

우유빛 기관지 세척액 소견을 보인 양측성 폐침윤

고려대학교 의과대학 내과학교실

윤기철, 문재영, 김혜옥, 김정하, 하은실, 이경주, 이은주, 허규영, 강은해, 정기환, 이승룡, 김제형, 이상엽, 신 철, 심재정, 인광호, 강경호, 유세화

Bilateral Pulmonary Infiltrate with Milky BAL Fluid

Gi Chol Yoon, M.D., Jae Young Moon, M.D., Hye Ok Kim, M.D., Jung Ha Kim, M.D., Eun Sil Ha, M.D., Kyung Ju Lee, M.D., Eun Joo Lee, M.D., Ph.D., Gyu Young Hur, M.D., Ph.D., Eun Hae Kang, M.D., Ph.D., Ki Hwan Jung, M.D., Ph.D., Sung Yong Lee, M.D., Ph.D., Je Hyeong Kim, M.D., Ph.D., Sang Yeub Lee, M.D., Ph.D., Chol Shin, M.D., Ph.D., Jae Jeong Shim, M.D., Ph.D., Kwang Ho In, M.D., Ph.D., Kyung Ho Kang, M.D., Ph.D., Se Hwa Yoo, M.D., Ph.D.

Division of Respiratory and Critical Care Medicine, Department of Internal Medicine, Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Exogenous lipoid pneumonia is an uncommon disease that's caused by aspirating lipid formulations. Squalene, obtained from shark liver oil, is one of the causative agent and this is commonly used by some Koreans as a health promoting medication. We report here on a case of exogenous lipoid pneumonia that developed after ingestion of squalene capsules. The case showed milky BAL fluid and multiple pulmonary consolidations. (*Tuberc Respir Dis* 2008;65:239-242)

Key Words: Pneumonia, Lipid, Bronchoalveolar lavage fluid, Squalene

서 론

1925년 Laughlen¹은 동물 모델에서 지방의 흡입에 의해 지방성 폐렴이 발생할 수 있음을 처음 보고하였다. 지방성 폐렴은 원인에 따라 내인성과 외인성으로 나뉘며 그 중 외인성 폐렴은 우리나라의 경우 스쿠알렌(상어의 간유 제제)의 흡입이 대다수를 차지한다. 저자들은 만성 기침과 다발성 경화소견을 보인 환자에서 특이한 기관지세척액 소견을 보였던 스쿠알렌을 복용한 후 발생한 외인성 지방성 폐렴을 진단하여 경과 관찰중인 1예를 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 30세 남자

주 소: 한 달간 지속된 건성 기침

현병력: 특별한 호흡기 증상이 없던 분으로 내원 한 달 전부터, 아침이면 기침이 생기고 점차 심해져 개인 의원에서 폐렴 의심 하에 일주일간 입원한 후 2세대 cephalosporin 및 azithromycin으로 치료하였으나 호전이 없어 본원으로 전원 되었다. 기침은 간헐적으로 격렬하였고, 가래는 전혀 없었다.

사회력: 10갑년의 흡연력이 있었음.

가족력: 특이 사항 없음.

이학적 소견: 내원시 활력징후는 혈압 120/70 mmHg, 호흡수 20회/min, 맥박 92회/min, 체온은 36.5°C였으며 급성 병색을 띠고 있었다. 심음은 규칙적이었고, 흉부 청진에서 양쪽 폐 하부에서 경미한 수포음이 들렸다.

검사실 소견: 말초 혈액 검사에서 혈색소 16.7 g/dl, 백혈구 6,800/mm³ (호중구 52.6%), 혈소판 317,000/mm³이었고, 혈청 생화학 검사에서는 총단백 7.7 g/dl, 알부민 4.6 g/dl, 총 빌리루빈 0.46 mg/dl, AST/ALT 9/19 U/L, LDH 477 U/L, BUN/Cr 11.5/0.9 mg/dl이었다.

방사선소견: 단순 흉부 방사선(Figure 1) 및 흉부 전산단층촬영(Figure 2)에서 우 중엽과 좌 하엽에 비교적 낮은 음영의 다발성 폐 실질 경화 소견이 보였으나 그 외

Address for correspondence: Se Hwa Yoo, M.D., Ph.D.
Division of Respiratory and Critical Care Medicine, Department of Internal Medicine, Korea University Anam Hospital, Korea University College of Medicine, 126-1, Anam-dong 5-ga, Seongbuk-gu, Seoul 136-705, Korea
Phone: 82-2-920-5314, Fax: 82-2-929-2045
E-mail: yoosh47@unitel.co.kr

Received: Apr. 29, 2008

Accepted: Aug. 25, 2008



Figure 1. Chest radiograph on admission reveals the patchy consolidation on RML and LLL.

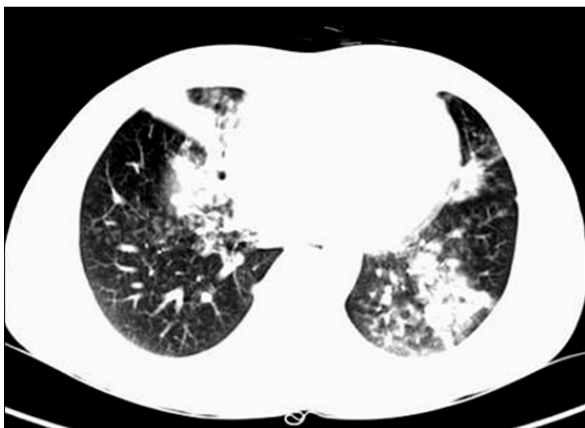


Figure 2. Chest CT demonstrates the relatively low-attenuating consolidation with multifocal patchy ground glass opacity in RML, lingular segment, and LLL.

림프절 종대 등의 이상 소견은 보이지 않았다.

기관지 내시경 소견: 기관지 내시경 검사상 기관지 내 병변은 발견되지 않았으나 기관지 폐포 세척액이 뿌연 우유빛으로 수거되었고, 이는 시간이 흐르자 상층에 노란 기름층이 고였다(Figure 3).

병리 소견: 폐포 세척액으로 Sudan III 염색을 시행하였으며, 그 결과 대식 세포 내 및 세척액에 주황색의 지방이 염색이 되었다(Figure 4A). 좌측 하엽에서의 폐 조직 생검 소견 상에도 폐 실질 내 심한 염증 소견과 함께 대식세포 내 주황색의 지방이 염색되었다(Figure 4B).

과거력: 뿌연 기관지 폐포 세척액이 수거되어 처음에는

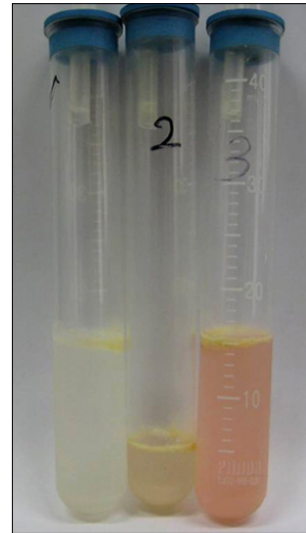


Figure 3. Gross appearance of the bronchoalveolar lavage fluid demonstrates "milky appearance with yellowish supernatant material."

폐 단백증을 고려 하여 조직검사를 시행하였으나, 그 결과 주로 지방이 염색되어 지방성 폐렴을 의심케 하였다. 이에 다시 과거력을 확인케 되었다. 환자는 5년 전부터 건강증진 목적으로 수 차례 간헐적으로 스쿠알렌을 복용해 온 분으로 내원 두 달 전부터 한번에 4~5알씩, 2~3일에 한번, 스쿠알렌 캡슐을 깨물어 터뜨려서 복용하였다고 하였다.

진 단: 외인성 지방성 폐렴

치료 및 임상 경과: 스쿠알렌의 중단 및 보존적 치료 후 증상은 다소 호전되어 외래에서 추적 관찰중이나 기침은 계속 되었고 단순흉부X선 소견도 크게 호전되지는 않았다.

고 찰

지방성 폐렴은 원인에 따라 내인성과 외인성 지방성 폐렴으로 나눌 수 있다. 그 중 외인성 지방성 폐렴은 광물성 기름, 식물성 기름 또는 동물성 기름의 흡인에 의한 것으로, 저하된 기침 반사나 점막 섬모 운동으로 인한 흡인에 의하여 발생하는 것으로 알려져 있다. 외인성 지방성 폐렴은 위 식도 역류질환, 연하곤란, 식도 이완 불능증, 식도 계실, 신경과적 질환, 의식저하 환자 등이 특히 이환될 위험이 큰 것으로 알려져 있다²⁵. 특히 외국의 경우에는 변비를 치료하는데 쓰이는 광물성 기름이나 완하제, 비강 충혈의 개선을 위하여 쓰이는 약제에 포함된 액체 파라핀 (liquid petrolatum)의 흡인이 외인성 지방성 폐렴의 원인으로 잘 알려져 있다^{6,7}. Park 등⁸이 40명의 지방성 폐렴

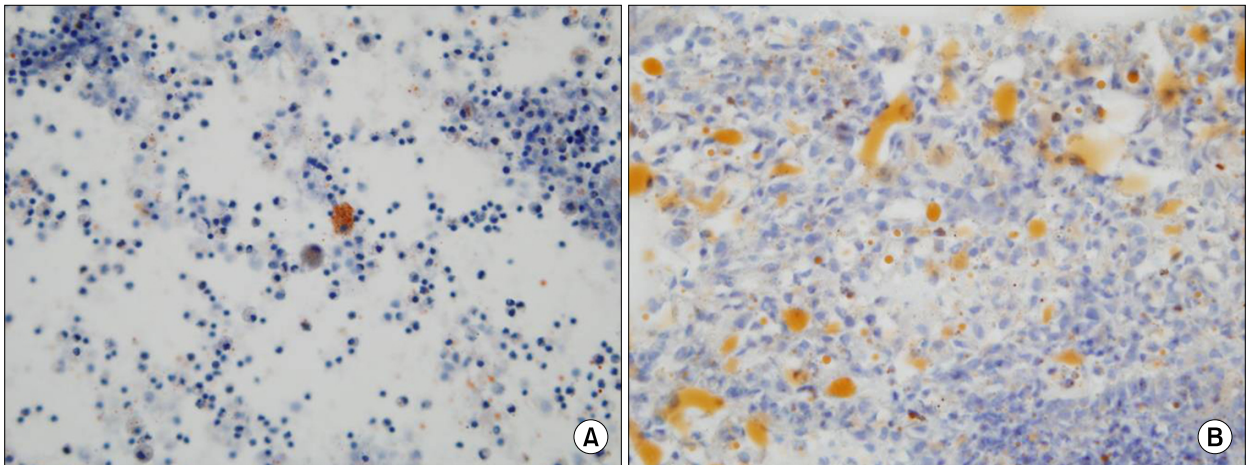


Figure 4. BAL fluid (A) and lung tissue specimen from video-assisted thoracic biopsy (B) show diffuse collection of foamy alveolar macrophages in the alveolar spaces and bronchiolar lumina with severe inflammation (Sudan III stain, $\times 100$).

환자를 모아 보고한 연구에 의하면 원인으로 생각되는 물질의 흡인으로부터 진단에 이를 때까지 걸린 시간은 평균 359일이며, 그 중 37명이 스쿠알렌 흡입으로 발생하였음이 확인되었다. Choi 등⁹은 다량의 스쿠알렌 복용 후 발생한 지방성 폐렴이 스테로이드로 호전된 증례를 보고한 바 있다. 본 증례의 경우 방사선 소견상 폐하부에 양측성 폐경화소견을 보여 비정형성 폐렴 또는 폐단백증을 의심하였다. 특히 우유빛의 폐세척액 소견이 보여 폐단백증을 감별진단으로서 고려하였다¹⁰. 그러나 자세히 병력을 다시 청취한 결과 환자가 스쿠알렌을 섭취해 왔다는 사실이 확인되었고 이후 이루어진 조직검사 소견상 결국 지방성 폐렴을 확진하게 되었다. 본 증례와 같이 지방성 폐렴의 증상, 이학적 소견, 방사선적 소견은 비 특이적이기 때문에 임상적 진단이 어려운 경우가 많아 진단에 자세한 병력 청취가 중요하다^{6,11}. 단순 흉부 방사선 상 폐 기저부의 경화 소견 및 폐 흉부 전산 단층화 촬영에서 paraffinoma로 불리는 낮은 음영의 종물(low density mass)이나 불규칙한 포장 도로 모양(crazy-paving pattern)이 보이는 경우도 있다. 진단은 폐세척액이나 조직 검사에서 지방을 머금은 대식세포를 발견하면 확진할 수 있다¹². 대부분의 경우 보존적 치료 및 원인 물질에 대한 노출 회피로서 경과가 호전되며, 이것 이상의 치료는 아직 확립되어 있지 않다¹¹. 드문 예로 스테로이드 치료나 폐 세척이 도움이 되었다는 보고도 있지만 아직 확립된 치료 방법은 아니다. 본 증례의 경우 스쿠알렌을 복용한 과거력과 함께 폐 세척액이 육안상 뿌연 액체 소견이 보이고 상층에 지방이 고이면서 현미경적 검사상 지방을 탐식한 대식세포를 Sudan

III 염색을 통해 확인함으로써 확진된 예라 할 수 있겠다.

요 약

외인성 지방성 폐렴은 자세한 병력 청취 없이는 의심하기 힘든 비교적 드문 질환이다. 저자들은 비특이적인 임상 증상과 방사선 소견을 보인 환자에서 스쿠알렌을 섭취한 과거력에 주목하였으며 외인성 지방성 폐렴을 의심하여 기관지폐세척술 및 폐 생검을 통하여 확진하였다.

참 고 문 헌

1. Laughlen GF. Studies on pneumonia following naso-pharyngeal injections of oil. *Am J Pathol* 1925;1:407-14.
2. Asnis DS, Saltzman HP, Melchert A. Shark oil pneumonia. An overlooked entity. *Chest* 1993;103:976-7.
3. Camus P, Bonniaud P, Fanton A, Camus C, Baudaun N, Foucher P. Drug-induced and iatrogenic infiltrative lung disease. *Clin Chest Med* 2004;25:479-519, vi.
4. Gondouin A, Manzoni P, Ranfaing E, Brun J, Cadranel J, Sadoun D, et al. Exogenous lipid pneumonia: a retrospective multicentre study of 44 cases in France. *Eur Respir J* 1996;9:1463-9.
5. Robinson GV, Kanji H, Davies RJ, Gleeson FV. Selective pulmonary fat aspiration complicating oesophageal achalasia. *Thorax* 2004;59:180.
6. de Albuquerque Filho AP. Exogenous lipoid pneumonia: importance of clinical history to the diagnosis. *J Bras Pneumol* 2006;32:596-8.
7. Ohwada A, Yoshioka Y, Shimanuki Y, Mitani K, Kumasaka

- T, Dambara T, et al. Exogenous lipoid pneumonia following ingestion of liquid paraffin. *Intern Med* 2002;41:483-6.
8. Park HP, Kwon KY, Choi WI. Lipoid pneumonia in Korea: a case report and review of the literature of Korean cases. *Respir Med Extra* 2007;3:39-43.
 9. Choi HS, Kwag HJ, Chae SW, Lim SY, Lim SY. Severe exogenous lipoid pneumonia following ingestion of large dose squalene: successful treatment with steroid. *Tuberc Respir Dis* 2006;60:235-8.
 10. Ioachimescu OC, Kavuru MS. Pulmonary alveolar proteinosis. *Chron Respir Dis* 2006;3:149-59.
 11. Simmons A, Rouf E, Whittle J. Not your typical pneumonia: a case of exogenous lipoid pneumonia. *J Gen Intern Med* 2007;22:1613-6.
 12. Rossi SE, Erasmus JJ, Volpacchio M, Franquet T, Castiglioni T, McAdams HP. "Crazy-paving" pattern at thin-section CT of the lungs: radiologic-pathologic overview. *Radiographics* 2003;23:1509-19.
-