

# 진균구를 동반한 알레르기성 진균성 부비동염 1예

충남대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

권기륜 · 박지수 · 박성제 · 나기상 · 김용민

## A Case of Allergic Fungal Rhinosinusitis with Concurrently Occurring Fungus Ball

Ki Ryun Kwon, MD, Ji Soo Park, MD, Sung Jae Park, MD,  
Ki Sang Rha, MD, PhD and Yong Min Kim, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine,  
Chungnam National University, Daejeon, Korea

### ABSTRACT

Allergic fungal rhinosinusitis (AFRS) is a noninvasive fungal infection of the paranasal sinuses that are usually seen in young immunocompetent patients with atopy and/or asthma. Fungus balls can grow in moist cavities of the paranasal sinuses of a host with normal immunologic status. Cases of AFRS with concurrent fungus balls is very rare. We present a case of a patient who had AFRS on one side of the paranasal sinus and allergic fungal sinusitis on the other side. A 51-year-old female with atopy presented with a few-year history of nasal obstruction and rhinorrhea, as well as a history of high-dose systemic steroid therapy. The patient had nasal polyps and showed an elevated level of total IgE and positive MAST to fungal antigens. Endoscopic sinus surgery was performed. Allergic mucin from the right maxillary sinus contained sheets of eosinophils and Charcot-Leyden crystals. Also, a clay-like dark brown material from the left maxillary sinus was revealed to be a fungus ball.

**KEY WORDS :** Mycetoma · Sinusitis · Aspergillosis.

### 서 론

알레르기성 진균성 부비동염(allergic fungal rhinosinusitis, AFRS)은 알러지 무신과 비용종을 동반하는 만성비부비동염의 아형이다.<sup>1)</sup> 이 질환에서 진균의 역할은 아직 명확히 밝혀져 있지 않지만 비-부비동 내에 들어온 진균이 제 1형 또는 3형 과민반응을 유발하고 그 결과로 호산구성 알레르기 무신이 생성되어 비부비동 점막에 만성염증을 일으키는 것으로 알려져 있다.<sup>2)</sup>

비부비동의 진균구(paranasal sinus fungus ball)는 곰팡이 부스러기와 점액이 응고되어 생성된 종괴가 비강 또는 부비

동 내에서 서서히 자라서 생성되는 질환이며 인접 점막의 침습이 없다. 진균구가 발생한 환자는 면역 기능이 정상이고 진균에 대한 아토피를 보이지 않는 특징이 있으며 모든 환자의 80% 이상이 상악동에서 발견된다.<sup>3)</sup> 비부비동 내시경 수술의 발달로 내시경만을 이용한 비 내 접근에 의한 완전한 제거로 완치가 가능하다.<sup>4)</sup>

알레르기성 진균성 부비동염과 진균구는 발병기전이 다른 비침습적 진균성 비부비동염으로 각각의 발생은 진균에 대한 숙주의 반응에 따라서 결정된다. 두 가지 병변이 한 환자에서 동시에 발견된 경우는 지금까지 문헌에 보고되지 않았다. 저자들은 알레르기 진균성 부비동염과 진균구가 동시에 발생한 환자를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

논문접수일: 2015년 1월 5일 / 수정완료일: 2015년 2월 14일

심사완료일: 2015년 3월 18일

교신저자: 김용민, 305-764 대전광역시 중구 문화로 266

충남대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

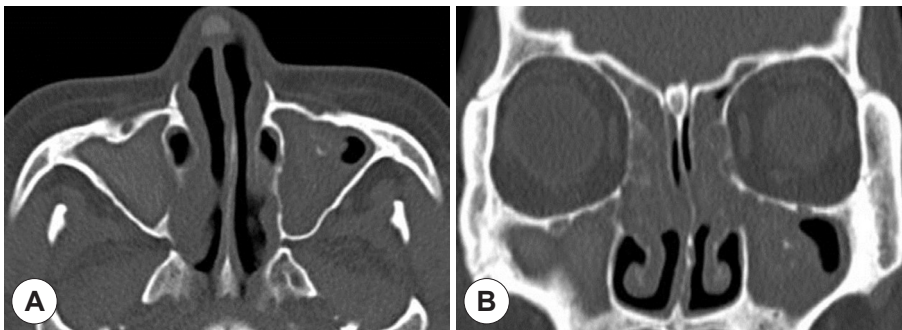
Tel: +82-42-280-7698, Fax: +82-42-253-405 9

E-mail: entkym@cnu.ac.kr

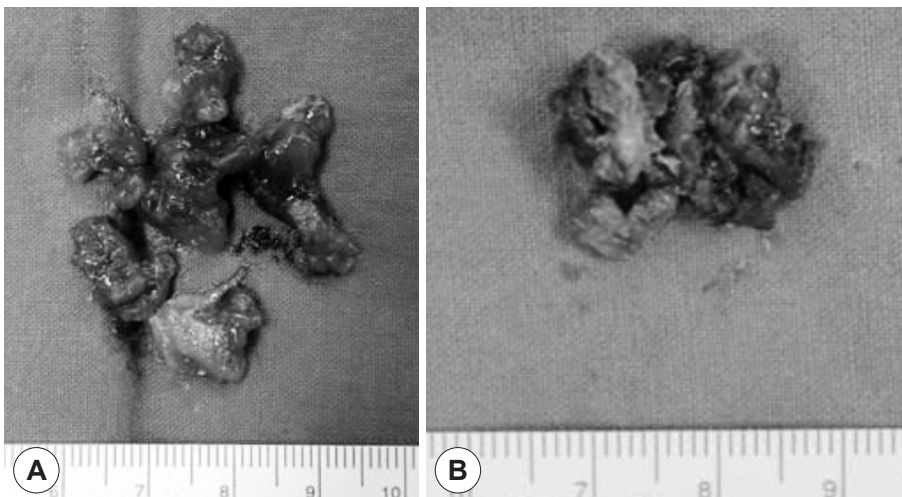
## 증 례

51세 여자가 5~6년간 지속된 양측 비폐색, 비루, 후각감퇴를 주소로 내원하였다. 환자는 아토피 피부염으로 치료를 받은 기왕력이 있었다. 34년 전과 3년 전 두 차례 폐결핵으로 치료를 받은 병력이 있었고, 34년 전 스티븐스-존슨 증후군으로 전신 스테로이드 치료를 받은 병력이 있었으며, 백내장으로 24년 전 우측 각막이식 수술 후 전신 스테로이드 치료를 받았었다. 그 외 당뇨, 고혈압 등의 만성질환이나 면역력에 영향을

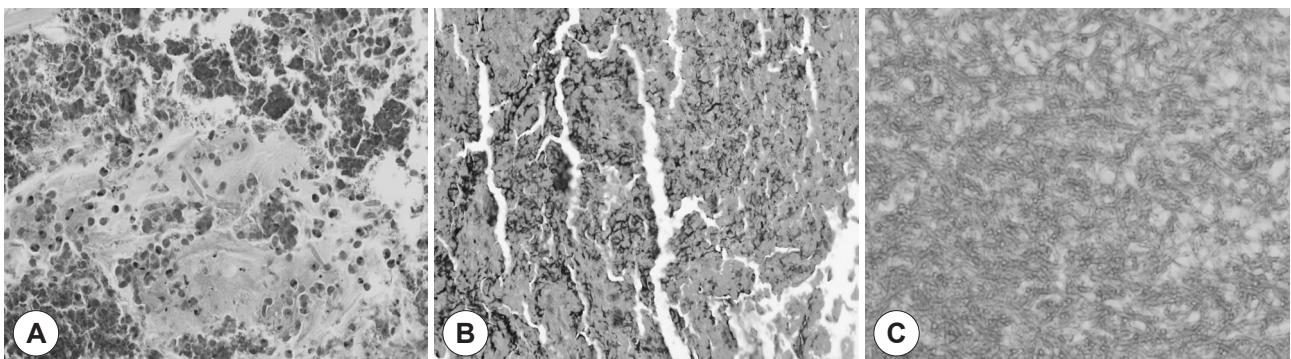
미칠 수 있는 질환은 없었다. 비내시경 검사에서 양측 중비도에 비용, 좌측으로 비중격 만곡증, 좌측 중비도에 점액농성의 분비물이 관찰되었다. 환자는 비용을 동반한 만성비부비동염의 급성악화 추정진단 하에 2주간 항생제 치료를 한 후에 비부비동 전산화 단층촬영(Paranasal Sinus Computed Tomography, PNS CT)을 하였다. PNS CT에서 양쪽 상악동, 전두동, 사골동을 가득 채우는 연조직 음영의 병변이 관찰되었는데 우측 상악동 내부 병변은 중심부에 균질한 고음영이 관찰되었고, 좌측은 중심부에 석회화 병변이 관찰되었다(Fig. 1).



**Fig. 1.** Preoperative axial (A) and coronal (B) CT scan showing total opacification of both maxillary, ethmoid sinuses with hyperattenuation in central portion of right maxillary sinus and calcification in central area of left maxillary sinus.

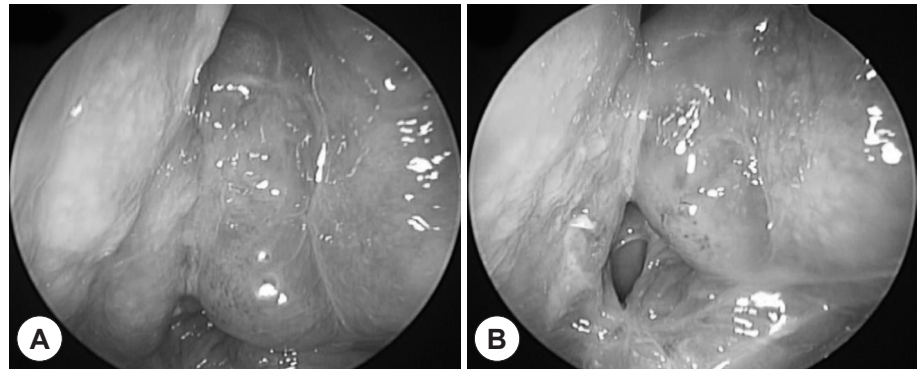


**Fig. 2.** Thick, inspissated greenish mucoid secretion was removed from right maxillary sinus (A). Dark brown-colored clay-like material was brought out from left maxillary sinus (B).



**Fig. 3.** H&E stain of right maxillary sinus lesion showing inflammatory cells composed predominantly eosinophils and Charcot-Leden crystals (A). GMS stain of right maxillary sinus lesion was positive for fungal hyphae (B). H&E stain of left maxillary sinus lesion showing aggregation of fungal hyphae, consistent with Aspergillus (C).

**Fig. 4.** Six months after surgery, endoscopic findings of polypoid mucosa with yellowish thick discharge in right sphenoidal recess (A). After use of systemic steroid therapy for one week (Prednisolone 20mg per day), both yellowish discharge and polypoid lesion disappeared (B).



혈액검사에서 호산구 수치가 13.3%(참고치: 0~10%)로 증가된 소견 이외에 혈액학적, 생화학적 검사에서는 모두 정상소견이었다. Multiple Antigen Simultaneous Test(MAST) 검사 결과 *Alternaria*(class 5), *Aspergillus*(Class 6), *Penicillium*(Class 5), *Cladosporium*(Class 4), *Mite-Pterony*(Class 4)에 대해 특이 IgE가 증가하였다. 환자는 우측 코의 알레르기성 진균성 부비동염과 좌측 코의 진균구 추정 진단 하에 부비동 내시경 수술을 시행하였다. 양측 중비도에서 비용이 관찰되었고 부비동점막은 심한 염증으로 인한 부종이 관찰되었다. 비용과 비후된 점막을 제거한 후 우측 상악동 내부에서는 질게 농축된 녹갈색 점액이 관찰되어 흡인기와 여러 점자를 이용하여 제거하였고(Fig. 2A), 좌측 상악동 내부에서는 농축 응고된 흑갈색 종괴가 관찰되어 역시 흡인기와 점자를 이용하여 제거하였다(Fig. 2B). 조직검사에서 우측 상악동 병변은 *Aspergillosis* 균사(Fig. 3A)와 함께 Charcot-Leyden crystal과 호산구 침윤이 특징인 알레르기 무진을 관찰할 수 있었고(Fig. 3B), 좌측 상악동 내부 병변은 *Aspergillosis*에 의한 진균구임을 알 수 있었다(Fig. 3C). 환자는 수술 후 경구 prednisolone을 30 mg씩 1주일간 투여하였다. 수술 후 환자의 증상은 호전되었고 수술 창은 정상적인 점막으로 치유되어 경과관찰 하였다. 하지만, 수술 후 6개월째에 좌측 비강은 여전히 깨끗하였지만, 우측 사골동과 접형사골외에 점막부종과 함께 알레르기 무진으로 보이는 점성물질이 관찰되었고, 전신스테로이드제 투여 후 호전되는 양상을 보였다(Fig. 4A and B).

## 고 찰

알레르기성 진균성 부비동염은 미국에서는 진균성 비부비동염 중 가장 흔한 질환으로 따뜻하고 습한 지역에서 빈발하며 아시아 지역에서도 발병률이 증가하고 있는 추세이다.<sup>5)</sup> 젊은 성인에서 주로 발견되며 환자들은 비폐색, 비루, 후각감퇴 등 만성 비부비동염 환자와 유사한 증상을 호소한다. 비내시경 검사에서는 비용이 관찰되는 경우가 많으며 알레르기 무

진이라 불리는 질게 농축된 황갈색의 점액물질이 관찰된다.<sup>6)</sup> 알레르기성 진균성 부비동염의 진단기준은 연구자에 따라 약간씩 차이가 나지만 Bent와 Kuhn이 제안한 진단기준이 널리 받아들여지고 있다. 진균에 대한 제1형 과민반응, 비침습성 진균 포자를 함유한 알레르기 무진, 진균이 조직학적 검사 혹은 배양을 통해 확인되는 경우, 비용의 동반, 특징적인 CT 소견의 다섯 가지 진단기준 중 첫 세가지 진단기준은 필수 항목으로 제시하였다.<sup>7)</sup>

알레르기성 진균성 부비동염의 정확한 발생기전에 대해서는 아직 논란이 있지만, 흡입된 진균 항원에 대한 1형 혹은 3형 과민반응의 결과라는 의견이 주로 받아들여지고 있다.<sup>6)</sup> 하지만, Collins 등은 일부 환자에서는 배양검사에서 진균이 검출되었으나 진균에 대한 전신 알레르기는 발견되지 않았고, 부비동에서 채취한 무진에서 진균에 대한 IgE가 발견되어 알레르기 진균성 부비동염이 전신적인 과민반응이 아닌 국소적인 1형 과민반응일 가능성을 주장하였다.<sup>8)</sup> 실제 진균은 비강과 부비동 어느 곳이나 산재해 있지만 알레르기성 진균성 비부비동염 환자는 양측성 보다 일측성의 병변이 더 많다.<sup>2)</sup>

본 증례에서는 진균에 대한 전신적인 알레르기가 있는 환자임에도 불구하고 우측 상악동에서는 알레르기 무진이 좌측 상악동에서는 진균구가 발생하였다. 이러한 사실은 진균에 대한 전신적인 알레르기반응이 진단기준에 꼭 필요한 조건임에도 불구하고 알레르기성 진균성 비부비동염의 발생은 전신적인 알레르기 반응보다 국소적인 과민반응이 더 중요한 역할을 할 수 있음을 시사한다고 할 수 있다.

알레르기성 진균성 비부비동염의 치료는 일차적으로 알레르기 무진과 같은 진균 자극 원인을 수술로 제거하고 전신적인 부신피질호르몬제를 투여로 면역억제반응을 조절하여 더 이상 재발이 안되게 하는 것을 목표로 한다.<sup>2)</sup> 본 증례의 환자는 과거에 스티븐스-존슨 증후군, 아토피 피부염, 각막 이식 등으로 전신 스테로이드 복용 병력이 있던 환자였다. 그러나 전신 스테로이드의 복용 시점과 증상 지속 기간을 고려하였을 때 전신 스테로이드의 복용이 질환의 발생에 직접적인 영

향을 주었을 가능성은 떨어져 보인다.

본 증례에서 환자는 수술 후 약 6개월간 특별한 증상이 없이 지내다가 갑자기 좌측 접형동에 알레르기성 진균성 비부비동염이 발생하였고, 전신 스테로이드의 투여로 바로 호전되는 양상을 보인 반면, 우측 비강에서는 재발의 소견이 관찰되지 않았다. 이 현상은 환자의 양측 비강에 진균이 자리잡은 상태에서 진균에 대한 과민반응이 좌측 비강에만 국한되어 발생한 결과로 생각된다. 따라서, 본 증례는 알레르기성 진균성 비부비동염이 진균에 대한 전신적인 과민반응에 의해 발생하였을 가능성 보다 진균에 대한 국소적인 면역반응이 더 중요함을 보여준다고 할 수 있고, 항 후 알레르기성 진균성 비부비동염에 대한 정확한 병태생리를 연구하는데 도움이 될 거라 생각한다.

중심 단어 : 진균종 · 부비동염 · 아스페르길루스증.

## REFERENCES

- 1) McClay JE, Marple B, Kapadia L, Biavati MJ, Nussenbaum B, Newcomer M, et al. Clinical presentation of allergic fungal sinusitis in children. *Laryngoscope* 2002;112:565-9.
- 2) Marple BF. Allergic fungal rhinosinusitis: current theories and management strategies. *Laryngoscope* 2001;111:1006-19.
- 3) Nicolai P, Lombardi D, Tomenzoli D, Villaret AB, Piccioni M, Mensi M, et al. Fungus ball of the paranasal sinuses: experience in 160 patients treated with endoscopic surgery. *Laryngoscope* 2009;119:2275-9.
- 4) Dufour X, Kauffmann-Lacroix C, Ferrie JC, Goujon JM, Rodier MH, Karkas A, et al. Paranasal sinus fungus ball and surgery: a review of 175 cases. *Rhinology* 2005;43:34-9.
- 5) Silva MP, Baroody FM. Allergic fungal rhinosinusitis. *Ann Allergy Asthma Immunol* 2013;110(4):217-22.
- 6) Manning SC, Holman M. Further evidence for allergic pathophysiology in allergic fungal sinusitis. *Laryngoscope* 1998;108:1485-96.
- 7) Bent JP 3rd, Kuhn FA. Diagnosis of allergic fungal sinusitis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;111:580-8.
- 8) Collins M, Nair S, Smith W, Kette F, Gillis D, Wormald PJ. Role of local immunoglobulin E production in the pathophysiology of non-invasive fungal sinusitis. *Laryngoscope* 2004;114(7):1242-6.