

성인에서 발생한 조롱박오목루를 동반한 방선균 갑상선염 1예

최현주 · 김보원 · 신민지 · 최보광 · 강지현 · 전윤경 · 김상수 · 김보현 · 김인주 · 김용기¹

부산대학교 의학전문대학원 내과학교실, 김용기내과¹

A Case of Actinomycotic Thyroiditis in an Adult with Piriform Sinus Fistula

Hyun Ju Choi, Bo Won Kim, Min Ji Shin, Bo Kwang Choi, Ji Hyun Kang, Yun Kyung Jeon, Sang Soo Kim, Bo Hyun Kim, In Ju Kim, Yong Ki Kim¹

Department of Internal Medicine, Pusan National University Hospital, Pusan National University School of Medicine, Busan; Kim Yong Ki Internal Medicine Clinic¹, Busan, Korea

Acute suppurative thyroiditis is an uncommon infectious thyroid disease affecting mainly children and young adults. The route of infection is frequently a pyriform sinus fistula. The major pathogens responsible for acute bacterial suppurative thyroiditis are the *Streptococcus* and *Staphylococcus* species. In contrast, Actinomyces species are a very rare cause of acute suppurative thyroiditis. We experienced a case of a 23-year-old man who has presented general weakness and neck pain. Thyroid ultrasonography showed an ill-defined area of heterogeneous hypoechogenicity in the left lobe of the thyroid gland. Histologic examination by fine needle aspiration demonstrated gram-positive, filamentous-like organisms with branching hyphae and characteristic sulfur granules. Barium esophagogram showed a linear barium-filled track at the left pyriform sinus. We report a case of actinomycotic thyroiditis in a young adult with pyriform sinus fistula along with a brief review of related literature. (*Endocrinol Metab* 27:222-226, 2012)

Key Words: Actinomycosis, Pyriform sinus fistula, Thyroiditis

서 론

세균성 갑상선염은 그 빈도가 낮은 질환이며 재발하는 경우에서 조롱박오목루(pyriform sinus fistula)와 관계있는 것으로 알려져 있다[1,2]. 조롱박오목루를 동반하는 경우에 갑상선염은 대부분 좌엽을 침범하고 임상 진단으로는 급성 화농성 갑상선염과 재발성 경부농양으로 나타난다. 조롱박오목루가 동반된 경우는 대부분 선천성 기형과 관련되어 있어 그 증상은 대부분 소아기에 나타난다. 원인균은 주로 *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus pyogenes*이며 *Peptostreptococcus* species, *Haemophilus influenzae*, *Salmonella* species 등도 보고되어 있으나 방선균(actinomyces)에 의한 갑상선염은 그 빈도가 낮은 것으로 알려져 있다[3,4].

방선균에 의한 감염은 점막의 손상이 있을 때 주로 일어나고 외

상, 자궁 내 장치나 천공, 수술 등과 관련이 있는 것으로 알려져 있다. 세균 배양이 어렵고, 유황과립(sulfur granule)의 발견도 어렵기 때문에 종양으로 오인하여 수술 후 절제된 조직 소견에서 방선균증(actinomycosis)로 진단되는 경우도 적지 않다[5,6].

저자들은 경부 통증 및 전신위약감을 주소로 내원한 23세 남자 환자에서 방선균 갑상선염을 경부 갑상선 초음파를 통한 세포흡인 검사를 통해 진단하였고 수술적 배농 없이 항생제 정주로 치료하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자: 23세, 남자

주소: 경부통, 전신위약감

Received: 14 August 2011, Accepted: 25 October 2011

Corresponding author: Bo Hyun Kim

Division of Endocrinology and Metabolism, Department of Internal Medicine, Pusan National University Hospital, Pusan National University School of Medicine, 305 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 602-739, Korea

Tel: +82-51-240-7678, Fax: +82-51-254-3217, E-mail: pons71@hanmail.net

Copyright © 2012 Korean Endocrine Society

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.

현병력: 내원 1주일 전부터 왼쪽 경부 통증이 있어 개인의원에서 치료받았으나 증상 호전이 없고 근육통, 전신위약감이 있어 응급실로 내원하였다.

과거력: 2009년 오른쪽 갑상선결절을 진단받고 개인의원에서 외래 경과 관찰 중이었다.

흡연력 및 음주력: 없었다.

가족력: 특이 소견 없었다.

신체검사 소견: 내원 당시 혈압 130/80 mmHg, 맥박수 92회/분, 호흡수 20회/분, 체온 37.5°C였다. 신체검사상 전신 상태는 비교적 양호하였고, 흉부 청진에서 심음이나 폐음은 정상이었다. 구강검사에서 잇몸과 구강 내에 특이 소견 보이지 않았다. 왼쪽 경부에 경미한 발적을 동반한 부종이 보였으며 촉진 시 통증을 호소하였다.

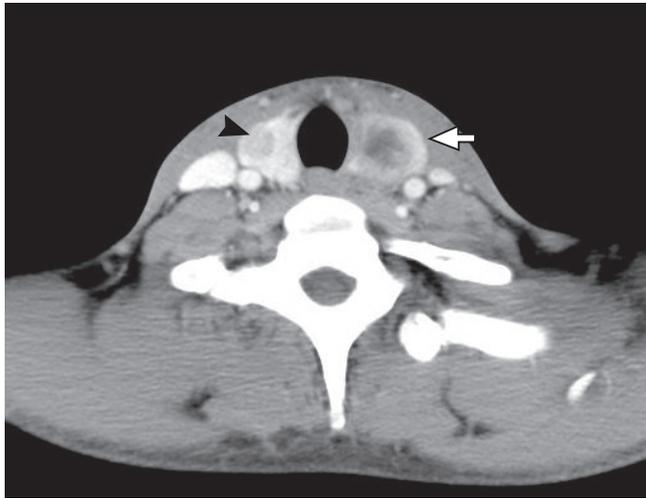


Fig. 1. Contrast-enhanced computed tomography scan of the neck demonstrated a 2 cm sized rim enhancing lesion with thick wall and necrotic portion at left lobe of thyroid gland (arrow) and 10 mm sized nodule at right lobe of thyroid gland (arrowhead).

검사실 소견: 말초혈액검사에서 혈색소 16 g/dL, 백혈구 8,970/mm³, 혈소판 210,000/mm³이었다. 혈청검사에서 AST 17 IU/L, ALT 24 IU/L, ALP 143 IU/L, LDH 296 IU/L, total bilirubin 1.10 mg/dL, direct bilirubin 0.22 mg/dL, total protein 7.9 g/dL, albumin 5.0 g/dL, BUN 12.7 mg/dL, creatinine 0.77 mg/dL, total cholesterol 127 mg/dL, uric acid 5.3 mg/dL, calcium 9.6 mg/dL, phosphate 3.3 mg/dL, C-반응성 단백질 2.85 mg/dL였고 혈청 전해질검사는 정상이었다. 갑상선기능검사는 T3 126.1 nmol/L (normal range, 80-170), FT4 2.89 ng/dL (normal range, 0.75-2.00), TSH 0.03 mIU/mL (normal range, 0.3-5.0)이었고 TSH receptor antibody 및 anti-TPO antibody는 음성이었다.

방사선학적 검사 소견: 경부 전산화단층촬영을 시행하였고 갑상선 우엽에 석회화를 동반한 8 mm의 갑상선결절이 관찰되었고 갑상선 좌엽에 2 cm 크기의 경계가 불명확한 종괴가 관찰되었다. 왼쪽 갑상선종괴 병변은 외곽의 조영이 증가하는 소견이며 주위의 연부 조직에서도 조영 증강과 부종이 관찰되었다(Fig. 1). 갑상선 스캔에는 불균질한 섭취 소견을 보였으나 냉결절은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 경

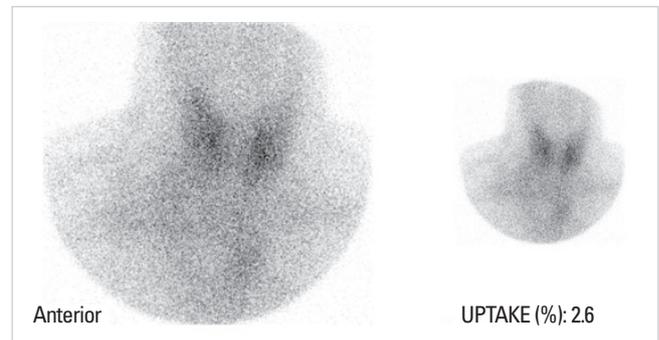


Fig. 2. ^{99m}TcO₄ thyroid scan showed inhomogenous uptake, but there was no definite cold nodule.

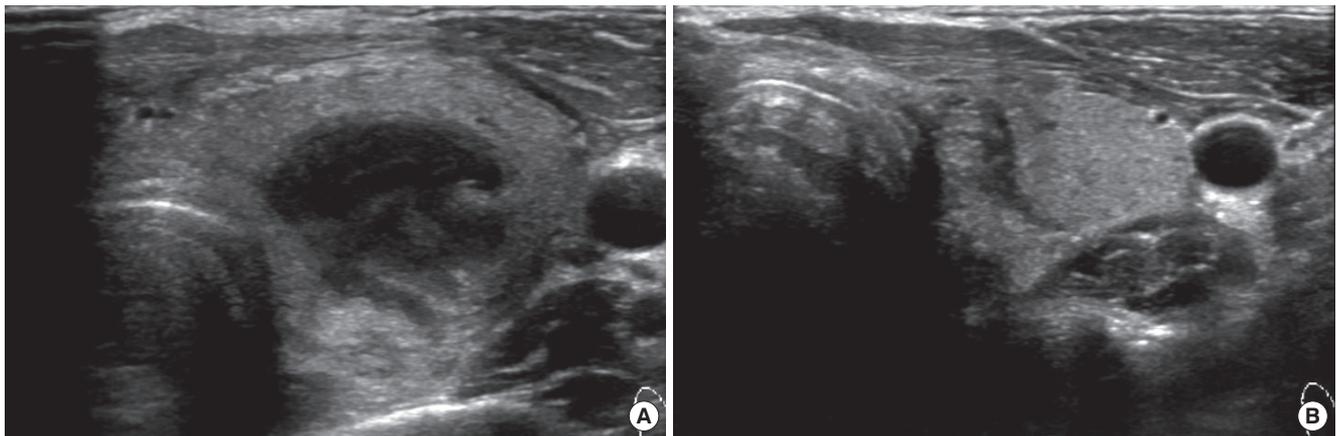


Fig. 3. (A) Initial thyroid ultrasonography shows about 2 × 2 cm sized ill-defined heterogenous low echoic mass in left thyroid gland. (B) Thyroid ultrasonography after administration of antibiotics for 4 weeks shows decreased mass size (0.6 × 0.8 cm).

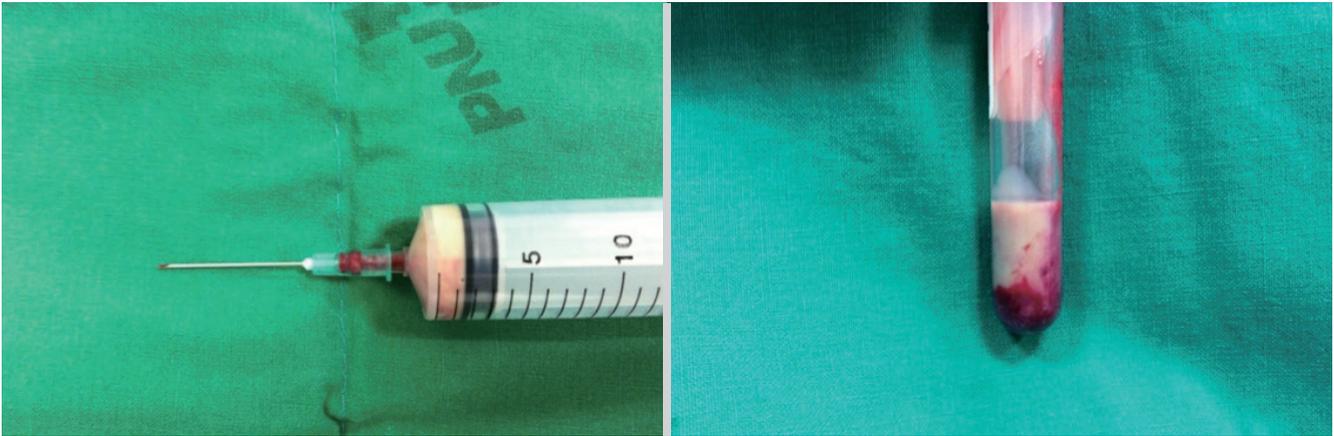


Fig. 4. Fine needle aspiration shows yellowish pink color pus like material.

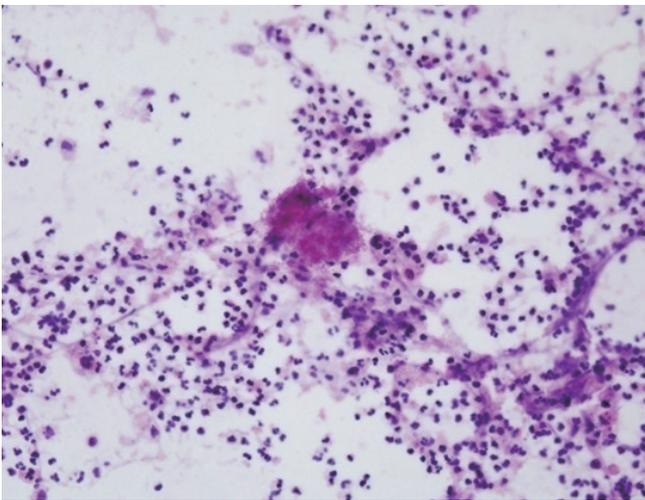


Fig. 5. Histopathology demonstrated gram-positive, branching, thin, filamentous-like organisms suggestive of actinomyces, and the characteristic sulfur granules (H&E stain, × 400).



Fig. 6. Barium esophagogram shows linear barium filled track at left pyriform sinus fistula (arrow).

부 갑상선 초음파에서 좌하엽에 2 × 2 cm 크기의 내부에 일부 낭성 변성을 동반하는 불균등한 저에코의 농양 소견을 보여(Fig. 3A) 갑상선 세침흡인을 시행하였고 흡인된 물질은 탁한 분홍색을 띠고 있었다(Fig. 4). 흡인된 농양은 배양과 함께 시행한 hematoxylin and eosin 염색에서 유황과립을 보여 방선균 갑상선염(actinomycotic thyroiditis)으로 진단되었다(Fig. 5).

치료 및 경과: Penicillin G 정맥 투여를 시작하였고 내원 10일째 시행한 바륨 식도조영술에서 좌측 조롱박오목루가 확인되었다(Fig. 6). 이후 항생제 치료로 증상 호전되어 다른 침습적 치료 없이 경구 amoxicillin으로 전환할 수 있었다. 퇴원 2주 후 외래에서 추적 갑상선 초음파를 시행하였고 추적 관찰 초음파에서 병변의 크기는 감소하였다(Fig. 3B). 환자는 향후 6개월간 항생제 치료를 유지하고 동반된 조롱박오목루에 대해서는 화학소작술 또는 수술적 치료 예정이다.

고 찰

급성 갑상선염과 갑상선농양은 드문 질환이다. 이는 풍부한 혈류량, 임파선 배액, 높은 요오드 농도 등이 세균의 성장을 억제하고 갑상선피막이 감염에 대한 저항성을 높이기 때문이다. 주된 원인균은 *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus pyogenes*이며 *Peptostreptococcus* species, *H. influenzae*, *Salmonella* species도 보고되고 있다. 갑상선은 구조적으로 세균 감염에 대한 내성이 큰 기관으로 충분한 내과적, 외과적인 치료에도 불구하고 재발하는 좌측 경부 농양 또는 급성 화농성 갑상선염, 후인두부 농양의 경우 조롱박오목루

와 같은 선천성 기형을 의심해 보아야 한다. 본 증례처럼 성인에서 조롱박오목루를 통한 염증성 질환이 처음 발생한 경우 원인에 대해 보고된 바는 없다. 이와 같은 경우 소아가나 청소년기에 감염의 기회가 없었거나 성장하면서 음주, 흡연과 같은 생활 습관 변화가 그 원인으로 추측된다. 조롱박오목루가 존재하는 경우 갑상선염 및 농양은 갑상선의 좌엽에 주로 나타나는데 그 원인은 아직 정확하게 규명되지 않았지만 태생 시 대혈관의 비대칭성이나 우측 아가미끝소체(ultimobranchial body)의 소실과 관련있다고 알려져 있다[7-9].

본 증례와 같이 원인이 불명확한 경부 감염증의 경우 식도조영술은 선천적 기형을 진단하기 위해 시행되어야 한다. 하지만 감염의 급성기에는 조롱박오목루 주위의 부종 및 염증으로 인해 누관의 진단이 힘들 수 있어 적절한 항생제 투여 후 시행을 고려해야 하고 이 경우 바륨 식도조영술 이후에 전산화촬영을 시행하거나 변형된 발살바조작(modified Valsalva maneuver) 후 경부 전산화촬영을 시행하면 누관을 확인할 수 있다[10,11].

방선균은 구강, 대장, 질 등에 상재하는 정상 균무리로 점막 손상이 발생하면 통증이 없고 만성으로 진행되는 감염을 일으키며 유행과립과 동굴길 배농(sinus tract)이 특징적이다. 방선균증은 드문 감염증으로 그 빈도는 인구 30만 명 중 1명 꼴로 보고되고 있다. 남성의 경우 여성보다 유병률이 3배 정도 높고 감염증의 발생 위치를 보면 두경부, 흉부, 복부, 골반, 중추 신경계를 침범하며 이 중 두경부형(50%)의 빈도가 가장 높게 보고되어 있다. 초기 급성 감염 시 통증과 급성 염증을 동반할 수 있으며 이는 두경부 질환이나 연부조직의 감염증에서 흔히 관찰된다[12]. 하지만 세균 배양이 어렵고, 유행과립의 발견도 어렵기 때문에 종양으로 오인하여 수술 후 절제된 조직 소견에서 방선균증으로 진단되는 경우도 적지 않다. 이전 보고된 갑상선 방선균 증례에 있어서도 종양으로 오인되어 갑상선 절제술 등의 외과적 절제가 시행된 바 있다[13]. 두경부형 방선균증에 있어 세포흡인검사를 통한 균주 배양의 양성률은 낮은 것으로 보고되어 있는데 이는 다른 세균의 증식, 이전 항생제 치료에 기인한다[14].

치료는 페니실린을 2주에서 6주가량 정주하고 이후 경구 약제로 전환하여 총 치료 기간을 6개월에서 12개월까지 유지하여야 한다. Penicillin allergy가 있는 경우에는 Tetracycline, Macrolide 등으로 대체할 수 있다. 그리고 다른 동반 감염이 있는 경우에는 다른 약제를 추가하여야 한다. 하지만 대부분의 경우에 있어서 다른 동반 감염균에 대한 치료 없이 방선균증을 성공적으로 치료할 수 있다. 외과적 절제와 배농을 내과적 치료와 함께 시행하면 치료 기간을 3개월에서 6개월까지 단축시킬 수 있다는 보고가 있지만 항생제 단독 치료만으로도 완치된 경우의 보고가 늘면서 초치료는 페니실린 정주를 시행하고 이후 항생제에 반응이 없는 경우 외과적 치료를 고려해 볼 수 있다[15].

조롱박오목루는 외과적 절제가 이상적인 치료이나 반복된 감염이나 이전 수술로 인해 누관 전체의 절제가 힘든 경우가 많다. 수술 후

합병증으로 특히 8세 이하의 소아에서 일시적인 성대 마비, 침샘루(salivary gland fistula), 창상감염(wound infection) 빈도가 높은 것으로 알려져 있다. 갑상선염의 급성기에서 수술적 치료는 불완전한 절제의 가능성이 높아 추후 지속적 경과 관찰을 필요로 한다. 최근에는 trichloroacetic acid를 이용한 화학소작술을 시행하고 있다. 수술에 비해 완전 절제가 어렵고 광범위한 절제가 필요한 점, 짧은 마취 시간과 짧은 유병기간, 조기 퇴원 등의 이유로 일차적 치료로 선호되고 있다[16].

본 증례는 23세 성인에서 방선균에 의한 급성 갑상선염이 생긴 것으로 명확한 원인 규명은 어려웠지만 갑상선 세침흡인검사 이후 시행한 세포흡인검사에서 방선균이 진단되었으며 이후 시행한 식도조영술에서 조롱박오목루를 확인할 수 있었다. 재발하는 경부 감염 또는 원인 불명의 경부 감염이 있을 때 특히 갑상선 내에 감염이 동반될 경우에는 조롱박오목루 가능성을 고려해야 한다. 그리고 일반적으로 알려져 있는 균 이외에도 급성 화농성 갑상선염에서 방선균이 원인일 수 있음을 고려해야 한다.

요 약

세균성 갑상선염은 빈도가 낮은 질환으로 조롱박오목루와 같은 동반 기형 확인이 필요하다. 방선균 갑상선염의 경우 이전 보고에서 종양으로 오인되어 수술적 치료 후 진단되는 경우가 있었으나 본 증례는 세포흡인검사를 통해 방선균 갑상선염을 진단하였고 항생제 치료만으로도 성공적인 치료를 하였기에 보고하는 바이다.

참고문헌

- Berger SA, Zonszein J, Villamena P, Mittman N: Infectious diseases of the thyroid gland. *Rev Infect Dis* 5:108-122, 1983
- Takai SI, Miyauchi A, Matsuzuka F, Kuma K, Kosaki G: Internal fistula as a route of infection in acute suppurative thyroiditis. *Lancet* 1:751-752, 1979
- Godin MS, Kearns DB, Pransky SM, Seid AB, Wilson DB: Fourth branchial pouch sinus: principles of diagnosis and management. *Laryngoscope* 100:174-178, 1990
- Brook I: Microbiology and management of acute suppurative thyroiditis in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 67:447-451, 2003
- Kim MK, Sun BH: Clinical analysis of actinomycosis: 66 cases of Korean experience. *J Korean Surg Soc* 52:702-710, 1997
- Hwang HP, Lee MR, Kim JH: Pelvic actinomycosis: is it possible to diagnose preoperatively? *J Korean Soc Coloproctol* 23:437-440, 2007
- Burge D, Middleton A: Persistent pharyngeal pouch derivatives in the neonate. *J Pediatr Surg* 18:230-234, 1983
- Roediger WE, Kalk F, Spitz L, Schmaman A: Congenital thyroid cyst of ultimobranchial gland origin. *J Pediatr Surg* 12:575-576, 1977
- Park SW, Han MH, Sung MH, Kim IO, Kim KH, Chang KH, Han MC: Neck infection associated with pyriform sinus fistula: imaging findings.

- AJNR Am J Neuroradiol 21:817-822, 2000
10. Mali VP, Prabhakaran K: Recurrent acute thyroid swellings because of pyriform sinus fistula. *J Pediatr Surg* 43:e27-e30, 2008
 11. Hillel AD, Schwartz AN: Trumpet maneuver for visual and CT examination of the pyriform sinus and retrocricoid area. *Head Neck* 11:231-236, 1989
 12. Van Dellen JR: Actinomycosis: an ancient disease difficult to diagnose. *World Neurosurg* 74:263-264, 2010
 13. Hong SG, Jin SH, Ko BG, Park DC, Cho JT, Lee JK: Primary actinomycosis of the thyroid. *Korean J Med* 31:821-826, 1986
 14. Custal-Teixidor M, Trull-Gimbernat JM, Garijo-López G, Valldosera-Rosello M: Fine-needle aspiration cytology in the diagnosis of cervicofacial actinomycosis: report of 15 cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 9:467-470; 464-467, 2004
 15. Japanese Society of Chemotherapy Committee on guidelines for treatment of anaerobic infections; Japanese Association for Anaerobic Infection Research: Chapter 2-12-1. Anaerobic infections (individual fields): actinomycosis. *J Infect Chemother* 17 Suppl 1:119-120, 2011
 16. Kim KH, Sung MW, Lee KJ, Roh JL, Kwon TK, Kim IS, Jin JW: Management of pyriform sinus fistula with chemocauterization. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 45:906-910, 2002