

CASE REPORT

복강내 담즙종으로 발현한 천공성 황색육아종성 담낭염 1예

안연정, 김태호, 문성원, 최수녕, 김현진, 정운태, 이옥재, 고경혁¹

경상대학교 의학전문대학원 내과학교실, 병리학교실¹, 건강과학연구원

A Case of Perforated Xanthogranulomatous Cholecystitis Presenting as Biloma

Yeon Jeong Ahn, Tae Hyo Kim, Sung Won Moon, Su Nyoung Choi, Hyun Jin Kim, Woon Tae Jung, Ok Jae Lee and Gyung Hyuck Ko¹

Departments of Internal Medicine, Pathology¹ and Institute of Health Science, Gyeongsang National University School of Medicine, Jinju, Korea

Xanthogranulomatous cholecystitis is an unusual inflammatory disease of the gallbladder characterized by severe proliferative fibrosis and the accumulation of lipid-laden macrophages in areas of destructive inflammation. Its macroscopic appearance may occasionally be confused with gallbladder carcinoma. We present a case of perforated xanthogranulomatous cholecystitis presenting as biloma. An 80-year-old woman was referred to our hospital with a 1-week history of abdominal pain and febrile sensation. Abdominal CT showed a biloma in the subhepatic area. The follow-up CT showed that the biloma increased in size. Therefore, ultrasonography-guided aspiration was performed. The aspirated fluid/serum bilirubin ratio was greater than 5, which was strongly suggestive of bile leakage complicated by perforated cholecystitis. She underwent a laparoscopic cholecystectomy with cyst aspiration and adhesiolysis. A histological diagnosis of perforated xanthogranulomatous cholecystitis was made. (*Korean J Gastroenterol* 2011;58:153-156)

Key Words: Perforated; Xanthogranulomatous cholecystitis; Laparoscopic cholecystectomy

서 론

황색육아종 담낭염은 담낭에 발생하는 드문 염증성 질환으로 포말성 조직구들의 담낭벽 내 침착이 특징적이다.^{1,2} 특히, 주위조직으로의 침윤과 결절성 병변을 형성하여 영상학으로 담낭암과 감별이 어려운 경우가 많다.^{1,3} 황색육아종 담낭염에서 담낭천공, 농양 등의 합병증이 발생하면 예후가 불량하여 합병증이 의심되는 경우 빠른 진단과 치료가 필요하다.⁴

저자들은 상복부 동통과 열감으로 내원한 80세 여자 환자에게 초음파와 복부컴퓨터단층촬영에서 간하부에 담즙종을 발견하였다. 경과 관찰 중 크기가 커져서 초음파 유도 하에 흡인하였고 흡인액의 빌리루빈이 높아 담낭천공에 의한 담즙누출을 의심하고 수술을 시행하여 천공성 황색육아종 담낭염으로 진

단된 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

80세 여자가 5일 전부터 발생한 우상복부 동통과 열감을 주소로 본원에 내원하였다. 환자는 수십년 전 폐결핵으로 치료받았고, 5년 전부터 압축성 심낭염을 진단받아 투약 중이었다. 사회력 및 가족력은 특이 사항이 없었다. 내원 당시 급성 병색이었으나 의식은 명료하였고, 혈압은 150/80 mmHg, 맥박수는 분당 78회, 호흡수는 분당 18회, 체온은 37.4°C였다. 복부 진찰에서 상복부의 압통은 있으나 반발통은 없었으며 장음은 정상이었다. 그 외 다른 부위에 이상 소견은 없었다. 검사실 소견에서 백혈구 7,070/mm³, 혈색소 11.8 g/dL, 혈소판

Received January 4, 2011. Revised April 14, 2011. Accepted May 12, 2011.

© 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.

교신저자: 김태호, 660-702, 경남 진주시 칠암동 90, 경상대학교 의학전문대학원 내과학교실

Correspondence to: Tae Hyo Kim, Department of Internal Medicine, Gyeongsang National University Hospital, 90, Chilam-dong, Jinju 660-702, Korea. Tel: +82-55-750-8726, Fax: +82-55-755-9078, E-mail: kimthy@medimail.co.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

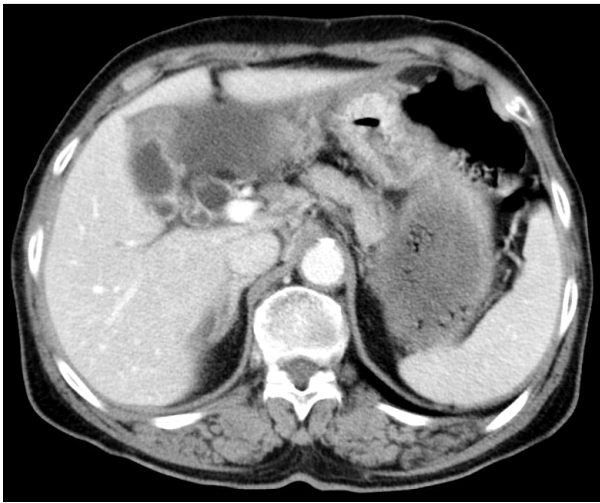


Fig. 1. CT scan of abdomen. It showed a focal gallbladder wall thickening and fluid collection in the subhepatic space. There was no definitive connection between the fluid collection and the gallbladder.



Fig. 2. Follow-up CT scan of abdomen. It showed that the cystic mass increased in size (11×5 cm) with wall enhancement in the subhepatic space.

215,000/mm³이었다. 생화학 검사에서 총 단백 5.5 g/dL, 알부민 2.8 g/dL, 총 빌리루빈 1.37 mg/dL, alkaline phosphatase 279 IU/L, r-GTP 122 IU/L, AST/ALT 25/31 IU/L, BUN 8.4 mg/dL, 크레아티닌 0.76 mg/dL, 혈청 아밀라제 31 IU/L, 혈청 리파제 25 IU/L, C-반응단백 110.8 mg/dL, 적혈구침강속도 80 mm/hr이었다. 종양표지자 검사에서 AFP 1.06 ng/mL, CEA 2.14 ng/mL, CA 19-9 15.98 U/mL였다. 단순 복부X선 촬영에서는 특이소견이 없었고 복부컴퓨터단층촬영에서 간하부에 약 4.5×3 cm의 체액저류 소견이 관찰되었다(Fig. 1).

환자는 응급실에서 경과관찰 중에 39°C의 열이 발생하였고 상복부 동통이 지속되어 경험적 항균제 치료를 시작하였다. 내원 2일째 복부 초음파를 시행하였으며 간하부에 5×3



Fig. 3. Gross findings of the specimen. The gallbladder was characterized by a thickened wall with poorly circumscribed yellowish granular necrotic areas and perforation (arrow).

cm 크기의 낭성종괴가 여전히 관찰되었으나 항생제 치료 후 증상이 호전되어 경과관찰하였다. 내원 7일째 추적 복부컴퓨터단층촬영을 하였고 간하부의 담즙종이 11×5 cm로 크기가 증가하여(Fig. 2), 초음파 유도하에 흡인검사를 시행하였고 장액성의 갈색 액체가 20 cc 가량 흡인되었다. 흡인액 검사 소견에서 WBC 79/mm³, PMN 84%이었고 흡인액 배양검사에서는 동정되는 균은 없었다. 특징적으로 흡인액내 amylase 24 U/L로 정상이었으나 빌리루빈이 7.25 mg/dL로 증가된 소견이 관찰되었다. 함께 시행된 혈액검사에서도 빌리루빈이 0.73 mg/dL으로 흡인액과 혈청 빌리루빈의 비(ratio)가 9.93이었다. 흡인액과 혈청 빌리루빈의 비가 높게 나온 것은 담즙유출의 소견으로 영상학 검사에서는 의심하지 못했던 담낭천공을 의심하여 복강경 담낭절제술을 시행하였다. 수술 시 담낭은 커져 있었고 그 주위로 담즙종이 관찰되었으며 주변 조직과 심하게 유착되어 있었다. 담낭의 육안적 소견은 장경 5 cm 크기이며 담낭벽이 두꺼워져 있고 주위조직과 경계가 불명확한 황백색의 결절성 및 괴사성 병변이 관찰되며 담낭벽에 일부 천공소견이 보였다(Fig. 3). 절제된 담낭의 광학 현미경 소견에서는 상피하 결합조직에서 지방을 탐식한 조직구들이 모여있고 주위로 다양한 정도의 림프구 침윤이 관찰되어 황색육아종 담낭염으로 진단하였다(Fig. 4). 이후 환자는 증상이 호전되어 수술 후 4일째 합병증 없이 퇴원하였다.

고 찰

황색육아종 담낭염은 파괴적 염증 반응으로 인한 담낭벽의 비후 소견이 보이는 드문 질환으로 담낭절제술을 시행한 후 발견되는 황색육아종 담낭염의 빈도는 0.7-10.6%까지 보고되

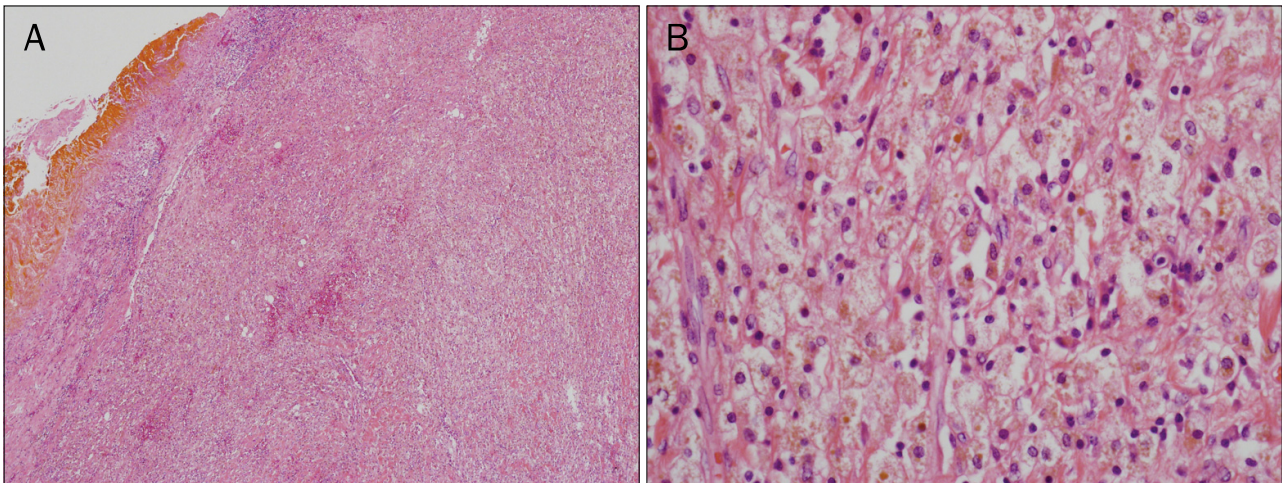


Fig. 4. Microscopic findings of the specimen. (A) The ulcerated mucosa of the gallbladder was stained with bile pigments (H&E stain, $\times 40$). (B) The subepithelial connective tissue of the gallbladder showed a massive aggregation of foamy macrophages. There were also infiltration of lymphocytes, plasma cells and occasional multinucleated giant cells. Many macrophages contained both ceroid pigments and cholesterol (H&E stain, $\times 400$).

고 있다.⁴ 남녀 성비는 비슷하며, 주로 노년기에 호발하는 것으로 알려져 있지만 드물게 소아에서도 보고된 적이 있다.⁵ 78-98%에서 담석을 동반하며 비만이나 당뇨병자에게 호발하는 것으로 알려져 있다.⁶

황색육아종 담낭염의 병인은 급성 염증 및 담낭관의 폐쇄로 인한 육아종 염증으로 생각되며 염증반응 부위에 조직구가 축적되어 불용성의 콜레스테롤과 다른 담즙산 지질을 탐식한 후 대형의 황색종 세포를 형성하고 염증은 점막내 미세 농양을 만들며 결국 담낭벽이 황색육아종으로 대체되어지는 것으로 생각된다.^{5,7} 그리고 황색육아종 염증반응이 Rokitsansky-Aschoff sinus의 벽내 파열로 인한 주변조직으로의 담즙 유출로 인해 간과 주변조직으로의 심한 침윤 소견을 보여 수술 전 영상학 소견이나 수술 중 육안 소견에서 담낭암과의 감별을 어렵게 하고 있다.⁴ 임상증상은 일반적인 담낭염이나 담낭암과 비슷한 증상을 보이며 담도산통이 88.8%, 발열을 동반한 경우가 16.7%, 폐쇄성 황달이 27.7%, 식욕부진이나 체중 감소를 주소로 내원하는 경우가 8.3%으로 보고되고 있다.^{4,7}

황색육아종 담낭염의 진단은 복부 초음파, 복부컴퓨터단층촬영, 자기공명영상 등의 영상학 검사로 도움을 받을 수 있으나 정확한 진단을 위해서는 조직학 검사가 뒷받침되어야 한다. 영상학으로 가장 흔한 소견은 담석의 존재와 담낭벽의 비후이다.^{3,8} 그러나 이 또한 비특이적인 소견이라 황색육아종 담낭염을 진단하는 데는 어려움이 많다. 복부 초음파에서 담낭벽 내에 저에코의 결절이나 밴드가 보이는 경우 특징적인 소견이라는 보고도 있다.⁹ 복부컴퓨터단층촬영에서는 담낭결석이 83.3%로 가장 많았고 담낭벽의 비후소견이 66.6%로 두 번째로 흔하였으며 담낭벽내 저에코의 결절 소견은 13.8%를 차지하였다.⁴ 자기공명영상 촬영의 T2 weight 영상에서

Rokitansky-Aschoff sinus에 상응하는 두터워진 담낭벽 내의 고신호성 결절이 황색육아종 담낭염과 담낭암을 감별하는데 일부 도움이 된다.⁴ 또한 종양표지자 CA 19-9는 황색육아종 담낭염에서 상승한다는 보고가 있으나 담낭암의 감별진단에는 도움이 되지 않는다.⁹ 이처럼 대다수의 환자들은 비특이적인 임상소견을 보여 수술 전 황색육아종 담낭염을 진단하기는 매우 어려우며 수술 후 조직학 진단을 통해 확진되는 경우가 대부분이다.⁶

황색육아종 담낭염의 육안 소견으로는 담낭은 경화되어 있는 경우가 많고 담낭벽의 황색결절을 동반하는 불규칙한 담낭벽의 비후 소견이 특징적이며 점막면에서 출혈과 궤양 및 조직의 괴사를 보인다.^{5,7} 조직학으로는 단핵구의 미만성 침윤, 지방 및 담즙을 탐식한 대식세포, 결절성의 섬유아세포의 증식이 특징이다.⁷ 또한, 수술 전에는 담낭암과의 구별도 힘들지만 담낭암과 함께 발생한 경우가 10%까지 보고되고 있다.⁶ 담낭암과 황색육아종 담낭염과의 관계에 대해서는 정확히 알려진 바가 없다.¹⁰ 수술 전에 황색육아종 담낭염과 담낭암과의 구분이 어렵고 두 질환이 함께 존재하는 경우가 보고되고 있어서 수술 중에는 가능한 육아종 염증조직을 완전하게 제거해서 동결조직검사로 진단을 하는 것이 필요하다.⁷

황색육아종 담낭염은 주변장기와의 유착, 농양, 누공, 천공, 낭성 종괴, Mirizzi 증후군 등의 합병증을 동반할 수 있으며 합병증이 동반되었을 때 예후가 불량하다.⁴ 천공이나 낭성종괴로 발현된 예가 각각 보고되어 있으나^{11,12} 천공으로 인한 담즙중은 아직 보고된 예가 없다.

담낭천공은 일반적으로 내강내 압력이 증가하여 정맥순환계 또는 림프순환계의 장애로 담낭의 괴사와 천공을 유발하여 발생하며 감염, 악성, 약제, trauma 및 당뇨와 같은 전신질환

이 선행요인으로 알려져 있지만 황색육아종성 담낭염에서 담낭천공의 기전은 잘 알려져 있지 않다.¹³

담낭천공에 의한 담즙유출을 진단하기 위해 Technetium 99 m-HIDA scintigraphy (HIDA) scans은 비침습적인 검사로 담즙유출을 확인하는데 정확도가 높은 검사로 알려져 있지만 핵의학 검사실로 이동이 어려운 상태의 환자나 검사하는데 협조가 되지 않는 환자의 경우에는 HIDA scans을 시행하기 어렵다.¹⁴ 이 경우에는 흡인액과 혈청 빌리루빈의 비(aspirated fluid/serum bilirubin ratio)를 구하여 5 이상인 경우 담즙유출을 강력하게 의심할 수 있으며 이는 100%의 민감도와 특이도를 가지는 검사이며 비용이 적게 들고 환자의 상태가 불안정한 경우에도 시행할 수 있고 빠른 결과를 얻을 수 있는 유용한 검사이다.¹⁴⁻¹⁷ 우리 증례의 경우도 초음파와 컴퓨터단층촬영에서는 담낭 천공을 의심할 만한 소견이 보이지 않았으나 초음파 유도하에 얻은 흡인액과 혈청 빌리루빈의 비가 9.93으로 담즙유출을 의심할 만한 소견을 보여 담낭천공 의심하에 수술을 시행하였던 예이다. 이전에 보고된 황색 육아종 담낭염의 증례에서는 영상학 검사를 통해서나 수술 중에 담낭천공을 발견한 경우가 대부분이다.^{4,11}

황색육아종 담낭염의 치료는 담낭절제술이나 강한 염증성향은 주변조직과의 누공 형성뿐만 아니라 담낭 주변부의 심한 유착이나 천공 등의 수술 전 합병증을 동반하는 빈도가 높아서 복강경 담낭 절제술에서 개복 절제술로의 전환율이 높았다.^{4,5} 인근 구조물이나 장기를 침범하여 황달이나 염증을 보이거나 장관폐색이나 천공과 같은 잠재적인 합병증을 가지는 황색육아종 담낭염이라면 증상호전과 합병증을 예방하기 위해서 침범한 조직구조물을 가능한 완전하게 절제술을 해주는 것이 바람직하다.⁴

결론으로 황색육아종 담낭염은 드문 형태의 만성 담낭염으로 수술 전 임상증상, 영상학 소견, 수술 중 육안 소견으로 담낭암과의 구별이 어려우며 심한 염증반응으로 주변장기의 침범과 유착을 흔히 동반한다. 담낭천공, 농양들의 합병증이 발생하면 빨리 치료하지 않은 경우 경과가 나쁘므로 의심되는 경우 빠른 처치가 필요하다. 이번 증례는 우상복부 동통과 열감으로 내원하여 시행한 초음파와 컴퓨터단층촬영에서 담즙종을 발견하였고 경과관찰 중에 크기가 커져 흡인을 시행하였다. 흡인액과 혈청 빌리루빈의 비가 5 이상으로 높게 나와 영상학 검사에서는 의심하지 못했던 담낭천공을 의심하여 빠른 시기에 수술을 시행하여 황색육아종 담낭염을 진단받았다. 담낭주위에 담즙종을 형성한 경우 흡인을 시행하여 흡인액과 혈청의 빌리루빈 비를 확인하여 담즙누출의 가능성을 염두하는 것이 담즙유출을 진단하여 환자의 치료방향을 빨리 결정할 수 있는 중요한 검사라고 생각된다.

REFERENCES

1. Hanada K, Nakata H, Nakayama T, et al. Radiologic findings in xanthogranulomatous cholecystitis. *AJR Am J Roentgenol* 1987;148:727-730.
2. Parra JA, Acinas O, Bueno J, Gúezmes A, Fernández MA, Fariñas MC. Xanthogranulomatous cholecystitis: clinical, sonographic, and CT findings in 26 patients. *AJR Am J Roentgenol* 2000;174:979-983.
3. Roberts KM, Parsons MA. Xanthogranulomatous cholecystitis: clinicopathological study of 13 cases. *J Clin Pathol* 1987;40:412-417.
4. Seo SH, Park JI, Kim JS, Kim KH, Choi CS, Choi YK. Xanthogranulomatous cholecystitis: a retrospective analysis of 36 cases. *J Korean Surg Soc* 2009;76:371-377.
5. Kim HY, Cho YH, Park JH. Xanthogranulomatous cholecystitis not associated with gallstone in a 9-year-old girl. *J Korean Surg Soc* 2009;77:72-74.
6. Joo YE, Lee JJ, Chung IJ, et al. A case of xanthogranulomatous cholecystitis. *Korean J Intern Med* 1999;14:90-93.
7. Kim DS, Choi DY, Kim YS, et al. A case of xanthogranulomatous cholecystitis associated with Mirizzi syndrome. *Korean J Gastroenterol* 1999;34:136-141.
8. Kim PN, Ha HK, Kim YH, Lee MG, Kim MH, Auh YH. US findings of xanthogranulomatous cholecystitis. *Clin Radiol* 1998;53:290-292.
9. Kim KH, Ahn CH, Kim JS, et al. Xanthogranulomatous cholecystitis mimicking gallbladder cancer. *J Korean Surg Soc* 2002;63:441-444.
10. Lee HS, Joo KR, Kim DH, et al. A case of simultaneous xanthogranulomatous cholecystitis and carcinoma of the gallbladder. *Korean J Intern Med* 2003;18:53-56.
11. Houston JP, Sampson MA, Collins MC. Ultrasound diagnosis of gallbladder perforation in a case of xanthogranulomatous cholecystitis. *Br J Radiol* 1989;62:273-274.
12. Hsu C, Hurwitz JL, Schuss A, Katz DS. Radiology-pathology conference: xanthogranulomatous cholecystitis. *Clin Imaging* 2003;27:421-425.
13. Khan SA, Gulfam, Anwer AW, Arshad Z, Hameed K, Shoaib M. Gallbladder perforation: a rare complication of acute cholecystitis. *J Pak Med Assoc* 2010;60:228-229.
14. Darwin P, Goldberg E, Uradomo L, Jackson Pratt drain fluid-to-serum bilirubin concentration ratio for the diagnosis of bile leaks. *Gastrointest Endosc* 2010;71:99-104.
15. Runyon BA. Ascitic fluid bilirubin concentration as a key to choleperitoneum. *J Clin Gastroenterol* 1987;9:543-545.
16. Welsch T, von Frankenberg M, Schmidt J, Büchler MW. Diagnosis and definition of anastomotic leakage from the surgeon's perspective. *Chirurg* 2011;82:48-55.
17. Antolovic D, Koch M, Galindo L, et al. Hepaticojejunostomy—analysis of risk factors for postoperative bile leaks and surgical complications. *J Gastrointest Surg* 2007;11:555-561.