

# 불명열의 원인으로 진단된 간의 염증성 가성종양 1예

연세대학교 의과대학 내과학교실<sup>1</sup>, 에이즈 연구소<sup>2</sup>, 병리학교실<sup>3</sup>  
 김연아<sup>1</sup> · 이정은<sup>1</sup> · 신소연<sup>1,2</sup> · 최준용<sup>1,2</sup> · 박윤선<sup>1,2</sup> · 김창오<sup>1,2</sup>  
 윤희정<sup>1,2</sup> · 박윤수<sup>1,2</sup> · 송영구<sup>1,2</sup> · 박영년<sup>3</sup> · 김준명<sup>1,2</sup>

## A Case of Inflammatory Pseudotumor in the Liver as a Cause of Fever of Unknown Origin

Yeon-A Kim, M.D.<sup>1</sup>, Jung Eun Lee, M.D.<sup>1</sup>, So Youn Shin, M.D.<sup>1,2</sup>, Jun Yong Choi, M.D.<sup>1,2</sup>  
 Yoon Seon Park, M.D.<sup>1,2</sup>, Yoon Soo Park, M.D.<sup>1,2</sup>, Chang Oh Kim, M.D.<sup>1,2</sup>, Hee Jung Yoon, M.D.<sup>1,2</sup>  
 Young Goo Song, M.D.<sup>1,2</sup>, Beom Jin Lim, M.D.<sup>3</sup>, Young Nyun Park, M.D.<sup>3</sup>, and June Myung Kim, M.D.<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Departments of Internal Medicine, <sup>2</sup>AIDS Research Institute, <sup>3</sup>Department of Pathology  
 Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Inflammatory pseudotumor is a rare benign tumor, which is histologically composed of stroma with connective tissue and mixed infiltration of lymphocytes, plasma cells, and histiocytes. We experienced a case of inflammatory pseudotumor in the liver diagnosed through the work up of fever of unknown origin (FUO). During the evaluation of FUO, well-encapsulated and hypervascular mass was found in the right lobe of the liver and we confirmed inflammatory pseudotumor through histological findings. This is the first report of pseudotumor in the liver as a cause of fever of unknown origin in Korea.

**Key Words** : Inflammatory pseudotumor, Liver, Fever of unknown origin

### 서론

가성종양은 조직학적으로 섬유성 기질내에 림프구, 조직구, 형질세포 등의 만성 염증세포 침윤을 특징으로 하는 양성 병변이다(1). 빈도수가 드문 질환이며, 임상적으로 특이한 증상이 없기 때문에 흔히 다른 질환으로 오인되는 경우가 많다(2).

국내에서도 여러 조직에서의 염증성 가성 종양에 대한 보고들이 있으나, 조직학적 검사 이외에는 진단 기준이 없기 때문에 대부분의 경우가 다른 질환으로 오인되다가, 조직검사를 통해 진단이 내려지게 된다(2). 특히 간에 발생하는 경우, 방사선학적 특징이 원발성 간암과 유사하여 자주 간암으로 오진되기도 하며, 발열, 상복부 압통 등의

증상으로 인해 간농양으로 오진되기도 한다(3).

염증성 가성 종양은 발열을 흔히 주증상으로 동반하고 있으나, 불명열의 감별진단으로 염증성 가성 종양이 포함되는 경우는 드물다(4). 저자들은 발열을 주소로 내원하여 불명열에 대한 검사를 시행하는 과정 중에 간에 발생한 염증성 가성종양을 진단하고 수술로 치유한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례

66세 남자가 4개월간의 체중 감소와 2개월간의 간헐적 발열을 주소로 입원하였다. 환자는 당뇨병 및 고혈압의 기왕력이 있었으나 가족력 및 사회력에서 특이 사항은 없었다. 체중 감소, 간헐적인 발열을 주소로 외부 병원에 내원하였으나 열의 원인을 찾지 못하여 본원에 내원하였다.

입원 당시 의식은 명료하였으며 만성 병색을 띄었으며 혈압은 110/70 mmHg, 맥박수 분당 80회, 체온 38.0°C 이

Submitted 2 February, 2005, accepted 17 May, 2005  
 Correspondence : June Myung Kim, M.D.  
 Department of Internal Medicine, College of Medicine, Yonsei University  
 134 Shinchon-dong, Sedaemoon-gu, Seoul, 120-752, Korea  
 Tel : +82-2-361-5431, Fax : +82-2-393-6384  
 E-mail : jmkim@yumc.yonsei.ac.kr

었다. 공막에 황달은 없었으며 흉부 진찰시 호흡음은 깨끗하였고 심잡음은 없었다. 복부 진찰 소견상 압통은 없었으며 간과 비장은 촉지되지 않았다. 혈액검사상 백혈구  $8,680/\text{mm}^3$  (중성구 78.2%, 림프구 14.9%, 단핵구 4.7%, 호산구 0.8%, 호염기구 0.3%), 혈색소 9.3 mg/dL, 혈소판  $588,000/\text{mm}^3$ 이었고, 적혈구 침강 속도 97 mm/hr로 증가되어 있었다. 혈청 생화학 검사상 AST 27 IU/L, ALT 23 IU/L, ALP 120 IU/L, 총단백 6.8 g/dL, 알부민 2.6 g/dL, 총 빌리루빈 0.3 mg/dL이었다. 대변검사서 기생충 등도 없었다. 항핵항체 1:40 음성, C-reactive protein 8.18 mg/dL이었다. 내원 당시 시행한 혈액 배양 검사상 동정된 균주는 없었다. 내원 5일째 불명열에 대한 검사로 시행한 복부 전산화 단층 촬영 검사 및 자기 공명 영상 (Figure 1) 시행 결과 간의 종괴가 발견되었다. HBs Ag은 음성이었고 anti-HBc 68 IU/L, anti-HCV는 음성이었으며  $\alpha$ -fetoprotein ( $\alpha$ FP)은 3.95 ng/mL이었다.

간의 우엽에 5.6 cm 크기의 과혈관성 종괴 소견 및 조영 증강이 잘 되는 병변이 관찰되어 간암 의심 하에 내원 7일째 간동맥 조영술 시행하였으나 과혈관성 종괴는 관찰되지 않았다. 이후에도 발열이 지속되어 3세대 세파로스포린계의 항생제로 10일간 치료하였으나 호전되지 않았고 내원 11일째 검사한 혈액검사상 백혈구  $7,542/\text{mm}^3$  (중성구 78%, 림프구 13.0%, 단핵구 5.7%, 호산구 0.9%, 호염기구 0.2%), 혈색소 9.9 mg/dL, 혈소판  $491,000/\text{mm}^3$ ,

적혈구 침강 속도 51 mm/hr 이었으며, 혈액 배양 검사상 특이 소견 없었다. 이 외에 객담 항산균 검사, 소변 및 객담 배양 검사, 방사선펙스캔 검사 등을 시행하였으나 이상 소견이 발견되지는 않았다. 이후 매일  $38^\circ\text{C}$  이상의 발열이 지속되었으며 내원 23일째에 복강경을 이용한 조직검사를 시행하였다.

조직병리 소견상 섬유화 병변에 주로 형질세포들의 침윤을 보이는 염증성 가성 종양의 소견을 보였다(Figure 2). 이에 간에 발생한 염증성 가성종양으로 진단하고

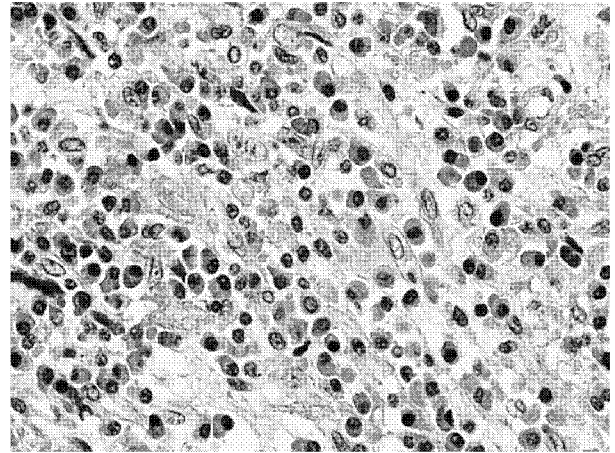


Figure 2. H & E staining ( $\times 400$ ) of the liver shows marked infiltration of lymphoplasmic cells and some lymphocytes without cytologic atypia.

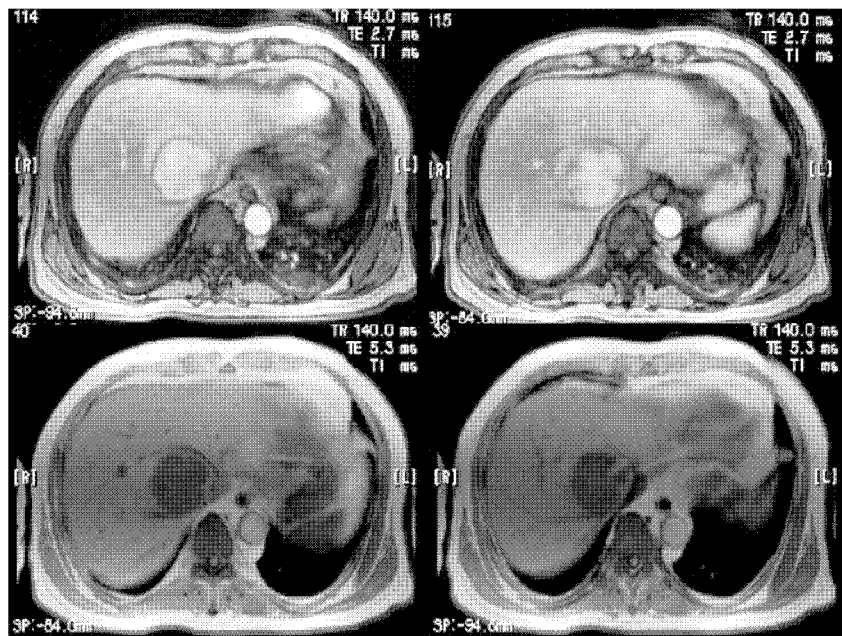


Figure 1. Abdomen MRI scan shows a 5.6 cm sized relatively well-encapsulated and hypervascular mass on S8 in the right lobe of the liver.

non-steroidal anti inflammatory drug (NSAID)를 3일간 투여중 발열 증상이 소실되어 7일간 관찰후 퇴원하였다. 퇴원 1개월 후 다시 발열 증상을 보여 재입원 하였다. 내원 10일째 간 부분 절제술을 시행 하였다. 절제된 간조직의 현미경 소견은 림프구와 형질세포 등의 만성 염증세포의 침윤이 관찰되었으며 면역조직 화학 검사상  $\kappa$ ,  $\lambda$  염색에서 이질적으로 양성 소견을 보여, 균일적으로 양성을 보이는 림프구 질환과 감별하였다.

수술 6개월 후 시행한 복부 전산화 단층 촬영상 종괴의 재발 소견은 없었으며, 현재 발열 증상 없이 외래 추적 관찰 중이다.

## 고 찰

발열은 병원을 내원한 환자들이 호소하는 대표적인 증상 중 하나이다. 발열환자에서 일정 기간 동안 병원에서의 검사를 통하여도 그 원인을 밝힐 수 없는 경우를 불명열이라 하게 되는데, 점차 새로운 검사 방법들이 개발되면서 그 원인들이 많이 밝혀지고 있다(4). 성인에게 있어서 불명열의 흔한 원인으로는 감염 질환, 교원성 질환, 악성 질환, 기타 질환, 원인을 알 수 없는 경우 등이 있다(5). 국내에서도 이와 같은 보고들이 있으며, 시대에 따라서 1980년대에 비하여 1990년대에 불명열의 원인으로 악성질환과 교원성 질환의 빈도가 증가 하였고 감염질환의 빈도는 감소한 것으로 되어 있다(6).

국내에서 불명열의 원인을 조사한 몇몇 보고들이 있으나, 불명열의 원인으로 염증성 가성 종양이 제시된 경우는 폐에서의 1예를 제외하고는 없었다(4). 본 증례는 발열을 주소로 내원한 환자에서 불명열의 원인으로 간의 염증성 가성종양을 진단한 경우이다.

염증성 가성종양은 조직학적으로 섬유성 기질내에 림프구, 조직구, 형질세포 등의 만성 염증세포 침윤을 특징으로 하는 양성 병변이다(1). 염증성 가성종양은 1940년대 처음으로 폐에서 보고된 이후 현재까지 폐에서 가장 많이 보고되었고 간의 염증성 가성종양은 1953년 처음 보고 되었다(7). 이후 안와, 위, 췌장, 비장, 이하선, 흉막, 심장, 뇌, 뇌막, 난소, 후복막에 생긴 염증성 가성종양도 보고되었다(7).

간의 염증성 가성종양은 생후 9개월에서부터 83세까지 다양한 연령에서 보고되고 있으나 평균 연령은 30대 중반이며 남자에게서 많이 발생한다(8). 발생기전과 원인은 정확히 알려져 있지는 않으나 감염이 한 원인으로 추측되는데 일부 증례에서는 *Klebsiella pneumoniae*, *Actino-*

*myces species*, *Escherichia coli*를 원인 균주로 보고하였고, 그 외 전암 병변이라는 가설도 있다(7, 8). 임상적으로 비특이한 증상을 나타내므로, 내원 당시 흔히 다른 질환으로 오인되는 경우가 많다. 대개 수주에서 수개월간 지속되는 간혈열, 구토 또는 설사, 복부 동통, 체중감소를 보이며 신체 검사상 간과 비장의 비대, 우상복부의 압통을 동반한다(7). 방사선학적으로 염증성 가성 종양에 대한 진단적 가치가 있는 특이 소견은 없으며 악성 종양, 간선종, 간농양과의 감별이 필요하다(9). 진단은 조직학적 소견으로 할 수 있으며 염증성 가성종양의 조직학적 특징은 기질이 경화되고 나선형으로 층상 배열되는 섬유화 소견과 주로 형질세포를 포함하며, 림프구, 조직구, 형질세포등의 세포들의 침윤이 흔해지는 만성 염증 소견을 보이며 종괴 병변 주위의 간조직은 정상 소견을 보인다(1).

Randell 등(10)은 불명열을 주소로 내원한 환자에서 염증성 가성 종양이 진단된 10예에 대한 연구에서 발열 기간은 최소 1주에서 최대 1년이었고, 복부 및 골반장기에 발병한 경우가 8예, 폐에 발병한 경우가 2예가 있다고 보고하였다. 국내 증례로는 최 등(4)이 불명열로 발현한 폐의 염증성 가성 종양 1예를 보고하였다. 그러나 국내에서 불명열로 발현한 간의 염증성 가성 종양은 보고된 예가 없다.

간에 발생한 염증성 가성종양의 치료 및 예후는 아직 잘 알려져 있지 않으나 대개 양성 경과를 밝게 된다(7). 이전에는 악성 질환으로 오인하여 대부분 외과적 절제술을 시행하였으나, 최근 수술 없이 항생제 치료, 대증적 치료만으로 호전된 경우가 보고된 것으로 보아 대증적 치료가 선행되어야 하며 추적 검사 후 항생제 치료에도 증상이 호전되지 않고 종괴의 감소 소견이 없을 때 외과적 절제술을 고려해야 한다(7). 본 증례도 염증성 가성 종양이 진단된후 대증적 요법으로 치료하였으나 발열이 호전되지 않아, 외과적 절제술을 시행하였다.

본 증례는 불명열을 주소로 내원한 환자에서 시행한 복부 전산화 단층 촬영 검사 및 자기 공명 영상에서 간 종괴가 발견되어, 조직검사를 시행하여 염증성 가성종양을 진단한 경우이다. 본 환자의 경우와 같이 불명열의 원인으로 간내에 발생한 염증성 가성 종양도 불명열의 원인이 될 수 있으므로, 이에 대한 가능성을 염두에 두어야 하겠다.

## 요 약

저자들은 발열을 주소로 내원하여 불명열에 대한 검사 중 간의 종괴를 발견하고 조직검사 시행 후 염증성 가성 종양으로 진단한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 국내 첫 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

- 1) Anthony PP, Telesinghe PU: *Inflammatory pseudotumor of the liver. J Clin Pathol* 39:761-8, 1986
- 2) Hosler GA, Steinberg DM, Sheth S, Hamper UM, Erozan YS, Ali SZ: *Inflammatory pseudotumor: Diagn Cytopathol* 31:267-70, 2004
- 3) Zamir D, Jarchowsky J, Singer C, Abumoch S, Groisman G, Ammar M, Weiner P: *Inflammatory pseudotumor of the liver: A rare entity and a diagnostic challenge: Am J Gastroenterol* 93:1538-40, 1998
- 4) Choi SY, Cho YK, Bai IK, Hong SS, Lee MS, Chung DR, Wo JH, Ryu LS: *Pulmonary Inflammatory Pseudotumor Presenting as Fever of Unknown Origin. Infect Chemother* 31:435-8, 1999
- 5) Woolery WA, Franco FR: *Fever of unknown origin: Keys to determining the etiology in older patients. Geriatrics* 59:41-5, 2004
- 6) Kim YK, Kim MS, Kkot Sil Lee, Huh AJ, Yeom JS, Sung Kwan Hong, Chang KH, Song YG, Kim JM: *A comparison of causes of fever of unknown origin between the 1980s and the 1990s. Korean J Med* 61:546-52, 2001
- 7) Papachristou GI, Wu T, Marsh W, Plevy SE: *Inflammatory pseudotumor of the liver associated with Crohn's disease: J Clin Gastroenterol* 38:818-22, 2004
- 8) Biecker E, Zimmermann A, Dufour JF: *Spontaneous regression of an inflammatory pseudotumor of the liver. Z Gastroenterol* 41:991-4, 2003
- 9) Alobaidi M, Shirkhoda A: *Benign focal liver lesions: discrimination from malignant mimickers: Curr Probl Diagn Radiol* 33:239-53, 2004
- 10) Fisher RG, Wright PF, Johnson JE: *Inflammatory pseudotumor as fever of unknown origin. Clin Infect Dis* 21:1492-4, 1995