

담도 폐쇄증 환아에서 우연히 발견된 간엽 과오종 1례

서울대학교 의과대학 소아과학교실, ¹진단방사선과학교실, ²병리학교실

최경단 · 서정기 · 신언우 · 고재성 · 김우선¹
박영수² · 강경훈² · 지제근²

A Case of Mesenchymal Hamartoma Associated with Biliary Atresia

Kyung Dan Choi, M.D., Jeong Kee Seo, M.D., Eon Woo Shin, M.D.
Jae Sung Ko, M.D., Woo Sun Kim, M.D.¹, Young Su Park, M.D.²
Kyung Hoon Kang, M.D.² and Je Geun Chi, M.D.²

Department of Pediatrics, ¹Department of Radiology and ²Department of Pathology,
Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

Mesenchymal hamartoma is an uncommon benign tumor usually found in childhood, especially during the first two years of life. The tumor consists of a solid component and multiple cyst. Without treatment, these lesions can grow to an enormous size. We experienced a case of mesenchymal hamartoma which was found incidentally, in a 8 month old girl who had ascending cholangitis after Kasai operation due to biliary atresia. On abdominal ultrasonography and CT, there was a well-defined homogeneous small echogenic mass in the right lobe of the liver with cirrhosis. Five months later, she underwent liver transplantation. Gross picture of the resected liver showed a dark greenish pigmented solid mass in the right lobe of the cirrhotic liver. Microscopic findings showed reactive mesenchyma and epithelial overgrowth. (*J Korean Pediatr Gastroenterol Nutr* 2001; 4: 113~119)

Key Words: Mesenchymal hamartoma, Liver, Biliary atresia, Infant

서 론

간의 간엽 과오종(mesenchymal hamartoma)은 1903

접수 : 2001년 2월 28일, 승인 : 2001년 3월 24일
책임저자 : 서정기, 110-744, 서울시 종로구 연건동 28
서울대학교병원 소아과
Tel: 02-760-3570, Fax: 02-743-3455

년 Maresh가 기술한 이후, 1956년 처음 Edmondson¹⁾이 다른 낭종이나 종양과 유사한 질환으로부터 간엽 과오종을 구별하여 기술하였다. 간의 간엽 과오종은 매우 드문 양성 종양으로서 병인은 아직 확실하지 않으나 간엽 조직의 발달 장애에 의한 것으로 생각되며, 이미 태생기에 일어나는 것으로 생각되고 있다. 여아보다는 남아에서 빈도가 더 높고, 간의 우엽에 주로 위치하며, 출생 후 첫 수개월

내에 크기가 증가하기 시작하여, 복부 팽만으로 대부분 2세 이내에 발견된다²⁾. 방사선학적으로 낭종성 종괴가 대부분이고, 동반되는 선천성 질환은 거의 보고되어 있지 않다. 국내에는 3례가 보고되어 있는데 모두 2세 이하의 소아에서 발견되었고, 복부 팽만을 주소로 하였으며, 직경 9 cm에서 17 cm으로 비교적 크기가 큰 다낭종성 간엽 과오종이었다^{3~5)}. 담도 폐쇄증에 동반되어, 크기가 비교적 작으며, 낭종성 종괴가 아닌 섬유화로 이루어진 간엽 과오종은 세계적으로 아직 보고된 예가 없다.

저자들은 담도 폐쇄증으로 Kasai 수술 후 상행성 담도염으로 입원하여 검사 중 우연히 발견된 간의 간엽 과오종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환 아: 이○○, 8개월, 여아

주 소: 2주간 지속되는 열과 복부팽만

과거력 및 현병력: 제태 기간 37주, 출생체중 1.8 kg, 전치태반으로 제왕절개술로 출생한 환아로 출생시 특이 소견 없었다. 생후 5일째 황달이 발생되어 광선 치료를 2일간 받은 적 있으나 황달은 더욱 심해지고, 자주 보채어 개인 의원 방문하였고 모유황달이라는 말을 듣고 집에서 관찰하였으나 호전 없었다. 생후 15일째 지방의 종합병원 방문하여 심방 중격 결손증, 심실 중격 결손증, 담도 폐쇄증 의심되어 정밀검사를 위해 본원으로 전원 되었다. 입원 당시 환아는 전신의 황달 소견을 보였고, 복부에서 간과 비장이 2횡지 정도 촉진되었다. 검사상 혈색소 10.2 gm/dl, 백혈구 12,840/mm³, 혈소판 203,000/mm³, AST 277 IU/L, ALT 224 IU/L, 총 빌리루빈 17.3 mg/dl, 포합 빌리루빈 14.3 mg/dl, PT INR 1.21이었다. 심에코에서 심실 중격 결손증으로 진단되었고, 복부 초음파에서 담낭의 크기가 작아져 있으며, 총담관이 보이지 않았고, DISIDA 스캔에서 24시간 지연 영상에서도 장내 방사능이 보이지 않았으며, 십이지장 삼관후 배액 검사에서도 담즙은 관찰되지 않아 담도 폐쇄증으로 진단되었다. 생후 2개월경 Kasai 수술 시행 받았고, 수술시

시행한 간조직 검사에서 담도 폐쇄증으로 확진되었다. 수술 후 간성 구루병(hepatic rickets)의 소견을 보여 지용성 비타민과 칼슘의 섭취로 호전되어, 생후 4개월경 퇴원하였다. 퇴원 직전 시행한 복부 초음파에서 비장종대와 간의 음영이 약간 증가한 소견 보였고, 종괴는 관찰되지 않았다. 이후 열이나 토혈 등의 증상없이 외래 추적 관찰 중 생후 8개월경 복부 팽만과 열을 주소로 지방의 종합병원에 입원하였고 2주일간 항생제 및 이뇨제 투여 받았으나 호전되지 않아 본원으로 전원되었다.

가족력: 특기 사항 없음.

이학적 소견: 입원 당시 체온은 39°C, 호흡수는 28회/분, 맥박수는 120회/분, 혈압 103/37 mmHg였고, 신체 계측 지수는 체중 6 kg (3백분위수 이하), 신장 67.6 cm (10~25 백분위수)로 신체 발육은 저하되어 있었다. 활동성은 다소 처져 보였으며 만성 병색 소견을 보였다. 피부 소견상 노란색의 황달 소견을 보였고, 결막은 다소 창백하였으며 편도의 비대나 인두 발적 소견은 보이지 않았다. 경부 림프절은 촉진되지 않았다. 호흡음은 깨끗하였고, 심음은 규칙적이었으나 좌흉골연 하부에서 2도 강도의 수축기 심잡음이 들렸다. 복부 진찰소견상 복부는 팽창되어 있었고, 간은 우측 늑골 하연 아래로 2.5 cm 가량 촉진되었으며 다소 딱딱하였고, 표면은 약간 우툴두툴 하였고 동통은 없었다. 비장은 좌측 늑골하연 아래로 2.0 cm 가량 촉진되었다. 장음은 정상 소견이었고, 사지 및 신경학적 소견은 정상이었다.

검사소견: 일반 혈액 검사상 혈색소 8.5 gm/dl, 백혈구 7,700/mm³, 혈소판 208,000/mm³, 적혈구 침강속도 39 mm/hr, CRP 4.5 mg/dl이었다. 전해질 검사상 Na 135 mmEq/L, K 4.4 mmEq/L, Cl 108 mmEq/L, BUN 11 mg/dl, creatinine 0.1 mg/dl이었다. 생화학 검사상 혈청 총단백 6.0 g/dl, 혈청 alkaline phosphatase 1,024 IU/L, ALT 218 IU/L, AST 108 IU/L, 총빌리루빈 14.5 mg/dl, 포합 빌리루빈 11.1 mg/dl, Ca/P 9.6/3.7 mg/dl, alpha-fetoprotein (α-FP) 1,420 ng/ml이었다. 요 검사는 정상이었고, 요 배양 검사 및 혈액 배양 검사도 음성이었다.

방사선 소견: 입원 2일째 시행한 심에코 검사에서 작은 심실 결손증이 여전히 관찰되었으며, 복부 초음파에서 간 비종대, 간경화 소견과 간의 우엽에 1.8×1.3×1.7 cm 크기의 균일한 저에코성 원형 종괴가 우연히 발견되었다. 이 종괴는 주위의 경화성 간 실질과 구별이 잘 되었으며 Doppler 초음파에서 과혈관성의 종괴로 간찰되었다(Fig. 1). 입원 3일째 정밀 검사를 위해 시행한 복부 전산화 단층 촬영에서 간비종대, 간경화 소견과 간의 우엽에 직경 1.8 cm의 원형의 종괴가 관찰되었다. 그 종괴는 간의 변연을 돌출시키는 양상이었고, 주위 간 실질과 경계가 비교적 명확하며 균질한 저음영의 소견을 보였다(Fig. 2).

치료 및 경과: 입원 당시의 열로 상행성 담도염이 의심되어 항생제 치료 받았으며 내원 14일째부터 열은 소실되었다. 입원 2일째 시행한 심에코에서 심실 결손증은 크기가 점점 작아지고 있어 추적 관찰하기로 하였다. 비장종대와 간경화의 추적 관찰을 위하여 시행한 복부 초음파에서 발견된 작은 원형의 종괴는 간 세포암이나 재생성 결절이 의심되었으나 간생검술 검사 시행하기에 환자의

전신 상태가 양호하지 못하였고, 보호자가 동의하지 않아 외래에서 추적 관찰하기로 하고 입원 17일째 퇴원하였다. 외래에서 추적 관찰중 생후 9개월 경 시행한 복부 자기공명영상에서 원형의 종괴는 직경 2 cm으로 크기가 거의 변화 없었으며, T1W1에서 비교적 구별이 잘 되는 저강도로, T1W2에서 다소 고강도의 소견을 보였다. 생후 10개월경 1일 전부터 시작된 혈변과 흑색변으로 입원하였다. 입원 당시 환아는 다소 처져 보였고, 전신의 황달과 복부팽만 소견을 보였으며, 활력 징후는 혈압 113/58 mmHg, 체온은 37.5°C이었다. 일반 혈액검사서 혈색소 9.4 gm/dl, 백혈구 11,800/mm³, 혈소판 223,000/mm³, 적혈구 침강속도 20 mm/hr, 생화학 검사에서 AST 216 IU/L, ALT 95 IU/L, 총빌리루빈 20.0 mg/dl, 포합형 빌리루빈 13.3 mg/dl, alph-fetoprotein 2,180 ng/ml, 혈액응고 검사서 PT INR 1.03였다. 입원 4일째 시행한 식도 위 내시경 검사에서 하부 식도에 정맥류가 발견되었고, 복부 초음파에서 간비종대, 간경화와 간의 우엽에 직경 2.2 cm 정도로 크기의 변화가 거의 없는 기질성 원형 종괴와 소량의 복수가 관찰되었다. 입원후 혈변은 더 이상 없어 보존적 치료 후 입원 8일째 퇴원하였다. 생후 12개월경 15일 전부터 발생된 미열, 기침, 1일 전부터 시작된 토혈과 흑색변으로

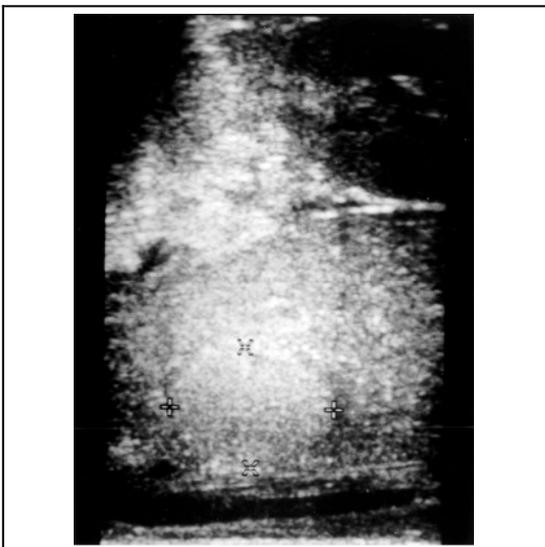


Fig. 1. Abdominal sonogram shows a solitary mass in the right lobe of liver and liver cirrhosis.



Fig. 2. Abdominal CT shows liver cirrhosis and a well-defined homogeneous echogenic mass in the right lobe of liver, measured long diameter about 1.8 cm.

응급실 통해 입원하였다. 입원 당시 환아는 자극과민(irritability)상태였고 전신의 황달과 복부 팽만을 보였으며, 검사상 혈색소 6.5 gm/dl, 백혈구 10,400/mm³, 혈소판 145,000/mm³, AST 234 IU/L, ALT 88 IU/L, 총빌리루빈 24.3 mg/dl, 암모니아 84µg/dl, PT INR 1.00이었다. 입원 당시의 토혈과 흑색변으로 수혈과 somatostatin을 투여하여 출혈 증상은 바로 소실되었으나 내원 2일째 발생된 열과 복부팽만으로

항생제, 이노제 투여하였고, 암모니아의 상승으로 lactulose 관장하면서 환아의 흥분 상태는 호전되었다. 환아의 간경화 소견과 반복되는 상행성 담도염, 토혈, 흑색변으로 일반외과에 간이식술 의뢰하였다. 입원 4일경 간이식 검사 위해 시행한 복부 전산화 단층 촬영상 간비종대, 간경화, 다량의 복수가 관찰되었고, 종괴는 직경 2.5 cm 정도로 크기가 이전과 비교해 약간 증가되어 보이며 간실질과 비슷한 음영이며 경계가 명확한 원형의 종괴와 전

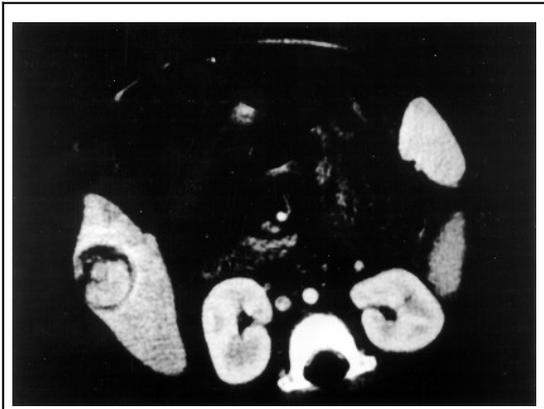


Fig. 3. Abdominal CT shows liver cirrhosis, hepatosplenomegaly and ascites. Note slightly increased and heterogeneous attenuation of the mass.



Fig. 4. Gross picture of the resected liver shows well-demarcated small solid mass.

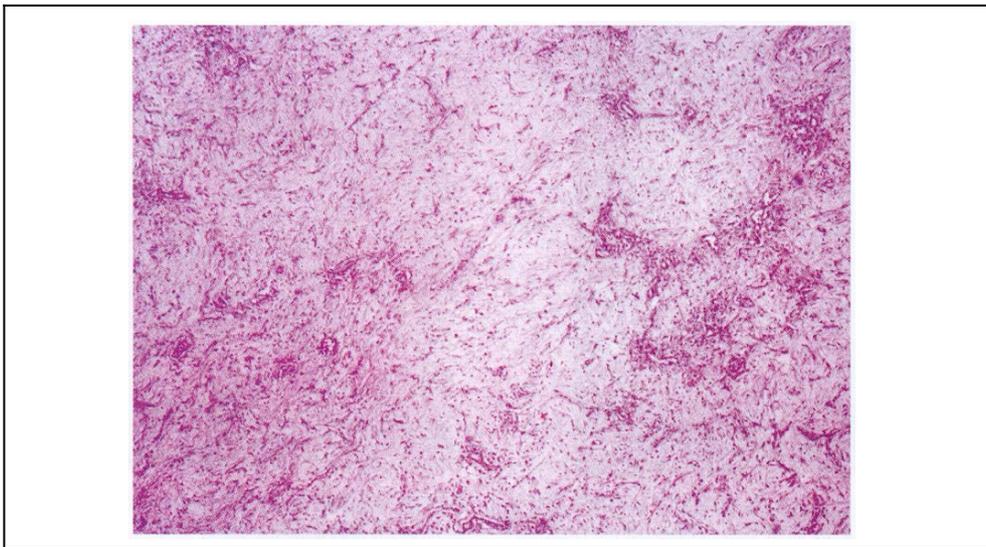


Fig. 5. Microscopic view of the solid mass shows reactive mesenchyma and epithelial overgrowth.

에 보이지 않았던 주변의 저음영의 부분이 관찰되었다(Fig. 3). 입원 13일째 환아는 아버지의 간으로 생체 간 이식술을 시행받았으나 간동맥의 폐쇄 소견이 보이며 급성 동종이식 거부가 발생하여 입원 23일째 사체 간이식 시행받았으나 감염과 폐출혈로 입원 34일째 사망하였다.

조직학적 소견: 간 이식시 적출된 환아의 간의 무게는 460 gm이었고, 간은 전체적으로 어두운 초록색으로 착색되어 있으며 표면은 미세하게 우툴두툴한 양상이었고 단면을 내어 보았을 때 간 우엽의 피막에 연하여 크기 1×1.5 cm의 종괴가 관찰되었다. 종괴는 어두운 담즙색을 띄었고 간실질로 잘 둘러싸여 있으며 약간 물렁물렁하게 만져지고, 주변부에서 섬유화도 관찰되었다. 이외의 간실질에 크고 작은 결절성 변화가 관찰되었다. 현미경상 종괴 부분은 주위 간 조직과 경계가 뚜렷했으며 가장자리 부분에서 담관 세포의 증식과 간엽 조직의 증식을 보이는 소견을 보여 간엽 과오종으로 진단되었다(Fig. 4, 5).

고 찰

간의 양성 종양은 상피 조직에서 유래한 단순 낭종, 국소 결절성 증식증, 선종과 간엽 조직에서 유래한 해면상 혈관종, 모세 혈관종, 과오종 등이 있는데 간엽 조직에서 유래한 종양이 더 흔하다. 소아에서 양성 간 종양의 대부분은 혈관종이며⁶⁾ 과오종은 양성 간 종양의 두 번째를 차지하나 소아 원발성 간 종양의 5%를 차지하는 매우 드문 질환이다. 간의 간엽 과오종은 주로 2세 이전에 발생하지만²⁾, 일부 성인에서도 보고되고 있다.

병인은 담관이 대부분인 간 문맥로에서 원시 간엽 조직의 발달장애에 의한다는 설이 있으며 병리학적으로 담관 세포의 증식은 간엽 조직 증식의 일부인 것으로 생각되고 있다⁶⁾. 이 발달 장애는 간의 해부학적인 모양이 정상이고 담관계와 교통이 있음으로 미루어 태생기의 후반에 일어나며⁷⁾, 성장은 간 문맥로를 따라 이루어지는 것으로 생각되고 있다. 주산기에 이 종양은 주로 종괴이었으나

림프관의 폐쇄와 확장 등으로 간엽조직의 낭종성 변화와 팽창을 거치면서 종양의 크기가 증가한다고 하였다²⁾. 그러나 최근에는 발달 장애보다는 비정상적인 혈액 공급으로 인한 허혈이나 반응성 낭종성 변화를 주장하기도 한다⁸⁾. 소수의 과오종에서 중심에 괴사성 변화가 있는 것이 관찰되어 이 주장을 뒷받침해 주고 있다.

병리학적으로 이 종양은 크기는 3 cm에서 21 cm까지 다양하며 지름은 평균 16 cm이고⁹⁾, 육안적 관찰에서 기질(stroma)과 낭종의 부분으로 구성되어 있지만 대부분 낭종으로 이루어져 있으며 다방성보다는 단방성이다. 낭종내에는 젤상의 물질이나 황갈색 액이 차 있는 것이 관찰되며, 일부에서는 swiss-cheese양상을 보이는 기질성 종괴 부분이 관찰되기도 한다¹⁰⁾. 다발성 낭종의 사이에는 창백하며 부어 있거나 적갈색의 정상 간조직이 관찰된다. 소아에서 기질성 종괴, 성인에서 낭종성 종괴가 주로 관찰된다는 보고가 있으나²⁾ 20세의 성인에서 기질성 종괴로 구성된 간엽 과오종을 보고하기도 하였다¹¹⁾.

현미경학적으로 주로 림프관, 담관, 간세포, 간엽조직으로 구성되어 있으며, 소아에서는 담관과 간세포가 풍부하나, 성인에서는 간세포가 없거나 혹은 주변부에만 국한되어 나타나는 소견이 관찰되어 비간엽조직(non-mesenchymal tissue)의 감소가 성인과 소아의 주요한 차이이다¹²⁾. 이 증례의 경우는 낭종성 종괴가 아닌 주로 섬유화와 담관세포의 증식으로 이루어진 기질성 간엽 과오종이 종괴의 주변부에 관찰되어, 비교적 발생초기의 간엽 과오종으로 생각되어진다. 태생기에 이미 원시 간엽조직의 발달장애로 인해 발생하며, 출생 초기에 낭종성 팽창을 한다는 일반적인 간엽 과오종의 발달과정을 따르지 않는 특이한 예이다.

세포 유전학적으로 염색체 19번과 11번 혹은 15번 사이의 균형 전위가 발견되었으며 염색체 19번의 파괴점(breakpoint)이 발견되기도 하였다¹³⁾.

이 종양의 80%는 간의 우엽에서 발생하며, 여아보다 남아에서 좀더 흔하고, 주로 2세 이내, 평균 10개월경 진단되나 일부 성인에서도 보고가 되고

있으며 69세에서 발견된 예도 있었다¹⁴⁾.

증상은 복통이 없는 복부팽만이 대부분이며, 동반 증상으로 구토, 열, 변비, 설사, 체중감소, 식욕 부진이 있으나 드물다. 주로 상복부의 종괴는 부드러운 변연을 갖고 복부벽의 정맥의 확장을 볼 수 있다. 대부분의 간의 종괴는 주로 주변부에 위치하여 복부팽만과 호흡 곤란의 증상을 유발하지만 흔하지 않고, 중심부에 생기는 경우는 매우 드물며 폐쇄성 황달의 증상을 보인다¹⁵⁾. 동반되는 선천성 질환은 거의 없지만 결절성 경화증 환자의 23.5%에서 이 종양이 발견되었다는 보고도 있다¹⁶⁾. 간 우엽의 간엽 과오종으로 광범위 간 우엽 절제술 후 담도 폐쇄증이 발생한 예가 보고된 적은 있는데 이는 종양 절제술 이후 허혈성 변화로 인한 것으로 추측되었다¹⁷⁾. Desmet¹⁸⁾은 “Ductal plate malformation”이라 하여 간내 담도의 형성 과정 중의 장애로 인한 선천성 질환으로 간의 담도 폐쇄증, 간내 담도 폐쇄증, 상염색체 열성 다낭성 신질환, 선천성 간섬유증, Caroli병, 상염색체 우성 다낭성 신질환, 간엽 과오종이 모두 여기에 속한다고 하였다. 담도 폐쇄증에 동반된 간엽 과오종은 국내, 외에 보고된 예가 아직까지 없는데, 이 증례의 경우 태생기에 이미 담도 폐쇄증과 간엽 과오종이 같은 발생기전으로 동시에 발생하였으나 간엽 과오종의 증식이 느려, 나중에 우연히 발견되었을 가능성도 고려할 수 있을 것이다.

검사상 간기능은 거의 정상이며, alpha-fetoprotein은 증가될수 있는데 주로 증식성 간세포에서 생산되는 것으로 보고하고 있다¹⁹⁾.

방사선학적으로 단순 복부 촬영은 정상 장 가스가 하부로 전이되어 있는 것 이외의 특이한 소견은 거의 없으며, 단순 낭종에서 보이는 석회화는 매우 드물게 관찰되어 거의 도움이 되지 않는다. 초음파상으로 주위 조직과 구별이 잘되는 저에코성의 다낭종이나 단낭종이 관찰되어지며 낭종 안에 잔설은 관찰되지 않는다. 그러나 낭종이 작다면 고에코성 종괴로 관찰되어진다. 전산화 단층 촬영에서 낭종이나 기질성 종괴의 다양한 소견을 보이거나 대부분 낭종의 소견을 보이고, 저혈관성의 종괴

이고, 중심부위의 음영은 감소되어 있고, 주변부의 음영은 다양한 정도로 증가된 소견을 보인다. 복부 자기공명 영상에서는 낭종성 간엽 과오종의 경우 낭종안의 단백질성 물질의 다양한 음영을 보여주며, 섬유성 변화에 의한 기질성 간엽 과오종은 간내에서 저장도의 음영을 보여준다. 혈관 조영술은 저혈관성으로 관찰되어 거의 필요가 없다.

소아기의 간 종양은 대부분 기질성 종괴로 관찰되며, 낭종의 병변으로 관찰되는 단순 낭종, 낭종성 기형종, 악성 간엽 세포종, 낭종성 간아세포종 등과 감별이 필요하다. 단순낭종이나 낭종성 기형종의 경우 단순 복부촬영이나 초음파에서 석회화가 관찰되어 쉽게 구별할 수 있다. 악성 간엽 세포종의 경우 육안상 이 종양과 구별이 어려우나 현미경학적으로 구별이 가능하며, 임상적으로 주로 6세에서 10세 사이의 소아에서 관찰되며 열, 체중감소, 복통이 흔히 동반되어 구별이 가능하다.

치료로는 단순 적출술(simple enucleation), 조대술(marsupialization), 절제술(excision), 간엽 절제술(lobectomy) 등이 있다. 종양의 크기가 작고 주위 조직과 쉽게 분리된다면 단순 적출술이 가능하고, 정상 조직의 손실이 작으며 출혈이 작은 것이 장점이다. 종양의 크기가 매우 클 때 복강내로 조대술이 가능하다. 그러나 간엽 과오종이 조대술이나 부분 절제술로 재발이 있었다는 보고와, 악성 간엽 세포종으로의 전이를 보고한 예도 있다²⁰⁾. 최근 수술 기술의 발달로 양성 간 종양의 절제술에 대한 사망률이 3~4% 정도로 보고되고 있어 정상 간조직의 일부를 포함하는 절제술과 간엽 절제술이 바람직하다.

요 약

소아에서 간의 간엽 과오종은 주로 복부팽만을 주소로 내원하여 대부분 2세 이내에 발견되며, 비교적 크기가 큰 낭종의 소견을 보이는 것으로 알려져 있다.

저자들은 담도 폐쇄증으로 Kasai 수술받은 8개월 여아에서 복부 초음파 검사상 작은 기질성 종

괴를 우연히 발견하여 병리학적으로 확진된 간엽 과오종 1례를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Edmondson HA. Differentiation diagnosis of tumors and tumor-like lesions of liver in infancy and childhood. *Am J Dis Child* 1956;91:168-86.
- 2) Stocker J, Ishak K. Mesenchymal hamartoma of the liver: Report of 30 cases and review of the literature. *Pediatr Pathol* 1983;1:245-67.
- 3) Sohn CH, Woo SK, Park WH, Choi SO. Mesenchymal hamartoma of the liver. *Kor Radiol Soc* 1990; 26:577-80.
- 4) Lee SD, Chi JG, Lee CY. Mesenchymal hamartoma of the liver. *Seoul Medi* 1990;31:273-9.
- 5) 이기창, 박찬정, 이우기, 김광우, 조창호. Mesenchymal hamartoma 1례. *소아과* 1998;41:125-8.
- 6) Caty M, Shamburger C. Abdominal tumors in infancy and childhood. *Pediatr Clin North Am* 1993;40:1253-69.
- 7) DeMaioribus C, Lally K, Sim K, Isaacs H, Mahour GH. Mesenchymal hamartoma of the liver: A 35 year review. *Arch Surg* 1990;125:598-600.
- 8) Helal A, Nolan M, Bower R, Mair B, Debich-Spicer D. Pathological case of the month. *Arch Pediatr Adolesc Med* 1995;149:315-6.
- 9) Lack EE. Mesenchymal hamartoma of the liver. A clinical and pathologic study of nine cases. *Am J Pediatr Hematol Oncol* 1986;8:91-8.
- 10) Helmberger TK, Ros PR, Mergo PJ, Tomesak R, Reiser MF. Pediatric liver neoplasm: A radiologic-pathologic correlation. *Eur Radiol* 1999;9:1339-47.
- 11) Alanan A, Katevuo K, Toikkanen S. A non-cystic mesenchymal hamartoma of the liver: An unusual case of an unusual entity. *Imaging* 1989;56:181-4.
- 12) Chau KY, Ho WC, Wu PC, Yuen WK. Mesenchymal hamartoma of liver in a man: Comparison with cases in infants. *J Clin Pathol* 1994;47:864-6.
- 13) Mascarello JT, Krous HF. Second report of a translocation involving 19q13.4 in a mesenchymal hamartoma of the liver. *Cancer Genet Cytogenet* 1992;58: 141-2.
- 14) Drachenbery CB, Papadimitriou JC, Rivero MA. Adult mesenchymal hamartoma of the liver. *Mod Pathol* 1991;4:392-5.
- 15) Hellar K, Markus B, Waag K. Central hamartoma of the liver in a child. *Eur J Pediatr Surg* 1992;2:108-9.
- 16) Jozwiak S, Pedich M, Rajszyz P, Michalowicz R. Incidence of hepatic hamartomas in tuberous sclerosis. *Arch Dis Child* 1992;67:1363-5.
- 17) Takehara H, Kome N, Okada A, Masamune K, Asai A. Bile duct atresia following extended right hepatectomy because of a tumor. *Acta Paediatr Jpn* 1993;35: 154-7.
- 18) Desmet VJ. Pathogenesis of ductal plate abnormalities. *Mayo Clin Proc* 1998;73:80-9
- 19) Ito H, Kishikawa T, Toda T, Arai M, Hiroyuki M. Hepatic mesenchymal hamartoma of an infant. *J Pediatr Surg* 1984;19:315-7.
- 20) Ramanujam TM, Ramesh JC, Goh DW, Wong KT, Ariffin WA, Kumar G, et al. Malignant transformation of mesenchymal hamartoma of the liver: case report and review of the literature. *J Pediatr Surg* 1999;34: 1684-6.