

## 두경부 림프관종의 증례보고

여주대학 치위생과, 부산대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실\*

정연화 · 조봉혜\* · 나경수\*

### Lymphangioma of the Head and Neck : Report of 4 Cases

Yeon-Hwa Jeong, Bong-Hae Cho,\* Kyung-Soo Nah\*

Department of Dental Hygiene, Yeojoo Institute of Technology

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Pusan National University\*

#### ABSTRACT

Lymphangiomas are uncommon benign congenital tumors. Most occur in the head and neck and most lesions present by the age of 2 years. We present our experience with four patients who have lymphangiomas of the head and neck with tongue involvement. First case is a 7-year-old male who has the cystic lymphangioma of left submandibular area. Second a 22-year-old female has a lesion involving the border of right tongue. Third case is the lymphangioma which occurs in the right upper lip of a 6-year old male. The last patient is a 28-year old male who fell down and whose right face was swollen up. He had undergone an operation and been treated with steroid before. The characteristic appearances of imaging methods were described and all lesions best depicted on T2-weighted images. Our experience indicates that MRI is useful in the diagnosis and treatment planning of lymphangioma. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2000 ; 30 : 87-91)

KEY WORDS : lymphangioma, head and neck, MRI, CT

림프관종은 액체로 채워진 림프관과 관강으로 구성된 양성 종양으로, 일반적으로 신생아와 유년기에 나타나지만, 모든 연령에서 나타날 수 있다.<sup>1,4</sup> 정확한 원인은 알려지지 않았지만, 림프관의 발생 장애나 원발성 기형으로 믿어지고 있다.<sup>5</sup>

보통 증상이 없는 부드럽고 유동성있는 종물로 서서히 자라지만, 성장과 함께 커지거나,<sup>7</sup> 외상, 감염, 출혈 등으로 인하여 갑자기 종창이 심해지기도 한다. 임상적 진행 경로는 주위 조직내로 침투하는 것에서부터 자연 퇴화하는 경우까지 아주 다양하다.<sup>3,6</sup> 전산단층소견에서 경계가 명확한 낭종성 병소에서 주위조직으로 침투하는 경계가 불명확한 병소에 이르기까지 다양하게 나타나고, 자기공명영상에서 T2강조영상은 T1강조영상보다 특히 높은 신호 강도를 보이므로 더 유용하게 이용된다.<sup>8</sup>

림프관종의 병리조직학적 소견은 편평해진 내피세포로

둘러싸인 다수의 팽창된 림프관을 나타낸다.<sup>9</sup> 치료는 완전한 외과적 절제술이 가장 널리 적용되고 있다.

본 보고에서는 소아와 성인에서 발생한 림프관종의 4증례에 대한 임상적소견과 영상 소견을 살펴보고자 한다.

#### 증례 보고

##### 증례 1

7세 남자 환자가 좌측 악하부위의 종창과 통증이 있어서 내원하였다. 1년전에 종창이 시작되어 소아과와 이비인후과에서 검사 받았으나 별다른 소견이 관찰되지 않았고 근래에 갑자기 종창이 점점 심해져 내과에 내원하여 본원으로 의뢰되었다. 다른 특이할 만한 내과적 병력이 없었고, 좌측 악하 부위에서 유동성있는 종창이 있었으며 천자흡입검사에서 맑은 담황색 액체가 검출되었다.

좌측 악하부위의 초음파사진에서 비교적 명확한 경계를 가진 2 cm × 1.5 cm 크기의 무반향 병소(echo-free lesion)가 관찰되었고, 압력을 가했을 때 다방성 낭종성 병소로 나타났다. 전산단층소견에서 좌측 부인두강의 최상부에서 좌측 하악하강으로 확장되는 저밀도의 병변이 관찰되었고(Figs.

접수일 : 1999년 12월 6일      채택일 : 2000년 1월 3일  
Correspondence to : Yeon-Hwa Jeong  
Department of Dental hygiene, Yeojoo Institute of Technology, San 6-16, Kyo-ri, Yeojoo-up, Yeojoo-gun, Kyonggi-do, Korea, 469-800  
Tel) 051-240-7595, Fax) 051-245-8388  
E-mail) Yeonhwajung@hanmail.net

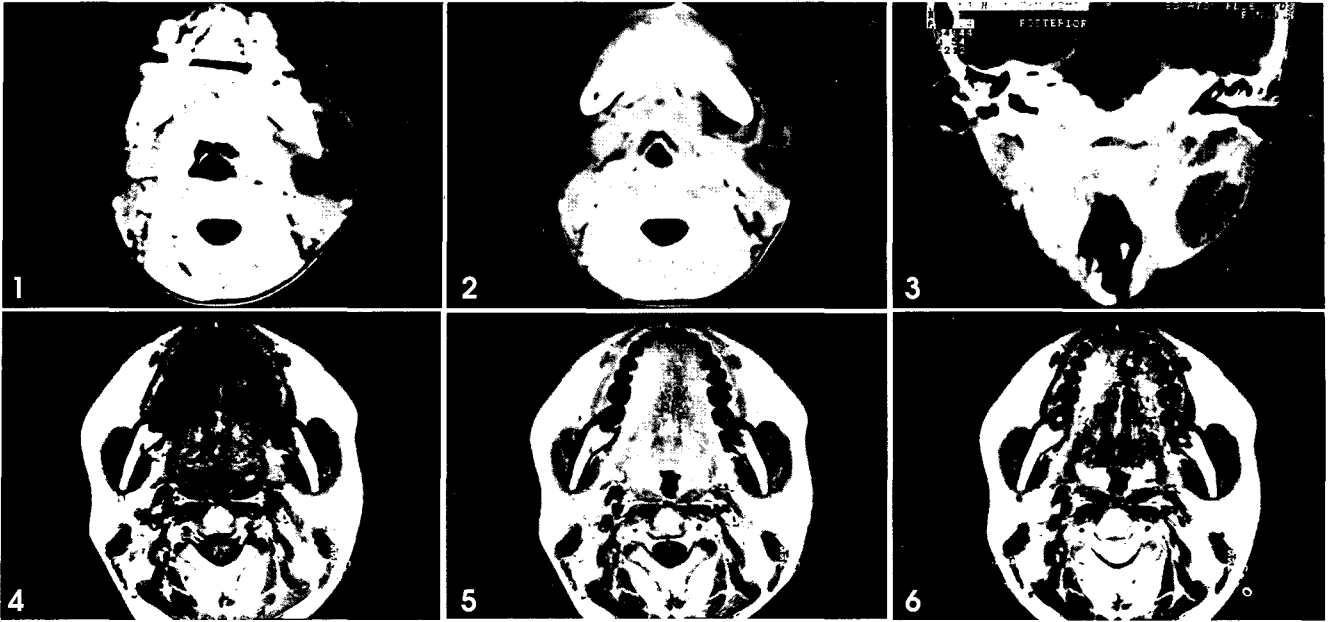


Fig. 1. An axial CT scan of the neck showing a multiseptate cystic mass at the angle of the mandible.  
 Fig. 2. An axial enhanced CT scan demonstrating the enhancement of peripheral rim and septa of the mass.  
 Fig. 3. A coronal CT scan showing a low density mass extending from the left parapharyngeal space to the left submandibular space.  
 Fig. 4. An axial T1 weighted magnetic resonance image demonstrating low-intensity mass.  
 Fig. 5. An axial enhanced MR image showing the slight enhancement of the mass.  
 Fig. 6. An axial T2 weighted MR image showing high-intensity mass in the right side of the tongue.

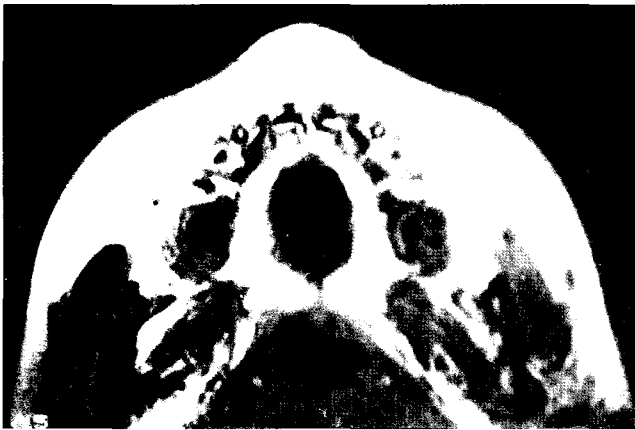


Fig. 7. An axial T1 weighted MR image showing low-intensity mass with moderate defined margin in the upper lip.

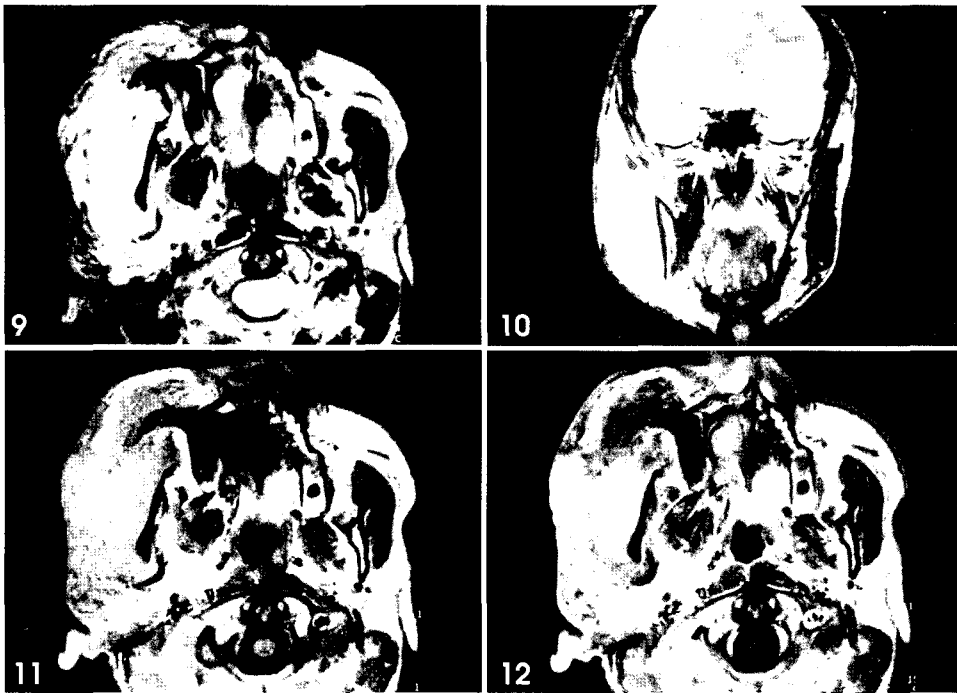
Fig. 8. An enhanced MR image showing slight enhancement of the lesion.

1, 2), 조영제 주입 후에 병소 경계와 내부 격벽이 증강되는 소견을 보여 낭종성 림프관종으로 잠정진단되었다(Fig. 3).

전신마취하에 외과적 적출술을 시행하였다. 병리조직학적 소견에서 섬유성 벽을 가진 불규칙한 림프관을 보여주었고, 낭종성 림프관종으로 최종 진단이 내려졌다. 1년 반 동안의 추적 검사에서 재발은 없었다.

증례 2

22세 여자 환자가 혀 우측 가장자리에 불편감을 주소로 내원하였다. 환자는 중학교때부터 상기 주소가 주기적으로 반복되었으며 최근 약 6-7개월 전에 지속적인 종창과 불편감으로 내과와 한의원에서 치료를 받았으나 별다른 증상의 호전이 없어서 본원으로 내원하였다. 환자는 저작과 발음시에 불편을 호소하였으며, 구강내 검사에서 혀의 우



**Fig. 9.** An axial T2 weighted MR image showing heterogeneous high-intensity mass and infiltration into left buccal space, masticator space and carotid space.

**Fig. 10.** A coronal T2 weighted MR image demonstrating the infiltration into infratemporal fossa and submandibular space.

**Fig. 11.** An axial T1 weighted MR image showing the lower signal intensity than T2 weighted image.

**Fig. 12.** An axial enhanced T1 weighted MR image showing heterogeneous enhancement.

측부위가 부어 있었다.

자기공명영상의 T1강조영상에서는 저강도 신호의 종물이 경계가 불명확하게 관찰되었고(Fig. 4), 조영제 주입 후 T1강조영상에서 병소는 약간 증강되는 소견이 관찰되었다(Fig. 5). T2강조영상에서 혀의 우측이 좌측에 비해 무정형이고 고강도 신호를 보여 림프관종으로 잠정적 진단이 내려졌다(Fig. 6). 병소는 부분 절제술로 제거되었고, 병리조직소견에서 해면성 림프관종으로 최종진단이 내려졌다. 1년간의 추적검사결과 특이할 만한 재발 소견을 보이지 않았다.

### 증례 3

6세 남자 환자가 우측 상순의 종창을 주소로 내원하였다. 환자는 통증을 호소하였고, 구강검사서 상순에 경결성 종창을 보였고 압력을 가하면 농이 배출되었다. 환자는 2세때부터 상순의 종창이 시작되었고, 3세와 4세때 연조직종물로 진단받고 성형외과에서 수술받았으나 재발하여 5세때 본원으로 내원하여 상순의 림프관종으로 진단받고 절제하였으나 재발하여 내원하였다.

T1강조 자기공명영상에서 상순의 거의 정중선 부위에 약 2cm×1cm×2.5cm 크기의 경계가 불분명한 연조직 병소가 저신호 강도로 보였는데(Fig. 7), 조영제 주입 후에 병소가 약간 증강되어 보였다(Fig. 8).

병소를 전신마취하에 외과적으로 절제하였는데, 병리조직검사소견에서 상순에서 발생한 모세혈관성 림프관종으로 최종 진단이 내려졌고, 1년반 동안의 추적검사서 재발소견은 보이지 않았다.

### 증례 4

28세 남자 환자가 넘어져서 우측 안면과 협부를 부딪힌 후 갑자기 우측 안면부의 종창이 심해져서 응급실로 내원하였다. 구강내 검사에서 협측 종창이 관찰되었고, 둔통을 호소하였으나 열은 없었다.

과거병력조사에서 환자는 출생시부터 우측 안면부위에 종물이 있었으며, 8세경과 21세에 성형외과에서 1,2차 수술을 받았으나 정확한 진단명은 알려지지 않았다. 22세에 우측 안면부의 갑작스런 종창으로 입원하여 생검 후 림프관종으로 진단 받고 스테로이드치료를 받았으며, 23세에 우측 안면부의 림프관종 절제 수술을 하였고, 25세와 26세에 종창이 재발하여 스테로이드 치료를 받았다고 한다.

T2 강조 자기공명영상에서 병소는 불균질한 고신호 강도를 보였고, 우측 협부강, 저작강, 측두하와, 경동맥강 및 하악하강을 침투하는 크기가 큰 종물이 관찰되었으며, 우측 측두근, 교근, 이하선 및 흉쇄유돌근이 전위되었다(Figs. 9, 10). T1강조영상은 T2강조영상보다 더 낮은 신호 강도를 보였으며(Fig. 11), 조영제 주입 후에 병소는 이질성 증강을 보였다(Fig. 12). 환자는 스테로이드 치료 후 병소크기가 감소되어 퇴원하였고 재발여부를 관찰하기 위해 추적 검사를 받고 있다.

## 고 찰

림프관종은 비교적 드문 림프계의 선천성 이상이다. 50%가 출생시에 나타나고, 2세 이전에 80-90%가 진단되

며<sup>10</sup> 소수만이 성인에서 나타난다.<sup>1,5</sup> 가장 호발하는 부위는 경부로 75% 정도를 차지하고, 구강내 림프관종은 혀에서 가장 흔히 발생하며 구개, 협점막, 치은 및 구순에서도 발생한다.<sup>11</sup> 혀에 생긴 림프관종은 다양한 임상증상을 보일 수 있고, 혀가 들출되어 침을 흘리거나 저작과 연하, 발음 곤란을 호소하며 심한 경우는 호흡곤란을 보이기도 한다.<sup>12</sup>

림프관종의 정확한 원인은 여전히 논란이 되고 있다. 일부 학자들은 이러한 병소들이 증상이 없이 존재하다가 자발적으로 증식한다고 하였고,<sup>1</sup> 다른 사람들은 감염, 종양, 외상과 같은 인자가 병소의 성장을 자극한다고 하였다.<sup>13</sup> 본 보고의 증례 4 환자는 넘어진 것이 림프관종을 성장시키는 자극요소가 되어 병소의 크기가 갑자기 증가된 것으로 생각되어진다.

Landing과 Farber (1956)은 림프관종을 맥관강의 크기에 따라 병리조직학적으로 벽이 얇고 모세관 크기의 림프관으로 구성된 모세관성 림프관종(capillary lymphangioma), 한 층이나 여러 층의 상피두께를 가진 팽창된 림프관으로 구성된 해면성 림프관종(cavernous lymphangioma), 주로 림프구를 함유한 큰 다방성 낭종강으로 구성된 낭종성 림프관종(cystic lymphangioma)의 3가지로 분류하였다. 본 보고의 증례 1은 낭종성 림프관종, 증례 2와 증례 4는 해면성 림프관종, 증례 3은 모세관성 림프관종으로 생각된다. McGill과 Mulliken은 예후를 결정하는데 중요한 병소의 해부학적 위치를 고려하여 전산단층촬영사진에서 해부학적 위치를 기준으로 림프관종을 분류하였는데,<sup>14</sup> 제1형은 이설골근 하방에서 발생하여 경부 전삼각부와 후삼각부 모두와 관련되는 경우로 낭포성 활액종과 유사하며, 전산단층촬영에서 경계가 명확하며 낭포성 영역 주위로 ring-like enhancement를 보이며 조직학적으로는 주위구조에 침투하지 않은 상태이며, 제2형은 이설골근 상방의 경부에서 발견되고 구순, 구강 및 혀와 관련된 병소로, 전산단층촬영에서 경계가 불분명하고 근육 및 지방과의 경계가 불분명하고, 조직학적으로 크기가 더 작은 림프관을 보여주고 주위조직으로 침투하며, 이 분류는 발생부위에 따라 방사선상의 소견이 다양하게 나타날 수 있음을 제시해주며, 본 증례는 해부학적으로 모두 제2형으로 분류된다.

전산단층사진은 일반방사선사진이나 초음파사진보다 해부학적 위치를 더 명확하게 보여주지만 주위의 연조직과 종물을 구별하기 어려운 경우도 있다.<sup>15</sup> 해면성 림프관종과 낭종성 림프관종은 전산단층소견에서 다방성 종양성 병소로 보이기도 하며, 조영제를 혈관내로 주입한 후에 다수의 격벽이 증가되어 보이기도 한다. 자기공명영상은 전산단층촬영보다 병소의 범위와 주위조직과의 관계를 보여주는 데 있어서 우수하고,<sup>16</sup> T1강조영상은 저신호강도를 보이고, T2강조영상에서 고신호강도를 보여준다.<sup>17</sup>

림프관종과 감별 진단해야 할 질환으로 혈관종, 지방종, 새열 낭종 및 갑상선관 낭종 등이 있다.<sup>1,18</sup> 혈관종은 T2강

조영상에서 다수의 팽창된 낭종 구조보다는 사행상의 높은 신호 강도를 보여주고,<sup>19</sup> 근육을 종종 침투하고 지방조직을 함유한다. 이에 비해 림프관종은 병소 내에 지방조직을 보이지 않고, 근육을 전위시킨다. 새열낭종은 경동맥초의 전방과 측방에 위치하고, 흉쇄유돌근을 후내측으로 전위시키지만, 대부분의 림프관종은 경부 후삼각부에서 발생하고 흉쇄유돌근을 측방으로 전위시키면서 둘러싸고 있다. 갑상선관 낭종은 정중선에 전방에 위치하지만, 림프관종은 이 부위에서 발생하지 않는다. 지방종은 임상적으로 가장 감별진단하기 어렵지만, 특징적인 자기공명영상 소견을 가지고 있어서 림프관종과 쉽게 감별된다.<sup>20</sup>

림프관종이 진행되면 점진적인 성장과 불편감을 주고, 자발적으로 퇴축하는 경우는 아주 드물기 때문에, 종물은 즉시 외과적으로 절제를 해주는 것이 좋다. 전산단층촬영이나 자기공명영상을 이용하여 병소의 범위를 정확히 결정하여 외과적으로 병소를 완전히 제거하는 것이 추천되는데,<sup>3</sup> 경부의 신경, 혈관 등에 인접해 있어 완전히 절제하기 어려운 경우 잔존 병소의 재발 위험성이 증가된다.<sup>9</sup> Ravitch와 Rush는 병소가 잔존해 있을 때 재발율을 10-15%로 보고하였고,<sup>21</sup> Watson과 McCarthy는 외과적 절제 후에 41%가 재발하였다고 하였으며, 설골상부에서 발생한 경우 80% 정도에서 재발되었다고 보고하였다.<sup>22</sup> 성인에서 림프관종의 재발은 일반적으로 1년 이내에 일어나며, 나이가 들수록 재발경향이 증가되는 것으로 보고되었다.<sup>11</sup> 본 증례 중에서 재발을 보인 증례는 2증례로 상순에 발생한 증례 3은 심미적인 이유로 완전한 제거가 어려워 잔존한 병소가 재발을 한 것으로 생각되며, 증례 4는 해부학적으로 병소를 완전히 제거하기 어려운 부위에 발생하여 스테로이드 치료를 받고 있으나 재발의 위험성이 높으므로 계속적인 추적검사가 이루어져야 할 것이다.

## 참 고 문 헌

1. Schefter RP, Olsen KD, Gaffey TA. Cervical lymphangioma in the adult. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1985; 93: 65-9.
2. Tatu W, Pope T, Daniel T, Senofsky G. Computed tomography of mediastinal cystic hygroma in an adult: case report and review of literature. *J Comput Tomogr* 1985; 9: 233-6.
3. Emery PJ, Bailey CM, Evans JNG. Cystic hygroma of the head and neck: A review of 37 cases. *J Laryngol Otol* 1984; 98: 613-9.
4. Davidson A, Hartman D. Lymphangioma of the retroperitoneum: CT and sonographic characteristics. *Radiology* 1990; 175: 507-10.
5. Levine C. Primary disorders of the lymphatic vessels: a unified concept. *J Pediatr Surg* 1989; 24: 233-40.
6. Chait D, Yonkers AJ, Beddoe GM, et al. Management of cystic hygromas. *Surg Gynecol Obstet* 1974; 139: 55-8.
7. Dubois J, Garel L, Abela A, et al. Lymphangiomas in Children: Percutaneous Sclerotherapy with an Alcoholic Solution of Zein. *Radiology* 1997; 204: 651-4.
8. Stensen KM, Mishell J, Toriumi DM. Cystic hygromas of the parotid gland. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991; 100: 518-20.

9. Curran AJ, Malik N, McShane D, et al. Surgical management of lymphangioma in adults. *J Laryngol Otol* 1996; 110: 586-9.
10. Brooks JE. Cystic hygroma of the neck. *Laryngoscope* 1973; 83: 117-20.
11. Shafer WG, Hine MK, Levy BM. *A Textbook of Oral Pathology*. 4th ed. Philadelphia: W.B. Saunders Company; 1983. p. 159-60.
12. Balakrishnan A, Bailey CM. Lymphangioma of the tongue: A review of pathogenesis, treatment and the use of surface laser photocoagulation. *J Laryngol Otol* 1991; 105: 924-30.
13. Wiggs Jr WJ, Sismanis A. Cystic hygroma in the adult: Two case reports. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994; 110: 239-41.
14. McGill T, Mulliken J. *Vascular anomalies of the head and neck. Otolaryngology; Head and Neck Surgery*. Baltimore: Mosby Year Book Inc.; 1993. p. 333-46.
15. Silverman PM, Korobkin M, Moore AV. CT diagnosis of cystic hygroma in the neck. *J Comput Assist Tomogr* 1983; 7: 519-20.
16. Goshen S, Ophir D. Cystic hygroma of the parotid gland. *J Laryngol Otol* 1993; 107: 855-57.
17. Lenz M. *CT and MRI of head and neck tumors; Methods, guidelines, differential diagnoses and clinical results*. 1st ed. New York: Thieme Medical Publishers, Inc.; 1993. p. 98-9.
18. Mancuso AA, Dillon WP. MRI of the head and neck: the neck. *Radiol Clin North Am* 1989; 27: 407-34.
19. Yuh WTC, Kathol M, Sein M, et al. Hemangiomas of skeletal muscle: MR findings in five patients. *AJR* 1987; 149: 765-8.
20. Yuh WTC, Robinson RA, Phillips JJ, et al. Magnetic resonance imaging of pediatric head and neck cystic hygromas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991; 100: 737-42.
21. Ravitch MM, Rush Jr BF. Cystic hygroma. *Pediatr Surg* 1969; 1: 273-9.
22. Richiardi EJ, Richardson MA. Cervicofacial cystic hygroma: patterns of recurrence and management of the difficult case. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1991; 117: 546-53.