진단한다.

본 증례는 유미흉과 유미뇨가 동시에 발생한 예로 국외 또는 국내의 문헌보고상 처음이다. 병력상 재발된 섬유육종이 후복강(retroperitoneum)에 존재하고 있었으므로 이 종양에 의한 림프관의 폐쇄가 유미흉 및 유미뇨의 원인으로 추정할 수 있었으나 객관적인

검사상 원인을 확인할 수는 없었다. 유미홍과 유미복수가 동반된 예는 일부 보고가 있었고^{2,3} 본 증례에서도 소량의 복수가 동반되었으나 검사상 유미복수는 아니었다. 또한 본 증례에서는 신증후군(nephrotic syndrome)의 진단기준에 맞지는 않았지만 신증후군에 합당한 양의 단백뇨가 있었다. 신증후군과 관련하여 유미홍이 발생한 예로 상대정맥 혈전증으로 인해 흉관이 폐쇄된 경우와⁸ 유미복수가 횡격막을 통해 이동하여 유미홍이 발생한 증례보고⁹가 있었다. 본 증례에서는 환자가 거부하여 신장 조직검사를 시행하지 못했으나 하지 부종이 없고 혈청 콜레스테롤이 낮아 신증후군의 진단기준에 합당하지 않았다. 또한 본 증례는 사상층 감염의 임상 양상과 맞지 않았고 요로계 검사에서도 누공형성을 확인할 수 없어 특발성 유미뇨로 진단하였다.

비외상성 유미홍의 치료는 약 50%에서 림프관의 자발적 폐쇄가 있어 보존적인 치료를 원칙으로 하나 2주 이상의 보존적 치료에도 불구하고 유출이 지속되거나 전해질 및 대사이상, 영양 결핍, 면역기능 저하로 인한 감염 등의 합병증이 발생하면 수술적 방법으로 치료한다. 본 증례의 경우 금식과 중심정맥 영양요법으로 보존적인 치료를 하였음에도 불구하고 지속적으로 우측 흉수가 증가하여 흉관 삽입 후 배액술과 흉막 유착술을 시행하였으나 이후에도 흉수가 감소하지 않아서 흉관 결찰술을 시행하였다. 반면에 좌측 유미홍은 흉관 배액술과 흉막 유착술 만으로도 호전되었다.

요 약

유미홍은 주로 악성종양에 의한 흉관의 폐쇄, 유미뇨는 림프관과 요관과의 누공형성이 주된 원인이다.

저자들은 유미홍의 원인으로 섬유육종에 의한 흉관 폐쇄, 유미뇨의 원인으로 요로계와 림프관의 누공형성을 의심하였으나 검사상 증거를 찾을 수 없어 특발성 유미홍 및 특발성 유미뇨로 진단한 1예를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Light, RW. Pleural diseases. Fourth edition. Lippincott Williams & Wilkins. 2001;327-38.
2. Villena V, de Pablo A, Martín-Escribano P. Chylothorax and chylous ascites due to heart failure. *Eur Respir J* 1995;8:1235-6.
3. Park KJ, Byun SH, Hwang JS, Chung YH. A case of chylous ascites with chylothorax. *J Korean Pediatr Soc* 1984;27:174-7.
4. Chu SC, Horiba K, Usuki J, Avila NA, Chen CC, Travis WD, et al. Comprehensive evaluation of 35 patients with lymphangioliomyomatosis. *Chest* 1999; 115:1041-52.
5. Han SG, Heo JH, Lee KI, Kim HJ, Pai YM, Whang YH, et al. A case of idiopathic bilateral chylothorax treated by conservative approach. *Tuberc Respir Dis* 1998;45:1082-6.
6. Hemal AK, Gupta NP. Retroperitoneoscopic lymphatic management of intractable chyluria. *J Urol* 2002;167:2473-6.
7. Paik YH, Cho YJ, Koo DS, Ree HI, Shim JC. Studies on the current epidemiological situation of brugian filariasis in endemic areas in Korea. *Korean J Parasitol* 1988;26:255-62.
8. Hanna J, Truemper E, Burton E. Superior vena cava thrombosis and chylothorax: relationship in pediatric nephrotic syndrome. *Pediatr Nephrol* 1997;11:20-2.
9. Moss R, Hinds S, Fedullo AJ. Chylothorax: a complication of the nephrotic syndrome. *Am Rev Respir Dis* 1989;140:1436-7.