

일측 이하선염으로 발현한 가와사키병 1례

부산대학교 어린이병원 소아청소년과 소아과학교실

류수영 · 반길호 · 박수은

Unilateral Parotitis and Kawasaki Disease in a Child

Soo Young Lyu, M.D., Gil Ho Ban, M.D., and Su Eun Park, M.D., Ph.D.

Department of Pediatrics, Pusan National University Children's Hospital, Pusan National University School of Medicine, Yangsan, Korea

Kawasaki disease is generally diagnosed base on its clinical features. Sometimes unusual or atypical presentations make the diagnosis of Kawasaki disease difficult. We experienced an unusual case of Kawasaki disease presented with unilateral parotitis in a 23-month old girl. Despite of intravenous antibiotics treatment, fever and unilateral parotid swelling persisted. Skin rashes, conjunctival injections, and coronary abnormalities showed up on the 8th day of fever. After the intravenous immunoglobulin and salicylates treatment, all symptoms disappeared. Although unilateral parotitis is very unusual presentation of Kawasaki disease, in case of no response to antibiotics, Kawasaki disease should be included in the differential diagnosis.

Key Words : Parotitis, Kawasaki disease

서 론

가와사키병은 전신의 여러 장기에서 혈관염을 일으키는 급성 열성 질환이다. 현재까지 가와사키병의 원인은 밝혀지지 않았으며, 이를 진단할 수 있는 특이 검사법이 없어 특징적인 증상 또는 검사 기준에 근거하여 진단한다^{1, 2)}. 하지만 발병 초기에 경부 림프절염 또는 후인두 농양 등과 같은 영유아 시기에 흔한 감염 질환과 유사한 증상으로 시작하는 경우 진단이 어려울 수 있다. 이러한 경우 항생제 치료에도 증상이 호전되지 않고 병의 경과 중에 가와사키병을 의심할 만한 증상이 나타나거나 혹은 심장 초음파 검사에서 관상동맥 이상이 발견되어 뒤늦게 진단이 되기도 한다. 만약 진단이 늦어져 적절한 치료가 지연되면 관상동맥류와 같은 심각한 합병증이 발생할 수 있어 주의가 필요하다²⁾. 저자들은 갑자기 발생한 일측 이하선 부위의 발적과 부종 및 압통으로 화농 이하선염으로 치료하였으나 발열이 지속되어 가와사키병으로 최종 진단한 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

증 례

23개월 여아가 갑자기 오른쪽 이하선 부위가 붓고 발적과 함께 심한 통증이 발생하여 응급실을 방문하였다. 병원 방문 17일 전에 4일 동안 38℃ 이상의 발열과 양측 결막 충혈과 전신에 홍반 구진이 있었으며 비인두 분비물을 이용한 호흡기 바이러스 multiplex real-time polymerase chain reaction (RT-PCR) 검사에서 아데노바이러스가

접수 : 2014년 4월 15일, 수정 : 2014년 5월 31일

승인 : 2014년 6월 3일

책임저자 : 박수은, 부산대학교 어린이병원 소아청소년과

Tel : 055)360-3151, Fax : 055)360-2181

E-mail : psepse@naver.com

검출되었다. 당시 발열은 4일 동안 지속되었다가 호전되었으나, 경한 결막충혈은 응급실 방문할 때까지 지속되고 있었다. 응급실 방문 2일 전부터 다시 39°C 이상의 열과 우측 이하선 부위의 발적, 종창(Fig. 1A) 및 통증이 발생하였다. 이하선 부위 발적은 우측 귀 전방의 볼에 위치하고, 크기는 약 3×2 cm 이었다. 경계가 불분명하고 부드럽게 촉진되며, 촉진시 잘 움직여지지 않았다. 처음 발생한 이후로 병변의 크기 및 통증의 강도가 점점 악화되었으며, 저작시에도 통증이 발생하여 경구섭취량도 평소의 절반으로 저하되었다. 양안의 경미한 결막충혈은 관찰되었으나, 입술 및 인후두부의 발적이나 딸기혀는 관찰되지 않았다. 발진도 없었고, 손발의 부종 및 홍조도 관찰되지 않았다. 흉부 청진 및 복부진찰에서도 특이소견은 없었다. 과거에 이하선염을 앓았던 병력은 없었고, 최근에 유행성 이하선염 환자에게 노출된 병력은 없었다. 생후 12개월에 MMR 접종을 시행받았다. 신장 85.1 cm (50 percentile), 체중 12.44 kg (50-75 percentile)이었다. 혈액검사에서 백혈구 17,020/mm³ (중성구 71.3%, 림프구 21.2%), 헤모글로빈 10.5 g/dL, 혈소판 487,000/mm³, 적혈구침

강속도 110 mm/hr, C-반응 단백 7.33 mg/dL 이었으며, amylase 328 IU/L (참고치: 36-128)로 상승되어 있었다. 간 및 신기능검사 및 전해질 검사는 정상하였고, 항사슬알균용혈소 O (antistreptolysin O)는 <20 IU/mL, anti-mumps IgM 0.43 Immune status ratio (Negative<0.90), 비인두분비물 호흡기 바이러스 multiplex RT-PCR 검사(AdvanSure RV RT-PCR, LG Life Science, Korea)는 음성이었다. 경부 컴퓨터단층촬영에서 우측 이하선염과 주변의 림프절 비대가 확인되었다. 당시 심장 초음파 검사에서는 특별한 이상 소견이 관찰되지 않았다. 소변검사는 이상이 없었고, 혈액배양 및 소변배양 검사에서 균은 배양되지 않았다.

급성 화농 이하선염으로 추정 진단하여 nafcillin, cefotaxime, clindamycin을 병용하여 투약하였으나 발열은 지속되었고, 이하선의 종창, 발적 및 압통도 호전이 없었다. 발열 4일째부터 등, 가슴, 안면부, 양측 허벅지에 홍반 구진양 발진이 발열이 있을 때 나타났다가 해열되면 사라졌으며, 결막충혈은 처음 응급실 방문 당시와 비슷한 정도로 지속되었다. 발열 6일째 심장 초음파검사를 다시 시행



Fig. 1. (A) Photograph taken on the admission day demonstrated the swelling and the redness of right cheek. (B) On the hospital day 9, the swelling and redness of right cheek showed the improvement after administration of intravenous immunoglobulin.

하였으나 특이소견은 없었다. 발열 8일째 혈액검사에서 백혈구 $13,500/\text{mm}^3$ (중성구 64.7%, 림프구 25.1%), 헤모글로빈 10.1 g/dL, 혈소판 $506,000/\text{mm}^3$, 적혈구침강 속도 95 mm/hr, C-반응 단백 8.63 mg/dL 이었다. 이때 실시한 이하선 부위 초음파검사에서 이하선 내부에 화농된 림프절과 다수의 림프절 비대가 관찰되었다(Fig. 2). 절개 배농 치료를 계획하였으나, 이날부터 양측 결막 충혈이 심해지고 입술의 홍조가 시작되어 수술 전에 가와사키병과의 감별을 위해 심장초음파 검사를 다시 시행하였다. 심장 초음파 검사에서 좌주간부 관상동맥(left main coronary artery)의 직경은 2.6–2.8 mm (z-score 1.67–2.21), 좌전하행동맥(left anterior descending artery)의 직경은 1.9–2.1 mm (z-score 1.08–1.67), 그리고 우관상동맥(right coronary artery)의 직경은 proximal 2.0 mm (z-score 0.7), mid-portion 1.3 mm (z-score -0.48)로 입원 당시와 변화가 없었으나, 좌회선 관상동맥(left circumflex artery)의 직경은 입원 당시 1.9 mm에서 2.8–3.2 mm (z-score 3.62–4.71)로 증가하여 확장의 초기소견이 관찰되었다(Fig. 3). 이러한 초음파 검사결과로 발열 8일째 가와사키병을 진단하였고 기존에 투여하던 항생제를 중단한 뒤 주사용 면역글로불린과 고용량 아스피린을 병용 투여하였다. 면역글로불린을 투여한 후 발열이 호전되었고, 결막 충혈 및 발진도 함께 소실되었다. 절개 배농 치료 없이 우측 이하선

부위 종창 및 발적도 현저히 호전되었다(Fig. 1B). 혈액 검사에서도 백혈구 $7,030/\text{mm}^3$ (중성구 38.5%, 림프구 47.2%), 혈소판 $420,000/\text{mm}^3$, C-반응 단백 3.39 mg/dL로 호전되어 입원 9일째 퇴원하였다. 퇴원 49일 후 외래에서 검사한 심장초음파에서 좌회선 관상동맥이 입원 당시의 수준으로 호전되었고, 그 외 발열과 우측 이하선 종창의 재발도 없었다. 퇴원 후 4개월간 경과 관찰하는 동안 막양 낙설은 관찰되지 않았다.

고 찰

가와사키병의 진단은 진단적 검사로 이루어지는 것이 아니라 특징적인 증상으로 구성된 진단 기준에 의해 이루어지고³⁾ 국내에서는 2004년 American Heart Association에서 제시한 진단 기준을 이용하고 있다. 하지만 가와사키병의 전형적인 증상 없이, 드문 동반증상으로 먼저 발현하는 경우에 가와사키병의 진단을 어렵게 한다¹⁾. 가와사키병의 초기에 경부 림프절염 또는 경부의 심부 감염 및 인두주위 농양 등이 발생하여 소아기에 흔한 감염성 질환으로 오인되어 적절한 치료가 지연되었거나 수술적 치료를 시도한 여러 보고가 있었으나^{1–4)}, 이하선염의 형태로 발현된 경우는 국내외 보고를 합쳐 오직 3례의 증례만이 확인되었다^{5–7)}. 세균감염에 의한 화농 이하선염 또한 소아기에 흔한 질환은 아니며 가와사키병의 한 증상으

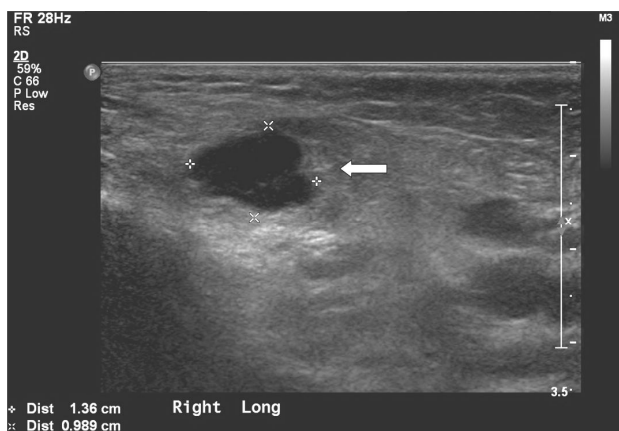


Fig. 2. Ultrasonography revealed right parotitis with multiple lymph nodes enlargement and necrotic lymph node (arrow).

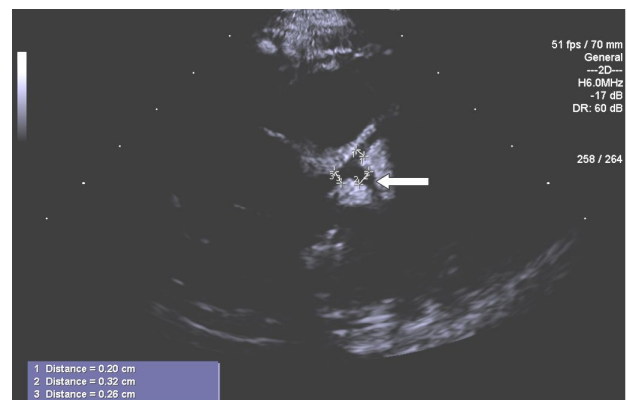


Fig. 3. Echocardiographic findings on the 8th day of fever showed the initial sign of dilatation of left circumflex artery measuring 2.8–3.2 mm (z-score 3.62–4.71) (arrow).

로 동반되는 경우 또한 매우 드물다. 그러나, Amano 등⁸⁾이 일본에서 가와사키병으로 사망한 환자 37명을 부검하여 병리조직검사를 시행한 결과, 전체 부검결과의 1/3에서 침샘 내 동맥염이 확인되었고, 침샘을 부검한 26명의 사망 환자 중 21명(81%)에서 조직학적으로 이하선염 소견이 확인되었다고 하였다. 하지만 조직학적으로 이하선염이 확인된 환자에서 사망 전 침샘염의 증상이 있었는지에 대한 설명은 없었다.

본 증례는 발열과 함께 한쪽 이하선 부위의 부종과 발적이 갑자기 발생하였으며, 경부 전산화컴퓨터단층촬영 검사에서 이하선의 조영 증강 소견이 있었고 amylase가 상승되어 있어 세균 감염에 의한 화농 이하선염의 가능성을 먼저 고려하였다. 증상 발생 초기에는 가와사키병의 대표적인 증상인 발진이나 경부림프절 비대 등의 소견이 명확하지 않아, 항생제 치료를 시작하였다. 그러나 수 일간의 항생제 투약에도 발열 및 증상이 호전되지 않아 가와사키병의 가능성을 고려하여 심장 초음파 검사를 발열 3일째와 6일째에 시행하였으나 특별한 이상을 발견하지 못하였다. 이하선부위 초음파 검사에서 이하선염과 함께 이하선 내부에 화농된 림프절이 확인되어 절개 배농을 계획하였으나, 이 때 결막 충혈의 악화와 입술의 홍조가 나타나 심장초음파 검사를 다시 실시하였으며 가와사키병으로 최종 진단할 수 있었다. 가와사키병의 초기에 다른 특징적인 소견 없이 경부림프절염 또는 후인두부농양 등으로 오인되는 사례에 대해서는 그 동안 보고가 많고 전형적인 가와사키병 증상으로 나타나는 경우와 차이점을 찾고자 하는 노력이 있어왔다⁹⁾. 가와사키병이 경부림프절염 혹은 후인두부농양으로 발현된 예에서 농양 흡인을 시행한 대부분의 경우에서는 그람염색과 균배양 모두 음성인 소견이 확인되었다¹⁻⁴⁾. 다만 한 증례에서 가와사키병에 인두주위 농양이 동시에 발생하여, 흡인물 배양에서 *Staphylococcus aureus*가 동정되었으며 면역글로불린과 절개 배농 및 항생제 치료를 함께 시행 후 호전된 사례도 있었다¹⁰⁾. 반면, 가와사키병이 이하선염의 형태로 먼저 발현한 경우는 드물게 보고되었다⁵⁻⁷⁾. 그 중 한 증례에서는 발병 초기에 화농성 이하선염이 동반된 패혈증으로 진단

하여 면역글로불린을 투약하였으나 발열이 호전되지 않았고, 발열 8일째 가와사키병의 전형적인 증상이 나타나, 두 번째 면역글로불린을 투약한 후 증상이 호전되었다⁵⁾. 다른 한 증례 역시 입원 당시에 이하선염으로 진단하고 항생제로 치료하던 중에, 발열 7일째에 가와사키병의 전형적인 증상이 나타났으나, 면역글로불린 투약 없이 발열 및 이하선염이 호전되었다⁶⁾. 그리고 마지막 한 증례는 비화농성 이하선염과 림프절염이 동반되어 항생제를 투약한 후 발병 11일만에 발열이 호전되었으나, 발병 12일째 다시 발열을 동반한 가와사키병의 전형적인 증상이 시작되어 면역글로불린을 1회 투약한 후 증상이 호전되었다⁷⁾. 세 증례 중 어떤 증례에서도 이하선염 혹은 이하선 주변 림프절염의 흡인 배양을 시도한 경우는 없었다.

본 증례에서 화농 이하선염이 가와사키병과 동시에 발생하였을 가능성도 있다. 그러나 7일 동안 항생제를 투여하였음에도 발열과 이하선 부종 등의 증상이 지속되고 초음파 검사에서 농양이 의심되었으나, 가와사키병의 증상이 나타난 후 항생제를 바로 중단하고 면역글로불린과 salicylate 투약 후에 모든 증상이 호전되어 화농이하선염과 가와사키병이 동시에 발생하였을 가능성은 낮다고 여겨진다.

본 증례를 통해 화농 이하선염처럼 감염 질환과 유사한 양상으로 발현하는 경우에 항생제 치료에 반응하지 않고 발열 및 염증이 호전없이 지속되면, 감별 진단으로 가와사키병을 생각해야함을 알 수 있었다. 이러한 경우 가와사키병의 진단을 위해서는 전형적인 증상이 초기에 나타나지 않더라도 심장 초음파 검사를 비롯하여 가와사키병을 진단하기 위한 검사들을 반복적으로 시행하는 것이 필요하다. 이를 통해 가와사키병의 진단 및 치료 지연으로 인해 관상동맥류 등의 합병증이 발생하는 것을 예방할 수 있을 것이다¹⁾.

요 약

가와사키병은 일반적으로 특징적인 증상 또는 검사 기준에 근거하여 진단한다. 그러나 가와사키병의 전형적인

증상 없이, 드문 동반 증상으로 먼저 발현하는 경우에 가와사키병의 진단은 어렵다. 저자들은 일측 이하선염으로 발현한 가와사키병 1례를 경험하였다. 23개월 여아가 갑작스레 발열과 일측 이하선의 부종과 압통이 있어 화농성 이하선염으로 추정 진단받고 항생제로 치료받았으나 발열과 증상이 호전되지 않았다. 발열 8일째에 발진과 비화농성 결막충혈, 관상동맥 이상 등 가와사키병의 증상이 나타나기 시작하여 정맥주사용 면역글로불린과 salicylate를 투약받은 뒤 모든 증상이 호전되었다. 본 증례를 통해, 일측 이하선염은 가와사키병에서 매우 드물게 발생하는 증상이지만, 항생제 치료에도 호전이 없는 경우에, 반드시 가와사키병의 가능성을 고려하여야겠다.

References

- 1) Cho SY, Cho HK, Cho KY, Kim HS, Sohn S. Kawasaki disease presenting as retropharyngeal abscess. *Korean J Pediatr* 2008;51:1023-7.
- 2) Ganesh R, Srividhya VS, Vasanthi T, Shivbalan S. Kawasaki disease mimicking retropharyngeal abscess. *Yonsei Med J* 2010;51:784-6.
- 3) Cavicchiolo ME, Berlese P, Bressan S, Trincia E, Inches I, Strafella MS, et al. Retropharyngeal abscess: An unusual presentation of Kawasaki disease. case report and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol Extra* 2012;7:179-82.
- 4) Homicz MR, Carvalho D, Kearns DB, Edmonds J. An atypical presentation of Kawasaki disease resembling a retropharyngeal abscess. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2000;54:45-9.
- 5) Do HJ, Baek JG, Kim HJ, Yeom JS, Park JS, Park ES, et al. Kawasaki disease presenting as parotitis in a 3-month-old infant. *Korean Circ J* 2009;39:502-4.
- 6) Seyedabadi KS, Howes RF, Yazdi M. Parotitis associated with Kawasaki syndrome. *Pediatr Infect Dis J* 1987;6:223.
- 7) Douvovoyannis M, Belamarich PF, Litman N. Parotitis and Kawasaki disease in a child with Noonan syndrome. *Pediatr Infect Dis J* 2008;27:89-90.
- 8) Amano S, Hazama F, Kubagawa H, Tasaka K, Haebara H, Hamashima Y. General pathology of Kawasaki disease. *Acta Pathol Jpn* 1980;30:681-94.
- 9) Kanegaye JT, Van Cott E, Tremoulet AH, Salgado A, Shimizu C, Kruk P, et al. Lymph-node-first presentation of Kawasaki disease compared with bacterial cervical adenitis and typical Kawasaki disease. *J Pediatr* 2013;162:1259-63.e2.
- 10) Choi SH, Kim HJ. A case of Kawasaki disease with co-existence of a parapharyngeal abscess requiring incision and drainage. *Korean J Pediatr* 2010;53:855-8.