

CASE REPORT

복벽에 발생한 방선균증 1예

김경훈, 이진수, 조형준, 최승봉¹, 정대영, 김진일, 이인규¹

가톨릭대학교 의과대학 내과학교실, 외과학교실¹

A Case of Abdominal Wall Actinomycosis

Kyung Hoon Kim, Jinsoo Lee, Hyeong Jun Cho, Seung Bong Choi¹, Dae Young Cheung, Jin Il Kim and In Kyu Lee¹

Departments of Internal Medicine and General Surgery¹, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

Actinomycosis is a chronic suppurative granulomatous infectious disease caused by actinomyces species that is characterized by formation of characteristic clumps called as sulfur granules. Abdominal actinomycosis is a rare disease and is often difficult to diagnose before operation. Abdominal actinomycosis infiltrating into the abdominal wall and adhering to the colon is even rarer. Most abdominal actinomycosis develops after operation, trauma or inflammatory bowel disease, and is also considered as an opportunistic infection in immunocompromised patient with underlying malignancy, diabetes mellitus, human immunodeficiency virus infection, etc. Actinomycosis is diagnosed based on histologic demonstration of sulfur granules in surgically resected specimen or pus, and treatment consists of long-term penicillin based antibiotics therapy with or without surgical resection. Herein, we report an unusual case of abdominal wall actinomycosis which developed in a patient after acupuncture and presented as abdominal wall mass that was first mistaken for abdominal wall invasion of diverticulum perforation. (Korean J Gastroenterol 2015;65:236-240)

Key Words: Actinomycosis; Abdominal wall

서 론

방선균증(actinomycosis)이란 만성 화농성 육아종성 감염 질환으로 그람 양성, 비항산성, 혐기성 또는 미세호기성이고 정상적으로 피부, 구강, 편도선, 위장관 및 하부 여성 생식기에 상주하는 정상 세균총인 방선균에 의한 감염이다.¹

다발성 농양 및 배출루를 형성하고 풍부한 육아조직 및 섬유조직 증식을 동반하여 자주 종괴를 형성하며, 병리 조직 검사에서 특징적인 유황과립을 보이는 것이 특징이다. 또한 정상적인 점막은 침입하지 못하고 일단 점막에 손상이 있거나 면역결핍이 있는 경우 병변을 잘 형성하는 것으로 알려져 있으며 비특이적인 영상 소견과 임상 소견으로 인하여 악성종양

과의 감별이 어렵고 수술 전 진단이 어려운 특징이 있다.²

복벽에 발생하는 방선균증은 외국과 국내에서 아주 드물게 보고되고 있으며 횡행결장의 방선균증 또한 그 보고가 매우 드물다. 저자들은 복부 수술 경험이 없고 면역 결핍 등의 기저 질환이 없던 환자에서 침 시술 후 발생한 복부 방선균증 1예를 경험하였기에 이를 보고하는 바이다.

증 례

64세 남자 환자가 내원 약 6개월 전 좌상복부에 침 시술을 받은 후 시술 한 달 후부터 시작된 시술 부위의 통증으로 본원 외래 방문하였으며 복부 검진에서 통증을 동반한 종괴로 추적

Received September 19, 2014. Revised October 16, 2014. Accepted October 17, 2014.

© 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 © 2015. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 이인규, 137-701, 서울시 서초구 반포대로 222, 가톨릭대학교 서울성모병원 외과

Correspondence to: In Kyu Lee, Department of Surgery, The Catholic University of Korea, Seoul St. Mary's Hospital, 222 Banpo-daero, Seocho-gu, Seoul 137-701, Korea. Tel: +82-2-3779-2235, Fax: +82-2-786-0802, E-mail: cmcgslee@catholic.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

검사 결과 그 크기가 증가하여 내원 일주일 전 외래에서 세침 흡인검사를 시행하였으나 양성세포 소견 외 특이 소견을 얻을 수 없어 이에 대한 진단 및 수술 치료를 위하여 입원하였다. 과거력에서 고혈압이 있었으며 내원 6년 전 안정형 협심증으로 좌전하행 관상동맥에 경피적 관상동맥 중재술을 시행받고 본원 순환기내과에서 아스피린, 클로피도그렐 외 고혈압 약제를 처방받아 복용 중이었다. 그 외 다른 기저 질환은 없었다. 환자에게 급성 병색의 소견은 보이지 않았으며 의식은 명료하였다. 활력 징후는 혈압 135/80 mmHg, 맥박수 분당 71회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.6°C로 안정적이었다. 신체 검진에서 복부는 부드럽고 압통이나 반발압통은 없었으며 복부 청진에서 정상 장음으로 들렸으나 좌상복부에 약 5×6 cm 크기의 딱딱하고 움직이지 않는 종괴가 만져졌다. 말초혈액검사에서 백혈구는 $9,560/\text{mm}^3$, 혈색소 12.2 g/dL, 적혈구 용적률 36.0%, 혈소판수 $228,000/\text{mm}^3$ 였다. 혈청 생화학검사는 모두 정상 범위였다.

입원 4개월 전 처음으로 시행한 전산화단층촬영에서는 4.7 cm 크기의 경계가 불명확하고 불균질한 조영증강을 보이는 종괴가 좌상복벽에 위치하고 있었다. 종괴는 복벽으로 침윤하는 양상을 보이고 있었으며 횡행결장과는 매우 근접하여 있으나 명확한 연결성은 보이지 않았다(Fig. 1). 전산화단층촬영에서 대장 계실을 시사하는 소견은 찾을 수 없었다. 내원 한 달 전 시행한 초음파에서는 불균질한 저에코를 보였으며 주로는 좌상복벽에 위치하는 종괴로 크기가 6.3 cm로 증가되어 있었다. 동일한 시기에 시행한 추적 전산화단층촬영에서 복벽 종괴는 6.4 cm로 증가하였으며 이전에 비하여 복벽으로의 침윤이 심해진 모습을 보이고 횡행결장으로도 더욱 근접하여 연결

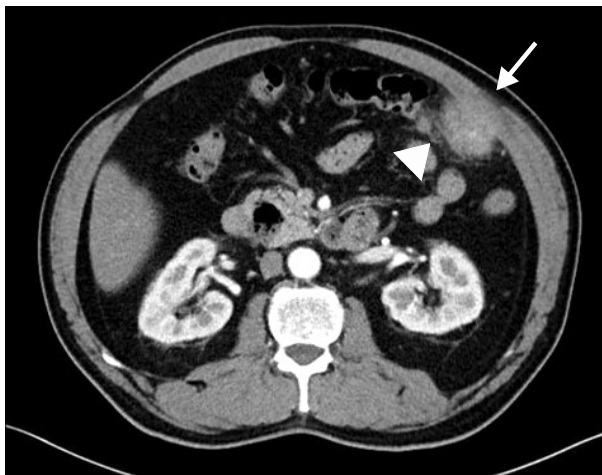


Fig. 1. CT image shows an ill-defined, heterogeneous enhancing mass at the left upper quadrant of the abdomen that is focally infiltrating into the abdominal wall (arrow) and closely abutting adjacent transverse colon (arrowhead).

성이 의심되었다. 병변 주변으로 지방으로의 침윤은 이전에 비하여 뚜렷하게 관찰되었다(Fig. 2). 이상의 검사에서 복벽 내 종괴 이외 다른 질환을 시사하는 소견은 없었고 악성종양 감별을 위한 PET-CT는 시행하지 않았으며 대장내시경도 시행하지 않았다.

2병일째 전신 마취하에 복벽 종괴에 대한 수술을 시행하였다. 수술 소견에서 종괴는 근막층 아래 내측으로는 복직근 일부를 포함해서 전층을 침범하고 있었으며, 그물막 및 횡행결장과 붙어 있었고 크기는 10×8 cm 정도였다(Fig. 3). 수술 중 종괴가 횡행결장 내부와 연결되어 있음을 확인하여 계실 천공에 의한 복벽 침범으로 생각되었다. 동결절편 검사는 양성 종괴 소견이었다(Fig. 4). 수술은 근막층, 복직근, 대망 및 횡행결장 일부를 포함한 일괄 절제를 시행하였으며 횡행결장

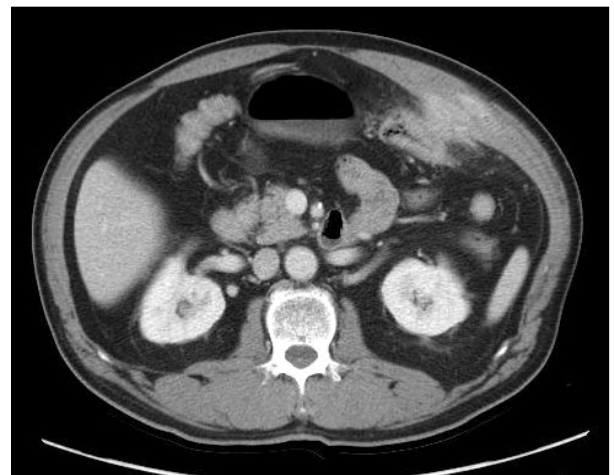


Fig. 2. Follow-up computed tomography after 4 months shows increased size of enhancing mass with interval progression of infiltration into the abdominal wall and presumably to the transverse colon. Prominent peri-lesional infiltration is also demonstrated.

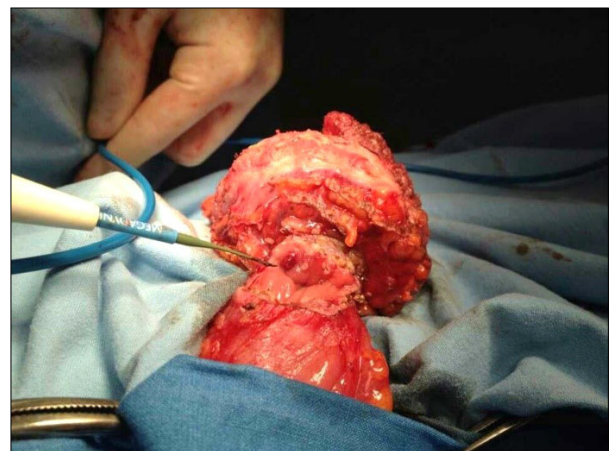


Fig. 3. Abdominal wall actinomycosis conjoined with the transverse colon (10×8 cm).

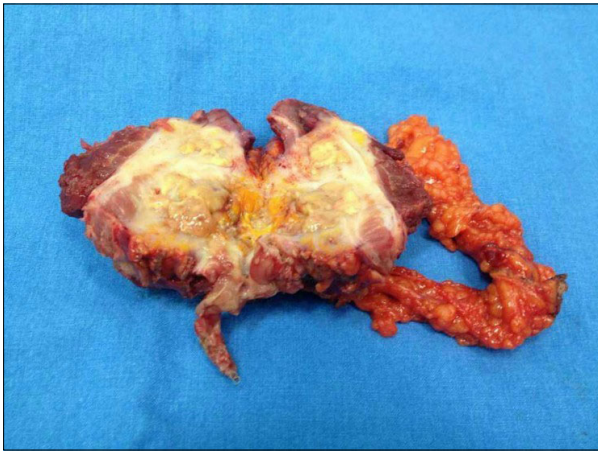


Fig. 4. Gross finding of surgically resected specimen of abdominal wall actinomycosis conjoined with transverse colon which shows central yellowish necrosis.

은 췌기절제술 후 봉합하였다. 근막층의 결손 부위가 넓어 Gore-Tex mesh를 이용하여 복구하였다(Fig. 5). 수술 후 확인한 조직 검사 결과 Gram stain 양성, periodic acid-Schiff (PAS) stain 양성, methenamine silver stain 양성 소견이었으며 acid-fast bacillus (AFB) stain은 음성이었고 유황과립이 발견되어 방선균증을 진단하였다(Fig. 6, 7). 하지만 병리 조직 소견에서는 횡행결장의 계실 소견이나 천공 소견을 찾을 수는 없었다. 복부에 발생한 방선균증으로 확진한 후 정맥 주사 항생제를 일주일간 투여하고, 수술 후 8병일째 별다른 합병증이 없어 경구용 아목시실린과 클라부라네이트를 14일간 처방하여 퇴원하였다. 수술을 통한 절제 및 항생제 치료 약 4개월째 환자는 재발 없이 외래 경과 관찰 중이다.

고 찰

방선균은 1845년 Von Langenbeck에 의해 진균에 의한 인체 감염이 처음으로 보고된 후 *Actinomyces israelii*, *A. bovis*, *A. propionicus*, *A. eriksonii*, *A. naeslundii*, *A. viscosus*, *Arachniapropionicus* 등 현재까지 14종의 균주가 확인되었으며 이 중 6종이 인체 감염을 일으키는 것으로 알려져 있고 주로 *A. israelii*에 의해 인체 감염이 일어난다.³ 과거에는 배양 시 분지를 하여 진균류로 분류되었으나 세포막 연구에 의해 핵막의 부재, 세포벽의 chitin이 없다는 점, 분열에 의한 번식과 함께 페니실린에 의해 성장이 억제되고 암포테리신 B에 의한 반응이 없다는 사실로 미루어 진균보다 세균의 조건을 가진 것으로 밝혀졌다.⁴

1938년 Cope⁵는 1,330예의 방선균증을 분석하여 경안부형, 복부형, 흉부형, 기타형으로 구분하였으며 이중 경안부형이 전체 방선균증의 약 63%를 차지하고 복부형은 22%, 흉부

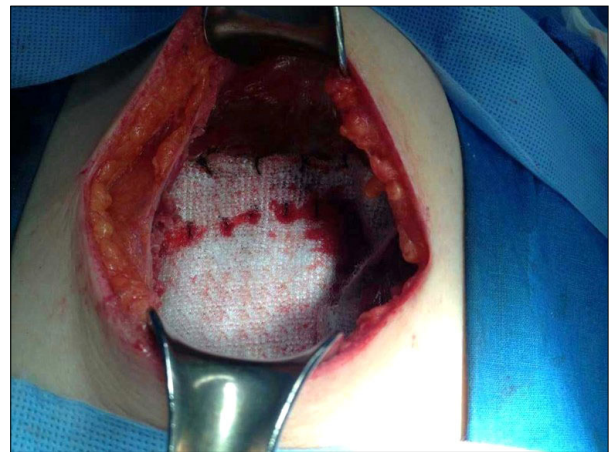


Fig. 5. Surgical repair with Gore-Tex mesh.

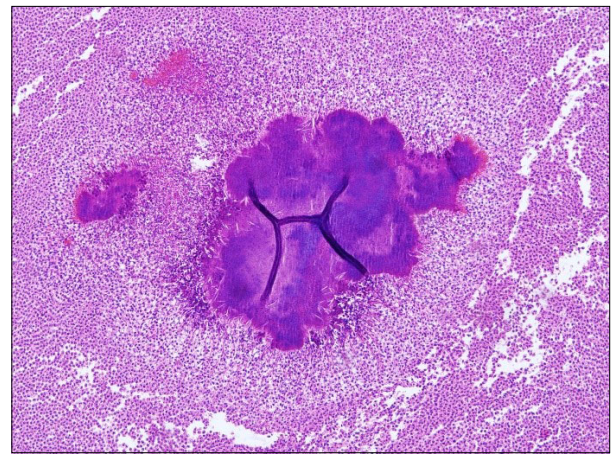


Fig. 6. Microscopic finding of sulfur granule in the abscess along with surrounding inflammatory cells such as neutrophils and macrophages (H&E, ×100).

형은 15%를 차지한다고 보고하였다. 흉부형과 복부형은 비교적 드문 것으로 알려져 있으나 최근 항생제 발달로 인해 경안부형이 감소하고 복부형이 증가하는 것으로 보고되었다.⁶

복부 방선균증은 충수돌기 및 맹장에 발생하는 경우가 가장 많고 대장, 위, 간, 담낭, 췌장, 골반, 복벽에 발생하는 경우도 보고되고 있다. 주로 급성 충수돌기염 등의 복부 수술 후와 천공성 대장 계실염, 소화성 궤양에 의한 천공, 외상 등의 천공성 위장관 질환을 앓고 난 뒤에 발생하는 것으로 알려져 있다.⁷ 이 증례에서처럼 복벽에 생기는 방선균증은 매우 드물어 문헌고찰에 의하면 외국에서도 2004년까지 단 9예의 증례가 보고되었다.⁸

복부 방선균증의 임상 증상은 선행 질환과 임상 증상의 발현 사이에 수주에서 수개월의 잠복기가 존재하게 되는데 보통 심하지 않은 발열, 체중감소 등의 전신 증상과 함께 오심, 구토, 복통 등의 비특이적인 위장관 증상을 보이고 이학적 소견

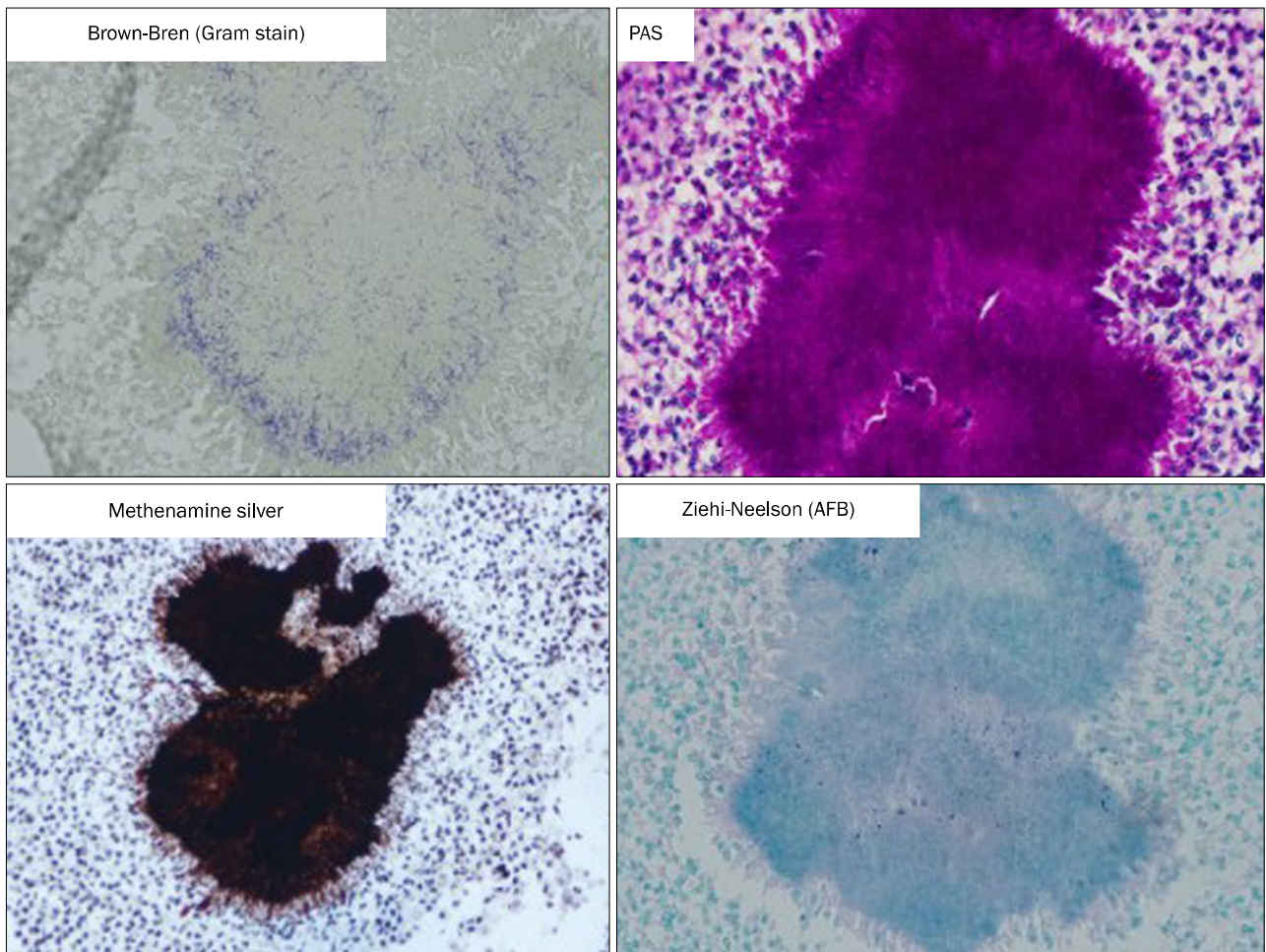


Fig. 7. Special stains of sulfur granule (Brown-Bren, $\times 400$; periodic acid-Schiff (PAS), $\times 400$; methenamine silver, $\times 200$; Ziehl-Neelson, $\times 200$).

에서는 농루 또는 배출로를 형성하는 염증성 종괴물을 흔히 볼 수 있다. 검사 소견으로는 빈혈, 백혈구 증가증, 적혈구 침강속도 증가 등의 소견을 볼 수 있다.^{6,9} 이 증례에서는 발열, 체중감소 등의 전신 증상 및 오심, 구토 등의 위장관 증상을 보이지 않아 진단에 있어 어려움이 있었다.

복부 방선균증의 임상적 진단율은 매우 낮은 편으로, 일반적으로 진단이 지연되는 것이 특징이다. 임상적으로 매우 드문 질환이며 특징적인 임상 소견이 없기 때문에 수술 전에 진단이 내려지는 경우는 10% 내외밖에 되지 않는다.⁹ 영상학적인 진단 방법으로는 초음파 검사, 전산화단층촬영 등이 있다. 전산화단층촬영에서 흔히 볼 수 있는 방선균증의 특징으로는 동심 또는 이심성의 장벽 비후, 균질하거나 이질적인 강조영 증강, 장 주위 침윤, 낭성이나 고형 또는 복합된 종괴 형성, 림프절 증대, 복수, 장 폐쇄 등이 있다.¹⁰ 또한 장기 침범의 정도와 염증 정도를 알 수 있어 진단에 유용하게 사용될 수 있다. 그러나 영상학적 검사에서도 방선균증의 특징적인 소견은 없으며 복부 초음파촬영이나 전산화단층촬영에서 병

변의 위치와 조직 침범의 정도를 확인하고 세침흡인검사를 시행하거나 치료 이후 치료 반응을 확인하는 데 도움이 되는 정도이다.¹¹ 방선균증의 정확한 진단은 일반적으로 방선균 유향과립의 조직학적 확인 및 방선균의 배양 검사에 의해 이루어진다. 이를 위해 감염 부위의 수술적 처치 후 조직학적인 확인에 의해 진단된다. 방선균의 병소는 염증 반응, 조직 괴사 및 섬유화로 이루어져 육아종성 반응보다 화농성 병변이 현저하고 많은 미세농양과 농루가 형성되며, 농양에는 특징적인 무정형의 유향과립이 존재하고 이 중심부는 그람 양성 군사체로 구성된다.¹² 유향과립 주위에는 많은 백혈구와 함께 림프절, 단핵구, 형질세포 등이 산재하므로 H&E, PAS, Gram, methenamine-silver 염색 등을 이용하여 비교적 용이하게 진단할 수 있다.

복부 방선균증의 치료에는 수술 요법 및 항생제 요법이 있다. 수술 전 진단이 되는 경우가 드물기는 하나 수술 전에 방선균증이 진단되었다면 표준 치료는 항생제 치료이다. 하지만 많은 경우 수술이 필요하며 특히 농양의 크기가 크거나 복막

염과 같은 천공성 합병증이 있을 때 수술 치료가 필요하다.⁸ 내과 치료로는 penicillin이 가장 효과적인데 여러 투여 방법이 있으나 전통적인 투여 방법은 penicillin 1천만-2천만 단위를 매일 2-6주간 정맥 주사한 후 경구용 penicillin 2-4 g/day 또는 amoxicillin을 6-12개월 추가 투여하는 것으로서 90% 전후의 치료율을 보이는 것으로 되어 있다.¹³

이 증례에서 환자는 복부 수술의 기왕력과 천공성 복부 질환 등의 선행 질환이 없었으며 좌상복부의 침술 후 특이 증상 없이 지내던 중 침술 한 달 뒤 발생한 좌상복벽의 통증을 주소로 외래를 방문하였다. 복부 검진에서 압통을 동반한 단단한 복벽 내 종괴를 진단할 수 있었으며 천공에 의한 징후를 관찰할 수 없었고 관상동맥 스텐트 삽입술 후 아스피린 및 클로피도그렐을 복용하고 있어 복벽내 종괴는 침술 후 발생한 혈종으로 생각하였다. 이에 특별한 치료 없이 전산화단층촬영 및 경과 관찰을 하였으나 약 3개월만에 2 cm의 크기 증가가 있어 악성종양에 대한 감별을 위해 세침흡인검사를 하였지만 특이 소견이 관찰되지 않아 진단적, 치료적 종괴 제거술을 결정하였다. 수술 중 횡행결장과 복벽 내 종괴 사이의 작은 연결구멍을 확인하였으며 수술 중 동결절편 검사에서도 급성 염증에 동반된 농양 소견이어서 수술 후 진단은 제실 천공의 복벽 내 침범으로 생각되었으나 최종 병리 진단에서 방선균증으로 확진되었다. 진단 후 환자는 단 3주간의 항생제 치료를 받았는데 이는 종괴에 대한 완전절제가 가능하였으며 남은 종괴나 침윤 부위가 없음을 확인하였기에 가능한 결정이었다. 실제로 Kim 등¹⁴이 2007년 발표한 국내 보고에서도, 수술적으로 완전 절제가 되지 않았던 1예의 경우 6개월의 항생제 치료에도 재발했던 반면 수술 시 완전 절제가 가능하였던 5예에서는 수술 후 항생제 치료 없이도 재발하지 않았다. 이 증례에서도 환자는 현재까지 재발이나 합병증 없이 외래 경과 관찰 중이다.

이번 증례를 검토하면서 저자들은 몇 가지 흥미로운 사실을 추론해 볼 수 있었다. 첫째, 침술과의 연관성으로 침술 한 달 후 같은 자리에 복벽 내 종괴를 형성했다는 점이 침술에 의한 병 발생의 가능성을 시사한다. 문헌 고찰에서 세침흡인 검사 후 방선균증의 범위가 커진 증례¹⁵는 있으나 동양 침술 후 방선균증이 발병했다는 증례는 보고된 바가 없었다. 둘째, 두 번의 복부 전산화단층촬영과 한 번의 복부 초음파에서 저자들은 횡행결장과의 연결성을 확인할 수 없었으나 수술 중 분명한 연결성을 확인할 수 있었고, 이는 마지막 영상 검사를

한 시점으로부터 수술까지의 약 한 달 사이에 복벽 내 방선균증이 횡행결장에 농루를 형성하고 있었다고 생각할 수 있다. 자들은 비교적 흔하지만 이처럼 흔치 않은 양상으로 발병한 복벽 내 방선균증을 치료하여 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Choi PS, Kim SJ, Jeon HS, et al. A case of pelvic and abdominal actinomycosis associated with wearing an intrauterine device. *Korean J Obstet Gynecol* 2001;44:1357-1361.
2. Bae TS, Bae JD, Kim SO, Lee MS, Jung KH, Jung BW. Three cases of abdominal actinomycosis. *J Korean Surg Soc* 2000;59:414-419.
3. Ormsby AH, Bauer TW, Hall GS. Actinomycosis of the cholecystic duct: case report and review. *Pathology* 1998;30:65-67.
4. Cummins CS. Chemical composition and antigenic structure of cell walls of *Corynebacterium*, *Mycobacterium*, *Nocardia*, *Actinomyces* and *Arthrobacter*. *J Gen Microbiol* 1962;28:35-50.
5. Cope Z. Actinomycosis. London: Oxford University press, 1938.
6. Putman HC Jr, Dockerty MB, Waugh JM. Abdominal actinomycosis; an analysis of 122 cases. *Surgery* 1950;28:781-800.
7. Peabody JW Jr, Seabury JH. Actinomycosis and nocardiosis. A review of basic differences in therapy. *Am J Med* 1960;28:99-115.
8. Acquaro P, Tagliabue F, Confalonieri G, Faccioli P, Costa M. Abdominal wall actinomycosis simulating a malignant neoplasm: case report and review of the literature. *World J Gastrointest Surg* 2010;2:247-250.
9. Cintron JR, Del Pino A, Duarte B, Wood D. Abdominal actinomycosis. *Dis Colon Rectum* 1996;39:105-108.
10. Ha HK, Lee HJ, Kim H, et al. Abdominal actinomycosis: CT findings in 10 patients. *AJR Am J Roentgenol* 1993;161:791-794.
11. Goldwag S, Abbitt PL, Watts B. Case report: percutaneous drainage of periappendiceal actinomycosis. *Clin Radiol* 1991;44:422-424.
12. Chin SJ, Lee CK, Kim CW, Kim KH. Actinomycosis of liver and greater omentum: a case report. *Korean J Pathol* 1979;13:303-308.
13. Lambroza A, Tighe MK, DeCosse JJ, Dannenberg AJ. Disorders of the rectus abdominis muscle and sheath: a 22-year experience. *Am J Gastroenterol* 1995;90:1313-1317.
14. Kim JW, Jeong JB, Jung YJ, et al. Clinical features and therapeutic responses of abdominal actinomycosis. *Intest Res* 2007;5:177-183.
15. Nayak L, DiMaio M, Jeffrey RB. Extraglandular extension of parotid actinomycosis after sonographically guided fine-needle aspiration. *J Ultrasound Med* 2013;32:715-716.