

7세 여아에서 외장골 림프절염으로 발현된 Kikuchi병: 증례 보고¹

김영통 · 유경희² · 조현득³ · 오미혜³ · 신형철

장골 림프절에 생기는 Kikuchi병은 드물고 더욱이 복통을 동반한 림프절염으로 발현된 경우는 더욱 드물다. 저자들은 발열과 좌하복부 동통을 주소로 한 7세 여아에서 외장골 림프절에 생긴 Kikuchi병을 경험하여 초음파와 CT 소견을 보고하고자 한다.

Kikuchi병은 1972년 일본에서 처음 보고된 자연 치유되는 원인불명의 괴사성 림프절염이다. 여성에서 더 많이 생기고 젊은 연령에 잘 발생하지만, 전 연령에서 생길 수 있다. Kikuchi병은 대부분이 경부의 림프절에 생기며 그 외 서혜부, 장간막, 후복막강, 혹은 전신의 림프절에 생길 수 있다. 림프절염 외에 비장 비대와 간 비대를 동반할 수 있다(1, 2). Kikuchi병이 복통을 유발하여 급성 충수염으로 수술을 시행 받은 후 장간막과 대장 주변에 있는 림프절의 Kikuchi병으로 확진되었다는 보고들이 있다(3-5). Kikuchi병이 장골 림프절에 생겼다는 임상 보고는 있지만(1) 복통을 유발한 외장골 림프절에 생긴 Kikuchi병에 관한 영상소견의 보고는 거의 없다. 저자들은 7세 여아에서 발열과 좌하복부 동통을 동반한 외장골 림프절에 생긴 Kikuchi병 1예의 영상소견을 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례 보고

7세 여아가 내원 2주 전 발열과 인후통으로 인근 의원에서 급성 인두편도염으로 진단받고 치료받으면서 증상이 호전되었으나, 내원 1주일 전부터 다시 주로 밤에만 38℃가량의 발열이 지속하였다. 내원 3일 전부터 38℃ 이상의 고열과 좌하복부에 통증이 있어 인근 의원에서 시행한 복부초음파상에서 좌하복부에 종괴가 보여 전원되었다. 신체검사상에서 좌하복부에 압통과 반발 압통이 있었고, 혈액 검사에서 백혈구 수치는 22,740/μl (정상: 5000-14,500/μl), 적혈구침강속도 50 mm/hr (정상: 0-30 mm/hr), C반응성 단백 30.76 mg/L (정상: 0.01-2.61 mg/L)이 증가하여 있었다.

복부초음파에서 좌하복부의 복강과 복벽사이의 복막 외 공간에 경계가 불분명한 약 3 cm 크기의 고에코성 종괴가 있었으며 중심부에 불규칙한 모양의 내부에코를 가진 액체저류가 있었다(Fig. 1A). 횡단면 CT 영상에서 좌측 외장골 혈관의 전방에 있는 종괴로 내부에 현저한 저음영과 변연부에 조영증강이 잘되는 병변이고 복강 내 농양과 유사하게 보였다(Fig. 1B). 하지만, 재구성한 관상면 영상에서 S-결장과 떨어져 있는 복막 외 병변으로 외장골 림프절에 생긴 괴사성 혹은 결핵성 림프절염의 가능성을 생각했다(Fig. 1C). 이 병변은 위로 복막 외 지방에 증가된 음영이 있었고 대퇴관(femoral canal)을 따라서도 증가한 음영이 있어 염증이 미쳐 있었다. 또한, 좌측 외장골 혈관 주변에 1 cm 이하의 작은 림프절들이 있었고, 골반강 내에 소량의 액체저류가 있었다. 상부 복부와 대동맥주위에 림프절 종대는 없었으며 경부를 비롯한 다른 부위에는 영상검사를 시행하지 않았다.

환아는 수술을 시행하여 림프절을 제거하였고 수술로 절제된 림프절은 여러 조각으로 합하여 2.3 × 1.6 × 1.2 cm 크기였으며, 단면상 연황색의 괴사 소견이 관찰되었다. 현미경적 소견상 림프절은 광범위한 괴사의 소견이 전반적으로 보였으며 특히 피막하와 결피질(paracortical) 부분이 심하였다. 병변은 크기가 큰 단핵구와 섬유소 조각 및 심한 핵붕괴(karyorrhexis)를 보이는 괴사 세포들로 구성되었으며(Fig. 1D), 면역조직화학 염색상 단핵구에 골수세포형과산화효소(myeloperoxidase)에 양성 반응을 보여 Kikuchi병으로 확진하였다.

고 찰

Kikuchi병은 주로 젊은 아시아의 여성에 자주 생기며, 소아에서도 보고되고 있다.

Kikuchi병은 아급성 조직구 괴사성 림프절 종대로 림프종,

¹순천향대학교 천안병원 영상의학과

²순천향대학교 천안병원 소아과

³순천향대학교 천안병원 병리과

이 논문은 2009년 11월 10일 접수하여 2010년 7월 20일에 채택되었음.

세균성 림프절염, 전신성 홍반성 낭창, 혈관성림프절경색 (vascular nodal infarction)과 연관된 림프절염과 감별해야 한다. 림프절의 괴사는 현미경적인 괴사에서 육안으로 확인이 되는 괴사까지 다양하게 보일 수 있어 초음파와 CT에서 다양한 영상소견을 보일 수 있다. Kikuchi병의 초음파소견은 반응성 림프절과 유사하게 보이는데 저에코성으로 보이고 고에코의 문(hilum)을 가진다(6). Kikuchi병의 CT 소견은 약 83%에서 균질한 조영증강을, 약 17%에서 내부에 괴사부위로 생각되는 저음영을 보인다. 그리고 약 81%에서 림프절 주위 침윤이 보인다(7). 림프절의 크기는 다양하지만, 일반적으로 10 mm 미만의 작은 림프절이 여러 개 뭉쳐져 보이는 것이 특징이며, 커진 림프절의 평균 크기는 1.62 cm이다. 이러한 소견은 암, 감염, 혈관염, 결체조직질환 등에서 보이는 림프절 병변과 유사한 소견으로 영상소견만으로 감별이 어렵다. 하지만,

1-8개월 사이에 별다른 치료 없이 호전되는 것이 일반적인 림프절 병변과의 차이점이다. Kikuchi병은 대부분이 경부의 림프절에 생기며 겨드랑이, 복부, 서혜부, 후복막강에 생기기도 하며 전신에 림프절 종대로 보일 수 있다. Rimar 등(8)에 따르면 Kikuchi병이 나라별로 침범부위가 다르다고 하였는데 동아시아는 대부분에서 경부의 림프절에 생기지만, 이스라엘에서는 약 50% 이상에서 발열, 백혈구 감소증, 전신 혹은 후복막강 림프절 종대를 보여 전신질환과 감별이 필요하다고 한다. 저자들의 증례는 횡단면 CT에서 좌측 외장골혈관의 전방에 있는 3 cm 크기의 중심부에 현저한 저음영을 갖는 종괴로 보여 복강 내 농양으로 오인할 수 있지만 재구성한 관상면 영상에서 S결장과 떨어져 있는 복막 외 공간의 외장골 림프절에 생긴 림프절염으로 진단하였다. 저자들의 증례에서는 복부 CT에서 상복부와 대동맥주위에 림프절 종대는 없었으며 경부를

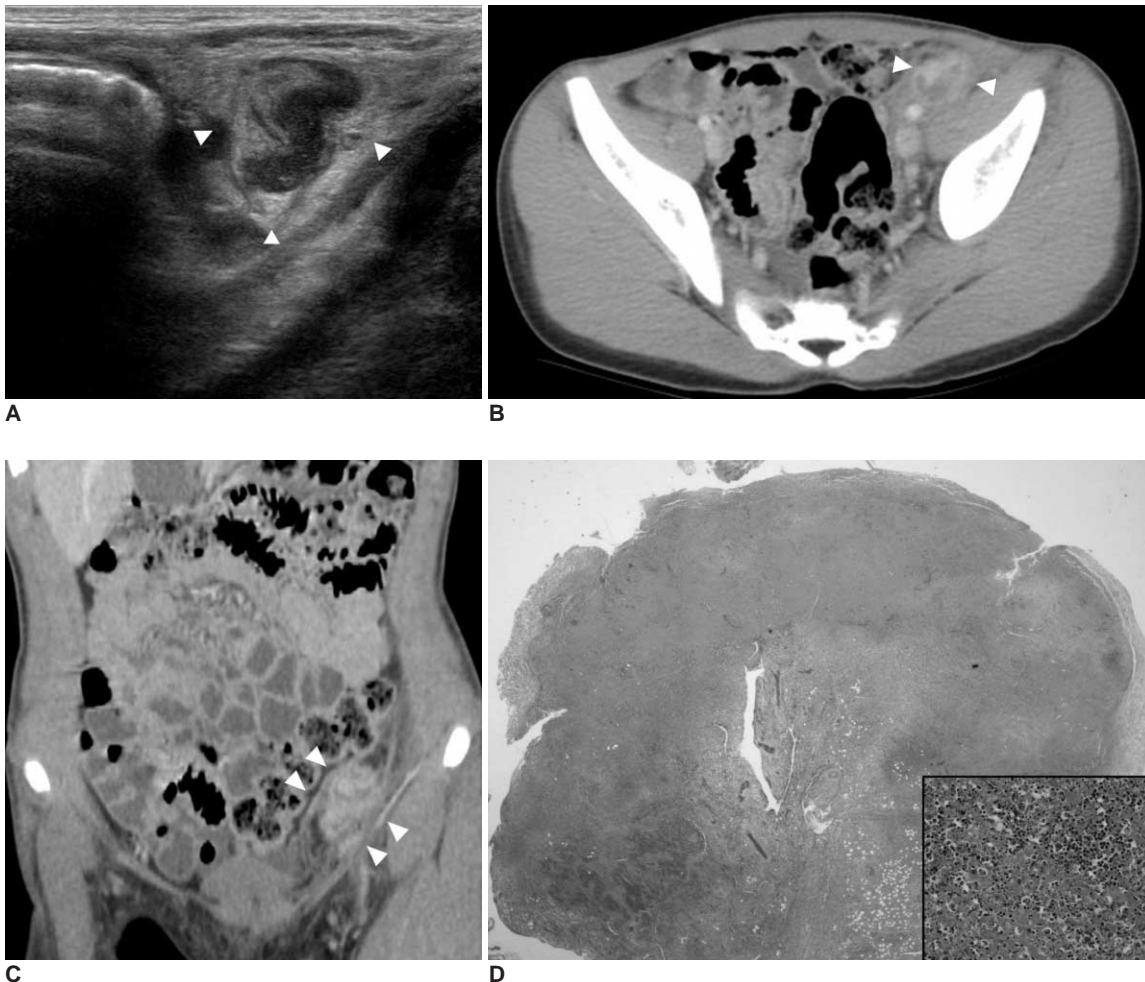


Fig. 1. A. Ultrasonography of left lower abdomen shows 3 cm sized ill-defined echogenic mass (arrowheads) in left iliac fossa, between abdominal wall and iliopsoas muscle. Irregular shaped fluid collection with internal echoes is in the central portion of the mass.

B. Axial CT scan shows heterogeneously enhanced mass (arrowheads) in left iliac fossa anterior to external iliac vessels.

C. Reformatted coronal CT image shows heterogeneously enhanced mass (arrowheads) in extraperitoneal space, external to sigmoid colon.

D. Histologic section shows extensive necrosis, especially subcapsular and paracortical areas (H & E, $\times 10$). Inset: Necrotic areas are mainly composed of karyorrhectic debris (H & E, $\times 400$).

비롯한 다른 부위에는 영상검사를 시행하지 않았다. Saini 등(9)은 8세 환아에서 지속적인 발열과 우측 하복부의 압통을 주소로 한 외장골 림프절에 생긴 Kikuchi병을 보고하였는데 우측 외장골에 다발성의 림프절들이 있고 CT에서 림프절들은 중심부에 저음영을 보이며 변연부에 조영증강을 보였으며, 또한 경부와 액와부위에도 림프절 종대가 있었다고 기술하였다. 한 등(10)은 경부에 생긴 Kikuchi병 환자 14명 중 3명에서 복부 영상을 얻었는데 이 중 1명에서 장골에 림프절 종대가 있었다고 한다. 이렇게 Kikuchi병이 외장골에 림프절 종대를 보인다는 보고들은 있지만, 영상소견을 보고한 논문은 드물다.

Kikuchi병의 증상은 림프절 종대가 가장 많고, 발열을 동반하는 림프절염이 두 번째로 흔하다. 그 외 설사, 오심, 구토, 흉통, 하복부 동통 등이 있을 수 있다(1). 복부의 장간막 림프절에 생긴 Kikuchi병은 급성복통을 주소로 내원하여 급성충수염으로 오인할 수 있다(3, 4). Dorfman 등(1)도 108명 중 3명에서 우하복부 동통이 있었다고 한다. 저자들의 증례는 발열을 동반한 좌하복부 동통을 주소로 내원하였다.

Kikuchi병은 대부분이 자연 치유되지만, 약 16%에서 스테로이드 치료가 필요하다. 저자들의 증례는 발열을 동반한 좌하복부 동통이 있었고 영상소견에서 중심부 괴사를 동반한 림프절염으로 보였기 때문에 조직학적 확진을 위해 수술을 시행하였다.

결론적으로 외장골 림프절에 생긴 Kikuchi병은 발열과 하복부 동통의 원인질환이 될 수 있으며, 심한 괴사를 동반한 림프절염은 횡단면 CT와 초음파에서 복강 내 농양으로 오인할 수 있고, MDCT로 재구성한 영상은 위치를 더 정확히 파악하는데 도움을 주었다.

참 고 문 헌

1. Dorfman RF, Berry GJ. Kikuchi's histiocytic necrotizing lymphadenitis: an analysis of 108 cases with emphasis on differential diagnosis. *Semin Diagn Pathol* 1988;5:329-345
2. 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
3. McLoughlin J, Creagh T, Taylor A, Lampert I. Kikuchi's disease simulating acute appendicitis. *Br J Surg* 1988;75:1206
4. Min KW, Jang KS, Jand SH, Song YS, Na W, Song SY, et al. Kikuchi's disease of the mesenteric lymph nodes presenting as acute appendicitis. *Korean J Pathol* 2007;41:44-46
5. Fernandez SH. Kikuchi's lymphadenitis (necrotizing lymphadenitis) and systemic lupus erythematosus: a case report. *Malays J Pathol* 2000;22:25-29
6. Ahuja AT, Ying M. Sonographic evaluation of cervical lymph nodes. *AJR Am J Roentgenol* 2005;184:1691-1699
7. Kwon SY, Kim TK, Kim YS, Lee KY, Lee NJ, Seol HY. CT findings in Kikuchi disease: analysis of 96 case. *AJNR Am J Neuroradiol* 2004;25:1099-1102
8. Rimar D, Zisman D, Schendler Y, Benharroch D, Kharenko O, Brodsky A, et al. Kikuchi Fujimoto Disease in Israel-More Than a Pain in the Neck. *Semin Arthritis Rheum* 2010;39:515-520
9. Pal Saini A, Jamil S, Dulai M. Kikuchi's disease causing persistent fever and iliac lymphadenopathy in an 8-year-old boy. *Clin Pediatr (Phila)* 2010;49:601-604
10. Han HJ, Lim GY, Yeo DM, Chung NG. Kikuchi's disease in children: clinical manifestations and imaging features. *J Korean Med Sci* 2009;24:1105-1109

Kikuchi Disease Presented with External Iliac Lymphadenitis in a 7-year-old Girl: A Case Report¹

Young Tong Kim, M.D., Kyung-Hee Yoo, M.D.², Hyun Deuk Cho, M.D.³,
Mee-Hye Oh, M.D.³, Hyeong Cheol Shin, M.D.

¹Department of Radiology, Soonchunhyang University Cheonan Hospital

²Department of Pediatric, Soonchunhyang University Cheonan Hospital

³Department of Pathology, Soonchunhyang University Cheonan Hospital

Kikuchi disease of the iliac lymph node is rare, and even more rare is lymphadenitis with abdominal pain caused by Kikuchi disease. We report the US and CT findings of Kikuchi disease of the external iliac node in a 7 year-old-girl who complained of fever and abdominal pain in the left lower quadrant.

Index words : Histiocytic Necrotizing Lymphadenitis
Abdominal Pain
Retroperitoneal Space
Tomography, X-Ray Computed

Address reprint requests to : Young Tong Kim, M.D., Department of Radiology, Cheonan Hospital, Soonchunhyang University,
23-20 Bongmyung-dong, Cheonan 330-721, Korea.
Tel. 82-41-570-3515 Fax. 82-41-579-9026 E-mail: ytokim@schmc.ac.kr