

소아의 담석 동반이 없는 황색육아종성 담낭염

부산대학교 어린이병원 소아외과, ¹소아과

김해영 · 조용훈 · 박재홍¹

Xanthogranulomatous Cholecystitis Not Associated with Gallstone in a 9-year-old Girl

Haeyoung Kim, M.D., Yonghoon Cho, M.D., Jaehong Park, M.D.¹

Departments of Pediatric Surgery and ¹Pediatrics, Pusan National University Children's Hospital, Busan, Korea

Xanthogranulomatous cholecystitis (XGC) is known to be a rare, variant type of chronic cholecystitis and more frequently found in the adults with a prevalence of 0.7 to 13.2% of all cholecystitis, moreover very rare in children. Clinically, this usually presents as chronic or acute cholecystitis associated with gallstones, but biliary colic is unusual. Although it requires surgery for management, it may accompany some difficulties during cholecystectomy and postoperative complications such as biliary fistula. It could also give rise to higher conversion rates than other diseases of the gallbladder during laparoscopic procedures. We experienced a very rare pediatric case of xanthogranulomatous cholecystitis not associated with gallstones, successfully managed by laparoscopic cholecystectomy and hereby report it with literature reviews. (J Korean Surg Soc 2009;77:72-74)

Key Words: Xanthogranulomatous cholecystitis, Child, Laparoscopic cholecystectomy

중심 단어: 황색육아종성 담낭염, 소아, 복강경 담낭절제술

서 론

황색육아종성 담낭염(Xanthogranulomatous cholecystitis, XGC)은 비교적 드문 질환으로, 담낭 자체의 파괴적 염증성 과정으로 인한 다수의 황갈색을 띤 점막내 결절 형성 및 만성 질환을 내포하는 포말성 조직구들의 축적과 같은 특징적인 병리소견을 보인다.(1,2) 황색육아종성 담낭염의 병인은 불분명하지만 대다수의 경우 담석동반으로 인한 폐쇄 및 담즙 정체에 주 원인 인자로 생각되나, 담석 동반이 없는 경우도 있을 수 있다.(1,3,4) 이 질환은 주로 성인, 특히 노년층에서 호발하며, 소아에서 진단된 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있다.(2,5)

책임저자: 조용훈, 경남 양산시 물금읍 범어리
☎ 626-770, 부산대학교 어린이병원 소아외과
Tel: 055-360-2124, Fax: 055-360-2911
E-mail: dr-cyh@hanmail.net

접수일 : 2008년 11월 18일, 게재승인일 : 2009년 1월 23일

저자들은 9세 여아에서 담석이 동반되지 않은 황색육아종성 담낭염에 대한 외과적 처치를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

9세 여아가 우상복부 동통을 주소로 타 병원에서 전원되었다. 환자는 특이한 과거력 및 가족력 없이 건강하게 지냈으나 일주일 정도 지속된 39도 이상의 간헐적 고열이 있어 이전 병원에 입원하였다. 당시 신체이학적 검사에서 특별한 이상 소견이 관찰되지 않아 우선적으로 불명열(FUO)에 대한 검사 및 처치가 이루어졌으나, 경미한 백혈구증가증 및 C반응성단백질과 적혈구침강속도의 증가만 관찰되었으며 Widal 검사, 혈액 및 배변 배양 검사, 미코플라스마 항체 검사에서는 모두 음성을 보였다. 입원 치료 도중 환자가 우상복부 동통을 호소하여 상복부 초음파 검사를 시행하였는데 담낭의 심한 팽창 소견이 관찰되어 추가적인 처치를 위

해 저자들의 병원으로 전원되었다.

입원 당시 체온은 38.9도를 보였으며, 복부팽만은 없었으나 우상복부 압통이 관찰되었다. 검사실소견에서는 백혈구 수치가 $13,290/\mu\text{l}$ 로 분엽핵 중성구가 77.9%를 차지하였고 C반응성단백질 및 적혈구 침강속도는 각각 11.03 mg/dl, 120 mm/h로 나타났다. 알칼리 인산분해효소 수치는 833 IU/L로 높아져 있었다. 영상학적 검사로 복부 초음파 및 전산화 단층촬영을 시행하여 담낭주위 액체 저류 및 담낭 팽창이 확인되었고(Fig. 1, 2), 담도계 다른 기형 동반 유무 확인을 위해 자기공명 담도조영술을 시행하여 담낭의 팽창 및 담낭벽 내부 결절이 확인되었다(Fig. 3).

입원 7일째 복강경 담낭 절제술을 시행하였으며, 수술 소

견에서는 복강경술식용 겸자로 잡기 힘들 정도의 부종성, 비후성 담낭벽을 동반한 담낭의 현저한 팽창과 주위 구조물과의 심한 유착을 확인할 수 있었으며 담즙 배양을 위한 담낭 흡인을 시행한 후 담장절제술을 진행하였다. 염증성 유착은 특히 간 표면의 담낭 자리 부분에서 매우 심하였으며 박리가 힘들었으나 특별한 문제없이 수술을 종료하였다.

수술 후 병리 조직 보고에서는 포말성 조직구의 축적이 특징적인 황색육아종성 담낭염으로 확인되었으며(Fig. 4), 담즙의 배양 검사 결과에서는 특별한 균주가 검출되지 않았다. 환자는 수술 후 경과가 양호하여 4일째 특별한 문제 없이 퇴원하였다.



Fig. 1. Ultrasonography showed thickened gallbladder wall with intramural mass-like lesions.

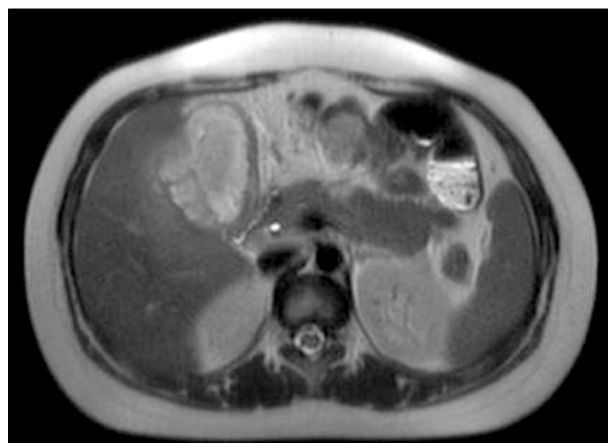


Fig. 3. T2 magnetic resonance imaging showed multiple intramural lesions in the gallbladder.



Fig. 2. Pericholecystic fluid collection and intramural nodules at the liver bed in the computerized tomography of abdomen.

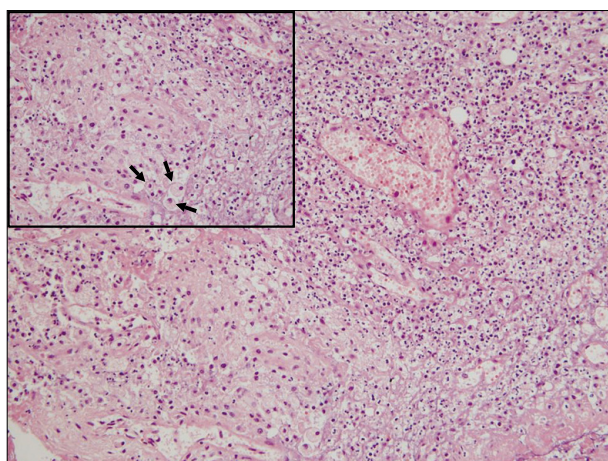


Fig. 4. Histologic finding confirms an infiltration of lymphocytes and plasma cell (H&E, $\times 200$). (Inset) An aggregation of foamy histiocytes (arrow) characterizing the xanthogranulomatous cholecystitis ($\times 400$).

고 찰

황색육아종성 담낭염은 비교적 드문 질환으로 모든 담낭염 형태의 0.7~13.2% 정도를 차지하며, 5, 60대 이후의 노년기에 주로 발견되는 것을 특징으로 알려져 있다.(2,6) 반면, 소아 연령대에서 진단되어진 경우는 많이 알려져 있지 않아, 국외의 경우 이 질환에 대한 치유 경험 자료의 일부에서 확인 가능하였고,(5,7) 국내 문헌 검색에서는 찾아볼 수 없었다.

임상적으로는 본 질환이 급성 내지는 만성 담낭염 형태로 표현되어질 수 있지만 담관성 산통은 흔하지 않으며, 일반적으로는 83~100%에서 담석이 동반되어지는 것으로 알려져 있어 담석이 발병의 시작 단계임을 암시한다.(1,3,4,7) 정확한 발병 인자에 대해서는 알려져 있지 않지만, 보편적인 가설에 의하면 본 질환이 급성 염증 및 담낭의 폐쇄로 시작되어 육아종성 반응이 촉발되어 세포면역성 반응이 촉진되어 발생하는 것으로 여겨지고 있다.(8) 이러한 결과로서 염증반응 부위에 조직구가 축적되어 불용성의 콜레스테롤과 다른 담즙산 지질을 섭취한 후 대형의 황색종 세포를 형성하고, 계속 진행되어진 염증반응은 점막내 미세농양을 만들며 궁극적으로는 담낭벽이 황색육아종으로 대체되어진다.

황색육아종성 담낭염의 진단은 외과적 절제 후 조직학적 확인이 필수이지만, 일부 방사선학적 소견도 이 질환을 대표할 수 있다. 복부초음파 소견으로는 전반적인 담낭벽의 비후와 점막내 저에코성 결절로 보여질 수 있다.(9) 복부 전산화 단층촬영에서는 점막내 저밀도 결절들을 확인 가능하며, 담낭내 연부조직 결절이나 모양이 불규칙하거나 염상의 두터워진 담낭벽을 관찰할 수 있다.(10) 본 증례에서도 복부초음파의 저 에코성 결절 및 전산화 단층촬영의 점막내 결절이 확인 가능하였으며 추가로 시행한 자기공명 담도조영술에서도 담낭벽 내부 결절을 확인할 수 있었다.

치료는 담낭절제술이며, 만성 염증으로 인한 담낭벽의 비후와 주변 장기와의 유착이 다른 양성 담낭질환의 수술에 비해 어려움이 따를 수 있고 수술 중 담낭 천공이나 담도루 등과 같은 합병증 발생 위험이 높은 것으로 알려져 있다.(2,11) 복강경 담낭절제술을 시행함에 있어서 다른 질환들에 비해 개복술로의 전환율이 높은 것으로도 보고되었

다.(7) 본 질환의 외과적 처치에 있어 또 다른 문제점은 성인에서 보고되어진 황색육아종성 담낭염과 담낭암의 연관 가능성이 있지만, 지금까지 소아 연령대에서는 이러한 문제에 대하여 알려진 바는 없다.(2)

저자들은 본 증례가 소아 연령대에서는 매우 보기 드문 질환으로서, 복강경담낭절제술로 잘 치유되었으며 국내에서는 아직 소아환자에 대한 보고가 없었기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

REFERENCES

- 1) Goodman ZD, Ishak KG. Xanthogranulomatous cholecystitis. *Am J Surg Pathol* 1981;5:653-9.
- 2) Kwon AH, Matsui Y, Uemura Y. Surgical procedures and histopathologic findings for patients with xanthogranulomatous cholecystitis. *J Am Coll Surg* 2004;199:204-10.
- 3) Howard TJ, Bennion RS, Thompson JE Jr. Xanthogranulomatous cholecystitis: a chronic inflammatory pseudotumor of the gallbladder. *Am Surg* 1991;57:821-4.
- 4) Hanada K, Nakata H, Nakayama T, Tsukamoto Y, Terashima H, Kuroda Y, et al. Radiologic findings in xanthogranulomatous cholecystitis. *AJR Am J Roentgenol* 1987;148:727-30.
- 5) Kawana T, Suita S, Arima T, Hirayama Y, Ishii K, Minamishima I, et al. Xanthogranulomatous cholecystitis in an infant with obstructive jaundice. *Eur J Pediatr* 1990;149:765-7.
- 6) Fligel S, Lewin KJ. Xanthogranulomatous cholecystitis: case report and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 1982;106:302-4.
- 7) Guzman-Valdivia G. Xanthogranulomatous cholecystitis: 15 years' experience. *World J Surg* 2004;28:254-7.
- 8) Dixit VK, Prakash A, Gupta A, Pandey M, Gautam A, Kumar M, et al. Xanthogranulomatous cholecystitis. *Dig Dis Sci* 1998;43:940-2.
- 9) Parra JA, Acinas O, Bueno J, Guezmes A, Fernandez MA, Farinas MC. Xanthogranulomatous cholecystitis: clinical, sonographic, and CT findings in 26 patients. *AJR Am J Roentgenol* 2000;174:979-83.
- 10) Chun KA, Ha HK, Yu ES, Shinn KS, Kim KW, Lee DH, et al. Xanthogranulomatous cholecystitis: CT features with emphasis on differentiation from gallbladder carcinoma. *Radiology* 1997;203:93-7.
- 11) Yang T, Zhang BH, Zhang J, Zhang YJ, Jiang XQ, Wu MC. Surgical treatment of xanthogranulomatous cholecystitis: experience in 33 cases. *Hepatobiliary Pancreat Dis Int* 2007;6:504-8.