

CASE REPORT

## 장 계실염에 동반된 녹농균 패혈증에 의한 문맥염 및 간 농양 1예

문윤권, 손성완, 김민아, 김인수, 김용희, 정일순<sup>1</sup>, 고병성<sup>1</sup>

가톨릭대학교 의과대학 내과학교실, 청주성모병원 내과<sup>1</sup>

### A Case of Pylephlebitis with *Pseudomonas aeruginosa* Sepsis and Liver Abscess Secondary to Diverticulitis

Yoon Gwon Mun, Seong Wan Son, Minah Kim, Insoo Kim, Yong Hee Kim, Il Soon Jung<sup>1</sup>, and Byeong Seong Ko<sup>1</sup>

Department of Internal Medicine, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Department of Internal Medicine, Cheongju St. Mary's Hospital, Cheongju<sup>1</sup>, Korea

Pylephlebitis, or suppurative thrombophlebitis of the portal venous system, is a rare condition occurring secondary to abdominal infections such as diverticulitis. Pylephlebitis can be diagnosed via ultrasonography or CT scan, and is characterized by the presence of a thrombus in the portal vein and bacteremia. However, the diagnosis may be delayed due to the vague nature of the clinical symptoms, causing morbidity and mortality due to pylephlebitis to remain high. Early diagnosis and immediate antibiotic therapy are important for favorable prognosis. Therefore, pylephlebitis should be considered in the differential diagnosis for cases of nonspecific abdominal pain and fever. We report a case of pylephlebitis secondary to diverticulitis, associated with *Pseudomonas aeruginosa* sepsis. Such cases have not been widely reported. (**Korean J Gastroenterol 2016;67:327-331**)

**Key Words:** Thrombophlebitis; Diverticulitis; Sepsis; Liver abscess

## 서 론

문맥염은 매우 드문 질환으로 장간막 정맥환류를 제공하는 장관의 감염에 의해 이차적으로 발생하는 간문맥과 그 분지에 발생하는 패혈성 정맥혈전염이다. 문맥염을 일으키는 복강 내 질환의 원인으로 충수돌기염, 대장 계실염, 담낭염, 염증성 장 질환, 화농성 췌장염, 악성 종양 등이 있다. 증상이 다양하고 비특이적이어서 진단이 어려우며, 현대 방사선학적 영상 기법의 보조와 항생제 치료의 진전에도 불구하고 높은 치사율을 보이고 있어 조기 진단과 적절한 치료가 요구된다.<sup>1</sup>

문맥염의 혈액 배양에서 흔히 동정되는 균은 streptococci, *Klebsiella pneumoniae*, *Bacteroides fragilis* 등이 있다.<sup>2</sup> 녹농균(*Pseudomonas aeruginosa*)은 병원 내 감염 및 원내 감

염의 주요 균주로 폐렴, 요로 감염, 연조직 감염 및 패혈증 등 중증 감염을 일으키며 이환율과 치사율이 높다.<sup>3</sup> 저자들은 장 계실염에 동반된 녹농균 패혈증에 의하여 문맥염 및 간 농양이 발생한, 세계적으로 보고된 적 없는 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

42세 남자 환자가 내원 5일 전부터 시작된 복부 통증 및 설사를 주소로 내원하였다. 환자 당뇨, 결핵, 간염 등의 과거력은 없었으며 이전 수술력도 없었다. 하루 소주 1병씩 주 2회 20여 년간 마신 음주력이 있으며 흡연력은 없었다. 내원 시 활력징후는 혈압 126/64 mmHg, 맥박수 142회/분, 호흡수

Received March 9, 2016. Revised April 18, 2016. Accepted May 3, 2016.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited. Copyright © 2016. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 정일순, 28323, 청주시 청원구 주성로 173-19, 청주성모병원 내과

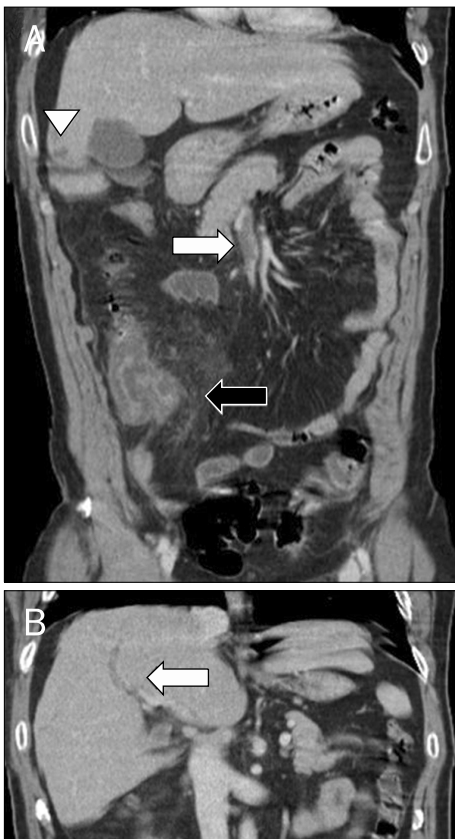
Correspondence to: Il Soon Jung, Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Cheongju St. Mary's Hospital, 173-19 Juseong-ro, Cheongwon-gu, Cheongju 28323, Korea. Tel: +82-43-219-8076, Fax: +82-43-219-9030, E-mail: isle2001@gmail.com

Financial support: None. Conflict of interest: None.

22회/분, 체온 39.1°C였으며, 의식은 명료하였고 급성 병색 소견을 보였다. 신체 검진에서 심음 및 호흡음은 정상이었다. 복부는 유연하고 평탄하였으며 복부 전반의 압통이 관찰되었으나 반발통은 없었다. 간이나 비장은 만져지지 않았고, 능직 추각 압통은 없었다. 말초혈액검사서 백혈구 수 19,050/mm<sup>3</sup> (호중구 91.2%, 림프구 4.8%), 혈색소 15.5 g/dL, 헤마토크리트 42.9%, 혈소판 96,000/mm<sup>3</sup>이었다. 생화학검사서 혈액요소 질소 41.0 mg/dL, 크레아티닌 1.8 mg/dL, 알부민 2.6 g/dL, 총 빌리루빈 2.2 mg/dL, AST 234 IU/L, ALT 305 IU/L, 젖산 탈수소효소 264 U/L, C-반응성 단백질 159.4 mg/L (정상범위: <5.0 mg/L), 총 콜레스테롤 256 mg/dL, 트리글리세라이드 461 mg/dL, 고밀도지질단백 34 mg/dL, 저밀도지질단백 129 mg/dL로 측정되었다. 요검사서 pH 5.0, 요비중 1.019, 단백뇨 4+, 혈색소뇨 2+, 적혈구 5-10/HPF, 백혈구 3-5/HPF, 아질산염 음성이었다. 프로트롬빈 시간과 활성 부분 프로트롬

빈 시간은 각각 13.2초, 30.4초로 모두 정상 범위였다. B형간염 표지자, C형간염 표지자, anti-HIV 항체 모두 음성이었다. 흉부 및 복부 엑스선 검사에서 이상 소견은 없었다.

감염성 대장염이 의심되어 내원 당일부터 경험적 항생제 치료로 ciprofloxacin (400 mg/회, 1일 1회)을 정주하였다. 입원 당일 시행한 복부 전산화단층촬영에서 말단 회장부, 맹장 및 상행 결장의 벽의 비후가 있으며 맹장 및 상행 결장의 계실이 관찰되어 감염성 장염, 계실염, 염증성 장질환, 허혈성 장염 등이 의심되었다(Fig. 1A). 이와 함께 우문맥(Fig. 1B) 및 상장간막 정맥의 혈전증이 관찰되었으며, 간 우엽에 경계가 모호한 저음영의 병변이 관찰되고 간 실질 가장자리의 둔감(blunting) 및 비장 비대 소견으로 간 농양과 만성 간질환이 의심되었다(Fig. 1A). 응고 장애 감별을 위해 시행한 lupus anticoagulant, anticardiolipin antibody, antinuclear antibody 모두 음성이었으며, C 단백 활성도 60% (정상범위: 73-142%), S 단백 활성도 57% (정상범위: 60-140%)였다. 혈

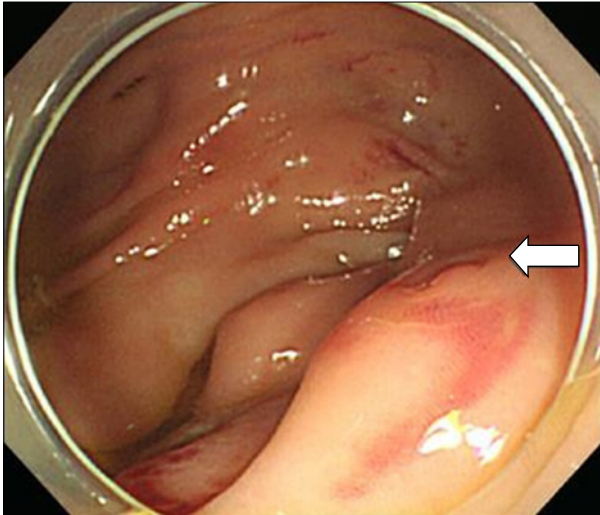


**Fig. 1.** (A) Contrast-enhanced abdominal and pelvic CT scans taken at admission. Low attenuation thrombi are visible in the superior mesenteric vein (white arrow). There is diffuse thickening of the cecum and ascending colon walls, associated with inflammation in the diverticula and pericolic fat. Diverticulitis can be seen at the black arrow and an ill-defined low density lesion is in the right liver parenchyma (arrowhead). (B) Low attenuation thrombi are visible in the right portal vein (white arrow).



**Fig. 2.** (A) Abdominal and pelvic CT scans, seven days after admission. Multiple thrombi are visible in the ileocolic vein and in the superior mesenteric vein (white arrows). The intensity of the inflammation in the cecum and the ascending colon has increased (black arrow), while the size of the low-density lesion in the right liver parenchyma has decreased (arrowhead). (B) Multiple thrombi are visible in the right portal vein (white arrow).

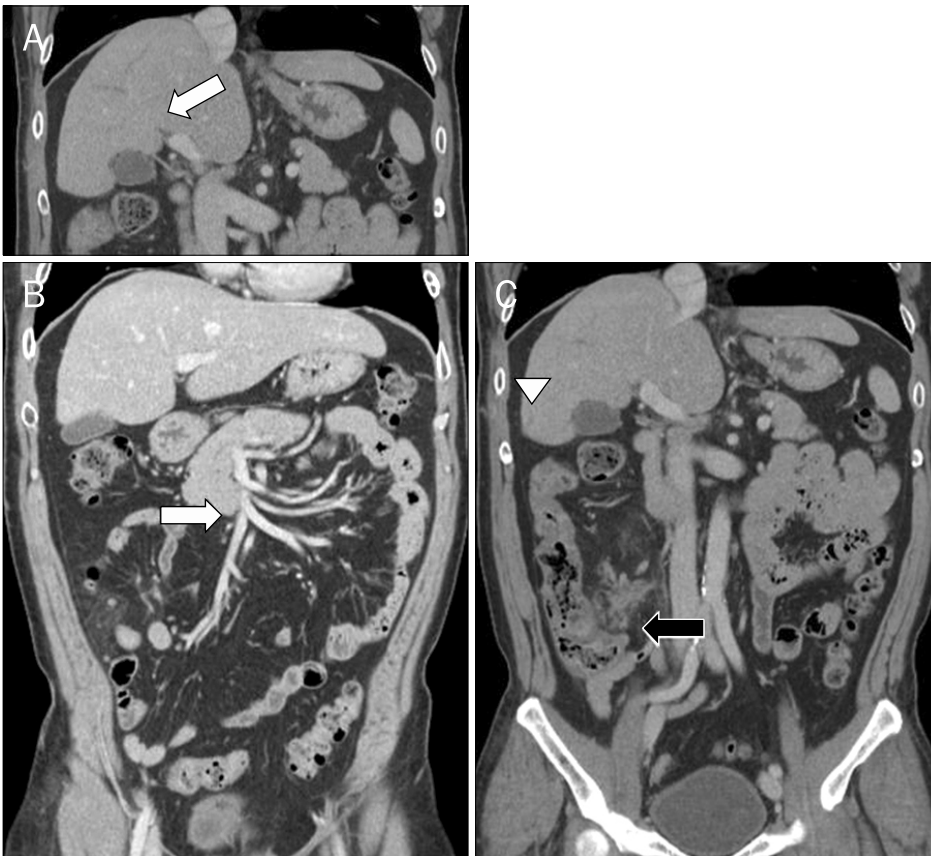
전증에 대해 저분자량 헤파린을 피하주사하여(1 mg/kg, 1일 2회) 항응고 치료를 시작하였다. 입원 7병일째 발열이 지속되어 시행한 추적 복부 전산화단층촬영에서 말단 회장부, 맹장



**Fig. 3.** Colonoscopic findings, 14 days after admission. Multiple diverticuli with erythematous mucosal changes around appendiceal orifice (white arrow) and adjacent mucosal erosions are visible in the cecum.

및 상행 결장의 염증의 악화, 염증 부위에서 시작되어 정맥 환류를 따라 회결장정맥부터 상장간막 정맥(Fig. 2A) 및 우문맥까지 혈전증이 관찰되었다(Fig. 2B). 간 우엽의 저음영의 병변은 항생제 투여 후 크기가 감소되어 간 농양이 호전된 것으로 생각되었다(Fig. 2A). 염증성 장질환 등의 감별을 위해 대장내시경을 시행하였으며 맹장 및 상행결장의 다발성 게실과 함께 게실 입구 주변의 발적 및 인접한 대장 점막의 미란이 관찰되어 게실염이 의심되었다(Fig. 3). 입원 당일에 시행하였던 혈액 배양검사 2쌍에서 모두 녹농균이 배양되어 piperacillin-tazobactam (4.5 g/회, 1일 3회)으로 변경하였고, 심장초음파 검사에서 증식(vegetation)은 보이지 않았다. 녹농균은 대부분 면역 저하자에서 기회감염 또는 병원 내 감염을 일으키는 것으로 알려져 있으며,<sup>3</sup> 이번 증례에서는 알코올 남용에 의한 알코올성 간질환 및 입원 시 시행한 당화혈색소 9.2%로 새롭게 진단된 조절되지 않은 당뇨병으로 인하여 녹농균에 의한 감염이 발생하였을 것으로 생각하였다. 녹농균혈증의 원인으로는 복강 내 감염을 의심하였고, 입원 이후 시행한 복부 전산화단층촬영 및 대장내시경에서 보인 게실염이 원인일 것으로 판단하였다.

환자는 piperacillin-tazobactam 투여 이후 발열의 감소를 보였고, 투여 5일 이후부터는 발열은 완전 소실되었다. 이후



**Fig. 4.** (A) Abdominal and pelvic CT scans, 28 days after discharge. The CT scans show no significant change in the right portal vein thrombi (white arrow). (B) Some resolution of thrombosis in the superior mesenteric vein was noted (white arrow). (C) There is improvement of the diverticulitis of the cecum and ascending colon (black arrow) and only minor signs of liver abscess (arrowhead).

지속적으로 발열이 없어 항생제 단독요법만 유지하였고, 내원 5병일째와 10병일째 시행한 추적 혈액 배양검사서 균은 음전되었다. 입원 23병일째 시행한 추적 혈액검사서 백혈구 수  $9,220/\text{mm}^3$  (호중구 49.1%, 림프구 33.9%), 혈색소 13.3 g/dL, 헤마토크리트 37.8%, 혈소판  $354,000/\text{mm}^3$ , 혈액요소질소 19.0 mg/dL, 크레아티닌 1.1 mg/dL, 알부민 3.7 g/dL, 총 빌리루빈 0.4 mg/dL, AST 27 IU/L, ALT 42 IU/L, C-반응성 단백질 3.4 mg/L로 이전보다 호전 상태를 보였다. 2주간의 항생제 정주요법 후 경구 ciprofloxacin으로 교체하였고 (500 mg/회, 1일 2회), 저분자량 헤파린은 와파린(3 mg/회, 1일 1회)으로 교체하였다. 입원 23병일째에 외래에서 추적 관찰하기로 하고 퇴원하였다. 퇴원 4주째 시행한 추적 복부 전산화단층촬영에서 우문맥의 혈전은 이전과 비슷하였으나 (Fig. 4A) 상장간정맥 혈전증은 부분적으로 감소되었고(Fig. 4B), 이전에 보였던 맹장 및 상행결장의 게실염 및 간 농양은 호전되었다(Fig. 4C). 환자는 경구 항생제요법 및 경구 와파린을 유지한 채 외래 추적 관찰 중이다.

## 고 찰

이번 증례는 발열, 복통, 설사 주소로 내원하여 시행한 복부 전산화단층촬영에서 대장 게실염과 우문맥 및 상장간막 정맥의 혈전증이 발견되어 항생제요법 및 항응고치료를 받고 호전된 예이다. Hwang과 Kim<sup>2</sup>의 보고에 따르면 국내에서 증례 보고된 문맥염에서 균혈증의 빈도는 60%로 높다. 국내외 문헌 고찰에 의하면 흔히 동정되는 균으로 streptococci, *K. pneumoniae*, *B. fragilis*, *Escherichia coli* 등이 보고되고 있으며,<sup>1,2,4-9</sup> 이번 증례에서는 2쌍의 혈액배양에서 녹농균이 동정되었다. 녹농균은 낭성 섬유증, 기관지확장증, 호중구감소증, 후천성 면역결핍증후군, 혈액 질환, 악성 질환이 있는 환자에서 기회 감염 및 원내 감염의 원인균으로 폐렴, 요로 감염, 연조직 감염 및 패혈증 등 다양한 질환을 일으킬 수 있다.<sup>3</sup> 항생제 내성률이 높아 치료가 어렵고 패혈증으로 인한 치사율이 18-61%로 높게 보고되고 있다.<sup>10</sup> 이번 증례에서는 대장 게실염에 동반된 녹농균에 의한 균혈증으로 인하여 문맥염이 발생한 예로, 이는 아직까지 세계적으로 보고된 적이 없다.

간문맥과 장간막정맥 혈전증은 간경변 및 간암, 악성 종양 및 골수 증식성 질환, 복강 내 감염, 췌장염, 혈액 응고인자 결핍성 질환, 염증성 장질환 등의 다양한 원인에 의해서 발생할 수 있다. 문맥염은 복강 내 염증성 질환에 의해 문맥계에 발생하는 정맥혈전염으로 전체 간문맥 혈전증 원인의 약 10-25%를 차지한다.<sup>11</sup> 흔한 복강 내 감염 질환으로는 충수돌기염, 게실염, 담낭염 등이 있다.<sup>12</sup> 외국에서는 항생제의 발전과 함께 충수돌기염에 의한 문맥염이 가장 흔한 원인이나, 외

국과 달리 국내에서는 아직까지 충수돌기염이 가장 흔한 원인이다.<sup>2</sup> 이 같은 복강 내 감염 질환 이외에도 염증성 장질환, 괴사성 또는 화농성 췌장염, 장천공, 감염성 총담관결석증, 폐체트병, 아메바큰창자염, 위궤양, 치핵 등 다양한 질환이 문맥염을 유발하거나 촉진한다고 보고되었다.<sup>2</sup> 이번 증례에서는 균혈증이 동반된 간문맥 혈전증의 원인 규명을 위해 시행한 혈액응고 검사에서 특이 소견을 보이지 않았고 혈액 질환, 악성 질환 등과 같은 다른 이차성 원인이 될 만한 검사 소견과 특이 병력이 관찰되지 않았다. 따라서 이번 증례에서는 환자의 장기간의 알코올 섭취로 인한 만성 간염과 조절되지 않았던 혈당에 의한 면역 저하 상태에서 게실염이 발생하였고, 이후 질병이 조절되지 않아 문맥염 및 녹농균에 의한 패혈증으로까지 질병이 진행된 것으로 생각할 수 있었다.

문맥염의 임상 양상은 발열, 오한, 복통, 식욕부진과 체중 감소와 같이 비특이적이고 다양하다. 감염된 혈전이 문맥계를 통해 간으로 유입되면 간 농양이 동반될 수 있으며 이 경우 황달이 나타날 수 있다.<sup>1</sup> 이번 증례에서는 발열 및 비특이적인 복통이 있었으며 간 농양이 동반되었으나 황달은 보이지 않았다. 이와 같이 비특이적인 증상으로 인하여 조기 진단하기 어려운 경우가 많으며 이로 인해 치료가 늦어지는 경우 치명적일 수 있다. 대부분의 문맥염 환자에서 발열과 복통을 동반하는 것으로 알려져 있으며,<sup>13</sup> 따라서 복강 내 감염과 동반되어 불명열이 있거나 원인을 알 수 없는 복통이 발열과 함께 지속될 때 문맥염을 의심해보아야 한다.

문맥염의 진단은 간문맥에서 채취한 혈액 배양에서 균혈증이 증명되고 간문맥과 장간막정맥 혈전증이 입증된 경우 확인할 수 있지만 검사가 침습적이기에 실제로 거의 이루어지지 않는다. 이를 대신하여 임상 양상, 다양한 영상학적 기법 및 일반적인 방법으로 채취한 혈액 배양결과를 종합하여 진단한다.<sup>4</sup> 간문맥혈전증은 복부 초음파, 복부 전산화단층촬영, 자기공명영상촬영, 혈관조영술로 진단할 수 있다. 복부 초음파 검사에서 문맥 내 고음영의 혈전을 관찰할 수 있으며 색 도플러 초음파검사서 혈류의 저하를 관찰할 수 있다. 색 도플러 초음파검사의 음성 예측치는 98%이며, 비침습적이고 안전하므로 선별검사로서 유용하다. 복부 전산화단층촬영에서 혈관 내 저감쇠의 혈전을 관찰할 수 있고 이와 함께 감염원의 발견, 다른 장기의 이상 소견, 문맥염의 정도를 볼 수 있어 간문맥혈전증의 일차적 진단 방법으로 선호되고 있다.<sup>12</sup>

문맥염이 의심되거나 진단되면 즉각적인 치료를 시행해야 하며, 광범위 항생제 투여와 함께 감염원을 제거하는 것이 중요하다. 항생제의 투여 기간은 문맥염의 합병증으로 간 농양이 발생할 수 있어 최소 4주 이상 투여하는 것이 권장된다.<sup>1</sup> 만약 복부 전산화단층촬영에서 간 농양이 발견된 경우에는 6주 이상의 항생제 투여가 권장되며, 직경 3 cm 이상의 간 농

양은 경피적 배액술이 필요하다.<sup>14</sup> 문맥염에서 항응고요법의 효과는 아직 논란의 여지가 있다. Baril 등<sup>15</sup>은 응고장애가 동반되거나 악성 종양이나 혈액 질환으로 인한 과응고 상태, 응고장애가 없으나 장간정맥이 침범된 경우에 항응고 치료의 적응증이 되지만 정상 응고 기능을 가진 간문맥에만 국한된 혈전증의 경우에는 항응고 치료는 불필요하다고 보고하였다. Allaix 등<sup>16</sup>의 보고에 따르면 기저 질환이 없는 환자에서 항응고요법의 기간은 적어도 6개월간 유지하는 것이 필요하다고 하였으나 아직까지 항응고요법의 기간 및 추적 방사선촬영 기간에 대해서는 정립되지 않았다.

문맥염은 방사선학적 영상 기법의 발달로 조기 진단이 이루어지고 항생제 치료의 진전으로 사망률의 개선을 보이고 있으나, Choudhry 등<sup>4</sup>의 보고에 따르면 최근까지도 11%의 사망률을 보이고 있어 생명을 위협하는 중증의 질환으로 조기 진단 및 적절한 치료가 필수적이다. 따라서 비특이적인 복통과 함께 고열을 보이는 경우 복강 내 감염의 드문 합병증이지만 문맥염의 가능성을 고려해야 할 것으로 생각된다. 저자들은 문맥염에서 흔히 동정되는 균주가 아닌 녹농균에 의한 패혈증이 동반된 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

1. Plemmons RM, Dooley DP, Longfield RN. Septic thrombophlebitis of the portal vein (pylephlebitis): diagnosis and management in the modern era. *Clin Infect Dis* 1995;21:1114-1120.
2. Hwang MW, Kim BN. Pylephlebitis: report of a case secondary to appendicitis and review of cases reported in Korea. *Infect Chemother* 2010;42:203-207.
3. Driscoll JA, Brody SL, Kollef MH. The epidemiology, pathogenesis and treatment of *Pseudomonas aeruginosa* infections. *Drugs* 2007;67:351-368.
4. Choudhry AJ, Baghdadi YM, Amr MA, Alzghari MJ, Jenkins DH, Zielinski MD. Pylephlebitis: a review of 95 cases. *J Gastrointest Surg* 2016;20:656-661.
5. Lim HE, Cheong HJ, Woo HJ, et al. Pylephlebitis associated with appendicitis. *Korean J Intern Med* 1999;14:73-76
6. Shin AR, Lee CK, Kim HJ, et al. Septic pylephlebitis as a rare complication of Crohn's disease. *Korean J Gastroenterol* 2013;61:219-224.
7. Jung HS, Shim KN, Jung JM, et al. A case of pylephlebitis of the inferior mesenteric vein and portal vein. *Intest Res* 2009;7:105-109.
8. Lee BK, Ryu HH. A case of pylephlebitis secondary to cecal diverticulitis. *J Emerg Med* 2012;42:e81-e85.
9. Saxena R, Adolph M, Ziegler JR, Murphy W, Rutecki GW. Pylephlebitis: a case report and review of outcome in the antibiotic era. *Am J Gastroenterol* 1996;91:1251-1253.
10. Kang CI, Kim SH, Kim HB, et al. *Pseudomonas aeruginosa* bacteremia: risk factors for mortality and influence of delayed receipt of effective antimicrobial therapy on clinical outcome. *Clin Infect Dis* 2003;37:745-751.
11. Ku B, Kim Y, Kim J, et al. A case of pylephlebitis with *Streptococcus viridans* and *Bacteroides fragilis* bacteremia secondary to diverticulitis. *Korean J Med* 2009;76:622-626.
12. Parikh S, Shah R, Kapoor P. Portal vein thrombosis. *Am J Med* 2010;123:111-119.
13. Artech E, Ostiz S, Miranda L, Caballero P, Jiménez López de Oñate G. Septic thrombophlebitis of the portal vein (pylephlebitis): diagnosis and management of three cases. *An Sist Sanit Navar* 2005;28:417-420.
14. Balthazar EJ, Gollapudi P. Septic thrombophlebitis of the mesenteric and portal veins: CT imaging. *J Comput Assist Tomogr* 2000;24:755-760.
15. Baril N, Wren S, Radin R, Ralls P, Stain S. The role of anticoagulation in pylephlebitis. *Am J Surg* 1996;172:449-452; discussion 452-453.
16. Allaix ME, Krane MK, Zoccali M, Umanskiy K, Hurst R, Fichera A. Postoperative portomesenteric venous thrombosis: lessons learned from 1,069 consecutive laparoscopic colorectal resections. *World J Surg* 2014;38:976-984.