간농양 환자에서 발생한 가성동맥류 형성을 동반한 다발성 감염성 동맥염

전남대학교 의과대학 내과학교실 순환기내과

이승헌 · 김계훈 · 조재영 · 안영근 · 정명호 · 조정관 · 박종춘

A Case of Multiple Infectious Arteritis Complicated by Pseudoaneurysm Formation in a Patient with Liver Abscess

Seunghun Lee, Kye Hun Kim, Jae Yeong Cho, Youngkeun Ahn, Myung Ho Jeong, Jeong Gwan Cho, and Jong Chun Park

Division of Cardiology, Department of Internal Medicine, Chonnam National University Medical School, Gwangju, Korea

Infectious arteritis is a rare complication of liver abscess, and infectious arteritis involving multiple arterial sites with pseudoaneurysm formation has not been described previously. A 74-year-old man treated for liver abscess complained of abdominal and neck pain. Abdominal computed tomographic angiography (CTA) revealed a decrease in the size of the liver abscess, but also disclosed a pseudoaneurysm in the distal descending thoracic aorta was newly noted. Neck CTA revealed arteritis with abscess formation in the left internal carotid artery (ICA). Follow-up CTA after antibiotic therapy showed a decrease in the size of the left ICA abscess and a significant increase in the size of the aortic pseudoaneurysm. To prevent the rupture of the pseudoaneurysm, an endovascular stent graft was used. The final CTA revealed the disappearance of the aortic pseudoaneurysm with good apposition of the grafted stent. The patient has been monitored for 3 years with no new clinical events. (Korean J Med 2015;88:570-575)

Keywords: Pseudoaneurysm; Liver abscess; Endovascular procedures

서 론

감염성 동맥염(infectious arteritis)은 혈관벽의 감염 및 염증성 반응으로 동맥벽의 비가역적 파괴가 일어날 경우 감염성 동맥류(infectious aneurysm) 또는 가성동맥류(pseudoaneurysm)를 유발할 수 있다. 감염성 동맥류는 그 유병률이 드물

다고 알려져 있으며, 대동맥(aorta)에 발생하는 경우는 전체 동맥류의 1.0-2.6% 정도를 차지한다고 알려져 있다[1]. 그러나 동맥류와 가성동맥류는 파열(rupture) 및 출혈이 발생할 경우 높은 사망률 및 나쁜 예후와 직접적인 연관이 있어 임상적으로 중요한 질환이다. 아직까지 간농양(liver abscess)과 연관되어 하행 흉부 대동맥과 내경동맥(internal carotid artery)

Received: 2014. 9. 4

Revised: 2014. 9. 23

Accepted: 2014. 10. 24

Correspondence to Kye Hun Kim, M.D., Ph.D.

Department of Internal Medicine, Chonnam National University Hospital, Chonnam National University Medical School, 42 Jebong-ro, Dong-gu, Gwangju 501-757, Korea

Tel: +82-62-220-6978, Fax: +82-62-223-3105, E-mail: christiankyehun@hanmail.net

Copyright © 2015 The Korean Association of Internal Medicine

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

에 다발성 감염성 동맥염 및 동맥류가 동시 발생한 보고는 없다. 따라서 저자들은 간농양으로부터 서로 다른 혈관에 동시 발생한 감염성 동맥염과 동맥류의 1예를 최초로 보고하고, 문헌고찰을 통해 치료법과 예후에 관하여 논하고자 한다.

증 례

환 자: 74세 남자

주 소: 7일 전부터 시작된 복부 및 좌측 경부 통증

현병력: 수년 전부터 제2형 당뇨병으로 치료 받고 있으나 최근 혈당은 잘 조절되는 상태였다고 하며 그 외에 특이 병력 없이 지내던 자로 발열과 황달을 동반한 복통으로 4주 전 처음으로 내원하였다. 당시 시행한 복부 전산화 단층촬영(Fig. 1A)에서 간의 제1구역에 최대 5.6 cm 크기의 농양이 관찰되었다. 간농양은 액화(liquefaction)가 충분히 이뤄지지 않았고 진입로가 척추체(vertebral body)로 막혀있을 뿐만 아니라 농양에 인접한 대혈관이 시술 중 손상될 가능성이 높아 경피적 배농술(percutaneous drainage)을 시행하지 못했다. 내원 전 타 병원에서 경험적 항생제를 사용했고 혈액 배양 검사에서는 동정된 원인 미생물이 없어 간농양 진단 시부터 경험적 정주 항생제(3세대 cephalosporin + metronidazole)를 사용하였다. 2주 동안 정주 항생제 투여 후 임상적으로 호전을 보여 경구 요법으로 변경하여 내원 2주 전 퇴원하였다. 퇴원

후 경구 항생제를 유지하던 중 내원 7일 전부터 복부 및 좌측 경부 통증이 새롭게 발생하였으며 점차 악화되어 다시 내원하였다.

과거력: 제2형 당뇨 진단 후 경구 혈당 강하제 투약 중이었으며 그 외에 특이 병력은 없음.

가족력 및 사회력: 특이사항 없음.

진찰 소견: 입원 당시 활력징후는 혈압 130/70 mmHg, 맥박 분당 70회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.2°C였다. 발열이나 발한 및 황달은 없었으며 체중 감소는 저명하지 않았다. 신체 검진에서 창백한 결막 소견은 관찰되지 않았다. 등과 복부의 압통이나 반발 압통은 없었고 간비장비대 소견이나 늑골척추각의 압통도 없었다.

검사실 소견: 일반 혈액 검사에서 백혈구 9,000/mm³ (호중구 66.6%, 림프구 22.5%, 단핵구 9.3%), 혈색소 10.7 g/dL, 혈소판 277,000/mm³였고 일반 화학 검사에서 알칼리성 인산분해효소(alkaline phosphatase, ALP) 105 U/L, AST/ALT 14/10 U/L, 총 빌리루빈(bilirubin) 0.83 mg/dL, 혈액요소질소(blood urea nitrogen, BUN) 9.3 mg/dL, 크레아티닌(creatinine) 0.7 mg/dL, C-반응단백질(C-reactive protein) 10.6 mg/dL로 측정되었다. 혈액 배양 검사를 두 쌍 시행하였으나 특정 미생물이 동정되지 않았다.

영상학적 소견: 흉부 및 복부 X-선 검사에서는 특이소견이 관찰되지 않았다. 복부 전산화 단층촬영 혈관조영술에서

Figure 1. Abdominal computed tomographic angiography (CTA) revealed heterogeneous enhancing, multiple-clustered, cystic-mass lesions. (A) They were approximately 5.6 cm in size with peripheral wall enhancement in the caudate lobe of the liver, suggesting abscess formation (arrowheads). The liver abscess was located between the portal vein (white arrow) and inferior vena cava (black arrow) without affecting the thoracic or abdominal aorta. (B) A follow-up abdominal CTA after 4 weeks of antibiotic treatment showed marked improvement with an ill-defined remaining small abscess measuring 1.9 cm in diameter (arrow).

기존에 관찰되었던 제1 구역의 간농양은 호전되어 약 1.9 cm의 경계가 불분명한 저음영(low attenuated) 병변으로만 관찰되고 있었다(Fig. 1B). 하행 흉부 대동맥에 침투성궤양(penetrating ulcer)을 동반한 1.2×2.2 cm 크기의 가성동맥류가 새롭게 관찰되었다(Fig. 2A and 2B). 경부 전산화 단층촬영 혈관조영술에서는 좌측 내경동맥(internal carotid artery)에 동맥염과 최대 0.9 cm 크기의 농양 형성 소견을 보였다(Fig. 2C and 2D).

치료 및 임상경과: 간농양으로부터 하행 흉부 대동맥 및 내경동맥에 감염성 동맥염이 발생했고 대동맥에는 감염성 가성동맥류까지 형성된 것으로 진단했으며 3세대 cephalosporin과 metronidazole 병합 요법으로 정주 항생제 치료를 다시 시작하였다. 보존적 치료로 통증 조절과 함께 혈압을 120/80

mmHg 미만, 맥박을 분당 60회 미만으로 유지하기 위하여 칼슘채널 차단제(calcium channel blocker)와 안지오텐신 수용체 차단제(angiotensin receptor blocker)를 투약하였다. 재내원 당시부터 4주간 정주 항생제 치료 후 추적 복부 전산화 단층 혈관조영술을 시행하였으며 하행 흉부 대동맥의 가성동맥류 크기가 1.6×2.5 cm로 현저하게 증가하였다(Fig. 3A and 3C). 기존에 관찰되었던 좌측 내경동맥의 감염성 동맥염과 농양은 호전된 상태였다. 가성동맥류의 크기 증가로 인한 파열의 가능성이 있어 혈관 내 스텐트 삽입술을 시행하기로 결정하였다. 시술은 부분 마취로 진행되었으며 양측 대퇴동맥(femoral artery)을 천자하였고 혈관조영술을 시행하여 혈류 상태를 확인하였다. 돼지꼬리모양 도관(pigtail catheter)을 통하여 대동맥 조영술을 시행하여 가성동맥류의 위치를 확인하였다.

Figure 2. (A, B) A de novo penetrating ulcer measuring 1.2×2.2 cm with pseudoaneurysm formation (arrows) of the distal descending thoracic (arrowhead) aorta was noted. (C, D) The neck computed tomographic angiography revealed a small ulcerative plaque and wall calcification in the left proximal internal carotid artery (arrow) with perivascular soft tissue infiltrations and an abscess formation measuring 0.9×0.5 cm (arrowheads).

Amplatz stiff wire (Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) 유도하에 직경 28 mm, 길이 11 cm의 스텐트 이식편(Valiant® thoracic stent graft, Medtronic, Minneapolis, MN, USA)을 삽입하였다. 스텐트 삽입 후 대동맥 조영술에서 혈관 누출(endoleak) 등의 합병증은 관찰되지 않아 시술을 종료하였다. 시술 후 전산화 단층 혈관조영술상에서 가성동맥류는 더 이상 관

찰되지 않았으며 스텐트 이식편은 잘 위치해 있었고 특별한 합병증은 관찰되지 않았다(Fig. 3B and 3D). 정주 항생제는 시술 후 8주를 추가로 투여하여 총 12주간 추가로 투여했고, 이후로 3년간의 추적 관찰에서 재발이나 대동맥 스텐트로 인한 합병증은 관찰되지 않고 있다.

Figure 3. (A, C) Follow-up abdominal computed tomographic angiography showed increased size of the pseudoaneurysm (arrow) of the distal descending thoracic aorta. (B, D) The disappearance of the aortic pseudoaneurysm was noted following successful deployment of an endovascular stent (arrows).

고 찰

본 환자에서는 간농양에서 시작된 균의 혈행성 전파로 인하여 다발성 감염성 동맥염이 발생했고, 감염 및 염증반응으로 결국에는 혈관벽이 파괴되어 가성동맥류의 형태로 동맥류가 발생한 것으로 생각된다. 특히 간농양의 위치가 간문맥(portal vein)과 하대정맥(inferior vena cava)에 밀접하게 위치해 있어 동맥혈류 내로 균의 접종이 쉽게 일어났을 것으로 생각되며, 경피적 배농술을 통하여 원발 감염 병소를 적절하게 조절하지 못한 것이 원격 감염을 유발한 원인으로 생각된다. 감염성 동맥류는 체내의 모든 동맥에서 발생할 수 있으며, 최근에는 경피적 중재술을 포함한 침습적 시술의 빈도가 증가함에 따라 대동맥의 발생률이 증가하는 추세를 보이고 있는데 전체 환자의 약 5%에서 두개의 동맥, 33%에서는 흉부 또는 복부 대동맥에서 발생한다[2]. 앞서 언급한 바대로 저자들의 문헌 조사에 따르면 국내는 물론 해외에서도 아직까지 간농양으로 인하여 동시 다발성 동맥염이 발생하고 이로 인하여 대동맥의 감염성 가성동맥류가 발생한 사례는 없었으므로 본 증례는 학술적으로 의미 있는 보고라고 생각된다.

일반적으로 감염성 동맥류는 항생제를 포함하는 약물 치료와 함께 수술적 방법을 통하여 감염된 동맥류와 주변 조직을 제거하는 것이 주요한 치료로 알려져 있으나[1,2] 적극적인 수술적 치료에도 불구하고 사망률은 11-75%로 다양하게 보고되고 있다[1,3-6]. 약물 치료 단독 또는 수술적 치료 단독 요법만으로는 감염 병소를 조절하기에 적절하지 않다. 감염성 동맥류는 고령, 면역 저하자 등에서 잘 발생하므로 이러한 환자들에서 수술 시행에 대한 결정을 내리기가 쉽지 않다. Sedivy 등[7]은 수술이 어려운 환자에서 혈관 내 스텐트 삽입술이 수술을 대체할 수 있는 치료법이라고 보고하였다. 본 증례에서 환자는 고령으로 수술적 치료를 지양하고 있어 약물 치료를 먼저 시도했고 추적 검사에서 내경동맥의 병변은 호전되었으나 하행 흉부 대동맥의 감염성 가성동맥류의 크기가 증가하여 동맥류 파열을 예방하기 위하여 스텐트 이식편을 삽입하였다. 가성동맥류의 크기가 크지 않았고 위치를 고려하였을 때 스텐트 이식편 삽입으로 인하여 다른 중간 크기 동맥들의 기시부 폐쇄를 유발할 가능성이 낮아 혈관 내 스텐트 삽입술을 시행하기에 적절했다고 생각된다.

균의 병독성(virulence)에 따라 감염성 동맥염 및 동맥류나

가성동맥류를 유발하는 정도가 다를 수는 있으나 현재까지 알려진 바로는 *Salmonella species*, *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus species* 및 gram-negative bacilli 등 다양한 종류의 미생물이 이를 유발한다고 알려져 있다[1,2,6,7]. 감염성 동맥류는 원인균에 대한 적절한 항생제 치료를 통하여 사망률을 낮출 수 있어 이를 규명하기 위해 최선을 다해야 한다[7]. 혈액 배양 검사는 수술적 치료 전후로 모두 높은 양성률을 보인다고 알려져 있으며 일부 문헌에서는 그 양성률을 79-88% [1,7]로 보고하고 있으나 본 환자에서는 혈액 배양 검사 결과에서 동정된 특이 미생물은 없었다. 따라서 저자들은 항생제 치료에서 현재까지 보고된 간농양의 원인 미생물 중 가장 가능성이 높은 미생물을 고려하였다. 국내에서는 *Klebsiella pneumoniae*에 의한 원발성 간농양이 가장 흔하다고 알려져 있다[8]. *Klebsiella*는 당뇨, 음주자, 악성종양 등으로 인하여 면역력이 저하된 환자들의 일부에서 다양한 원격 감염을 유발할 수 있는 것으로 잘 알려져 있다. 한편 Sedivy 등[7]과 Dubois 등[1]이 감염성 동맥류 환자의 원인 미생물을 분석했을 때 *K. pneumoniae*가 각각 3.1% (1/32)와 2.3% (1/44)의 환자에서 그 원인으로 밝혀졌다. 국내에서도 *K. pneumoniae*에 의한 원발성 간농양과 연관된 감염성 동맥류가 보고된 바가 있으며[9,10] 본 환자의 임상적 상황을 고려했을 때 원인 미생물로 가능성이 높을 것으로 생각되었다. 저자들은 이에 3세대 cephalosporin과 metronidazole을 다시 투여했는데 기존에 사용했던 경험적 항생제 요법이 원인 미생물에 충분한 감수성을 가지나 치료 기간이 불충분했던 것으로 판단하였다. 아직까지 간농양에서 기인한 감염성 동맥염과 동맥류에서 적절한 항생제 치료 기간은 확립되지 않았다. 일부 문헌에 따르면 감염성 동맥류에서 혈관 내 스텐트 삽입술을 시행한 이후 4-8주간 항생제 치료를 시행했다고 보고한 바 있다[7]. 본 환자에서처럼 불충분한 치료 기간으로 인하여 새로운 원격 감염이 재발하는 경우를 사전에 방지하기 위해서는 충분한 기간 동안 항생제를 사용해야 하며 항생제 종료 여부는 반드시 임상적 호전과 검사실 및 영상학적 소견상 호전이 뒷받침되어야 할 것이다. 감염 병소 조절이 적절하게 이뤄졌다면 항생제 연관 부작용이나 내성 균주의 출현 가능성을 염두에 두고 가급적 항생제 치료 기간을 줄이는 것이 바람직할 것으로 생각되나 이에 대해서는 추가적인 연구가 이루어져야 할 것이다.

요 약

감염성 동맥염과 가성동맥류는 매우 드물고 예후가 좋지 않으며 간농양의 합병증으로 발생할 수 있으나 아직까지 다발성으로 발생한 사례는 보고되지 않았다. 74세 남자 환자가 간농양으로 치료 받던 중 복부 통증과 경부 통증을 호소하여 시행한 전산화 단층촬영 혈관조영술상 간농양은 호전되었으나 하행 흉부 대동맥과 좌측 내경동맥의 감염성 동맥염 및 하행 흉부 대동맥의 감염성 가성동맥류가 진단되었다. 4주간의 항생제 치료 후 추적 검사에서 내경동맥 동맥염과 농양은 호전되었으나 대동맥의 가성동맥류는 그 크기가 유의하게 증가하였다. 저자들은 가성동맥류의 파열을 예방하기 위하여 혈관 내 스텐트 이식편을 삽입했고 8주간의 추가 항생제 치료를 시행함으로써 성공적으로 이를 치료하였다.

본 증례를 통하여 간농양과 연관된 원격 감염의 형태로 동맥염 및 감염성 가성동맥류가 동시 다발적으로 다양한 혈관에 발생할 가능성이 있음을 확인할 수 있었다. 감염성 동맥염이나 가성동맥류가 진단된 환자에서 다른 부위의 증상을 호소한다면 원격 감염의 가능성을 염두에 두고 추가적인 검사를 고려해야 할 것이다. 가성동맥류의 파열이 일어나는 경우에는 높은 사망률과 나쁜 예후와 연관이 있기 때문에 감염성 가성동맥류의 진단 시부터 수술 또는 혈관 내 스텐트 삽입술을 고려해야만 한다. 과거에는 주로 수술을 통한 감염병소의 조절이 이루어졌지만 본 환자에서처럼 적절한 항생제 치료와 함께 혈관 내 스텐트 삽입술을 시행한다면 장기 추적 관찰에서 예후가 좋을 수 있다. 따라서 수술을 시행할 수 없는 환자들에게 혈관 내 스텐트 삽입술은 좋은 치료 대안이 될 것으로 생각된다.

중심 단어: 가성동맥류, 간농양, 혈관 내 시술

REFERENCES

1. Dubois M, Daenens K, Houthoofd S, Peetermans WE, Fournau I. Treatment of mycotic aneurysms with involvement of the abdominal aorta: single-centre experience in 44 consecutive cases. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2010;40:450-456.
2. Ohta T. Infected aneurysms. *Intern Med* 2000;39:875-876.
3. Kyriakides C, Kan Y, Kerle M, Cheshire NJ, Mansfield AO, Wolfe JH. 11-year experience with anatomical and extra-anatomical repair of mycotic aortic aneurysms. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2004;27:585-589.
4. Müller BT, Wegener OR, Grabitz K, Pillny M, Thomas L, Sandmann W. Mycotic aneurysms of the thoracic and abdominal aorta and iliac arteries: experience with anatomic and extra-anatomic repair in 33 cases. *J Vasc Surg* 2001;33:106-113.
5. Ihaya A, Chiba Y, Kimura T, Morioka K, Uesaka T. Surgical outcome of infectious aneurysm of the abdominal aorta with or without SIRS. *Cardiovasc Surg* 2001;9:436-440.
6. Hsu RB, Chen RJ, Wang SS, Chu SH. Infected aortic aneurysms: clinical outcome and risk factor analysis. *J Vasc Surg* 2004;40:30-35.
7. Sedivy P, Spacek M, El Samman K, et al. Endovascular treatment of infected aortic aneurysms. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2012;44:385-394.
8. Lim SW, Lee EJ, Lee SW, et al. Clinical significance of *Klebsiella pneumoniae* in liver abscess. *Korean J Gastroenterol* 2003;42:226-231.
9. Kim JH, Kim JE, Back SY, et al. A case of *Klebsiella pneumoniae* liver abscess which progressed to pyomyositis and infected aneurysm of aorta. *Infect Chemother* 2008;40:341-345.
10. Kim SG, Park DK, Koo YS, et al. A case of infected abdominal aortic aneurysm associated with liver abscess treated by endovascular stent. *Korean J Med* 2001;61:151-155.