

## 편측 부비동에서 발생한 국균증에 동반된 방선균증 2례

경희대학교 의과대학 이비인후과학교실,<sup>1</sup> 경희대학교 일반대학원 의학과 이비인후과학교실<sup>2</sup>

민혜규<sup>1</sup> · 권오은<sup>1,2</sup> · 민진영<sup>1</sup> · 김성완<sup>1</sup>

## Two Cases of Actinomycosis with Aspergillosis in Unilateral Paranasal Sinuses

Hye Kyu Min, MD<sup>1</sup>, Oh Eun Kwon, MD<sup>1,2</sup>, Jin Young Min, MD, PhD<sup>1</sup> and Sung Wan Kim, MD, PhD<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Kyung Hee University, Seoul; and

<sup>2</sup>Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Graduate School, Kyung Hee University, Seoul, Korea

Actinomycosis of paranasal sinus is a very rare disease that is caused by infection of *Actinomyces* species that were present in oral or nasal flora due to trauma or dental treatment. Actinomycosis shows a local calcified lesion associated with soft tissue density on computed tomography, which is similar to fungal sinusitis. Actinomycosis associated with fungal ball due to *Aspergillus* affecting sinus ventilation has been rarely reported. We experienced two cases of actinomycosis associated with fungal ball and successfully treated with endoscopic sinus surgery and oral antibiotics for 3 months without recurrence.

**KEY WORDS:** Actinomycosis · Aspergillosis · Fungal ball · Paranasal sinus.

### 서 론

방선균증(Actinomycosis)은 만성 육아종성 감염 질환으로, 원인균인 *Actinomyces*는 사람의 구강, 인후두, 위장관, 비뇨기계, 그리고 피부의 정상세균총으로 존재하다가 외상, 수술, 이물 등에 의한 손상이 발생하면 이를 통해 심부 조직으로 침범하여 농양이나 누공을 형성한다고 알려져 있다.<sup>1)</sup> 방선균증은 사람에서는 드물게 나타나지만 50% 이상이 구강, 경부, 안면에서 발생하며, 대부분 하악과 비인강에 발생하고 비강, 특히 부비동으로의 침범은 매우 드물다.<sup>1-3)</sup> 국균증(Aspergillosis)은 진균성 부비동염에서 가장 흔한 형태로 정상 면역환자에서는 흔하지 않지만 주로 상악동이나 접합동에 진균구를 형성한다.<sup>4)</sup> 국균증에 동반된 방선균증이 부비동에 발생한 경우는 해외에서는 1례, 국내에서 3례가 보고된 바 있으며, 국내에서 보고된 3례는 모두 상악동에 병변이

국한되어 있었다.<sup>3)8)10)12)</sup> 본 저자들은 수개월 간 지속된 안면부 통증을 주소로 내원한 환자에서 상악동 또는 상악동과 전사골동을 침범한 국균증과 방선균증의 동반 사례를 2례 경험하였기에 보고하는 바이다.

### 증 례

#### 증례 1

61세 남자 환자가 1년 간 지속된 우측 안면부 통증을 주소로 내원하였다. 안면부 통증은 항생제 치료에 따라 호전과 악화를 반복하였으며, 안정협심증 외의 기저질환이나, 외상, 수술, 치과치료 등의 과거력은 없었다. 내원 당시 우측 안면부 통증뿐만 아니라 비폐색, 비루, 후비루, 코골이 등의 증상을 호소하고 있었으며 비내시경 검사상 우측 중비도에서 점액화농성의 분비물(Fig. 1A)과 진균구로 보이는 진흙 성상의

논문접수일: 2019년 6월 24일 / 수정완료일: 2019년 11월 19일 / 심사완료일: 2019년 11월 23일

교신저자: 김성완, 02447 서울시 동대문구 경희대로 23 경희대학교 의과대학 이비인후과학교실

Tel: +82-2-958-8474, Fax: +82-2-958-8470, E-mail: drkimsw@hanmail.net

병변(Fig. 1B)이 관찰되었다. 부비동 전산화 단층촬영에서 우측 상악동과 전사골동에 연부조직음영과 상악동 외측벽의 과골화(hyperostosis) 소견이 관찰되었으며, 특히 상악동 개구부에서 연부조직 음영에 동반된  $1.6 \times 0.8$  cm 크기의 석회화 병변이 관찰되었다(Fig. 1C). 골미란이나 상악동 내로의 치근 노출은 없었다.

진균성 부비동염 의심 하에 부비동 내시경 수술을 시행하였다. 수술 중 중비도에서 상악동 내부로부터 빠져나오고 있는 진흙 성상의 병변이 관찰되었으며, 상악동 내부에서도 화농성 분비물과 함께 회갈색의 진흙 양상의 내용물이 관찰되었다. 상악동내 점막은 비후 및 염증성 변화를 보이고 있었다. 진균구로 보이는 진흙 양상의 병변을 모두 제거한 후 상악동 내부를 식염수로 세척하고 상악동의 개구부를 충분히 넓힌 후에 수술을 종료하였다.

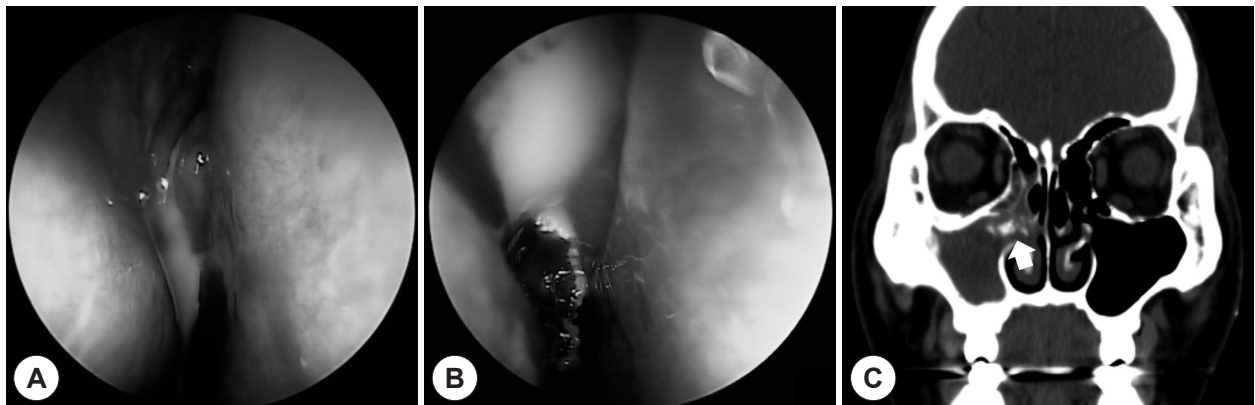
병리조직학적 검사에서 진균구로 의심되었던 병변에서 내부에 격벽(septate)이 있으며 예각으로 분지하는 국균의 특징적인 군사가 발견되었고(Fig. 2A), 염증세포로 둘러싸

인 유황과립(sulfur granule) 내부로 방사형 미세섬유(radiating microfilaments)가 나타나는 방선균증이 함께 관찰되었다(Fig. 2B). 상악동 내 점막에서 시행한 조직검사는 만성 염증으로 침습형 진균 감염의 소견은 없었다.

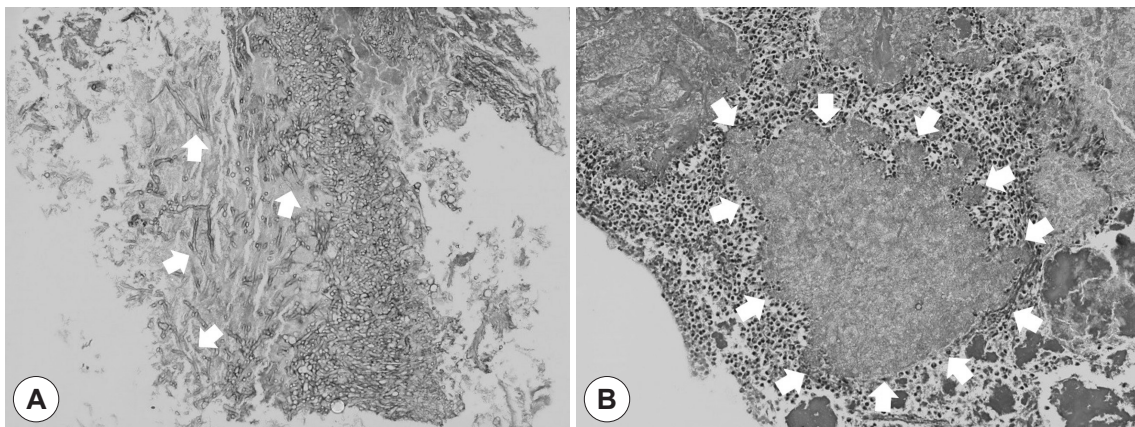
환자는 수술 후 3개월 간 장기간 저용량 마크로라이드 요법(Long term, low dose macrolides, roxithromycin 150 mg qd) 시행하였고, 이후 이상 소견 관찰되지 않아 치료를 종결하였다.

## 증례 2

기저질환 및 특이 과거력 없는 59세 여자 환자가 3개월 간 지속된 우측 안면부 통증을 주소로 내원하였다. 내원 당시 환자는 우측 안면부의 통증과 비폐색, 비루, 후비루 및 우측 이충만감을 호소하고 있었고, 비내시경 검사상 우측 중비도에서 점액화농성 분비물이 관찰되어 2주 간의 항생제 치료를 시행하였다. 이후 증상 호전되어 경과 관찰 중, 우측 안면부 통증의 재발과 농성비루를 주소로 재내원하여 부비동 전



**Fig. 1.** Preoperative findings of case 1. Endoscopic finding shows purulent discharge (A) and fungal ball (B) from middle meatus. Paranasal sinus coronal CT scan image shows soft tissue density and calcified lesion (white arrow) of right maxillary sinus (C).



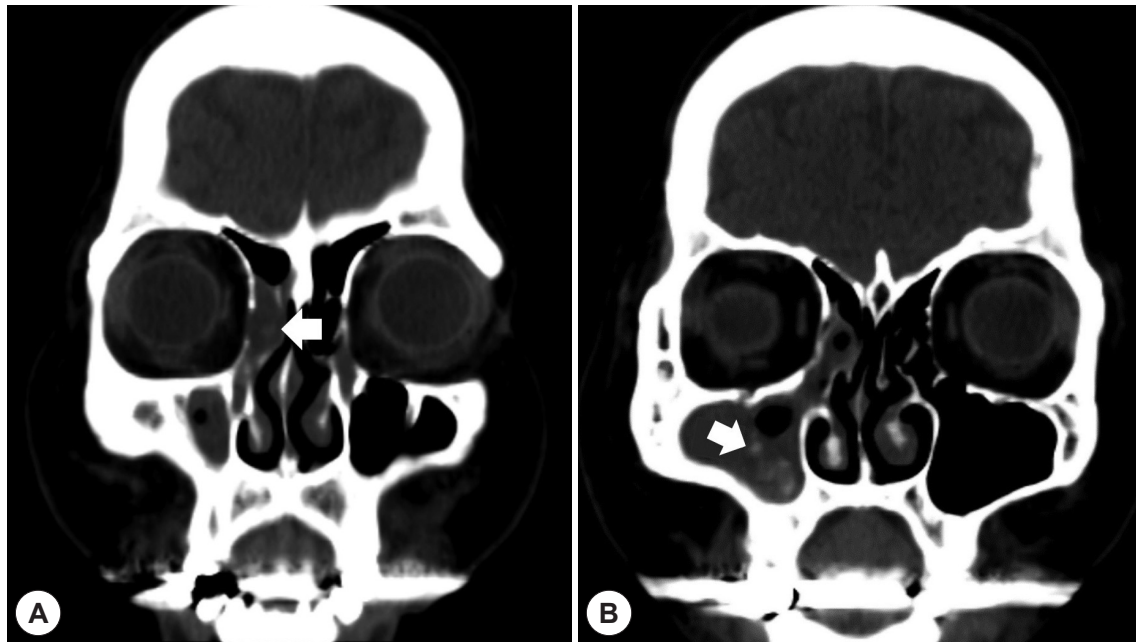
**Fig. 2.** Pathologic findings of case 1. The fungal ball from right maxillary sinus shows branching septate hyphae of *Aspergillus* (white arrows)(H&E stain,  $\times 200$ )(A). There is a sulfur granule composed of radiating filaments and surrounded by inflammatory cells (white arrows)(H&E stain,  $\times 200$ )(B).

산화 단층촬영을 시행하였다. 부비동 전산화단층촬영 검사상 우측 상악동, 사골동, 전두동까지 연부조직음영이 관찰되며, 상악동과 전사골동의 내부로는 석회화 병변이 관찰되었다(Fig. 3).

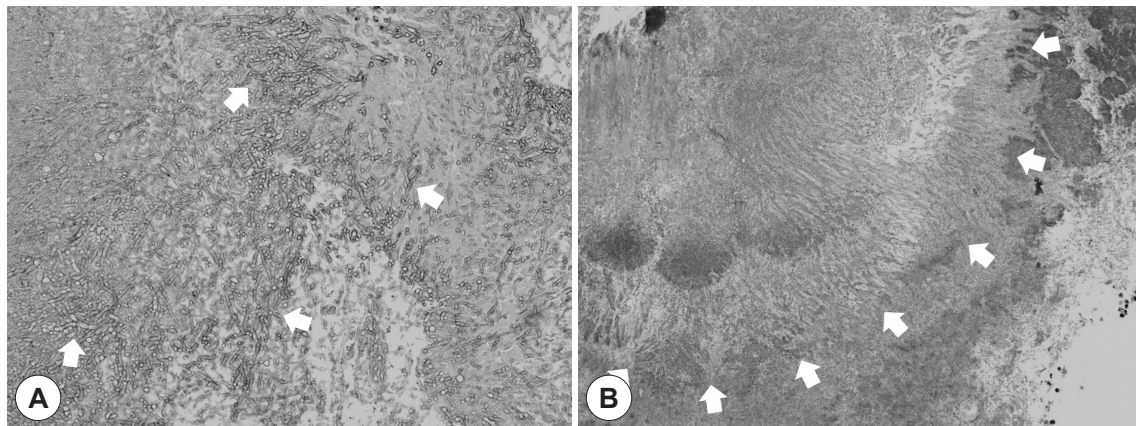
진균성 부비동염이 의심되어 부비동 내시경 수술을 계획하였다. 내시경을 이용한 비내 수술 중 중비도 상악동 개방술(middle meatal antrostomy)을 시행하자 상악동 내부로 회색 또는 녹색의 진흙 성상의 덩어리와 화농성 분비물이 관찰되었다. 이를 모두 제거하자 상악동 점막의 비후 및 염증성 변화 소견이 관찰되었다. 전사골동 절제술(anterior ethmoidectomy)을 시행하는 중에도 전사골동 내부로 동일하게

진흙 양상의 진균구가 관찰되어 모두 제거하였다. 전두동 개방술(frontal sinusotomy)까지 시행하여 상악동, 사골동, 전두동의 환기를 회복시키고 식염수로 부비동 내부를 충분히 세척한 후 수술을 종료하였다.

병리조직학적 검사상 상악동의 진균구에서는 예각으로 분지하며 내부에 중격(septate)을 가지고 있는 국균의 균사가 확인되었다(Fig. 4A). 또한 상악동과 사골동의 진균구로 생각되어 조직검사를 시행한 것으로부터 방선균증의 소견인 유황과립(sulfur granule)과 방사형 미세섬유(radiating microfilaments)가 함께 관찰되었으며(Fig. 4B), 상악동, 사골동의 점막에서 시행한 조직검사는 만성 염증 소견이 보였다.



**Fig. 3.** Preoperative finding of case 2. Paranasal sinus coronal CT scan images of case 2. It shows focal calcified lesion (white arrow) and soft tissue density of right anterior ethmoid sinus (A) and maxillary sinus (B).



**Fig. 4.** Pathologic findings of case 2. The fungal ball from right maxillary sinus and ethmoid sinus shows branching septate hyphae of *Aspergillus* (white arrows)(H&E stain,  $\times 200$ )(A). There is a sulfur granule composed of radiating filaments (white arrows)(H&E stain,  $\times 200$ )(B).



수술 후 1개월 간 장기간 저용량 마크로라이드 요법(Long term, low dose macrolides, roxithromycin 150 mg qd) 시행하였고 수술 부위 이상소견 없이 경과관찰 하던 중, 수술 후 2년 3개월 쯤에 후비루와 우측 안면통을 주소로 다시 내원하였다. 재발 여부의 감별 위해 부비동 전산화 단층촬영을 시행하였으며 사골동 점막의 비후 외에 특이 소견 보이지 않았다. 3개월 간 항생제 치료(sultamicillin 375 mg tid)를 시행하였으며, 치료 후 증상 호전되어 특별한 문제 없이 2년 6개월 까지 추적관찰 하였다.

## 고 찰

방선균증은 1845년에 Von Langenbeck에 의해 처음 보고되었다. 당시에는 방선균이 진균의 균사와 유사한 형태를 가져 진균으로 생각하였으나, 이후 세균과 진균의 변이형으로 여겨지다가 최근에는 그람양성, 혐기성 세균으로 분류되었다. 방선균은 사람에서는 병원성이 낮으며 정상 세균총으로 존재하지만, 정상 점막 장벽의 손상, 면역저하환자, 포도상구균(*Staphylococcus*) 또는 연쇄상구균(*Streptococcus*)의 동반 감염 등의 위험인자가 있을 때 감염증을 일으킨다.<sup>35)</sup> 방선균증은 전체 감염증의 1% 이하로 발생하며 흉부, 복부, 골반에서도 발생할 수 있으나 구강, 경부 및 안면 등의 두경부 영역이 전체 방선균증의 50% 이상을 차지한다.<sup>6)</sup> 그럼에도 비과 영역에서의 방선균증은 매우 드물며, 상악동에 발생하는 경우는 일반적으로 외상이나 치과 처치 후 발생한 구강 상악루를 통해 구강내 방선균이 상악동에 감염을 일으킬 수 있고, 이러한 선행 요인이 없는 경우 부비동염, 비강 폴립 또는 진균구 등이 상악동 자연공의 폐쇄를 유발하며 상악동의 환기 부전을 일으켜 혐기성 세균인 방선균의 증식을 촉진한다.<sup>7-9)</sup> 배양검사서 균주가 동정될 확률이 50% 미만으로 확진을 위해서는 병리조직학적 소견이 중요하다. 중심부의 화농성 괴사, 주변부의 육아조직과 섬유화가 관찰되며 세균 집단이 방사형 미세섬유(radiating microfilaments) 형태로 모여 있고 이를 염증세포가 둘러싸고 있는 유황과립(sulfur granule)이 방선균증의 특징적인 소견이다.<sup>37)</sup> 따라서 드문 질환이기는 하나 이비인후과 영역에서도 병력과 임상증상에 따라 방선균증을 의심하고 적절한 병리조직학적 검사를 시행하는 것이 필요하다.

국균에 의한 진균성 부비동염은 방선균증에 비해 상대적으로 흔하게 관찰되는 질환이며 최근에는 진단 기술 발달, 당뇨 등 대사성 질환의 증가, 항생제 남용 등의 영향으로 전 세계적으로 발병률이 점차 증가하고 있다. 국균증과 방선균

증은 유사한 임상 증상을 나타내며 부비동 전산화 단층촬영에서도 연부조직 음영을 동반한 국소적인 석회화 병변으로 유사한 소견을 보인다.<sup>311)</sup> 부비동에 발생하는 국균증은 우선 유발인자를 조절하고 수술적으로 진균구를 잔존 없이 완전히 제거하여 치료한다.<sup>10)</sup> 반면에 방선균증은 수술적 치료와 약물적 치료가 동반되어야 하는데 방선균이 감수성을 보이는 penicillin, chloramphenicol, tetracyclines, macrolides, clindamycin, imipenem, streptomycin, cephalosporin 등의 항생제를 사용한다.<sup>8)</sup> 하지만 치료 방법이나 기간은 감염 부위나 범위에 따라 달라질 수 있으며 아직 명확하게 설정된 지침은 없다. 부비동에 발생한 방선균증은 임상 증상이나 부비동 전산화 단층촬영, 수술 중 소견만으로는 국균증과의 감별이 어렵고 대부분 병리조직학적 소견으로 진단된다. 따라서 수술 중 관찰되는 진균구 또는 종물에 대하여 반드시 병리조직학적 검사 및 배양검사를 시행하여야 하며, 수술 후에도 증상의 호전이 느리거나 증상의 호전과 악화가 항생제 치료의 시작과 중단에 밀접한 관계를 보이는 경우 방선균증을 의심해보아야 한다.<sup>78)</sup> 위에 제시한 두 증례는 진균구에 의해 발생한 부비동의 환기 장애로 형성된 부비동내 혐기성 환경이 비강 내 정상세균총에 존재하던 방선균의 증식에 영향을 주었을 것으로 추정된다. 두 증례 모두 조직검사서 점막 침범이 없는 비침습성 병변으로 진단되었기에 만성부비동염의 치료에 준하여, 술 후 내시경 소견에 따라 1~3개월 간 장기간 저용량 마크로라이드 요법을 시행하였고, 재발을 보인 증례 2에 한해서만 방선균증에 대한 항생제(Sultamicillin)를 사용하였다. 국균증에 동반된 방선균증이 비침습성 병변인 경우에는 진균구와 병변의 완전한 수술적 제거 및 경구 항생제로도 치료가 가능하였으며 두 증례 모두 장기적으로는 재발 없이 치료를 종료하였다.

중심 단어 : 방선균증 · 국균증 · 진균구 · 부비동.

## REFERENCES

- 1) Könönen E, Wade WG. Actinomyces and related organisms in human infections. Clin Microbiol Rev 2015;28(2):419-42.
- 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) Kim SJ, Lee EJ, Lee JH, Bae WY. A Case of Aspergillosis and Actinomycosis of Each Side of Maxillary Sinuses. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2017;60(9):471-4.
- 4) Pagella F, Matti E, De Bernardi F, Semino L, Cavanna C, Marone P, et al. Paranasal sinus fungus ball: diagnosis and management. Mycoses 2007;50(6):451-6.
- 5) Vinay BH, Mohan A, Haritha P, Lakshmi KR. A rare coexistence of

- aspergillosis with actinomycosis. *J Oral Maxillofac Pathol* 2017; 21(2):277-81.
- 6) Lee JH, Jun KH, Yun KJ. A Case of Actinomycosis of Maxillary Sinus. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2007;50(1):80-2.
- 7) Roth M, Montone KT. Actinomycosis of the paranasal sinuses: a case report and review. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;114(6):818-21.
- 8) Kim BS, Kim KS, Choi JS. A Case of Actinomycosis of the Maxillary Sinus Accompanied with Fungal Ball. *J Rhinol* 2010;17(1):57-9.
- 9) Damante JH, Sant'Ana E, Soares CT, Moreira CR. Chronic sinusitis unresponsive to medical therapy: a case of maxillary sinus actinomycosis focusing on computed tomography findings. *Dento-maxillofac Radiol* 2006;35(3):213-6.
- 10) Choi JW, Lee TB, Hwang SH, Kim BH. A Rare Case of Actinomycosis in Nasal Cavity with *Aspergillus* Sinusitis. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40(12):1844-7.
- 11) Woo HJ, Bae CH, Song SY, Choi YS, Kim YD. Actinomycosis of the paranasal sinus. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;139(3):460-2.
- 12) Cardoso IC, de Mattos Oliveira F, Hochhegger B, Severo LC. Sphenoid sinus fungus ball by filaments of actinomycetes and *Aspergillus fumigatus*. *Mycopathologia* 2015;179(5-6):471-3.