

## 혀 방선균증 1예

박선만<sup>1</sup> · 김철홍<sup>1</sup> · 김영진<sup>1</sup> · 김재현<sup>1</sup> · 우홍정<sup>1</sup> · 현인규<sup>1</sup> · 심정원<sup>2</sup> · 이재정<sup>3</sup>  
 한림대학교 의과대학 내과학교실<sup>1</sup>, 병리학교실<sup>2</sup>, 외과학교실<sup>3</sup>

### A Case of Tongue Actinomycosis

*Actinomyces israelii* is a normal flora of the oral cavity and gastrointestinal tract, and can cause chronic suppurative granuloma. We report here on a case of tongue actinomycosis. The patient was a 71-year old woman who had undergone surgery for rectal cancer 4 years previously. During the follow-up study using PET-CT, hypermetabolic activities were recognized at the lung hilum, mediastinum and tongue base. Bronchoscopic biopsy sample of the tongue base ulcer revealed histopathologically sulfur granule and aggregations of filamentous bacteria was diagnosed as actinomycosis of the tongue.

**Key Words:** Actinomycosis, Tongue

Sun-Man Park<sup>1</sup>, Cheol-Hong Kim<sup>1</sup>, Young-Jin Kim<sup>1</sup>, Jae-Hyun Kim<sup>1</sup>, Heungjeong Woo<sup>1</sup>, In-Gyu Hyun<sup>1</sup>, Jung-Weon Shim<sup>2</sup>, and Jae-Jung Lee<sup>3</sup>

Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, <sup>2</sup>Pathology, and <sup>3</sup>General Surgery, Hallym University College of Medicine, Seoul, Korea

## 서론

방선균증(Actinomycosis)은 그람 양성의 혐기성 세균인 *Actinomyces israelii*에 의해 발생하는 만성 화농성 감염증이다[1]. 전 세계적으로 발생하고 있으며 모든 연령층에서 생길 수 있다. 피부, 뇌, 심장막, 팔다리 등 신체 어느 부위에도 생길 수 있으나 두경부(55%), 가슴(15%) 및 복부(20%)가 비교적 흔하게 침범하는 부위이다[2]. 방선균은 구강 및 장내 정상 세균무리에 속한다. 따라서 불결한 구강 위생, 간질성 폐질환, 의식불명의 기왕력, 과도한 음주, 정신박약과 같은 흡인이 잘 되는 소인이 있을 때 인체감염을 잘 일으킨다. 그 자체로는 병원성이 낮기 때문에 점막에 손상이 오거나 괴사 조직이 조직 내로 침투하여 감염증을 일으키는 것으로 알려져 있다. 방사선 검사로는 정확한 진단을 내리기 어려우며 조직 검사나 배농을 통해 방선균을 동정하거나 세포 병리학 검사에서 실모양의(filamentous) 균과 함께 특징적인 유황과립(sulfur granule)을 확인함으로써 진단한다. 종괴를 형성하는 경우가 많아 악성 및 양성 종양으로 오인할 수 있으며 항생제 치료로 90% 이상 완치될 수 있으므로 정확한 진단이 필요하다[2-4].

혀를 침범한 경우는 전체 방선균증의 3%에 불과할 정도로 매우 드물다[5]. 저자들은 폐문과 종격동 부위의 림프절 종대에 대해 전이 여부를 확인하기 위한 검사과정에서 우연히 혀 방선균증을 진단하였고, 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증례

71세 여자가 내원 1개월 전부터 삼킴곤란증과 혀의 통증이 발생하여 대증적 치료를

Copyright © 2011 by The Korean Society of Infectious Diseases | Korean Society for Chemotherapy

Submitted: July 21, 2010

Revised: October 18, 2010

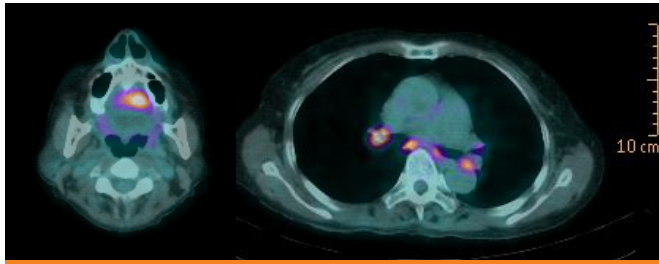
Accepted: October 18, 2010

Correspondence to Cheol-Hong Kim, M.D.,  
 Department of Internal Medicine, Hallym University  
 Hangang Sacred Heart Hospital, 94-200 Yeongdeungpo-dong,  
 Yeongdeungpo-gu, Seoul 150-719, Korea  
 Tel: +82-2-2639-5787, Fax: +82-2-2677-9756  
 E-mail: kimch2002@hallym.or.kr

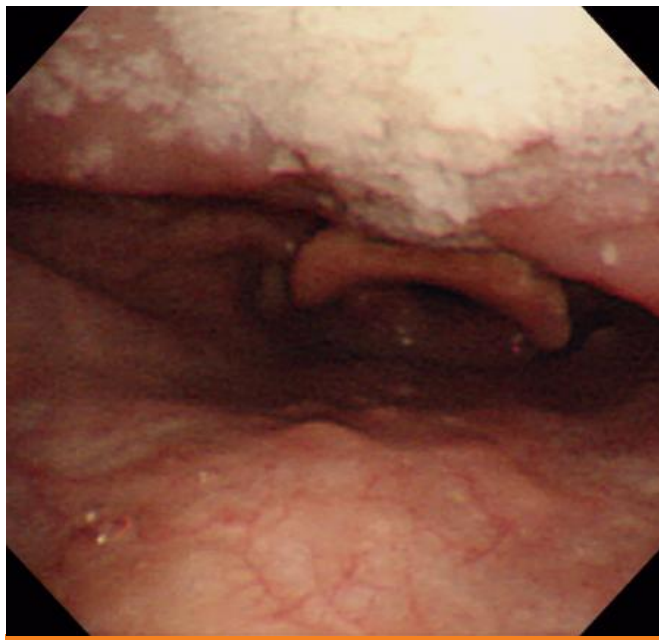
[www.icjournal.org](http://www.icjournal.org)

하였으나 호전되지 않아서 내원하였다. 4년 전 직장암으로 저위 전방절제술을 시행받았다.

내원 당시 활력징후는 혈압은 118/90 mmHg, 호흡수는 분당 20회, 맥박은 분당 76 회, 체온은 36.6℃ 이었다. 의식은 명료하였고 전신 상



**Figure 1.** PET-CT reveals intense hypermetabolic activities at the tongue and thoracic lymph nodes.

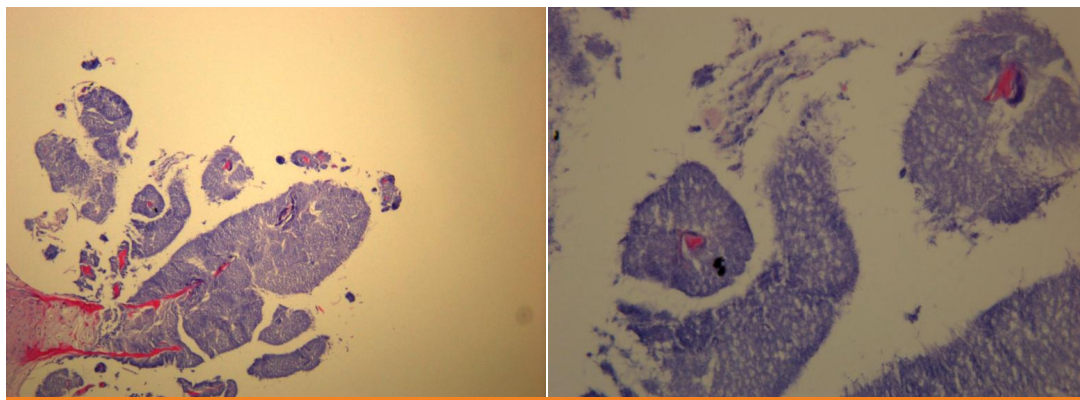


**Figure 2.** A bronchoscopic photograph showing an ulceration of the tongue base with whitish plaques.

태도 양호하였다. 흉부 청진에서 심음이나 호흡은 정상이었으며 신체 다른 부위의 이상 소견은 관찰되지 않았다. 말초 혈액 검사에서는 백혈구  $5,060/\text{mm}^3$  (호중구 81%), 혈색소 12.7 g/dL, 혈소판  $202,000/\text{mm}^3$  이었다. 혈청 생화학 검사에서 총단백질 6.7 g/dL, 알부민 4.2 g/dL, 총 빌리루빈 0.6 mg/dL, AST 19 IU/dL ALT 9 IU/dL, 혈액 요소질소 20.2 mg/dL, 크레아티닌 0.6 mg/dL 이었으며, 종양 표지자 검사에서 CEA 1.55 ng/mL (ref, 0–5.0 ng/mL), CA19-9 24.47 U/mL (ref, 0–39.0 U/mL) 였다. CRP 40.7 mg/L (ref, 0–8.0 mg/L), ESR 8 mm/hr (ref, 1–20 mm/hr) 이었다. 단순 흉부 방사선사진에서 특이 소견은 없었으며, 직장암 재발 여부를 확인하기 위해 시행한 PET-CT에서 폐문, 종격동 림프절 및 혀 기저부에서 과대사 활동(hypermatabolic activity) 소견이 관찰되었다(Fig. 1). 그 외 타 장기에서 특이 소견은 없었다. PET-CT에서 보였던 폐문 및 종격동 부위 림프절에 대해서 원인질환의 확인 및 다른 질환과의 감별을 위해 기관지내시경을 시행하였다. 우상엽, 우중엽 및 좌상엽 기관지에서 탄분 침착 이외 다른 소견은 관찰되지 않았다. 기관지세척액 항산균 도말 및 배양에서는 전부 음성으로 보고되었다. 우측 폐문 및 용골하 림프절 종대에 대한 경기관지 세침 흡인술의 결과에서 비특이적 염증이 보고되었으며, 혀 기저부위에 백태를 동반한 궤양(Fig. 2)의 생검에서는 유황과립(sulfur granule)을 형성하는 실모양의(filamentous) 균들이 다수 관찰되었다(Fig. 3). 경구 항생제 amoxicillin/clavulanate을 총 3 개월 투여 후 삼킴곤란증 및 혀의 통증이 호전되었다. 추적 기관지내시경에서는 혀 기저부의 백태 및 궤양은 더 이상 관찰되지 않았으며, PET-CT에서도 이전에 보였던 혀 및 가슴 림프절병증에서의 과대사 활동(hypermatabolic activity)이 많이 감퇴하였다.

## 고찰

방선균은 Bollinger가 1877년 가축에서 “lumpy jaw”를 보고하며 *Actinomyces bovis*를 처음 발견하였고, 1891년 James Israel이 인간에서 균주를 처음으로 분리하여 *A. israelii*로 명명하였다[6]. 방선균은 많은 잔섬유를 가지는 그람 양성 혐기성 세균이다. 구강, 편도 혹은 충



**Figure 3.** The bronchoscopic biopsy shows organized aggregations of filamentous bacteria forming sulfur granules (H&E stain, left:  $\times 40$ , right:  $\times 400$ ).

치 안에 존재할 수 있는 상재균으로 주로 두경부, 호흡기 및 소화기계에 감염증을 일으킨다. 혈액이나 림프액을 통하지 않고, 주위 조직으로 직접 침습하므로 림프절 종대 동반은 흔하지 않다. 가장 흔한 원인균은 *A. israelii* 이나, *A. viscosus*, *A. odontolyticus*, *A. naeslundii* 등도 인체 감염증을 유발할 수 있다. 정상적으로는 점막 장벽을 뚫지 못하므로 이 물질 혹은 어떤 내·외적 인자에 의해 점막 손상이 선행되어야 한다. 두경부형의 경우, 주로 치과적 시술이나 외상에 의한 점막 손상으로 인해 혐기성 환경으로 바뀌면서 방사균의 유입 및 증식에 의해서 생긴 것이라고 볼 수 있다[2, 4]. 한편, 위내시경 시술 중 단단입천장(hard palate)에 외상을 입혀 방사균증이 생기는 경우도 있다[7]. 주로 20-30대에서 흔히 발생하고 여성 보다는 남성에서 2-4배 더 호발 한다. 인종이나 지역 간의 차이는 없으며, 위험인자로는 당뇨, 면역저하, 스테로이드 장기투여, 영양실조 등 보다는 선행 호흡기질환, 알코올 중독에서 잘 이환하는 것으로 알려져 있다[4, 8, 9].

혀 방사균증은 매우 드물어서 전체 방사균증의 약 3%에서만 보고되고 있다[5]. 1989년 Brignall 등은 지난 20여 년간 문헌 고찰에서 경우 7예, 2006년 Atespare 등은 그 때까지 보고된 경우가 총 15예를 넘지 않는다고 하였다[10, 11]. 국내의 경우는 문헌검색을 통해 2예만이 확인된다[12, 13]. 이와 같이 혀 방사균증이 드문 이유는 혀의 각질화, 풍부한 혈관 분포, 타액에 의한 기계적 세척 효과 등 조직생리학적으로 인해 방사균증 감염에 저항력을 가지고 있기 때문으로 생각된다[10]. 삼킴곤란증, 통증, 미열 등이 있을 수 있으나 대부분 비특이적이기 때문에 임상적으로 의심하지 않으면 진단을 놓치기 쉽다. 치료하지 않으면 안면부나 경추부위에 골수염 등이 올 수 있다. 하지만 중추신경계의 농양, 뇌수막염 등의 합병증은 매우 드문 것으로 되어 있다[14]. 감별진단으로는 혀 농양, 노카르디아증, botryomycosis 등의 감염성 질환과 과립세포종양, 신경종, 신경초종, 림프관종, 육종, 전이성 종양 등의 종양성 질환으로 대변할 수 있다. 진단은 일반적으로 배양결과 방사균이 검출되고 병리조직학적으로 만성 육아종성 염증 소견을 보이면서 특징적으로 병변 내에서 유황과립이 존재할 때 내려지게 되지만 부적절한 배양기술과 타균주의 과다 성장, 이전의 항생제 치료 등으로 인해 균주가 50% 미만에서만 동정되므로, 병리조직학적인 소견이 진단에 결정적으로 작용한다[10, 11]. 진단이 늦어지면 다른 종양성 병변으로 오인하기 쉬우므로 조기에 임상적으로 의심하여 조직검사를 시행하는 것이 방사균증을 감별하는데 있어 매우 중요하다.

치료는 항생제 치료와 함께 외과적인 절제 및 배농술이 원칙이다. 항생제가 주된 치료 방법이며 고용량으로 장기간 사용해야 하는데 그 이유는 섬유화된 벽을 통과하고 유황과립의 중심부까지 약제가 도달하여야 하기 때문이다. 아직까지는 penicillin이 주요 치료제이며, penicillin 부작용이 있으면 clindamycin, erythromycin, tetracycline, lincomycin 및 ceftriaxone 을 고려해 볼 수 있다. Belmont 등은 혀의 기저부에 발생한 방사균증에 대해서 경구 penicillin 6주 처방으로 재발 없이 완치시킬 수 있다고 하였다[15]. 항균제 치료로 약 90%에서 완치가 되나 수 개월 혹은 수년 후에 재발하는 경우가 있으므로 장기적인 추적 이 필요하다[1].

중례는 4년 전 직장암으로 저위 전방절제술 시행한 뒤 검사상 재발

은 없었고 외래에서 경과를 관찰하던 환자로, 선행 호흡기 질환이나 알코올 섭취 등으로 인한 흡인의 소인은 없었으며 구강 내 위생도 비교적 양호한 상태로 지내온 환자였다. 과거 직장암의 재평가를 위해 시행한 PET-CT에서, 혀 기저부 및 가슴 림프절병증에 과대사 활동(hypermetsabolic activity) 소견이 관찰되어, 기관지내시경 검사에서 폐문 및 용골하 림프절병증은 비특이적 염증으로, 혀 기저부의 궤양에서 방사균증으로 보고되어, amoxicillin/clavulanate 3개월 치료 후 임상적 및 방사선학적으로 호전된 예이다. 방사균증에서 주변 림프절 비대는 진행된 경우 종종 관찰되며 이 역시 치료에 반응을 보이는 것으로 알려져 있는데[12], 폐문 및 종격동 림프절병증도 호전된 것으로 보아 방사균에 의한 반응 증식(reactive hyperplasia)이었던 것으로 사료된다.

국내에서는 중년 및 고령 여성에서 악성종양과의 감별을 위해 외과적 절제 후 비로소 진단된 혀 방사균증 예들이 있다[12, 13]. 본 중례는 혀에 발생한 병변이 덩어리가 아니고 국소적 궤양이었으며, 외과적 절제가 아닌 생검을 통해 진단한 것이 차이점이라 할 수 있다. 외국의 경우도 크게 다르지 않은데, 혀를 깨문 후 덩어리가 생겨 외과적 절제 후 진단한 예[1], 삼킴곤란증을 동반한 혀의 경화성 병변에서 Tru-Cut 바늘 생검을 통해 진단한 예[11], 혀 기저부의 궤양성 종양에 대해 외과적 절제 후 진단된 예[16] 등이 있다.

혀 방사균증은 일반적으로 혀의 동통성 혹은 비동통성 종창에서부터 소결절, 궤양 혹은 덩어리로 임상 발현하며, 치료하지 않으면 국소적으로 농양을 형성할 수 있고, 주변부에 셋길(fistula)을 만들어 고름이 배액될 수 있으며, 턱끝밑부위에 까지 침습하여 연부조직의 궤양 및 골수염 등의 심각한 합병증을 유발할 수 있다[11]. 따라서 목얼굴 방사균증의 범주에 포함시켜 설명하기도 한다. 목얼굴 방사균증의 경우, 수술 전 방사선학적 추정 진단은 종양이 가장 많고, 그 다음이 결핵 및 진균 감염 등이다. 또한 경부 림프절 증대도 빈번하게 관찰된다[12]. 덩어리로 발현한 경우는 악성종양과의 감별 때문에 대개는 외과적 절제 혹은 조직학적 검사가 진행되나, 궤양 혹은 종창으로 발현한 경우는 의심하지 않으면 생검 등의 적극적인 검사가 이루어지지 않을 수 있다. 이러한 점이 국내 보고가 적은 이유가 될 수 있을 것으로 사료된다. 따라서, 혀의 궤양성 병변에 대해서도 적극적으로 진단하고자 노력해야 할 것이다. 또한, 중례의 경우처럼 직장암 등의 악성종양 기왕력이 있는 환자에서 PET-CT에서 과대사 활동(hypermetsabolic activity) 소견이 관찰될 경우 신생 혹은 전이성 병변 이외에도 방사균증 같은 양성 질환도 반드시 감별진단에 포함시켜야 할 것으로 생각된다.

## References

1. Habibi A, Salehinejad J, Saghati S, Mellati E, Habibi M. Actinomycosis of the tongue. Arch Iran Med 2008;11:566-8.
2. Brown JR. Human actinomycosis. A study of 181 subjects. Hum Pathol 1973;4:319-30.
3. Bartlett JG, Gorbach SL. Anaerobic infections of the head and neck. Otolaryngol Clin North Am 1976;9:655-78.

4. Bennhoff DF. Actinomycosis: diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. *Laryngoscope* 1984;94:1198-217.
5. Kuepper RC, Harrigan WF. Actinomycosis of the tongue: report of case. *J Oral Surg* 1979;37:123-5.
6. Bartels LJ, Vrabec DP. Cervicofacial actinomycosis. *Arch Otolaryngol* 1978;104:705-8.
7. Yoo JJ, Park SY, Ryu SH, Hong JY, Lee JS, Eom JS. A Case of esophagogastrroduodenoscopy associated actinomycosis presenting as ulcers of hard palate. *Infect Chemother* 2009;41:355-8.
8. Schaal KP, Lee HJ. Actinomycete infections in humans--a review. *Gene* 1992;115:201-11.
9. Mabeza GF, Macfarlane J. Pulmonary actinomycosis. *Eur Respir J* 2003;21:545-51.
10. Atespare A, Keskin G, Erçin C, Keskin S, Camcioglu A. Actinomycosis of the tongue: a diagnostic dilemma. *J Laryngol Otol* 2006;120:681-3.
11. Brignall ID, Gilhooly M. Actinomycosis of the tongue. A diagnostic dilemma. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1989;27:249-53.
12. Park JK, Lee HK, Ha HK, Choi HY, Choi CG. Cervicofacial actinomycosis: CT and MR imaging findings in seven patients. *AJNR Am J Neuroradiol* 2003;24:331-5.
13. Yang JH, Park YW, Yoo JY, Park CI. A case of actinomycosis in tongue. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1988;31:1031-3.
14. Kaplan RJ. Neurological complications of infections of head and neck. *Otolaryngol Clin North Am* 1976;9:729-49.
15. Belmont MJ, Behar PM, Wax MK. Atypical presentations of actinomycosis. *Head Neck* 1999;21:264-8.
16. Lahoz Zamarró MT, Laguía Pérez M, Muniesa Soriano JA, Martínez Sanz G. Base tongue actinomycosis. *Acta Otorrinolaringol Esp* 2005;56:222-5.