

# PET-CT에서 FDG 섭취증가를 보여 림프종으로 의심했던 복부 Kikuchi병 1예

설지수<sup>1</sup> · 하영은<sup>1</sup> · 유수현<sup>1</sup> · 방기배<sup>1</sup> · 박은혜<sup>1</sup> · 정수영<sup>2</sup> · 표정수<sup>3</sup> · 채승완<sup>3</sup> · 염준섭<sup>1</sup>

성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 내과학교실<sup>1</sup>, 핵의학교실<sup>2</sup>, 병리학교실<sup>3</sup>

## A Case of Intra-Abdominal Kikuchi's Disease with Increased FDG Uptake on PET-CT that Mimicked Intra-Abdominal Lymphoma

Kikuchi's disease is a benign disease characterized mainly by fever and cervical lymphadenitis. We report a case of Kikuchi's disease that manifested as intra-abdominal lymphadenitis. A 39 year old woman presented with fever that had persisted for one week. Her history and physical examination were unremarkable. The laboratory findings revealed mild leukopenia and increased C-reactive protein. Abdominal CT revealed multiple lymph node enlargements in the mesenteric root and around the ileocecal valve. Positron emission tomography-computed tomography (PET-CT) revealed increased 18-fluoro-deoxyglucose(FDG) uptake in the lymph nodes observed by abdominal CT. A laparoscopic excisional biopsy of the lymph node was performed for a confirmatory diagnosis and the pathology findings were compatible with Kikuchi's disease. Although intra-abdominal Kikuchi's disease is a rare disease, it should be considered in a differential diagnosis of intra-abdominal lymphadenopathy with increased FDG uptake on PET-CT

**Key Words:** Intra-abdominal lymphadenopathy, Kikuchi's disease, Positron-emission tomography

## 서론

Kikuchi병(또는 Kikuchi Fujimoto병)이라 불리는 조직구 괴사성 림프절염은 주로 젊은 여성에서 발병하고[1], 발열과 목 림프절 종대를 특징으로 하는 양성 질환이다[2]. Kikuchi병이 목 림프절 침범 없이 복강내림프절만 침범한 예는 드물게 보고되어 왔으며[3-8], Kikuchi병을 비롯하여 여러 양성 림프절 질환에서 양전자 방출 단층촬영(Positron emission tomography-computer tomography, PET-CT)의 진단적 역할은 아직까지 정립된 바가 없다[9, 10].

저자들은 발열을 주소로 내원하여 복강내림프절 종대가 발견된 환자에서 PET-CT상 FDG (18-fluoro-deoxyglucose) 섭취증가를 보여 림프종을 의심했으나 림프절 절제 조직검사를 통해 Kikuchi병으로 진단된 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함

Ji Soo Seol<sup>1</sup>, Young Eun Ha<sup>1</sup>, Su Hyeon Yoo<sup>1</sup>, Ki Bae Bang<sup>1</sup>, Eun Hye Park<sup>1</sup>, Su Young Jung<sup>2</sup>, Jung-Soo Pyo<sup>3</sup>, Seung Wan Chae<sup>3</sup>, and Joon-Sup Yeom<sup>1</sup>

Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, <sup>2</sup>Nuclear Medicine, <sup>3</sup>Pathology, Kangbuk Samsung Hospital, Sungkyukwan University school of Medicine, Seoul, Korea

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2012 by The Korean Society of Infectious Diseases | Korean Society for Chemotherapy

Submitted: July 19, 2012

Revised: September 12, 2012

Accepted: September 19, 2012

Correspondence to Joon-Sup Yeom, M.D., Ph.D

Department of Internal Medicine, Kangbuk Samsung Hospital, Sungkyunkwan University School of Medicine, 108 Pyeong-dong, Jongno-gu, Seoul 110-746, Korea

Tel: +82-2-2001-2472, Fax: +82-2-2001-1596

E-mail: joonsup.yeom@gamil.com

[www.icjournal.org](http://www.icjournal.org)

게 보고하는 바이다.

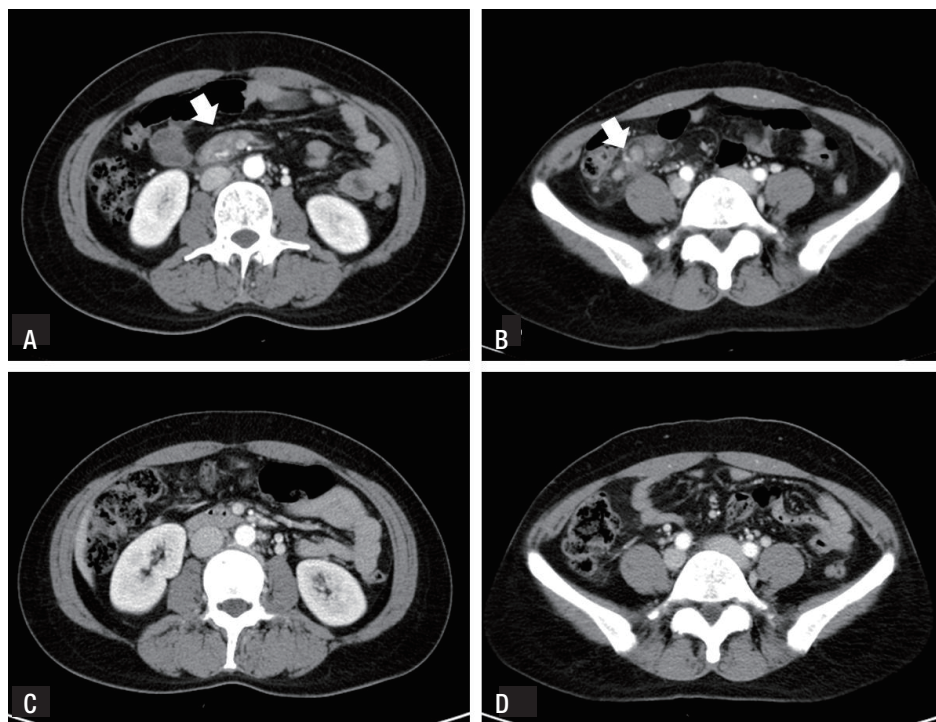
## 증례

39세 여성이 발열과 식은땀을 주소로 응급실을 내원하였다. 환자는 특별한 과거력이 없었고, 내원 1주 전부터 발생한 발열을 주소로 일차 진료기관에서 항생제를 포함한 약물 치료를 받았으나 증상이 지속되어 전원되었다. 환자는 급성 병색을 보였고, 혈압 120/80 mmHg, 맥박수 90/min, 호흡수 20/min, 체온 39.3°C였다. 의식은 명료하였으며, 인후부 발적이나 편도 비대는 보이지 않았고, 목과 빗장위 림프절 종대는 촉진되지 않았다. 흉부 청진에서 호흡음과 심음은 정상이었다. 복부 팽만은 없었고, 장음은 정상이며, 간비종대나 만저지는 종괴는 없었고, 압통과 반동압통도 없었다. 말초 혈액 검사에서는 백혈구 4,000/mm<sup>3</sup> (호중구 70.9%, 림프구 19.3%, 단핵구 9.5%), 혈색소 13.0 g/dL, 혈소판 323,000/mm<sup>3</sup>이었다. 혈청 생화학 검사에서는 아스파르테이트아미노전달효소 18 IU/L, 알라닌아미노전달효소 12 IU/L, 총빌리루빈 0.47 mg/dL, 혈액요소질소/크레아티닌 5.7/0.5 mg/dL, 소듐 140 mmol/L, 포타슘 4.0 mmol/L, 클로라이드 104 mmol/L, C-반응성 단백 5.24 mg/dL, procalcitonin <0.05 ng/mL, 혈액응고검사에서 프로트롬빈 시간 12.9초, 활성화부분트롬보플라스틴시간 34.1초 이었고, 소변검검사는 정상이었다. 흉부 방사선 검사에서 특이소견은 없었고, 감염 병소를 찾기 위해 시행한 복부 전산화촬영(Computed tomography, CT)상 상장간막동맥과 상장간막정맥을 둘러싸는 장간막 뿌리부위와 회맹장 부위에 최대 직경 1.5 cm 크기로 다수의 림프절

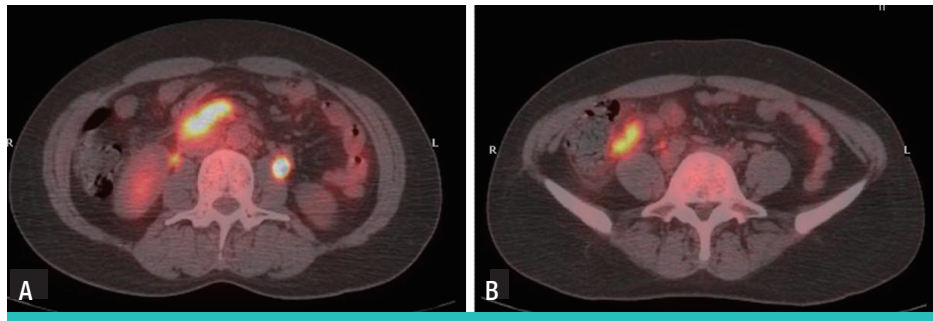
종대가 확인되었다(Fig. 1).

혈액 및 대변 배양 검사상 유의하게 동정된 균은 없었으며, Epstein-Barr virus-viral capsid antigen (EBV-VCA) IgG 양성, IgM 음성, 거대세포바이러스(cytomegalovirus) IgG 양성 및 IgM 음성, 단순헤르페스바이러스(herpes simplex virus, HSV) IgG 양성 및 IgM 음성, 사람면역결핍바이러스(Human immunodeficiency virus, HIV) 항체 음성, 항핵 항체(Antinuclear antibody, ANA) 음성, Antineutrophil Cytoplasmic Antibody (ANCA) 음성, 독소플라즈마 항체음성이었다. 입원 4일째 악성 종양과의 감별을 위하여 PET-CT를 시행하였고, 상장간막동맥과 상장간막정맥을 둘러싸는 장간막 뿌리부위에 SUV(Standardized uptake values) 값 11.3 과 회맹장 유출 정맥 주위에 SUV 값 6.8의 유의한 FDG 섭취가 관찰되었다(Fig. 2A, 2B). 조직학적 확진이 필요한 것으로 판단되어 입원 7일째에 복강경하 림프절 절제술을 시행하였다.

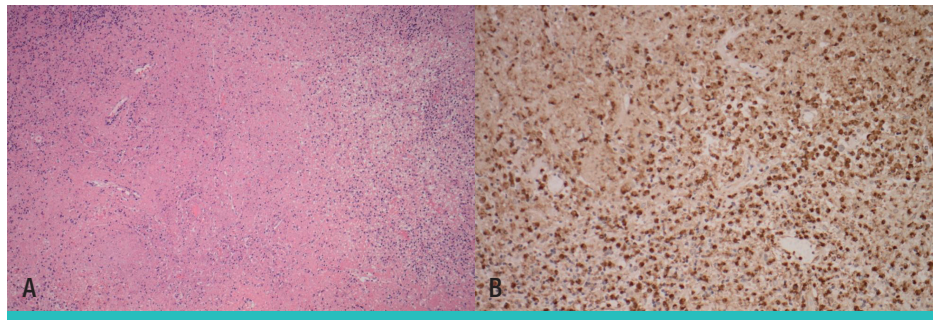
림프절의 현미경적 소견에서 림프양 세포들로 이루어진 림프절 구조의 광범위한 괴사가 관찰되었고, 괴사 병변에서 호산구성 구상물질과 핵파편이 보였다. CD68 (Cluster of differentiation 68)과 골수세포형 과산화효소(Myeloperoxidase, MPO)에 대한 면역화학염색에서 양성인 조직구가 관찰되어 조직구 괴사성 림프절염을 진단하였다(Fig. 3). 환자는 특별한 치료 없이 입원 10일째부터 발열 증상이 호전되어 입원 14일째에 퇴원 하였다. 퇴원 후 발열은 없었으며 한달 뒤 시행한 복부 전산화촬영에서 복강내 림프절염 소견은 소실되었다(Fig. 2C, 2D).



**Figure 1.** Abdominal CT scan shows enlarged (A) mesenteric root lymph nodes and (B) ileocolic lymph nodes. After one month, (C) enlarged mesenteric lymph nodes and (D) ileocolic lymph nodes had disappeared.



**Figure 2.** PET-CT scan shows multiple lymph nodes in the mesenteric root (A) and ileocolic area (B) with 18-fluorodeoxyglucose (FDG) uptake (standardized uptake value, SUV 11.3 and 6.8).



**Figure 3.** Pathology of an excisional biopsy of lymph node. (A) Lymph node biopsy shows extensive necrosis of the nodal architecture (H&E,  $\times 100$ ). (B) Positive staining for CD68 in histiocytes (CD68,  $\times 200$ ).

## 고찰

Kikuchi병은 발열과 목 림프절 종대를 주된 임상적 특징으로 하는 양성 질환이며, 주로 30세 미만의 젊은 여성에게서 발견된다[1]. 원인은 명확히 밝혀지지 않았고, Epstein-Barr virus, Parainfluenza virus, Human herpes virus 6, Parvovirus B19 등의 감염에 의한 면역학적 반응이 연관되어 있을 것으로 생각되나, 명확한 증거는 없으며 [11, 12] CD8 림프구에 의한 세포 자멸사가 세포 파괴의 주요 기전인 것으로 설명한 보고가 있다[13]. 대표적인 증상으로는 발열과 목 림프절 종대이고 야간발한, 오심과 구토, 체중 감소 설사 등이 동반될 수 있다 [2]. 림프절의 조직검사를 통해 진단할 수 있고, 조직학적으로 부피질역에 비교적 경계가 잘 지어지는 부분적 또는 광범위한 조직구성 괴사 병변을 보이며, 이 괴사 부위에는 핵붕괴 및 호산성 세포괴사 잔해물들이 있고, 상당량의 조직구들과 형질세포양 단핵세포들을 관찰할 수 있다. 세균성 림프절염에서 발견 될 수 있는 중성구, 호산구, 형질세포 및 상피양 세포들은 거의 관찰되지 않고 CD 68과 골수세포형과산화효소 면역화학 염색에서 양성을 보이는 조직구의 침윤을 특징으로 한다 [14]. Kikuchi병의 치료는 대증적 처치로 충분하며 임상 경과는 대부분 양성으로 수주에서 6개월 이내에 자연회복되나 소수의 환자에서 중증의 경과와 반복적인 발병 양상을 보일 수 있다[15].

Kikuchi병과 감별해야 할 질환으로는 악성 림프종, 림프절 결핵, 전염성 단핵구증, 독소플라스마 감염, 사람면역결핍바이러스 감염에 의한 림프절염, 그리고 전신홍반 루프스로 인한 림프절염 등이 있다[2]. 본 증례에서는 사람면역결핍바이러스 항체, 거대세포바이러스 항체,

EBV 항체, 항핵항체 검사에서 음성 소견을 보여 바이러스 감염, 전신 홍반루프스 등의 자가면역질환에 의한 림프절염을 배제할 수 있었고, 림프절 조직검사상 림프절의 광범위한 괴사와 골수세포형과산화효소와 CD68의 면역화학 염색에 양성을 보이는 조직구가 관찰되어 Kikuchi병으로 진단할 수 있었다.

Kikuchi병은 목 림프절을 가장 흔히 침범하는 것으로 알려져 있으며, 그 외에 겨드랑이, 세로칸, 서혜부, 장간막 림프절 등을 침범하는 경우도 있으며 전신에 걸쳐 림프절을 침범할 수 있다[2]. Kikuchi병이 목 림프절 침범 없이 복강내 림프절만 단독으로 침범한 경우는 매우 드물며, 외국의 경우는 소아에서 2예[3, 4], 성인에서 2예가 보고되었다[5, 6]. 국내의 경우 우하복부 통증이 있는 소아에서 급성충수염으로 오인하여 개복 수술 시행하였으나 충수 염증소견은 보이지 않고 장간막 림프절 종대가 보여 림프절의 조직생검 이후 Kikuchi병으로 진단된 1예와 [7], 복부통증과 발열이 있는 환자에서 복부전산단층촬영상 복강내 다수의 림프절 종대가 관찰되고 임상적 충수염 가능성으로 충수절제술 및 림프절 절제 시행 이후, Kikuchi병으로 진단된 소아 1예와 성인 2예가 보고되었으며[8], 발열과 복통이 있는 환자가 복부전산단층촬영에서 다수의 복강내 림프절 종대가 관찰되며, PET-CT에서 FDG 섭취 증가된 소견 보여 악성 림프종 의심하에 수술적 조직생검 이후 Kikuchi병으로 진단된 1예가 있다[16](Table 1).

본 증례의 환자는 복부 림프절염을 의심할 만한 복통 등의 증상 없이 발열만 동반되었다는 점이 이전 보고 증례와 상이하며, 복부전산단층촬영에서 복강내 림프절 종대가 발견되어 악성 림프종과 같은 종양성 질환을 감별하기 위해 PET-CT를 시행하였고, PET-CT 상 유의한



Table 1. Reported Cases of Intra-abdominal Kikuchi's Disease in the Literature

Author	Year	Age/Sex	Symptom	Location
Rudin C et al	1987	14/F	Fever, jaundice, vomiting, abdominal pain	Mesentery of lower ileum loop
Yabe H et al	1999	15/F	Fever, diarrhea, abdominal pain	Mesenteric lymph node
Kita Y et al	1997	27/F	Fever, abdominal pain	Ileocecal mesenteric lymph node
Rudniki C et al	1988	26/M	Fever, splenomegaly	Retroperitoneal lymph nodes
Yoon YR	2003	8/M	Abdominal pain, fever	Cecal area
Oh BJ	2005	27/F	Abdominal pain, fever	Along the ileocolic vessel
		12/M	Fever, abdominal pain	Along the ileocolic vessel
		25/M	Abdominal pain, fever	Terminal ileum
Han HS	2009	19/M	Abdominal pain, fever	Ileocecal and portal hepatis area

FDG 섭취가 관찰되었다.

현재까지 Kikuchi병에서 PET-CT의 역할은 정립되어 있지 않다. 우선 PET-CT를 시행한 사례 자체가 많지 않고 일부 PET-CT를 시행한 사례도 대부분 악성 종양을 의심하여 시행했던 경우이다[17-19]. PET-CT는 악성종양을 진단하거나 병기 설정을 위해 주로 이용되고 있지만, FDG 섭취가 세포 활성도와 연관되기 때문에 악성세포와 염증세포에서 모두 증가될 수 있어 Kikuchi병에서도 FDG 섭취가 증가될 수 있음은 추론 가능하다.

국내의 경우 회맹부와 간문부의 림프절에서 각각 SUV 5.2와 4.7의 FDG 섭취를 보인 성인환자 1예가 보고되었고[16] 우측 목 림프절에 FDG 섭취를 보인 소아환자 1예가 보고되었다[20]. 외국 문헌을 고찰해보면, Ito K 등은 Kikuchi병 환자 7명의 PET-CT 결과를 분석하여 SUV 값이  $6.25 \pm 3.32$ 로 FDG 섭취가 증가해 있음을 보고하였다[9]. Tsujikawa T 등은 목 림프절 종대를 보인 14명의 비호즈킨림프종 환자와 8명의 Kikuchi병 환자들의 PET-CT 영상을 분석하여 림프절의 크기와 SUV, partial volume corrected SUV(corSUV)를 비교하였다. Kikuchi병 환자의 corSUV ( $23.8 \pm 10.6$ )값은 지연형(indolent) 비호즈킨 림프종 환자의 corSUV 값 ( $9.2 \pm 5.1$ ,  $P < 0.05$ )에 비하여 의미있게 높은 값을 가지나, 공격형(aggresive) 비호즈킨 림프종 corSUV 값 ( $21.4 \pm 10.2$ )과는 유의한 차이는 없는 것으로 나타나, Kikuchi병은 병변의 크기에 비하여 높은 SUV를 나타내고 이는 림프절 과사부위를 림프구와 조직구가 둘러싸는 병리적인 특징 때문인 것으로 생각된다고 보고하였다[10]. 본 증례에서는 림프절의 FDG 섭취 정도가 SUV 값 11.3으로, 문헌보고에서 확인된 값과 큰 차이는 없었다.

결론적으로 본 증례는 Kikuchi병이 목 림프절 침범 없이 복강내 림프절을 단독으로 침범할 수 있다는 것과, 림프절 병소가 PET-CT상 높은 FDG 섭취 증가를 보여, 림프종과 같은 종양성 질환과 감별이 필요했다는 점에서 임상적 의의가 있겠다. Kikuchi병과 같은 양성 림프절 질환에서 PET-CT의 진단적 역할에 대해서는 향후 더 상세한 연구가 필요할 것으로 사료된다. 저자들은 PET-CT상 FDG 섭취를 보인 복강내 림프절 종대 환자에서 조직 검사 이후 Kikuchi병으로 진단된 1예가 있어 보고하는 바이다.

## References

1. Kikuchi M. Lymphadenitis showing focal reticulum cells hyperplasia with nuclear debris and phagocytosis : A clinicopathological study. *Acta Hematol Jpn* 1972;35:379-80.
2. Dorfman RF, Berry GJ. Kikuchi's histiocytic necrotizing lymphadenitis: an analysis of 108 cases with emphasis on differential diagnosis. *Semin Diagn Pathol* 1988;5:329-45.
3. Rudin C, Wernli R, Rutishauser M, Ohnacker H. Mesenteric histiocytic necrotizing lymphadenitis. Case report. *Helv Paediatr Acta* 1987;42:35-40.
4. Yabe H, Sinzato I, Hashimoto K. Necrotizing lymphadenitis presenting as mesenteric lymphadenopathy. *Rinsho Ketsueki* 1999;40:658-62.
5. Kita Y, Kikuchi M, Nakae T, Nakai Y, Okamura A, Ohshima T, Hara T. A case of Kikuchi's disease with abdominal manifestations. *Surgery* 1997;122:962-3.
6. Rudniki C, Kessler E, Zarfati M, Turani H, Bar-Ziv Y, Zahavi I. Kikuchi's necrotizing lymphadenitis: a cause of fever of unknown origin and splenomegaly. *Acta Haematol* 1988;79:99-102.
7. Yoon YR, Lim JY, Park CH, Choi MB, Woo HO, Youn HS. Necrotizing lymphadenitis mimicking acute appendicitis affecting mesenteric lymph node. *Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2003;6:68-72.
8. Oh BJ, Choi WJ, Lim KS, Kim W. Kikuchi-Fujimoto disease: three cases presenting as acute abdomen. *J Korean Soc Emerg Med* 2005;16:194-9.
9. Ito K, Morooka M, Kubota K. Kikuchi disease: 18F-FDG positron emission tomography/computed tomography of lymph node uptake. *Jpn J Radiol* 2010;28:15-9.
10. Tsujikawa T, Tsuchida T, Imamura Y, Kobayashi M, Asahi S, Shimizu K, Tsuji K, Okazawa H, Kimura H. Kikuchi-Fujimoto disease: PET/CT assessment of a rare cause of cervical lymphadenopathy. *Clin Nucl Med* 2011;36:661-4.
11. Turner RR, Martin J, Dorfman RF. Necrotizing lymphadenitis. A study of 30 cases. *Am J Surg Pathol* 1983;7:115-23.
12. Huh J, Chi HS, Kim SS, Gong G. A study of the viral etiology of

- histiocytic necrotizing lymphadenitis (Kikuchi-Fujimoto disease). *J Korean Med Sci* 1998;13:27-30.
13. Ohshima K, Shimazaki K, Kume T, Suzumiya J, Kanda M, Kikuchi M. Perforin and Fas pathways of cytotoxic T-cells in histiocytic necrotizing lymphadenitis. *Histopathology* 1998; 33:471-8.
  14. Pileri SA, Facchetti F, Ascani S, Sabattini E, Poggi S, Piccioli M, Rondelli D, Vergoni F, Zinzani PL, Piccaluga PP, Falini B, Isaacson PG. Myeloperoxidase expression by histiocytes in Kikuchi's and Kikuchi-like lymphadenopathy. *Am J Pathol* 2001;159:915-24.
  15. Famularo G, Giustiniani MC, Marasco A, Minisola G, Nicotra GC, De Simone C. Kikuchi Fujimoto lymphadenitis: case report and literature review. *Am J Hematol* 2003;74:60-3.
  16. Han HS, Kim GH, Cho YS, Joo HJ, Lee OJ, Ryu DH, Lee KH, Kim ST. Intra-abdominal Kikuchi's disease mimicking malignant lymphoma on FDG PET-CT. *Nucl Med Mol Imaging* 2009;43: 363-5.
  17. Liao AC, Chen YK. Cervical lymphadenopathy caused by Kikuchi disease: positron emission tomographic appearance. *Clin Nucl Med* 2003;28:320-1.
  18. Kaicker S, Gerard PS, Kalburgi S, Geller MD, Hailoo D. PET-CT scan in a patient with Kikuchi disease. *Pediatr Radiol* 2008; 38:596-7.
  19. Zhang MJ, Xiao L, Zhu YH, Jiang JJ, Jiang MS, He W. Lymph node uptake of 18F-fluorodeoxyglucose detected with positron emission tomography/computed tomography mimicking malignant lymphoma in a patient with Kikuchi disease. *Clin Lymphoma Myeloma Leuk* 2010;10:477-9.
  20. Kim CH, Hyun OJ, Yoo Ie R, Kim SH, Sohn HS, Chung SK. Kikuchi Disease Mimicking Malignant Lymphoma on FDG PET/CT. *Clin Nucl Med* 2007;32:711-2.