

CASE REPORT

담낭암의 전이성 림프절의 자연파열로 발생한 혈액복막 1예

최영민, 정승욱, 좌혜영, 최은광, 김민정¹

제주대학교 의학전문대학원 내과학교실, 외과학교실¹

Hemoperitoneum from Spontaneous Rupture of a Metastatic Abdominal Lymph Node in Gallbladder Cancer: A Case Report

Young Min Choi, Seung Uk Jeong, Hye Young Jwa, Eun Kwang Choi, and Min Jung Kim¹

Departments of Internal Medicine and Surgery¹, Jeju National University School of Medicine, Jeju, Korea

Gallbladder (GB) cancer is asymptomatic in nature, making diagnosis and treatment difficult. The lymph node status is the strongest predictor of long-term survival for patients with GB cancer, and a complete removal of regional lymph nodes is important for patients undergoing radical resection of GB cancer. Unfortunately, lymph node metastases are common in the early stages of GB cancer. However, there have only been a few cases describing the symptoms or complications of metastatic lymph nodes in patients with GB cancer. Although hemoperitoneum caused by metastatic lymph nodes can occur with several cancers, it is very rare. To the best of our knowledge, hemoperitoneum from spontaneous ruptures of metastatic lymph nodes with GB cancer has not yet been reported. Herein, we describe such a case in a patient newly diagnosed with GB cancer. (*Korean J Gastroenterol* 2017;69:79-82)

Key Words: Gallbladder cancer; Hemoperitoneum; Nodes; Rupture

서 론

담낭암은 비교적 드문 종양이지만 담도계 종양 중에서는 가장 흔한 것으로 알려져 있다.¹ 초기 담낭암은 증상이 없거나 비특이적인 증상만이 나타나기 때문에 진단이 힘들어 진행된 상태에서 발견되는 경향이 많다. 따라서 초기에 우연히 발견되는 경우에는 예후가 좋으나 국소진행성 혹은 전이성 병변으로 발견되는 경우는 예후가 매우 불량한 것으로 알려져 있다.² 담낭암의 치료 및 예후와 관련하여 림프절 전이 유무가 근치적 절제 가능성 및 절제 후 장기생존율에 매우 중요한 영향을 미치는 것으로 되어 있다. 하지만 초기 담낭암의 경우에도 상당수에서 림프절 전이가 발견되어 수술이 불가능한 경우가 발생한다. 이렇듯 초기에도 림프절 전이가 발생하지만 폐쇄성 황달이나 복통을 제외하고는 담낭암의 림프절 전이에 의한 특

징적인 증상이나 징후는 알려진 바가 없다. 더하여 간세포암 등에서는 전이성 림프절의 파열이 보고된 바가 있지만 담낭암 환자에서 전이성 림프절의 자연파열과 같은 합병증은 보고된 바가 없었다. 우리는 담낭암을 의심할 만한 증상이나 징후 없이 복통과 복부 팽만감으로 내원하여 전이성 림프절의 파열로 인한 복강 내 출혈이 확인되었고 이로 인해 국소 진행성 담낭암을 진단받은 환자를 경험하여 이에 보고하고자 한다.

증 례

68세 여자 환자가 내원 3일 전 발생한 복통과 복부 팽만감으로 내원하였다. 복통은 이전에 느껴보지 못한 갑작스럽고 심한 통증이었고 통증이 발생한 이후 복부 팽만감이 서서히 심해지는 양상이었다. 통증은 하루 만에 호전되었으나 복부

Received October 4, 2016. Revised December 5, 2016. Accepted December 5, 2016.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited. Copyright © 2017. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 정승욱, 63241, 제주시 아란 13길, 제주대학교 의학전문대학원 내과학교실

Correspondence to: Seung Uk Jeong, Department of Internal Medicine, Jeju National University Hospital, Aran 13-gil 15, Jeju 63241, Korea. Tel: +82-64-754-8108, Fax: +82-64-717-1131, E-mail: suhmok@jeju.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.



Fig. 1. Gallbladder cancer with metastatic portocaval lymph node. (A) A mass with a size of 2.5 cm in the gallbladder (arrow) and high density fluid collection are located near the gallbladder bed (arrowhead). (B) CT shows a soft-tissue mass with a size of approximately 5 cm at the portocaval space (arrow) and high density fluid around the mass (arrowhead). (C) A gallbladder polyp and a soft tissue mass show intense hypermetabolism on the PET scan finding.

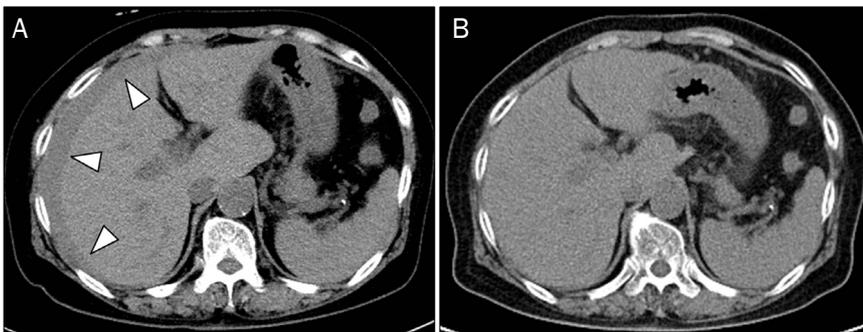


Fig. 2. Sequential changes of hemoperitoneum at the same level on coronal view of precontrast CT. (A) At admission, fluid collection is noted in the perihepatic space (arrowheads). (B) After 3 days, fluid collection is decreased without any interventions.

팽만감은 호전이 없었다. 당뇨, 결핵, 간염 등의 과거력은 없었으며 이전 수술력도 없었다. 음주와 흡연은 하지 않았고 최근 외상의 병력 또한 없었다. 하지만 7년 전 뇌졸중 진단 이후 안지오텐신전환효소억제제, 스타틴제제 및 항혈소판제인 클로피도그렐을 복용 중이었다. 내원 당시 활력징후는 혈압 116/84 mmHg, 맥박수 82회/분, 호흡수 18회/분, 체온 36.9°C였으며, 의식은 명료하였고 급성 병색 소견을 보이지는 않았다. 신체 검진에서 심음 및 호흡음은 정상이었으나 복부가 전반적으로 팽만되어 있었다. 하지만 복부의 압통 및 반발통, 늑척추각압통은 없었고 간이나 비장은 만져지지 않았다. 말초혈액검사에서 백혈구 5,700/mm³ (호중구 53.2%, 림프구 42.8%), 혈소판 155,000/mm³으로 정상 범위였지만 혈색소는 8.3 g/dL (12-16 g/dL), 헤마토크리트는 24.2% (36-48%)로 감소되어 있었다. 생화학검사에서 혈액요소질소 12.0 mg/dL, 크레아티닌 1.0 mg/dL, 알부민 3.8 g/dL, 총 빌리루빈 1.2 mg/dL, AST 21 IU/L, ALT 12 IU/L, 젖산탈수소효소 225 U/L, C-반응성 단백질 0.34 mg/L, 아밀라제 108 IU/L, 리파제 56 IU/L로 모두 정상 범위였다. 요검사에서는 특이 소견이 보이지 않았다. 프로트롬빈 시간과 활성화 부분 프로트롬빈 시간은 각각 11.5초, 27.0초(INR 1.05)로 모두 정상 범위였고 B형간염 표지자, C형간염 표지자, anti-HIV 항체 모두 음성이었다. 흉부 및 복부 엑스선 검사에서 이상 소견은 없었다. 복통에 이은 복부 팽만에 대해 복부 전산화단층

촬영을 시행하였고 담낭 내부에 조영 증강이 되는 용종성 병변이 관찰되었다(Fig. 1A). 또한 문맥대정맥 부위에 약 5 cm 가량의 종괴가 있었고 종괴와 담낭 주변으로 액체저류가 관찰되었다(Fig. 1B). 복강내 액체저류는 하운스필드 단위(Hounsfield unit) 64로 측정되었고 갑작스런 복통, 복부 팽만감 및 혈색소 감소 소견을 고려하였을 때 혈액복막(hemoperitoneum)으로 생각되었다. 본원 내원 당시에는 이미 복통이 사라진 상태였고 활력징후도 안정적이었기 때문에 자연 지혈이 된 것으로 판단하고 혈관조영술 및 지혈술을 시행하지 않았다. 관찰 도중 복통이 심해지거나 활력징후가 악화될 경우 혈관조영술과 지혈술을 시행하기로 계획하였다. 복용 중이던 클로피도그렐은 재출혈의 위험성 때문에 중지하였고 활력징후 및 혈색소 변화를 면밀히 관찰하면서 출혈 여부를 확인하기로 하였다.

입원 1일째 활력징후는 안정적이었고 적혈구 2 unit을 수혈한 이후 혈색소는 11.7 g/dL까지 상승하였다. 입원 2일째 시행한 양전자방출단층촬영 검사에서 담낭 내부의 용종성 병변과 문맥대정맥 부위의 종괴는 FDG 섭취증가를 보여 담낭암과 이로 인한 전이성 림프절의 가능성을 보여주었다(Fig. 1C). 이전 복부 전산화단층촬영에서 관찰되던 복강내 액체저류는 양전자방출단층촬영 검사에서는 줄어든 양상이었다(Fig. 2). 자기공명영상검사에서 담낭의 종괴는 담낭 장막(serosa)까지 침윤이 의심되지만 주변장기로의 침범은 관찰되지 않았다. 검사

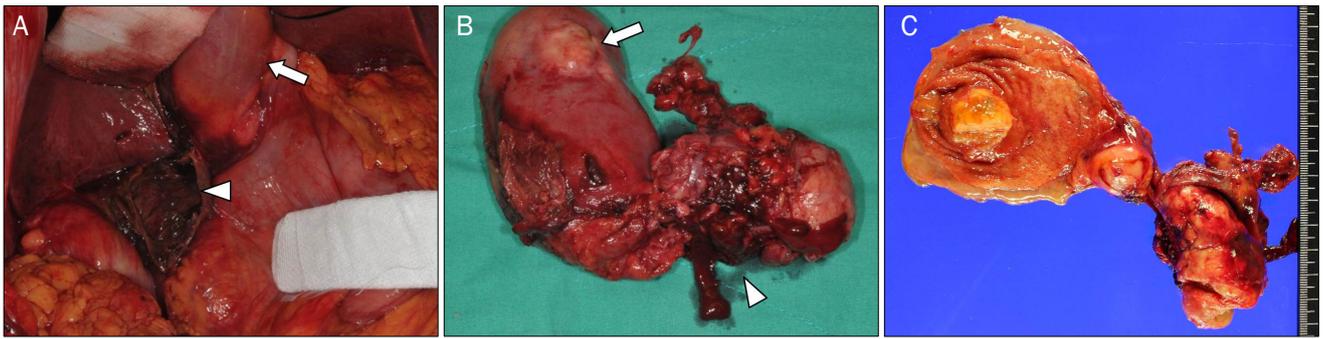


Fig. 3. Open cholecystectomy and lymph node dissection. (A) Hemoperitoneum is seen around the gallbladder (arrow) and ruptured lymph node (arrowhead). (B) Gallbladder wall is intact (arrow), but a metastatic lymph node is ruptured (arrowhead). (C) The surgically resected specimen shows 2.5 cm sized gallbladder cancer and 5cm sized ruptured metastatic lymph node.

결과를 종합하였을 때 담낭암과 부위림프절 전이로 확인되어 원발암과 파열된 전이성 림프절까지 제거하기로 계획하였다. 입원 7일째 개복 담낭절제술(open cholecystectomy) 및 림프절절제술(lymph node dissection)을 시행하였다. 수술 시야에서 담낭벽의 파열은 관찰되지 않았으나 문맥대정맥 림프절(portocaval lymph node)이 파열되어 담낭과 림프절 주변으로 혈액복막이 확인되었다(Fig. 3A). 제거된 담낭에서 병변은 간의 반대편에 위치하고 있어 육안적으로 직접적인 간침범은 보이지 않았고 파열된 림프절에 혈구가 붙어있는 것이 관찰되었다(Fig. 3B). 이외 복강 내에 전이성 결절은 관찰되지 않았고, 전이성 림프절의 십이지장 침범이나 직접적인 혈관 침범 또한 관찰되지 않았다. 복강 내 출혈은 이미 지혈이 된 상태였기 때문에 수술을 통해 원발암과 림프절을 제거하였다. 제거된 담낭암의 크기는 2.5 cm이었고 담낭 체부에 위치하고 있었으며 조직학적으로 저분화형 샘암(poorly differentiated adenocarcinoma)이었다(Fig. 3C). 조직침윤 정도는 6 mm였고 근육층 주위 결합조직(perimuscular connective tissue)까지 침범이 되어 있어 T2 병기였다. 주변부 주요혈관에 대한 침범은 없었고 문맥대정맥 림프절 전이가 관찰되어 N1 병기였으며 원격전이는 없었다. 따라서 최종 TNM 병기는 T2N1M0로 확인되었다. 제거된 담낭암 검체에서 절제연 침범은 없었으나 신경침윤(neural invasion)과 림프혈관강 침윤(lymphovascular invasion)이 관찰되었다. 파열된 문맥대정맥 림프절의 크기는 5 cm 정도였고 전이성 병변으로 진단되었다(Fig. 3C). 수술 소견 및 병리 결과를 종합해 볼 때 자발성 혈액복막은 담낭암의 전이성 병변 중 문맥대정맥 림프절의 자연파열로 인해 발생하였고 이로 인한 복통 및 복부팽만이 진행하였으나 자연 지혈이 되었던 증례였다. 수술 후 항암 및 방사선 치료는 시행하지 않았고, 수술 6개월 후 시행한 CT에서 동맥주위부 림프절(paraaortic lymph node)의 재발이 관찰되었다. 이후 간전이, 폐전이 및 복강 내 전이가 더욱 진행하여 수술 10개월 후 사망하였다.

고 찰

담낭암은 드물지만 매우 치명적인 경과를 보이는 종양이다. 초기에는 증상이 전혀 없거나 통증, 오심, 구토, 체중 감소 등의 비특이적인 증상만을 보이고 영상검사에서도 발견되기 어려운 경우가 대부분이다. 진행성 암이 되어 우상복부 종괴, 복수, 폐쇄성 황달 혹은 십이지장 폐색 등이 나타날 수 있지만, 증상만으로 담낭암을 예측하거나 진단하기 어려워 예후가 더욱 불량한 것으로 되어 있다.³ 담낭암이 진행하면서 국소침범 및 전이가 빠르게 일어나는데 림프절은 담낭암의 전이성 병소 중 가장 흔한 부위로 알려져 있다. 담낭암은 담낭관과 담낭주변부 림프절을 침범하고 이어서 췌장 두부의 림프절과 대동맥 주변의 림프절을 침범하는 방향으로 전이가 이루어지게 되며 간십이지장인대(hepatoduodenal ligament)를 벗어난 경우 원격전이로 판단하게 된다.⁴ 담낭암 환자에서 림프절의 상태는 장기생존율에 가장 중요한 예측인자이고 주변부 림프절의 완전한 제거 여부가 수술을 시행받은 환자의 예후를 예측하는 가장 중요한 단서가 되고 있다. 따라서 담낭암의 치료에 있어서 원발암의 범위와 주변부 주요 장기에 대한 침범도 중요하지만, 림프절 전이가 치료방향을 결정짓는 핵심 역할을 하게 된다.⁵ 하지만 조기 담낭암에서도 림프절 전이가 발생하는 것으로 알려져 있다. Jensen 등은 T1b 병기의 환자에서 24%의 림프절 전이가 관찰되고 T2 병기인 경우 45%에서 림프절 전이를 보인다고 발표하였다.⁶ 이렇듯 담낭암에서 림프절 전이는 비교적 조기에 일어나지만 전이성 림프절에 의한 직접적인 증상, 징후 및 합병증에 대해서는 알려진 바가 없다. 더하여, 담낭암에서 전이성 림프절의 파열로 인한 자발성 혈액복막의 사례는 단 한 차례도 보고된 바가 없다.

자발성 혈액복막은 외상없이 복강 내에 혈액이 고여 있는 것을 말한다. 자발성 혈액복막의 주요 원인으로는 간과 비장의 파열, 산부인과 질환, 혈관질환 및 혈액응고질환 등이 알려져 있지만, 간헐적으로 종양성 질환에 의해 발생하기도 한다.⁷

종양성 질환 중 자발성 혈액복막의 흔한 원인으로는 간세포암 같은 원발암의 자연파열이 있는데 이는 혈관 구조에 비해 상대적으로 적은 양의 섬유조직으로 구성되어 있어 자발성 파열이 호발하는 것으로 알려져 있다.⁸ 악성 종양의 파열에 의해 자발성 혈액복막의 발생도 드물지만 전이성 병변에 의해서 이차적으로 발생하는 경우, 특히 전이성 림프절과 관련되어 발생하는 경우는 일부 사례만이 보고되고 있다. 진행성 간세포암에서 전이성 림프절의 자연 파열로 인해 혈액복막, 혈흉(hemothorax) 및 심장눌림증(cardiac tamponade)이 발생하였다는 보고들이 있고,⁹⁻¹¹ 혼합종자세포종양(mixed germ cell tumor)의 전이에 의한 후복막 림프절의 파열로 인한 혈액복막이 보고된 적이 있었다.¹² 하지만 이외 다른 종양에서는 전이성 림프절의 자발파열로 인한 합병증은 보고된 바가 거의 없으며, 담낭암의 경우에는 담낭암 자체의 파열도 드물지만 전이성 림프절에 의한 출혈은 알려진 바가 없다.

저자들은 담낭암의 림프절 전이가 진행된 상태에서 림프절의 자연 파열로 인해 혈액복막이 발생하였고 이를 토대로 담낭암을 진단하게 된 증례를 경험하였다. 기존에 보고된 사례들을 보면 원발암이 상당히 진행된 상태에서 여러 합병증 중 하나로 전이성 림프절의 파열이 발현되었는데 이번 증례의 경우는 원발암인 담낭암이 진단된 상태가 아니었고 담낭암을 의심할 만한 다른 증상이나 징후가 전혀 없는 상태였다. 전이성 림프절 파열로 인한 혈액복막에 의한 복통 및 복부팽만이 환자가 느낀 의미 있는 첫 증상이었고 복통의 원인 확인을 위한 복부영상검사에서 우연히 담낭암이 진단되었다. 또한 대부분의 자발성 혈액복막은 응급질환이지만 증례에서는 활력징후가 안정적이었고 증상도 호전되어서 혈관조영술은 시행하지 않았고, 수술을 통해 파열된 전이성 림프절과 이로 인한 혈액복막을 확인한 후 원발암과 파열된 전이성 림프절을 제거하면서 치료를 종료하였다. 이번 증례의 경우 파열된 전이성 림프절의 크기가 5 cm 가량으로 상당히 크고 환자가 뇌졸중으로 항혈소판제를 복용하고 있었던 것이 자발성 혈액복막의 주요한 원인이 되었을 것으로 생각된다. 이번 증례를 통해 원발암 이외에도 복강 내 전이성 림프절의 자연파열이 발생할 수 있고 이로 인한 혈액복막이 유발될 수 있음을 확인하였다. 따라서 원인 미상의 복통과 함께 빈혈이나 복부 팽만이 발생된다면 복강 내 악성 종양 질환뿐만 아니라 전이성 병변에 의한 합병증 발생이 가능하다는 것을 염두에 두어야 하겠다. 저자

들은 담낭암의 첫 증상으로 전이성 림프절이 파열되고 이로 인한 혈액복막이 발생하였으나 자연적으로 지혈이 되어 보존적 치료 시행 후 담낭암과 함께 파열된 전이성 림프절을 제거한 증례를 경험하여 이에 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Benoist S, Panis Y, Fagniez PL. Long-term results after curative resection for carcinoma of the gallbladder. French University Association for Surgical Research. *Am J Surg* 1998;175:118-122.
2. Jensen EH, Abraham A, Jarosek S, et al. Lymph node evaluation is associated with improved survival after surgery for early stage gallbladder cancer. *Surgery* 2009;146:706-711; discussion 711-713.
3. Terzi C, Sökmen S, Seçkin S, Albayrak L, Uğurlu M. Polypoid lesions of the gallbladder: report of 100 cases with special reference to operative indications. *Surgery* 2000;127:622-627.
4. Miller G, Jarnagin WR. Gallbladder carcinoma. *Eur J Surg Oncol* 2008;34:306-312.
5. Kondo S, Takada T, Miyazaki M, et al. Guidelines for the management of biliary tract and ampullary carcinomas: surgical treatment. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* 2008;15:41-54.
6. Jensen EH, Abraham A, Habermann EB, et al. A critical analysis of the surgical management of early-stage gallbladder cancer in the United States. *J Gastrointest Surg* 2009;13:722-727.
7. Lucey BC, Varghese JC, Soto JA. Spontaneous hemoperitoneum: causes and significance. *Curr Probl Diagn Radiol* 2005;34:182-195.
8. Miyamoto M, Sudo T, Kuyama T. Spontaneous rupture of hepatocellular carcinoma: a review of 172 Japanese cases. *Am J Gastroenterol* 1991;86:67-71.
9. Terada T, Takeuchi T, Hirano R, Nagata S, Kubota H, Honda S. Spontaneous rupture of peripancreatic lymph node with hepatocellular carcinoma metastasis: report of an autopsy case with massive peritoneal bleeding. *Hepatol Res* 2003;26:73-76.
10. Oh SY, Seo KW, Jegal Y, et al. Hemothorax caused by spontaneous rupture of a metastatic mediastinal lymph node in hepatocellular carcinoma: a case report. *Korean J Intern Med* 2013;28:622-625.
11. Seki S, Kitada T, Sakaguchi H, et al. Cardiac tamponade caused by spontaneous rupture of mediastinal lymph node metastasis of hepatocellular carcinoma. *J Gastroenterol Hepatol* 2001;16:702-704.
12. Moore K, Imbeault A, Roy G, Bolduc S. Massive hemorrhage from spontaneous rupture of a retroperitoneal lymph node in patient with metastatic mixed germ cell tumor. *Urology* 2010;76:159-161.