

항문주위 괴사근막염 수술 후 발생한 두덩결합 골수염의 경험

순천대학교 의과대학 내과학교실¹, 정형외과학교실², 병리과교실³

김지연¹·김태형¹·추은주¹·전민혁¹·이은정¹·김종화¹·박의주¹·이재철²·진소영³

Experience of Osteomyelitis of the Pubic Symphysis Following Surgical Treatment of Perianal Necrotizing Fasciitis

Ji Yon Kim, M.D.¹, Tae Hyong Kim, M.D.¹, Eun Ju Choo, M.D.¹, Min Hyok Jeon, M.D.¹, Eun Jeong Lee, M.D.¹,
Jong-Hwa Kim, M.D.¹, Eui Ju Park, M.D.¹, Jae Chul Lee, M.D.² and So-Young Jin, M.D.³

Departments of Internal Medicine¹, Orthopedic Surgery² and Pathology³, Soon Chun Hyang University Hospital,
Seoul, Korea

Osteomyelitis of the pubic symphysis is not common and has often been reported to occur after urological or gynecological procedures. It can be spontaneous in origin but it also is associated with trauma, athletic exertion, pregnancy, and parturition. The early symptoms of osteomyelitis of the pubic symphysis mimic those of osteitis pubis, and therefore, the differential diagnosis between these two entities is of clinical importance. A fifty nine-year-old man who had previously received debridement and wide excision of perianal necrotizing fasciitis visited our hospital with pain on both inguinal areas. The core biopsy of the pubic symphysis and aspiration culture were performed, from which *Pseudomonas aeruginosa* was recovered. He was treated with parenteral ceftazidime for 5 days followed by cefepime for 7 weeks and showed favorable clinical response. To our knowledge, this is the first report on osteomyelitis of pubic symphysis resulting from debridement and wide excision of perianal necrotizing fasciitis in Korea.

Key Words : Osteomyelitis, Pubic symphysis, Fasciitis, *Pseudomonas aeruginosa*

서 론

두덩결합 골수염(osteomyelitis of the pubic symphysis)은 급성 혈행성 골수염의 1% 미만으로 보고되는 매우 드문 질환으로(1) 비뇨기와 수술, 산부인과 수술 또는 분만, 과도한 활동을 하는 운동선수들에게서 발생한다(2, 3). 주로 사골부위(inguinal area) 통증, 보행 장애 등의 증상이 나타나며(2), 초기에는 두덩뼈염(osteitis pubis)과 증상이 유사하기 때문에 임상적인 감별이 필요하다(3). 두덩뼈염은 비감염성 염증성 질환이지만, 두덩결합 골수염은 감염병이기 때문에(2) 경과가 두덩뼈염보다 빠르게 나빠지고 방사선

학적으로 두덩결합의 관절간격의 증가와 뼈 파괴를 동반하게 된다(3, 4).

두덩뼈염은 안정, 물리치료, 소염제, 또는 심한 경우라도 스테로이드 사용으로 치유될 수 있는 질병임에 비해(2), 두덩결합 골수염은 장기간의 항균제 주사와 죽은조직제거술(debridement)과 긁어냄술(curettage)과 같은 적극적인 치료가 필수적이므로(2, 4), 두 질환을 감별 하는 것은 치료와 예후를 결정함에 있어서 매우 중요하다.

우리는 4개월 전 항문주위 괴사근막염(necrotizing fasciitis)으로 죽은조직제거술과 광범위 절제술(wide excision)을 시행하고 2개월 전부터 양쪽 사골부위의 통증이 있었던 환자에서, 투시경 유도하에 왼쪽 두덩뼈의 핵심 생검(core biopsy)과 주변 조직 세침흡인술을 시행하여 두덩결합 골수염을 진단하였고, 수술 없이 장기간 항균제를 사용하여 좋은 치료 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Submitted : 21 August, 2008, Accepted : 1 April, 2009

Correspondence author : Tae Hyong Kim, M.D.

Division of Infectious Diseases, Department of Internal Medicine, Soon Chun Hyang University Hospital 22 Daesagwan-gil, Yongsan-gu, Seoul, Korea

Tel : +82-2-709-9029, Fax : +82-2-792-5812

E-mail : geuncom@hosp.sch.ac.kr

증 례

59세 남자가 2개월 전부터 시작된 양쪽 살굴부위 통증으로 인한 보행 장애로 내원하였다. 17개월 전 식도 편평세포암종을 진단 받고 내시경 점막밑절제술(endoscopic submucosal resection)을 2회 시행 받았으며, 이후 식도 협착으로 10회의 부지확장술(bougie dilatation)과 화학방사선 치료를 시행하였다. 그리고 4개월 전 항문주위 괴사근막염으로 죽은조직제거술과 광범위절제술을 시행하여 세균배양 검사에서 *Escherichia coli*가 분리되어 1주 간 ceftriaxone 정주 투여 후 2주 간 ciprofloxacin 경구 치료하였다. 이후 수술 부위와 다른 부위의 통증이나 발열 없이 지내다가 내원 2개월 전부터 양쪽 살굴부위 통증이 있었다. 통증은 왼쪽이 더 심했고, 걸을 때 더 심하였다.

활력징후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박 수 80회/분, 호흡 수 20회/분, 체온은 36.7°C이었고, 만성병색이었으나 의식은 맑았다. 양쪽 살굴부위 압통이 있었으며, 모음근(addeructor muscle)의 강직이 있었다. 항문주위 피부는 정상이었으며 열감이나 압통은 없었다. 걸음은 느리면서 보폭이 넓었고 오른쪽에 비해 왼쪽 엉덩관절과 무릎관절을 약간 더 굴곡한 상태에서 근육병증 걸음(waddling gait)을 하였다. 신경학적인 검사에서 양쪽 하지의 근력과 감각은 정상이었다. 말초혈액 검사에서 백혈구 8,900/mm³ (호중구 82%, 림프구 8%, 단핵구 5%), 혈색소 6.8 g/dL, 헤마토크리트 19.1%, 혈소판 351,000/mm³이었고, 적혈구침강속도 68 mm/hr, C-반응단백질 8.79 mg/dL 이었다. 평균적혈구용적 88.6 fL, 혈철철 41 µg/dL, 총철결합능 196 µg/dL, 페리틴 790.56 ng/mL, 그물적혈구 1.6%였다. 혈청 생화학 검사와 전해질검사는 정상이었었으며, 3쌍의 혈액배양검사는 모두 음성이었다.



Figure 1. Plain radiograph of the pelvis shows slight widening of pubic symphysis with marginal bony destruction, which is more marked on the left side of the pubis.

단순 골반 방사선 사진에서 두덩결합 관절간격이 증가하였고 왼쪽 두덩결합에서 더 심한 뼈 파괴가 있었으며(Fig. 1), 뼈스캔에서 양쪽 두덩결합의 흡수증가가 있었으나 방광의 흡수증가 때문에 잘 구분되지는 않았다. 복부골반 전산단층촬영에서 왼쪽 두덩결합의 뼈 파괴가 동반되었으며, 골반 자기공명영상에서 양쪽 두덩뼈와 모음근 주변 연부조직의 T1 강조영상에서 저신호 강도를(Fig. 2A), T2 강조영상에서 고신호강도를(Fig. 2B), Gadolinium 증강 T1 강조영상에서는 중앙은 저신호 강도를 보이면서 주변부는 조영이 되는(Fig. 2C) 소견이 있었다. 전신 양전자방출단층촬영에서도 양쪽 두덩결합의 흡수가 증가하였는데, 왼쪽의 흡수가 더 증가되었다.

입원 당시 적혈구침강속도, C-반응단백질의 증가와 양쪽 살굴부위 통증이 있었으며 다른 뚜렷한 감염 병소가 관찰되지 않아 연부조직 감염으로 추정하고 cefazolin (2 g/회, 1일 3회)을 정주하였다. 이후 방사선 동위원소 검사, 복부골반 전산단층촬영, 골반 자기공명영상과 전신 양전자방출단층촬영에서 양쪽 두덩결합의 골수염을 의심하였으나 식도암의 뼈 전이와 감별이 필요하였다. 따라서 입원 13일째 두 질환의 감별과 원인균을 알아내기 위해 투시경 유도하에 왼쪽 두덩결합의 핵심 생검을 시행하였고, 동시에 주변 연부조직에서 세침흡인술을 시행하였다. 뼈 생검의 조직소견은 뼈잔기동(bony trabeculae) 사이 골수 내 다수의 급성 염증세포가 침윤되어 농양을 형성하고 있었고 악성 세포는 보이지 않았다(Fig. 3A). 주변 연부조직에서 시행한 세침흡인 세포검사에서는 무핵 각화세포(anucleated squames)와 많은 염증세포가 관찰되어 함입된 항문주변 표피 조직에 이차적으로 농양이 형성된 것으로 판단하였다(Fig. 3B). 주변 연부조직에서 무균적으로 시행한 세침흡인 세균배양검사에서는 *Pseudomonas aeruginosa*가 분리되었으며, 입원 15일째부터 19일째까지 ceftazidime (2 g/회, 1일 3회) 정주를, 입원 20일째부터는 cefepime (2 g/회, 1일 2회)을 정주하였다. 이후 정기적으로 혈액검사를 시행하면서 총 8주간 항생제를 투여하였다. 입원 기간 동안 발열은 지속적으로 없었으며, 살굴부위 통증은 감소되기 시작하였다. 항생제 사용 8주에 시행한 혈액검사서 적혈구침강속도는 27 mm/hr, C-반응단백질은 0.16 mg/dL로 감소하였으며, 처음에 호소하던 통증과 근육병증걸음이 모두 소실되었다.

고 찰

골반에 발생하는 골수염은 전체 골수염의 10% 정도로

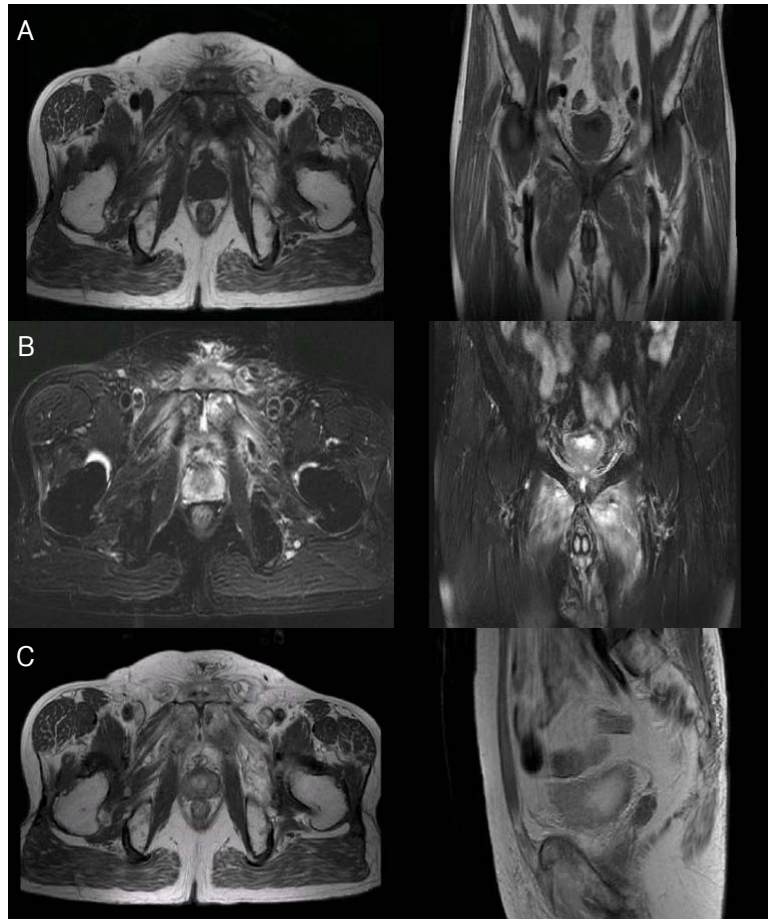


Figure 2. A) T1-weighted MRI of the pelvis shows decreased signal within medial aspects of both pubic bones, adductor muscle, and around soft tissue, B) T2-weighted transverse MRI of the pelvis shows increased signal within medial aspects of both pubic bones, adductor muscle, and around soft tissue, C) gadolinium enhanced T1-weighted MRI of the pelvis shows decreased signal within central area with peripheral enhancement.

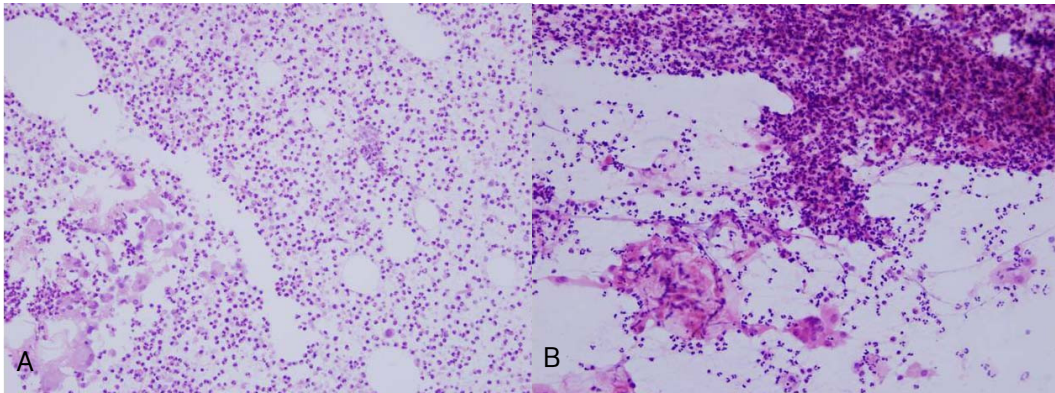


Figure 3. A) Core needle biopsy of the pubic symphysis demonstrates acute pyogenic osteomyelitis in the bone (H-E, $\times 100$) and B) fine needle aspiration cytology from the surrounding soft tissue discloses a few anucleated squames admixed with innumerable acute inflammatory cells (H-E, $\times 200$).

보고되며(5, 6), 그 중 두덩결합에 발생하는 골수염은 2-11%로 더욱 드문 것으로 알려져 있다(1, 6). 두덩결합 골수염은 전 세계적으로 30에 정도 보고되었으나(2, 7-9), 우리나라에서는 1999년 Lee 등(10)에 의해 1예만 보고되었다. 두덩결합 골수염의 발병기전은 잘 알려지지 않았으나(2), 비뇨기과, 산부인과 시술 또는 수술 후 감염이 과급되어 발생하거나, 골반부위의 외상, 과도한 운동, 방사선 치료 후에 발생할 수 있고, 선행 요인 없이 발생하기도 한다(2, 3, 7, 10). 또한 최근에는 마약남용과 관련하여 발생하는 두덩결합 골수염도 증가하고 있다(8, 11, 12). 감염된 주변장기의 수술 후 발생한 두덩결합 골수염 증례의 경우 반드시 선행 감염 부위의 원인 균에 의해서 두덩결합 골수염이 발생하는 것은 아니라고 알려졌다(1, 2). 우리의 증례에서도 선행 감염과는 서로 다른 균이 두덩결합에서 분리되었는데, 이는 선행 감염 부위에 의한 직접적인 과급보다는 수술로 인해서 혈액 순환이 나빠지고 당뇨병 등에 의한 면역 저하의 결과 초래된 감염 취약성 때문이라고 생각한다.

수술 후 골수염으로 발생하는 경우는 다른 부위의 골수염과 마찬가지로 2주에서 2개월 사이에 발병을 한다(8). 환자들은 주로 두덩뼈 상부 통증과 살굴부위 통증을 호소하는데, 통증을 활동을 하면 악화되고 쉬면 완화되지만, 진행되면 지속적으로 발생한다(2).

두덩결합 골수염의 원인 균은 녹농균, 황색포도알균, 대장균, 혐기균 등이 알려져 있다(5, 6, 8, 9). 황색포도알균은 주로 어린아이에게, 그람음성 세균들은 비뇨기과나 산부인과 수술 후 발생하였다(9). Busto 등은 녹농균이 가장 흔하고(50% 이상), 모두 마약남용과 관련이 있었다고 하였다(8). 그러나 우리가 경험한 증례에서는 마약남용과 무관하게 녹농균이 증명 되었다.

두덩결합 골수염의 초기에는 두덩뼈염과 비슷하지만(3), 치료나 예후가 다르기 때문에 반드시 두 질환을 감별해야 한다. 그러나 통증 이외에는 특이적인 증상이 없기 때문에 진단이 수주에서 수개월까지 지연될 수 있다(2). 두덩결합 골수염의 합의된 임상적 진단기준은 아직 없다. Wignall 등(7)은 방사선 소견과 전형적인 조직학적 소견 그리고 배양 검사 양성 중 두 가지 이상 있으면 두덩결합 골수염으로 진단하였고, Knoeller 등(2)은 임상양상과 혈액 혹은 뼈 배양 검사 양성으로, del Busto 등(8)은 두덩결합부위의 압통과 골수염의 전형적인 방사선 소견이 있고 혈액이나 뼈 배양 검사에서 세균이 분리되는 경우로 진단하였다.

두덩결합 골수염 환자들은 두덩뼈염 환자보다 염증반응이 더 뚜렷하지만, 전형적인 감염의 증상이나 증후가 없고 백혈구 수, 적혈구침강속도 또는 C-반응단백질이 정상일

수 있다(1, 3, 9). 혈액배양 양성률은 50% 정도이다(1). 단순 방사선 사진에서 양쪽 두덩뼈의 손상을 보이는 두덩뼈염과는 달리 두덩결합 골수염은 주로 한 쪽 두덩뼈가 파괴되며, 두덩결합 간격이 증가된다(1, 2). 만성일 경우 분리뿔조각(sequestrum)을 형성하기도 한다(3). 단순 방사선 사진에서는 증상 발생 후 10-14일 정도 지나야 특징적인 소견이 나타나므로 발병 초기에는 진단에 크게 도움이 되지 않는다. 그러나, 뼈 스캔이나 골반 자기공명영상에서는 단순 방사선 사진이 정상일 때에도 변화가 나타나므로, 더 일찍 두덩결합 골수염을 진단하는데 도움이 된다(1). 뼈 스캔은 지연 영상에서 방사선 핵종의 섭취가 증가되어 있는 것으로 골수염을 의심할 수 있다. 다만 방광에 축적되는 동위원소로 인해 두덩결합 골수염과 구분이 잘 되지 않을 수도 있다(1, 9). 자기공명영상은 뼈 파괴, 주변 조직의 부종과 농양 형성 소견으로 두덩결합 골수염을 의심한다(10). 확진을 위해서 영상의학적 검사만으로는 불충분하므로 초음파 혹은 전산단층촬영 유도로 세침흡인술이나 개방 생검을 시행하고 검체를 배양해서 균을 증명해야 한다(1, 2, 5, 9). 우리가 경험한 환자는 걸을 때 살굴 부위 통증 만 호소하여 원인을 추정 하기가 어려웠으나 식도암의 병력과 4개월 전 항문주위 피사성근막염으로 수술을 받은 병력이 있었기 때문에 식도암의 뼈 전이와 두덩결합 골수염을 감별하는 것이 치료와 예후에 중요하다고 판단하여 영상 검사 결과 만으로 진단 하지 않고 투시경 유도로 뼈 생검과 세침흡인술을 시행하였다.

두덩결합 골수염은 장기간의 항균제 주사와 수술로 치료한다(2). 성인의 만성 화농성 골수염의 하나로서 수술의 필요성을 절대적으로 강조하는 것이 일반적이지만(3, 4, 10), 항균제에 반응이 없거나 임상증상이나 방사선 소견이 심한 경우에만 제한적으로 수술을 권하기도 한다(2, 5, 8). 적절한 항균제 투여기간은 아직 명확한 권고 사항이 없다. 일반적인 화농성 골수염의 치료와 마찬가지로 환자의 증상과 적혈구침강속도, C-반응단백질, 방사선 소견이 정상으로 될 때까지 최소 4-9주 동안 항균제 투여를 추천한다(1-3, 8, 9).

두덩결합 골수염은 드물고 나타나는 증상이 모호하기 때문에 진단이 쉽지 않다. 우리가 경험한 증례처럼 항문주위 수술을 받은 후 지속적으로 살굴부위의 모호한 통증과 걸음 걸이의 장애가 있다면 한번쯤은 두덩결합 골수염을 생각해야 할 것이다. 또한 원인 균을 임상적으로 예측할 수는 없기 때문에 불가피하게 침습적인 조직검사를 통한 균 배양으로 감염 부위의 원인균을 찾아야 한다.

References

- 1) Smith EL, Martin RP, Matzkin E, Moyer ML. Osteomyelitis of the pubic symphysis. *Orthopedics* 26: 1233–5, 2003
- 2) 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* 72:541–8, 2006
- 3) 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* 64:123–8, 1982
- 4) Gil-Garay E, Fernandez-Baillo N, Martinez-Pineiro L. Osteomyelitis of the pubic symphysis due to *Streptococcus anginosus*. A case report. *Int Orthop* 17:51–3, 1993
- 5) Mader R, Yeromenko E. Pseudomonas osteomyelitis of the symphysis pubis after inguinal hernia repair. *Clin Rheumatol* 18:167–9, 1999
- 6) Jenkins FH, Raff MJ, Florman LD, Day TG, Templeton WC 3rd. Pubic osteomyelitis due to anaerobic bacteria. *Arch Intern Med* 144:842–3, 1984
- 7) Wignall TA, Carrington BM, Logue JP. Post-radiotherapy osteomyelitis of the symphysis pubis: computed tomographic features. *Clin Radiol* 53:126–30, 1998
- 8) del Busto R, Quinn EL, Fisher EJ, Madhavan T. Osteomyelitis of the pubis. Report of seven cases. *JAMA* 248:1498–500, 1982
- 9) 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* 27:473–9, 1995
- 10) Lee SS, Lee KJ, Lee DH, Nam IH, Lee SE. Osteomyelitis of symphysis pubis. A case report. *J Korean Orthop Assoc* 34:773–6, 1999
- 11) Salahuddin NI, Madhavan T, Fisher EJ, Cox F, Quinn EL, Eyler WR. Pseudomonas osteomyelitis. Radiologic features. *Radiology* 109:41–7, 1973
- 12) de Miguel J, Collazos J, Ayarza R, Abaitua JM, Quilez J. Pubic osteomyelitis due to *Pseudomonas aeruginosa*. *Clin Infect Dis* 17:515–6, 1993