

소아에서 단일 폐 결절로 보인 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 1례

광주기독병원 소아청소년과¹, 전남대학교 의과대학 소아청소년과 교실²

이은지¹ · 강양집¹ · 조형민¹ · 김용욱¹ · 김경심¹ · 김은영¹ · 유은정¹ · 유주희¹ · 국 훈²

=Abstract=

A Case of Bronchiolitis Obliterans Organizing Pneumonia with a Solitary Pulmonary Nodule in a Child

Eun Ji Lee, MD¹, Yang Jib Kang, MD¹, Hyoungh Min Cho, MD¹,
Yong Wook Kim, MD¹, Kyoung Sim Kim, MD¹, Eun Young Kim, MD¹,
Eun Jung You, MD¹, Ju Hee You, MD¹, Hoon Kook, MD²

¹Department of Pediatrics, Kwangju Christian Hospital, Gwangju

²Department of Pediatrics, Chounnam National University Collage of Medicine, Gwangju, Korea

Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia (BOOP) is a pulmonary disorder that exhibits various radiographic findings. It often shows bilateral, patched, or ground glass interstitial infiltrate, but a solitary nodular pattern rarely appears. We report a case of an 8-year-old boy suffering from BOOP that showed a single nodular pattern of the lung in the chest radiography. We conclude that when there is a solitary nodule discovered in the lungs of children or adolescence, the differential diagnosis must include BOOP. [Pediatr Allergy Respir Dis(Korea) 2012;22:433-437]

Key Words : Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia, Pulmonary solitary nodule

서 론

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴(bronchiolitis obliterans organizing pneumonia, BOOP)은 발병 원인에 의해 손상을 받은 세기관지가 회복되어가는 과정에서 육아 조직이 과도하게 증식되어 세기관지를 폐쇄하고 일부는 폐포 내로 자라 들어가며 간질 내 단핵구 침윤을 보이는 미만성 침윤성 폐 질환의 하나이다.¹⁾ 대부분 50대에서 60대 사이에서 발병하며 소아에서는 드물게 발생하는 질환이다.^{1,2)}

흉부 방사선상 다양한 소견을 보일 수 있는데, 양측성 반점상 침윤(bilateral patchy infiltration)을 흔히 보이나 종종 단일 결절 소견으로 나타나 진단하기 어려운 경우를 보

이며 이 경우 단일 결절 양상을 보일 수 있는 다른 질환들과 감별 진단이 필요하다. 단일 결절 양상의 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴은 수술적 치료가 완치가 가능하므로³⁾ 의심되는 경우 조직 검사 등을 통해 조기에 진단하여 치료하여야 한다.

본 증례는 우연히 발견된 단일 결절의 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 1례로 국내에서는 아직 소아에서 보고되지 않은 양상을 발견하였기에 이에 보고하는 바이다.

증 례

8세 남아가 3일간의 발열 및 구토 증상으로 외래를 통해 입원하였다. 환아는 발열 및 구토 외에도 기침, 가래 등 감기와 유사한 증상을 동반하고 있었다. 과거력 및 가족력에서 특이 사항은 보이지 않았다. 병원 방문 1개월 전 가슴 통증을 한 차례 호소한 적 있었으나 자연히 호전되어 특별한 검

접수: 2012년 9월 12일, 수정: 2012년 10월 18일

승인: 2012년 10월 22일

조형민, 광주광역시 남구 양림로 37

광주기독병원 소아청소년과

Tel : 062)650-5045, Fax : 062)650-5040

E-mail : drcho92@hanmail.net

사 및 약물 복용은 하지 않았다.

입원 시 촬영한 흉부 방사선에서 폐 우하엽에 경계가 분명한 원형 종괴 음영이 보였다.(Fig. 1) 흉부 컴퓨터 단층 촬영으로 다시 확인한 결과 폐 우하엽에 간유리 음영과 국소적인 석회화 양상을 보이는 직경 3.5 cm 가량의 종괴 음영이 보여 일차적으로 원형 폐렴 또는 국소적인 호산구 침윤을 의심하였다.(Fig. 2)

입원 후 시행한 혈액 검사는 혈색소 13.7 g/dL, 백혈구 11,800/ μ L, 혈소판 222,000/ μ L, 적혈구 침강 속도 16 mm/hr, C 반응성 단백 1.2 mg/dL, 나트륨/칼륨/염소 141/4.3/101 mmEq/L, 마이코플라스마 항체가 음성, 한랭응집 반응 검사 1:64, immunoglobulin (Ig) G 1,419 mg/dL, IgA 144 mg/dL, IgM 122 mg/dL, IgE 136 mg/dL, CD 19/56/3/4/8 25%/5.14%/66.8%/41.1%/16.5%, NK세포 16.0%, C3 129 mg/dL, C4 25.8 mg/dL, CH50 51.8 U/mL, 항핵항체 음성, CK 110 U/L, 류마티스 인자 11 IU/mL로 정상이었다. 폐결핵을 감별하기 위해 결핵 피부 반응 검사, 결핵균 도말 및 배양 검사를 실시하였다. 결핵 피부 반응 검사상 경결은 0 mm로 정상이었고 결핵균 도말과 배양 검사도 음성이었다. 폐흡충 감염에 대한 혈액 내 항체 검사와 분변 충란 검사 또한 음성이었다.

세균성 폐렴을 의심해서 입원 기간 동안 항생제를 투여

하며 흉부 방사선을 추적 관찰 하였다. 정주용 sulbactam/ampicillin과 경구용 clarithromycin 을 8일간 병용 투여 하였으나 흉부 방사선상 종괴 음영은 호전되지 않았다.

입원 9일째에 입원 시 호소하였던 발열과 구토, 기침과 흉통 등 증상이 호전되어 외래에서 항생제 치료 및 흉부 방사선 추적 관찰하기로 하고 퇴원하였다.

2개월간의 추적 관찰 기간 중 특별한 호흡기 증상은 보이지 않았고, 지속적으로 경구용 항생제 sulbactam/ampicillin으로 치료하였으나 흉부 방사선에서 종괴 음영의 크기가 감소되지 않고 흉통을 다시 호소하여 조직 검사와 결핵 검사를 재검사하기 위해 입원하였다. 재입원 후 다시 시행한 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 2개월 전에 비해 종괴 음영이 직경 3.8 cm 정도로 약간 커져 있는 것이 확인되었다. 컴퓨터 단층 촬영 유도 폐생검(computed tomography guided lung biopsy)을 시행하였으나 적절한 조직을 얻지 못해 결과를 정확히 얻을 수 없었다. 재검한 결핵 피부 반응 검사에서도 경결은 0 mm로 정상이었으며 객담의 항산균 도말과 항산균 배양 검사도 음성이었다.

재 조직 검사 및 수술적 처치를 고려하여 흉부 외과가 있는 3차 병원으로 전원하였다. 전원 후 시행한 기관지 내시경 및 기관지 폐포 세척 검사에서 특이 소견 보이지 않았으며 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 유사한 소견을 보일 수 있는 감염성 질환은 이전의 검사들로 진단에서 배제되어 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴을 의심하였다. 컴퓨터 단층 촬영 유도 폐 생검으로 조직을 얻는데 한계가 있어 조직 검사와 치료적 목적으로 비디오 흉강경을 이용하여 췌기 절제술을 시행하였다.

환이는 수술 시 시행한 조직 검사를 통해 폐포 내의 육아



Fig. 1. Chest radiograph showed a round shaped mass like consolidation in the right lower lobe at hospital day 1.

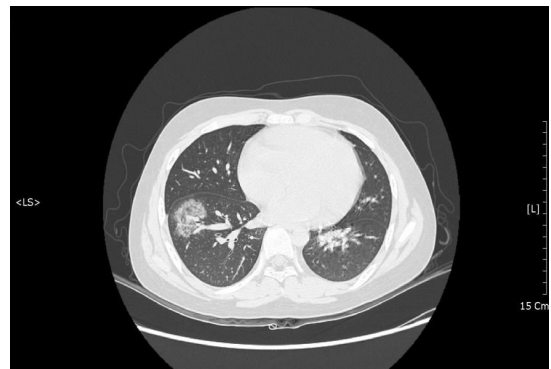


Fig. 2. Chest computer tomography image showed a 3.5 cm sized mass with ground glass opacity, containing focal calcification in the right lower lobe.

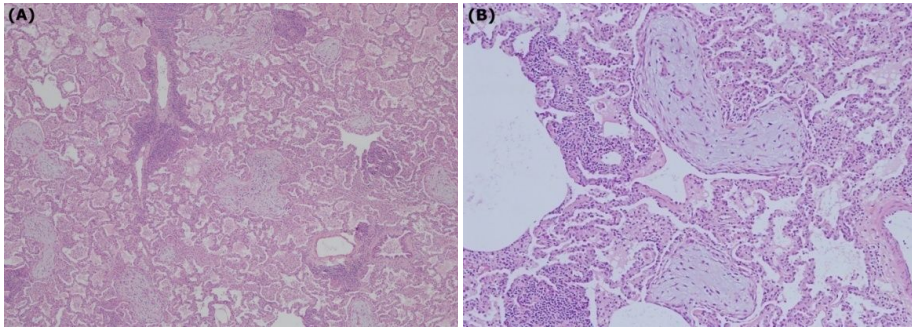


Fig. 3. (A) The biopsy specimen showed aninflammation in the surrounding alveoli, with thickening alveolar walls with lymphoid cell infiltration (H&E, $\times 100$). (B) Granulation tissue in the bronchiolar lumen, alveolar ducts, and some alveoli in polypoid shape (H&E, $\times 200$).

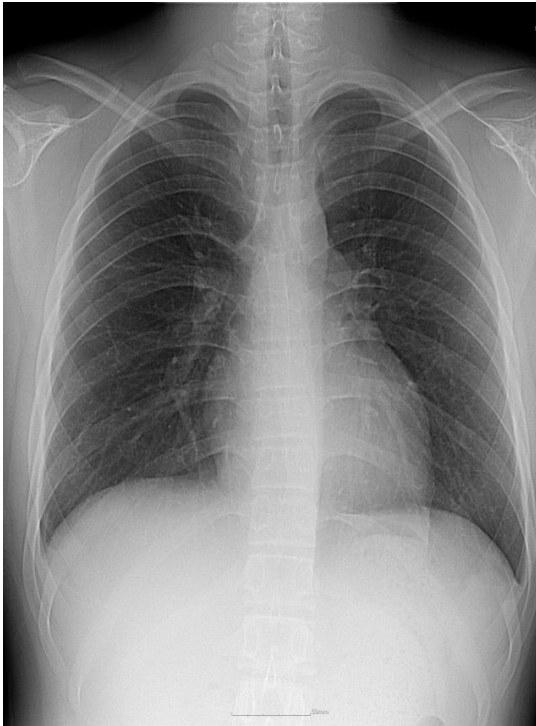


Fig. 4. Follow-up chest radiograph, at 2 years later after the surgical excision, showed that the round shaped mass in the right lower lobe had completely disappeared. No relapse occurred.

조직 증식과 폐포관의 비후 및 주변의 염증 세포 침윤을 확인할 수 있었으며 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴으로 확진되었다.(Fig. 3) 수술 후 특별한 증상 없이 회복되었으며, 이후 2년 동안 추적 관찰한 흉부 방사선 검사에서 재발 소견은 보이지 않고 있다.(Fig. 4)

고 찰

소아에서 흉부 방사선 검사에서 단일 결절 양상의 음영이 동반된 경우에는 여러 가지 질환을 감별해야 한다. 대부분 원형의 세균성 폐렴을 첫 번째로 의심하게 되며 이와 유사한 양상을 보이는 다른 감별 질환으로 폐 농양이나 진균 감염, 폐 결핵 등의 폐 감염이나 자가 면역 질환, 혈관종이나 혈관 기형, 횡격막 탈장 또는 종양성 질환 등도 생각할 수 있다.

폐렴이 임상적으로 의심될 경우 일차적으로 항생제 치료를 시작하며 치료에 대한 반응으로 폐렴과 다른 질환을 감별할 수 있다.⁴⁾ 항생제 치료에 반응을 보이지 않는 경우나 임상 증상이 폐렴과 일치하지 않는 경우, 폐 외의 원인이 의심되는 경우에는 흉부 컴퓨터 단층 촬영을 시행한다.⁵⁾ 그 외에 진단을 위해 결핵에 대한 피부 반응 검사나 객담 도말 검사, 진균에 대한 항체 검사나 기관지 폐포 세척 검사 등을 사용할 수 있으며 이러한 검사들 중 특징적인 결과가 나오지 않을 경우 조직 검사를 시행한다. 조직학적 소견상 염증성 변화를 보이면서 다른 질환을 감별할 수 있는 경우 최종적으로 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴이라 진단할 수 있다.

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴은 뚜렷한 원인 없이 발생한, 조직학적으로 기질화 폐렴의 양상을 보이는 질환을 지칭하는 진단명으로 다양한 비특이성 폐손상으로 인한 세기관지 내의 미만성 염증성 침윤을 특징으로 하며 주로 소기도와 말초 기관지 내의 과도한 육아 조직의 증식으로 인한 세기관지의 폐쇄와 주변 폐포 및 폐포관의 비후, 간질 내 림프구 및 단핵구의 침윤을 관찰할 수 있다.^{1,6-8)}

임상 증상으로는 미열, 기침, 피로, 근육통 등 감기와 유사한 증상이 보인다. 기침은 객담이 동반되지 않으며 호흡이

짧아지면서 호흡 곤란을 보인다.^{6,9)} 57%에서는 체중 감소를 보일 수도 있다. 청진상 호기성 천명 혹은 수포음이 들리기도 하며 1/4에서는 특별한 이학적 소견을 보이지 않기도 한다.¹⁾ 임상 증상이 특징적이지 않기 때문에 환자가 처음 내원했을 때 이 질환을 일차적으로 의심하기에는 어려움이 있다. 진단에는 보통 방사선 소견이 필요하며 확진을 위해서는 폐 조직 생검에 의한 조직학적 소견이 필요하다.

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴의 방사선 소견은 1) 다발성의 반점상 폐렴 양상(multiple patchy pneumonic pattern); 2) 국소적인 단일 폐렴 양상(solitary pneumonic pattern); 3) 미만성 간질성 폐렴 양상(diffuse interstitial pneumonic pattern)의 세가지로 분류할 수 있는데,¹⁰⁾ 이중에서 양측성 반점상 폐렴 양상이 가장 흔하며¹¹⁾ 단일 결절 양상은 상대적으로 드물게 보인다.

컴퓨터 단층 촬영에서는 간유리 음영과 기강 경화 양상(air-space consolidation)을 볼 수 있으며 경계가 불분명한 미세결절 양상이나 불규칙한 선상 음영, 기관지벽의 비후나 확장 등을 보이기도 한다.¹²⁾ 국소적인 단일 결절 양상으로 보이는 경우 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 외에도 감염에 의해서도 비슷한 양상을 보일 수 있으며 종양과 완전히 감별이 되지 않는다고 보고되고 있다.¹³⁾

본 환자에서도 발열과 기침, 흉부 방사선상 원형 종괴 음영으로 초기에 감염에 의한 원형 폐렴을 의심하여 항생제 치료하였으나 병변이 호전되지 않았다. 그 외 결핵이나 진균 감염, 자가 면역 질환 등에 대한 검사도 정상이어서 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴을 의심하게 되었고 조직 검사에서 폐포관과 세기관지 내에 육아 조직의 증식과 폐포 벽의 비후, 주변의 염증 세포 침윤 소견을 보여 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴으로 확진하였다.

대부분 50대에서 60대 사이에서 발병하며^{1,2)} 소아에서 발생한 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴의 증례는 종종 보고되고 있으나^{12,14)} 그 발생은 드물어 정확한 발병률은 보고되지 않았다.

국내에서도 소아에서의 보고는 많지 않아 Choi 등¹⁵⁾이 1995년 보고한 11세 여아에서 발생한 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴의 증례와 급성 골수성 백혈병으로 진단된 12세 여아에서 동반된 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴의 증례가 있으나¹⁶⁾ 모두 흉부 방사선상 간질성 침윤 양상을 보였던 경우로 본 증례의 환자와 같이 소아에서 단일 결절 양상의 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴이 발생한 사례에 대한 보고는 아직 없다.

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴의 초기 치료에는 스테로이

드가 첫 번째로 사용된다. 전형적인 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 뿐 아니라 국소적으로 발생한 경우에도 스테로이드가 효과적인 것으로 보고되고 있으며¹⁷⁾ 스테로이드가 효과가 있을 경우에는 폐 절제 등의 수술을 피할 수 있다. 그러나 몇몇 보고에서는 스테로이드 치료에 반응을 보이지 않거나 치료 후 재발하기도 하는데^{6,8)} 스테로이드로 잘 치료되지 않는 단일 결절 양상의 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 환자에게는 완치를 위해 수술적 절제를 시행할 수 있다. 또한 국소적으로 발생한 경우 증상이나 방사선 소견으로 종양 등과 감별이 어려워 확진을 위한 조직 검사가 필요한데, 수술적 절제가 진단과 치료에 모두 유용하다.

기존의 다른 보고들에서도 국소적으로 발생한 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴에서 약물 치료 보다 바로 수술적 절제를 선택한 증례들을 보고하고 있으며 양호한 경과를 보였다. 2007년 보고된 Maldonado 등¹³⁾의 연구에 따르면, 26명의 국소적인 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴 환자에서 절제술을 시행하고 11개월 후 추적 관찰한 결과 재발이 보이지 않았다. 그 외에도 몇몇 연구에서 절제 후 거의 재발이 보이지 않음을 보고하고 있어 수술적 절제가 진단과 치료 모두에 효과적임을 알 수 있다.^{18,19)}

본 증례에서는 약 2개월 이상 동안 다른 원인들을 감별진단하고 경험적인 치료에 대한 반응을 살피느라 시간이 경과했다. 또한 정확한 원인을 아는데 있어 꼭 필요한 컴퓨터 단층 촬영 유도 폐생검이 실패하였기 때문에 스테로이드 치료 등 약물 치료에 대한 반응을 보지 않고 확진을 위한 조직 검사를 겸하여 바로 수술적 절제를 실시하였다. 절제 후에도 재발 양상을 보이지 않아 다른 치료는 시행하지 않았다.

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴은 흉부 방사선상 다양한 소견을 가지는 질환으로 종종 단일 결절 양상으로 보일 수도 있다. 소아에서는 드물게 나타나는 질환이나 진단이 어려운 단일 결절 양상이 지속될 경우 원형 폐렴이나 결핵, 종양 등과 함께 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴에 대한 감별 진단도 필요할 것으로 보인다.

요 약

폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴은 병리 조직 소견에서 세기관지와 폐포 내의 육아 조직 증식을 보이고 흉부 방사선에서 양측성 반점상 침윤을 흔히 보이는 질환이다. 본 증례에서는 소아에서 드물게 단일 결절의 폐쇄성 세기관지 기질화 폐렴을 발견하여 보고하였으며 흉부 방사선에서 단일 결절 소견이 보일 경우 폐감염 또는 종양 등과 함께 폐쇄성 세

기관지 기질화 폐렴에 대한 감별도 필요할 것으로 생각된다.

참 고 문 헌

1. Epler GR, Colby TV, McLoud TC, Carrington CB, Gaensler EA. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. *N Engl J Med* 1985;312:152-8.
2. Izumi T, Kitaichi M, Nishimura K, Nagai S. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. Clinical features and differential diagnosis. *Chest* 1992; 102:715-9.
3. Kohno N, Ikezoe J, Johkoh T, Takeuchi N, Tomiyama N, Kido S, et al. Focal organizing pneumonia: CT appearance. *Radiology* 1993;189:119-23.
4. Leonidas JC. Pneumonia presenting as a radiographic mass in a child. *Mt Sinai J Med* 1986;53: 489-90.
5. Restrepo R, Palani R, Matapathi UM, Wu YY. Imaging of round pneumonia and mimics in children. *Pediatr Radiol* 2010;40:1931-40.
6. Cordier JF. Organising pneumonia. *Thorax* 2000; 55:318-28.
7. Cordier JF. Cryptogenic organising pneumonia. *Eur Respir J* 2006;28:422-46.
8. Epler GR. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. *Arch Intern Med* 2001;161:158-64.
9. Cordier JF. Cryptogenic organizing pneumonia. *Clin Chest Med* 2004;25:727-38, vi-vii.
10. Cordier JF, Loire R, Brune J. Idiopathic bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. Definition of characteristic clinical profiles in a series of 16 patients. *Chest* 1989;96:999-1004.
11. Flowers JR, Clunie G, Burke M, Constant O. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia: the clinical and radiological features of seven cases and a review of the literature. *Clin Radiol* 1992;45:371-7.
12. Helton KJ, Kuhn JP, Fletcher BD, Jenkins JJ 3rd, Parham DM. Bronchiolitis obliterans-organizing pneumonia (BOOP) in children with malignant disease. *Pediatr Radiol* 1992;22:270-4.
13. Maldonado F, Daniels CE, Hoffman EA, Yi ES, Ryu JH. Focal organizing pneumonia on surgical lung biopsy: causes, clinicoradiologic features, and outcomes. *Chest* 2007;132:1579-83.
14. Inoue T, Toyoshima K, Kikui M. Idiopathic bronchiolitis obliterans organizing pneumonia (idiopathic BOOP) in childhood. *Pediatr Pulmonol* 1996;22:67-72.
15. Choi BK, Kang TH, Bae KL, Hwang KG, Choi AH. A case of bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. *Pediatr Allergy Respir Dis(Korea)* 1995;5:153-9.
16. Lee BC, Kim HL, Shin KW, Hong SA, Choi BK, Kim HS, et al. A case of bronchiolitis obliterans organizing pneumonia developed after treatment of acute myelogenous leukemia (M2) with chloroma and retinopathy. *Korean J Pediatr Hematol Oncol* 2004;11:247-52.
17. Akira M, Yamamoto S, Sakatani M. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia manifesting as multiple large nodules or masses. *AJR Am J Roentgenol* 1998;170:291-5.
18. Melloni G, Cremona G, Bandiera A, Arrigoni G, Rizzo N, Varagona R, et al. Localized organizing pneumonia: report of 21 cases. *Ann Thorac Surg* 2007;83:1946-51.
19. Zheng Z, Pan Y, Song C, Wei H, Wu S, Wei X, et al. Focal organizing pneumonia mimicking lung cancer: a surgeon's view. *Am Surg* 2012; 78:133-7.