

CASE REPORT

거대 간 낭종에 의한 심부정맥 혈전증을 하대정맥 필터 삽입 및 낭종 배액으로 치료한 1예

고명관, 김태홍, 이원혁, 박승하, 최준혁, 신민우¹, 허내윤

인제대학교 의과대학 인제대학교 해운대백병원 내과, 영상의학과¹

Deep Vein Thrombosis Due to Compression of Huge Hepatic Cyst Successfully Treated by Inferior Vena Cava Filter and Cyst Drainage

Myung-kwan Ko, Taehong Kim, Won Hyuk Lee, Seung Ha Park, Joon Hyuk Choi, Minwoo Shin¹ and Nae-Yun Heo

Departments of Internal Medicine and Radiology¹, Inje University Haeundae Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Busan, Korea

An 88-year-old woman complained of right quadrant abdominal pain and severe edema in both legs. She had a history of pulmonary embolism one month ago. Abdomen CT showed a huge hepatic cyst compressing the intrahepatic portion of the inferior vena cava (IVC). The venogram CT showed multifocal thrombosis in the ilio caval and both lower extremity veins. Percutaneous hepatic cyst drainage was carried out. Fluid analysis presented leukocytosis, which suggested an infected hepatic cyst. To prevent secondary pulmonary thromboembolism, an IVC filter was inserted before catheter drainage for the hepatic cyst. One week later, abdominal pain was relieved. Then, sclerotherapy for the remnant hepatic cyst was performed by ethanol. Follow-up CT showed an increased amount of thrombosis in the ilio caval and left calf vein, but the IVC filter prevented another thromboembolic event successfully. The patient started dabigatran, a new oral anticoagulant, and compression stockings were applied to both legs. After one month, no visible thrombosis in the pelvis or either extremity was detected in abdominal CT. This case suggests that a huge hepatic cyst, especially with infection, should be considered as a possible cause of deep vein thrombosis if no other risk factors for thromboembolism exist. (**Korean J Gastroenterol 2018;72:146-149**)

Key Words: Liver; Cysts; Venous thrombosis; Vena cava filters

서 론

단순 간 낭종은 대부분 증상이 없으나, 크기가 클 경우 외부 장기 압박에 의한 여러 가지 합병증을 일으킬 수 있다. 간 낭종이 하대정맥을 압박할 경우 혈류 정체로 하대정맥 및 하지 심부정맥 혈전증을 유발하며 폐색전증을 초래하기도 한다. 문헌고찰에 따르면 간 낭종과 관련된 심부정맥 혈전증은 낭종을 경화 요법 혹은 수술로 제거하고, 항응고 요법으로 혈전을 해소하여 치료할 수 있는 것으로 알려져 있으나,¹⁻⁵ 이와 관련

된 국내 보고는 매우 드물고 새로운 경구 항응고제(new oral anticoagulant)로 치료한 사례는 보고된 적이 없었다. 본 저자들은 거대 감염성 간 낭종에 의한 하대정맥 및 심부정맥 혈전증을 에탄올 경화 요법 및 새로운 경구 항응고제를 이용하여 성공적으로 치료하여 이를 보고하는 바이다.

증 례

88세 여자가 배가 아파 응급실에 왔다. 한 달 전 폐색전증으

Received March 16, 2018. Revised April 23, 2018. Accepted April 24, 2018.

© 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 © 2018. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 허내윤, 48108, 부산시 해운대구 해운대로 875, 인제대학교 의과대학 인제대학교 해운대백병원 내과

Correspondence to: Nae-Yun Heo, Department of Internal Medicine, Inje University Haeundae Paik Hospital, Inje University College of Medicine, 875 Haeun-daero, Haeundae-gu, Busan 48108, Korea. Tel: +82-51-797-0661, Fax: +82-51-797-0941, E-mail: nyheo@hanmail.net, ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-6571-8935>

Financial support: None. Conflict of interest: None.

로 입원 치료 후 항응고 요법으로 dabigatran을 지속적으로 투약하고 있었다. 당시 복부 CT에서 간 낭종이 하대정맥의 간내 부위를 누르고 있었으나, 복통은 없었다. 도플러 초음파에서 양측 하지에 심부정맥 혈전증은 관찰되지 않았다. 이번 방문 시에 심한 설사 이후 배 전체가 아프다고 호소하였고, 고혈압과 협심증을 진단받고 투약 중이었다. 키 155 cm, 몸무게 51 kg, 체질량지수 21.2 kg/m²였다. 혈압 130/80 mmHg, 맥박 83회/분, 호흡 18회/분, 체온 36.6°C로 정상이었다. 만성 병색을 보였으나 의식은 명료하였다. 흉부 진찰에서 호흡음 및 심음에 이상은 없었다. 복부 촉진에서 복부 전반에 경미한 압통이 있었고, 특히 우측 갈비 아래를 눌렀을 때 통증을 심하게 호소하였다. 반동압통은 없었고 장음은 정상이었다. 양측 하지에 심한 오목 부종이 관찰되었다. 말초혈액 검사 소견은 백혈구 9,790/mm³ (중성구 79.6%, 림프구 10.2%, 단핵구 10.1%), 혈색소 10.3 g/dL, 혈소판 376,000/mm³였다. 일반 화학 검사에서는 총 단백 6.5 g/dL (참고치 6.7-8.3 g/dL), 알

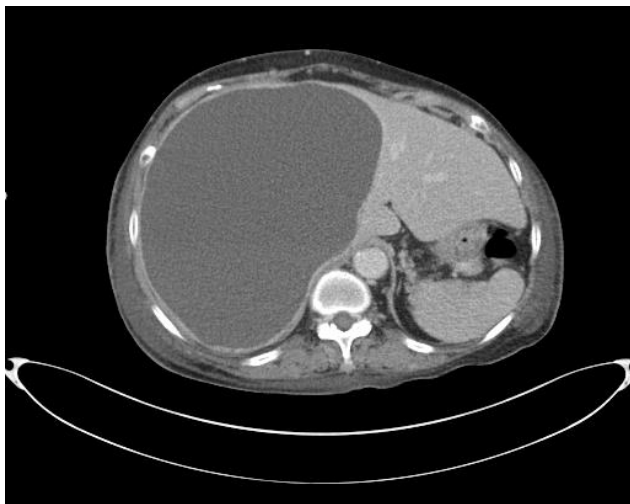


Fig. 1. Huge hepatic cyst compressing the intrahepatic portion of inferior vena cava was noted.

부민 2.4 g/dL (참고치 3.1-5.2 g/dL), AST 22 U/L (참고치 7-38 U/L), ALT 18 U/L (참고치 4-43 U/L), ALP 176 U/L (참고치 36-104 U/L), GGT 54 U/L (참고치 6-42 U/L), 총 빌리루빈 0.4 mg/dL (참고치 0.2-1.1 mg/dL)였다. 혈액응고 검사에서 PT 19.7초(참고치 10.0-13.0초), aPTT 81.4초(참고치 30-47초)로 연장되어 있었고, D-dimer는 1.33 ug/mL (참고치 -0.55 ug/mL)로 높았다. CRP는 25.7 mg/dL (참고치 -0.3 mg/dL), procalcitonin 11.69 ng/mL (참고치 -0.5 mg/dL)였다. 항카디오리핀항체는 음성이었고, anti-thrombin III와 protein-C 및 protein-S activity는 정상 범위였다. 감염성 장염으로 평가 후 ciprofloxacin을 투약하였으며, 혈액 배양 검사에서 *Staphylococcus hominis*가 동정되었다. 이후 설사는 멎었으나, 오른쪽 윗배 통증은 지속되어 fentanyl patch를 적용하였다. 복부 CT에서 직경 17 cm 크기의 간 낭종이 여전히 하대정맥의 간내 부위를 압박하는 양상을 보였다(Fig. 1). 정맥 조영 CT에서 하대정맥, 양측 온영덩정맥 및 넙다리정맥에 혈전이 관찰되었다(Fig. 2). 복부와 흉부 CT에서 고형장기의 악성 종양은 발견되지 않았다. 거대 간 낭종에 의하여 내장성 통증이 생기고, 낭종 압박에 의한 심부정맥 혈전증이 발생한 것으로 평가하여 낭종 배액을 계획하였다. 먼저 폐색전증의 재발 위험을 고려하여 하대정맥 내에 필터를 삽입하였다. 이후 dabigatran을 중단하고 간 낭종에 대하여 경피적 낭종 배액술을 시행하였다(Fig. 3). 갈색의 탁한 액체가 배액되었으며 분석 결과 적혈구가 25,000/mm³였고, 백혈구가 200,000/mm³ (호중구 90%, 림프구 10%)로 증가되어 있어 감염성 간 낭종으로 진단하고 ciprofloxacin을 계속 투약하였다. 배액된 체액은 배양하였으나 동정되는 세균은 없었다. 일주일 뒤 복통과 하지 부종이 호전되었고 잔존 간 낭종에 대하여 에탄올 경화 요법을 시행하였다. 이후 추적 관찰한 복부 CT에서 하대정맥 필터 이하 정맥에 혈전의 범위가 증가되었음이 확인되었으나 이차적인 폐색전증은 발생하지 않았다. 이후 dabigatran을 다시 시작하였고 양측 하지에 압박 스타킹을

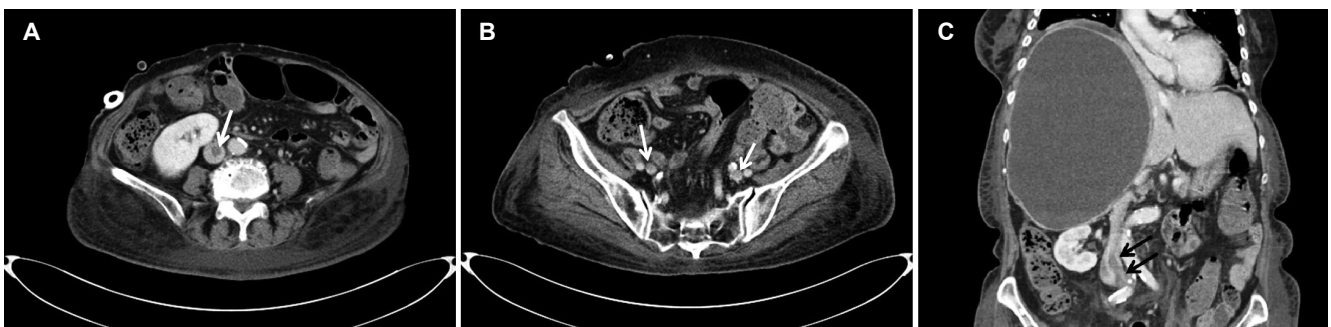


Fig. 2. Venogram extremity computed tomography showed thrombosis in the inferior vena cava below the renal vein (A, white arrow) and both femoral veins (B, white arrows) on the axial scan. A long segment of thrombosis near bifurcation of the inferior vena cava into common iliac veins was detected during the coronal scan (C, black arrows).

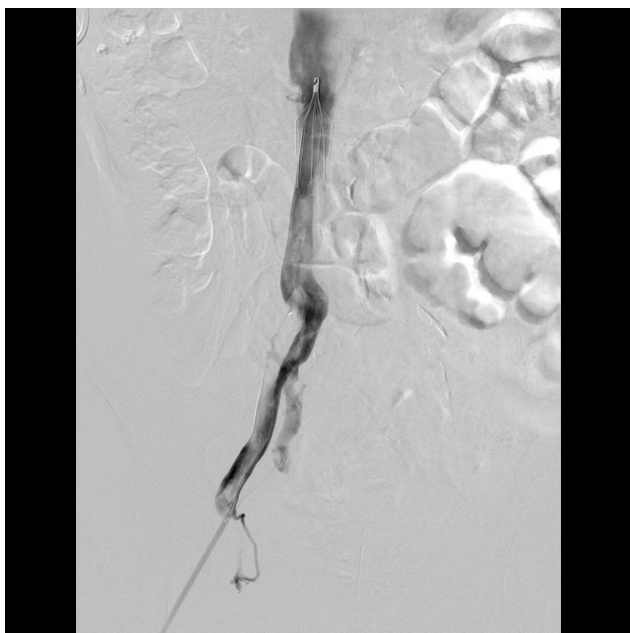


Fig. 3. Filter was inserted in the inferior vena cava, and filling defect due to thrombosis in the right common iliac vein was detected during venography.

적용한 뒤 퇴원하였다. 한 달 뒤 시행한 복부 CT에서 간 낭종은 소실되었고, 양쪽 하지 및 골반강 내 혈관에서 혈전이 보이지 않아 하대정맥 필터를 제거하고 경과 관찰 중이다(Fig. 4).

고 찰

단순 간 낭종은 선천성으로 발생하는 것으로 여겨지고 발생 빈도는 일반 인구 중 2.5%로 알려져 있다. 대부분 단일 병소이고 증상이 없으며 건강 진단 시 우연히 발견되는 경우가 흔하다. 여자에게서 더 흔하고 연령이 증가할수록 유병률이 높다. 크기가 큰 경우 복부 통증과 함께 낭종 내 출혈, 감염, 파열, 외부 장기 압박 등을 일으킬 수 있다.⁶ 무증상 단순 간 낭종은 치료 없이 경과 관찰할 수 있는 반면, 낭종이 크고 증상을 초래하는 경우 경피적 배액 및 경화 요법 또는 창녕수술(fenestration operation)을 시행한다.⁷ 경피적 세침 흡인만으로는 치료가 불충분하여 대부분 증상이 재발하는 것으로 알려져 있다.⁸ 배액관을 이용한 경피적 배액 후 에탄올을 주입하는 경화 요법은 높은 시술 성공률과 낮은 재발률을 보였으나, 알코올 주입시 심한 통증이 있을 수 있으며, 낭종이 담관과 교통이 있을 경우에는 금기이다.⁹ 개복 또는 복강경을 이용한 창녕수술은 경피적 배액이 어려운 경우, 경화 요법 후 재발하는 경우에 우선 고려할 수 있으며, 양성 종양이 의심되는 경우에는 진단 및 치료 목적으로 간 절제를 통한 낭종 제거를 시도할 수 있다. 알코올 경화 요법으로 치료받은 91건의 보고를



Fig. 4. Last follow-up CT at one month after cyst drainage and anticoagulation showed the patent inferior vena cava without thrombus (white arrow) and loss of hepatic cysts. CT, computed tomography.

취합한 결과 한 명에게서 낭종 크기가 줄지 않았고, 3명에게서 낭종이 다시 재발하였다. 복강경 창녕수술을 받은 85명을 분석한 결과 5명의 환자에게서 증상을 일으킬만한 낭종이 재발하였다.¹⁰ 본 환자의 경우 고령이었고, 최근 폐색전증 병력이 있어 수술 합병증이 우려되어 수술적 치료보다 경피적 배액 및 경화 요법을 적용하였다.

정맥 혈전증을 일으키는 중요한 세 가지 요소는 혈류의 정체, 과다응고 경향 및 혈관 내피 세포의 손상이다.¹¹ 단순 간 낭종의 외부 압박에 의한 하대정맥 혈전증은 드물게 보고되고 있으며, 낭종의 크기가 증가함에 따라 하대정맥의 여러 부위를 압박하여 혈류 정체를 초래하고 혈전증을 일으킬 수 있다. 간정맥 합류부 이하 하대정맥이 압박을 받을 경우 하대정맥 이하 심부정맥 혈전증이 발생하며,^{1-5,12} 간정맥 합류부 또는 그 상부 하대정맥을 누를 경우 버어드-키아리 증후군을 일으켜 급성 간부전 또는 만성 간질환을 일으킬 수도 있다.¹³

단순 간 낭종 압박에 의한 하대정맥 혈전증의 치료는 적절한 항응고 요법뿐 아니라 낭종을 감압시키는 치료를 포함하여야 한다. 관련 증례 보고들은 다양한 치료 사례를 보여주고 있다. Moon 등¹이 보고한 증례에서는 심부정맥 혈전증 및 폐색전증이 동반되었고, 2개월간 enoxaparin 피하 주사 후 간 낭종의 크기가 저절로 줄고 혈전색전증이 모두 호전되는 양상을 보였다. Kashiwagi 등²의 증례에서는 기존 간 낭종에 관한 경화 요법이 실패한 환자에게서 광범위한 하대정맥 혈전증이 발생하여 하대정맥 필터 삽입 후 복강경을 통한 낭종의 창녕수술을 시행하였고, 이후 항응고 요법을 통하여 혈전을 성공적으로 해소하였다. Musielak 등³의 보고에서는 낭종 배액, 하대정맥 필터 삽입 및 항응고 요법에도 불구하고 혈전이 지속되어 조직플라스미노겐활성제(tissue plasminogen acti-

vator) 주입을 통하여 혈전 용해에 성공하였다. 반면, 낭종 배액 후 패혈증에 의한 다장기 부전으로 추가 치료를 받지 못하고 사망한 증례도 있었다.¹² 한편, 본 환자의 경우 폐색전술의 재발을 막기 위하여 하대정맥 필터 삽입 후 간 낭종 배액을 시행하였고, 에탄올 경화 요법으로 효과적으로 간 낭종 소실을 이루었다. 간 낭종 압박이 풀린 뒤 촬영한 정맥촬영 검사에서 하대정맥 필터 아래 이전보다 더 많은 혈전 저류가 관찰되었으나, 추가적인 폐색전증은 발생하지 않았고, 이후 항응고 요법을 통하여 하대정맥의 혈전을 성공적으로 용해시킬 수 있었다.

단순 간 낭종 이외에도 보통염색체우성 다낭신장병과 관련된 다발성 간 낭종 중 일부가 하대정맥을 눌러 혈전증을 일으킨 사례가 있으며,^{14,15} *Echinococcus*에 의한 간포충낭에 의한 혈전증도 유사한 양상을 보였다.¹⁶ 치료는 압박하는 낭종을 효과적으로 배액하거나 제거하고, 항응고 요법을 적용하는 점에서 단순 간 낭종의 경우와 유사하였으며, 간포충낭의 경우 알벤다졸 추가 투여가 필요하다.

무증상 거대 간 낭종을 예방적으로 배액하거나 제거함으로써 이러한 합병증을 예방할 수 있는지에 관하여는 관련 연구가 부족하다. 일반적으로 간 낭종의 의한 합병증의 위험이 치료와 연관된 위험보다 더 낮기 때문에 일반적으로 무증상 단순 간 낭종은 크기에 관계없이 예방적으로 치료하지 않는다. 하지만 경미한 통증을 유발하거나, 증상이 없어도 크기가 증가하는 양상의 큰 간 낭종인 경우 환자의 전신상태가 낭종 제거 치료에 적합하다고 평가되면 적극적으로 낭종을 치료함으로써 추후 증증 관련 합병증을 예방할 수 있을 것으로 사료된다.

큰 단순 간 낭종 환자가 양측 하지 부종을 호소할 경우 간 낭종 압박에 의한 심부정맥 혈전증 발생을 의심할 필요가 있다. 동반 질환이 있는 노령의 환자에서 이와 같은 질환이 발생하였을 때 하대정맥 필터 삽입 후 간 낭종 경화 요법을 시행하고 새로운 경구 항응고제를 투여함으로써 합병증 없이 효과적으로 혈전 소실을 경험하여 이를 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Moon J, Heo D, Han S. A case of hepatic cyst-induced inferior vena cava thrombosis. *Pak J Med Sci* 2014;30:667-670.
2. Kashiwagi H, Kumagai K, Nozue M. Single incision laparoscopic surgery for a life-threatening, cyst of liver. *Tokai J Exp Clin Med* 2011;36:13-16.
3. Musielak MC, Singh R, Hartman E, Bernstein J. Simple hepatic cyst causing inferior vena cava thrombus. *Int J Surg Case Rep* 2014;5:339-341.
4. England RA, Wells IP, Gutteridge CM. Benign external compression of the inferior vena cava associated with thrombus formation. *Br J Radiol* 2005;78:553-557.
5. Torzilli G, Santambrogio R, Vellini S, et al. Inferior vena cava thrombosis: an unusual complication of a large simple non-parasitic liver cyst requiring an integrated approach. *Hepatogastroenterology* 2003;50:2188-2191.
6. Di Bisceglie AM, Befeler AS. Hepatic tumors and cysts. In: Feldman M, Friedman LS, Brandt LJ, eds. *Sleisenger and fordran's gastrointestinal and liver disease*. 10th ed. Philadelphia: Saunders, 2016:1603-1627.
7. Macedo FI. Current management of noninfectious hepatic cystic lesions: a review of the literature. *World J Hepatol* 2013;5:462-469.
8. Koperna T, Vogl S, Satzinger U, Schulz F. Nonparasitic cysts of the liver: results and options of surgical treatment. *World J Surg* 1997;21:850-854; discussion 854-855.
9. Cheng D, Amin P, Ha TV. Percutaneous sclerotherapy of cystic lesions. *Semin Intervent Radiol* 2012;29:295-300.
10. Moorthy K, Mihssin N, Houghton PW. The management of simple hepatic cysts: sclerotherapy or laparoscopic fenestration. *Ann R Coll Surg Engl* 2001;83:409-414.
11. Bagot CN, Arya R. Virchow and his triad: a question of attribution. *Br J Haematol* 2008;143:180-190.
12. Leung TK, Lee CM, Chen HC. Fatal thrombotic complications of hepatic cystic compression of the inferior vena: a case report. *World J Gastroenterol* 2005;11:1728-1729.
13. Long J, Vaughan-Williams H, Moorhouse J, Sethi H, Kumar N. Acute Budd-Chiari syndrome due to a simple liver cyst. *Ann R Coll Surg Engl* 2014;96:109E-111E.
14. Iguchi S, Kasai A, Kishimoto H, et al. Thrombosis in inferior vena cava (IVC) due to intra-cystic hemorrhage into a hepatic local cyst with autosomal dominant polycystic kidney disease (ADPKD). *Intern Med* 2004;43:209-212.
15. Peces R, Gil F, Costero O, Pobes A. Massive inferior vena cava thrombosis in a patient with autosomal dominant polycystic hepatorenal disease. *Nefrologia* 2002;22:75-78.
16. Gruttadauria S, Luca A, Cintonino D, Doria C, Scott VL, Marino IR. Hepatic hydatid cyst causing thrombosis of the inferior vena cava and complicated by hemobilia: a multimodal sequential approach in the treatment. *Dig Dis Sci* 2003;48:358-364.