

거대 부신 종양으로 오인된 부신 방선균증 1예

김의주 · 이현승 · 여인구 · 박상희¹ · 김경민² · 박윤수 · 이시훈 · 김연선 · 박이병

가천의과대학교 의학전문대학원 내과학교실, 병리학교실¹, 연세대학교 의과대학 내과학교실²

A Case of Adrenal Actinomycosis that Mimicked a Huge Adrenal Tumor

Eui Joo Kim, Hyon Seung Yi, Inku Yo, Sanghui Park¹, Kyoung Min Kim², Yoon Soo Park, Sihoon Lee, Yeun Sun Kim, Je Byung Park

Departments of Internal Medicine and Pathology¹, Graduate School of Medicine, Gachon University of Medicine and Science, Incheon; Department of Internal Medicine², Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

The incidence of adrenal incidentalomas has increased because imaging studies are now being more frequently performed, including abdominal sonography, CT and MRI. Although there is only a consensus on the treatment of adrenal incidentalomas from the National Institute of Health (NIH) conference 2003, it is generally accepted that surgical resection is required if there's any possibility of malignancy or functionality of the adrenal tumor. Abdominopelvic actinomycosis is a rare chronic progressive suppurative disease that is caused by gram-positive bacteria of the genus actinomyces, which is part of the normal flora of the oral cavity and gastrointestinal tract, with low virulence. Herein, we report on a case of adrenal actinomycosis that imitated a huge adrenal tumor in a 39-year-old women, and the adrenal actinomycosis was confirmed histologically only after adrenalectomy. To the best of our knowledge, this is the first Korean case report on actinomycosis that occurred in the adrenal gland. (*Endocrinol Metab* 25:147-151, 2010)

Key Words: Actinomycosis; Adrenal glands, Incidentaloma

서 론

복부 초음파, 전산화 단층촬영, 자기공명촬영 등 영상의학의 발달에 따라 부신 우연종이 발견되는 경우가 잦아졌으나, 부신 우연종의 향후 진단 및 치료에 대한 진료 지침은 아직까지 없는 실정이며, 다만 2003년도에 미국 국립보건원(NIH)에서 발표된 부신 우연종에 대한 전문가 의견 정도만 있을 따름이다[1,2].

한편, 방선균증을 유발하는 *Actinomyces israelii*는 그람 양성 혐기성균으로 주로 구강과 위장관에 분포하는 상재균으로 방선균에 의한 감염은 만성 화농성 육아종 염증을 유발하며 목, 안면부에 감염을 일으키는 빈도가 가장 높으나, 전체 방선균증 중 20% 가량은

복강 내에서 발생하는 것으로 알려져 있다[3]. 또한 방선균에 의한 감염은 점막의 손상이 있을 때 일어나기 때문에 자궁 내 장치나 천공, 수술 등과 관련이 있는 것으로 알려져 있으나, 세균 배양이 어렵고, 유헤라립의 발견도 어렵기 때문에 종양으로 오인하여 수술 후 절제된 조직소견에서 방선균증으로 진단되는 경우도 적지 않다[4,5]. 수술이나 천공 등 점막의 손상에 의해 발생했던 복강 내 방선균 감염이 보고되었던 사례는 있었으나[6-9], 국내에서 부신에 발생한 방선균증에 대한 보고는 아직 없었다. 저자들은 지속적인 발열 및 좌측 측복부 통증을 호소하는 환자에서 부신 종양으로 오인하고, 부신 절제술 후 진단된 부신 방선균증을 경험하였기에 이와 관련된 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자: 이○희, 39세 여자

주소: 2주 전부터 시작된 좌측 측복부 통증 및 발열

현병력: 5년 전 자궁 내 장치를 제거한 과거력이 있으며, 16년 전과 5년 전, 급성신우신염을 앓았던 병력 외에는 특이병력이 없는 환자

Received: 3 November 2009, Accepted: 2 February 2010

Corresponding author: Sihoon Lee

Department of Internal Medicine, Gachon University Gil Hospital, 1198 Guwol-dong, Namdong-gu, Incheon 405-760, Korea

Tel: +82.32-460-8208, Fax: +82.32-460-3009, E-mail: shleemd@gachon.ac.kr

Corresponding authors: Sanghui Park

Department of Pathology, Gachon University Gil Hospital, 1198 Guwol-dong, Namdong-gu, Incheon 405-760, Korea

Tel: +82.32-460-8312, Fax: +82.32-460-3009, E-mail: americanoc@gilhospital.com

로 내원 2주전부터 시작된 열감, 오한, 좌측복부 통증으로 개인의원 내원하여 급성신우신염 의심 하에 항생제를 구강 투여하며 치료하였으나 호전이 없어 본원으로 전원되었다.

가족력: 특이사항 없음

진찰 소견: 신장 167 cm, 체중은 58 kg였고, 혈압은 110/70 mmHg, 맥박 70회/분, 체온은 37.6°C였으며, 급성 병색을 보였고, 결막은 창백하지 않았다. 흉부의 진찰 소견은 정상이었으며, 복부에 압통은 없었으나, 좌측 늑골척추각 압통 소견이 관찰되었다. 하지의 함몰부종은 없었고 기타 신경학적 이상 소견은 관찰되지 않았다.

일반 검사 소견: 말초 혈액 검사상 혈색소 12.2 g/dL, 헤마토크릿 36.8%, 백혈구 7,870/mm³, 혈소판 475,000/mm³였고, 혈청 생화학 검사상 BUN/Cr 9.3/0.6 mg/dL (8-22/0.6-1.2 mg/dL), AST 21 IU/L (0-40 IU/L), ALT 41 IU/L (5-40 IU/L), gamma GTP 40 IU/L (0-45

IU/L), alkaline phosphatase 74 IU/L (35-123 IU/L), total protein/albumin 7.9/4.1 g/dL (6-8.2/3.5-5.2 g/dL)이었으며, 혈청 전해질 검사상 Na/K/Cl/tCO 137/4.3/100/27 mEq/L (135-145/3.5-5.5/95-110/21-31 mEq/L)였고, Ca/P 8.9/3.5 mg/dL (8.2-10.8/2.5-4.7 mg/dL)였다. ESR은 32 mm/hr (0-20 mm/hr), hsCRP는 1.95 mg/dL (0.01-0.5 mg/dL)으로 상승되어 있었다. 요침사 검사에서 적혈구 0-1, 백혈구 10-15의 현미경적 농노 소견이 관찰되었다.

방사선 검사 소견: 복부 초음파 검사상 좌측 콩팥의 상극에서 저음영의 경미한 부종 소견 외에 특이소견은 관찰되지 않았으나, 복부 전산화단층촬영영상 좌측 부신에서 수질 기원이 의심되고 동맥기와 지연기에 조영증강이 되며 중심부위가 조기 소실되는 출혈부위로 인해 이질적인 양상의, 경계가 분명한 장경 4 × 2.3 cm 크기의 종괴가 발견되었고(Fig. 1), 이는 영상의학적으로 갈색세포종, 신경절신경종, 혹은 부신의 악성 종양일 가능성이 제기되었다.

내분비 검사 소견: 혈중 11-OHCS는 7.2 µg/dL (5-21.4 µg/dL), DHEA-sulfate는 35.65 µg/dL (35-430 µg/dL), epinephrine은 58.86 pg/mL (0-120 pg/mL), norepinephrine은 88.18 pg/mL (100-410 pg/mL), renin과 aldosterone은 각각 0.34 ng/mL/hr (0.68-1.36 ng/mL/hr), < 10 pg/mL로 측정되었다. 24시간 요중 metanephrine은 0.3 mg/day (0.2-1.2 mg/day)였고, epinephrine, norepinephrine은 각각 1.95 µg/day (0-40 µg/day), 23.31 µg/day (0-80 µg/day), VMA는 2.82 mg/day (2-10 mg/day)로 측정되었다. 또한 24시간 요중 17-OHCS는 4.20 mg/day (3-15 mg/day), 17-KS는 7.40 mg/day (6-15 mg/day), cortisol은 66.54 µg/day (13.7-75.3 µg/day)로 측정되어 부신의 기능성 종양 가능성은 희박하다고 판단되었다.

병리학적 소견: 부신의 악성 종양 및 비기능성 갈색세포종의 가능성을 배제할 수 없어 치료 및 조직학적 확진을 위해 복강경하 좌측 부신 절제술을 시행하였다. 절제된 조직은 크기 5.7 × 2.8 cm의 부신 조직이었으며, 육안상 수질의 섬유화 소견이 관찰되었고, 현미경

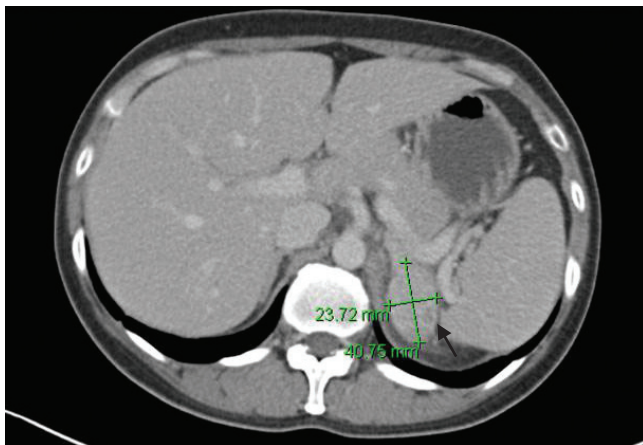


Fig. 1. CT scan shows about 4 × 2.3 cm-sized heterogeneous enhancing mass at the arterial phase and delayed phase including the early wash-out lesion (arrow) in the center of mass corresponding to bleeding portion on left side adrenal gland.

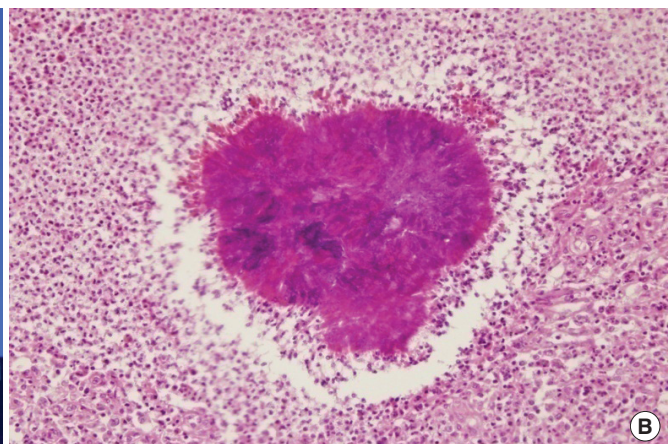
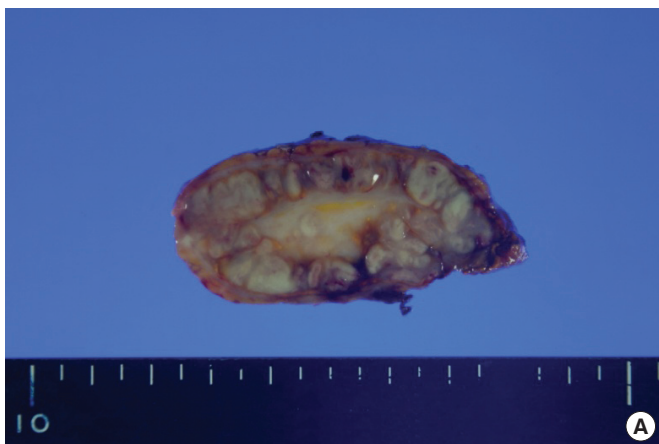


Fig. 2. A. There is a 5.7 × 2.8 cm-sized adrenal gland. The cut surface is light grey in color and necrotic in cortical area. Medullary lesion shows fibrosis. B. Photomicrograph shows actinomycotic abscesses containing sulfur granules with radiating filaments (H&E stain, × 200).

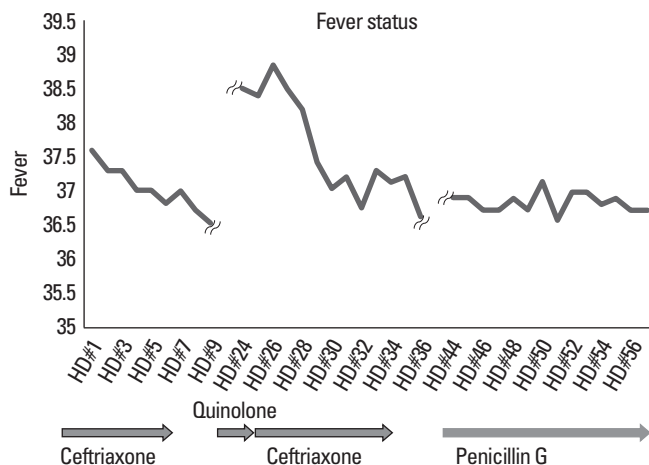


Fig. 3. Fever status and antibiotics coverage.

상 유행과립이 발견되어, 부신 방선균증으로 진단되었다(Fig. 2).

치료 및 경과: 본원 전원 당시, 퀴놀론 내성 균주에 의한 급성신우신염이 의심되어 3세대 세팔로스포린을 투여하였고, 일주일간 유지하였으나 보고되는 열이 없었으며, 혈액과 소변의 배양검사에서도 배양되는 균주가 발견되지 않았다. 추적 검사한 요침사 검사에서 현미경적 농도가 호전되었으며, 영상검사에서도 급성신우신염을 의심할만한 소견이 없어 항생제는 치료 일주일 만에 중단하였다. 이후 부신 우연종에 대한 검사를 진행하는 기간 중 보고되는 열이 없었으나 항생제 중단 16일째 38.5°C의 첫 열이 보고되었다. 이후로 매일 38°C 이상의 열이 반복되나 명확한 원인이 발견되지 않아 경험적 항생제를 다시 투여하였고, 항생제 재투여 만 3일만에 열감, 오한의 증상 호전되고, 정상 체온을 회복하였다. 항생제 투여 시작 4일 후 복강경하 좌측 부신 절제술을 시행하였고, 수술 후 조직검사에서 방선균증으로 진단되어 향후 6개월간 치료 예정으로 페니실린계 항생제로 치료 시작하였으며 현재 감염의 증거 없이 외래에서 경구용 항생제 치료 유지하며 경과관찰 중이다(Fig. 3).

고 찰

*Actinomyces israelii*는 그람 양성 혐기성균으로 주로 구강과 위장관에 분포하는 상재균이다. 방선균에 의한 감염은 만성 화농성 육아종 염증을 유발하며 목과 안면부에 감염을 일으키는 빈도가 가장 높으나, 전체 방선균증 중 20% 가량은 복강 내에서 발생하는 것으로 알려져 있다[3].

방선균증의 확진은 감염 병변에서 세균학적 배양을 통해 방선균을 확인함으로써 이루어지나 Brown 등[10]의 연구에 의하면 실제 세균학적으로 방선균이 확인되는 경우는 드문 것으로 나타나고 있어, 진단에는 방선균증에서 특징적으로 나타나는 유행 과립이나 방선균증에 특징적인 조직학적 소견이 중요하게 여겨지고 있으며, 최근에

는 진단율을 높이기 위해 16S rRNA의 증폭을 이용한 진단법 등이 연구되고 있다[11]. 그러나 영상의학적 소견상 복강 내 방선균증은, 악성 종양으로 오인되는 경우가 많아 실제 임상에서의 진단은 수술 후 조직검사에서 진단되는 경우가 많았으며, 수술 전에 복강내 방선균증이 진단되는 경우는 15% 내외에 불과한 것으로 나타났다[12,13]. 따라서 최근에는 복강 내 또는 골반 내 방선균증이 의심되는 경우 영상의학적인 방법이나 세침흡인검사 등 비교적 비침습적인 방법을 이용하여 방선균증을 진단하려는 연구들이 이루어지고 있다[14-17].

실제로 수술 없이 방선균증이 진단될 경우 기본 치료 지침은 2-6주간 매일 페니실린을 1천8백만-2천4백만 IU를 정주 후, 페니실린이나 아목시실린을 6-12개월 경구로 복용하며, 페니실린 알레르기가 있는 경우에는 테트라사이클린, 에리스로마이신, 독시사이클린 등을 사용하고, 영상의학적 방법을 통하여 추적관찰 하도록 하고 있다. 환자 별로 경피적 배액술 등의 추가적인 시술이나 때에 따라서는 수술까지 필요할 수도 있겠으나 기본적으로 방선균증은 수술 없이 항생제만으로 치료가 가능하기 때문에 수술 전에 방선균증을 진단할 수 있다면 환자에게는 큰 이득이라 할 만하다. 그러나 일반적으로 복강 내 또는 골반 내에서 발생하는 방선균증은 부신 우연종으로 발견되는 경우가 많지 않아 수술 없이 항생제 투여만으로 완치가 될 지에 대한 연구는 거의 이루어지지 않은 상태이다[18-20].

부신 우연종에 대한 진료지침은 아직 제정된 바가 없으나, 2003년 미국 국립보건원(NIH)에서 발표된 부신 우연종에 대한 전문가들의 의견에 따르면 야간 텍사메타손 억제 검사와 혈장 분할 메타네프린 측정, 24시간뇨에서 카테콜아민을 측정하여 우선 기능성 종양의 가능성부터 확인한 후 기능성 종양의 경우 수술을 시행해야 하며, 이상의 검사에서 기능이 없는 종양으로 판단되더라도, 전산화단층촬영 영상이나 자기공명영상 등 영상의학적 소견상 악성 종양의 가능성이 있을 경우 임상치의 판단에 따라 수술 또는 세침흡인검사를 시행토록 권유하고 있다[2]. 따라서 부신에 발생한 방선균증의 경우에는 임상치의 판단에 따라 세침흡인검사나 수술 시행 여부가 결정되므로, 임상치의 부신 방선균증에 대한 의심 여부가 향후의 치료 방향 결정에 중요한 요소이며, 부신 방선균증의 가능성이 있는 비기능성 부신 우연종의 경우에는 수술 전 세침흡인검사를 고려하는 것이 좋을 것으로 판단된다.

본 증례의 경우 부신 우연종에 대한 검사상 영상의학적으로 종양의 크기와 종양의 중심부 출혈이 영상검사에서 발견된 점, 암성 발열로 오인된 발열이 있었던 점 등을 미루어 부신의 악성 종양도 배제할 수 없는 상황에서 복강경하 부신절제술을 시행하였다. 본 증례를 후향적으로 검토해 본 바, 자궁 내 장치 등 방선균증 위험요소의 과거력이 있으면서, 원인미상의 발열 등 감염의 증상 등을 고려하였을 때, 부신에 발생한 방선균증을 의심할 수도 있지 않았을까 하는 소회가 있다. 현재까지 국내에 보고되었던 복강 내 발생한 방선균증의 보고들을 정리해보면, 자궁부속기, 충수, 대장 등의 순으로 빈도

Table 1. Abdominopelvic actinomycosis sites reported in Korean cases

Site	Patient
Appendix	21
Ileocecal	9
Colon	13
Rectum	7
Small bowel	4
Omentum	8
Mesentery	1
Adnexa	66
Uterus	8
Abdominal wall	3
Liver	2
Gallbladder	3
Biliary tract	2
Urinary bladder	3
Urachal cyst	2
Psoas muscle	1
Colon + Adnexa	1
Jejunum + omentum	1
Adnexa + colon + omentum	2
Sigmoid colon + appendix	1
Ileocecum + appendix	3
Sigmoid colon + small bowel + mesentery	1
Stomach	1
Bladder + omentum	2
Sigmoid colon	1
Retroperitoneum	1
Adrenal gland	0
Total	167

가 많았고(Table 1), 남성보다 여성에서 보고된 복강 내 방선균증의 예가 월등히 많았으며, 30, 40대 여성에서 가장 호발하는 것으로 나타났다(Table 2). 유발인자로써 자궁 내 장치, 유산, 충수제거술이 가장 많은 비중을 차지하고 있었으나(Table 3), 부신에 발생한 경우는 한 예도 보고된 바가 없었다[미출간자료]. 이에 저자들은 생화학 검사상 기능이 없는 것으로 판단되나 영상의학적으로 갈색세포종과 악성 종양을 감별할 수 없었던 부신의 거대 우연종을 가진 환자에서 부신 절제술 후 부신 방선균증으로 진단되어 적절한 항생제 치료를 수행할 수 있었던 증례를 보고함으로써, 이와 관련된 유사한 임상 양상을 보이는 환자에게 방선균증의 가능성을 고려해보고, 적절한 치료를 제공할 수 있는 참고가 되고자 한다.

요 약

5년 전 자궁 내 장치를 제거한 과거력이 있는 39세 여자 환자가 내원 2주전부터 시작된 열감, 오한, 좌측복부 통증으로 호소하여 시

Table 2. Age and sex distribution

Age	Sex	
	Male	Female
-10	1	2
11-20	2	3
21-30	4	12
31-40	7	35
41-50	5	45
51-60	4	12
61-	6	8
Total	32	117

Table 3. Predisposing factor

Predisposing factor	Patients
Previous appendectomy	11
Perforated appendicitis	2
Cholecystectomy, lobectomy	1
Kidney transplantation	2
Ectopic pregnancy	2
IUD	76
Trauma	5
Abortion	13
Gastric ulcer perforation	1
Diverticulum	3
Pulmonary tuberculosis	2
DM	2
VP shunt	1
Endoscopic sphincterectomy	1
Crohn's disease	1
Transversostomy	1
Total	124

IUD, intrauterine device; DM, diabetes mellitus; VP shunt, venticuloperitoneal shunt

행한 복부 전산화단층촬영에서 발견된 부신의 우연종에 대한 수술 후 절제 된 조직소견에서 방선균증으로 진단된 증례를 보고하고자 한다.

참고문헌

- Young WF Jr: Clinical practice. The incidentally discovered adrenal mass. *N Engl J Med* 356:601-610, 2007
- Grumbach MM, Biller BM, Braunstein GD, Campbell KK, Carney JA, Godley PA, Harris EL, Lee JK, Oertel YC, Posner MC, Schlechte JA, Wieand HS: Management of the clinically inapparent adrenal mass ("incidentaloma"). *Ann Intern Med* 138:424-429, 2003
- Bennhoff DF: Actinomycosis: diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. *Laryngoscope* 94:1198-1217, 1984
- Kim MK, Sun BH: Clinical analysis of actinomycosis: 66 cases of Korean

- experience. *J Korean Surg Soc* 52:702-710, 1997
5. Hwang HP, Lee MR, Kim JH: Pelvic actinomycosis: is it possible to diagnose preoperatively? *J Korean Soc Coloproctol* 23:437-440, 2007
6. Jung EY, Choi SN, Park DJ, You JJ, Kim HJ, Chang SH: Abdominal actinomycosis associated with a sigmoid colon perforation in a patient with a ventriculoperitoneal shunt. *Yonsei Med J* 47:583-586, 2006
7. Choi SE, Kwon JH, Park SH, Koh SB: A case of pelvic and abdominal actinomycosis after hysterectomy. *Korean J Obstet Gynecol* 50:1586-1590, 2007
8. Kim SY, Lee HS, Kim SM, Lee WJ, Lee JY, Choi SJ, Chon IY, Lee HJ: A case of abdominal actinomycosis presenting as mesenteric mass. *Korean J Gastroenterol* 51:48-51, 2008
9. Park SJ, Lee CG, Kim SE, Kim JH, Lee KH, Kim KY, Yun JW, Kim SY: A case of liver abscess associated with duodenal perforation by a toothpick. *Korean J Gastrointest Endosc* 36:390-394, 2008
10. Brown JR: Human actinomycosis. A study of 181 subjects. *Hum Pathol* 4:319-330, 1973
11. Siqueira JF, Rôças IN, Moraes SR, Santos KR: Direct amplification of rRNA gene sequences for identification of selected oral pathogens in root canal infections. *Int Endod J* 35:345-351, 2002
12. Thompson JR, Watts R Jr, Thompson WC: Actinomycetoma masquerading as an abdominal neoplasm. *Dis Colon Rectum* 25:368-370, 1982
13. Harris LE, Kakani PR, Selah CE: Actinomycosis. Surgical aspects. *Am Surg* 51:262-264, 1985
14. Pauker SG, Kopelman RI: Clinical problem-solving. A rewarding pursuit of certainty. *N Engl J Med* 329:1103-1107, 1993
15. Ha HK, Lee HJ, Kim H, Ro HJ, Park YH, Cha SJ, Shinn KS: Abdominal actinomycosis: CT findings in 10 patients. *AJR Am J Roentgenol* 161:791-794, 1993
16. Shah HR, Williamson MR, Boyd CM, Balachandran S, Angtuaco TL, McConnell JR: CT findings in abdominal actinomycosis. *J Comput Assist Tomogr* 11:466-469, 1987
17. Lee YC, Min D, Holcomb K, Buhl A, DiMaio T, Abulafia O: Computed tomography guided core needle biopsy diagnosis of pelvic actinomycosis. *Gynecol Oncol* 79:318-323, 2000
18. Wali D, Sanchez J, Gilchrist B, Cash S, Anderson V, Ramenofsky M: Actinomycosis imitating an adrenal tumor. *J Pediatr Surg* 37:930-931, 2002
19. Lazúrová I, Závacký P, Ondic O: Adrenal actinomycosis mimicking a large tumor of the adrenal gland. *J Urol* 173:517-518, 2005
20. Berchtenbreiter C, Brüning R, Auernhammer A, Reiser M: Misleading diagnosis of retroperitoneal actinomycosis. *Eur Radiol* 9:1869-1872, 1999