



## 지역 사회에서 발생한 ESBL 생성 *E. coli*에 의한 치골결합 골수염 1예

손경목<sup>1</sup> · 김연숙<sup>1</sup> · 천신혜<sup>1</sup> · 정현<sup>1</sup> · 구선희<sup>2</sup> · 황득수<sup>3</sup>  
충남대학교병원 내과<sup>1</sup>, 진단검사의학과<sup>2</sup>, 정형외과<sup>3</sup>

### Community-Onset Extended-Spectrum Beta-Lactamase-Producing *Escherichia coli* Osteomyelitis of the Pubic Symphysis

Osteomyelitis of the pubic symphysis or pubic osteomyelitis is a rare disease entity. Predisposing factors include trauma, pelvic or urologic surgery, intravenous drug abuse, pelvic malignancy, parturition and cardiac catheterization. Pathogens vary depending on the risk factors. The most frequent causative organism is *Staphylococcus aureus*. Gram-negative bacteria such as *Pseudomonas aeruginosa* and *Escherichia coli* are also common pathogens. However, pubic osteomyelitis due to community-onset extended-spectrum beta-lactamase (ESBL)-producing *Escherichia coli* has not previously been described. We present a patient with pubic osteomyelitis caused by ESBL-producing *Escherichia coli* without known predisposing factors except for diabetes.

**Key Words:** Osteomyelitis, Pubic symphysis, *Escherichia coli*, Beta-lactamases, Drug resistance

Kyung Mok Sohn<sup>1</sup>, Yeon-Sook Kim<sup>1</sup>, Shinye Cheon<sup>1</sup>,  
Hyeon Jung<sup>1</sup>, Sun Hoe Koo<sup>2</sup>, and Deuk-Soo Hwang<sup>3</sup>

Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, <sup>2</sup>Laboratory Medicine, and <sup>3</sup>Orthopedic Surgery, Chungnam National University Hospital, Daejeon, Korea

## 서론

치골결합 골수염(osteomyelitis of the pubic symphysis or pubic osteomyelitis)은 드문 질환으로 발생률이 모든 혈행성 골수염의 1% 미만으로 알려져 있다[1]. 비뇨기과나 산부인과 수술을 받은 환자, 운동선수, 골반 악성종양 환자, 산모, 정맥내 마약사용자 등 특정 집단에서 주로 발생한다[2]. 초기에 비슷한 증상을 보이는 비 감염성 질환인 치골염(osteitis pubis)의 경우 보존적 치료로 저절로 좋아질 수 있는데 반해, 치골결합 골수염은 진단이 늦어지거나 방치할 경우 골반의 불안정이 동반되거나 반복적인 재발로 수술이 필요할 수 있고 이환 기간이 길어지면 만성 골수염으로 진행하기도 한다[2, 3]. 당뇨병 자체가 치골결합 골수염의 위험인자로 제시된 적은 있으나[4] 예가 드물고, extended-spectrum beta-lactamase (ESBL) 생성 대장균에 의한 치골결합 골수염은 보고된 적이 없다. 저자들은 특별한 위험 인자 없이 당뇨병만 있는 환자에서 지역사회에서 발생한 ESBL 생성 대장균에 의한 치골결합 골수염을 경험하였다. 수술 없이 항생제 치료로 좋은 임상적 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

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

Submitted: April 18, 2011

Revised: May 3, 2011

Accepted: May 4, 2011

Correspondence to Yeon-Sook Kim, M.D., Ph.D.

Division of Infectious Diseases, Department of Internal Medicine, Chungnam National University Hospital, 282 Munhwa-ro, Jung-gu, Daejeon 301-721, Korea

Tel: +82-42-280-8109, Fax: +82-42-257-5753

Email: alice@cnuh.co.kr

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

## 증례

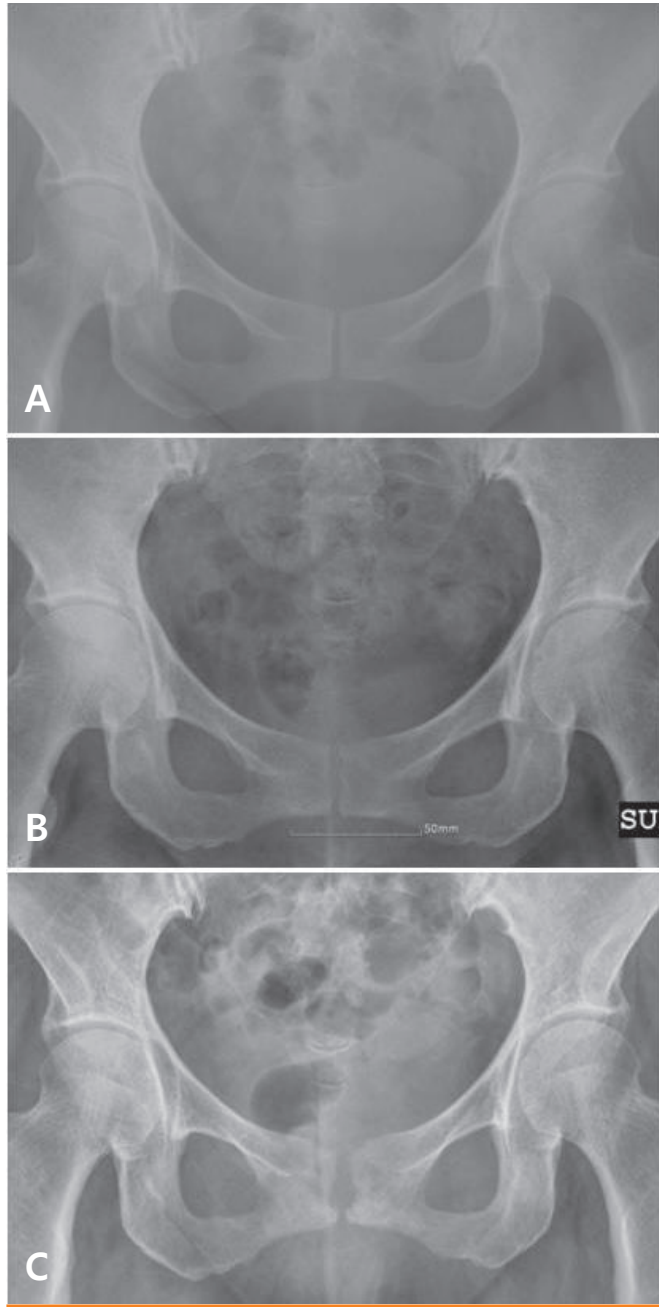
59세 여자가 2주간의 양측 서혜부 통증을 동반한 보행장애로 정형외과 외래를 방문하였다. 동네 의원에서 방사선 및 초음파 검사를 실시하였으나 특별한 이상은 없었고 소염진통제의 복용에도 증상은 호전되지 않았다. 초기 단순 방사선 사진과 골반 컴퓨터 단층촬영에서 심하지 않은 양측 고관절의 퇴행성 변화 외의 이상소견은 없었다. 통증이 지속되어 산부인과 진료를 받았으나 특이 소견은 없었고, 소염진통제 복용에

도 점차적으로 통증이 증가하여 외래 방문 약 1개월 후 시행한 골반 자기공명영상에서 이상소견이 발견되어 입원하였다. 3년 전 당뇨병을 진단 받고 경구 혈당강하제로 조절 중이었으며 다른 과거력은 없이 평소 건강하게 지냈다. 통증 발생 전후에 요로 감염의 증상이나 징후는 없었고 항균제 사용력도 없었다.

활력징후는 혈압 100/60 mmHg, 맥박 수 70회/분, 호흡 수 20회/분, 체온은 36.7℃ 이었고 급성병색을 보였다. 걸음은 느리면서 몸을 앞으로 약간 숙인 상태에서 근육병증 걸음(waddling gate)을 하였고, 보행 시 서혜부 및 치골결합 부위에 심한 통증을 호소하였다. 이학적 검사 상 치골결합 부위에 심한 압통을 호소하였고 하지의 근력과 감각은 정상이었다. 말초혈액 검사에서 백혈구 8,190/mm<sup>3</sup> (호중구 70.8%, 림프구 22.3%, 단핵구 4%), 혈색소 13.0 g/dL, 헤마토크리트 39.3%, 혈소판 272,000/mm<sup>3</sup>, 적혈구침강속도 120 mm/hr, C-반응단백질 4.1 mg/dL 이었다. 공복 시 혈당이 343 mg/dL 이었으며 다른 혈청 생화학 검사와 전해질은 정상이었다. 혈액 및 소변배양에서 자라는 균은 없었다.

초기 외래 방문 당시 정상으로 보였던 단순 골반 방사선 사진은 2주 후 치골결합 골 파괴와 관절간격증가가 관찰되었고, 약 1개월 후 입원 시점에서는 더욱 진행한 모습을 볼 수 있었다(Fig. 1). 방사성 동위원소를 이용한 뼈 스캔에서 삼상 모두 치골결합부 섭취가 증가하여 골수염이 의심되었다(Fig. 2). 자기공명영상에서는 폐쇄근(obturator)과 치골근(pectineus)까지 염증 파급이 보이는 치골염(osteitis pubis) 소견을 보였다(Fig. 3).

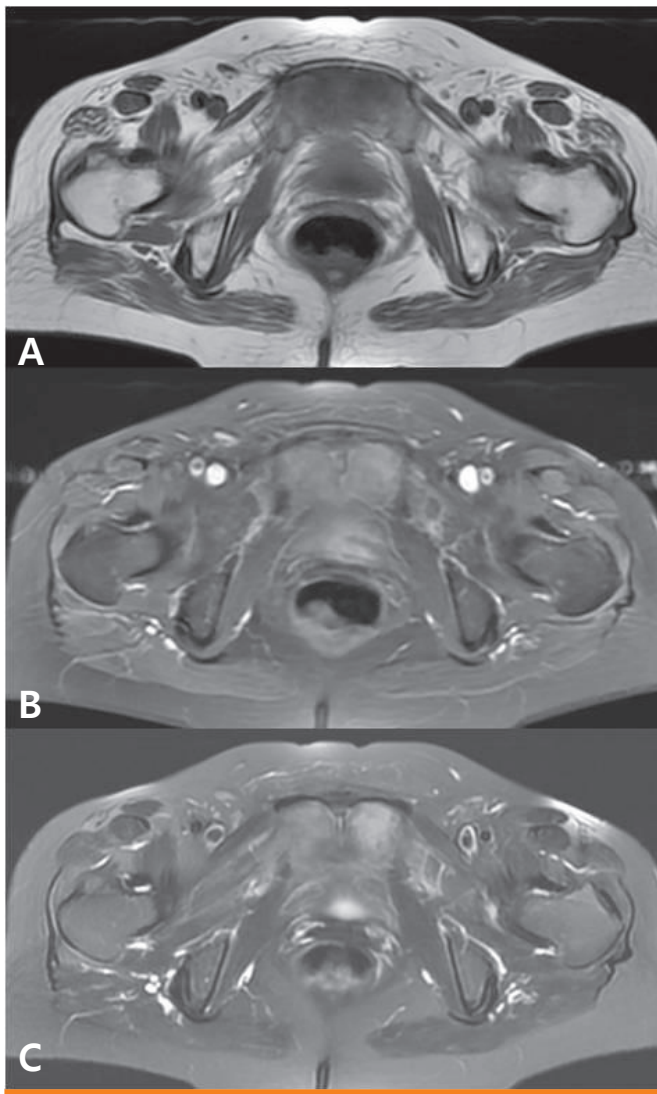
2세대 세팔로스포린 항생제 사용 후 감염내과로 전과되었고 원인 균을 알아보기 위해 입원 8일째 절개 생검을 시행하였다. 조직소견은 괴사를 동반한 급성 화농성 염증과 과립형성(granulation)을 보였다. 생검 조직 배양에서 ESBL 생성 대장균이 동정되어 입원 15일째부터 meropenem을 시작하여 4주간 유지하였다. 항균제 감수성 검사는 VITEK II 자동화 시스템을 통해 이루어졌고, 동정된 대장균은 fluoroquinolone, cotrimoxazole, aztreonam, cefepime,



**Figure 1.** (A) Initial pelvic radiograph at the outpatient clinic showed normal pubic symphysis. (B) Follow up (2 weeks later) pelvic radiograph demonstrated bone destruction and irregularity of the margin of the pubic symphysis, mainly on the left side. (C) Follow up (1 month later) pelvic radiograph showed more destructive bone structure of the pubic symphysis.



**Figure 2.** Three phase bone scan (delayed image). Showed uptake on the symphysis pubis.



**Figure 3.** Magnetic resonance image. (A) T1-weighted image showed decreased signal intensity in medial aspects of both pubic bones. (B) Gadolinium enhanced T1-weighted image demonstrates an increased signal intensity. (C) T2-weighted MRI of the pelvis shows high signal intensity in medial aspects of both pubic bones. These images suggested inflammatory extension to the adjacent obturator externus and pectineus with myositis.

tobramycin 및 piperacillin/tazobactam에 내성이었다. Amikacin, gentamicin, cefoxitin에는 감수성을 나타내었다. 입원 기간 중 발열은 없었고 통증과 적혈구침강속도 및 C-반응단백질이 50 mm/hr, 0.2 mg/dL 까지 점차 감소하여 퇴원하였다. 이후 외래에서 ertapenem을 2주 동안 유지하였으며 치료 종결 시 적혈구침강속도는 23 mm/hr, C-반응단백질은 0.1 mg/dL 였고 통증은 소실되었다. 이후 3개월 동안 추적 관찰에서 재발의 증상이나 징후는 없었다.

## 고찰

치골결합 골수염의 발병 기전은 불명확하다. 수술이나 외상 후 혈행

성 전파에 의하거나 골반 주위의 감염원으로부터 전파되어 발생하는 것으로 생각된다[2]. 비뇨기과나 산부인과 수술, 운동, 분만, 골반 중앙, 정맥내 마약 사용, 탈장 수술, 심장도관삽입술 등이 위험인자로 알려져 있으나 특별한 질환 없이 건강했던 사람에서 발생한 경우도 있다[2]. 이 환자의 경우와 같이 당뇨병 이외에는 특별한 원인을 찾을 수 없는 경우도 있어[4, 5] 당뇨병 자체가 위험인자일 수 있다.

원인균은 황색포도알균, 녹농균, 대장균, 장알균, 결핵균, 사슬알균, 살모넬라, 혐기균 등이 알려져 있으며, 황색포도알균이 가장 흔하다[2, 3, 6, 7]. 특히 운동선수에서 발생한 경우 황색포도알균이 가장 흔하고, 정맥내 마약 사용자의 경우 녹농균이, 골반 중앙 환자의 경우 복합균 감염이 가장 흔하다. 치골결합 골수염은 환자의 50-70% 에서 균혈증을 동반하는 것으로 보고되어 있으나[2, 3, 8], 이 환자에서는 균혈증은 동반되지 않았다. 치골결합 골수염의 원인균으로 ESBL 생성 대장균이 보고된 적은 없다. 지역사회에서 발생한 ESBL 생성 대장균 감염의 위험인자로는 >60세, 당뇨병, 반복적 요로감염, 배뇨관 거치, 침습적 요로 시술, 항균제 사용력 등이 알려져 있다[9]. 본 증례의 환자는 당뇨병 이외에는 건강하였고 ESBL 생성 대장균 감염의 다른 위험인자는 없었다. 우리나라 지역사회 대장균 혈류감염의 4.1% 가 ESBL 생성균으로 그 중 약 60%가 의료 관련(healthcare-associated) 감염이고 나머지가 지역사회 감염으로 알려져 있다[10]. 최근 보고에서는 지역사회 ESBL 생성 대장균에 의한 균혈증이 9.5%로 증가하여 국내 지역사회에서도 ESBL 생성 대장균이 증가하고 있는 것으로 생각된다[11].

치골염(osteitis pubis)은 1924년 치골상부 방광루설치술 후 발생한 합병증 중 하나로 처음 기술되었다[12]. 심한 골반통과 넓은 보폭의 오리걸음을 동반한 치골결합부의 골 파괴를 특징으로 하며 일반적으로 열은 없고 발병기전은 불명확하다. 보존적 치료로 좋아지는 비 감염성 질환으로 알려져 있다[3, 5, 6, 13]. 위험 인자 등에 대한 자세한 병력 청취 만으로는 치골염과 치골결합 골수염을 구별할 수 없다[5]. 또한 치골염으로 진단받고 아무런 치료 없이 호전되는 경우도 있으나 증상이 심해진 후 골수염으로 진단되는 경우도 있어[3, 14] 본 증례처럼 치골염이 의심되는 모든 환자는 감염에 의한 골수염의 가능성에 대해 적극적인 평가가 필요하다.

치골결합 골수염은 드문 질환이고, 다른 정형외과나 비뇨기, 산부인과 질환들과 감별이 어려운 경우가 있어 진단이 늦어 지는 경우가 흔하다[15]. 이 환자의 경우 증상의 발생으로부터 진단까지의 기간이 45일 정도였고, 문헌에서도 진단까지 평균 29일(1-180일)이 걸렸다[4]. 이는 증상이 서서히 나타나는 경우가 많고 임상적으로 의심을 많이 하지 않아서 일 수 있다[4]. 치골결합 골수염 혹은 치골염은 치골결합부 통증 혹은 압통, 고관절 외전시 통증이 발생할 때 의심해 보아야 한다. 통증은 주로 걸을 때 발생하며 주위로 방사통이 발생할 수 있다[6]. 일어 서거나 걸을 때 곧은근(rectus)이나 내전근(adductor)의 경련 때문에 몸을 앞으로 숙이게 되며 방사통은 한쪽 혹은 양쪽 서혜부 모두에서 발생할 수 있다. 초기에는 하중을 가하면 통증이 증가하고 쉬면 감소하지만 진행하면 지속적인 통증을 호소하게 된다. 특히 골수염의 경우 치골염과는 달리 점진적으로 통증이 증가하게 된다[5]. 본 증례의 환자는 초기에는 주로 걸을 때 서혜부와 고관절 통증만을 호소하였고, 점차 진행하여 약

한 달 후에는 가만히 있을 때도 치골결합부의 심한 통증을 호소하였다.

치골결합 골수염 환자의 70-100% 정도에서 발열이 있었고 혈액검사에서 염증반응이 있었다[2, 3]. 그러나 전형적인 감염의 증상이나 징후가 없거나 백혈구 수, C-반응단백질, 적혈구침강속도가 정상일 수 있다[2, 6, 13]. 실제로 우리가 경험한 환자의 경우에도 발열과 백혈구 증가가 없었고 혈액 검사에서도 염증반응이 뚜렷하지 않았다. 단순 방사선 사진에서는 시간의 경과에 따라 치골의 파괴와 치골결합 간격의 증가를 확인 할 수 있다[5]. 컴퓨터단층촬영의 경우 뼈의 파괴나 농양, 치골결합 간격의 증가 등을 확인할 수 있지만 정상으로 보일 수 있다[2]. 초기에는 단순 방사선 사진이 정상일 수 있으므로 뼈 스캔이나 자기공명영상인 더 도움이 된다. 뼈 스캔에서는 방광 내 동위원소 축적으로 치골결합부와 구분이 잘 안 될 수 있다[8, 16]. 한 보고에 의하면 자기공명영상은 모든 환자에서 이상소견을 발견할 수 있었고 특히 골반 내전근이나 폐쇄근의 부종도 관찰할 수 있었다[2]. 본 증례에서 전형적인 방사선 사진의 변화와 삼상 모두에서 섭취가 증가된 뼈 스캔을 확인할 수 있으며 자기공명영상에서 골반 치골근(pectineus)과 폐쇄근의 염증을 확인할 수 있다(Fig. 1-3). 치골결합 골수염의 확진을 위해서는 세침흡인술이나 개방 생검 등으로 균을 증명해야 하며[2, 5, 6], 이미 항생제를 사용한 경우에도 원인 미생물이 자랄 수 있으므로 적극적인 검체 배양이 필요하다[5].

일반적으로 다른 골수염처럼 적어도 4-6주간의 항균제 치료가 추천되며 항균제에 반응이 없거나 방사선 소견이나 임상증상이 심한 경우 제한적으로 수술이 필요할 수 있다[2, 5, 8, 16]. 10명의 운동선수에서 발생한 치골결합 골수염 환자 중 반복적인 재발로 수술이 필요한 환자는 1명이었고, 완전히 회복한 환자 7명의 평균 회복기간은 3.21개월이었다[3]. 치골결합 화농성 관절염 100예를 분석한 보고에 따르면 97%에서 골수염이 있었고 55%의 환자가 수술이 필요하였다. 평균 54일 동안 항생제를 투여했으며, 평균 32일 정맥주사 후 평균 21일 동안 경구로 복용하였다. 재발한 환자가 3명이었고 항생제 사용기간이 짧았던 1명을 제외하면 황색포도알균에 의한 재발이었으며 사망률은 2%였다[2].

ESBL (CTX-M-14) 생성 대장균에 의한 척추 골수염의 치료에서 ertapenem의 실패를 보고한 예가 있고, 이는 염증이 있는 골 조직에 ertapenem의 농도가 적절히 유지되지 못하는 것에 기인한다고 하였다[17]. 그러나 실패를 보고한 예에서는 ertapenem을 초기 치료제로 사용한 반면 처음에는 다른 종류의 카바페넴 사용 후 공고요법(consolidation)으로 ertapenem을 사용한 경우 좋은 임상적 결과를 얻었다는 보고도 있다[18]. 우리가 경험한 환자의 경우 meropenem의 사용기간만으로도 충분하였을 가능성도 있으나, 초기 meropenem 사용 후 외래에서 공고요법으로 ertapenem을 사용하여 좋은 결과를 얻었다.

치골결합 골수염은 드물고 증상과 징후가 모호하여 진단이 쉽지 않다. 특히 걸을 때 악화되는 치골 통증을 호소하는 환자들은 치골결합 골수염을 의심해 보아야 하며 치골염과의 적극적인 감별이 필요하다. 원인으로 황색포도알균이 가장 흔한 것으로 알려져 있으나 임상적으로 원인균의 예측이나 비 감염성 치골염과의 감별이 불가능하고[5], 본 증례와 같이 내성이 문제가 될 수 있으므로 적극적인 조직 검사 및 배양이 필요하다. 또한 다른 선행 요인이 없는 치골결합 골수염 환자에서 당뇨병

자체가 위험인자일 수 있으며 지역사회에서 발생한 경우라도 ESBL 생성 균주에 대한 주의가 필요하다.

## References

1. Ukwu HN, Graham BS, Latham RH. Acute pubic osteomyelitis in athletes. Clin Infect Dis 1992;15:636-8.
2. Ross JJ, Hu LT. Septic arthritis of the pubic symphysis: review of 100 cases. Medicine (Baltimore) 2003;82:340-5.
3. Choi H, McCartney M, Best TM. Treatment of osteitis pubis and osteomyelitis of the pubic symphysis in athletes: a systematic review. Br J Sports Med 2011;45:57-64.
4. Dourakis SP, Alexopoulou A, Metallinos G, Thanos L, Archimandritis AJ. Pubic osteomyelitis due to *Klebsiella pneumoniae* in a patient with diabetes mellitus. Am J Med Sci 2006;331:322-4.
5. Knoeller SM, Uhl M, Herget GW. Osteitis or osteomyelitis of the pubis? A diagnostic and therapeutic challenge: report of 9 cases and review of the literature. Acta Orthop Belg 2006;72:541-8.
6. Pauli S, Willemsen P, Declerck K, Chappel R, Vanderveken M. Osteomyelitis pubis versus osteitis pubis: a case presentation and review of the literature. Br J Sports Med 2002;36:71-3.
7. Bayrakci K, Daglar B, Tasbas BA, Agar M, Gunel U. Tuberculosis osteomyelitis of symphysis pubis. Orthopedics 2006;29:948-50.
8. Smith EL, Martin RP, Matzkin E, Moyer ML. Osteomyelitis of the pubic symphysis. Orthopedics 2003;26:1233-5.
9. Rodríguez-Baño J, Alcalá JC, Cisneros JM, Grill F, Oliver A, Horcajada JP, Tórtola T, Mirelis B, Navarro G, Cuenca M, Esteve M, Peña C, Llanos AC, Cantón R, Pascual A. Community infections caused by extended-spectrum beta-lactamase-producing *Escherichia coli*. Arch Intern Med 2008;168:1897-902.
10. Kang CI, Cheong HS, Chung DR, Peck KR, Song JH, Oh MD, Choe KW. Clinical features and outcome of community-onset bloodstream infections caused by extended-spectrum beta-lactamase-producing *Escherichia coli*. Eur J Clin Microbiol Infect Dis 2008;27:85-8.
11. Kang CI, Song JH, Chung DR, Peck KR, Ko KS, Yeom JS, Ki HK, Son JS, Lee SS, Kim YS, Jung SI, Kim SW, Chang HH, Ryu SY, Kwon KT, Lee H, Moon C, Shin SY; Korean Network for Study of Infectious Diseases (KONSID). Risk factors and treatment outcomes of community-onset bacteraemia caused by extended-spectrum beta-lactamase-producing *Escherichia coli*. Int J Antimicrob Agents 2010;36:284-7.
12. Beer E. Periostitis and ostitis of the symphysis and the rami of the pubis following suprapubic cystotomies. Int J Med Surg 1924;237:233-6.

13. Rosenthal RE, Spickard WA, Markham RD, Rhamy RK. Osteomyelitis of the symphysis pubis: a separate disease from osteitis pubis. Report of three cases and review of the literature. *J Bone Joint Surg Am* 1982;64:123-8.
14. Sexton DJ, Heskestad L, Lambeth WR, McCallum R, Levin LS, Corey GR. Postoperative pubic osteomyelitis misdiagnosed as osteitis pubis: report of four cases and review. *Clin Infect Dis* 1993;17:695-700.
15. Packer GJ, Lennox CM. Delay in the diagnosis of osteomyelitis pubis. *Br J Clin Pract* 1993;47:340.
16. Karpos PA, Spindler KP, Pierce MA, Shull HJ Jr. Osteomyelitis of the pubic symphysis in athletes: a case report and literature review. *Med Sci Sports Exerc* 1995;27:473-9.
17. Lee CH, Su LH, Lin WC, Tang YF, Liu JW. Refractory vertebral osteomyelitis due to CTX-M-14-producing *Escherichia coli* at ertapenem treatment in a patient with a coexisting urinary tract infection caused by the same pathogen. *Int J Infect Dis* 2010;14 (Suppl 3):e183-6.
18. Berg ML, Crank CW, Philbrick AH, Hayden MK. Efficacy of ertapenem for consolidation therapy of extended-spectrum beta-lactamase-producing gram-negative infections: a case series report. *Ann Pharmacother* 2008;42:207-12.