

수 차례 재발한 스파르가눔증으로 치료를 받았던 환자에서 발생한 폐 스파르가눔증 1예

분당제생병원 ¹내과, ²흉부외과, ³병리과

오윤정¹, 김미진¹, 조준형¹, 차치운¹, 김도훈¹, 오미정¹, 진재용¹, 최성실², 권계원³

A Case of Pulmonary Sparganosis in a Patient with a History of Recurrent Sparganum Infections

Yun-Jung Oh, M.D.¹, Mi-Jin Kim, M.D.¹, Jun-Hyung Cho, M.D.¹, Chi-Woon Cha, M.D.¹, Do-Hoon Kim, M.D.¹, Mi-Jung Oh, M.D.¹, Jae-Yong Chin, M.D.¹, Sung-Sil Choi, M.D.², Kye-Won Kwon, M.D.³

Departments of ¹Internal Medicine, ²Thoracic Surgery, ³Pathology, Bundang Jesaeng General Hospital, Daejin Medical Center, Seongnam, Korea

Sparganosis is a zoonosis caused by the migrating larvae of cestode genus *Spirometra*. We report a rare form of sparganosis that invades the lung. A 44-year-old man presented with newly appeared pulmonary nodules that were found accidentally on regular medical checkup, and on sequential chest CT, which we checked at an interval of every 2 months, revealed that the pulmonary lesion had migrated. The patient had a medical history of having undergone surgical excisions for sparganosis in muscles and in subcutaneous tissues of the lower abdomen, perianus, thigh, right axilla, and scapula area, several times over 7 years. A right middle lobectomy was performed and the lesion was diagnosed as sparganosis based on the characteristic histological findings.

Key Words: Lung, Sparganosis, Recurrence

서 론

스파르가눔(sparganum)은 의엽조충류(pseudophyllidean tapeworm)의 일종인 열두조충류(*Spirometra* spp.)의 충미충(plerocercoid)을 말한다¹. 스파르가눔증(sparganosis)은 이 유충이 인체에 침입하여 발생하는 질환으로, 전세계적으로 광범위하게 분포하고 있으나, 그 중 상당수의 인체감염의 예가 한국, 일본, 중국을 비롯한 동남아시아에서 보고되었다². 기생 부위는 피하조직이 가장 많고, 주로 복벽, 대퇴부, 음낭, 하지 등을 침범하며 드물게는 안와, 뇌, 척수 등을 침범하는 경우도 있다^{3,6}. 흉강

도 드문 발생 부위 중 하나로, 폐 스파르가눔증의 예는 문헌상 태국에서 1예, 일본에서 1예, 국내에서도 1예만이 보고되었을 뿐이다^{7,9}.

저자들은 임상증상 없이 흉부 방사선 사진상 보이는 이동성 종괴로 검사 중이던 환자에서 폐 스파르가눔증을 진단한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 이○○, 남자, 44세

주 소: 흉부 X-선 사진 상 보이는 1 cm 크기의 결절
현병력: 환자는 내원 1개월 전 직장에서 건강검진의 목적으로 시행한 흉부 X-선 사진에서 1 cm 크기의 결절이 발견되어 본원 호흡기 내과 외래를 방문하였다.

과거력: 환자는 내원 7년 전 우측 가슴근에 발생한 스파르가눔증으로 수술적 절제술을 시행 받은 후, 복부와 항문

Address for correspondence: Do-Hoon Kim, M.D.
Department of Internal Medicine, Bundang Jesaeng General Hospital, 255-2, Seohyun-dong, Bundang-gu, Seongnam 463-774, Korea
Phone: 82-31-779-0387, Fax: 82-31-779-0897
E-mail: dhkim@dmc.or.kr

Received: Jul. 2, 2009

Accepted: Aug. 11, 2009

주위, 좌·우 대퇴부, 우측 견갑부의 근육과 피하조직에 지속적으로 스파르가눔증이 재발하여 총 6차례 본원 외과에서 수술적 절제술을 시행 받았다(Table 1). 그 외 호흡기 질환의 기왕력은 없었다.

가족력: 특이 사항 없었다.

사회력: 20년 전 군복무 시 특수전 요원으로 근무하면서 뱀, 개구리 등을 생식한 기왕력이 있는 환자로서, 자영업자이며 35갑년의 흡연자였다.

신체검사 소견: 입원 당시 활력 징후는 혈압이 130/80 mmHg, 맥박수는 72회/분, 호흡수는 20회/분, 체온은 36.1°C였으며, 의식은 명료하였고 급성 병색 소견은 없었다. 흉부 청진 및 심음은 정상이었고, 항문 주위에 작은 종괴와 누공이 관찰되었으며, 이외 촉진되는 종괴나 임파절은 없었다.

검사실 소견: 말초혈액 검사상 백혈구 10,000/mm³ (호중구 46.3%, 림프구 45.2%, 호산구 5.6%)로 호산구 증가 소견은 없었고, 혈색소 15.7 g/dL, 혈소판 240,000/mm³였으며, 혈청 총 면역글로불린 E (IgE)는 732.80 IU/mL로 증가되어 있었다. 생화학 검사상 aspartate aminotransferase (AST) 29 IU/L, alanine aminotransferase (ALT) 27 IU/L, 알칼리 인산분해효소(alkaline phosphatase) 184 IU/L, 총 빌리루빈(total bilirubin) 0.54 mg/dL였으며, 기생충 특이 항체에 대한 효소면역측정법(enzyme-linked immunosorbent assay, ELISA)상 항 폐흡충, 간흡충 IgG 항체에 대해서는 모두 음성이었었고, 항 스파르가눔 IgG 항체는 양성이었다. 대변 검사상 기생충이나 충란은 발견되지

않았다.

방사선학적 소견: 호흡기 내과 외래 내원 당시 시행한 흉부 CT에서는 우중엽에 각각, 1 cm 크기 내외의 2개의 소엽화된 경화성 병변들이 종격동에 연하여 관찰되었고 병변 주위로는 비교적 넓은 젓빛 유리 음영(ground glass opacity)의 혼륜(halo)을 동반하고 있었다. 2개월 후 추적 검사한 CT에서는 이전에 보였던 병변들은 호전되어 보이지 않았고, 위치가 이동하여 새로운 부위에 가늘고 긴 모양의 경화성 병변이 새로이 발견되었다(Figure 1).

조직병리학적 소견: 우중엽 절제술로 얻어진 조직은 육안적으로 검체의 중앙에는 2.5×1.5×1 cm 크기의 경계가 명확하지 않은 노랑고 하얀 빛을 띤 괴사가 관찰되었다. 현미경적 소견으로는 중심부의 괴사와 소수의 흩뿌려진 석회소구(calcospherules)를 동반한 만성 육아종성 염증이 관찰되었으며, 이는 기생충 감염, 특히 스파르가눔증에 합당한 소견이었다(Figure 2).

경과: 환자는 본원에서 1차 흉부 CT 시행 후 타 병원 진료를 위하여 전원하였으나, 이후 타 병원 진료를 받지 않고 지내다가 2개월 후 본원 호흡기 내과 외래를 재차 방문하였고 추적 흉부 CT를 촬영하였다. 저자들은 방사선학적으로 보이는 이동성 병변과 스파르가눔증이 수차례 재발하였던 환자의 과거력을 바탕으로 폐 스파르가눔증을 의심하였으며, 이에 대한 치료의 목적으로 시험적 개흉술을 시행하여 우중엽 절제술을 시행하였고, 항문 주위의 작은 종괴와 누공에 대해서 외과와 협진하여 누공절제술을 함께 시행하였다. 수술적 절제로 얻은 폐 조직에서 스

Table 1. Summary of past medical history

	Clinical symptoms	Sites involved	Diagnostic findings	Treatment
First attack (July 2002)	Palpable mass	Right pectoralis muscle and adjacent subcutaneous tissue	One dead sparganum	Surgical excision
Second attack (August 2003)	Multiple painful and palpable masses	Subcutaneous tissues of right lower abdomen, perianus, left thigh	Pathological findings, consistent with sparganosis	Surgical excision
Third attack (January 2005)	Painful palpable mass	Subcutaneous tissue of perianus area	Necrotized sparganum encapsulated with fibrous tissue	Surgical excision
Forth attack (January 2008)	Painful swelling and palpable mass	Subcutaneous tissue of right thigh, anus	One alive sparganum	Surgical excision
Fifth attack (November 2008)	Painful palpable mass	Muscle and subcutaneous tissue of left thigh	Pathological findings, consistent with sparganosis	Surgical excision
Sixth attack (January 2009)	Palpable mass	Subcutaneous tissue of right scapular area	One alive sparganum	Surgical excision

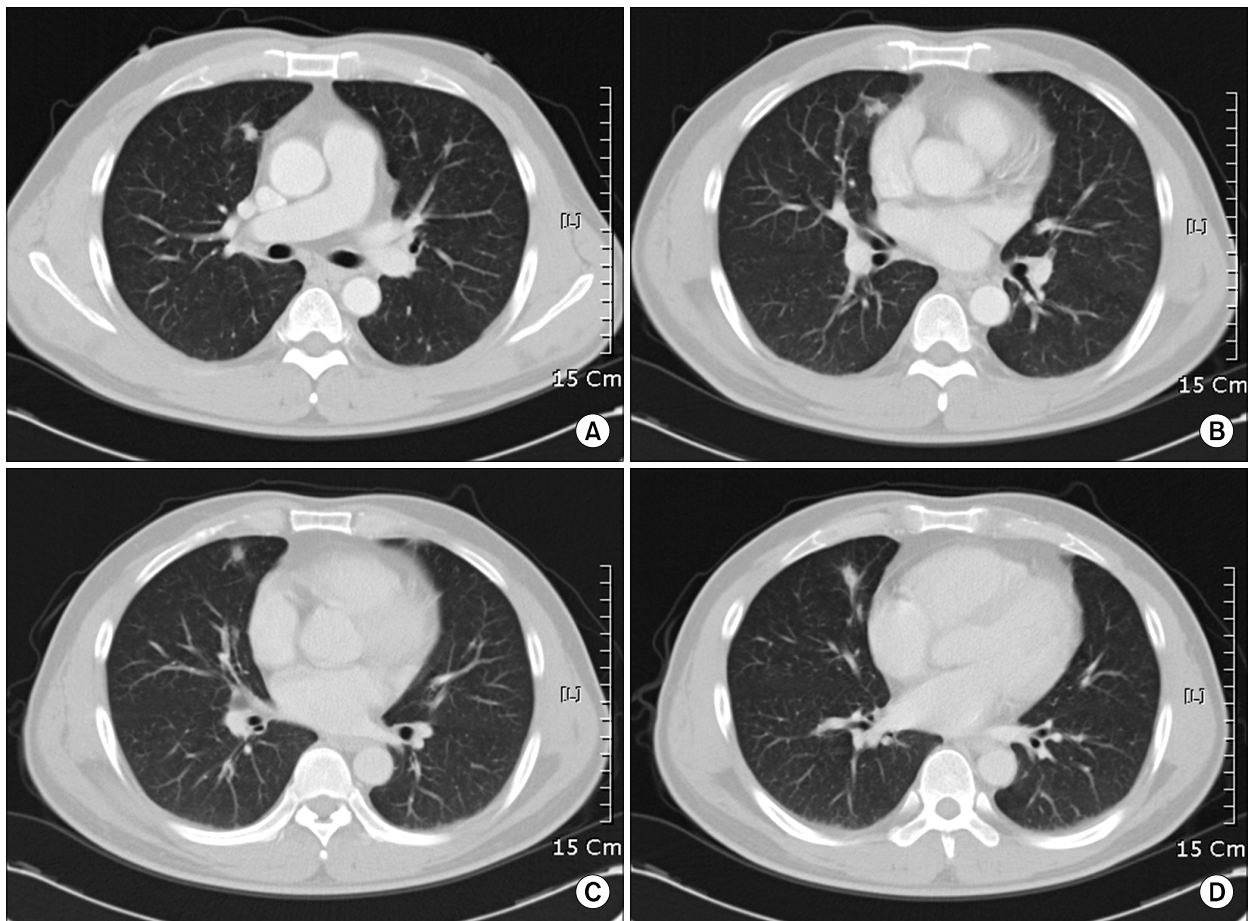


Figure 1. Initial chest CT scan shows about 1 cm sized two lobulated consolidative lesions with peripheral ground glass opacity and halo on right middle lobe that is adjacent to mediastinum (A, B). A follow-up chest CT scan reveals newly appeared elongated consolidations on a different site of right middle lobe with disappearance of previous lesions compared with initial scan, suggesting the lesions have a fleeting nature (C, D).

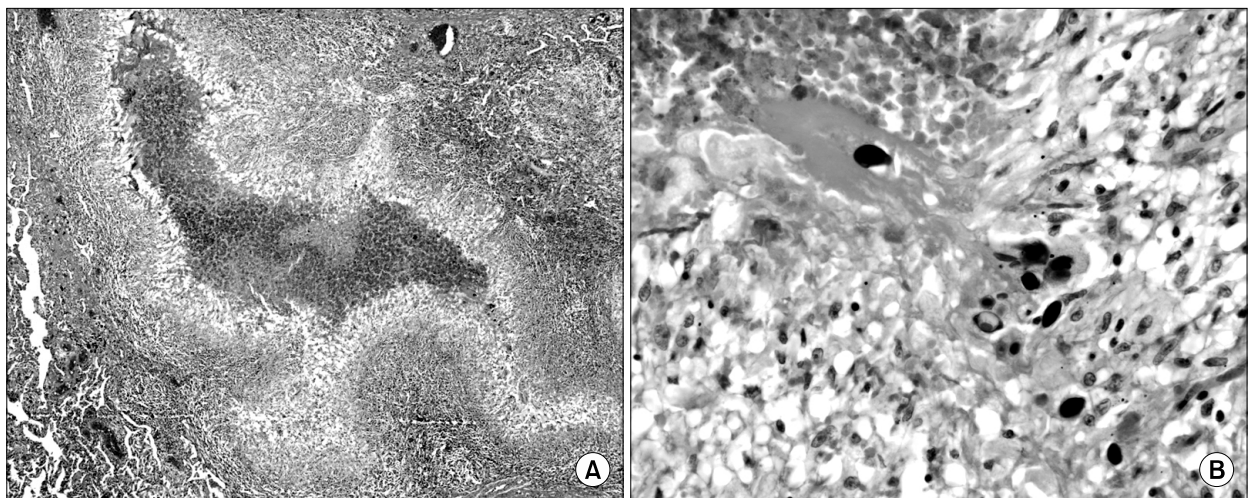


Figure 2. (A) An elongated necrotic material surrounded by palisading granulomatous reaction is noted (H&E stain, $\times 40$). (B) A few lamellated calcospherules are found in the necrotic material (H&E stain, $\times 400$).

파르가눔증의 특징적인 조직병리학적 소견을 확인함으로써 폐 스파르가눔증을 진단하였으며, 환자는 수술 후 별다른 합병증 없이 퇴원하였다. 이후 환자는 4개월째 재발의 징후 없이 본원 외과 외래에서 추적 관찰중이다.

고 찰

열두조충류의 충미충인 스파르가눔은 리본형으로 가늘고 길며, 유백색의 납작한 형태와 위결절을 가진 기생충으로 길이는 3~4 cm에서 60~80 cm까지 다양하며 개나 고양이로 종숙주로 한다. 스파르가눔의 일반적인 생활사를 보면, 먼저 종숙주에서 대변과 함께 충란이 배출되면 수중에서 부화하여 유구유충(coracidium)이 되고 이는 제 1 중간숙주인 물벼룩(cyclops)에 섭취된 후 원미충 유충(proceroid larva)으로 성장하게 된다. 원미충 유충에 감염된 물벼룩이 제 2 중간숙주인 개구리, 뱀 등에 섭취되면 충미충 유충(스파르가눔)으로 성장하게 되며 종숙주인 개, 고양이 등에 침입하여 성충으로 성장한다. 사람은 주로 중간숙주의 역할을 하는데, 충미충 유충이 섭취되면 장내에서 성충으로 발육하지 못하고 장벽을 뚫고 조직으로 이행함으로써 인체 스파르가눔증이 발생한다¹⁰.

인체로의 감염경로는 첫째, 원미충에 감염된 물벼룩으로 오염된 물을 마시거나, 둘째, 충미충 유충(스파르가눔)에 감염된 제 2 중간숙주인 개구리나 뱀 등을 생식하였을 때이며, 그 밖에 조리사의 손 혹은 식기 등에 부착된 충미충에 의해 우연히 감염될 수도 있다^{2,3}. 본 증례의 경우는 개구리, 뱀 등을 생식함으로써 충미충 유충에 감염된 것으로 생각된다.

기생 부위는 피하조직이 가장 많고 그 중 복부, 하지, 음낭 등이 흔하며, 안와, 뇌, 척수, 폐 등의 장기에 드물게 발생하기도 한다^{3,9,11}. 임상적으로 대부분 서서히 자라고, 압통이 있고 이행하는 피하 결절을 보이며, 감염 부위에 이물감, 가려움, 염증 소견을 보이고, 장 천공을 일으켜 복막염을 일으키기도 하고, 뇌 및 신경계를 침범하는 경우 간질, 발작, 하반신 마비 등을 일으키기도 한다^{2,3}.

스파르가눔증은 비증식형(nonproliferative)과 증식형(proliferative)으로 나누는데, 비증식형은 천천히 자라고 번식을 하지 못하는 반면 증식형은 분지(branching)와 분아(budding)에 의해 성장할 수 있고 증식이 가능하여 한 피막 내에 여러 개의 충체가 있으며 골조직을 제외한 전 장기를 침범할 수 있어 치사율이 높지만 매우 드문 것이 특징이다¹². 국내 및 국외에서 보고되는 증례의 대부분이

비증식형으로, 비증식형 스파르가눔증에서 폐를 침범한 경우는 매우 드물다.

Hur 등⁹이 보고한 국내 폐 스파르가눔증의 증례에서는 환자가 호흡기적 임상 증상을 동반하였던 것에 비해, 본 증례의 환자는 무증상인 상태에서 흉부 방사선 사진의 이동성 종괴로 인해 진단된 경우이다. 또한 대부분의 국내 및 국외 증례의 경우 각 장기에서 단발성으로 발생하였던 스파르가눔증에 대한 보고는 많았으나, 질환 발생자의 장기 추적 결과에 대한 보고는 없고, 국내에서 드물게 동일 환자에서 세 차례 재발한 다수의 스파르가눔 충체가 발견되었던 비전형적인 스파르가눔증에 대한 증례 보고가 있었을 뿐이다¹¹. 본 증례의 환자는 7년에 걸쳐 총 6차례의 스파르가눔증이 하복부, 대퇴부, 겨드랑이와 견갑부 등의 피하조직 및 근육에서 발생하여 수 차례의 외과적 절제술을 받은 후 폐에서 질환이 재발하였다.

스파르가눔증의 진단은 환자의 임상 증상과 개구리나 뱀 등을 생식한 경험이 있으면 의심해 볼 수 있고, 확실한 진단은 충체를 외과적으로 적출한 후에야 가능하다. 충체를 외과적으로 적출하지 못하더라도 적출된 조직 내에서 변형된 충체를 발견하거나 특이한 조직반응이 관찰되는 병리소견이 있으면 진단이 가능하다. 스파르가눔증은 병리조직학적으로 충체가 빠져나간 후에 생긴 불규칙한 모양의 공동과 괴사성 및 육아종성 염증 반응이 특징적이다^{3,13}. 그리고 일반적인 염증성 병변과 다르게 이러한 공동들은 대개 비어있고 공동의 내면은 유충의 이동에 따른 톱니 모양의 내연을 형성하여 특징적인 zonal phenomenon을 나타낸다^{3,12}. 또한 기생기간이 오래 경과할수록 호산구, 상피세포 및 림프구 등의 세포 침윤을 유발하고 만성 감염으로 충체가 죽으면 병소는 석회화된다^{3,13}. 본 증례의 경우 스파르가눔증을 의심할 수 있었던 병리조직학적 증거로 중심부의 괴사와 석회소구(calcospherules)를 동반한 만성 육아종성 염증소견이 있었다. 그 외 병리 소견만으로 감별이 어려운 경우에는 혈청학적 진단법이 사용될 수 있는데, 그 중에서 ELISA가 특이 IgG 항체가의 상승을 나타내므로 진단 및 수술 후 추적 검사로 사용될 수 있다¹⁴.

치료는 외과적 절제술이 가장 확실한 방법이고, praziquantel이나 mebendazole의 경구 투여 및 환부에 procaine과 40% ethylalcohol을 주입하고 충체의 사멸과 흡수를 기다리는 방법이 있다³. 하지만 다수 감염 시에는 외과적 치료가 어려울 수 있으며, praziquantel 투여의 경우 두절 및 경부 일부가 약제에 저항하여 후에 반드시 재발한다는 것이 알려져 있다¹⁵.

본 저자들은 수 차례 외과적 절제술을 받았음에도 지속적으로 스파르가눔증이 재발한 환자에서 발생한 폐 스파르가눔증을 경험하였기에 이를 보고한다.

참 고 문 헌

1. Mueller JF. The biology of *Spirometra*. *J Parasitol* 1974; 60:3-14.
2. Cho SY, Bae JH, Seo BS. Some aspects of human sparganosis in Korea. *Korean J Parasitol* 1975;13:60-77.
3. Lee BJ, Ahn SK, Kim SC, Lee SH. Clinical and histopathologic study of Sparganosis. *Korean J Dermatol* 1992;30:168-174.
4. Mougeot G, Cambon M, Menerath JM, Dimeglio V, Houin R. Human eye anterior chamber sparganosis. *Parasite* 1999;6:365-7.
5. Jeong SC, Bae JC, Hwang SH, Kim HC, Lee BC. Cerebral sparganosis with intracerebral hemorrhage: a case report. *Neurology* 1998;50:503-6.
6. Lo YK, Chao D, Yan SH, Liu HC, Chu FL, Huang CI, et al. Spinal cord proliferative sparganosis in Taiwan: a case report. *Neurosurgery* 1987;21:235-8.
7. Phunmanee A, Boonsawat W, Indharapoka B, Tuntisirin C, Kularbkeaw J. Pulmonary sparganosis: a case report with five years follow-up. *J Med Assoc Thai* 2001; 84:130-5.
8. Iwatani K, Kubota I, Hirotsu Y, Wakimoto J, Yoshioka M, Mori T, et al. Sparganum mansonii parasitic infection in the lung showing a nodule. *Pathol Int* 2006;56:674-7.
9. Hur J, Lee SC, Lee CY. Pulmonary sparganosis: a case report. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2003;36:43-6.
10. Beaver DC, Jung RC, Cupp EW. *Clinical parasitology*. 9th ed. Philadelphia: Lea & Febiger; 1984.
11. Cho BK, Chun CS, Choi WY, Cho SY. A case of unusual sparganosis. *Korean J Dermatol* 1985;23:672-7.
12. Brown HW, Neva FA. *Basic clinical parasitology*. 5th ed. Norwalk: Appleton-Century-Crofts; 1983.
13. Chi JG, Chi HS, Lee SH. Histopathologic study on human sparganosis. *Korean J Parasitol* 1980;18:15-23.
14. Wang KC, Huh S, Hong ST, Chai JY, Choi KS, Lee SH. The fate of spargana inoculated into the cat brain and sequential changes of anti-sparganum IgG antibody levels in the cerebrospinal fluid. *Korean J Parasitol* 1990;28:1-10.
15. Chai JY, Yu JR, Lee SH, Kim SI, Cho SY. Ineffectiveness of praziquantel treatment for human sparganosis (a case report). *Seoul J Med* 1988;29:397-9.