

안면부에 발생한 비특이성 염증

서울대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실

현영민 · 박래정 · 정환석 · 최순철 · 박태원 · 유동수

목 차

- I. 서 론
- II. 증 례
- III. 고 찰
- IV. 결 론

참고문헌
영문초록

I. 서 론

안면부에 발생한 광범위한 염증성 병변을 진단할 때 일차적으로 치성감염에 의한 염증의 확산을 고려하여야 하나 이와 함께 진균감염질환(fungal hyphal disease)인 aspergillosis와 mucormycosis를 감별진단에 포함시켜야 한다. 왜냐하면 진균감염과 일반감염 상태를 구별하는 것은 환자의 치료에 있어 중요하며 환자의 향후 예후를 결정하는 결정적 변수가 될 수 있기 때문이다. 진균감염인 aspergillosis나 mucormycosis는 생검과 일반미생물검사를 통하여 특정 진균을 확인함으로써 확진하게 되는데, 이때 특정세균이나 진균을 발견하지 못하는 경우 비특이성 감염이라는 조직병리학적 진단이 내려지게 된다.

aspergillosis나 mucormycosis에 대하여는 그 간의 연구들을 통하여 진단영상검사상의 특징들이 어느 정도 밝혀지고 있으나 비특이성감염에 대하여는 충분한 증례가 없어 아직까지 모호한

형편이다.

이에 저자들은 서울대학교 치과병원에 상악골의 동통 및 불편감을 주소로 내원한 환자에서 조직병리학적 검사를 통해 비특이성 감염으로 확진되었으나 임상검사와 진단영상검사상 진균감염과 매우 유사한 특징을 보이는 사례를 경험하였기에 aspergillosis와 mucormycosis의 일반적, 진단영상상의 특징들과 비교하여 본 증례를 보고하고자 한다.

II. 증 례

임상 소견

환자는 51세 남자로서 상악골의 동통 및 불편감을 주소로 본원에 1996년 8월 19일 처음 내원하였다. 1994년 11월경 상악 전치부의 보철물을 제작한 후 동 부위에 불편감이 나타나기 시작했다고 하며 1995년 12월경에 코막힘과 두통을 주소로 이비인후과에 내원하여 약물투여를 계속하였으나 증상의 호전이 없이 비구강누공이 구개 부에서 발생하였다고 한다. 이를 주소로 1996년 8월 모 종합병원에 내원하여 조직검사를 시행하여 섬유성 염증(fibrous inflammation)이라는 진단하에 본원으로 의뢰되었다.

환자는 당뇨병을 앓고 있었으나 당부하검사에서 공복시 103 mg/dl, 식후 2시간에 139 mg/dl의 수치를 보여 조절되고 있는 상태에 있었다. 임상 검사에서 구의 검사시 양측성의 협부 종창, 압통

및 좌측 상순 부위의 지각이상이 관찰되었으며 구내 검사시 구개부의 일부 괴사와 골파괴 및 경계가 불명확하고 거상된 변연을 가지는 심한 궤양이 관찰되었다.

96년 9월 19일 Caldwell-Luc 수술을 시행하고 10월 12일에 퇴원한 후 계속 드레싱 및 항생제 치료를 받아왔으나 96년 11월 11일경 안면부종창을 보이고 12월 초부터 농의 지속적인 유출로 인하여 97년 1월 9일 재입원하였다.

진단영상 소견

진단영상법으로는 일반방사선사진검사, CT, MRI 등을 시행하였다. 일반방사선검사로는 구내방사선사진, 파노라마방사선사진, 구내선원파노라마방사선사진 및 Waters방사선사진을 96년 8월과 10월에 촬영하여 다음과 같은 소견을 얻었다. 상악골이 전반적으로 파괴되어 있었으며 연조직내에 일부 잔존골이 방사선불투과성으로 관찰되었으며 상악우측대구치부에서 상악동 하연이 불명확하여 비강강누공이 의심되었다. 상악동과 비강내에 전반적으로 방사선불투과성이 증가하였고 양측 상악동의 골파괴가 내벽과 외측벽에서 관찰되었다(Fig. 1 참조).

96년 8월에 외부에서 촬영한 PNS CT에서는 구개골, 상악동의 전벽 및 내벽의 파괴와 함께 상악동 내벽을 따라 선상으로 관찰되는 방사선 불투과성 대가 관찰되었고 병소가 비강, 사골동, 접형동 및 협부로 확대되고 있는 양상과 더불어 연조직 종괴 내부에서 방사선불투과성 핵으로 보이는 상들이 다수 관찰되었으며, 비인두 부위에도 전파되어 인두주위간극을 협착시키고 있었다(Fig. 2 참조). 96년 12월 10일경 촬영한 PNS CT에서는 안와, 두개저, 비인두주위간극, 측두골하간극으로의 이환이 명백하게 관찰되었으며 병소의 범위가 확대되고 있었다(Fig. 3 참조).

97년 8월에 외부에서 촬영한 PNS MRI영상을 통하여 T2WI에서 균일하지 않은 신호강도를 보이고 T1WI에서 저신호강도를 보이며 조영증강상에서 영상의 증강(enhancement)이 일정하지 않아 보이는 연조직 종괴가 상악동의 전내벽과

비강에서 관찰되었으며 비인두, 안와저, 두개저로의 이환이 의심되었다(Fig. 4 참조). 재입원한 후 촬영한 97년 1월 15일 brain MRI에서는 비인두주위간극, 안와, 측두하간극, 양측성 사대를 포함하는 병변이 관찰되었으며 중두개와내의 수막이 두꺼워져 있었고 미만성의 영상강조가 관찰되었다(Fig. 5 참조).

96년 10월 11일 경부임파절의 감염여부를 확인하기 위하여 초음파검사를 하였으나 별다른 이상은 없었다.

조직병리학적 소견

96년 8월 조직학적 검사결과 변연부가 불규칙하고 내부로 파인 듯한 골파괴 양상이 광학현미경상에서 관찰되었으며 GMS염색시 골변연부에서 다수의 진균, 구균, 간균들이 관찰되었다. 이후 병소의 확진을 위하여 신선도말표본염색과 검체배양 등 일반미생물검사를 시행하였다. 신선도말표본염색에서는 많은 그람양성 간균과 백혈구 및 상피세포가 관찰되었으며 총 5회 실시한 검체배양에서는 상악괴사골조직을 시편으로 사용한 1회와 3회 검사에서 *Peptostreptococci*가 배양되었으며 구개조직을 시편으로 사용한 2,4회 검사에서는 많은 수의 *Klebsiella oxytoca*, *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus viridans*가 배양되었다.

치료 및 예후

96년 9월 19일 Caldwell-Luc 수술과 소파술을 시행하고 항생제를 투여하였으나 수술후 4개월이 지난 현재까지 증상의 개선이 없이 오히려 병소부위의 확장과 안와하농양이 관찰되어 97년 1월 9일 재입원하였다.

III. 고 찰

비특이성 염증이라는 진단은 치료상 실지로 의미하는 바가 명확하지 않다. 일반적으로 비특이성 염증 환자의 경우에는 광범위한 범위의 항

생제를 투여하는 경우가 대부분인데 근래에는 항생제 치료를 해도 전혀 효과를 보지 못하는 경우가 늘고 있으며 원인으로 항생제의 오용이나 남용 등으로 인한 원인균의 내성증가를 드는 경우도 있다. 본 증례의 경우에도 본원에 내원하기 전에 이비인후과에서 항생제를 투여하는 약물 치료를 장기간 받았음에도 별다른 효과를 보지 못하고 염증부위가 확대되고 증상이 심화되었기 때문에 그러한 경우를 의심해 볼 수 있으나 임상 증상이나 진단영상검사상의 특징들이 진균감염과 유사한 점들이 많아 진균감염의 가능성도 완전히 배제할 수는 없다고 생각되었다.

안면부에 진균감염이 의심된다면 먼저 aspergillosis나 mucormycosis를 감별진단해야 한다. aspergillosis나 mucormycosis는 일종의 기회감염으로 원인균인 Mucoraceae나 Aspergillus는 흙, 먼지, 오염된 음식, 빵 등 자연환경에 널리 퍼져있으나, 건강한 사람들에게는 별다른 영향을 주지 않고 면역 억제 상태의 환자, 조절되지 않은 당뇨병환자, 대사성 산증을 보이는 환자, 백혈병 환자 등에서 병원균의 역할을 한다^{1-3, 4)}. 본 증례의 경우 환자가 처음 내원시부터 비록 당부하검사 수치가 공복시 103mg/dl, 식후 2시간에 139 mg/dl 의 수치를 보여 조절되는 양상을 보이기는 했으나 당뇨를 질병으로 갖고 있어 진균감염을 배제할 수 없었다.

일반적인 진균감염은 비강, 부비동에 주로 감염되며⁵⁻⁷⁾, 보통 1) 급성 침식성, 격증(fulminant)의 질환, 2) 만성 침식성 질환, 3) 비침식성 진균 전이증식(colonization) 4) 알러지 진균 부비동염의 4가지 임상병리학적 분류가 사용되고 있다⁸⁾. 급성 침식성 진균감염은 보통 당뇨병환자나 면역이 저하된 환자에서 주로 발병하며, 임상적으로 코가 막히고 분비물이 증가되며 이환된 부비동 부위에 동통이 있고 안와주변의 부종 등을 호소한다. 비강과 관련된 부비동의 골파괴가 수 일 혹은 수 주 내에 일어날 수 있으며⁹⁾, 비강과 구개부의 검진시 창백한 허혈성 조직을 관찰할 수 있고 이 조직은 점차 괴저성 조직으로 진행되기도 한다. 비침식성 진균 전이증식은 수술후나 방사선치료후 부비동의 미세환경의 변화에 의하여

생길 수 있으며 주로 하나의 부비동에 국한되는 경향을 보이며^{5, 10)}. 환자들은 주로 만성 부비동염의 증상을 호소하나 무증상일 수도 있다. 알러지 진균 부비동염은 환자가 진균 항원에 대해 피부민감성을 보이며 병력상 알러지에 의한 상악동염, 용종증, 알러지에 의한 천식의 병력을 갖고 있는 것이 특징이다. 만성 침식성 질환은 수단이나 사우디아라비아, 중앙아시아에서는 면역학적으로 정상인 사람에게서 주로 발병하고 서구에서는 당뇨병과 같은 미약하게 면역이 저하된 환자에게서 호발한다고 한다¹¹⁾. 주된 임상소견은 급성 침식성 진균감염과 유사하나 진행과정이 만성적으로 몇 달 혹은 몇 년 내에 일어난다는 차이를 갖는다. 본 증례의 경우에는 환자가 자각 증상을 느끼고 이비인후과를 방문하고 치료를 시작한 지 1년이 넘었고 주로 호소하는 바가 상악의 불편감이나 동통으로 임상적 증상이 매우 유사할뿐 아니라 광범위한 항생제 치료에도 별다른 효과를 보지 못하였었다. 또 박테리아에 의한 감염인 경우 협부 연조직으로의 이환이 드물지만 진균감염인 경우 비강을 통하여 협부 이환이 가능한데¹²⁾ 본 증례에서는 비강이 감염되어 있었을 뿐만 아니라 양측 협부의 종창이 관찰되어 진균감염을 완전히 배제할 수 없었다.

부비동이나 비강의 진균감염의 진단영상 특징은 매우 다양하지만 감염의 초기에는 비강이나 부비동에 비특이적인 점막의 염증이 나타날 수 있으며^{5, 8)}, 대개 상악동이나 사골동에 호발하며 점형동에는 간혹 발생하고 전두동에는 흔하지 않다¹³⁾. 공기-액체 레벨은 흔하지 않으며 이 레벨이 존재하는 경우는 박테리아에 의한 이차감염이거나 박테리아에 의한 원발성 감염을 의심할 수 있다⁸⁾. 주변의 골은 비후되거나 경화, 침식, 재형성될 수 있으며 이러한 골변화는 서로 혼합되어 나타날 수도 있다. 질환이 진행된 환자의 반 정도에서는 관련된 상악동을 채우고 있는 중피의 중심부에서 대개 인화칼슘과 황화칼슘, 중금속염으로 구성되어 있는 치밀한 구조물을 볼수 있으며, 관련된 부비동 벽의 비후가 나타날 수도 있다¹⁴⁾. 질병발현의 후기에는 드물게 관련된 인접골의 골파괴 양상이 관찰되기도 한다¹⁵⁾.

안와를 이환하는 경우에는 전중격 부종(preseptal edema), 안구돌출증, 안와침내로의 지방침습, 골막하 농양 형성 등을 관찰할 수 있다⁸⁾. 본 증례에서는 처음 본원에 내원시 상악골과 비강내에 전반적으로 방사선불투과성의 증가가 관찰되었고 일반방사선사진에서 상악동을 채우는 연조직상내로 방사선불투과성 초점들이 관찰되어 일반적인 진균감염의 진단영상 특성과 유사하였으나 전반적인 골파괴 양상이 관찰되는 이유에 대한 해석이 쉽지 않았다. 대체로 aspergillosis, mucormycosis의 경우 골파괴양상이 거의 없으며 골을 파괴하지 않으면서도 협부로 이환하거나 비인두, 안와, 두개저로 넓게 전파되는 경향을 보이는데 본 증례에서는 골이 파괴되었음에도 불구하고 안와나 두개저로의 이환이 명백하지 않아 다소 과거의 증례들과 일치하지 않는 면을 보였으나 수술후 이차 내원시 진단영상에서 안와와 두개저의 이환과 안와하 농양의 생성 등 더 진전된 양상을 나타내어 처음 내원시점에서 보인 골파괴양상을 진균감염의 후기에 드물게 생기는 골파괴양상으로 간주할 수 있다고 생각된다.

진균감염은 주로 혈관이나 신경을 통하여 전파되므로 그 감염의 전파경로나 이환된 부위가 일정한 경향을 보이는데 부비동이나 비강에서 시작하여 비인두, 측두하간극, 인두주위간극, 안와의 이환이 흔하고, 안와후방병소, 혹은 해면정맥동을 통하여 두개저와 뇌로 전파된다⁸⁾. 특히 mucormycosis의 경우에 혈관침입시에는 주로 동맥혈관을 침범하여 혈전을 만들고 빈혈을 동반한 색전화(embolization)와 함께 주위 조직의 괴사, 경색증을 야기하며¹⁶⁾ 두개로 진행된 경우에도 대개 경색증이나 농양을 형성하게 된다⁵⁾. 본 증례의 경우에도 처음 내원시에는 부비동과 비강, 비인두, 양측 협부 종창 등을 보이다가 두번째 내원시에는 병소가 측두하간극, 비인두주위간극, 안와, 해면정맥동, 두개저와 뇌로까지 전파된 것이 관찰되어 전파경로에서도 유사한 양상을 보여주었다. 다만 신경을 통하여 전파되는 경우에는 관련된 신경에 따라 뇌의 특정한 부위에서 농양이나 경색증이 관찰되고 III, IV, VI 뇌

신경마비가 일어나는 경우 직접적인 안와의 이환이 없더라도 안구돌출, 안구운동의 불안정 등이 나타날 수 있다. 본 증례에서는 넓은 범위에서 불특정한 패턴으로 관찰되어 신경을 통한 전파는 아니라고 생각된다.

진균감염의 치료는 일반적으로는 소파술로 관련 부위를 제거하고 항진균제를 투여하는 것이다. aspergillosis의 경우에는 대체로 치료가 가능하며 간혹 재발되나 rhinocerebral mucormycosis의 경우에는 항진균제의 투여, 외과적 절제술, amphotericin-B¹⁷⁾, 고압산소 등으로 치료하는 경우에도 예후는 불량하다^{1, 2)}. 본 증례의 경우에는 초진시 Caldwell-Luc 수술, 소파술과 더불어 항생제를 투여하였으나 별다른 증상의 호전이 없이 병소가 보다 확장되고 널리 전파되었으며 안와하부에 농양이 생긴 채로 재입원하였다.

진균감염의 확진은 지금까지 생검에 의해 이루어져 왔으며 이때 유격균사의 존재를 확인하는 것과 더불어 특정진균을 검출하여 진단하여 왔다. 이에 따라 본 증례에서는 임상소견과 진단영상 소견이 진균감염과 매우 유사하였음에도 불구하고 생검과 일반미생물검사를 통하여 특정진균이 발견되지 않아 처음 내원시 비특이성 감염으로 확진되었다. 그 후 확진에 따른 항생제투여와 외과적 절제술에도 불구하고 환자는 증세의 호전이 없이 오히려 더욱 악화되는 경향이 있어 재입원하게 되었으며 추가적인 수술을 기다리고 있는 상태이다.

이에 따라 저자들은 이번 증례를 경험하고 다음의 두가지를 제안하고자 한다. 첫째로 비록 생검이나 일반미생물검사에서 특정진균이 발견되지 않았다고 하더라도 임상검사나 진단영상검사에 있어서 진균감염과 유사한 특징들이 나타나는 안면부에 발생한 광범위한 염증환자에 있어서 진균감염의 가능성을 고려하여 치료하여야 하며 환자의 계속검사 기간의 간격을 대폭 단축하여야 한다. 둘째로 실지로 비특이성 감염으로 항생제에 내성이 생긴 새로운 원인균에 의한 감염가능성이 존재할 수 있으며 이에 따라 이차수술시에는 원인균에 대한 보다 광범위하고 치밀

한 검사가 실시되어야 하며 유사증례에 대한 임상경험의 축적이 절실히 요구된다.

IV. 결 론

저자들은 서울대학교 치과병원에 상악골의 동통 및 불편감을 주소로 내원한 환자에서 임상검사와 진단영상검사 및 조직병리학적 검사를 통하여 임상검사와 진단영상검사에 있어서는 진균 감염과 그 특징이 유사하나 조직병리학적 소견에 의하여 비특이성 감염이라고 확진된 본 증례를 통하여 다음과 같은 결론을 얻었다.

1. 환자는 질병으로 당뇨병을 앓고 있었으며 임상적으로 코막힘과 두통, 양측성 협부 종창, 좌측 상순의 지각이상, 구개골의 일부 괴사와 궤양이 관찰되었다.
2. 처음 내원시 일반방사선사진에서 상악골의 전반적 파괴, 상악동과 비강내 방사선불투과상, 상악동내 점막비후 등이 관찰되었고 CT와 MRI를 통하여 상악동의 전벽 및 내벽의 파괴, 사골동과 접형동, 비인두의 이환과 상악동 내를 채우고 있는 연조직 종괴 내부에서 방사선 불투과성 핵을 갖는 원형의 방사선투과상들이 관찰되었다.
3. 생검과 일반미생물검사에서 특정세균이나 진균이 확인되지 않았다.
4. Caldwell-Luc 수술과 소파술, 항생제 투여후에도 오히려 상태가 악화되었다.
5. 진단영상검사상 두번째 내원시에는 병소가 안와, 해면정맥동, 비인두주위간극, 두개저와 뇌로 확산되었다.

참고문헌

1. Daniel S, Palvlos ED, Joseph E : Rhinocerebral aspergillosis in patient undergoing bone marrow transplantation. *Ann Oto Rhinol Laryngol* 103:345-351, 1994.
2. Samuel D, Gerald PB : Orofacial aspergillosis in acute leukemia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 59:499-504,

- 1985.
3. Hauman CHJ, Raubenheimer EJ : Oral mucormycosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 68:624-627, 1989
4. Kemper J, Kuijper EJ, Mirc PGB, Balm AJM : Recovery from rhinocerebral mucormycosis in ketoacidotic diabetic patient. *J Laryngol Otol* 107:233-235, 1993.
5. Centeno RS, Bentson JR, Mancuso AA : CT scanning in rhinocerebral mucormycosis and aspergillosis. *Radiology* 140:383-389, 1981.
6. Kristensen S : Fungal infection of the maxillary sinus. *Rhinology* 22:281-284, 1984.
7. Weber AL : Inflammatory diseases of the paranasal sinuses and mucocoeles. *Otolaryngol Clin North Am* 21:421-437, 1988.
8. Peter MS, Margaret B : Sinonasal cavities; Inflammatory diseases, tumors, fracture, and postoperative findings. In Peter MS, Hugh DC (3rd eds): *Head and Neck Imaging*. St. Louis, Mosby, 1996.
9. McGill TJ, Simpson G, Healy GB : Fulminant aspergillosis of the nose and paranasal sinuses: a new clinical entity. *Laryngoscope* 90:748-754, 1980..
10. Robb PJ : Aspergillosis of the paranasal sinuses: a case report and historical perspective. *J Laryngol Otol* 100:1071-1077, 1986.
11. Kameswaran M, Al-Waddei A, Khurana P : Rhinocerebral aspergillosis. *J Laryngol Otol* 106:981-985, 1992.
12. Shugar JMA, Som PM, Robbins A : Maxillary sinusitis as a cause of swelling. *Arch Otolaryngol* 108:507-508, 1982.
13. Romett JL, Newman RK : Aspergillosis of the nose and paranasal sinuses. *Laryngoscope* 91:764-766, 1981.
14. Stammberger H, Jakse R, Beaufort F : Aspergillosis of the paranasal sinuses: x-ray diagnosis, histopathology, and clinical aspects. *Ann Oto Rhinol Laryngol* 93:251-256, 1984.
15. Kumazawa H, Zehm S, Nakamura A : CT findings of aspergillosis in the paranasal sinuses. *Arch Otorhinolaryngol* 244:77-83, 1987.
16. Finn DG, Farmer JC : Chronic mucormycosis. *Laryngoscope* 92:761-766, 1982.
17. Myerowitz RL, Guggenheimer J, Barnes L : Infectious diseases of the head and neck. In: Barnes L. ed. *Surgical pathology of the head and neck*. New York, Marcel Dekker Inc, 1771-1822, 1985.

NONSPECIFIC INFLAMMATION IN THE FACE

Young-Min Hyun, Rae-Chung Park, Hwan-Sug Jung,
Soon-Chul Choi, Tae-Won Park, Dong-Soo You

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Seoul National University

Patient with complaints of swelling, pain in the maxillary region and discomfort visited Seoul National University Dental Hospital in August last year. Clinical examination and diagnostic imagings implied he was suffered from fungal hyphal infection but no causative fungus was found by the histopathologic and microbiologic investigation. Therefore he was diagnosed with nonspecific inflammation. But as yet, we do think this case is very similiar to some kinds of mucormycosis. So we presented this case for more thorough discussion.

Followings are founded in the examination.

1. Patient had suffered from Diabetes mellitus and complained of stuffness, headache, swelling in buccal cheeks and paresthesia. And we found more maxillary bony destruction and ulcer with elevated margin in the palate by clinical examination .
2. In the first visit, Plain films revealed general bony destruction of the maxilla, radiopaqueness in the sinonasal cavities. CT and MRI showed soft tissue mass filled in the paranasal sinus except frontal sinus and bony destruction in involved bones.
3. No causative bacteria and fungus was found in the biopsy and microbiologic cultures.
4. Caldwell-Luc operation and curettage were carried and antibiotics were taken for 4 months. But now he was worse than in the past.
5. In the second visit, involvement of orbit, parapharyngeal sinus, clivus, cavernous sinus and middle cranial fossa were seen clearly in the CT and MRI.

Key word : Nonspecific inflammation, fungal hyphal diseases, CT, MRI

EXPLANATION OF FIGURES

- Fig. 1.** Maxillary bony destruction and radiopaque spots among soft tissue swelling are seen in the panoramic view.
- Fig. 2.** PNS CT shows bony destruction of palatal bone, medial wall of maxillary sinus and nasal bone. And involvement of sphenoidal and ethmoidal sinus is seen.
- Fig. 3.** Extension to the orbit, infratemporal fossa and middle cranial fossa is seen in the PNS CT.
- Fig. 4.** Soft tissue mass with heterogeneous signal intensity in T1WI, with low signal intensity in the T2WI and with irregular enhancement in the postcontrast imaging is detected in the PNS MRI.
- Fig. 5.** In the brain MRI meninges in the middle cranial fossa is thickened, diffuse enhancement is seen and both clivuses are involved.

