

# 스파르가눔 감염에 의한 호산구성 흉막염으로 추정되는 환자 1명에 대한 프라지판텔 치료경험 보고

최민호<sup>1</sup> · 김호태<sup>1</sup> · 곽태영<sup>1</sup> · 엄석현<sup>1</sup> · 김영성<sup>1</sup> · 곽동협<sup>1</sup> · 김정희<sup>2</sup>

곽병원 내과<sup>1</sup>, 병리과<sup>2</sup>

## Praziquantel Treatment of an Eosinophilic Pleuritis Patient Suspected to Be Due to Sparganum Infection

Human sparganosis is caused by the larval tapeworm of genus *Spirometra*. This parasite commonly invades subcutaneous tissues and muscles. However, infection in the pleural cavity is rare. A 65-year-old male patient, who had undergone surgical excision of subcutaneous masses due to a parasite infection (presumed to have been sparganosis) approximately 10 years ago, showed pleural effusion and peripheral eosinophilia. The anti-sparganum specific IgG antibody levels in the serum and pleural fluid were significantly higher than the normal control levels. Three consecutive doses of praziquantel (75 mg/kg/day) were administered for control of pleural effusion and peripheral eosinophilia. In this patient, sparganosis was suspected, and the probable cause of the infection was ingestion of raw snakes and frogs. Immunoserologic tests using ELISA can be helpful in diagnosis of pleural sparganosis and praziquantel is suggested as an alternative treatment for surgically unresectable cases.

**Key Words:** Eosinophilic pleuritis, Sparganosis, Praziquantel

## 서론

스파르가눔증(sparganosis)은 만손열두조충(*Spirometra erinacei*)의 유충인 스파르가눔(sparganum, 즉 plerocercoid of *S. erinacei*)이 감염된 뱀이나 개구리를 생식할 때 감염되어 유충이 장벽을 뚫고 조직으로 이행하면서 발생한다[1, 2]. 전 세계적으로 광범위하게 분포하고 특히 아시아에서 중요한 인수공통감염 중의 하나이며, 우리나라는 농후한 유행지의 하나로 알려져 있다[3, 4].

스파르가눔 유충의 주된 기생 부위는 복벽, 음낭, 하지, 흉벽 등 피하조직 및 근육사이 근막이지만 안와, 복강, 흉강, 척수강 및 중추신경계에서 발생하기도 한다. 흉막강은 드물게 발생하는 부위로 국내 문헌상 농후를 동반한 1예와 폐암과 병발하여 수술 후 발견된 1예 정도가 보고된 바 있다[5, 6].

스파르가눔증의 확실한 진단과 치료는 외과적으로 충체를 적출하는 것이나, 적출술 없이 효소면역측정법(ELISA)으로 스파르가눔증을 진단할 수 있으며,

Min Ho Choi<sup>1</sup>, Ho Tae Kim<sup>1</sup>, Tae Yeong Kwak<sup>1</sup>, Seok Hyeon Eom<sup>1</sup>, Yeong Sung Kim<sup>1</sup>, Dong Hyup Kwak<sup>1</sup>, and Jung Hee Kim<sup>2</sup>

Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, and <sup>2</sup>Pathology, Kwak's Hospital, Daegu, Korea

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2012 by The Korean Society of Infectious Diseases | Korean Society for Chemotherapy

Submitted: July 6, 2012

Revised: October 4, 2012

Accepted: October 11, 2012

Correspondence to Min Ho Choi, M.D.

Department of Internal Medicine, Kwak's hospital, 18 Soodong, Joong-gu, Daegu 700-734, Korea

Tel: +82-53-605-3688, Fax: +82-53-605-3754,

E-mail: antitine@hanmail.net

praziquantel을 투여하여 치료한 증례도 일본에서 보고되고 있다[7, 8].

저자들은 호흡곤란으로 내원한 환자 1명에서 흉부 X-선 사진상 흉막삼출을 발견하여 임상적으로 스파르가눔증에 의한 호산구성 흉막염을 의심하였으나 침범 부위상 외과적 적출술을 시행하지 못하여 praziquantel을 투여하였고 그 후 추적검사상 호전된 증례를 경험하였다.

## 증례

65세 남성이 최근 1주일 전부터 발생한 호흡곤란을 주소로 개인의원에서 시행한 흉부 X-선 사진에서 우측 흉막삼출이 발견되어 본원 내과로 전원되었다. 환자는 40년전 뱀, 개구리를 생식한 기왕력이 있었고, 10년전 개인의원에서 우측 옆구리 피하조직의 종괴를 적출 받았다. 환자 기억으로 피부색은 정상이었으며 종괴의 모양과 색깔이 미더덕과 흡사하였다. 절개한 결과 길이가 20 cm 정도의 흰색 기생충 2마리가 발견되었다(이들은 스파르가눔 충체였을 것으로 추정됨). 그로부터 1년 후 외과적 절제술을 받은 피하조직 근처에서 종괴가 다시 재발하여 개인의원에서 재차 적출술을 시행 받은 병력이 있었으며 제거 후 구충제를 복용한 기억은 없다고 하였다.



Figure 1. Two post-excision scars on the right flank, measuring 4 cm in length.

입원 당시 의식은 명료하였고 활력징후는 혈압 110/60 mmHg, 맥박수 74/min, 호흡수 20회/min, 체온은 36.5°C 였다. 흉부 진찰 소견에서 우하측 폐야에서 호흡음이 감소되었고 심음은 규칙적이며 잡음은 들리지 않았다. 복부 진찰에서 특이 소견은 없었고 양측 다리에서 부종은 없었다. 우측 옆구리에는 이전에 피하결절의 외과적 절제술을 받은 흉터가 관찰되었다(Fig. 1).

말초혈액검사에서 백혈구  $8,170/\text{mm}^3$  (호중구 43.5%, 림프구 30.0%, 호산구 19.3%)로 호산구 증가 소견이 있었고, 혈색소 16.7 g/dL, 혈소판  $298,000/\text{mm}^3$ 이었으며, 혈청 총 면역글로불린 E (Total IgE)는 1,874.00 IU/mL로 증가되어 있었다. 생화학적 검사에서 AST 28 U/L, ALT 22 U/L, ALP 254 U/L, total bilirubin 0.78 mg/dL, LDH 218 U/L, albumin 4.30 g/dL였고 그 외 생화학 검사는 정상이었다.

내원 당시 시행한 흉부 X-선에서 우측 흉막삼출이 관찰되었고(Fig. 2A), 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 우측 흉막삼출과 우하엽 늑막하 섬유화 및 늑막의 불규칙한 비후 소견이 관찰되었으며, 폐실질의 병변이나 의미있게 커진 임파선은 관찰되지 않았다(Fig. 3).

흉막천자 검사에서 흉막삼출액은 육안적으로 노란 빛을 띄었고 탁하지 않았으며, 천자액 검사에서 백혈구  $5,870/\text{mm}^3$  (호중구 19%, 림프구 27%, 호산구 50%)로 호산구 증가 소견이 있었다. 비중 1.010, 당 백당 7.4 g/dL, LDH 900 U/L, albumin 4.1 g/dL로 삼출액 소견을 보였고 adenosine deaminase (ADA) 148 U/L로 상승되어 있었으며, 체액 세포검사서 다수의 호산구가 관찰되었다(Fig. 4A). 흉막 생검에서는 호산구가 침윤된 섬유소 모양의 피사가 관찰되었다(Fig. 4B).

저자들은 기생충으로 인한 호산구성 흉막염을 의심하여 말초혈액과 흉막삼출액에서 기생충 특이 항체에 대한 효소면역측정법(enzyme-linked immunosorbent assay, ELISA)과 대변 검사를 시행하였다. 효소면역측정법에서 항-스파르가눔 IgG 항체는 양성이었으며 낭미충, 폐흡충, 간흡충 등 그 외 기생충 IgG 항체는 모두 음성이었으며, 대변 검사에서 연충류 충란은 발견되지 않았다.

이상의 소견으로 저자들은 이 환자를 스파르가눔 감염으로 인한 호산구성 흉막염으로 의심하였고, 치료를 위해 하루 praziquantel 4.8 g (75 mg/kg/day)을 총 3일간 투여하였다. 이후 추적 흉부 X-선에서 우측 흉막삼출이 소실되었고(Fig. 2B), 추적 말초혈액검사에서 호산구와 total IgE가 감소하였으며 추적 효소면역측정법에서 혈청 항-스파르

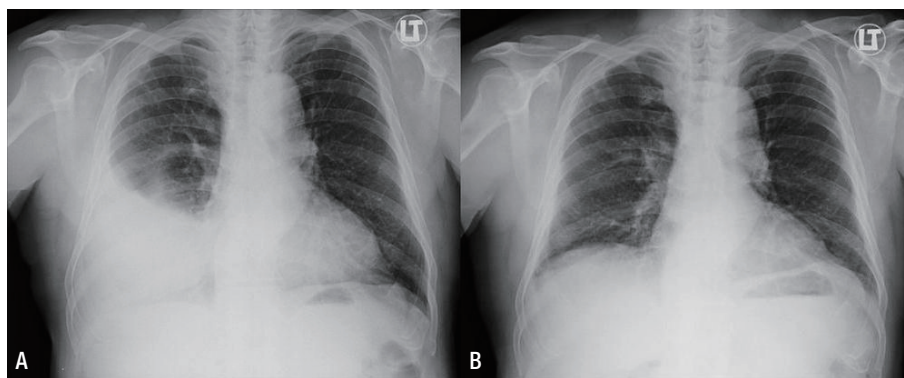


Figure 2. (A) An initial chest radiograph showing right-sided pleural effusion. (B) A follow-up chest radiograph one month after praziquantel treatment showing disappearance of right-sided pleural effusion.

가늠 IgG 항체가의 감소를 확인하였다(Fig. 5). 환자는 1년간 아무런 증상 없이 외래에서 재발 여부를 추적관찰 중이다.

## 고찰

스파르가눔의 성충(adult Spirometra)은 중숙주인 개나 고양이의 장에 기생하면서 충란을 배출하고, 충란은 수중에서 부화하여 섬모유충(coracidium)이 된다. 섬모유충은 제 1 중간숙주인 동물성 플랑크톤(주로 물벼룩, cyclops)에 섭취되어 원충미충(proceroid)으로 성장하고 원충미충은 제 2 중간숙주인 뱀, 개구리, 새, 돼지, 사람 등에 섭취되어 충미충(plerocercoid)으로 성장하게 되며, 중숙주에 섭취되어 성충으로 성장한다[1, 3].

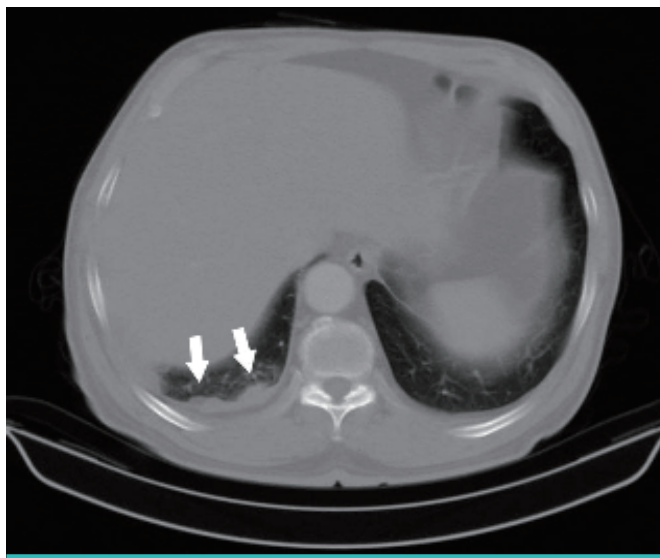
인체 감염경로는 첫째, 원충미충이 감염된 동물성 플랑크톤이 오염된 물을 마시거나, 둘째, 충미충이 감염된 제 2 중간숙주인 뱀, 개구리 등을 생식하거나, 셋째, 안구나 환부에 뱀이나 개구리의 날고기나 껍질

등을 부착한 경우 감염된다. 국내에서는 충미충에 감염된 뱀이나 개구리를 생식하여 감염되는 경우가 가장 흔하다[3]. 뱀과 개구리 생식은 옛날부터 민간 요리법으로 신경통, 관절염, 폐결핵의 치료에 사용해 왔고, 남성 스테미너 증진을 위한 강장제로도 사용하고 있다. 박 등[4]의 역학조사에서는 국내 정상인에서 스파르가눔 항체 보유율이 1.9%인데 비해 강원도 주민은 11.4%가 스파르가눔 특이 항체를 보유하고 있었으며, 이는 뱀과 개구리의 생식이 중요한 위험인자임을 보고하였다.

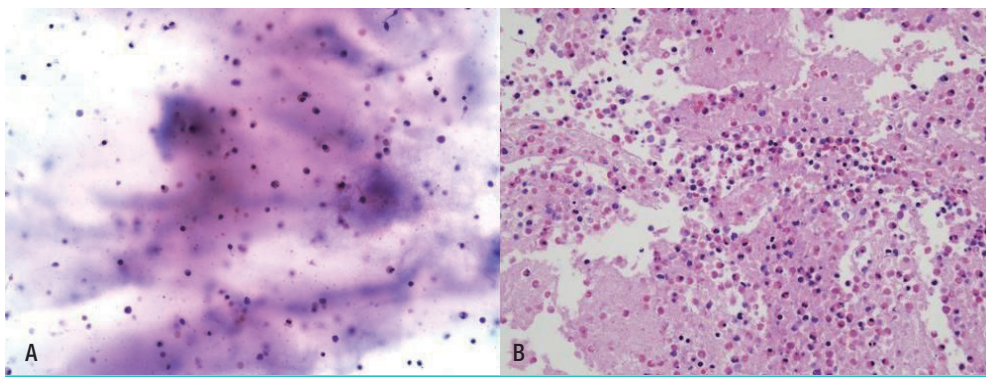
인체에 침범한 유충은 신체의 각 부위에 기생하면서 증상을 일으킨다. 피하조직에 침범하여 성장하면서 염증 반응을 일으켜 가려움과 통증을 동반하는 이행성 피하결절을 형성하기도 하고, 뇌 및 신경계에 침범하여 간질발작을 일으키거나 뇌출혈이나 뇌농양을 발생시키기도 하며, 장벽을 뚫고 이동할 때 장창공을 일으켜 복막염을 유발하기도 한다. 드물게 폐에 침범하여 폐농양, 경화성 병변을 형성하기도 하고[9, 10], 이 증례와 같이 흉막강에 침범하여 농흉이나 호산구성 흉막염을 유발하기도 한다[5-8].

스파르가눔증의 진단은 감염원에 대한 노출의 과거력으로 의심해 볼 수 있고, 외과적으로 기생충을 적출하여 확인할 수 있다. 효소면역측정법(ELISA)은 기생충 특이 항체를 혈청학적으로 검사하는 방법으로 유구낭미충증, 조충증에서 교차 반응이 나타날 수 있으나, 민감도(85.7%)와 특이도(95.7%)가 높아 스파르가눔증의 진단 및 혈청학적 역학조사, 치료 후 추적 검사로 사용할 수 있다[11]. 그리고 Park 등[4]은 효소면역측정법 검사가 양성이지만 충체가 발견되지 않은 환자들은 위양성 보다는 휴지기 상태로 해석하였다. 이런 이유로 충체를 직접 적출하기 어려운 뇌나 흉막 스파르가눔증의 경우 효소면역측정법이 스파르가눔증을 진단하는데 중요한 진단법이라 할 수 있다[7, 8]. 본 증례에서도 충체 적출이 어려운 부위를 침범하고 있어 진단이 어려웠으며, 환자의 병력과 효소면역측정법 등으로 스파르가눔 감염에 의한 호산구성 흉막염을 의심하게 되었고, praziquantel 3일간 단독 투여로 증상이 호전되어 스파르가눔증이 확실시 된다고 생각한다.

스파르가눔증의 가장 확실한 치료 방법은 외과적으로 충체를 적출하는 것이다. 다수 감염이거나 외과적 적출술이 어려운 경우 praziquantel을 투여해 볼 수 있으나 재발이 흔하다[12]. 스파르가눔에 대한 praziquantel의 살충효과에 대한 국내 연구에서 praziquantel이 충체의



**Figure 3.** Chest CT shows irregular pleural thickening with subpleural fibrosis at the posterior basal segment of the right lower lobe (arrow).



**Figure 4.** (A) Cytology of the pleural fluid showing many eosinophils in the necrotic background (Papanicolaou stain, x400). (B) A pleural biopsy shows numerous eosinophil infiltration with fibrinoid necrosis (H&E stain, x400).



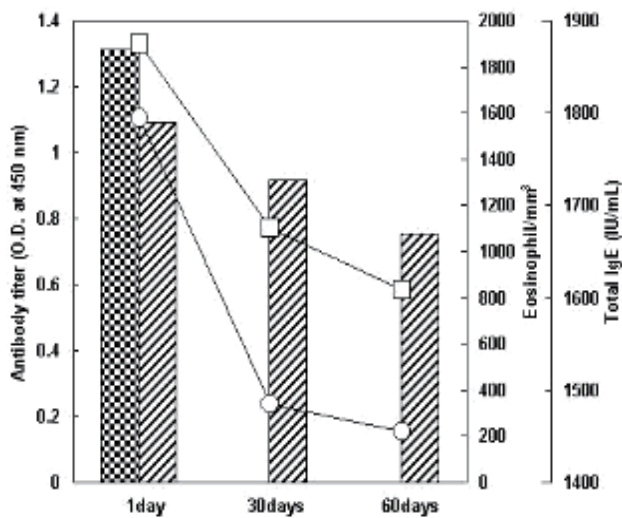


Figure 5. Clinical courses at first, after 30 and 60 days.

○, eosinophil count; □, total IgE; hatched column, specific antibody titer in serum; dotted column, specific antibody titer in pleural effusion.

경부(neck portion)와 경부 뒷 부분(body)을 손상시켜 운동성을 억제하지만, praziquantel에 저항이 있는 두부(scolex)와 경부의 일부가 이후 재생되어 재발한다고 하였다[13]. 한편 일본에서는 Ishii 등[7]과 Tanaka 등[8]이 흉막삼출을 동반한 스파르가눔증 환자에서 각각 praziquantel 75 mg/kg/day, 3.6 g/day 경구약을 3일간 투여한 후 흉막삼출의 호전, 혈청 항 스파르가눔 항체가의 감소, 호산구와 total IgE의 감소를 확인하여 치료한 증례를 보고 하였다. 본 증례에서도 침범 부위상 수술적 적출술을 시행할 수 없어 저자들은 praziquantel 4.8 g (75 mg/kg/day)을 3일간 투여하였다. 이후 추적 검사에서 흉막삼출의 소실과 검사실 소견의 호전을 확인하였고, 1년간 외래에서 추적관찰 하였으나 흉막 스파르가눔증 재발과 다른 조직에 침범한 스파르가눔증의 증상과 징후는 관찰되지 않았다. 그러나 저자들은 이는 praziquantel로 완치가 되었다기보다는 활동기 상태의 스파르가눔증이 praziquantel 투여 이후 휴지기 상태로 전환 되어 일시적으로 호전되었다고 추측하여 재발 여부를 추적 중이다.

스파르가눔증이 흉막강에 침범하여 흉막삼출을 동반하는 경우는 드물지만, 뱀과 개구리 생식을 많이 하는 우리나라에서는 호산구형 흉막염의 중요한 원인 중의 하나로 고려해야 할 것이다.

## References

- Mueller JF. The biology of Spirometra. J Parasitol 1974;60:3-14.
- Choi WJ. Migration and distribution of spargana in body of experimentally infected mice. Kisaengchunghak Chapchi 1984;22:229-37.
- Cho SY, Bae JH, Seo BS, Lee SH. Some aspects of human sparganosis in Korea. Kisaengchunghak Chapchi 1975;13:60-77.
- Park HY, Lee SU, Kim SH, Lee PC, Huh S, Yang YS, Kong Y. Epidemiological Significance of sero-positive inhabitants against sparganum in Kangwon-do, Korea. Yonsei Med J 2001;42:371-4.
- Koh TW, Lee JW, Sohn DS, Cho DY, Yang KM, Kong Y, Cho SY. Empyema thoracis associated with sparganosis: a case report. Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1988;21:761-5.
- Kim DH, Yi IH, Youn HC, Kim SC, Kim BS, Cho KS, Park JC, Kwak YT. Pleural sparganosis. Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2006;39:502-4.
- Ishii H, Mukae H, Inoue Y, Kadota J, Kohno S, Uchiyama F, Nawa Y. A rare case of eosinophilic pleuritis due to sparganosis. Intern Med 2001;40:783-5.
- Tanaka S, Maruyama H, Ishiwata K, Nawa Y. A case report of pleural sparganosis. Parasitol Int 1997;46:73-5.
- Iwatani K, Kubota I, Hirotsu Y, Wakimoto J, Yoshioka M, Mori T, Ito T, Nomori H. Sparganum mansonii parasitic infection in the lung showing a nodule. Pathol Int 2006;56:674-7.
- Oh YJ, Kim MJ, Cho JH, Cha CW, Kim DH, Oh MJ, Chin JY, Choi SS, Kwon KW. A case of pulmonary sparganosis in a patient with a history of recurrent sparganum infections. Tuberc Respir Dis 2009;67:229-33.
- Kim H, Kim SI, Cho SY. Serologic diagnosis of human sparganosis by means of micro-ELISA. Kisaengchunghak Chapchi 1984;22:222-8.
- Chai JY, Yu JR, Lee SH, Kim SI, Cho SY. Ineffectiveness of praziquantel treatment for human sparganosis (A case report). Seoul J Med 1988;29:397-9.
- Sohn WM, Hong ST, Chai JY, Lee SH. Infectivity of the sparganum treated by praziquantel, gamma-irradiation and mechanical cutting. Korean J Parasitol 1993;31:135-9.