

기관지 폐쇄성 폐렴 및 대량 객혈을 동반한 Aspergillus에 의한 기관지결석증 1례

분당제생병원 호흡기-알레르기 내과¹, 진단병리과²
최창규¹, 류진경¹, 배진수¹, 황태준¹, 백소야², 김도훈¹, 최정희¹

A Case of Broncholithiasis Caused by Aspergillus with Broncho Obstructive Pneumonia and Massive Hemoptysis

Chang-Kyu Choi, M.D.¹, Jin-Kyung Ryu, M.D.¹, Jin-Soo Bae, M.D.¹, Tae-Jun Hwang, M.D.¹, So-Ya Paik, M.D.², Do-Hoon Kim, M.D.¹, Jeong-Hee Choi, M.D.¹

Department of Pulmonology and Allergy¹, Department of Diagnostic Pathology², Bundang Jesaeng General Hospital, Seongnam, Korea

A broncholith is a calcified mediastinal lymph node, which partially or completely erodes into the bronchial lumen, and is related to the late tissue response to healing of granulomatous pulmonary infections, most commonly histoplasmosis or tuberculosis. However, there have been a few reports on broncholithiasis caused by *Aspergillus*. We experienced a case of broncholithiasis caused by *Aspergillus*, with broncho-obstructive pneumonia and massive hemoptysis. A 39 year-old woman was admitted to our hospital with right middle lobar pneumonia. On the fourth day following admission, massive hemoptysis developed, so an emergent bronchial artery embolization was performed. On the ninth day following admission, a broncholith on the lateral segmental bronchus of the right middle lobe was found by bronchoscopy, which was proved to be *Aspergillus* hyphae with calcification on histological examination. After the simple bronchoscopic removal of the broncholith and empirical antibiotic therapy, the patient recovered without any complications. (*Tuberc Respir Dis* 2005; 59: 104-108)

Key words : Broncholithiasis, Aspergillus, Pneumonia, Hemoptysis

서 론

기관지결석 (broncholith)은 기관지 주변의 석회화된 임파절이 미란을 일으켜 기관 및 기관지 내로 이동된 것이다¹. 이러한 기관지결석증 (broncholithiasis)은 비교적 드문 질환이며 객혈을 동반하는 기침, 결석에 의한 기관지 폐쇄와 관련하여 발열, 오한, 화농성 객담 등의 증상을 보일 수 있다². 결석의 대표적 원인 질환으로는 결핵과 histoplasmosis가 있으며³, 그외에도 cryptococcosis 와 같은 육아종을 형성하는 감염이 결석을 형성할 수 있는 질환으로 알려져 있다⁴. 그러나 Aspergillus에 의한 기관지결석에 대한 보고는 거의

없었다. 국내에서는 1999년 권 등이 보고한 1례가 있을 뿐이며⁵, 더욱이 결석에 의한 대량 객혈에 관한 보고는 없었다.

또한, Aspergillus에 의한 폐질환은 흔히 숙주의 면역상태나 기저질환에 따라 알레르기 기관지폐 아스페르길루스증 (ABPA; allergic bronchopulmonary aspergillosis), 진균종 (aspergilloma), 침습성 폐 아스페르길루스증 (IPA; invasive pulmonary aspergillosis) 등으로 분류하는데⁶, Aspergillus에 의한 기관지결석은 어느 분류에도 적합하지 않다.

이에 저자들은 평소 기저질환이 없던 환자에서 결석에 의한 기관지 폐쇄성 폐렴 및 대량 객혈을 보였고, 기관지내시경으로 이를 제거후 조직검사상 Aspergillus에 의한 기관지결석임을 증명한 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 39세, 여자

Address for correspondence : **Jeong-Hee Choi, M.D.**
Department of Pulmonology and Allergy, Bundang Jesaeng General Hospital, 255-2 Seohyun-dong Bundang-gu, Seongnam-si, Kyunggi-do.
Phone : 031-779-0695 Fax : 031-779-0897
E-mail : mdqueen@dmc.or.kr
Received : Mar. 21. 2005
Accepted : Jul. 11. 2005

주소 : 기침, 혈성객담

현병력 : 내원 4일전부터 발생한 기침과 혈성객담을 주소로, 개인의원 방문하여 시행한 흉부 X-선 사진상 우측 폐렴이 의심되어 본원으로 전원되었다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없음

이학적 소견 : 혈압 140/90 mmHg, 맥박수 분당 100회, 호흡수 분당 20회, 체온 37.4C 였다. 의식은 명료하였으며 급성병색을 보였고 청색증은 없었다.

흉부청진상 우하측 폐야에서 호흡음이 감소되어 있었다.

검사실 소견 : 내원당시 말초혈액 검사상 혈색소 12.4 g/dL, 백혈구 18,100/mm³ (호중구 81.4%, 임파구 9.8%, 단핵구 8.4%, 호산구 0.4%), 혈소판 403,000/mm³, ESR 67 mm/hr 이었다. 혈청 생화학 검사상 AST 20 IU/L, ALT 11 IU/L, BUN 7.3 mg/dL, Cr 0.7 mg/dL 였다. 동맥혈 가스 검사상 pH 7.432, pCO₂ 42.8 mmHg, pO₂ 148.9 mmHg, SaO₂ 99% 였다. 내원당시 시행한 객담 항산균 도말 및 배양 검사는 음성이었고, 객담 그램 염색 및 배양 검사도 음성이었다. 흉부 X-선 정면 및 우측면 촬영상 우중엽의 미만성 경결이 관찰되었다 (Fig. 1).

치료 및 경과 : 지역사회획득 폐렴에 준하여 항생제 투여중 입원 4일째 기침이 악화되면서 3시간동안 100cc 이상의 대량객혈이 있어 응급으로 기관지동맥 조영술을 시행하였고 우중엽 기관지동맥에 출혈 소견이 있어 기관지동맥색전술을 시행하였다 (Fig. 2). 이후 더 이상의 객혈은 없었다. 입원 8일째 시행한 흉부 전산화단층촬영상 우중엽에 air bronchogram을 동반한 미만성 경결이 있었으며 명확한 기관지내 폐쇄는 없었다 (Fig. 3). 입원 9일째 시행한 기관

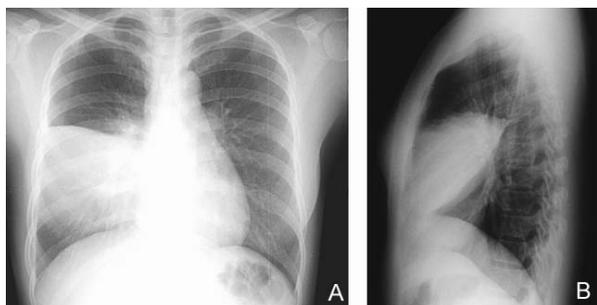


Figure 1. Chest PA(A) and right lateral view(B) show diffuse consolidation of right middle lobe.

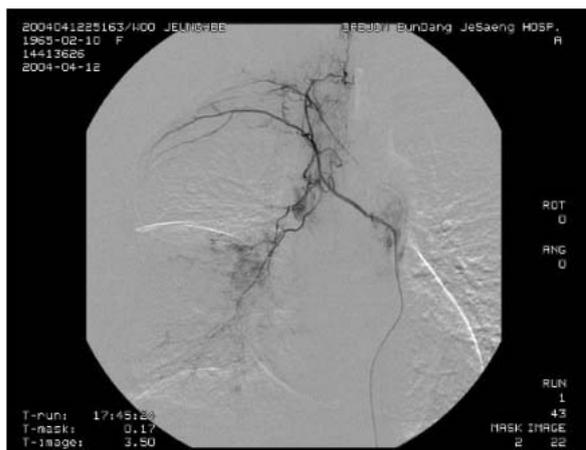


Figure 2. Bronchial arteriogram shows diffuse blushing on right middle lobe area. Bronchial artery embolization was performed.



Figure 3. Chest CT shows diffuse consolidation with air bronchogram on right middle lobe.

지내시경 검사상 우중엽 외측구역기관지의 입구를 막고 있는 검은색을 띠는 종괴가 관찰되었으며 (Fig. 4A), 검자로 조심스럽게 잡았더니 덩어리째로 달려 올라왔다. 종괴가 제거된 부위에 약간의 출혈이 발생하였는데 종괴가 기관지에 단단히 부착되어 있었던 것으로 보였다. 육안상 검은색과 노란색이 섞인 불규칙하고 단단한 표면을 가진 돌 모양이었으며 (Fig. 4B), 조직검사에서 석회화를 동반한 Aspergillus의 균집이었다 (Fig. 5). 환자는 항생제 치료와 기관지결석의 제거로 폐렴이 완전히 호전되었다 (Fig 6). 조직검사후 Aspergillus에 의한 폐질환을 고려하여 시행한 Aspergillus에 대한 피부단자시험은 음성이었다.

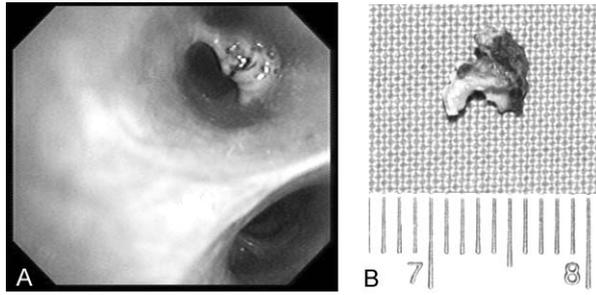


Figure 4. A. Bronchoscopy shows black-colored small mass covered with mucoid material on orifice of right middle lobar bronchus, which obstruct right lateral segmental bronchus. B. The photograph shows 6 mm sized, black and yellow colored, spiky and stone-like material which removed with forcep.

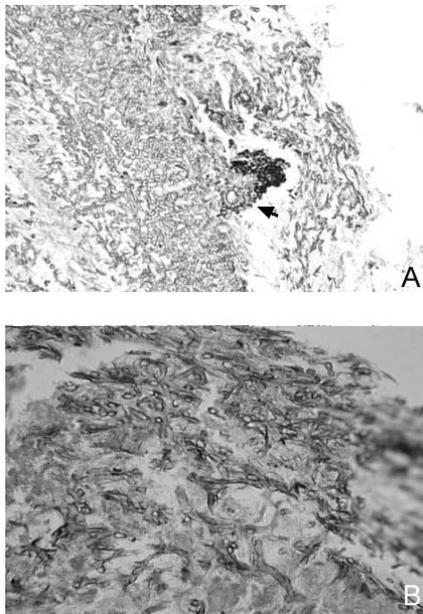


Figure 5. Histologic finding with GMS stain shows an aggregate of fungal hyphae with acute angle branching and fruiting bodies (Arrow) which consistent with *Aspergillus*. A. GMS x400, B. GMS x1000

고 찰

기관지결석은 석회화된 종격동 임파절이 기관지내에 존재하는 것으로, 흔히 육아종성 폐감염후에 종격동 임파절이 석회화되고 장시간에 걸쳐 서서히 미란(erosion)에 의해 기관지내로 이동하게 된다¹. 기관지결석의 원인은 histoplasmosis와 결핵이 가장 흔한 것으로 알려져 있고³, 그밖에 coccidioidomycosis, actinomycosis, cryptococcosis, norcardiosis 등이 보고되



Figure 6. Chest PA shows improved consolidation of right middle lobe after removal of broncholith.

었다⁴. 본 증례처럼 *Aspergillus*에 의한 기관지결석은 매우 드문데, 1986년 Francis 등이 결석의 원인을 분석한 결과 중 1예에서 *Aspergillus*가 동정되었음을 보고한 바 있고⁷, 국내에서는 1999년 권 등이 만성적으로 반복되는 호흡기 감염과 폐허탈을 보이는 환자에서 처음으로 *Aspergillus*에 의한 기관지결석을 보고하였다⁵.

결석의 정확한 발생률은 알려지지 않았고, 대부분 우측 기관지에 발생하며⁸, 50-60대에 호발하는데 남녀 비율은 거의 같다¹. 기관지결석의 주증상으로는 화농성 객담, 객혈, 발열 및 흉통 등이 있으며, 매우 드물게 결석의 배출 (lithoptysis)이 특징적으로 나타날 수 있다². 이러한 비특이적인 호흡기 증상들과 폐내석회화가 동반되었을시에는 반드시 기관지결석을 한번쯤은 의심해 보아야 한다⁹. 결석의 증상 중 화농성 객담과 발열은 기관지 폐쇄성 폐렴에 기인하며, 객혈은 보통 기관지의 미란과 연관되어 생성된 육아조직에서 발생하지만, 폐동맥 분지의 직접적인 미란에 의해서 발생하기도 하는데 이 경우 주로 대량객혈을 유발할 수 있다¹⁰. 본 증례에서 결석이 기관지에 단단히 부착되어 있었고 기관지동맥조영술상 출혈부위가 일치하는 것으로 보아 결석에 의한 기관지 동맥의 직접적인 미란에 의해서 대량객혈이 발생하였을 것으로 생각한다. 그 밖에도 결석에 의한 합병증으로 기관지 식도루

및 기관지 대동맥루, 기관지확장증, 무기폐, 흉막내 결석, 농흉, 기관지 내 염증성 유두종의 발달 등이 있으며⁶, Arrigoni 등은 수술한 증례의 4% 에서 기관지 상피암의 병발 등을 보고하여 보존적 치료시 추적관찰이 필요하다³.

기관지결석의 진단은 단순 흉부 X-선상 석회화된 림프절이 흔한 소견이고, 석회화된 림프절의 해부학적인 근위부에 국소적인 무기폐나 폐렴이 존재하면 더욱 의심해 볼 수 있다⁹. 전산화단층촬영으로는 기관지내 석회화를 보여주며, 기관 및 기관지 주변의 석회화된 종괴 (65%), 침윤된 소견 (56%), 무기폐 (23%), 혹은 폐실질내 종괴 (42%)를 관찰할 수 있다¹. Conces 등은 기관지결석을 의심할 수 있는 세가지 소견을 1) 기관지내 또는 기관지주위의 석회화된 임파절, 2) 기관지폐쇄에 따른 변화 : 무기폐, 폐침윤, 기관지확장증, 공기잡이 (air trapping), 3) 연관된 연조직 종괴가 없음으로 정리하였다¹¹. 기관지결석의 확진은 기관지경으로 직접 결석을 확인하는 것이지만, 민감도가 28%로 낮아³ 전산화단층촬영과 기관지경을 병행하는 것이 결석의 진단에 가장 효과적인 방법으로 추천하고 있다¹². 본 증례에서는 우중엽 폐렴이 있었으며, 단순 흉부 X-선과 흉부 전산화단층촬영에서는 기관지결석의 소견이 없었으나 기관지경을 시행하였을 때 우중엽 외측 구역기관지를 막고 있는 결석을 확인할 수 있었다.

기관지결석의 치료는 기관지경을 이용한 결석의 제거와 개흉술을 이용한 결석의 제거 및 필요에 따라 비가역 손상을 받은 폐의 부분적 절제술 등이 있는데, 결석의 크기와 위치, 합병증의 유무에 따라 결정한다⁸. 증상이 없는 경우는 추적 관찰하고 크기가 작은 유동적인 결석은 기관지내시경으로 제거한다⁸. 만성적으로 재발하거나 대량 객혈이 발생된 경우, 폐쇄성 폐렴이 재발된 경우, 기관지 식도루를 형성한 경우 등에서는 침범된 폐를 수술적으로 절제할 수 있다¹⁰. 권 등⁵이 보고한 예와 같이 저자들도 기관지내시경을 이용하여 결석을 제거하였으며 이후 환자는 호전되어 투약없이 외래에서 추적관찰중이다.

*Aspergillus*는 주변 환경에 흔히 존재하는 진균으로 인체 감염을 일으키는 균주는 *A. fumigatus*, *A.*

flavus, *A. nigar* 에 국한되어 있다⁶. *Aspergillus*에 의한 폐질환은 숙주의 면역상태나 기저질환에 따라 다양하게 나타나며, 흔히 임상적으로 천식 환자에서 진균포자에 대한 과민반응으로 나타나는 알레르기 기관지폐 아스페르길루스증, 면역저하 환자에서 나타나는 침습성 폐 아스페르길루스증, 면역기능이 정상인 환자에서 결핵성 공동이나 기관지확장증 등 손상된 조직내에 유동성의 진균구를 형성하는 진균종 등 세가지로 분류한다⁶. 이 밖에도 경하게 면역저하된 환자에서 국균종과 침습성 폐 아스페르길루스증의 중간형태인 semi-invasive aspergillosis의 보고가 있었다¹³. 또한, 최근에 국내에서는 공동 형성없이 기관지내에 발생한 국균종 (endobronchial aspergilloma) 2례를 보고하였는데, 모두 면역기능이 정상인 환자에서 발생하였고 폐쇄성 폐렴, 대량객혈 등의 임상양상을 보였으며, 내시경적으로 완전 제거후 특별한 약물 치료없이 호전되어, 보편적인 *Aspergillus*에 의한 폐질환의 임상적 분류에 들지 않은 아주 드문 증례임을 주장하였다^{14,15}. 본 증례에서는 면역기능이 정상인 환자에서 국소적인 형태로 기관지결석을 형성한 경우로서 위의 여러가지 발병 형태와는 전혀 다른 양상이다. *Aspergillus*가 기관지결석을 형성하는 기전은 알 수 없으나 다른 원인 질환과 마찬가지로 폐문부나 기관지 주위로 육아종성 임파선염을 일으킨 후 일련의 단계를 거쳐서 결석을 형성하였거나, 혹은 흡인된 *Aspergillus*가 어떠한 이유로 기관지내에 정착, 증식하여 석회화되었을 것으로 추정할 수 있다. 더욱이 후자의 경우 이미 보고된 기관지내 아스페르길루스종의 임상 양상이 기관지결석과 거의 유사한 점을 고려한다면^{14,15}, 흡인된 *Aspergillus*가 기관지내에서 증식하여 기관지내 아스페르길루스종을 만들고 이것이 드물게 석회화되어 기관지결석이 되었을 가능성이 있다. 이 부분에 대해서는 더 많은 증례의 고찰 및 분석이 필요하리라 생각한다.

요 약

저자들은 우중엽 폐렴 환자에서 대량객혈이 발생하여 기관지동맥색전술을 시행하고, 기관지내시경상 우

중엽 외측 구역기관지를 막고 있는 기관지결석을 발견하여 조직검사상 Aspergillus에 의한 기관지결석임을 증명하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Trastek VF, Pairolero PC, Ceithaml EL, Pehler JM, Payne WS, Bernatz PE. *Surgical management of broncholithiasis. J Thorac Cardiovasc Surg* 1985;90:842-8.
2. Galdermans D, Verhaert J, van Meerbeeck J, de Backer W, Vermeire P. *Broncholithiasis: present clinical spectrum. Respir Med* 1990;84:155-6.
3. Arrigoni MG, Bernatz PE, Donoghue FE. *Broncholithiasis. J Thorac Cardiovasc Surg* 1971;62:231-7.
4. Dixon GF, Donnerberg RL, Schonfeld SA, Whitcomb ME. *Advances in the diagnosis and treatment of broncholithiasis. Am Rev Respir Dis* 1984;129:1028-30.
5. Kwon MY, Oh YJ, Ryu JS, Kwak SM, Lee HL, Cho CH, et al. *A case of broncholithiasis caused by aspergillus. Tuberc Respir Dis* 1999;46:136-41.
6. Sugar AM, Olek EA. Aspergillus syndromes, mucormycosis, and pulmonary candidiasis. In: Fishman AP, Elias JA, Fishman JA, Grippi MA, Kaiser LR, Senior RM, editors. *Fishman's pulmonary diseases and disorders*. 3rd ed. New York: McGraw-Hill, Inc.; 1998. p. 2265-87.
7. Cole FH, Cole FH Jr, Khandekar A, Watson DC. *Management of broncholithiasis. Ann Thorac Surg* 1986;42:255-7.
8. Faber LP, Jensik RJ, Chawla SK, Kittle CF. *The surgical implication of broncholithiasis. J Thorac Cardiovasc Surg* 1975;70:779-89.
9. Wedel MK, Hanson AS, Heitoff K. *Broncholithiasis. Minn Med* 1984;67:139-40.
10. Igoe D, Lynch V, McNicholas WT. *Broncholithiasis: bronchoscopic vs. surgical management. Respir Med* 1990;84:163-5.
11. Conces DJ Jr, Tarver RD, Vix VA. *Broncholithiasis: CT features in 15 patients. AJR Am J Roentgenol* 1991;157:249-53.
12. Kowal LE, Goodman LR, Zarro VJ, Haskin ME. *CT diagnosis of broncholithiasis. J Comput Assist Tomogr* 1983;7:321-3.
13. Geffer WB, Weingrad TR, Epstein DM, Ochs RH, Miller WT. "Semi-invasive" pulmonary aspergillosis: a new look at the spectrum of aspergillus infections of the lung. *Radiology* 1981;140:313-21.
14. Kim JS, Rhee YM, Kang SM, Ko WK, Kim YS, Lee JG, et al. *A case of endobronchial aspergilloma. Yonsei Med J* 2000;41:422-5.
15. Kim TH, Yong BJ, Kim YK, Lee YM, Kim KU, Uh ST, et al. *A case of endobronchial aspergilloma with massive hemoptysis. Tuberc Respir Dis* 2004;57:589-93.