

운동축을 삽입한 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서 발생한 방선균증 2예

Two Cases of Actinomyces Infection in a Hydroxyapatite Orbital Implant with a Motility Peg

이민규 · 우경인 · 김윤덕

Min Gyu Lee, MD, Kyung In Woo, MD, PhD, Yoon Duck Kim, MD, PhD

성균관대학교 의과대학 삼성서울병원 안과학교실

Department of Ophthalmology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

Purpose: To report 2 cases of *Actinomyces* infection in a hydroxyapatite orbital implant with a motility peg.

Case summary: A 44-year-old male and a 55-year-old male who underwent evisceration and implantation of a hydroxyapatite implant in the left eye 17 and 15 years prior, respectively, presented with a conjunctival sac granuloma with discharge and bleeding of 1 year duration. Both patients had a history of motility peg implantation. A large-area of the hydroxyapatite implant was exposed after removal of the granuloma. The previous orbital implant was removed, and the exposed area was covered with a dermis fat graft in both patients. On histopathological examination, *Actinomyces* infection in the orbital implant was observed in both patients.

Conclusions: To the best of our knowledge, this is the first case report of actinomycosis of hydroxyapatite orbital implant in Korea. In a patient with a porous orbital implant, the possibility of *Actinomyces* infection of the orbital implant should be considered after a long-duration and large-area exposure of the implant.

J Korean Ophthalmol Soc 2014;55(5):755-760

Key Words: *Actinomyces*, Hydroxyapatite, Motility peg, Orbital implant, Pyogenic granuloma

방선균증은 그람 양성 혐기성 세균인 *Actinomyces* 속
에 의해 발생하는 만성 화농성 감염증이다. 방선균은 인체
의 점막에 존재하는 정상 세균총의 일부로, 그 자체로는 병
원성이 낮기 때문에 외상이나 수술, 염증으로 인한 정상 점

막의 손상 시 조직 내로 침투하여 감염증을 일으키는 것으
로 알려졌다.¹ 방선균에 의한 눈의 감염은 매우 드문 질환
으로, 주로 눈물소관염, 결막염, 안검염, 눈물주머니염, 각
막염, 수술 후 발생한 안내염 등이 보고되고 있다.² 저자들
은 운동축을 삽입한 하이드록시아파타이트 안와삽입물
에서 발생한 방선균 감염의 증례를 경험하였기에 이를 보고
하고자 한다.

■ Received: 2013. 10. 4. ■ Revised: 2013. 12. 4.

■ Accepted: 2014. 4. 1.

■ Address reprint requests to Yoon Duck Kim, MD, PhD
Department of Ophthalmology, Samsung Medical Center, #81
Irwon-ro, Gangnam-gu, Seoul 135-710, Korea
Tel: 82-2-3410-3548, Fax: 82-2-3410-0029
E-mail: ydkimoph@skku.edu

* This study was presented as a poster at the 108th Annual Meeting
of the Korean Ophthalmological Society 2012.

증례보고

증례 1

44세 남자 환자가 1년 전부터 시작된 좌안 결막낭의 출
혈 및 살이 차오르는 증상을 주소로 내원하였다. 약 20년

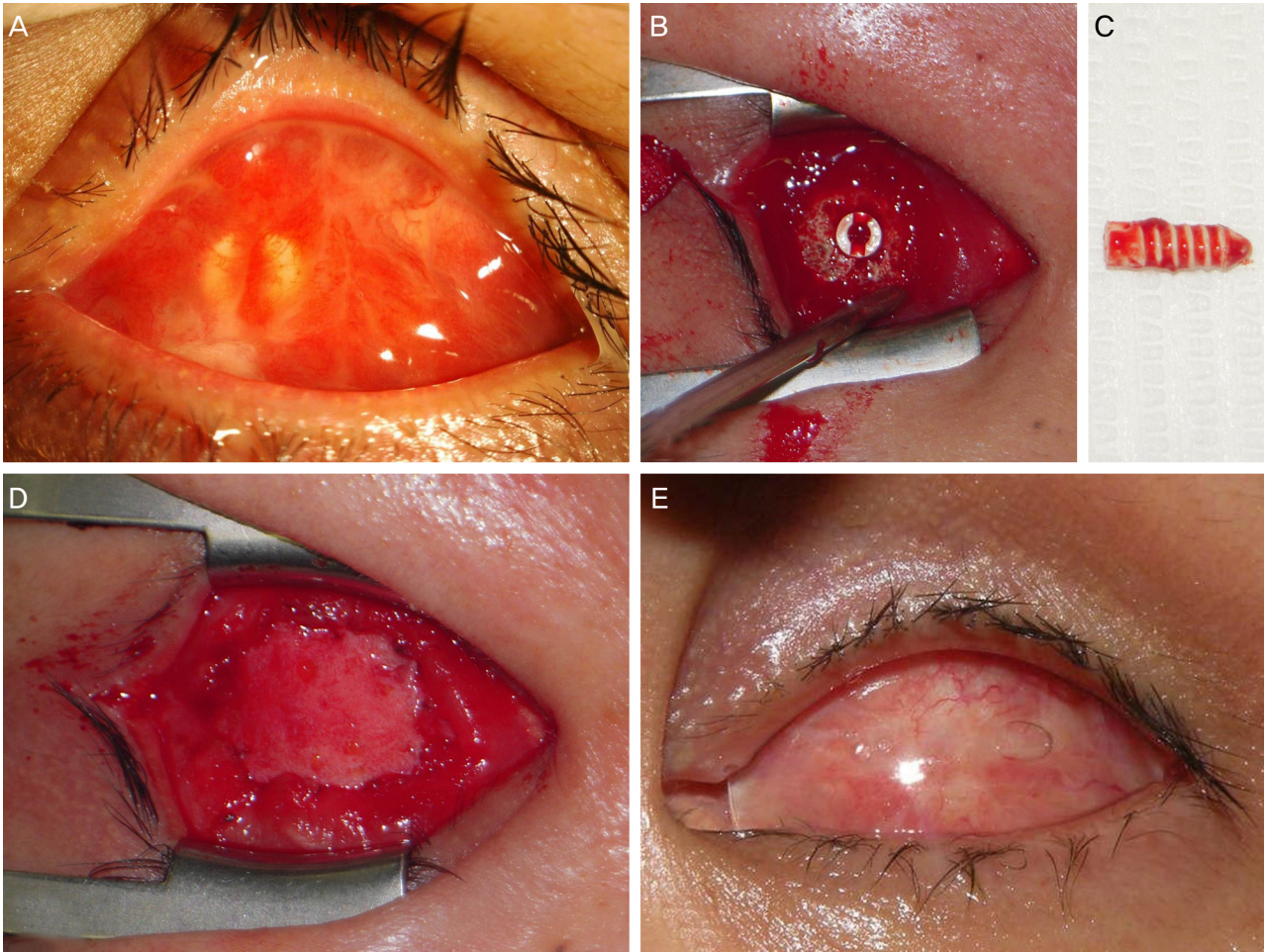


Figure 1. Case 1. (A) A large granuloma covers the entire anterior surface of conjunctival sac at initial presentation. (B) Photograph shows a large area of hydroxyapatite implant exposure after removal of the granuloma. (C) The surface of the removed sleeve of the motility peg shows dirty gray colored materials. (D) A dermis fat graft is placed and sutured to the edge of the conjunctival defect. (E) Photograph taken 2 months after the exchange of the orbital implant and dermis fat grafting shows well healed conjunctival wounds and a conformer placed in the conjunctival sac.

전 나무 가지에 좌안을 수상 당한 후 17년 전 안구내용제거술 및 하이드록시아파타이트 안와삽입물 삽입술을 시행 받고 이후 안와삽입물에 운동축 삽입술을 받은 병력이 있었다. 2년 전부터 좌안에 분비물 및 충혈이 관찰되었고, 1년 전부터는 운동축 주변에 출혈이 발생하고 살이 차오르는 증상이 있었다. 이에 대해 타 병원에서 항생제 안약을 사용하였으나 증상 호전 없어 본원으로 의뢰되었다.

내원 당시 환자의 전신 상태는 양호하였고 우안의 나안 시력은 1.0, 안압은 15 mmHg였으며 전안부 및 안저 검사에서 정상 소견을 보였다. 좌안에는 결막낭의 앞쪽 면에 육아종이 형성되어 있었으며, 충혈, 농성 분비물과 함께 출혈이 관찰되었다(Fig. 1A). 농성 분비물에서 시행한 배양 검사는 음성이었다.

전신마취하에 안와삽입물 교환술을 시행하였다. 육아종을 제거하자 운동축 주변으로 안와삽입물이 회색으로 변색

되어 있는 소견이 관찰되었고 결막낭에 19×18 mm 크기로 안와삽입물이 노출되어 있어(Fig. 1B, C) 안와삽입물을 완전히 제거하고 충분히 세척한 후에 남은 공막의 뒤쪽으로 20 mm 크기의 새로운 하이드록시아파타이트 안와삽입물을 삽입하고 삽입물 앞쪽으로 남은 공막을 봉합하여 삽입물이 노출되지 않도록 하였다. 결막낭의 결손 부위가 커서 둔부에서 진피지방을 공막 앞쪽으로 이식하였다(Fig. 1D). 수술 시에 운동축의 sleeve 주변에서 면봉으로 채취한 검체로 시행한 배양 검사는 음성이었으나, 제거한 안와삽입물의 조직병리검사에서 안와삽입물의 운동축으로 생긴 공간 옆으로 염증 세포의 침윤 및 sulfur를 형성하는 실모양의 균들이 다수 관찰되어 방선균에 의한 안와삽입물의 감염으로 진단하였다(Fig. 2).

환자는 진피지방이 잘 생착되고 결막낭이 치유되어 수술 2개월 후부터 좌안에 의안을 맞추어 착용하였다. 수술 1년

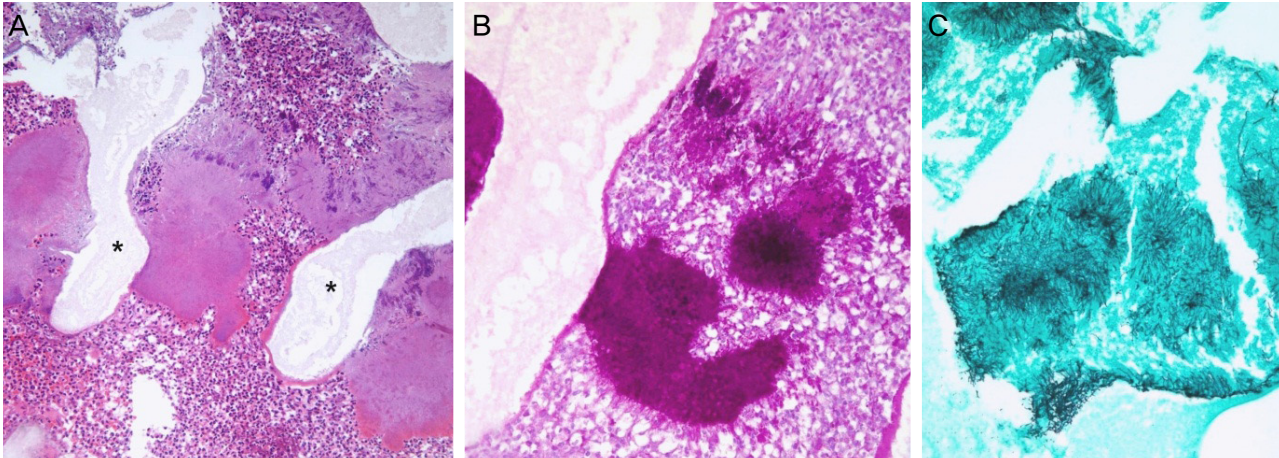


Figure 2. Case 1. (A) Histopathological examination shows sulphur granules and surrounding inflammatory cells infiltrated between the hydroxyapatite spicules (asterisks) (hematoxylin-eosin, $\times 200$). (B, C) Clusters of filamentous microorganisms which are characteristic findings of actinomycosis (B: periodic acid-Schiff, $\times 400$, C: Grocott's methenamine silver, $\times 400$).

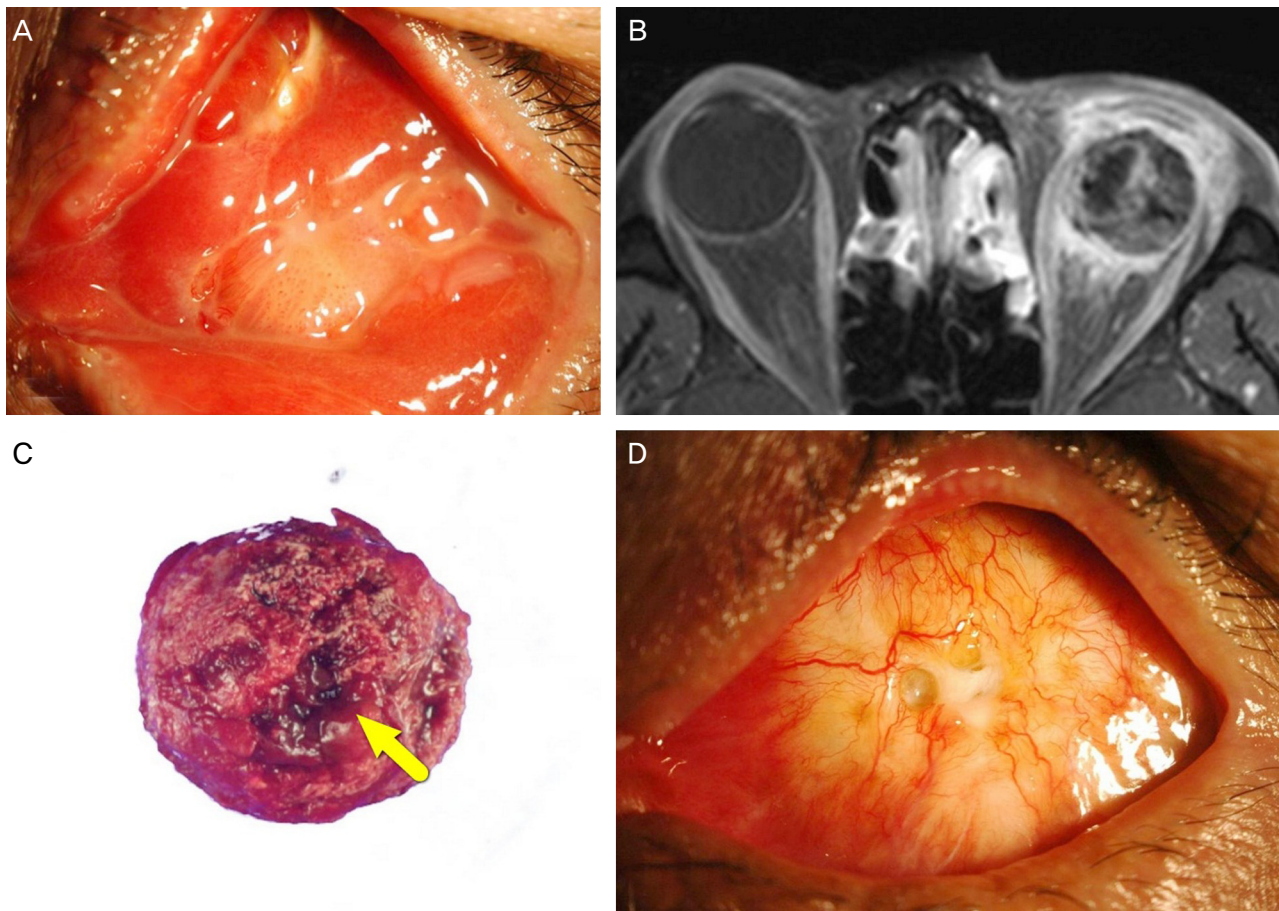


Figure 3. Case 2. (A) Photograph shows a large conjunctival granuloma of the left eye at initial presentation. (B) A contrast-enhanced T1-weighted axial image of orbit MRI demonstrates non-enhancing area of implant suggesting poor fibrovascular in-growth and severe infiltration around the hydroxyapatite orbital implant of the left orbit. (C) The removed hydroxyapatite orbital implant shows darkish discoloration around the hole in which the motility peg was placed (arrow). (D) Photograph taken 6 months after the removal of the hydroxyapatite orbital implant and dermis-fat grafting shows a well-covered graft.

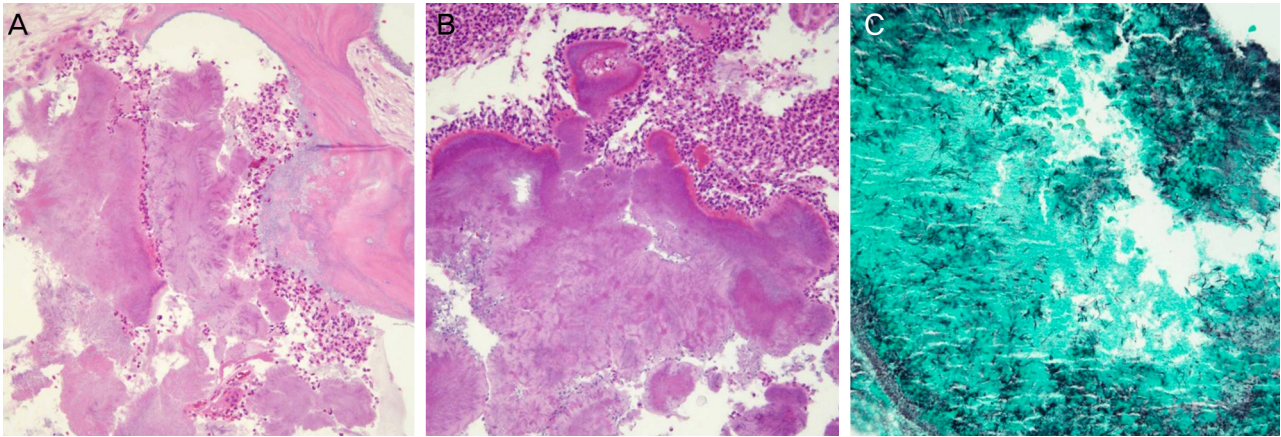


Figure 4. Case 2. (A) Histopathological examination of the removed hydroxyapatite implant shows sulphur granules and surrounding inflammatory cells infiltrated between the hydroxyapatite spicules (hematoxylin-eosin, $\times 200$). (B) Histopathological examination of pyogenic granuloma also shows sulphur granules and infiltrated inflammatory cells (hematoxylin-eosin, $\times 200$). (C) Clusters of filamentous microorganisms which are characteristic findings of actinomycosis (Grocott's methenamine silver, $\times 400$).

뒤까지의 추적 관찰 기간 동안 결막낭의 이상 소견은 보이지 않았으며(Fig. 1E) 환자는 미용적으로 문제 없이 정기적으로 경과 관찰 중이다.

증례 2

55세 남자 환자가 1년 전부터 발생한 좌안 결막낭의 출혈을 주소로 본원에 내원하였다. 10세 경 좌안을 수상 당한 후 실명하였고, 점차 좌안에 안통이 발생하여 15년 전 좌안 안구제거술 및 하이드록시아파타이트 안와삽입물 삽입술을 시행 받았으며 운동축 삽입술을 받은 병력이 있었다. 이후 의안을 착용하며 지내던 중 내원 1년 전 안와삽입물에서 운동축이 빠진 뒤부터 출혈이 발생하였고, 내원 4개월 전부터 출혈이 심해져 타 병원에서 좌안 결막낭의 육아종 제거술을 시행 받았다. 수술 후에도 증상이 지속되어 육아종 제거술 및 구강점막이식술을 시행 받았으나 호전이 없었고, 육아종 제거술을 한 차례 더 시행 받았다. 이후에도 육아종 및 출혈 소견이 지속되어 본원으로 의뢰되었다.

내원 당시 환자의 전신 상태는 양호하였고 우안의 나안 시력은 1.0, 안압은 14 mmHg였으며 전안부 검사에서 정상 소견을 보였다. 좌안에는 결막낭의 육아종과 충혈, 반흔조직 및 경미한 출혈 소견이 보였으며(Fig. 3A), T1 강조 안와 자기공명영상에서 좌안의 안와삽입물에 혈관화가 충분히 이루어지지 않은 소견과 함께 안와삽입물 주위로 조영증강이 되는 침윤성 병변이 관찰되었다(Fig. 3B).

이에 대해 국소마취하에 좌안 결막낭 육아종 절제생검술을 시행하였다. 결막낭의 앞쪽 면에 다발성의 육아종이 관찰되었으며, 육아종 제거 후 넓은 범위로 결막 결손 및 안와삽입물 노출 소견이 보였다. 육아종에서 시행한 배양 검사는 음성이었다.

2일 뒤 전신마취하에 좌안의 안와삽입물을 제거하고 둔부에서 진피지방을 이식하였다. 제거된 안와삽입물에는 운동축이 삽입되어 있던 구멍 주변으로 부서진 부분 및 검게 변색된 부분이 관찰되었다(Fig. 3C). 안와삽입물과 삽입물이 유착되어 있던 주변 조직에 대한 조직병리검사 결과 육아종과 함께 실모양의 균 무리가 관찰되어 방선균에 의한 안와삽입물의 감염으로 진단하였다(Fig. 4).

수술 후 이식편은 잘 생착되어 있었고 결막낭의 염증, 출혈 또는 육아종은 보이지 않았다(Fig. 3D). 환자는 수술 3개월 후부터 좌안에 의안을 맞추어 착용하였고, 향후 정기적으로 경과 관찰 예정이다.

고 찰

방선균증은 드물게 발생하는 만성 화농성 육아종성 질환으로, 임상적으로 경부 및 안면부, 흉부, 복부, 골반, 그리고 전신 감염으로 분류되고 있다. 이 중 경부 및 안면부의 감염이 가장 흔하며, 방선균증의 55%까지를 차지한다.³ 방선균증을 일으키는 원인균으로는 *A. israelii*가 가장 흔하나, 이외에도 *A. gerencseriae*, *A. naeslundii*, *A. odontolyticus*, *A. viscosus*, *A. meyeri*, *A. turicensis*, *A. radingae* 등이 알려졌다.¹ 방선균증 병변 검체를 배양하면 대개 다른 세균이 함께 동정되는데, 함께 동정되는 세균은 침범한 신체 부위에 따라 다양하다. 이러한 세균들은 미세호기성 환경을 형성하고 숙주 방어 기전을 억제함으로써 감염을 촉진시키는 것으로 생각되나, 정확한 역할은 아직 불분명하다.⁴

방선균증은 주로 20-60대에서 호발하고 여성보다 남성에서 흔히 발생하며, 위험인자로는 당뇨, 면역저하, 스테로이드의 장기간 사용, HIV 감염, 호흡기 질환, 폐 또는 신장 이

식 환자, 그리고 외상이나 수술, 방사선 등에 의한 국소 조직 손상 등이 있다.^{5,6} 방선균에 의한 눈의 감염은 매우 드물게 발생하고 주로 눈물소관염, 눈물주머니염, 각막염, 안내염 등이 보고되었다. Karcioglu⁷는 다공성 폴리에틸렌 안와삽입물에서의 방선균증을 보고한 바 있는데, 항생제 치료와 구강점막이식술 후에도 결막의 충혈, 분비물과 함께 안와삽입물의 노출이 지속되어 안와삽입물 교환술을 시행하였고 제거된 안와삽입물의 병리검사에서 방선균이 확인되었다.

방선균증의 확진은 배양검사에서 방선균을 동정하는 것이나 이전의 항생제 치료, 동반하는 타균주의 과다성장, 배양기술의 미숙, 검체의 부적절한 채취 등으로 인해 동정률이 50% 미만이다.⁵ 따라서 임상 양상과 조직병리학적 소견이 진단에 중요한 역할을 한다. 조직학적 소견으로는 특징적으로 sulfur와 Gram 양성인 실모양의 균이 관찰된다. 병변 중심부의 화농성 괴사 및 주변의 육아조직과 섬유화가 관찰되며 농양의 가운데에는 호산성의 초자양 물질로 둘러싸인 방사상 균사로 이루어진 sulfur가 발견된다. sulfur는 발견되지 않을 수도 있으며, 노카르디아증(nocardiosis), 색소진균증(chromomycosis), 포도상 진균증(botryomycosis)에서도 관찰될 수 있다.^{1,8} 본 증례에서는 배양검사에서 방선균이 동정되지 않았으나 조직병리검사에서 sulfur가 발견되고 Gram 염색 및 methenamine silver 염색에서 실모양의 균이 관찰되어 방선균증으로 진단하였다.

방선균증의 치료는 약물요법과 수술요법이 있으며, 약물요법으로는 항생제의 병변 내 침투가 어려워 2-6주 동안 penicillin G 정맥 주사 후 경구용 penicillin을 6-12개월 동안 복용하는 방법이 통용되고 있다.⁹ 최근에는 수술적 접근과 함께 임상적 호전을 보일 때까지 penicillin G 정맥 주사 및 경구 항생제를 병용한 후, 경구 항생제를 2-4주간 복용하는 것이 효과적이라는 보고가 있다.¹⁰ 수술적 치료는 괴사조직이 광범위하거나 배농루가 있는 경우, 약성종양을 배제할 수 없는 경우, 농양을 경피적으로 제거하기 어려운 경우, 약물치료에 반응하지 않는 경우 등에서 필요할 수 있다.⁹

안와삽입물 감염의 진단은 임상적인 증상에 주로 의존하게 되며, 심한 농성 분비물, 항생제 점안에 반응하지 않는 결막의 염증과 부종, 삽입물의 노출 등이 주된 소견이다.¹¹ 또한 안와삽입물의 drilling 및 운동축의 삽입은 침습적인 조작으로, 안와삽입물 내로 인위적인 길을 만들어 삽입물이 노출되는 위험과 균의 유입 기회를 증가시켜 안와삽입물의 감염을 유발할 수 있다.¹¹ 삽입물의 노출은 정상 점막이 손상된 환경으로서 방선균 감염을 유발하는 요인이 될 수 있다. 안와삽입물의 감염은 항생제 치료에 잘 듣지 않는

경우가 대부분으로, 일단 감염이 발생하면 안와삽입물을 제거하는 것이 유일한 치료방법으로 알려졌다.^{12,13} 자가 진피지방 이식은 무안구성 안와 재건의 확립된 치료법 중 하나로 노출 부위가 큰 안와삽입물의 1차적 혹은 2차적 치료로 흔히 사용되고 있으며, 공여 부위로는 대퇴부 후외측(대둔부 상외측)이 주로 사용되나 복부에서도 높은 이식 성공률을 보였다.¹⁴

저자들이 경험한 두 증례는 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서 발생한 방선균증으로, 두 환자 모두에서 안와삽입물에 운동축을 삽입한 병력이 있었고 결막의 만성 화농성 감염증과 육아종 소견을 보였으며 안와삽입물의 노출이 관찰되었다. 두 증례 모두에서 안와삽입물의 노출 부위가 크고 감염증이 있어 삽입물을 제거하였으며, 이러한 경우에는 자가 진피지방 이식술이 좋은 치료 방법으로 생각한다. 첫 번째 증례에서는 심한 안구함몰을 막기 위해 새로운 안와삽입물을 삽입한 후 진피지방을 이식하였으며, 두 번째 증례에서는 염증 소견이 심하여 새로운 삽입물은 넣지 않고 진피지방을 크게 만들어 이식하였다.

무안구성 안와삽입물 삽입술을 시행 받은 환자에서 결막의 화농성 염증과 함께 안와삽입물의 노출 소견이 보이는 경우 안와삽입물의 감염을 의심해야 하며, 본 증례에서와 같이 결막의 만성 화농성 및 육아종성 염증이 항생제 치료로 호전되지 않거나 재발하는 경과를 보인다면, 방선균에 의한 안와삽입물의 감염의 가능성도 고려해야 하며, 안와삽입물의 제거를 적극적으로 고려해야 할 것으로 생각한다.

저자들은 운동축을 삽입한 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서 발생한 방선균 감염의 증례를 경험하였으며, 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서의 방선균 감염은 저자들이 아는 바로는 현재까지 국내에 보고된 예가 없어 이를 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Smego RA Jr. Actinomycosis of the central nervous system. Clin Infect Dis 1987;9:855-65.
- 2) Hussain I, Bonshek RE, Loudon K, et al. Canalicular infection caused by Actinomyces. Eye 1993;7:542-4.
- 3) Weese WC, Smith IM. A study of 57 cases of actinomycosis over a 36-year period. A diagnostic "failure" with good prognosis after treatment. Arch Intern Med 1975;135:1562-8.
- 4) Sudhakar SS, Ross JJ. Short-term treatment of actinomycosis: two cases and a review. Clin Infect Dis 2004;38:444-7.
- 5) Bennhoff DF. Actinomycosis: diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. Laryngoscope 1984;94:1198-217.
- 6) Schaal KP, Lee HJ. Actinomycete infections in humans - a review. Gene 1992;115:201-11.

- 7) Karcioğlu ZA. Actinomyces infection in porous polyethylene orbital implant. Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol 1997;235:448-51.
- 8) Brown JR. Human actinomycosis. A study of 181 subjects. Hum Pathol 1973;4:319-30.
- 9) Brook I. Actinomycosis: diagnosis and management. South Med J 2008;101:1019-23.
- 10) Moghimi M, Salentijn E, Debets-Ossenkop Y, et al. Treatment of Cervicofacial Actinomycosis: A report of 19 cases and review of literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2013;18:e627-32.
- 11) Park JW, Choi WC, Sires BS, La TY. Orbital implant infection after drilling procedure. J Korean Ophthalmol Soc 2007;48:1449-58.
- 12) Goldberg RA, Holds JB, Ebrahimpour J. Exposed hydroxyapatite orbital implants: Report of 6 Cases. Ophthalmology 1992;99:831-6.
- 13) You SJ, Yang HW, Lee HC, Kim SJ. 5 Case of infected Hydroxyapatite Orbital Implant. J Korean Ophthalmol Soc 2002;43:1553-7.
- 14) Yang YH, Ahn M. Outcomes of autogenous dermis fat grafting with different donor sites in exposed porous orbital implants. J Korean Ophthalmol Soc 2013;54:545-51.

= 국문초록 =

운동축을 삽입한 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서 발생한 방선균증 2예

목적: 운동축을 삽입한 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서 발생한 방선균 감염 2예를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 17년 전 좌안 안구내용제거술 및 하이드록시아파타이트 안와삽입물 삽입술을 시행 받은 44세 남자 환자와 15년 전 좌안 안구제거술 및 하이드록시아파타이트 안와삽입물 삽입술을 받은 55세 남자 환자가 1년여 전부터 결막낭에 출혈이 발생하고 살이 차오르는 증상으로 내원하였다. 두 환자 모두에서 수술 후 운동축 삽입술을 시행 받은 병력이 있었으며, 내원 당시 결막낭에 육아종이 관찰되었고 육아종 제거 시에 안와삽입물이 노출된 소견을 보였다. 안와삽입물 제거술 및 자가 진피지방 이식술을 시행하였고 조직병리검사 결과 방선균에 의한 안와삽입물 감염 소견이 확인되었다.

결론: 다공성 안와삽입물을 가진 환자에서 결막의 만성 화농성 육아종과 안와삽입물의 노출이 지속되는 경우, 방선균 감염의 가능성을 고려하여야 한다. 방선균 감염은 드문 감염 질환으로, 하이드록시아파타이트 안와삽입물에서의 감염은 현재까지 국내에 보고된 예가 없어 이를 보고하는 바이다.

〈대한안과학회지 2014;55(5):755-760〉
