

# 당뇨병 환자에서 방선균에 의한 안와골막하농양 치료 1예

박종은<sup>1</sup>, 강재빈<sup>1</sup>, 박현영<sup>1</sup>, 안지연<sup>1</sup>, 신재호<sup>2</sup>, 이건희<sup>3</sup>, 조인진<sup>1</sup>, 황유철<sup>1</sup>, 안규정<sup>1</sup>, 정호연<sup>1</sup>, 정인경<sup>1</sup>  
경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 내분비대사내과<sup>1</sup>, 안과<sup>2</sup>, 이비인후과<sup>3</sup>

## A Case of Actinomycosis of an Orbital Subperiosteal Abscess in a Patient with Type 2 Diabetes Mellitus

Jong Eun Park<sup>1</sup>, Jae Bin Kang<sup>1</sup>, Hyun Young Park<sup>1</sup>, Ji Yeon Ahn<sup>1</sup>, Jae-Ho Shin<sup>2</sup>, Kun Hee Lee<sup>3</sup>, In-Jin Cho<sup>1</sup>, Yoo-Cheol Hwang<sup>1</sup>, Kyu-Jeung Ahn<sup>1</sup>, Ho-Yeon Chung<sup>1</sup>, In-Kyung Jeong<sup>1</sup>

Departments of <sup>1</sup>Endocrinology and Metabolism, <sup>2</sup>Ophthalmology, and <sup>3</sup>Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, Seoul, Korea

### Abstract

Orbital and paranasal actinomycosis have not been commonly reported. We report a case of this uncommon infection, which was improved after endonasal endoscopic drainage and antibiotics. A 53-year-old woman with type 2 diabetes mellitus complained of inability to lift her right upper eyelid and painful swelling over the preceding two days. Broad-spectrum antibiotics did not resolve her lesion. In ophthalmic examination, decreased visual acuity, upper and medial gaze limitation, and a relative afferent pupillary defect of her right eye were observed. Computed tomography of the orbit showed aggravated orbital cellulitis, preseptal cellulitis, subperiosteal abscess, and maxillary and ethmoid sinusitis. After endonasal endoscopic drainage and systemic antibiotics, her clinical symptoms dramatically improved. Microbiological analysis of the maxillary excisional biopsy showed Actinomycosis. This case is of interest due to the rare orbital presentation of actinomycosis infection and the importance of appropriate surgical drainage and long-term antibiotics treatment in such cases. Because delayed diagnosis and treatment of rhino-orbital actinomycosis can cause permanent vision loss or intracranial abscess, it requires careful clinical attention.

**Keywords:** Actinomycosis, Orbital cellulitis, Type 2 diabetes mellitus

Corresponding author: In-Kyung Jeong

Department of Endocrinology and Metabolism, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, Kyung Hee University School of Medicine, 892 Dongnam-ro, Gangdong-gu, Seoul 05278, Korea, E-mail: jik1016@naver.com

Received: Oct. 14, 2015; Revised: Oct. 27, 2015; Accepted: Dec. 1, 2015

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2016 Korean Diabetes Association

## 서론

안와 연조직염(orbital cellulitis)은 안와 조직 내에 발생하는 급성 화농성 염증을 말하며 안와와 부비동의 해부학적 인접성으로 인하여 통상 부비동의 염증이 직접 안와 조직으로 파급되게 되는 경우가 대부분이다[1]. 급성 부비동염은 임상에서 비교적 흔히 접할 수 있는 질환이며 대개는 합병증 없이 잘 치료가 되지만 안와 염증을 일으키는 원인의 75%를 차지한다.

방선균증(Actinomycosis)을 유발하는 *Actinomyces israelii*는 그람 양성 혐기성균으로 주로 구강과 위장관 및 여성의 자궁경부 등에 분포하는 정상균무리이다. 이러한 방선균은 일반적으로 병원성이 약하지만 불결한 구강 위생, 면역저하, 과도한 음주 등의 소인이 있을 때 인체감염을 잘 일으키게 된다[2]. 방선균의 치료로는 경험적 항생제 사용을 시작하는데 감염이 경할 경우 경구로, 중할 경우는 정맥으로 투여한다. 항생제는 경험적으로 amoxicillin/clavulanate나 경구 penicillin V를 2~6개월 사용한다. 경험적 항생제 사용으로 임상증상의 호전이 없을 경우 수술적 치료를 고려한다.

본 증례와 같이 당뇨병 환자에서 방선균증이 함께 존재하는 증례는 1990년부터 2014년까지 전세계적으로 약 20예가 보고되었으며, 이중 6예에서는 두경부에서 발생한 것으로 보고되었지만[3-8], 본 증례처럼 안와 연조직염을 일으킨 경우는 아직 보고되지 않았다. 이에 저자들은 한쪽 눈의 발



**Fig. 1.** Right orbital ptosis and reddish swelling of the upper lid on presentation due to right orbital cellulitis.

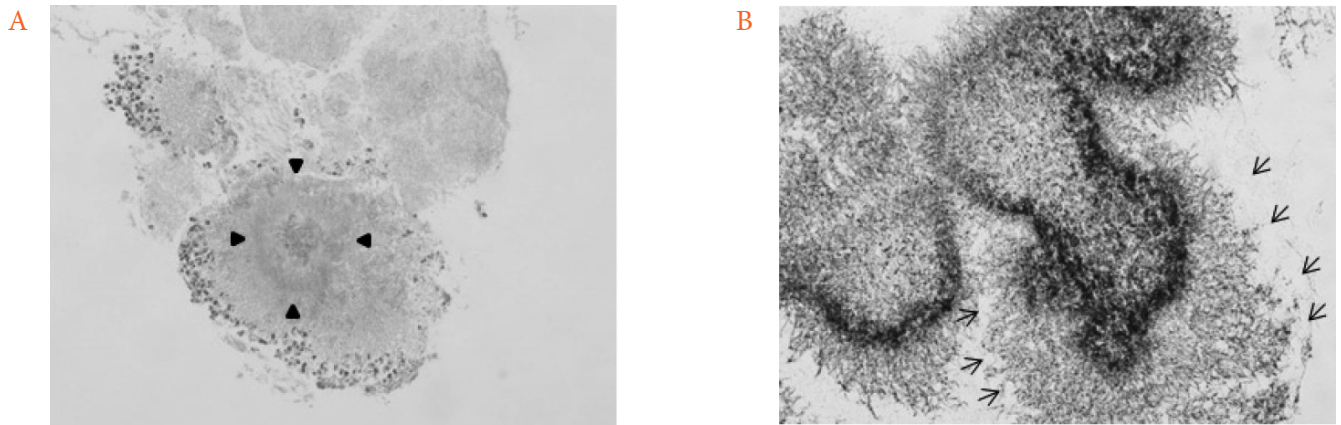
적을 동반한 안와부종이 있는 당뇨병 환자에서 부비동염과 안와 연조직염이 방선균증임을 확인하였고, 이를 수술적 치료 및 항생제 치료를 통해 호전시켰기에 보고한다.

## 증례

당뇨병이 있는 53세 여자환자가 내원 2일 전부터 발생한 오른쪽 눈꺼풀 통증과 눈이 떠지지 않을 정도의 심한 부종 때문에 내분비내과 외래로 왔다(Fig. 1). 본원 방문 전에 인근 병원에서 cefdinir를 처방 받아 복용하였으나 눈꺼풀 통증이 더 심해지며 발적 및 부종도 더 진행되었다고 하며 구강 위생상태 좋지 않았다. 환자는 10년 전 당뇨병을 진단받았으며, 그 외에도 고혈압 및 조현병이 있어 약제복용 중이었다. 그 외 사회력과 가족력에서 특이 사항은 없었다. 내원 당시 시행한 활력 징후는 혈압 147/81 mm Hg, 맥박 76회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.4℃였다. 신체검사서 의식은 명료하였으나 급성 병색을 보였고 오른쪽 눈꺼풀에 발적을 동반한 부종이 있었으며 촉진 시 통증을 호소하였다. 전혈검사에서 백혈구 14,700/mm<sup>3</sup>, 혈색소 12.7 g/dL, 혈소판 282,000/mm<sup>3</sup>였다. 생화학검사는 C-반응성 단백질 13.3 mg/dL로 증가되어 있었고, 당화혈색소 6.6%, 혈액의 포도당 농도는 143 mg/dL로 측정되었으며, 간기능 및 신기능 모두 정상 소견이었으며, 혈액응고검사, 소변검사, 흉부엑



**Fig. 2.** Orbital computed tomography scan showed preseptal cellulitis, ethmoidal sinusitis, maxillary sinusitis, and a subperiosteal abscess on the right side.



**Fig. 3.** (A) Microbiological analysis of the nasal abscess showed a small cluster of Actinomycosis with surrounding mixed inflammation and Splendore-Hoeppli phenomenon (arrowheads), (B) filamentous Actinomyces (arrows). (A) H&E,  $\times 100$ , (B) Gomori Methenamine silver stain,  $\times 400$ .

스션촬영, 심전도검사도 모두 정상이었다. 환자의 혈당조절은 metformin 850 mg을 하루 2회 복용하고 있었으며, 공복 혈당 110 mg/dL 내외, 식후 2시간 혈당 140~170 mg/dL로 유지되고 있었다.

오른쪽 눈꺼풀의 발적을 동반한 부종에 대해서 입원 후 안과 진료의뢰를 하였다. 안과검사에서 우안 시력 안전수치는 30 cm로 저하되어 있었고 우안에서 상방 및 내측 주시 때 안구운동 장애와 상대적 구심성 동공운동장애가 관찰되었으며 우안 교정시력은 환자 눈 뜨기 힘들어하였으며 흐리게 보인다고 측정 거부하여 측정하지 못하였다. 안와 컴퓨터전산화단층촬영(computed tomography, CT)을 시행한 결과, 오른쪽 치관 내 공간의 벽쪽 연부조직 부종과 지방침윤, 사골 부비동염에 의한 오른쪽 안와 골막하농양(subperiosteal abscess), 오른쪽 전두부, 사골, 상악동 부비동염이 관찰되었다(Fig. 2). 이에 경험적 항생제로 cefazolin, metronidazole 정맥투여를 시작하였으며 동시에 혈액배양검사를 시행하였다. 혈액배양검사서 균주는 검출되지 않았고 치료 72시간까지도 환자는 임상적 호전을 보이지 않아 이비인후과에 진료를 의뢰하였다. 이비인후과 진찰결과, CT 소견과 동일하게 우측 비강내 측벽의 종창과 화농성 비루가 관찰되었다. 이에 우측 내시경 부비동 수술(endonasal endoscopic drainage)을 시행하였으며 비강 및 부비동 절제 생검 후 시행한 병리학적 소견상 방선균이

검출되었다(Fig. 3). 수술 1주일 후 안과검사서 우안 교정 소수시력 0.3으로 측정되었고 환자 주관적인 증상 및 안구운동장애와 상대적 구심성 동공운동장애도 호전되었다. 이에 경구항생제인 amoxicillin/clavulanate로 변경하여 치료를 하였다. 이후 항생제는 총 107일 유지하였으며 추적관찰을 위해 1개월, 2개월 4개월째 부비동 내시경검사를 실시하였으며 이상소견을 보이지 않았고 임상적 호전을 보여 치료 종결하였다.

## 고찰

안와 연조직염이란 여러 감염균에 의한 눈 부위의 염증을 총칭하는 말로 1970년 Chandler 등[9]은 안와 연조직염을 5가지로 분류하였다. 이는 각각 안와 주위염(periorbital cellulitis), 안와 연조직염, 안와 골막하농양, 안와 농양(orbital abscess), 해면정맥동 혈전염(carvenous thrombophlebitis)으로 총칭하였다. 이는 해부학적으로 안구의 격막을 기준으로 다시 안와 격막 전(pre-septal)과 격막 후(post-septal)로 나눌 수 있는데 전자에는 안와주위염이, 후자에는 나머지 4개가 속하게 된다[10]. 이렇게 격막을 기준으로 두 가지 군으로 분류하는 이유는 격막 전에만 국한된 안와 연조직염에 비해 격막 후방으로 진행된 안와 연조직염이 영구적인 시력손실 및 두개 내 합병증을 일으

킬 가능성이 더 높기 때문이다. 특히 안와 골막하 농양의 경우 15~30%의 환자에서 영구적인 안구 합병증일 일으킬 수 있으므로 대부분의 경우에서 수술적 절개와 배농 및 항생제 사용을 필요로 한다. 이를 위해 CT를 통하여 농양의 위치 및 크기를 파악하는 것이 중요하다[11]. 본 증례에서는 오른쪽 안와 골막하농양 관찰되었으며 그외 오른쪽 전두부, 사골, 상악동 부비동염이 관찰되었다.

이러한 안와 골막하 농양은 본 증례에서처럼 급성 부비동염에서 염증이 직접 안와 조직으로 파급되게 되는 경우 외에도 피부 감염, 패혈증, 안면부위 수술 등에서도 발생할 수 있다. 이의 위험인자로는 악성종양의 과거력, 당뇨병, 사람 면역결핍바이러스 감염, 장기이식 등이 있다[12]. 급성 부비동염에 합병되어 발생하는 안와 연조직염의 경우 그 주된 균주는 *Staphylococcus aureus*, *S. pneumoniae*, group A streptococcus, anaerobes 등이지만 당뇨병이 있거나 면역저하자인 경우에는 이와 더불어 진균 감염도 함께 고려해야 한다. 이 경우 털곰팡이증(mucormycosis), 아스페르길루스(aspergillosis) 등이 흔히 발생하는 진균감염증이다[12].

방선균은 혐기성 그람양성 간균으로 구강, 소화관, 여성의 생식기관 등에 정상 세균총으로 존재한다[13]. 이러한 방선균은 병원성이 높은 균주가 아니므로 감염을 일으키는 경우는 드물지만, 실제 의미 있는 감염을 일으킨 경우라 할지라도 이의 진행을 위해서는 방선균이 잘 번식할 수 있는 혐기성 환경이 지속적으로 조성되어야 한다[9]. 본 증례의 환자는 부비동의 심한 염증이 발생하였고, 이후 생성된 부비동의 혐기성 환경과 기저 당뇨병으로 인한 면역기능의 저하가 방선균 증식에 적합했을 것으로 생각된다. 이러한 당뇨병과 방선균증이 함께 존재하는 증례의 경우 전세계적으로 1990년부터 2014년까지 20예가 보고되었으며, 각각 두경부가 6예, 흉부가 4예, 복부가 7예, 그리고 그 외의 장기가 3예였다. 두경부의 6예에서는 각각 하악골, 하악골 주위, 후두부, 이마피부, 경구개, 편도를 침범한 것으로 보고된 적은 있지만[3-8], 본 증례처럼 당뇨병이 있는 환자에서 발생한 방선균증이 안와 골막하 농양을 포함하는 안와 연조직염을 일으킨 경우는 아직 보고된 적이 없었다.

안와 골막하 농양의 치료는 본 증례에서처럼 우선 경험적 항생제를 시작하게 된다. 일반적으로 동정 빈도가 높은 *S. aureus*, *S. pneumoniae*, other streptococcus, anaerobes 등을 대상으로 항생제를 선택하며 통상 clindamycin, trimethoprim,-sulfamethoxazole, amoxicillin/clavulanate, ampicillin/sulbactam, cefotaxime, metronidazole 등의 항생제가 사용된다[14]. 항생제는 약 7~10일간 사용하게 되나 안구의 점막 및 부종의 호전이 보이지 않는 경우 연장하여 사용한다. Garcia와 Harris [15]는 2000년에 안와 골막하 농양의 수술적 치료에 대한 적응증을 소개했는데, 시신경 압박증상, 큰 농양이 발생한 경우, 혐기성 균주 감염이 의심되는 경우 등에서는 진단 즉시 수술할 것을 권장하였다. 그리고 항생제 사용에도 불구하고 36시간 이상 발열이 지속되거나 72시간 이상 임상적 호전이 없는 경우 역시 수술할 것을 권장하였다. 본 증례의 경우에서도 위 기준에 따라 경험적 항생제 사용에도 불구하고 72시간 이상 임상적 호전을 보이지 않아 수술을 결정하였으며 수술 검체에서 혐기성 균주인 방선균이 배양되었고 이후 방선균에 적합한 항생제로 변경하였다.

요약하면, 이 증례는 안검의 통증을 동반한 발적 및 부종을 주소로 내원한 당뇨병 환자에서 부비동염과 동반되어 발생한 안와 연조직염이 경험적 항생제 치료에도 반응이 적어 수술적 치료를 시행하였으며 이후 방선균증으로 진단되어 장기간 충분한 항생제 치료를 병행한 뒤 호전된 경우이다. 이러한 당뇨병 환자에서 발생한 방선균증이 안와 연조직염을 일으킨 경우는 아주 드물며 이 경우 진단 및 치료가 늦어질 경우 영구적 시력손실이나 두개 내 합병증을 일으킬 수 있으므로 임상 의사들의 주의가 필요할 것으로 생각된다.

## CONFLICTS OF INTEREST

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.



## REFERENCES

1. Moon SW, Lee YJ, Lee YS, Jung JH. A case of simultaneous orbital cellulitis and intracranial complication. *J Korean Ophthalmol Soc* 2009;50:467-70.
2. Jung HM, Hwang YJ, Ahn YS, Youn JS, Lee MG, Kim WJ, Lee EW. Two cases of endobronchial actinomycosis that were cured by bronchoscopic removal and short-term antibiotic therapy. *Korean J Med* 2010;79:563-8.
3. de Andrade AL, Novaes MM, Germano AR, Luz KG, de Almeida Freitas R, Galvão HC. Acute primary actinomycosis involving the hard palate of a diabetic patient. *J Oral Maxillofac Surg* 2014;72:537-41.
4. Cocuroccia B, Gubinelli E, Fazio M, Girolomoni G. Primary cutaneous actinomycosis of the forehead. *J Eur Acad Dermatol Venereol* 2003;17:331-3.
5. Melgarejo Moreno PJ, Hellín Meseguer D, Gil Vélez M, Ruiz Macia JA. Primary laryngeal actinomycosis. *Acta Otorrinolaringol Esp* 1997;48:237-8.
6. Samant S, Sandoe J, High A, Makura ZG. Actinomycosis mimicking a tonsillar neoplasm in an elderly diabetic patient. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2009;47:417-8.
7. Ramos JM, Pacho E, Esteban J, Ponte MC. Paramandibular mass in a diabetic woman. *Enferm Infecc Microbiol Clin* 1993;11:105-6.
8. Davanos E, Rahman SM, Nogid B. Treatment of *Eikenella corrodens* and *Actinomyces odontolyticus* foot abscess in a penicillin-allergic patient. *Ann Pharmacother* 2008;42:1706-10.
9. Chandler JR, Langenbrunner DJ, Stevens ER. The pathogenesis of orbital complications in acute sinusitis. *Laryngoscope* 1970;80:1414-28.
10. Botting AM, McIntosh D, Mahadevan M. Paediatric pre- and post-septal peri-orbital infections are different diseases. A retrospective review of 262 cases. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2008;72:377-83.
11. Chung SW, Cho JG, Lee SH, Lee SH, Hwang SJ, Lee HM. Clinical analysis of orbital subperiosteal abscess. *J Rhinol* 2005;12:50-4.
12. EyeNet. Evaluation and management of orbital subperiosteal abscess. Available from: <http://www.aao.org/eyenet/article/evaluation-management-of-orbital-subperiosteal-abs> (updated 2009 Jul 1).
13. 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.
14. Mallika OU, Sujatha N, Smitha Narayan, Sinumol S. Orbital and preseptal cellulitis. *Kerala J Ophthalmol* 2011;23:10-4.
15. Garcia GH, Harris GJ. Criteria for nonsurgical management of subperiosteal abscess of the orbit: analysis of outcomes 1988-1998. *Ophthalmology* 2000;107:1454-6; discussion 1457-8.