

패혈성 폐색전증을 동반한 Lemierre 증후군 1예

경북대학교 의과대학 내과학교실

김은진, 박재형, 김창호, 박재용, 정태훈, 차승익

A Case of Lemierre Syndrome Associated with Septic Pulmonary Emboli

Eun-Jin Kim, M.D., Jae-Hyoung Park, M.D., Chang Ho Kim, M.D., Jae Yong Park, M.D., Tae Hoon Jung, M.D.,
Seung Ick Cha, M.D.

Department of Internal Medicine, School of Medicine, Kyungpook National University

Lemierre syndrome is characterized by an acute oropharyngeal infection with secondary septic thrombophlebitis of the internal jugular vein and frequent metastatic infections such as septic pulmonary emboli and suppurative arthritis. In the preantibiotic era, this condition generally had a fatal outcome. The presentation is so distinctive that a clinical diagnosis is possible in most cases, and a cure is expected with the appropriate therapy in the majority of patients. We present a case report of Lemierre syndrome with a review of the relevant literature. (*Tuberc Respir Dis* 2005; 58:73-77)

Key words : Thrombophlebitis, Syndrome, Septic Pulmonary Emboli

서 론

후앙기나 패혈증(postanginal sepsis) 혹은 괴사성 간균증(necrobacillosis)으로도 불리는 Lemierre 증후군은 급성 구강 인두 감염 후에 이차적인 내경정맥(internal jugular vein)의 혈전정맥염을 동반하고, 다음 단계로 폐나 관절에 패혈성 폐색전증이나 화농관절염의 전이감염을 초래하는 경우를 말한다¹. 1936년 Lemierre²가 자신이 경험했던 20예를 토대로 이를 정리하였는데, 항생제가 사용되기 이전에는 비교적 흔하였고, 7-15일의 전격성 경과를 취하는 치명적인 감염이었으나 항생제가 보급되고 인두염에 광범위하게 사용되면서 그 빈도와 사망률이 현저히 감소하였다³. 이 질환은 특징적인 임상상을 근거로 임상적인 진단이 가능하며 항생제 투여 등의 적절한 치료가 이루어진다면 완치가 가능하지만, 간과되어 진단이 지연될 경우 치명적인 결과를 초래할 수도 있다.

이에 저자들은 최근 비교적 전형적인 임상경과를 보였던 Lemierre 증후군 1예를 경험하였기에 문헌고

찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 여자 20세, 박 O 민

주 소 : 10일간의 인후통

현병력 : 내원 10일전부터 발생한 인후통, 두통, 오한과 열감으로 개인의원에서 급성 인후염 의심 하에 투약 받았으나 증상이 호전되지 않고 점차로 악화되었다. 내원 7일전, 2차 병원 이비인후과에서 시행한 경부 전산화단층촬영상 편도주위농양이 의심되어 항생제투여를 받았으나 증상호전을 보이지 않아 본원으로 전원 되었다.

과거력 : 결핵, 당뇨 등 특이사항은 없었음.

가족력 : 특이사항은 없었음.

이학적 소견 : 입원 당시 혈압 110/70mmHg, 맥박 88회/분, 호흡수 22회/분, 체온 38.3℃였다. 외관상 급성 병색이었으나 의식은 명료했고 호흡곤란은 없었다. 우측 편도에는 발적을 동반한 종대 소견이 보였고, 백색 혹은 화농성의 삼출물이 관찰되었다. 우측 경부에 압통을 동반한 종창이 있었고, 유동성의 우측 턱끝밑 림프절(submental lymph node)이 3x5 cm 크기로 촉지되었다. 폐와 심장에는 청진상 특이소견은 없었고, 사지에 청색증이나 곤봉지 등의 이상소견은 없었다.

Address for correspondence : **Seung-Ick Cha, M.D.**
Department of Internal Medicine, School of Medicine,
Kyungpook National University, 50 Samduk 2-Ga,
Jung-Gu, Taegu, 700-721, Korea
Phone : 053-420-5538 Fax : 053-427-1098
E-mail : sicha@knu.ac.kr
Received : Oct. 27. 2004
Accepted : Dec. 14. 2004

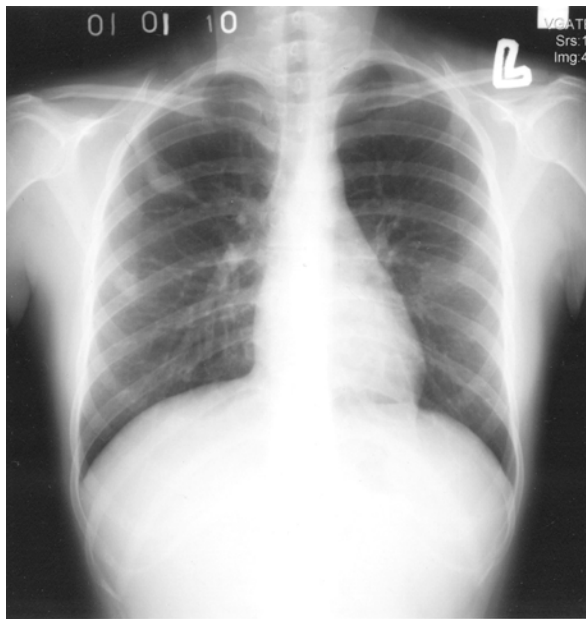


Figure. 1. Chest radiograph shows a cavitary lesion in the right upper lung field and two nodular shadows in both middle lung zones.

검사실 소견 : 말초혈액검사상 백혈구 $19,730/\text{mm}^3$ (호중구 85.6%), 혈색소 10.7g/dl, 혈소판 $579,000/\text{mm}^3$ 였고, 혈청 나트륨 138mEq/L, 혈청 칼륨 3.0mEq/L 였으며 간기능 검사, 혈액요소질소 및 크레아티닌은 정상범위를 보였다. 요 검사상 단백 2+, 케톤 1+, 이외에 특이소견은 없었다.

방사선학적 소견 : 흉부 단순방사선촬영상 우상폐야에는 주위로 폐침윤을 동반한 공동, 양쪽 폐의 중폐야에 다발성 결절이 관찰되었다(Figure 1). 본원으로 전원 전에 시행한 흉부 전산화단층촬영상 우상엽에 직경 2cm 크기의 공동이 관찰되고, 우하엽과 설상엽에 직경 1cm 크기의 결절이 확인되었다(Figure 2). 본원에서 시행한 경부 전산화단층촬영상 좌측 편도 주위에 불규칙한 윤곽을 가진 괴사로 의심되는 저음영 부위와 그 주변부의 조영증강 소견을 보였고, 주위 림프절의 종대도 관찰되었다. 또한 성대 수준에서 내경정맥이 혈전에 의해 폐쇄된 소견을 보였다(Figure 3).

치료 및 경과 : 입원 당시 편도주위 농양 및 패혈성 폐색전증 의심 하에 ampicillin/sulbactam 및 tobramycin을 정주하였고, 이비인후과에 의뢰하여 경피

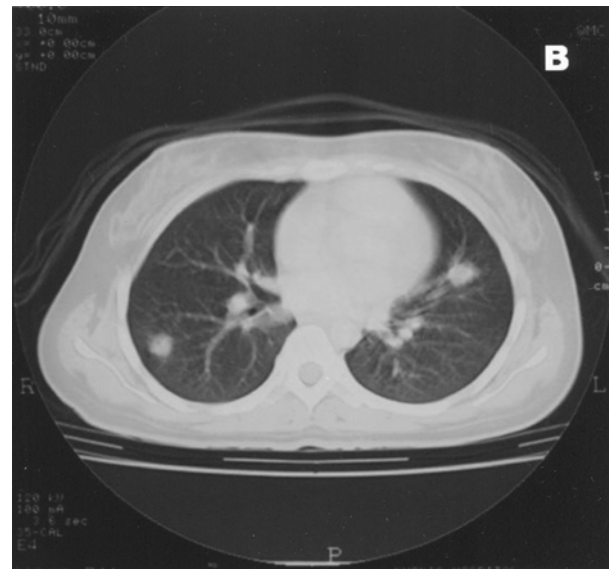
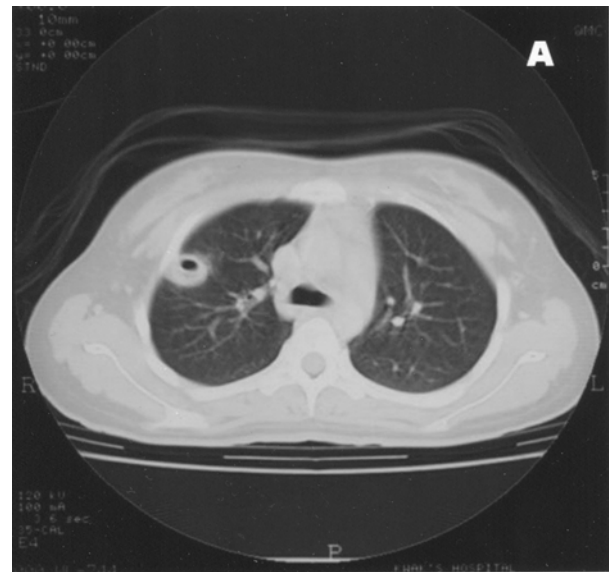


Figure. 2. Chest CT scan shows an approximately 2 cm sized cavitary nodule in the peripheral area of the right upper lobe (A). Another two nodular lesions can be seen in the right lower lobe and lingular segment, respectively (B).

적 세침흡인술을 시행한 결과 육안적으로 농이 배출되었다. 반복적으로 편도주위 농양에 대한 절개와 배농을 5일 간 시행하였다.

입원 4일째 체온은 정상화 되었고, 입원 5일째 시행한 말초혈액검사상 백혈구 $6,870/\text{mm}^3$ (호중구 62.3%)로 백혈구증가증은 소실되었다. 입원 7일째 흉부 단순방사선촬영상 우상엽의 공동의 벽 두께가 얇아지

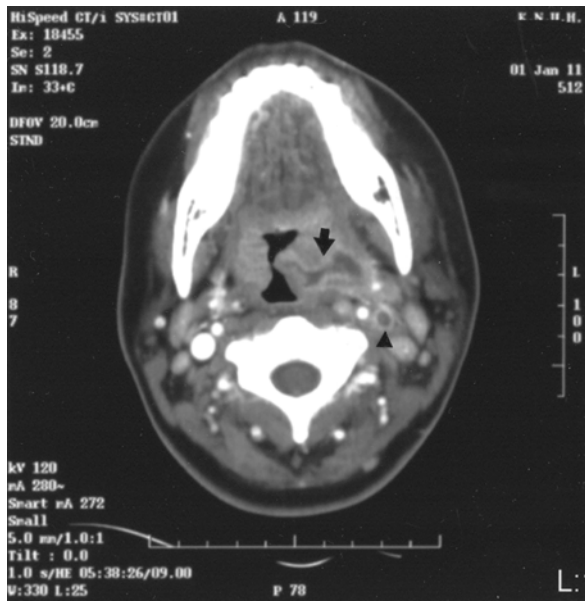


Figure 3. Neck CT shows an irregular margined low density area with a peripheral enhancing wall around the left tonsil, suggesting a peritonsillar abscess (arrow) and surrounding the lymph nodes enlargement in the right jugulodigastric area. Left internal jugular vein thrombosis can also seen (arrowhead).

고, 우중엽과 설상엽의 결절성 병변도 크기가 감소되었다(Figure 4). 경부 전산화단층촬영상 좌측 편도 주위로 조직의 경계는 여전히 불분명하지만 편도주위

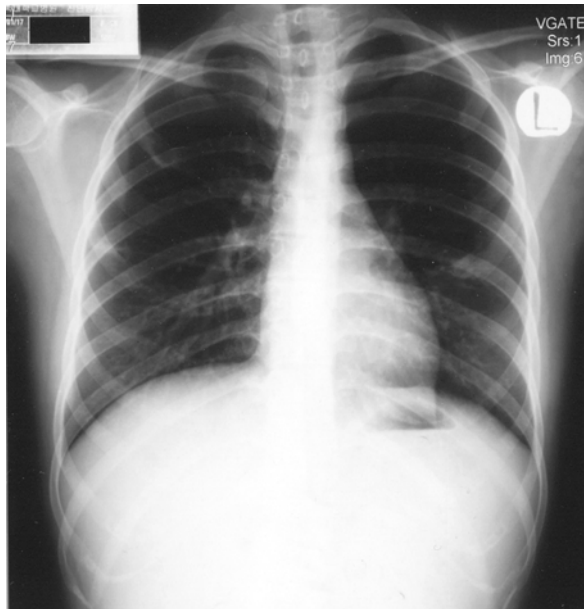


Figure 4. On the chest radiograph after 7 days, the size of the previously noted nodular shadows is reduced in both lungs.

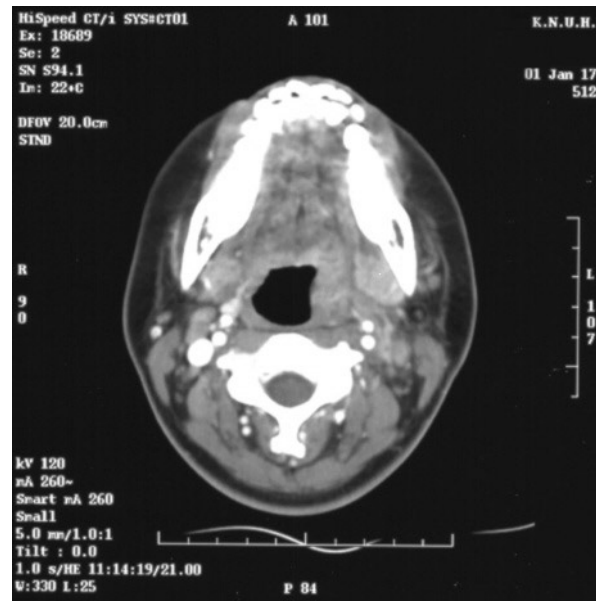


Figure 5. On the follow up neck CT, the abscess cavity cannot be seen but the peritonsillar inflammation still remains.

농양은 소실되었다(Figure 5). 입원 8일째, 외래에서 추적관찰하기로 하고 경구용 항생제로 전환하여 퇴원하였다. 퇴원 7일째 외래 방문 당시 환자는 양호한 상태였다. 입원 당시에 시행한 객담, 혈액 및 세침흡인술로 얻은 농에 대한 호기성 및 혐기성 배양에서 임상적으로 의미 있는 균은 동정되지 않았다.

고 찰

Lemierre 증후군은 성별분포에 남녀간 차이는 없고, 16-24세에서 호발하나 모든 연령에서 발병이 가능하며, 대부분의 환자가 발병 이전에 건강한 상태이다⁴. 본 증례도 특별한 과거력이 없는 20세 여자 환자였다. 이 질환은 대개 혐기성 균에 의한 감염으로 가장 흔한 원인균은 *Fusobacterium necrophorum*인데, *Fusobacterium*은 구강, 여자의 생식기계, 그리고 소화기계에서 정상균주로 존재하고 실제 환자의 검체에서는 *F. nucleatum*과 *F. necrophorum* 두 종류가 주로 분리된다⁵. 이 가운데 *F. necrophorum*은 부동성(nonmotile) 그람음성 간균의 형태로 단백질 분해효소, 지질 다당질 내독소, leukocidin 및 hemagglutinin 등을 생산하여 통상의 혐기성 균과는 달리 건강한 숙주를 대

상으로 강한 침습성을 보임으로써 치명적인 결과를 초래할 수 있다. 이 밖에도 *Streptococcus*종, *Bacteroides*종, *Peptostreptococcus*종, *Eikenella corrodens* 등이 동정된 바 있다^{6,7}. 본 증례에서는 혈액배양 및 농배양 모두에서 원인균을 확인할 수는 없었다.

본 증례와 같이 대부분의 예에서 구개편도 또는 편도주위 조직이 감염의 원발부위이지만, 치원성 감염(odontogenic infection), 꼭지염(mastoiditis), 이하선염, 부비동염, 두정부 피부감염도 가능하다^{1,3}. 다음 단계로 외인두강(lateral pharyngeal space)으로 감염이 진행해서 내경정맥의 혈전증을 일으킨다. 외인두강은 해부학적으로 줄기양 돌기(styloid process)에 의해 전-후 구획으로 나누어지고 내경정맥, 경정맥, 미주신경, 임파선을 포함하는 경동맥집(carotid sheath)이 후구획에 위치한다⁶. 과거에는 편도 및 편도주위 정맥에서 정맥혈전염이 시작되어 경정맥으로 진행되는 것으로 생각되었으나 최근에는 편도주위 조직에서 외인두강으로 임파선을 통해 전파되는 것이 보다 주된 기전인 것으로 생각되고 있다¹. 감염이 내경정맥까지 진행하면 폐와 관절 등의 다른 신체부위로의 혈행전파가 가능하게 된다.

인후염이 대부분의 일차감염이므로 인후통과 인두염과 관련된 증상이 주를 이룬다. 대개 발열이 동반되고 복통, 오심, 구토 등이 흔히 있을 수 있다⁶.

경정맥에 혈전증이 생기는 단계에는 하악각 및 목빗근(sternocleidomastoid muscle)을 따라서 통증, 종창, 경화 등이 있을 수 있고 심하면 개구장애(trismus)를 일으키기도 한다³. 그러나 감염이 후인두강의 후구획만을 선택적으로 침범한 경우에는 이런 소견이 저명하지 않을 수도 있어서 간과되기 쉽다. 다음으로 패혈증이 일어나고 감염의 혈행전파로 패혈성 색전증이 여러 장기에 발생할 수 있는데, 폐가 가장 흔한 부위이고 관절이 다음 순이다. 이전에는 전형적인 폐 침범 소견은 공동을 형성하는 다발성 폐침윤 소견이라고 생각되었으나 최근의 문헌조사¹에서는 단순방사선촬영상 공동이 동반되지 않는 폐침윤 소견이 더 흔한 소견으로 나타났고 전산화단층촬영상 공동이 있는 것으로 확인된 경우의 약 반수에서는 단순방사선촬영상 공동이 확인되지 않았다. 관절이 두 번째로 흔한 전이

감염 부위인데 고관절, 견관절, 무릎관절 순으로 화농성관절염이 동반될 수 있다. 이외에도 간, 비장 등으로 전파되어 간 및 비장에 농양을 형성하기도 하고 신장으로 전파되면 단백뇨와 혈뇨를 일으킬 수 있는데, 연쇄구균후사구체신염과 감별진단이 중요하다⁸.

고전적인 Lemierre 증후군의 진단기준은 다음과 같다: 첫째 인두 원발성 감염, 둘째 혈액배양에서 혐기성 균 동정, 셋째 임상적 또는 방사선학적인 내경정맥 혈전증, 넷째 전이감염(metastatic infection)⁶. 진단을 위해서 Lemierre 증후군의 각 단계에서 증상 및 징후를 토대로 이에 대한 의심이 중요하다. 다음으로 내경정맥의 혈전증을 객관적으로 증명하는 것이 필요한데, 경부 전산화단층촬영이 가장 유용한 방사선학적인 방법이다^{1,3}. 주요 소견은 경정맥의 확장 및 정맥 벽의 조영증강, 경정맥 내의 충만결손, 주위 연조직의 종창 등이다. 초음파검사는 비교적 비침습적인 간편한 방법으로 확장된 경정맥 내에 에코우발생 부위를 확인함으로써 경정맥 혈전증의 진단에 도움이 되지만, 쇄골이나 하악골 아래에 대한 상이 좋지 않고 저에코우발생 병변은 놓칠 수 있는 단점이 있다³. 원인균의 동정은 항생제 투여 전에 혈액배양 또는 다른 부위 검체에 대한 적절한 혐기성 균 배양을 위한 절차를 거친다면 동정이 가능하다. 패혈성 폐색전증을 동반한 경우 혈액배양이 음성이라면 기관지내시경을 통한 검체 획득이 균동정에 도움을 줄 수 있다⁹. 본 증례에서는 균동정이 이루어지지 못했는데, 균동정을 위한 검체 채취 이전에 이미 항생제가 수 일간 투여된 때문으로 생각된다.

치료는 혐기성 균에 대한 항생제 투여가 우선적으로 필요하다. *F. necrophorum*은 전통적으로 penicillin, clindamycin, metronidazole, chloramphenicol에 감수성을 보인다고 알려져 있으나 penicillin 투여로 치료가 실패한 증례도 보고되고 있다^{10,11}. 이러한 내성은 원인균에 의한 beta lactamase 생성으로 인한 것이므로 혐기성 균에 활성을 가진 beta lactamase내성 항생제 즉, ampicillin sulbactam, ticarcillin-clavulanate 등이 권고되고 있다. 항생제 투여와 더불어 농양, 패혈성 관절, 흉막액에 대한 배농이 필요하다. 대부분의 환자가 항응고제의 사용 없이도 양호한 경과를 취하므로

Lemierre 증후군에서 항응고제의 사용여부는 논란의 여지가 있다³. 항생제 투여가 적절히 이루어지지 않은 경우는 사망률이 80%에 이르지만, 항생제 사용과 적절한 치료가 이루어진다면 사망률은 10% 전후이다¹².

요 약

Lemierre 증후군은 인두염 후에 이차적인 내경정맥의 혈전정맥염, 다음 단계로 폐나 관절에 전이감염을 특징으로 한다. 항생제 사용 이전에는 비교적 흔한 질환이었으나 항생제 보급 이후로 드물게 보고 되고 있어서 진단이 지연되고 적절한 치료가 이루어지지 않으면 치명적인 경과를 취할 수 있다. 최근 전형적인 Lemierre 증후군의 임상양상을 보였던 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- Chirinos JA, Lichtstein DM, Garcia J, Tamariz LJ. The evolution of Lemierre syndrome: report of 2 cases and review of the literature. *Medicine* 2002; 81:458-65.
- Lemierre A. On certain septicemias due to anaerobic organisms. *Lancet* 1936;1:701-3.
- Golpe R, Marin B, Alonso M. Lemierre's syndrome (necrobacillosis). *Postgrad Med J* 1999;75:141-4.
- Hagelskjaer LH, Prag J, Malczynski J, Kristense JH. Incidence and clinical epidemiology of necrobacillosis, including Lemierre's syndrome, in Denmark 1990-1995. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis* 1998;17:561-5.
- Henry S, DeMaria A, McCabe WR. Bacteremia due to fusobacterium species. *Am J Med* 1983;75:225-31.
- Sinave CP, Hardy GJ, Fardy PW. The Lemierre syndrome: suppurative thrombophlebitis of the internal jugular vein secondary to oropharyngeal infection. *Medicine* 1989;68:85-94.
- Celikel TH, Muthuswamy PP. Septic pulmonary emboli secondary to internal jugular vein phlebitis (postanginal sepsis) caused by *Eikenella corrodens*. *Am Rev Respir Dis* 1984;130:510-3.
- Carrie S, Fenton PA. Necrobacillosis: an unusual case of pharyngotonsillitis. *J Laryngol Otol* 1994;108: 1097-8.
- Ahkee S, Srinath L, Huang A, Raff MJ, Ramirez JA. Lemierre's syndrome: postanginal sepsis due to anaerobic oropharyngeal infection. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1994;103:208-10.
- Seidenfeld SM, Sutker WL, Luby JP. Fusobacterium necrophorum septicemia following oropharyngeal infection. *JAMA* 1982;248:1348-50.
- Cosgrove EF, Colodny SM, Pesce RR. Adult respiratory distress syndrome as a complication of postanginal sepsis. *Chest* 1993;103:1628-9.
- Karkos PD, Karkanavatos A, Panagea S, Dingle A, Davies JE. Lemierre's syndrome: how a sore throat can end in disaster. *Eur J Emer Med* 2004;11: 228-30.