남자에서 발생한 Fitz-Hugh-Curtis Syndrome 1예

좋은삼선병원 내과

백현철 · 배영석 · 이광재 · 김동현 · 배상훈 · 김동완 · 윤정빈 · 송철수

A Case of Fitz-Hugh-Curtis Syndrome in a Male

Hyun Choul Baek, M.D., Young Seok Bae, M.D., Kwang Jae Lee, M.D., Dong Hyun Kim, M.D., Sang Hoon Bae, M.D., Dong Wan Kim, M.D., Jung Bin Yoon, M.D., and Chul Soo Song, M.D.

Department of Internal Medicine, Good Samsun Hospital, Busan, Korea

Fitz-Hugh-Curtis syndrome has been described as focal perihepatitis accompanying pelvic inflammatory disease caused by *Neisseria gonorrhea* and *Chlamydia trachomatis*. The highest incidence occurs in young, sexually active females. However, the syndrome has been reported to occur infrequently in males, according to the foreign literature. The predominant symptoms are right upper quadrant pain and tenderness, and pleuritic right sided chest pain. The clinical presentation is similar in men and women. In women, the spread of infection to liver capsule is thought to occur directly from infected fallopian tube via the right paracolic gutter. In men, hematogenous and lymphatic spread is thought to be postulated. Recently, we experienced a case of Fitz-Hugh-Curtis syndrome occurred in a man. As far as we know, it is the first report in Korea, and we report a case with a review of the literature. (Korean J Gastroenterol 2010;55:203-207)

Key Words: Fitz-Hugh-Curtis syndrome; Perihepatitis; Man

서 론

Fitz-Hugh-Curtis syndrome (FHCS)은 골반 내 감염과 관련하여 간 실질을 포함하지 않고 간피막의 염증을 일으키는 간주위염이다. 1930년 Curtis¹는 난관염 환자에서 개복술 시간주위에 바이올린 줄과 같은 유착을 보고하였고, 1934년 Fitz-Hugh²는 우상복부 통증을 호소하는 환자에서 간 주위유착부위에서 Neisseria gonorrhea (N. gonorrhea)를 동정한후 임질성 간주위염이라는 새로운 증후군을 제안하였다.

이후 Müller-Schoop 등³은 *Chlamydia trachomatis* (*C. trachomatis*)가 FHCS의 새로운 원인균이라 제안하였으며, 이는 최

근 보고된 문헌에서 주된 원인균으로 알려져 있다. 감염 경로로는 골반 내 감염의 직접적인 전파가 주된 경로이며, 그외에도 림프관이나 혈관을 통한 전파도 가능하다. FHCS의 진단을 위해서는 급성기 환자의 간 피막 삼출물로부터 N. gonorrhea나 C. trachomatis 같은 원인균을 증명하거나, 바이올린 줄 모양의 특징적인 간 주위 유착을 확인하면 된다. 그러나 급성기에는 경구 항생제만으로도 비교적 쉽게 치료되는 양성 질환임을 고려하면 복강경 수술이나 개복술 같은 침습적인 방법보다는 비침습적인 방법을 이용한 진단이 더바람직하리라 생각한다. 최근 여러 연구를 통해 복부 역동 전산화단층촬영에서 간피막의 조영증강 소견이 진단에 매

접수: 2009년 7월 9일, 승인: 2009년 10월 31일

연락처: 송철수, 617-718, 부산시 사상구 주례동 193-5번지

좋은삼선병원 내과

Tel: (051) 310-9120, Fax: (051) 323-3308

E-mail: scsdoc2000@yahoo.co.kr

Correspondence to: Chul Soo Song, M.D. Department of Internal Medicine, Good Samsun Hospital,

193-5, Jurye-dong, Sasang-gu, Busan 617-718, Korea

E-mail: scsdoc2000@yahoo.co.kr

Tel: +82-51-310-9120, Fax: +82-51-323-3308

우 특이적인 것으로 알려지고 있다.4

FHCS는 골반염 또는 난관염과 동반되어 발생하므로 대부분 여성에서 발생하며, 남자에서의 발생은 극히 드문 것으로 알려져 있다. 1970년 Kimball과 Knee⁵가 남성에서의 첫보고를 발표한 후 몇몇 보고가 있으나,⁶⁹ 아직 국내 보고는 없는 실정이다. 저자들은 우상복부 통증을 주소로 내원한 남성 환자에서, 복부 역동전산화단층촬영검사 후 특징적인조영증강 소견이 보여 FHCS로 진단한 경험을 하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

35세 남자 환자가 3주 전부터 발생한 우상복부 통증으로 내원하였다. 내원 2개월 전부터 간헐적인 빈뇨, 세뇨, 배뇨시 통증이 있어 개인 병원에서 요도염 진단 후 치료한 병력이 있었다. 환자는 미혼이었으며, 여자 친구와 한 달에 수차례씩 성관계를 가졌다고 하였다. 1년여 전 충수돌기 절제술을 시행 받았으며, 하루 1.5갑씩 8년간의 흡연력이 있었고, 매일 소주 1병 정도의 음주력이 있었다. 내원 시 활력 징후는 혈압 170/100 mmHg, 맥박 80회/분, 체온 37.3℃, 호흡수 20회/분이었고, 급성 병색 소견을 보였다. 신체검사에서 우상복부에 압통이 있었으나, 복부 팽만은 없었고, 장음은 정상이었으며, 촉진 시 부드러웠고, 커져있는 장기나 종물은촉지되지 않았다. 우상복부 통증은 식사와 무관하였으나,움직이거나 숨을 깊이 들이쉴 때 악화되었으며, 좌측으로돌아누울 때 특히 심하였다.

말초혈액검사에서 백혈구 5,590/mm³ (호중구 61.8%, 림프 구 28.8%, 단핵구 8.1%, 호산구 1.1%), 혈색소 14.8 g/dL, 혈 소판 308,000/mm³이었고, 혈청 생화학검사에서 AST 22 IU/L, ALT 34 IU/L, 총 빌리루빈 1.0 mg/dL, ALP 363 IU/L, γ -GTP 100 IU/L, BUN 9 mg/dL, creatinine 1.2 mg/dL이었다. 혈청 전해질 검사는 정상이었고, HBsAg 음성, HBsAb 양성, HCV Ab 음성이었으며, CRP는 2.4 mg/dL로 증가되었다. 소 변검사에서 고배율 검경 하에서 백혈구가 2-3개 관찰되었으나 세균뇨는 보이지 않았고, 소변배양검사에서 병원균은 분리되지 않았다. 단순 흉부 방사선 촬영은 정상이었다.

급성 담낭염, 간농양 등의 간질환 의심 하에 복부 역동전 산화단층촬영을 시행하였다. 담낭, 간 실질, 담도, 췌장을 포함한 복강 내 장기의 이상 소견은 보이지 않았으나 동맥기 및 지연기에서 얇은 선상의 조영증강 소견이 간전면의 피막에서 관찰되었고, 그 전방으로 복벽과의 사이에 소량의 액체 저류가 함께 관찰되었다(Fig. 1, 2). 환자의 증상과 복부역동전산화단층촬영 결과로 판단할 때 정확한 전파 경로는알 수 없지만 간주위염의 가능성을 생각하여 남성 성전파성질환에 대한 소변 중합효소연쇄반응검사를 시행하였다.

환자는 외래에서 치료 받기를 원하였기 때문에 임질균에 대한 염증으로 우선 생각하고, levofloxacin 500 mg 하루 1회 및 doxycycline 100 mg 하루 2회 투여하기로 하고 외래를 통해 치료를 계획하였다. 1주일 후 내원 시, 우상복부 통증은 감소되었고, 흡기 시의 통증도 많이 호전되었다. 2주일 후 내원 시, 상부 및 대장 내시경을 시행하였으며, 식도염 및 위염소견 외 특이소견은 관찰되지 않았고, 우상복부 통증은 현저히 감소되었으며, 추적 요검사에서 정상 소견을 보였다. 3주째, 내원 시 우상복부 통증은 거의 없었으며, 남성 성전파성 질환에 대한 중합효소연쇄반응검사 결과, Mycoplasma genitalium (M. genitalium) 양성이었으며, N. gonorrhea 및 C.



Fig. 1. Abdominal CT finding. On arterial phase image, linear capsular enhancement (white arrow) was noted at the arterial surface of the medial segment, and above it, between the liver and parietal peritoneum, fluid collection was seen.



Fig. 2. Abdominal CT finding. On delayed phase image, linear capsular enhancement (arrow head) was still noted. But, it was less prominent than arterial phase.

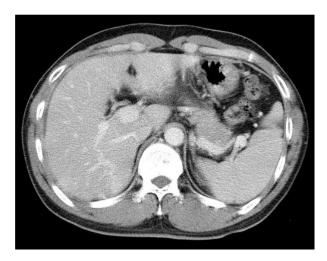


Fig. 3. Abdominal CT finding. Six weeks after treatment, the enhancement of liver capsule over the right lobe disappeared completely.

trachomatis는 음성이었다. 이에 levofloxacin 500 mg 하루 1 회 2주간 투여 후 치료를 종결하였다.

6주째 추적 복부 역동전산화단층촬영을 시행하였으며, 이 전에 보이던 간 피막에서의 선상의 조영증강 소견은 보이지 않았고(Fig. 3), 환자의 증상도 완전히 회복되어 외래에서 경 과 관찰중이다.

고 찰

FHCS는 골반염 혹은 난관염과 동반하여 발생하는 간주 위염을 말하며, 골반 내 감염의 약 4-14%에서 동반된다.10

FHCS는 급성기와 만성기로 나누며, 급성기의 환자는 간 의 전면과 간과 인접한 복벽에 혈관의 충혈과 삼출액을 동 반한 염증 반응이 나타나며 염증 반응의 결과로 늑막성 동 통이 나타난다. 만성기에는 간 피막과 복벽의 전면 또는 간 피막과 횡격막 사이에 바이올린 줄 모양의 유착이 발생하 며, 글리슨(Glisson) 피막의 자극으로 통증이 발생한다.

FHCS는 대부분 여성에서 발생하며 남성에서의 발생은 극히 드문 것으로 알려져 있으나, 1970년 Kimball과 Knee⁵는 남성에서 발생한 FHCS를 최초로 보고하였다. 22세 남성이 요도염으로 치료 받던 중 우상복부 통증이 발생하였으며, 원인균으로는 N. gonorrhea가 동정되었고, 전파경로로는 패 혈증이나 후복막강의 림프관이 제시되었다. 1972년 Francis 와 Osoba⁶는 우상복부 통증 및 무릎, 손목, 발목의 다발성 관절통을 호소하는 25세 남자에서 발생한 증례를 보고하였 으며, 발열 증세를 보이고 혈액검사에서 백혈구 증가를 보 여 N. gonorrhea에 의한 패혈증이 감염경로라고 제시하였다. 1982년 Davidson과 Hawkins⁸는 양성애자인 35세 남성에서의 발생을 보고하였으며, 원인균으로는 N. gonorrhea가 동정되

었고, 발열과 함께 농포성 발진이 보여 임질성 패혈증이 원 인이라고 하였다. 1985년 Winkler 등⁹은 후천성 면역 결핍 증후군을 앓고 있고, 동성애자인 35세 남성에 대하여 보고 하였으며, 원인균으로 N. gonorrhea가 배양되었다. 내시경검 사에서 직장염 소견이 보여 과격한 항문 성교 시 손상된 직 장 점막을 통하여 침투한 병원균이 복강을 통해 직접 전파 되어 간주위염을 일으켰을 가능성을 제시하여, 남성의 경우 동성애자에서 발생빈도가 높을 수 있음을 암시하였다. 이번 증례의 경우 미혼이고 다수의 성접촉은 있었으나 동성애의 과거력은 없었다. 또한 내원 전 개인 병원에서 요도염으로 치료한 병력은 있으나 치료기간이 불충분하고 불규칙적으 로 치료하여 요도염의 증상이 지속되는 상태였고, 내원 시 소변검사에서 백혈구가 검출되었으며 소변 중합효소연쇄반 응검사에서 M. genitalium이 검출된 것으로 보아 요도염에 의해 간주위염이 발생되었을 것으로 추정된다.

감염 경로로는 골반 내 감염의 직접적인 전파가 주된 경 로이며, 그 외에도 림프관이나 혈관을 통한 전파도 가능하 다. 이 중에서 직접적인 전파는 원인균이 나팔관을 통해 양 측 대장곁 홈을 따라 상복부로 올라가는 복막강을 통한 경 로이며, 혈행성 및 림프관을 통한 전파는 난관 결찰을 한 여 성이나 남성에서 가능한 감염경로이다.11 FHCS는 골반염 혹 은 난관염과 동반되어 나타나므로 대부분 여성에서 발생하 며, 남성에서의 발생은 매우 드문 것으로 알려져 있다. 또한 국내에 보고된 논문의 경우 모두 여성에서 발생하였다. 12-15 이번 증례의 경우, 발열, 발진, 백혈구 증가 등 패혈증을 시 사할 만한 소견이 없어 혈행성 전파의 가능성이 없으며, 미 혼이고 다수의 성접촉은 있었으나 항문 성교의 과거력은 없 었고 직장점막손상에 의한 병원균의 복강을 통한 직접 전파 가능성도 없어 림프관을 통해 전파되었을 것으로 추정된다.

FHCS의 원인균은 C. trachomatis가 최근에 주된 원인균으 로 보고되고 있다.16 이번 증례에서는 소변 중합효소연쇄반 응검사를 통해 M. genitalium이 검출되었다. M. genitalium은 배양이 어렵고, 동정하기 위한 기간이 수주 이상 걸려 균주 확인이 매우 어렵다. 남성과 여성에서 동시에 병원성을 가 지며, 생식기 상피세포에 부착하여 염증반응을 유발한다고 알려져 있다.¹⁷ 이것은 또한 정자에 부착되어 여성의 생식기 에 전파될 수 있다. Taylor-Robinson과 Horner 18는 M. genitalium이 남성의 비임질성 요도염에서 C. trachomatis와 함께, 독립적인 병원균임을 보고하였다.

확진은 복강경 또는 개복술을 통해 간 피막 부위에서 N. gonorrhea나 C. trachomatis 같은 원인균을 동정하는 것이다. 그러나 이 질환이 양성이고, 급성기에는 경구 항생제만으로 비교적 쉽게 치료가 되는 점을 감안하면, 비침습적인 진단 이 바람직하리라 생각한다. 따라서 우상복부 통증과 같은 전형적인 증상, 검사실 소견 및 복부 역동전산화단층촬영을

이용하여 간피막의 조영증강 소견을 찾는 것이 도움이 된 다. Nishie 등¹⁹은, 우상복부 통증을 호소하는 젊은 여성에서 초음파나 내시경 검사에서 명확한 이상 소견이 없을 때, FHCS의 감별에 복부 역동전산화단층촬영이 유용하다고 하 였고, Joo 등⁴도 간 피막의 조영증강 소견이 보이면 FHCS의 진단이 가능하다고 하였다. 주로 동맥기에서 이런 특징적인 소견이 보이나, 일부 지연기에도 상기 소견이 관찰되는데, Nishie 등¹⁹은 13명의 FHCS 환자 중 8명에서 지연기에서도 피막의 조영증강 소견이 보인다고 하였다. 동맥기의 간 피 막 조영증강의 기전은 염증을 일으킨 간 피막으로의 혈류증 가에 기인하며, 지연기에서의 조영증강 소견은 피막 섬유화 의 초기 단계라고 설명하였고, 추적 복부 전산화단층촬영이 가능하였던 7명 중 5명에서 지연기 때 피막 조영증강 소견 이 남아 있는 것이 이를 뒷받침한다고 하였다. 이번 증례의 경우, 동맥기보다는 희미하나 지연기에도 간 피막 조영증강 소견이 보이는 것으로 보아 급성기를 지나 만성기로 이행하 는 단계로 추정된다. 전산화단층촬영검사에서 간피막의 조 영 증강이 관찰되는 다른 질환으로는 전신성 홍반성 낭창, 복막 암종증, 천공성 담낭염, 천공성 간농양, 결핵성 복막염 등이 있으므로 FHCS과 감별 진단하여야 한다.4 이번 증례 의 경우 검사실 소견 및 영상진단에서 상기 질환들을 배제 할 수 있었다.

치료는 골반염이 있는 경우에는 경험적인 항생제로 치료하고, 중합효소연쇄반응검사, 혈청검사 등을 이용하여 원인균을 찾아낸 후 각각의 원인균에 맞는 항생제 치료를 시행하는 것이다. 이번 증례의 경우 내원 전 개인 병원에서 요도염에 대한 치료가 불규칙하고 불충분하였으며, 또한 tetracycline 및 erythromycin, azithromycin, clarithromycin과 같은 macrolide 계열과 quinolone 계열의 항생제에 뛰어난 반응을보여 비뇨생식기 감염과 연관된 FHCS가 환자의 우상복부통증이었음을 간접적으로 뒷받침한다.

이번 증례는, 문헌 고찰상 남성에서 발생한 FHCS로는 국내 최초의 보고이다. FHCS는 주로 젊은 여성에서 발생하는 것으로 알려져 있으며, 남성에서의 발생은 매우 드문 것으로 알려져 있다. 외국 문헌에는 남성에서의 발생에 대한 몇몇 보고가 있으나 국내에서는 아직 없는 실정이다. 우상복부 통증을 호소하는 환자에서 흉부촬영, 혈액검사 등에서 이상 소견이 보이지 않았으나, 복부 역동전산화단층촬영 및 중합효소연쇄반응검사 등 적극적인 검사로 진단에 이를 수 있었고, 조기에 적절한 치료로 증상을 호전시켰던 증례이다. 향후 원인이 확실치 않은 우상복부 통증을 호소하는 남자에서, 이 질환이 남성에서도 발생할 수 있다는 점을 염두에 두고, 원인을 찾으려는 적극적인 노력이 필요하리라 생각한다.

참고문헌

- Curtis AH. A cause of adhesions in the right upper quadrant. JAMA 1930;94:1221-1222.
- Fitz-Hugh T. Acute gonococcic peritonitis of the right upper quadrant in women. JAMA 1934;102:2094-2096.
- Müller-Schoop JW, Wang SP, Munzinger J, Schläpfer HU, Knoblauch M, Ammann RW. *Chlamydia trachomatis* as possible cause of peritonitis and perihepatitis in young women. Br Med J 1978;1:1022-1024.
- Joo SH, Kim MJ, Lim JS, Kim JH, Kim KW. CT diagnosis of Fitz-Hugh and Curtis syndrome: value of the arterial phase scan. Korean J Radiol 2007;8:40-47.
- Kimball MW, Knee S. Gonococcal perihepatitis in a male. The Fitz-Hugh--Curtis syndrome. N Engl J Med 1970;282: 1082-1083.
- Francis TI, Osoba AO. Gonococcal hepatitis (Fitz-Hugh-Curtis syndrome) in a male patient. Brit J Vener Dis 1972;48:187-188
- 7. Fung GL, Silpa M. Fitz-Hugh and Curtis syndrome in a man. JAMA 1981:245:128.
- Davidson AC, Hawkins DA. Pleuritic pain: Fitz Hugh Curtis syndrome in a man. Br Med J (Clin Res Ed) 1982;284:808.
- Winkler WP, Kotler DP, Saleh J. Fitz-Hugh and Curtis syndrome in a homosexual man with impaired cell mediated immunity. Gastrointest Endosc 1985;31:28-30.
- Owens S, Yeko TR, Bloy R, Maroulis GB. Laparoscopic treatment of painful perihepatic adhesions in Fitz-Hugh-Curtis syndrome. Obstet Gynecol 1991;78:542-543.
- 11. Counselman FL. An unusual presentation of Fitz-Hugh-Curtis syndrome. J Emerg Med 1994;12:167-170.
- Lee SC, Nah BG, Kim HS, et al. Two cases of Fitz-Hugh-Curtis syndrome in acute phase. Korean J Gastroenterol 2005;45:137-142.
- 13. Chung HJ, Choi KY, Cho YJ, et al. Ten cases of Fitz-Hugh-Curtis syndrome. Korean J Gastroenterol 2007;50:328-333.
- Yang HW, Jung SH, Han HY, et al. Clinical feature of Fitz-Hugh-Curtis syndrome: analysis of 25 cases. Korean J Hepatol 2007;14:178-184.
- Ham YC, Lee KL, Shin DG, et al. Clinical experience of Fitz-Hugh-Curtis syndrome. J Korean Surg Soc 2009;76:36-42
- Wang SP, Eschenbach DA, Holmes KK, Wager G, Grayston JT. *Chlamydia trachomatis* infection in Fitz-Hugh-Curtis syndrome. Am J Obstet Gynecol 1980;138:1034-1038.
- 17. Ross JD, Jensen JS. *Mycoplasma genitalium* as a sexually transmitted infection: implications for screening, testing, and

- treatment. Sex Transm Infect 2006;82:269-271.
- 18. Taylor-Robinson D, Horner PJ. The role of Mycoplasma genitalium in non-gonococcal urethritis. Sex Transm Infect 2001;77:229-231.
- 19. Nishie A, Yoshimitsu K, Irie H, et al. Fitz-Hugh-Curtis syndrome. Radiologic manifestation. J Comput Assist Tomogr 2003;27:786-791.