

루드비히 앙기나 부검 증례

나주영¹ · 함석훈¹ · 오연호¹
이성수² · 김형석³ · 박종태³

¹국립과학수사연구원
광주과학수사연구소 법의학과
전남대학교 의과대학
²이비인후-두경부외과학교실 및
³법의학교실

Received: September 22, 2015
Revised: October 15, 2015
Accepted: November 13, 2015

Correspondence to

Joo-Young Na
Forensic Medicine Division, National
Forensic Service Gwangju Institute, 687,
Chungnyeong-ro, Seosam-myeon,
Jangseong 57231, Korea
Tel: +82-61-393-8442
Fax: +82-61-393-8440
E-mail: pdrdream@gmail.com

Ludwig's Angina: An Autopsy Case

Joo-Young Na¹, Suk-Hoon Ham¹, Yeon-Ho Oh¹, Sung-Su Lee²,
Hyung-Seok Kim³, Jong-Tae Park³

¹Forensic Medicine Division, National Forensic Service Gwangju Institute, Jangseong, Korea,
Departments of ²Otolaryngology-Head and Neck Surgery and ³Forensic Medicine, Chonnam
National University Medical School, Gwangju, Korea

Ludwig's angina is a progressive gangrenous cellulitis and edema of the soft tissues of the neck and floor of the mouth. Ludwig's angina can be fatal as a result of progressive swelling of the soft tissues of the neck and elevation and posterior displacement of the tongue, resulting in airway obstruction. We report the case of a 77-year-old man who was admitted to the dental hospital with a toothache and headache. He was diagnosed with left submandibular space abscess. Four days post-admission, the submandibular and submental abscess was incised and drained. After the operation, the patient suddenly developed dyspnea and suffered cardiopulmonary arrest and died. An autopsy was performed, and exploration of the neck revealed a submental and submandibular abscess with massive inflammation, edema, and an abscess in multiple layers of the cervical subcutaneous tissue. After autopsy, the cause of death was confirmed as Ludwig's angina with a deep neck abscess. Ludwig's angina is a rapidly progressive cellulitis that often results in death by asphyxia or sepsis and is rarely seen in a forensic autopsy practice. Here in we report a case of Ludwig's angina and present a review of the literature.

Key Words: Ludwig's angina; Autopsy; Asphyxia

서론

루드비히 앙기나는 Wilhelm Frederick von Ludwig에 의해 1836년 처음 보고된 질환으로 주로 성인 남성에서 치아의 감염과 관련하여 빠르게 진행되는 치명적인 아래턱밑공간(submandibular space) 연부조직염이다[1]. 임상적으로는 발열, 목부위 부종, 연하곤란 등이 발생할 수 있고, 초기에 진단이 되어 적절한 치료가 이루어지지 못한 경우 빠르게 진행되어 수일 만에 급격히 사망에 이를 수 있으며 사망의 기전은 폐색성 질식사나 패혈증으로 설명되고 있다[2]. 과거에는 치사율이

50% 이상으로 보고되었는데[1], 최근에는 항생제 치료, 영상기법의 발달에 대한 진단율 증가, 수술적 치료 기술의 발전 등으로 인해 치사율이 감소하였지만, 치사율이 여전히 약 8%로 보고되고 있다[3]. 일반적으로 루드비히 앙기나와 같이 아래턱밑공간 및 목부위 염증으로 인해 사망하게 되는 경우를 법의부검 영역에서 경험하는 것은 흔하지 않은바, 저자들은 치통으로 내원하여 입원 치료 중 절개 및 배농 수술을 받고 사망한 루드비히 앙기나에 대한 법의부검 증례를 영상의학적 소견, 부검술기 및 법의학적 검사 등과 함께 보고하고자 한다.

증 례

변사자는 77세 남성으로 특기할 질병력은 없었다. 약 1주일 전부터 시작된 아래쪽 양쪽 어금니부위 통증으로 치과병원에 내원하여 치석 제거와 스케링 치료를 받았다. 다음 날 아래턱 붓기를 주소로 하여 다시 치과병원에 내원하여, 왼쪽 아래턱밑 농양 의심 하에 입원한 후 구강악안면외과에서 절개 및 배농 수술을 시행 받았다. 입원 이후 항생제로 아목시실린이 처방되었고, 소염진통제 등이 처방되었다. 이후 변사자는 지속적으로 발열과 오한을 호소하였고, 입원 다음 날부터는 입 안에서 농양이 배출된다고 호소하였으며, 입원 기간 동안 목부위 불편감과 부종 및 열감이 지속되었다. 입원 3일 후에는 침을 삼키기 어려웠고, 목부위 부종이 심화되어 입원 4일째 목부위 컴퓨터 단층촬영 검사를 한 후 20시경 입부위 농양과 연부조직염에 대한 절개 및 배농 재수술을 받았다. 수술 소견상 아래턱밑공간과 턱끝밑부위에서 농양이 확인되었고, 루드비히 양기나 의 심 소견이 확인되었다. 21시15분경 수술이 종료되었고, 중환자실에서 회복 중 22시18분경 산소포화도 79%, 심장박동 56 회/분으로 감소하였고, 22시20분경 자발호흡이 약해지면서 의식저하가 발생하며 혈압이 확인되지 않았다. 즉시 기관삽관을 시도하였으나 실패하였고, 이후 22시33분경 기관삽관을 다시 시행하였으며, 22시35분경 심정지가 발생하여 심폐소생술을 시행하였으나, 다음 날 02시30분 사망 신고되었다.

유족은 의료과실을 주장하였고, 부검은 사망 3일 후에 시행되었다. 변사자는 키 약 164 cm, 몸무게 약 66 kg인 남성이었다. 코 안에 혈액이 있었고, 아래턱밑공간과 목부위는 단단하면서 부어있었으며, 목부위 앞쪽에 수술 및 반지방배연골절개술이 시도되었던 절개부위가 있었다(Fig. 1A). 기타 신체 부위에서는 심폐소생술 등 의료행위에 의한 손상 외에 특기할 손상은 없었다. 내부 검사상 목부위 양쪽 피하연부조직 및 근육 등

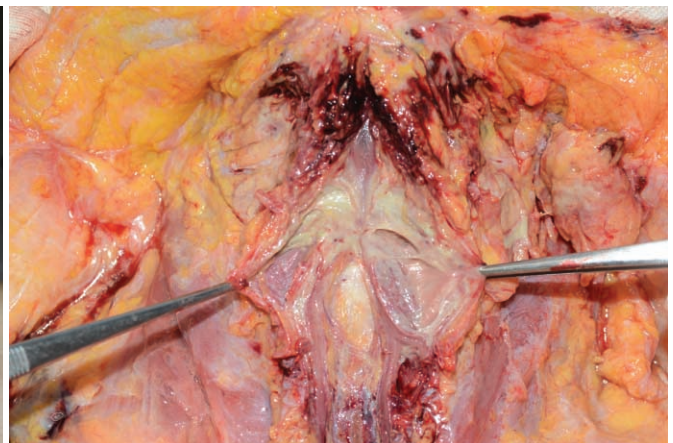
여러 층의 목부위 연부조직에 농양이 있었고, 특히 아래턱과 목뿔뼈 사이 부위의 연부조직에서 염증 및 부종이 심하였다(Fig. 1B). 가슴부위에서 혈흉이 동반되지 않은 갈비뼈 골절이 있었고, 심장은 412 g으로 원심장동맥 앞심실사이가지가 일부 심근 안으로 주행하였다. 양성 신경화가 있었고, 기타 내부장기에서 특기할 질병은 없었다.

부검 후 제출된 입원 당일 촬영한 컴퓨터단층촬영 영상에서는 목부위 앞쪽 연부조직과 후두부위 및 목부위 근막에서 부종 및 염증이 확인되었다. 입원 4일 후 촬영한 컴퓨터단층촬영 영상에서는 부종과 염증이 더욱 심화되었으며, 기도가 좁아진 소견이 확인되었고, 목부위 앞쪽 연부조직에서는 공기방울이 확인되었다(Fig. 2). 현미경적 검사상 목부위 연부조직에 광범위한 화농성 염증이 있었고, 근육을 포함한 일부 조직들이 괴사되었으나, 침샘의 조직학적 구조는 상대적으로 보존되었다(Fig. 3). 부검 시 채취한 심장 혈액을 이용한 C반응단백질의 검사상 9.040 mg/dL (참고치 0.0-1.0 mg/dL)로 검출되었고, 의료기록 검토상 입원 3일째 시행한 C반응단백질의 수치는 17.8 mg/dL 이었다. 위 내용물 및 혈액의 약물과 독물 검사상 리도카인, 크로르페니라민, 트라마돌, 프로포폴이 검출되었으나, 리도카인과 프로포폴의 혈액 중 함량은 치료농도 이하였고, 크로르페니라민과 트라마돌의 혈액 중 함량은 치료농도 범위 이내였다. 혈중알코올농도는 0.010% 미만이었으며, 유리체액을 이용한 임상화학검사상 포도당이 270 mg/dL로 확인되는 것 외에 법의학적으로 특기할 소견이 검출되지 않았다. 부검 시 채취한 심장혈액을 이용한 세균배양 검사에서는 세균이 배양되지 않았다.

이상의 소견을 종합하여 본 변사자는 양쪽 어금니부위 통증이 있었고, 왼쪽 아래턱밑 농양 의심 하에 입원하여 절개 및 배농 등의 치료를 받았다. 그러나 입원 이후 목부위 불편감, 발열, 오한 등을 호소하였으며, 입원 3일 후에는 침을 삼키기 어렵게



A



B

Fig. 1. (A) The neck shows a firm and edematous or 'bull neck' appearance. (B) Neck dissection reveals areas of pus accumulation between the strap muscles.



Fig. 2. Computed tomogram taken four days post-admission shows markedly aggravated infection and edema of the sub-mandibular space, with air bubbles (the narrow arrow indicates an edematous mylohyoid muscle with an abscess, and the thick arrow indicates inflamed subcutaneous fascia).

되었고, 입원 4일 후 다시 절개 및 배농 수술을 받았으나, 수술 후 갑자기 산소포화도가 감소하며 사망하였다. 한편 심폐소생술 당시 기관삽관을 시도하였으나 실패하였다고 하는바, 기도가 막히는 등의 상태였을 것으로 의심할 수 있었고, 부검소견상 아래턱부위 및 목부위에서 농양 등 고도의 부종 및 염증의 소견이 확인되었으며, 부검 시 채취한 혈액을 이용한 검사에서도 C반응단백질이 상승하였는바, 사인은 루드비히 양기나 등 아래턱밑공간과 목부위 농양 등 고도의 염증으로 판단하였고, 본 변사자는 비구폐색의 기전에 의해 사망하였을 것으로 판단하였다.

고 찰

루드비히 양기나는 1836년에 처음 보고된 질환으로 입 안 위생이 좋지 않은 사람에게서 주로 발생하는 것으로 보고되었다. 전형적으로는 20세에서 60세 남성에서 치아 감염과 연관되어 발생하고, 급속하게 진행되는 아래턱밑공간과 목부위의 연부조직염이다[2]. 치아 감염은 약 70%에서 동반되는 것으로 보고되었고, 아래턱 둘째큰어금니가 주로 관여하는 것으로 알려져 있으나, 셋째큰어금니 역시 흔히 관여된다[4]. 본 변사자의 경우 전반적으로 입 안 위생 상태가 불량하였고, 주로 아래턱 둘째 및 셋째큰어금니에서 우식증이 확인되었다. 루드비히 양기나의 경우 과거에는 치사율이 50% 이상으로 보고되었으나, 최근에는 8% 정도로 감소한 것으로 보고된다[3]. 증상으로는 발열, 목부위 부종 및 불편감, 통증 등이 있고, 침을 삼키기 어

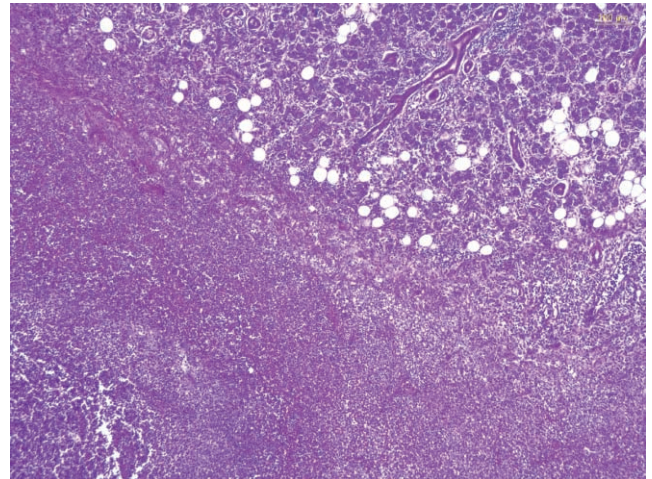


Fig. 3. Massive inflammation and necrosis, which do not involve the salivary glands, are noted (H&E, ×50).

려워지거나 그렇거림이 발생하는 경우 기도가 막히는 것을 의심해야 하는데[5], 본 변사자의 경우 입원 3일 후에는 침을 삼키기 어렵다고 호소하기도 하였다.

루드비히 양기나의 진단은 임상적인 기준으로 이루어지는 데, 컴퓨터단층촬영과 같은 영상의학적 검사가 염증의 정도와 위치를 확인하는 데 도움을 줄 수 있다. 본 변사자의 경우 입원 치료 중 시행된 컴퓨터단층촬영 검사에서 심부 목부위 농양이 확인되는 등 괴사상 근막염 등의 소견이 확인되었으나, 부검 당시 사후 컴퓨터단층촬영을 시행하지는 못하였다. 그러나 이전 보고에 의하면 루드비히 양기나로 진단된 변사자의 사후 컴퓨터단층촬영 검사상 턱목뿔근(mylohyoid muscle)의 부종 및 두꺼워진 목부위 근막, 주위 림프절병증 소견 등이 확인되는 것으로 보고되었으며, 이러한 사후 컴퓨터단층촬영과 부검을 통해 루드비히 양기나가 사후 진단되었다[6]. 1939년에 Grodinsky는 루드비히 양기나의 진단을 위한 기준을 보고하였는데, 아래턱밑공간에서 농양의 형성보다 양쪽으로 침범하는 연부조직염, 괴사와 같이 침범하는 염증, 침샘과 같은 샘 조직이 아닌 주로 근막, 근육 등과 같은 결합조직으로의 침범, 림프나 혈액을 통한 전파가 아닌 염증의 연속적인 전파이다[7]. 본 변사자 역시 염증이 목부위 양쪽으로 침범되었고, 괴사를 동반한 고도의 염증이 아래턱밑샘을 제외하고 주로 근육 등 결합조직에서 확인되었으며, 의료기록상 치아감염에서 연속적으로 침범된 아래턱밑공간 및 목부위 염증이 확인되었다. 비록 부검소견상 목부위 여러 연부조직 층에서 농양의 형성이 확인되었으나, 이는 염증이 진행되면서 발생한 것으로 생각하였다.

루드비히 양기나와 같이 아래턱밑공간이나 목부위에서 고도의 염증 및 부종이 진행된 환자는 질병이 급격히 진행하여 사망할 수 있는데, 사망의 기전으로는 질식과 패혈증으로 설명된다[5]. 질식의 경우 아래턱밑공간에 염증 및 부종이 발생하여

입 안 바닥과 혀를 상승시키고 뒤쪽으로 이동시켜 비구폐색을 유발함으로써 기도가 막혀 사망에 이르게 된다. 이러한 현상은 구획증후군(compartment syndrome)과 유사한데, 이러한 현상으로 인해 외부소견으로 ‘황소의 목 모양(bull neck appearance)’과 같은 모습이 확인될 수 있다. 본 변사자의 경우 아래턱밑공간 및 목부위가 단단하고 부어있었으며, 부검소견상 특히 아래턱과 목뿔뼈 사이부위의 연부조직에서 염증 및 부종이 심하였다. 부검 시 시행한 혈액 배양검사상에서 세균이 배양되지 않았고, 수술 전후에 비교적 안정적인 활력징후를 보이던 중 수술 후 산소포화도가 감소되며 급격히 사망하였는바, 패혈증보다는 비구폐색성 질식에 의해 사망한 것으로 판단하였다.

루드비히 앙기나의 병태생리를 이해하고, 부검 시 정확한 평가를 위해서는 목부위의 해부 구조에 대한 이해가 필요하다. 해부 구조상 아래턱밑공간은 턱목뿔근에 의해 혀밑부위인 턱목뿔근 위쪽부위(supramylohyoid portion of submandibular space, sublingual space)와 턱목뿔근 아래쪽부위(inframyllohyoid portion of submandibular space, submaxillary space)로 구분된다. 턱목뿔근은 목뿔뼈에서 아래턱의 둘째, 셋째큰어금니부위까지 부착되어 있어 그 뒤쪽으로는 혀밑부위와 턱목뿔근아래쪽부위가 서로 연결되어 있기 때문에 둘째, 셋째큰어금니의 감염은 혀밑부위뿐만 아니라 아래턱밑공간의 턱목뿔근 아래쪽 부위로 연속적으로 침범할 수 있다. 또한 목부위는 서로 연결되는 근막에 의해 구분되는 구조로 이루어져 있기 때문에 염증이나 농양이 혈액이나 림프보다 근막을 따라 연속적으로 퍼지게 된다[7]. 본 변사자의 경우 의료기록 검토상 아래턱 둘째 및 셋째큰어금니에서 우식증이 확인되었고, 입원 중 시행된 영상의학적 검사상 큰어금니부위에서 고도의 염증과 농양이 확인되며, 이러한 염증이 아래턱을 따라 밑으로 진행되는 소견이 확인되었다.

Marcus 등[7]은 루드비히 앙기나와 같은 아래턱밑공간 및 목부위 염증의 증례에서 부검의 절차에 대해 다음과 같이 정리하였다. 우선 부검 시 감염의 원인에 대해 파악하기 위해 특히 아래턱밑공간에 대한 검사를 시행하여야 하고, 특별히 턱목뿔근에 대한 검사가 필요하다[6]. 목부위의 근육 등 연부조직은 층별로 절개하여 조사하여야 한다. 다음으로 방패샘과 주위 조직을 검사하고, 기관, 후두 및 혀를 제거하여 성대와 목뿔뿔개주름(aryepiglottic fold) 주위를 검사한 후 목뿔뼈와 혀를 조사한다. 입 안에서는 잇몸 점막과 치아주위를 검사한다. 특히 아래턱큰어금니에 대해 검사를 시행해야 한다. 육안으로 검사한 후 필요한 경우 염증 등을 확인하기 위해 조직병리 검사를 시행해야 하고, 침샘에 대한 검사를 시행한다. 부검 시 아래턱밑공간과 목부위를 절개할 때 삼출물이나 감염된 조직 등에서 배양 검사를 시행한다. 루드비히 앙기나의 감염 원인은 주로 입 안 정상군 무리가 포함된 혐기성 및 호기성 세균들인데, 흔히 배양

되는 세균은 *Streptococcus viridans*, *Staphylococcus aureus*, B-hemolytic *Streptococcus* species 등이고, 면역 억제자에서는 *Candida albicans*가 배양되기도 한다[7]. 본 변사자의 경우 절개 및 배농 수술 당시 시행한 배양검사상 *Enterobacter aerogenes*가 배양되었으나, 부검 시 목부위 삼출물에서는 배양검사를 시행하지 못하였고, 부검 시 혈액을 이용한 배양검사에서는 세균이 검출되지 않았다. 또한 본 변사자의 경우 심장혈액을 이용한 C반응단백질의 검사상 9.040 mg/dL로 검출되었는바, 변사자는 염증의 상태에 있었을 것으로 생각할 수 있었고, Lee 등[6]은 루드비히 앙기나의 부검 증례에서 C반응단백질이 301 mg/L로 검출되었다고 보고하였다.

루드비히 앙기나의 치료는 기도가 막히는 것을 감시하고 기도를 유지시키는 것이 가장 중요하고, 만약 기도폐색이 의심되는 경우에는 기관삽관이나 기관절개를 통해 즉시 기도를 유지시켜야 한다. 또한, 초기에 그람 양성 및 음성 세균과 혐기성 세균에 작용할 수 있는 광범위 항생제를 사용하여야 한다[2]. 그러나 본 변사자의 경우 입원치료 중 기도 유지를 위한 처치가 이루어지지 못하였고, 항생제로는 아목시실린만 투여되었으며, 입원 기간 중 염증 및 부종이 고도로 진행되었다.

본 변사자는 치통으로 인해 병원에 입원하여 절개 및 배농 수술과 항생제 투여를 받았으나, 입원 4일째에 갑작스런 호흡 곤란을 보이며 사망하였는데, 부검과 의료기록 검토상 사망원인으로 판단되는 아래턱 및 목부위의 심한 염증과 부종은 루드비히 앙기나에 합당한 소견으로 생각된다. 본 변사자가 사망에 이르게 된 기전은 아래턱 및 목부위의 염증 및 부종에 의한 기도의 폐색으로서 비구폐색성 질식사로 생각된다. 루드비히 앙기나와 같이 아래턱밑공간 및 목부위 염증에 의한 사망은 법의 부검에서 흔히 접하기 어려운 증례로 국내에서 법의학적으로 아직 이루어지지 않았는바, 저자들은 질병의 병태생리 및 부검 절차, 부검소견 및 영상의학적 소견과 법의학적 검사 등과 함께 부검증례를 보고하고자 한다.

Conflicts of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

References

1. Saifeldeen K, Evans R. Ludwig's angina. *Emerg Med J* 2004;21:242-3.
2. Costain N, Marrie TJ. Ludwig's angina. *Am J Med* 2011; 124:115-7.
3. Bansal A, Miskoff J, Lis RJ. Otolaryngologic critical care. *Crit Care Clin* 2003;19:55-72.
4. Kremer MJ, Blair T. Ludwig angina: forewarned is forearmed. *AANA J* 2006;74:445-51.

5. Candamourty R, Venkatachalam S, Babu MR, et al. Ludwig's angina: an emergency. A case report with literature review. *J Nat Sci Biol Med* 2012;3:206-8.
6. Lee WI, Lee J, Bassed R, et al. Post-mortem CT findings in a case of necrotizing cellulitis of the floor of the mouth (Ludwig angina). *Forensic Sci Med Pathol* 2014;10:109-13.
7. Marcus BJ, Kaplan J, Collins KA. A case of Ludwig angina: a case report and review of the literature. *Am J Forensic Med Pathol* 2008;29:255-9.