



만성 침습성 비강 방선균증 1예

가천대학교 의과대학 길병원 이비인후과학교실

김동현 · 강태규 · 김선태

A Case of Chronic Invasive Actinomycosis in the Nasal Cavity

Dong Hyun Kim, MD, Tae Kyu Kang, MD, and Seon Tae Kim, MD, PhD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Gachon University, Gil Medical Center, Incheon, Korea

A 57-year-old male patient with nasal congestion and nasal congestion, which occurred 1 month prior to the hospital visited. PNS CT and MRI was performed and revealed right orbital cellulitis, sinusitis and brain abscess. Surgical drainage was determined by rhinology, ophthalmology and neurosurgery. The right sphenoid sinus was identified as an open mucosal mucosa, and blackish mucosa was found on the right sphenoid sinus. Eucleation was performed. Infected orbital tissue removal and orbital abscess drainage were performed. Neurosurgery performed dura incision, drainage and removal of a large amount of abscess pattern, and duroplasty with artificial dura. Actinomyces odontolyti was identified by pus culture, and postoperative antibiotic treatment and dressing were performed, but infection aggravation persisted, resulting in deterioration of general condition, multiple organ damage, and cerebral infarction.

KEY WORDS: Actinomycosis · Invasive actinomycosis · Sinusitis · Transnasal endoscopic surgery.

서 론

방선균은 정상 위장관, 여성 생식기관에서 발견되는 그람 양성 혐기성 비산성 정상 균주이나 점막 손상이 발생할 시나 면역저하 상태일 경우 만성감염을 유발하는 특성을 가지고 있다.¹⁾²⁾

방선균에 의한 감염이 발생하고 나면 다른 병원균들과는 특이적으로 직접적인 확산을 통해 전신적으로 광범위한 감염이 발생할 수 있으며 이로 말미암아 기관기능부전을 유발할 수도 있다.

방선균증은 화농성 염증 및 육아종성 감염 소견을 보이는 특징이 관찰되며 특히 비강 내 감염 발생 시 매우 빠른 속도로 부비동을 통해 안면부 전 영역에 전파될 수 있으며 농양

을 형성하는 특징을 보인다.³⁾

방선균증의 침범 범위 및 예후에 따라 침습성과 비침습성 방선균증으로 구분 지어 분류하고 있으나 국내에서는 대부분 비침습성 방선균증 환자의 치료에 대한 보고가 주로 이루어졌다.

본 증례에서, 환자는 수술적 치료 및 항생제 치료를 시행하였음에도 매우 단시간에 부비동염에서 뇌농양으로 진행되어 생체 징후에 변화까지 유발되었고 이에 전세계적으로 드문 질환인 침습성 방선균증 환자에 대한 경험을 정리하여 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

57세 남환으로, 내원 1개월 전부터 발생한 코막힘, 비루 증

논문접수일: 2020년 2월 21일 / 수정완료일: 2020년 3월 20일 / 심사완료일: 2020년 3월 30일

교신저자: 김선태, 21565 인천광역시 남동구 남동대로 774번길 21 가천대학교 의과대학 길병원 이비인후과학교실

Tel: +82-32-460-3763, Fax: +82-32-467-9044, E-mail: rhinokim2002@hanmail.net

상 있었던 자로 내원 5일전부터 우측 안면부 부종 발생하여 본원 안과 내원하였다(Fig. 1).

외상, 수술, 치과처치의 과거력은 없었으나 잘 조절되지 않는 당뇨병 병력이 있었다. 우측 안면부 부종 있어 본원 안과 외래 진료 후 이비인후과 협진 후 입원 하여 시행한 이학적 검사 상 우측 안구 돌출 소견 있었으며 악취를 풍기고 있어 조직 검사 및 응급 배농 목적 하에 부분 마취 하 우측 부비동 내시경 수술 시행하였으며 우측 비강 내 전 영역 상 점액화농성 분비물이 보였으며 부비강 점막 내 검은 반점 형태의 병변 확인되었다.

부비동 전산화 단층촬영을 하였으며 우측 상악동, 사골동, 전두동 그리고 접형동까지 연부조직음영과 동반된 석회화된 병변 관찰되었으며 우측 안와를 침범하고 있었으며 공기

음영 동반되어 있었다(Fig. 2).

방사선학적 및 임상적 소견 상 중증의 침습성 진균성 부비동염 의증 하에 감염내과 협진 하에 3세대 세팔로스포린 계열 항생제 및 암포테리신B 항생제 치료 7일간 시행하였다.

부비동 자기공명영상 촬영하였으며 영상 상 우측 안와 봉와직염 및 부비동염 소견 확인되었으며 뇌전두엽 상 뇌농양으로 추정되는 병변 확인되었다(Fig. 3).

안과, 신경외과 협진 하 수술적 배농 결정하였으며 이비인후과에서 내시경적 부비강 접근법을 시행하여 접형동을 열자 병적 점막 확인되어 모두 제거하였으며 우측 접형동 점막 상 검은 반점형태의 병변 관찰되었으며 지판(lamina papyracea) 및 두개저에도 검은 반점 형태의 병변 있었으나 출혈 위험 및 안구 손상 위험성 높아 상기 부위에 대해서는 안과

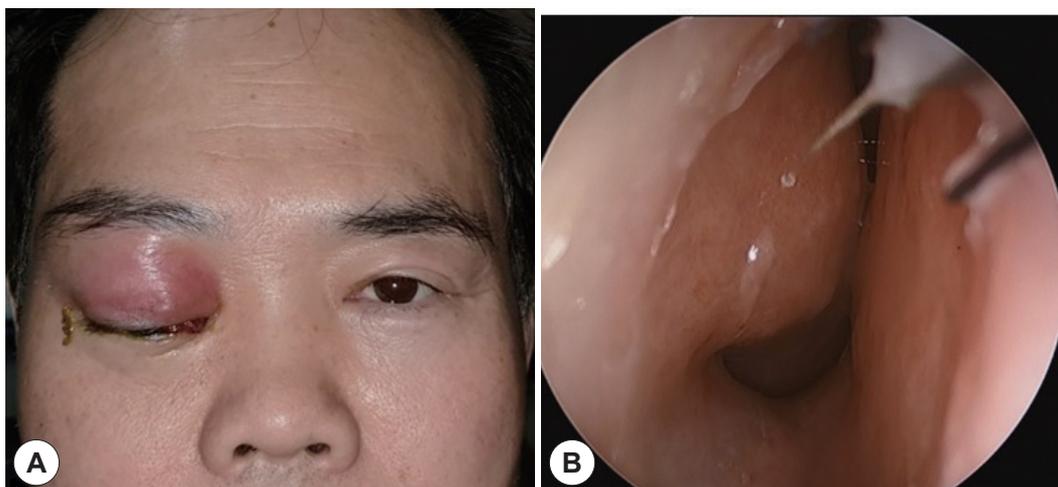


Fig. 1. Picture of patients face when visit hospital. Redness around the left entire eyelid, accompanied with swelling. Also, yellowish discharge was drainage from upper eyelid (A). Endoscopic images show a whitish discharge in the right nasal cavity (B).

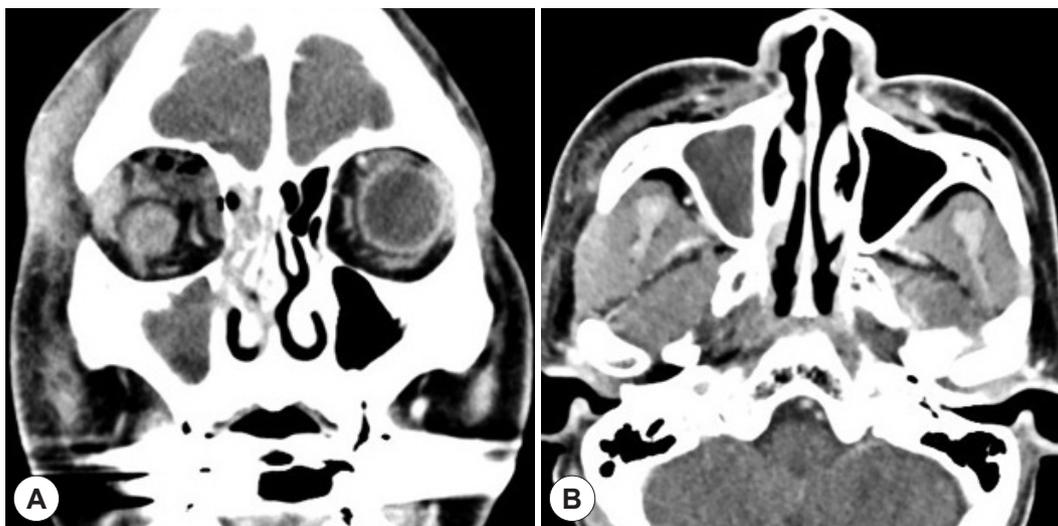


Fig. 2. Computed tomography scans. Soft tissue density and neighboring bone destruction are seen at the Rt.temporal area, periorbital area and superior orbital area in the coronal view (A) and axial view (B).

및 신경외과에서 감염 병소를 제거하기로 하였다(Fig. 4). 좌측의 경우 정상 점막 조직 확인되었다. 이후 안과적 수술 시행하여 안와 내벽에 검은 반점 및 흑색으로 변화 된 점막들이 관찰되었고 화농성 농양으로 가득 찬 낭성 종물 확인되었다.

안구내염 소견 관찰되어 안구적출술 시행하였으며 안와

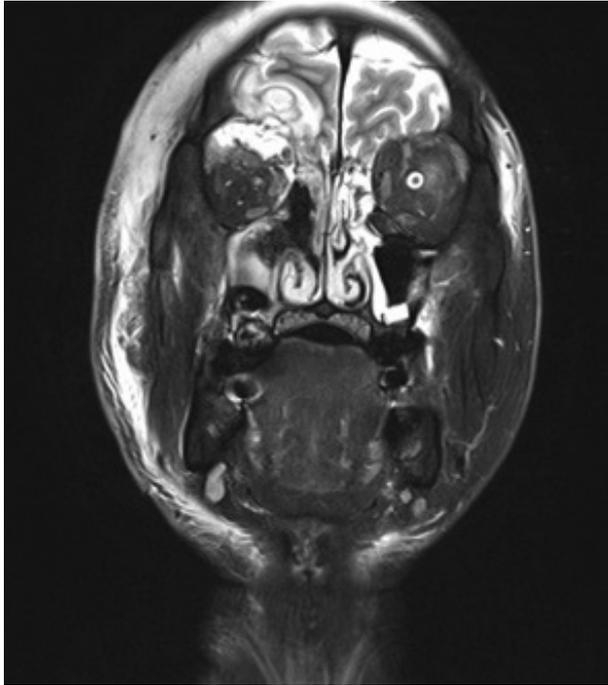


Fig. 3. Preoperative MRI. Axial T1-weighted image showing a hyperintense lesion occupying the right nasal cavity. A partially hyperintense area is seen on the upper orbital area and frontal lobe of brain.

감염 조직 및 괴사조직 제거, 안와농양배농술 시행하였다.

신경외과에서 경막절제술 후 농양 다량 배액 시행하였으며 인공 경막으로 경막성형술 시행 후 수술을 종료하였다.

수술 시 시행한 농양 검사 상 *Actinomyces odontolyti* 균 확인되었으며 조직 검사 상 우측 상악동, 사골동, 전두동 그리고 접형동 내 점막은 만성염증 소견 확인되었다(Fig. 5). 이에 페니실린계 항생제로 항생제 변경 치료 4일간 시행하였다.

수술 이후 지속적인 항생제 치료 및 드레싱 시행하였으나 감염 소견 악화 되어 3세대 세팔로스포린 계열 항생제로 항생제 변경하였으며 술 후 7일째 전신 상태 악화 소견 관찰되어 술 후 14일째 신경외과적 뇌농양 배농술 시행하였으나 술 후 16일째 다발성 장기 손상 이후 뇌출혈 소견 있어(Fig. 6) 승압제 사용에도 활력징후 지속적으로 감소하였으며 술 후 25일째 심정지 발생하여 사망하였다.

고 찰

방선균은 위장관 및 여성생식기관에 정상 세균총으로 존재하나, 면역저하자나 점막의 손상, 동반 감염 등 위험인자가 동반될 경우 감염 증상이 유발하게 된다.^{1,2)} 특히 정상적인 면역 상태를 보이는 사람들에게도 광범위한 항생제의 사용을 시행한 뒤, 당뇨 등 대사성 질환의 증가로 인하여 방선균의 감염률이 높아지는 결과를 보이고 있다.³⁾

방선균은 주로 구강이나 경부, 안면부에서 대다수 감염증이 발생하는 것으로 알려져 있다. 비강 내는 특이적으로 만

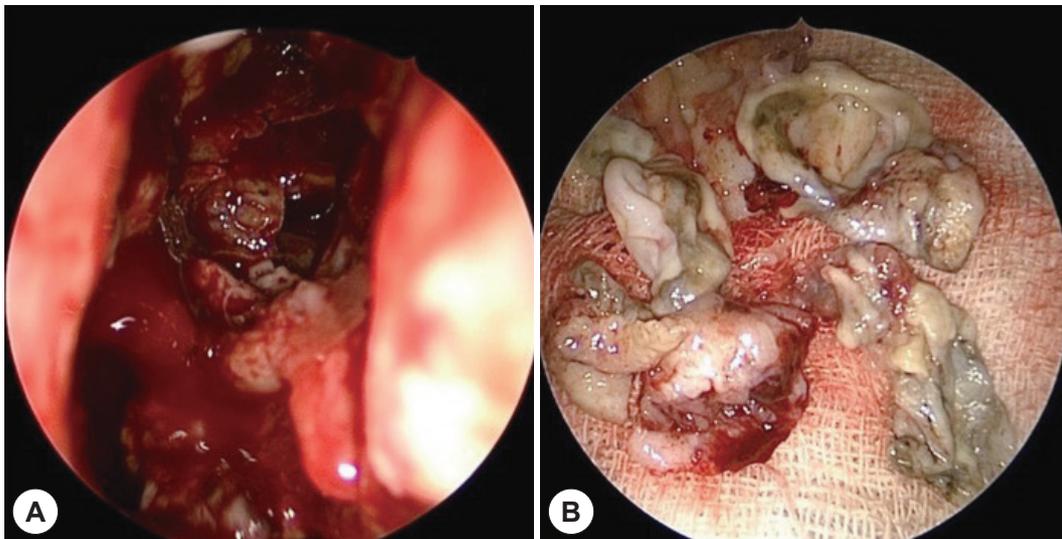


Fig. 4. Nasoendoscopy findings. Dark brown colored materials are observed nearby ethmoid sinus anterior portion (A). Neighboring mucosa shows thickened and dark color change (B).

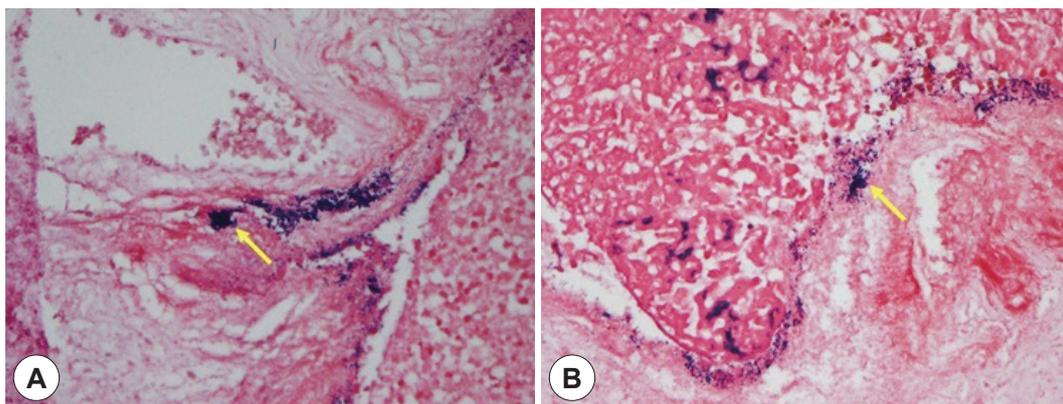


Fig. 5. Histopathologic findings. Hematoxyline and eosin stain ($\times 400$) shows the central necrosis, bacterial colonies. Granulation tissue shows fibrotic change. There were no radiating microfilaments and sulfur granule seen (A, B).

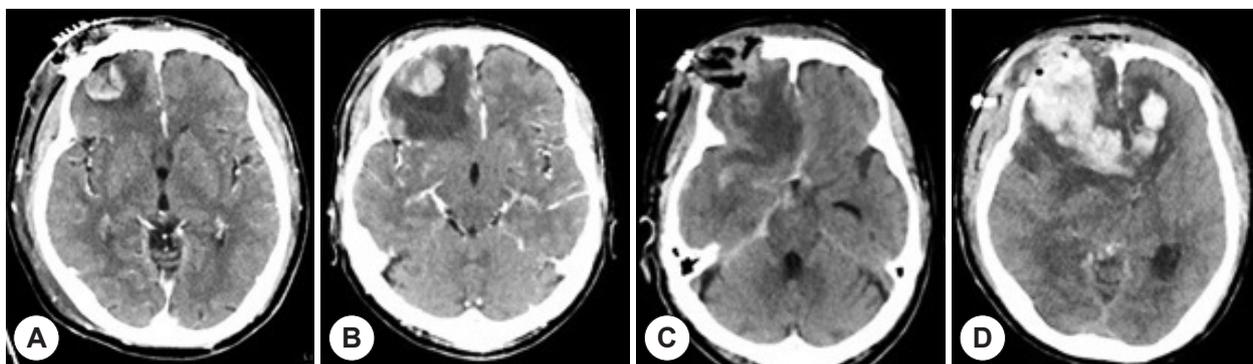


Fig. 6. Brain CT was taken after surgery. Hemorrhage was seen in the right frontal lobe (A), and additional CT was taken 7 hours later (B). Hemorrhage and bleeding worsened, causing inflammation and bleeding to spread to the opposite brain (C, D).

성적인 부비동염, 비강 내 폴립 등에 의하여 상악동 환기부전을 유발한다. 방선균의 혐기성 특성 상 상악동 내에서 증식 축진을 유발하여 감염 초기 적절한 치료가 이루어지지 않을 경우 광범위한 부비강 내 감염을 유발할 수 있다. 이 외에 외상이나 치과적인 치료 이후 구강-상악동루를 형성하여 상악동을 통한 방선균 감염을 유발할 수 있다.⁴⁾

방선균증의 확진을 위해서는 배양검사를 통한 균의 동정과 조직병리학적 소견이 중요하며 조직학적으로는 섬유화와 육아조직의 형성, 화농성의 괴사와 유행과립이 특징이다.

방선균의 치료에는 명확한 지침은 확립되어 있지 않으나 임상적으로 약물치료와 함께 수술적 치료가 함께 동반되어야 하며 penicillin, chloramphenicol, tetracyclines, macrolides, clindamycin, imipenem, streptomycin, cephalosporins과 같은 항생제를 사용하여야 한다.⁵⁾

배양결과 방선균이 검출되며 병리학적으로 만성 육아종의 염증 소견을 동반하면서 유행과립이 존재할 경우 방선균증으로 확진이 가능하나 이전에 시행한 항생제 치료와 부적절한 배양, 다른 균주의 동반성장 등의 요인들에 의해 방선균이 동정되는 확률은 50% 미만으로 낮은 양상을 보인다.

특히 악성종양이나 진균성감염, Wegener's granulomatosis와 비슷한 임상적, 방사선학적 소견을 보이고 있기 때문에 진단에 유의해야 한다.

본 증례에서도 항생제 치료에 반응을 보이지 않아 영상학적 검사를 시행한 결과 우측 상악동 및 접합동 내 석회화를 보이는 종물과 흔탁한 음영을 동반하고 있어 진균증을 의심하여 내시경적 부비동 수술을 시행하였다. 이렇듯 약물치료에 반응을 보이지 않는 만성 부비동염의 경우 반드시 방선균증에 대한 의심을 해 보아야 한다.

앞서 언급한 것과 같이 방선균증은 임상적인 증상이나 영상의학적 소견, 그리고 수술적 소견으로만 진단하기는 어려운 상황이며 반드시 배양검사와 병리조직검사를 동반하여야 하며 아스페르길루스증(Aspergillosis), 털곰팡이증(Mucormycosis)와 감별이 필요하다. 배양검사 및 조직검사 시행 시 시간이 소요되기 때문에 술 후 환자의 상태 변화와 호전 양상을 면밀히 살펴보며 항생제 사용 시점에 따른 증상의 변화가 있을 경우 방선균증에 대하여 감별할 필요성이 있다.^{6,7)}

주변 조직으로 진행 여부에 따라 침습성(invasive)과 비침습성(noninvasive)으로도 분류되며 현재 감염 위치에 따른

분류법이 주로 사용되나 광범위한 침습성 방선균증 감염의 경우 감염 범위를 명확하게 확인한 뒤 잔존 감염소를 완전히 제거하여야 하며 충분한 수술 중 생리식염수 세척을 시행하여야 한다.⁸⁾

학계에 보고된 비강 내 방선균증 감염에 대한 치료법들은 비강 외 다른 전신 부위의 치료 경험을 토대로 시행한 방법들로 비강 방선균증, 그 중 특히 빠른 전신 전이를 유발하는 침습성 방선균증에 대한 치료법은 아직 확립되지 않았다. 이전에 보고된 비강 방선균증에 대한 증례들에서는 모두 폐니실린 계열 항생제를 사용하였으며 치료 기간은 적게는 2일에서 28일간, 퇴원 후 경구투여제로 전환하여 3주에서 7개월간 치료하였다. 이 중 조절 되지 않는 당뇨병 과거력이 있는 급성 침습성 방선균증 1예에서는 재발소견이 있었으며 그 외에 비침습성 방선균증 증례의 경우에는 3~4주간 짧은 기간에도 항생제 치료를 시행 후 완치되는 효과를 확인할 수 있었다.⁴⁻⁸⁾

본 증례에서는 이전 증례에 보고된 바와 달리 비강, 안와 및 뇌까지 감염의 전파 소견이 있는 환자에 대해서 치료를 시행하였고 광범위한 범위의 수술적 치료 및 적극적인 항생제 치료를 시행하였다. 이처럼 여러 조직에 광범위하게 진행된 방선균증 환자에 있어서 신속한 진단과 치료가 필요하며, 광범위한 수술적 치료를 통해 병변의 완전한 제거가 필요하다고 판단된다. 또한 여러 분과와 상의를 통해 방선균증에 대한 치료적인 계획을 공동적으로 수립하고 적극적인 개입을 통해 공격적인 수술적 치료와 약물 치료를 병행 하는 것이

합병증을 줄일 수 있으며 기저 질환에 대한 조절을 통해 감염의 속도를 늦추는 것이 침습성 방선균증 치료에 있어서 중요한 전환점이 될 것으로 생각된다.

중심 단어 : 방선균증 · 침습성방선균증 · 부비동염 · 내시경 하 부비동수술.

REFERENCES

- 1) Choi JW, Lee TB, Hwang SH, Kim BH. A rare case of actinomycosis in nasal cavity with aspergillus sinusitis. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40(12):1844-7.
- 2) Moghimi M, Salentijn E, Debets-Ossenkop Y, Karagozoglu KH, Forouzanfar T. Treatment of cervicofacial actinomycosis: a report of 19 cases and review of literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2013;18(4):e627-32.
- 3) Batzakakis D, Karkos PD, Papouliakos S, Leong SC, Bardanis I. Nasal actinomycosis mimicking a foreign body. *Ear Nose Throat J* 2013; 92(7):E14-6.
- 4) Park KH, Kwon J, Lee YS, Park SI. Mycotic infection of paranasal sinuses: its diagnostic significance of computerized tomographic scan. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1987;30(6):879-86.
- 5) Choi HJ, Lee JK, Kwon HJ, Lee KC. A case of actinomycosis in nasal cavity. *J Rhinol* 2007;14(2):128-30.
- 6) Hong SJ, Joo JB, Kim YJ, Lee BJ. Three cases of actinomycosis of the head and neck. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43 (11):1259-62.
- 7) Sakuma Y, Yamashita Y, Shiono O, Oridate N. Actinomycosis arising from the nasal cavity, with rare fatal progression. *BMJ Case Rep* 2016;2016:bcr2015213747.
- 8) Vorasubin N, Wu AW, Day C, Suh JD. Invasive sinonasal actinomycosis: case report and literature review. *Laryngoscope* 2013;123(2): 334-8.