

A CASE OF PELVIC ACTINOMYCOSIS MISTAKEN FOR ADVANCED OVARIAN CANCER

Jung Sun Yang, MD, Yun Hee Jeong, MD, Yun Dan Kang, MD, Jong Soo Kim, MD, Jin Wan Park, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Dankook University College of Medicine, Cheonan, Korea

Actinomycosis is a normal inhabitant of the mouth and gastrointestinal tract. Pelvic actinomycosis is a rare disease that can result in abscess formation, bowel obstruction, and other serious complications. Diagnosis can seldom be established before radical surgery because the disease often mimics pelvic neoplasms and depends on anaerobic culture or histologic identification of the organism. It has been recently recognized that pelvic actinomycosis is associated with long-term use of an intrauterine contraceptive device. But we had experienced a case of pelvic actinomycosis mimicking ovarian malignancy with a right hydronephrosis and lymph node enlargement in aortocaval and left paraaortic area in woman who did not use intra-uterine device.

Keywords: Pelvic actinomycosis

방선균은 그람양성, 비항산성, 혐기성 또는 미세호기성이고 정상적으로 피부, 구강, 편도선, 위장관 및 하부여성 생식기에 상주하는 균으로써 가장 주된 감염 균은 *Actinomyces israelii*이다[1]. 병변은 위치에 따라 경안부(50–60%), 흉부(20–25%), 복부(15–20%), 골반(5%)로 나타나고[2] 자궁 내 피임장치를 한 여성에서 8–20% 발견되었다[3]. 그 외 장 손상, 복부 수술력, 종양, 면역결핍 등이 위험인자가 될 수 있다[4]. 임상증상은 비특이적이고 점진적인 양상으로 악성종양과의 감별이 어렵고 수술 전 진단이 어렵다[5].

저자들은 자궁 내 피임장치를 사용하지 않은 여성에서 우측 수신증 및 골반 내 림프절 종대, CA-125 상승으로 진행성 부인암으로 오인된 골반 내 방선균증을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

현병력: 내원 5일 전부터 발생한 하복부통증을 주소로 개인병원에서 computed tomography (CT) 촬영 후 큰 병원 권유받아 2009년 11월 17일 내원하였다.

이학적 소견: 내원 당시 혈압 100/80 mm Hg, 체온 36.2°C, 맥박수는 분당 75회, 호흡수는 분당 20회였다. 전신 상태는 쇠약하였고 복부진찰상 하복부 압통을 호소하였다.

복부-골반 CT: 7.0×9.1×7.0 cm 크기의 종괴가 관찰되었고(Fig. 1) 종괴로 인해 우측 요관이 좁아져 우측 수신증이 관찰되었으며(Fig. 2) 양측 외장골 림프절 및 좌측 대동맥방 림프절 종대로 진행성 난소암으로 추정되었다(Fig. 3).

초음파소견: 질 초음파상 2.3×3.5 cm 크기의 자궁근종과 더글라스와에 5.3×8.3 cm 크기의 종양이 관찰되었으며 왼쪽 난소에 2.4×3.8 cm의 낭

증 례

환 자: 이 O 숙, 43세

주 소: 하복부통증(시작: 2009년 11월 12일)

산과력: 1-0-0/3-1

월경력: 월경주기는 30일 간격으로 규칙적이며, 월경량은 소량이었으며 월경장애나 월경통은 없었다. 최종 월경개시일은 2009년 7월 15일이었다.

가족력: 특이사항 없었다.

과거력: 2009년 9월 18일부터 30일까지 본원 신경외과에서 교뇌 출혈, 고혈압으로 입원하여 약물치료 받았으며 혈압약을 복용 중이었다.

Received: 2010.11.10. Revised: 2011. 3.20. Accepted: 2011. 3.28.

Corresponding author: Jong Soo Kim, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Dankook University College of Medicine, 29 San, Anseo-dong, Cheonan 330-714, Korea
Tel: +82-41-550-3298 Fax: +82-41-556-3878

E-mail: soo8541@hanmail.net

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2011. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

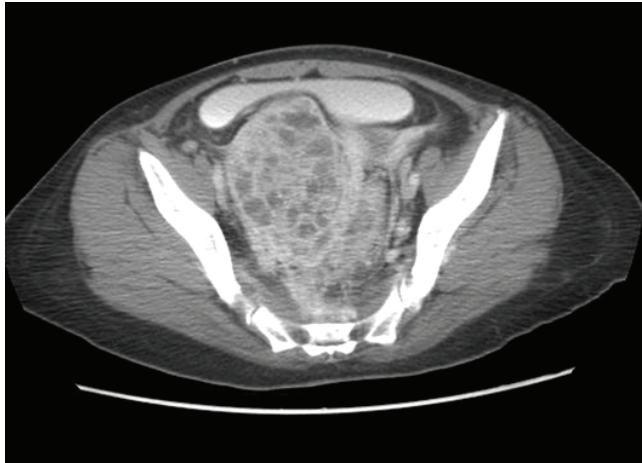


Fig. 1. Contrast-enhanced CT image shows 7.0×9.1×7.0 cm sized elongated multiloculated cystic mass with enhancing solid portion in right adnexa.

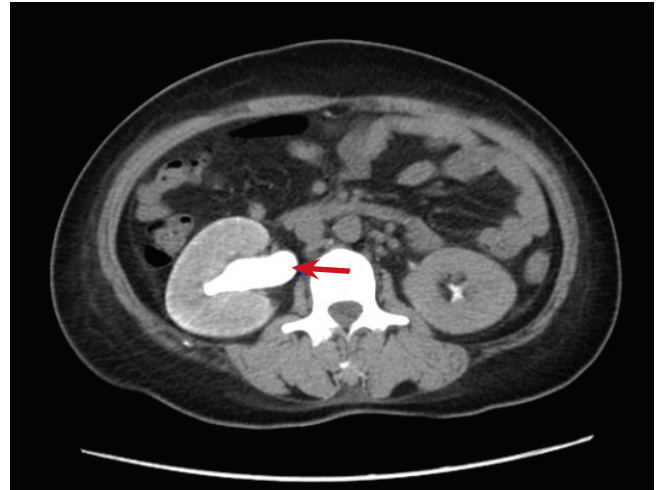
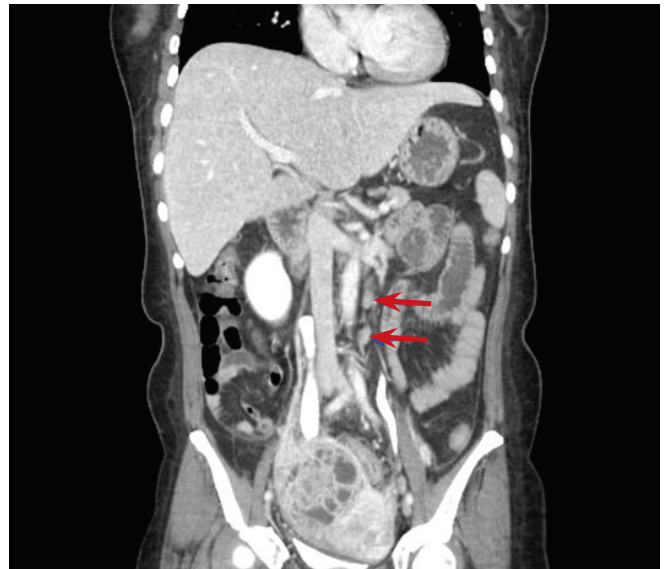


Fig. 2. Contrast-enhanced CT image shows right hydronephrosis (arrow).



Fig. 3. Contrast-enhanced coronal CT image shows lymph node enlargement in aortocaval and left paraaortic area (arrow).



종이 관찰되었다.

검사소견: 입원 당시 시행한 말초혈액 검사상 혈색소 10.4 g/dL, 백혈구 23840개/mm³ (중성구 89.3%, 림프구 5.5%)로 백혈구가 증가되어 있었고, 혈소판 294,000개/mm³ 측정되었다. 혈청생화학 검사상 총 단백/알부민 6.1/2.3 g/dL이었고, 혈청요소질소 13.5 mg/dL, 크레아티닌 1.12 mg/dL로 증가되어 있었으며, 나트륨 126 mEq/L, 염소 88 mEq/L로 감소되어 있었다. 요검사 결과 비중 1.014, pH 6.0, 질산염 음성, 고배율 시야에서 적혈구 1~4개, 백혈구 5~9개였으며 요 배양검사에서는 음성소견을 보였다. Prothrombin time 14.8 sec, INR 1.23, aPTT 25.0 sec이었고 당시의 적혈구 침강속도는 62 mm/hr (정상범위, 0~30 mm/hr)로 증가하였으며 C 반응성 단백질은 18.7 mg/dL (정상범위, 0~0.5 mg/dL)로 증가되어 있었다. 종양 표지자 검사에서 CA-125는 55 U/mL

(정상범위, 2.4~36.3 U/mL)로 증가되어 있었다.

수술소견: 개복 시 자궁은 주변과의 경계가 매우 불분명하였으며 대장과 방광 등의 인접장기와 심하게 유착되어 있었다. 우측 난소와 난관은 거의 감별하기 힘들었고 자궁 후면부와 심하게 유착되어 있었다. 우측 난소에 약 7×7 cm 크기의 종괴가 발견되었고 종괴 안에서 약 100 mL의 농양을 흡인하였다. 동결절편검사결과와 방사선검증으로 진단되어 림프절 박리는 시행하지 않았다. 자궁 후면부에 S상 결장이 심하게 유착되어 있어서 자궁아전절제술 및 양측 난소 난관절제술, 맹장절제술 및 유착박리술을 시행하였다(Fig. 4).

조직검사결과: 자궁은 평활근종으로 진단되었고 맹장과 난소 및 나팔관은 방사선균과 관련한 화농성 염증으로 진단되었다.

결과: 환자는 처음에 난소난관농양 진단하에 isepamicin 200 mg 하

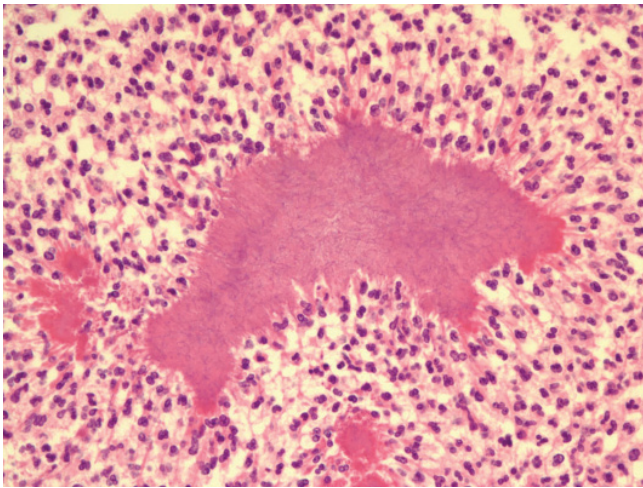


Fig. 4. 'Sulfur granule'. Hematoxylin and eosin stain illustrating a microscopic abscess of tangled actinomycetes surrounded by neutrophils ($\times 400$).

루 2회, fontiam 1 g 하루 3회, metronidazole 500 mg 하루 3회 세 가지로 병합요법을 하면서 난소암을 배제하기 위해 검사하던 중 2009년 11월 21일부터 발열이 있었으나 조절되지 않았고, 2009년 11월 24일 수술 중 동결절편 검사상 방선균증 진단되어 ampicillin을 투여하면서 수술 후 이틀째 발열은 호전되었다. 그 후 2009년 12월 31일까지 약 5주간 ampicillin 1 g을 6시간 간격으로 투여하였고 퇴원 후에는 ampicillin 500 mg을 하루 세 번 경구 복용하면서 6개월 동안 이주일마다 한 번씩 외래에서 경과를 관찰하였다.

2009년 11월 30일 시행한 CT상 우측 수신증 소견 보여 2009년 12월 1일 요관부목(Double J catheter)을 삽입하였고 2009년 12월 28일 추적검사하기 위해 시행한 CT상 수신증이 호전되었고 양측 외장골 림프절 및 좌측 대동맥방 림프절 크기도 감소되어 2009년 12월 31일 요관 제거 후 퇴원하였다. 수술 후 5주째 외래에서 추적 검사한 CA-125는 25 U/mL (정상범위, 2.4-36.3 U/mL)로 정상화되어 있었다.

고 찰

Actinomycosis (방선균증)는 주로 *A. israelii*에 의해 발생하지만 *A. bovis*, *A. ericksonii*, *A. naeslundii*, *A. viscosus*, 또는 *A. odontolyticus*에 의해서도 발생할 수 있다[6]. 방선균증은 그람양성인 혐기성세균으로 구강 및 장 점막에 상재하며 복강 내로 들어갔을 때 병원성이 된다[6]. 골반 내 방선균증은 보통 장 천공 또는 자궁 내 피임장치를 통한上行성 감염으로 일어난다. 또한 직접적으로 또는 혈행성으로 전파될 수 있다[7]. 자궁 내 피임장치와 방선균증의 관계는 1970년대부터 알려졌다. 1979년 Hager 등[8]은 자궁 내 피임장치를 사용한 여성의 자궁경관 세포 도말검사를 통해 8%에서 방선균 양성으로 보고하였으며 1986년 Mali 등[9]은 6.99%의 유병률과 사용기간이 2년 이상인 경우 질 내에서 방선균의 증식이 조장된다고 하였다. 1992년 Goodman과

Centeno는 자궁 내 피임장치에 상관없이 여성의 3-4%에서 배양 검사상 *Actinomyces israelii*이 발견되었고 자궁 내 피임장치의 약 25% 정도에서 방선균에 의해 감염되었다고 하였다[10]. 2008년 한양대병원 Lee 등[11]은 21.4%에서 자궁 내 피임장치 없이 발병하였으며 3예 중 1예는 진단 받기 1년 전 방선균증에 의한 간농양 병력이 있었고 다른 2예에서는 위험인자가 없었다고 하였다. 방선균의 과증식은 정상 세균총의 번식을 방해하여 점막의 항상성을 깨뜨려 자궁내막염이나 골반염을 일으킬 수 있다[12]. 또한 골반 내 농양이나 섬유화, 육아종을 형성함으로써 골반 내 요관이나 장을 압박하여 수신증 및 장협착증을 유발할 수 있다[7]. 증상은 복통(85%), 체중 감소(44%) 및 악취 나는 질 분비물(24%) 등이 있고 복통과 발열은 환자의 60%에서 나타난다[6]. 혈액검사상에서는 많은 경우에 빈혈, 백혈구 증가, 적혈구 침강속도의 증가가 나타나지만 비특이적이기 때문에 골반 내 감염과 구분하기가 쉽지 않다. 이 환자에서는 백혈구 증가와 적혈구 침강속도의 증가, C 반응성 단백의 증가가 있었다.

진단은 조직 생검에서 황과립(sulfur granule)의 확인으로 가능하나 이는 포도상 진균병과 균증에서도 나타날 수 있으므로 보다 정확한 진단을 위해서는 혐기성 균배양 검사 및 actinomycotic granule의 조직학적 동정이 필요하다[13]. 1976년 Gupta 등[14]이 자궁경부 세포진 검사를 통해 방선균을 검출할 수 있는 방법을 처음 기술하였다. 자궁경부 세포진 검사에서 방선균은 고립되고 진하게 염색된 응집물로 보이며 이를 고배율로 관찰 시 중심체에서 평행하게 방사상으로 달리는 것처럼 나타나면서 호염기성 군집을 형성하고 이 군집주위로 급성 염증세포가 둘러싸여 가느다란 염주 모양의 고리로 보이는 gupta body를 확인하여 진단할 수 있다[15].

이물질이 없고 증상이 없는 상태에서 우연히 방선균을 발견했을 때는 특별한 치료가 필요하지 않지만 증상이 있거나 이물질이 있을 때에는 적절한 치료를 해주어야 한다. 치료는 약물치료만으로도 효과적이지만 대부분 이차성 섬유화를 보이기 때문에 장기간의 치료를 요하며 정맥을 통해 매일 penicillin G 1800만에서 2400만 단위를 2주에서 6주간 주사하고 이후에는 12-18개월간 하루에 2-4 g의 경구용 penicillin, metronidazole이나 amoxicillin을 사용한다. 요관이나 장폐색에 의한 증상이 있거나 누공 등의 합병증이 발생한 경우 항생제 요법만으로 완치된 사례에 대한 보고는 아직까지 없고 암을 완전히 배제할 수 없는 경우도 있으므로 이러한 경우에는 수술적 치료를 우선적으로 고려해야 할 것이다[12].

본원에서 경험한 환자의 경우 내원 시 자궁 내 피임장치는 없었고 2개월 전 뇌출혈로 입원치료를 받은 적이 있으며 하복부통증을 호소하고 있었다. 복부골반 CT에서 종괴에 의한 우측 수신증, 골반 내 림프절 종대 소견이 보였고 종양표지자인 CA-125의 증가로 골반 내 방선균증보다 진행성 난소암으로 의심되었다. 그러나 수술 시 동결절편검사 결과 방선균증으로 진단되었고 그후 항생제를 ampicillin으로 변경하여 투여하면서 호전되기 시작하였다.

이 환자에서처럼 자궁 내 피임장치를 하고 있지 않더라도 전신적으로 쇠약한 환자에서는 자궁 경부 세포진 검사 또는 세침 흡인 검사 등을 통

해 수술 전 감별진단이 필요할 것으로 생각된다.

References

1. Choi PS, Kim SJ, Jeon HS, Hong HJ, Lee TU, Kim SY, et al. A case of pelvic and abdominal actinomycosis associated with wearing an intrauterine device. *Korean J Obstet Gynecol* 2001;44:1357-61.
2. Bittar I, Solal JL, Cabanis P. Abdominopelvic actinomycosis. *Ann Chir* 2001;126:494-6.
3. Kayikcioglu F, Akif Akgul M, Haberal A, Faruk Demir O. Actinomycosis infection in female genital tract. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2005;118:77-80.
4. Marwah S, Marwah N, Singh I, Singh S, Gupta A, Jaiswal TS. Ovarian actinomycosis in absence of intrauterine contraceptive device: an unusual presentation. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2005;84:602-3.
5. Cheong MA, Seo YS, Yang JS, Park JS, Youn JH, Lee JG, et al. A case of hydronephrosis as a complication of pelvic actinomycotic abscess. *Korean J Nephrol* 2002;21:337-40.
6. Fiorino AS. Intrauterine contraceptive device-associated actinomycotic abscess and Actinomyces detection on cervical smear. *Obstet Gynecol* 1996;87:142-9.
7. Lim SY, Jeong DH, Lee KB. Pelvic actinomycosis with unilateral hydronephrosis and a rectal fistula mimicking an ovarian malignancy. *J Womens Med* 2009;2:158-61.
8. Hager WD, Douglas B, Majmudar B, Naib ZM, Williams OJ, Ramsey C, et al. Pelvic colonization with actinomyces in women using intrauterine contraceptive devices. *Am J Obstet Gynecol* 1979;135:680-4.
9. Mali B, Joshi JV, Wagle U, Hazari K, Shah R, Chadha U, et al. Actinomyces in cervical smears of women using intrauterine contraceptive devices. *Acta Cytol* 1986;30:367-71.
10. Case records of the Massachusetts General Hospital. Weekly clinicopathological exercises. Case 10-1992. A 41-year-old woman with a swollen left leg, pelvic mass, and bilateral hydronephrosis. *N Engl J Med* 1992;326:692-9.
11. Lee HJ, Lee SJ, Kim YJ, Kim SH, Lee JH, Kim SR, et al. Preoperative diagnosis and medical treatment of pelvic actinomycosis. *J Bacteriol Virol* 2008;38:89-95.
12. 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.
13. Nozawa H, Yamada Y, Muto Y, Arita S, Aisaka K. Pelvic actinomycosis presenting with a large abscess and bowel stenosis with marked response to conservative treatment: a case report. *J Med Case Reports* 2007;1:141.
14. Gupta PK, Hollander DH, Frost JK. Actinomycetes in cervico-vaginal smears: an association with IUD usage. *Acta Cytol* 1976;20:295-7.
15. Horn LC, Bilek K. Reactive and areactive actinomycosis infection of the female genitals and differentiation of pseudoactinomycosis. *Zentralbl Gynakol* 1995;117:466-71.

진행성 난소암으로 오인된 골반 내 방선균증 1예

단국대학교 의과대학 산부인과학교실

양정선, 정윤희, 강윤단, 김종수, 박진완

방선균은 비인두강 및 장 점막에 정상적으로 상재하는 균이다. 골반 내 방선균증은 농양이나 장협착 및 그 외 다른 심각한 합병증을 일으킬 수 있는 드문 질환으로 종종 골반 내 종양과 흡사해서 수술 전에 진단되는 경우는 드물고 확진은 혐기성배양이나 조직검사결과로 한다. 골반 내 방선균증은 자궁 내 피임장치를 오래 사용하는 것과 관련이 있다고 알려져 있으나 저자들은 자궁 내 피임장치를 사용하지 않은 여성에서 우측 수신증 및 골반 내 림프절 종대, CA-125 상승으로 진행성 난소암으로 오인된 골반 내 방선균증을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어: 골반방선균증