대한외과학회지 : 제 70 권 제 1 호
Vol. 70, No. 1, January, 2006

□ 증 례 □

신장이식 환자에서 발생한 소장의 출혈을 동반한 림프관종

연세대학교 의과대학 [1]외과학교실, [2]병리학교실 및 [3]영상의학교실

최현호[1] · 임준석[2] · 김혜령[3] · 안형준[1] · 형우진[1] · 김호근[3] · 김유선[1]

Jejunal Lymphangioma with Recurrent Bleeding in a Renal Transplant Recipient

Hyun Ho Choi, M.D.[1], **Joon-Seok Lim,** M.D.[2], **Hae Ryoung Kim,** M.D.[3], **Hyung Joon Ahn,** M.D.[1], **Woo Jin Hyung,** M.D.[1], **Hogeun Kim,** M.D.[3] and **Yu Seun Kim,** M.D.[1]

A lymphangioma is a benign tumor which is composed of lymphatic vessels and spaces containing chylous, serosanguinous or serous material. A lymphangioma in the gastrointestinal tract is usually small sized and incidentally diagnosed because it does not cause significant symptoms. However, when abdominal pain, bleeding, intussusception or intestinal obstruction develope, it requires surgical resection. Recently, we experienced a case of multiple jejunal lymphangioma with recurrent bleeding in a 53 years old renal transplant recipient presenting with chronic anemia. Small bowel series, capsule endoscopy and computerized tomograpy scan revealed a 4.5×6.5 cm sized mass on jejunum. The patient underwent a laparoscopic segmental resection of jejunum without any complication. **(J Korean Surg Soc 2006;70:83-86)**

Key Words: Lymphangioma, Capsule endoscope, Laparoscopy
중심 단어: 림프관종, 캡슐내시경, 복강경

Departments of [1]Surgery, [2]Pathology and [3]Radiology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

서 론

림프관종은 내피세포로 덮여 있는 다수의 림프관으로 구성된 양성종양으로 림프관이 있는 부위는 어디에서나 생길 수 있으나 주로 경부나 액와부에 흔하며 위장관에 발생하는 경우는 흔하지 않다. 위장관에 생긴 림프관종은 대개 크기가 작고 증상이 없어 우연히 발견되는 경우가 대부분이고 무증상의 경우 특별한 치료없이 지내기도 한다. 그러나 복통, 출혈 등의 증상이 있거나 크기가 커서 장폐쇄 및 장중첩 등을 동반하는 경우는 종양의 절제가 필요하다. 종양의 크기가 비교적 작고 위장이나 대장에 위치한 경우는 내시경적 절제가 가능하지만, 종양의 크기가 크거나 소장 또는 내시경적 접근이 어려운 부위에 위치한 경우는 수술적 절제가 필요하다.

저자들은 신장이식을 받은 환자에서 만성빈혈의 원인을 찾기 위해 소장연속촬영, 캡슐내시경 및 전산화 단층촬영을 시행하여 진단된 소장의 림프관종을 복강경을 이용하여 절제한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

53세 남자 환자가 내원 1년 전부터 지속적인 빈혈이 있어 본원 이식외과에 입원하였다. 환자는 과거력상 23년 전부터 고혈압과 만성 사구체 신염으로 투약치료 받다가 13년 전에 말기 신부전 진단되어 4개월간 혈액 투석 후 신장이식술 시행 받고 면역억제제를 복용 중이었다. 환자는 내원 1년 전 운동 시 호흡곤란으로 내원하여 시행한 검사에서 혈색소치가 7.7 g/dl인 것이 발견되어 위 내시경검사 및 혈청 빈혈검사를 시행한 결과, 십이지장 궤양출혈에 의한 철결핍성 빈혈로 진단되어 궤양 치료 후 주기적으로 수혈하면서 관찰하였으나 추적 위내시경상 상부 위장관에서의 재출혈 없이 혈색소치의 감소가 계속되었다.

내원 당시 체온 36.5°C, 혈압 120/70 mmHg, 맥박수 87회/분, 호흡수 20회/분으로 정상범위였으며, 전신상태는 경도의 만성병색이 있어 보였으나 의식은 명료하였다. 결막은 창백하였고 공막은 정상이었다. 흉부청진상 심음 및 폐음은 정상이었고 복부진찰소견에서는 특이소견 없었다. 혈액검사상 백혈구 11,540/mm^3, 혈색소 7.8 g/dl, 헤마토크리트 27.4%, 혈소판 271,000/mm^{3}이었고, MCV 81.0 fL, MCH 23.2 pg, MCHC 28.7 g/dl였고, 망상적혈구는 3.96%였다. 일반화

책임저자 : 형우진, 서울시 서대문구 신촌동 134번지
㉾ 120-752, 연세대학교 의과대학 외과학교실
Tel: 02-2228-2129, Fax: 02-313-8289
E-mail: wjhyung@yumc.yonsei.ac.kr
접수일 : 2005년 7월 28일, 게재승인일 : 2005년 9월 13일
본 논문은 연세대학교 의과대학 장기이식연구소 2005년도 연구비 지원으로 이루어졌음.

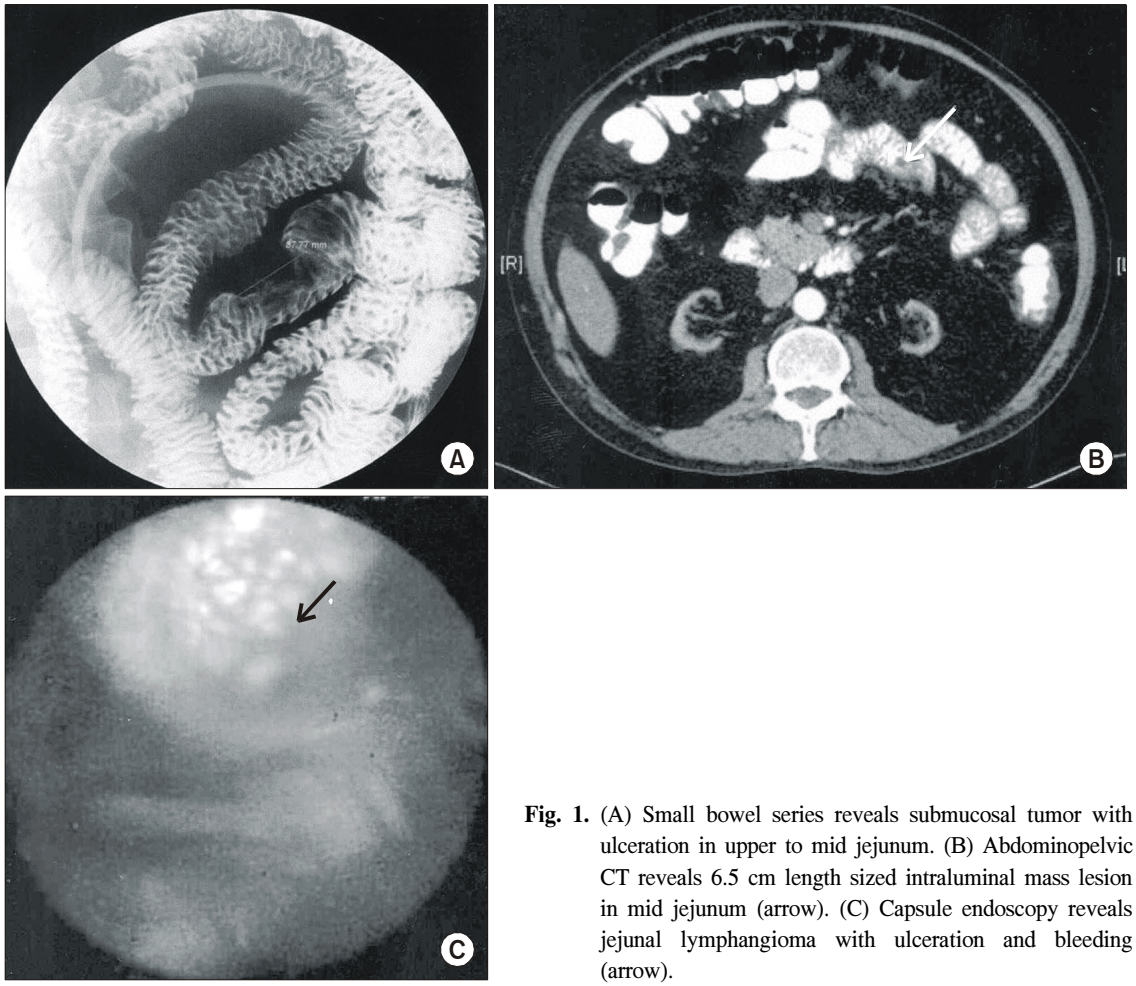

Fig. 1. (A) Small bowel series reveals submucosal tumor with ulceration in upper to mid jejunum. (B) Abdominopelvic CT reveals 6.5 cm length sized intraluminal mass lesion in mid jejunum (arrow). (C) Capsule endoscopy reveals jejunal lymphangioma with ulceration and bleeding (arrow).

학 검사소견은 정상이었고, 소변검사는 단백뇨가 2+를 보였다. 빈혈검사상 혈청 철 19 ug/dl, TIBC 376 ug/dl, 합토글로빈 202 mg/dl, 페리틴 5.2 ng/ml, 트랜스페린 296 mg/dl였고 대변 잠혈 검사 양성으로 나와 위장관계 출혈에 의한 철결핍성 빈혈 소견을 보였다. 상부 위장관 내시경상 기존에 있었던 십이지장 궤양은 출혈소견 없이 치유과정에 있는 호전되는 소견이었다. 대장 내시경상 횡행결장에 2개, 하행결장에 4개, S자결장에 5개의 용종이 발견되어 모두 용종절제술을 시행하였고 조직검사상 관상선종과 관상융모선종이 혼합되어 있었으나 이로 인한 출혈소견은 없었다. 원인불명의 위장관 출혈의 의심하에 소장연속촬영을 시행하였고 공장에 점막하종양이 의심되는 소견이 발견되었고(Fig. 1A), 복부 컴퓨터 전산화 단층 촬영상 공장에 보였었던 6 cm 크기의 점막하종양이 확인되었으나 출혈 여부는 알 수가 없었다(Fig. 1B). 공장에서 발견된 종양에서의 출혈을 확진하기 위해 캡슐내시경 검사(Capsule endoscopy)를 시행하였다. 시행결과 공장에 궤양을 동반한 점막하종양에서 출혈을 확인하였다(Fig. 1C). 환자는 입원 4일째 복강경 보조 공장 분절절제술을 시행 받았다. 투관침은 제대주위에 10 mm 투관침 하나와 우상복부 및 우하복부에 쇄골중심선을 따라 두개의 5 mm 투관침 등 총 3개의 투관침을 사용하였다. 수술 소견상 Treitz 인대 하방 60 cm 부위 공장에 장막층의 변화를 동반한 점막하종양을 발견하였으며 종양을 확인하기 위해 복강경 초음파를 통해 점막하 종양을 확인하고 제대주위의 투관침 삽입부의 절개를 확장하여 종양을 체외로 꺼내어 분절절제술 및 단단문합술을 시행하였다(Fig. 2A). 종양은 촉지시 부드러웠고 표면은 매끄러웠다. 병리조직검사상 유미성 액체를 함유하고 있는 낭성 림프관종으로 판명되었다(Fig. 2B, C). 환자는 수술 후 별다른 합병증 없이 수술 후 4일에 퇴원하였고 수술 3개월째 추적검사상 혈색소치가 12.8 g/dl를 보여 더 이상의 출혈소견은 없었다.

고 찰

림프관종은 내피세포로 덮여 있는 낭성 구조물 속에 림프액을 포함하고 있는 양성 신생물로서,(*1*) 1928년 Redenbacher(*2*)가 처음으로 “Ranula congenital”라고 기술하였으며 1843년 Wernher는 “Cystic hygroma”로 최초 명명하였다. 림

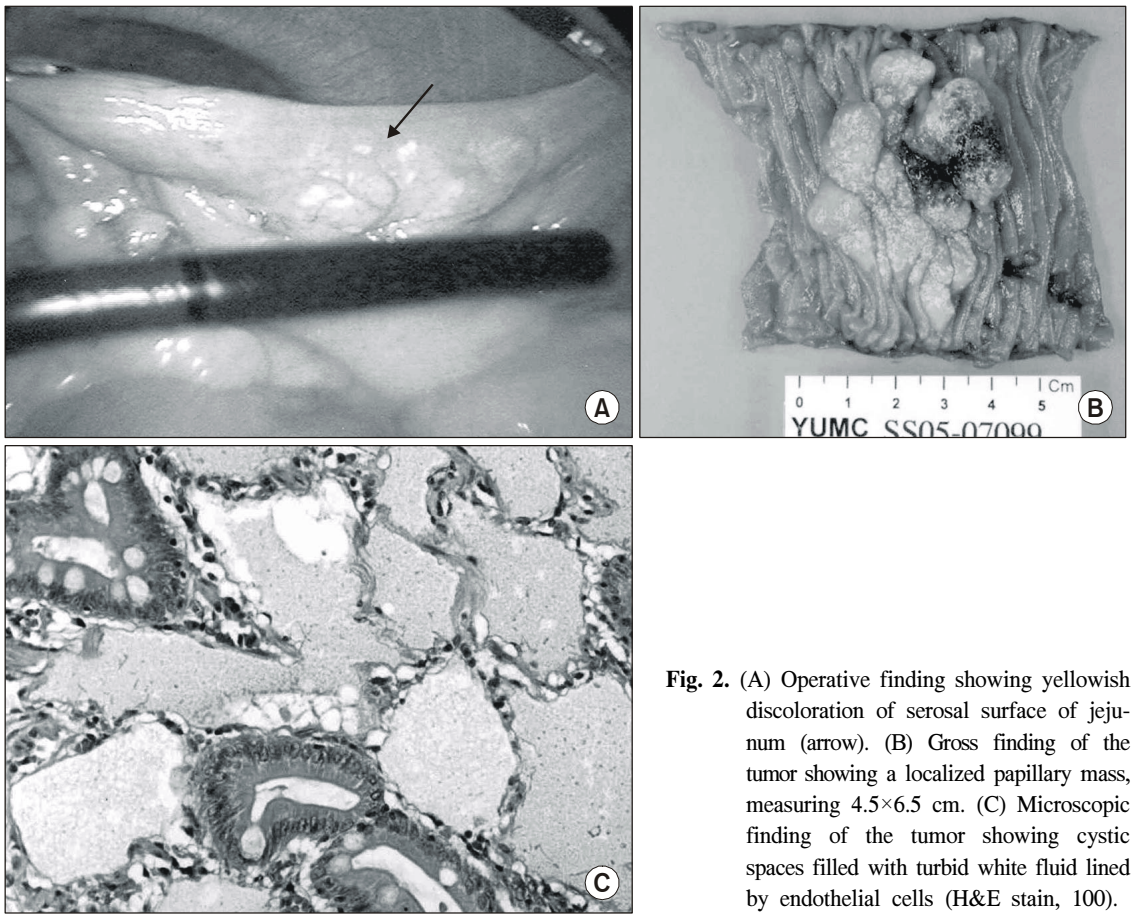

Fig. 2. (A) Operative finding showing yellowish discoloration of serosal surface of jejunum (arrow). (B) Gross finding of the tumor showing a localized papillary mass, measuring 4.5×6.5 cm. (C) Microscopic finding of the tumor showing cystic spaces filled with turbid white fluid lined by endothelial cells (H&E stain, 100).

프관종의 발생원인은 아직 명확하게 밝혀진 바는 없으나, 정상적인 림프계와의 연결이 끊겨 남아있는 분리된 림프조직에 액체가 차오르면서 점차 증식하여 낭성구조를 취하면서 림프관종이 발생하는 것으로 알려져 있다.(*3*) 림프관종은 6,000분만 중 1예 정도로 아주 드문 질환으로, 남녀 비슷하게 발생하고,(*4,5*) 모든 연령에서 발견될 수 있으나 80~90% 정도가 2세 이하의 소아에서 발견된다.(*6*) 신체 어느 부위에나 발생할 수 있는데 주로 소아에서는 두경부와 액와부, 성인에서는 복부에서 주로 호발하며 대개는 장간막에서 발생한다. 그 외 간, 비장, 췌장 및 후복막강에서 발생할 수 있으며 위장관에서는 식도에서 대장까지 고루 발생할 수 있고 그 빈도는 소장, 대장 순이며 그 외 드물게 식도, 십이지장, 위 등에도 발생할 수 있다.(*7-10*) 위장관 림프종의 임상증상은 대부분이 무증상으로 우연히 발견되는 경우가 많으며, 간혹 증상이 있는 경우에는 복통이 가장 흔하고 합병증으로 미란이나 궤양이 발생한 경우 출혈이 올 수 있는데 저자들의 경우가 림프관종에 미란이나 궤양이 생겨 출혈이 만성적으로 일어났던 경우였다. 종괴의 크기가 큰 경우 장폐쇄나 단백질 소실증이 보고된 예도 있고,(*10,11*) 드물게 장중첩증이 생긴 예도 보고된 바 있다.(*12,13*)

소화관에 발생한 림프관종과 감별 진단해야 하는 병변으로는 지방종(lipoma), 혈관종(hemangioma), 평활근종(leiomyoma), 장중복낭종(enteric duplication cyst), 초기의 상피성 용종(early epithelial polyp), lymphatic cyst, lymphangiectasia 등이 있다.(*9-15*) 위장관에 생긴 림프관종의 진단방법으로는 내시경검사 및 바륨 조영술이 유용하고 최근 초음파 내시경 검사가 진단에 도움을 주는 것으로 알려져 있다. 그러나 본 증례에서와 같이 종양이 소장에 있는 경우 내시경검사에 어려움이 있어 진단에 어려움이 있다. 또한 소장연속촬영이나 복부단층촬영에서 종양을 발견하더라도 종양이 출혈의 원인인지 혹은 우연하게 발견된 것인지에 대한 확인은 더욱 어렵다. 특히 본 증례에서처럼 환자가 신장이식을 받고 장기간의 면역억제제를 복용하여 오는 등 수술의 위험성이 큰 경우 소장종양에서 출혈이 있음을 확인하는 것은 수술이 최종의 치료가 되기 위해 수술 전에 필히 확인되어야 한다. 따라서 소장에 종양이 발견되더라도 종양에서 출혈이 있음을 확인하기 위해서는 소장의 내강에서 출혈여부를 직접 확인할 수 있는 방법이 필요하다. 저자들은 캡슐내시경을 이용하여 종양의 표면에서 출혈이 있음을 확인하였고 종양의 수술적 절제가 확실한 치료법임을 수술 전에 확인할 수 있었다. 소장의 내강을 보기 위한 방법으로는 최근 이용되고 있는 소장내시경과 캡슐내시경이 이용될

수 있는데 소장내시경은 이를 통해 중재적 시술이 가능한 장점이 있으나 소장 전체를 확인하기 위해서는 상부와 하부 모두에서 접근하여야 가능하므로 내강의 확인만을 위해서는 캡슐내시경이 소장내시경에 비해 장점을 가지며 캡슐내시경은 환자가 더 편안하게 검사를 받을 수 있는 장점을 가지고 있다.

림프관종의 치료는 림프관종이 양성경과를 취하며 드물게는 자연퇴화된 보고도 있으므로(*16*) 무증상인 경우 치료할 필요가 없다는 주장이 있지만,(*12*) 림프종의 크기가 크고 출혈, 장폐색 등의 합병증이 있을 경우 수술적 치료로 국소적 절제나 부분적 장절제 등을 시행해야 하는 것으로 알려져 있다.(*17*) 최근 내시경을 이용한 시술이 발달되어 내시경적 절제술이 소개되고 있으나(*18*) 소장에 생긴 림프관종의 경우는 내시경적 접근이 거의 불가능하다. 최근 저침습수술이 발전하면서 소장의 양성질환에 대한 복강경수술은 기존의 개복수술에 비해 많은 장점을 갖고 있어 활발하게 이용되고 있다. 저자들의 경우는 출혈이 동반되어 있어 수술적 절제를 해야 하는 경우였으나 종양의 부위가 소장이어서 내시경적 접근을 할 수 없었고 이식수술을 받고 면역억제제를 복용하여 온 과거력이 있어 저침습수술의 적용이 바람직한 경우였다. 복강경수술은 개복수술에 비해 저침습적이어서 수술시 절개창이 작아 장기간 스테로이드를 복용한 환자의 경우 발생할 수 있는 창상열개 등의 가능성이 적을 뿐 아니라 면역억제제의 사용으로 인해 감염에 취약한 환자에서 창상 감염의 가능성이 낮은 것과 수술 후 장운동 기능의 회복이 빨라 경구용 면역억제제의 사용도 수술 후 조기에 가능하므로 이식을 받은 환자에서 복강경수술은 많은 장점을 가진다. 본 증례의 경우 종양이 악성임을 시사할 만한 진단적 근거가 없어 복강경수술을 시행하였고 만족할 만한 결과를 얻었다.

결 론

저자들은 신장이식을 받은 후 면역억제제를 장기간 복용하는 53세 남자환자에게 발생한 철 결핍성 빈혈의 원인을 찾기 위해 소장연속촬영, 전산화 단층촬영 및 캡슐내시경을 시행하여 만성 출혈을 동반한 소장에 생긴 다발성 림프관종을 진단하고 복강경을 이용한 소장 부분절제술을 시행하여 치료한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1) Brindley GV, Brindley Jr GV. Lymphangioma of the mesentery. Ann Surg 1948;127:907-11.
2) Barrand KG, Freeman NV. Massive infiltrating cystic hygroma of the neck in infancy. Arch Dis Child 1973;48:523-31.
3) Shigemastu A, Iida M, Hatanaka M, Kohrogi N, Matsui T, Fujishima M, et al. Endoscopic diagnosis of lymphangioma of the small intestine. Am J Gastroenterol 1988;83:1289-93.
4) Harkins GA, Sabiston DC. Lymphangioma in infancy and childhood. Surgery 1960;47:811-22.
5) Ravitch MM, Push BF. Cystic hygroma. Pediatric surgery. 4th ed. Chicago: Year Book Med Publisher; 1986. p.53-5.
6) Bill AH, Sumner DS. A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynecol Obstet 1965;120:79-86.
7) Davis M, Fenoglio-Preiser C, Haque AK. Carvernous lymphangiomas of the duodenum: case report and review of the literature. Gastrointest Radiol 1987;12:10-2.
8) Aneiros J, Pleguezuelos J, Garcia del Moral R, Caballero T, Rodrigo M, Salido E. Lymphangioma of the duodenum: and an ultrastructural study. Endoscopy 1986;18:245-8.
9) Hwang JK, Kim KH, Seo HJ, Kim JI, Kim JS, Yoo SJ, et al. Splenic lymphangioma of the spleen in an elderly patient. J Korean Surg Soc 2005;68:74-7.
10) Salata HH, Mercader J, Navarro A, Cortes JM, Gonzales-Campos C. Lymphangioma of the duodenum. Endoscopy 1984;16:30-2.
11) Colizza S, Tiso B, Bracci F, Cudemo RG, Bigotti A, Crisci E. Cystic lymphangioma of stomach and jejunum: report of one case. J Surg Oncol 1981;17:169-76.
12) Joseph B, Kirsner T. Disease of the colon, rectum and anal canal. 1st ed. Baltimore: Williams and Wilkins; 1988. p.255-9.
13) Camilleri M, Satti MB, Wood CB. Cystic lymphangioma of the colon. Endoscopic and histologic features. Dis Colon Rectum 1982;25:813-6.
14) Kim YJ, Chung KS, Chung JB, Lee SI, Park IS, Choi HJ, et al. Submucosal lymphatic cyst of the stomach-a case report. Yonsei Med J 1989;30:387-91.
15) Armengol-Miro JR, Ramentol F, Salord J, Costa MP, Palacin A, Vidal MT. Lymphangioma of the oesophagus. Diagnosis and treatment by endoscopic polypectomy. Endoscopy 1979;11:185-9.
16) Daniel S, Lazarevic B, Attia A. Lymphangioma of the mesentry of the jejunum: report of a case and a brief review of the literature. Am J Gastroenterol 1983;78:726-9.
17) Roisman I, Manny J, Fields S, Shiloni E. Intra-abdominal lymphangioma. Br J Surg 1989;76:485-9.
18) Ikeda K, Miyauchi K, Fujimoto A, Hayashi T, Kogure M, Ohgoshi E. A case of pedunculated tubulovillous adenoma of the duodenum. Am J Gastroenterol 1998;93:1159-62.