

양측성 실명을 동반한 접형동 아스페르길루스증 1 예

윤준필 · 이세진 · 이 준 · 김주현 · 노현두
영남대학교 의과대학 신경과학교실

A case of Bilateral Near Blindness Secondary to
Isolated Sphenoid Sinus Aspergillosis with Headache

Jun Pil Yoon, Se Jin Lee, Jun Lee, Ju Hyun Kim, Hyun Doo Noh

*Department of Neurology,
College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea*

—Abstract—

Sphenoid sinus aspergillosis is notorious for its serious complications, such as permanent cranial nerve deficits and possible death. The most common associated symptoms are headache, followed by visual changes, and cranial nerve palsies. Because of an insidious onset, frequently resulting in missed and delayed diagnosis, sphenoid sinus aspergillosis is a potentially lethal medical condition. We report a case of visual loss secondary to isolated sphenoid sinus aspergillosis.

A 69-year-old man presented to our hospital with the complaint of headache. The headache started one year previously and was described as severe dull pain localized bilaterally to the temporo-orbital region. The patient took daily NSAIDs for the pain. The neurological examination was normal. The MRI of the brain showed a left sphenoid sinusitis. A transnasal endoscopic superior meatal sphenoidotomy was performed. Aspergillosis was confirmed after a surgical biopsy was obtained. The patient was discharged from hospital without antifungal therapy. One month later, the patient complained of headache and loss of vision bilaterally. The orbital MRI showed a left cavernous sinus and bilateral optic nerve invasion. The loss of visions was permanent.

In our case, the diagnosis was delayed; antifungal agents were not administered after surgery and the patient lost his vision as a result. Therefore, early diagnosis and proper treatment are important. Although the treatment of an invasive type of aspergillus has not

been established, surgical removal of a nidus and aggressive antifungal therapy are recommended.

Key Words: Aspergillosis, Isolated sphenoid sinus

서 론

부비동염의 주된 원인은 세균성이다. 전신적인 면역 이상이 있거나 알려지가 있는 경우에는 아스페루길루스 등의 진균에 의해서 부비동염이 발생할 수 있다. 부비동 아스페루길루스증에 의한 실명은 드물고 접형동 단독으로 침범한 경우는 더욱 드물다.¹⁾

접형동 질환은 드물지만 영구적인 뇌신경 손상 및 사망등의 심각한 부작용을 동반할 수 있으므로 치료자는 이에 대한 진단 및 치료에 대해 잘 알고 있어야한다.²⁾ 가장 흔한 증상으로 두통, 시각 장애 및 뇌신경 마비 등이 있다.³⁻⁸⁾ Lawson과 Reino⁴⁾의 보고에 위하면 접형동 질환에 의한 시력 손실 및 제 3-6 뇌신경 마비의 발병률은 각 12%이다. 접형동 질환에서 실명은 흔하지 않지만 영구적인 손상을 방지하기 위해 적절한 치료가 필요하다.²⁾ 치료는 수술과 항진균제 투약을 포함한 다각도적 접근이 필요하다.⁹⁾

저자들은 실명을 보인 접형동 아스페루길루스증 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

내원 1년전 *Herpes zoster* 감염 후 간헐적인 두통 증세를 보이던 69세 남자 환자로 다른 병원에서 뇌자기공명영상(Brain magnetic resonance image, BMRI) 촬영 후 이상 없다는 판정을

받고 수개월간 약물 치료를 하였으나 증상이 호전 되지 않아 내원하였다. 두통은 양측 측두엽 및 눈 주위로 묵직한 느낌이 지속적으로 점차 심해지는 양상을 보이고 있었으며 오심과 구토는 없었고 광협오증, 음협오증도 없었다. 고혈압이나 당뇨, 암, 편두통 등의 병력은 없었다. 이학적 검사 및 신경학적 검사는 모두 정상이었다. 말초 혈액 검사에서 백혈구 7,480/mm³, 혈색소 12.5 g/dL, 혈소판 330,000/mm³, 적혈구 침강속도는 1 mm/hr 이었고 공복시 혈당은 73 mg/dL, 식후 2시간째 혈당은 188 mg/dL 이었으며 간기능 검사를 포함한 혈액검사와 소변검사에서도 특이 소견이 없었다. BMRI에서 좌측 접형동에 시신경을 침범하는 종괴가 관찰되었으며(Fig. 1), 뇌척수액 검사상 압력은 120 mmH₂O, glucose 68 mg/dL, total protein 75 g/dL, chloride 122 mEq/L 이었고 결핵균, 진균, 세균 검사 및 매독균 검사는 모두 음성이었다. 부비동 전산화단층촬영(Paranasal sinus computed tomography, PNS CT)에서 좌측 접형동 내에 골용해성 변화(osteolytic change)를 보이는 연조직 음영의 종괴가 관찰되었다(Fig. 2). 환자는 약 1개월 후 이비인후과에서 비강을 통한 내시경적 상비도 접형골동절개술(transnasal endoscopic superior meatal sphenoidotomy)을 시행하였다. 수술 후 종괴의 조직 생검에서 아스페르길루스를 확인하였다. 환자는 수술 후 4일째 항진균제 치료 없이 퇴원하였다. 퇴원 10일 후 두통이 지속되어 재입원하였으며 입원 7

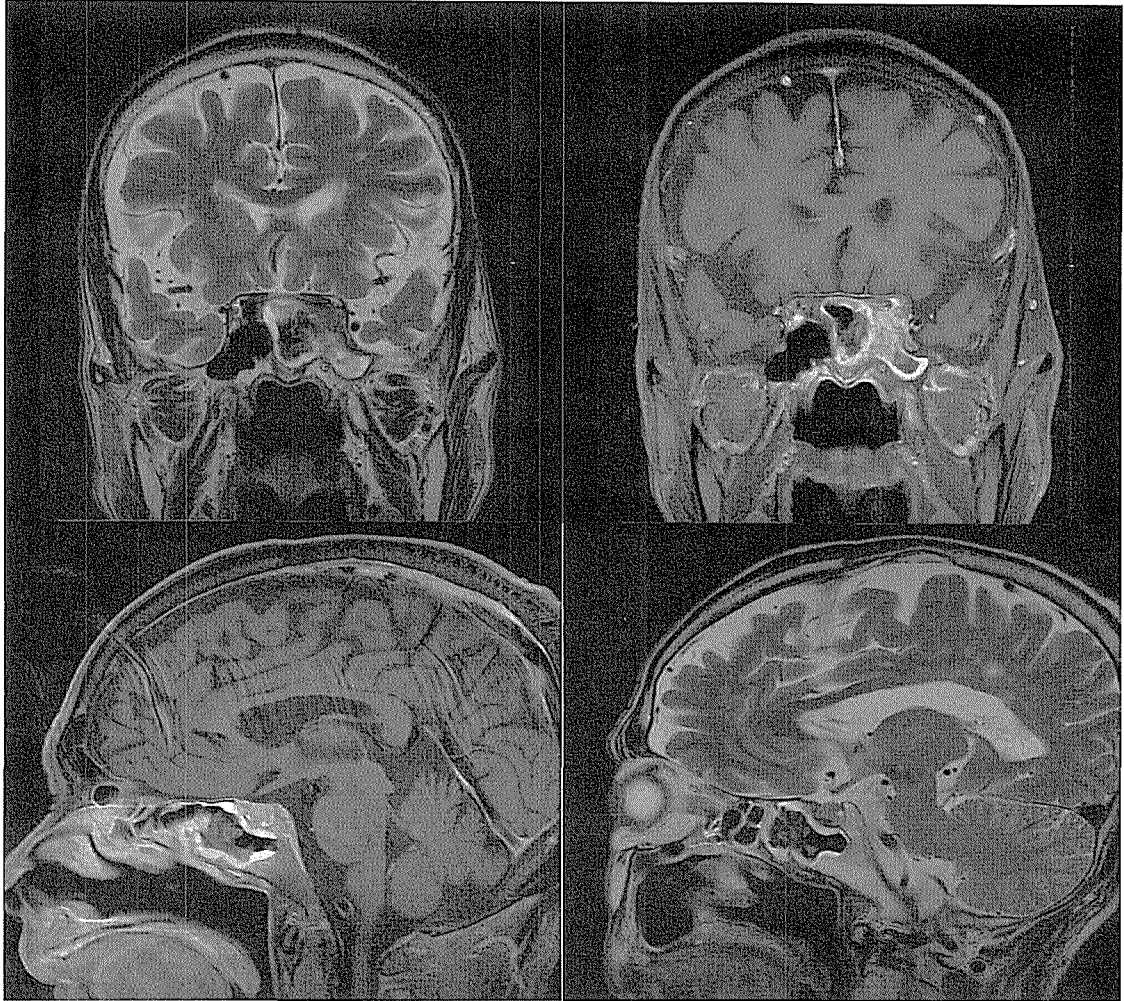


Fig. 1. Orbital MRI shows a left sphenoid sinus mass with optic nerve invasion.



Fig. 2. PNS CT shows a sphenoid mass with osteolytic change of sphenoid bone.

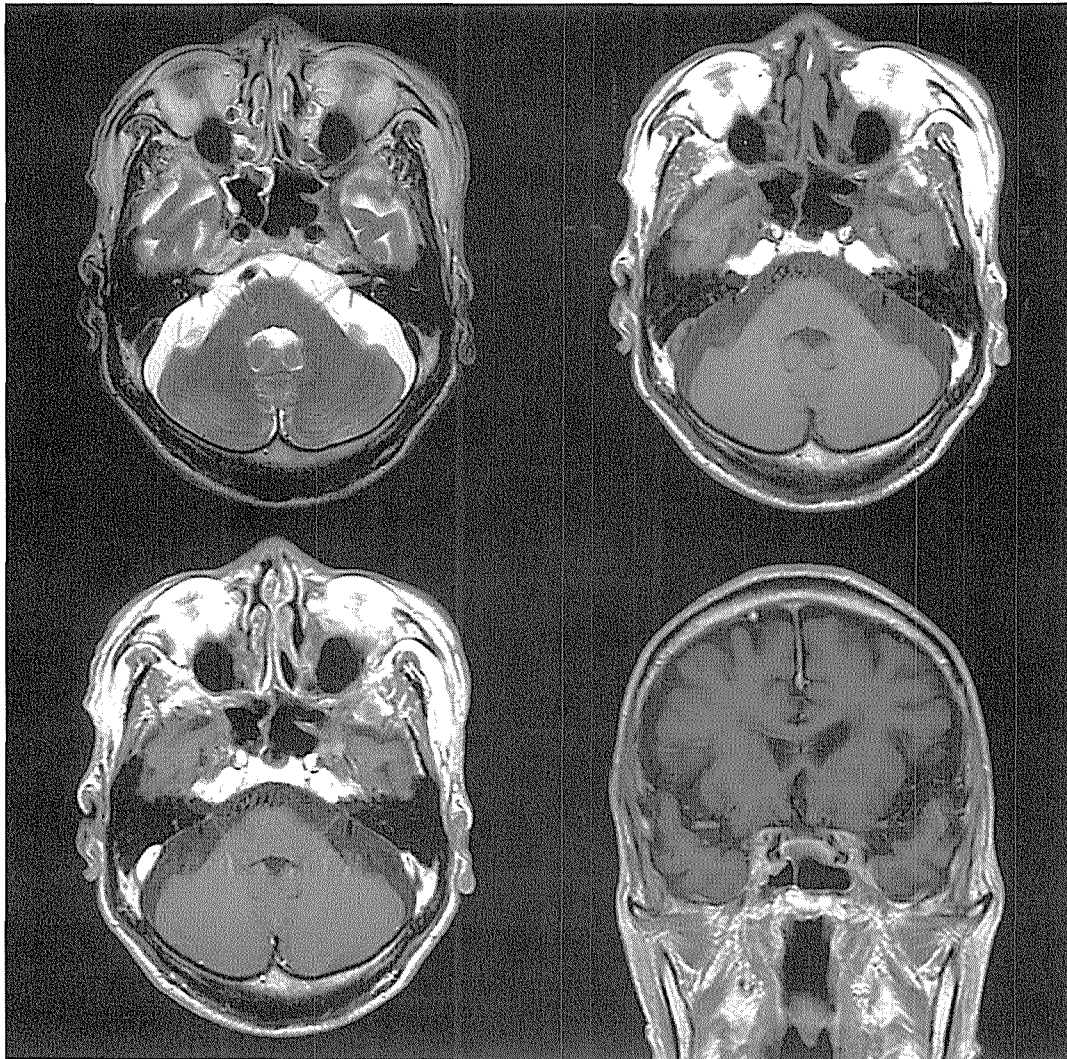


Fig. 3. Follow up MRI shows that left cavernous sinus and orbital apex lesions are more enlarged.

일째 환자는 좌측 눈의 시력 소실이 보였으며 점차 우측 눈의 시력 장애가 진행되어 입원 10 일째 우측 눈의 빛 인지(light perception)만 가능할 정도로 심해지고 양측의 대광반사 소실을 보였으나 안구 운동의 장애는 보이지 않았다. 안와 MRI에서 좌측 해면동 및 안첨(orbital apex) 부위가 침범된 소견(Fig. 3)을 보여 하루에 1 mg/kg 용량의 amphotericin B와 dexame-

thasone 10 mg을 유지하였으나 증상이 호전되지 않아 퇴원하였다.

고 찰

부비동은 해부학적 구조 상 감염이 비교적 흔하지만, 아스페르길루스에 의한 감염은 드물다. 부비동에 발생하는 아스페르길루스증은 알

레르기 반응(allergic reaction)형, 집락성 진균구(colonizing fungal ball)형, 침습형(invasive)으로 나뉜다. 이 중 알레르기 반응형이 가장 흔하여 만성 부비동염으로 수술하는 환자의 4~7%를 차지한다.¹⁰⁾ 집락성 진균구형은 기존의 질환으로 부비동 환기나 배출에 문제가 있는 경우에 주로 기회감염으로 올 수 있다.¹¹⁾ 침습성 중추신경계의 아스페르길루스증은 혈액 종양 등으로 인한 호중구 감소 환자, 장기이식 후 면역억제제를 이용하거나 악성 종양에 대한 화학요법을 받은 환자, 후천성면역결핍증후군(AIDS)과 같은 면역억제 환자들에서 주로 발생하고, 그 외에 간 부전, 쿠싱증후군, 만성 알코올증, 장기간 스테로이드의 사용, 당뇨병, 약물 중독, 외상과 연관되어 기회 감염 형태로 발생하며 주변 장기나 뇌를 침습하는 급성 전격성 부비동염을 일으킬 수 있으며 높은 사망률을 보인다.¹²⁾

가장 흔한 증상은 두통이다. 시각 장애는 두 번째로 흔한 증상³⁻⁸⁾으로 Lawson과 Reino⁴⁾의 보고에 의하면 시각 장애 증상은 악성 종양에서보다 흔한 것으로 보고되었다. 이외에도 안구운동장애 등의 뇌신경 마비, 분비물 증가, 율혈, 폐쇄감, 열 등을 보일 수 있다. 두개내 아스페르길루스증의 진단은 임상 양상이 비특이적이고, 뇌척수액 검사 소견도 보통 단백 농도의 약간 증가 등과 같은 비특이적인 소견만을 보일 수 있으며, 또한 균이 뇌척수액에서 배양되는 것은 드물기 때문에 어렵다.¹²⁾ 조기 진단을 위해서는 CT 또는 BMRI가 필요하며 확진은 조직 검사 표본의 병리 소견 및 배양이 필요하다.¹³⁾ 치료를 위해서는 전신적, 국소적으로 amphotericin B, 5-flucytosine, fluconazole 및 itraconazole 등과 같은 항진균제 투여와 수

술(단순한 조직 검사에서부터 근치적 수술까지 다양함)을 포함한 여러 개의 치료 전략이 필요하며, 아스페르길루스증이 두개내 대혈관 침입 시 뇌출혈 및 경색에 의한 급격한 악화를 일으킬 수 있으므로 진균에 대한 조기 수술적 절제가 결과를 호전시킬 수 있다고 한다.⁹⁾ 따라서 좀 더 빠른 시기에 근치적 수술을 시행하고 항진균제 치료와 병합함으로써 예후를 향상시킬 수 있다.¹³⁾ 보조적 약물 치료의 주축은 amphotericin B를 하루에 0.6~1.0 mg/kg의 용량으로 정맥내 투여하는 것이고, 적정 치료 기간은 알려져 있지 않으나 3 g 이상 투여된 경우도 있다.¹²⁾ 그 외에 itraconazole도 아스페르길루스에 효과가 있으며,¹⁴⁾ rifampin은 amphotericin B와 병용시 상승 효과가 있는 것으로 보고되었다.¹⁵⁾ Lipid-associated amphotericin B는 보통 amphotericin B보다 독성이 낮아서 더 많은 용량을 사용할 수 있으나, 침윤성 아스페르길루스증 치료에 기존의 약제보다 더 효과가 있는지는 아직 명확하지 않다.¹⁴⁾

이 증례에서 환자는 내시경적 수술 후 접형동 내 아스페르길루스증으로 확진 되었으나 항진균제 치료 없이 퇴원하였다. 퇴원 후 두통 및 좌안의 시력 소실로 재입원 하였으며 이후 증상이 악화되어 우안의 시력 소실까지 동반되어 안와 자기공명영상촬영 시행 후 양측 시신경, 좌측 해면동(cavernous sinus) 및 안첨(orbital apex)으로의 침범을 확인 후 항진균제 치료를 시행하였으나 영구적인 시력 소실이 남은 채 퇴원하였다.

결론적으로 면역기능에 장애가 없는 환자일 지라도 두통 및 안구 주위 통증 등 비특이적인 임상 양상을 호소하는 접형동 부비동염의 경우에도 뇌 영상 촬영 및 비강의 조직검사를 조기

에 시행하여 부비동의 아스페르길루스증을 반드시 감별하여 신경학적 증상이 나타나기 전에 조기에 수술 및 항진균제 병용 투여의 적극적인 치료를 시행하는 것이 시력 소실 및 안구운동신경 마비 등의 영구적인 신경학적 결손을 막고 환자의 예후에도 도움을 줄 것으로 보인다.

참 고 문 헌

1. Min YG, Kim HS, Lee KS, Kang MK, Han MH. Aspergillus sinusitis: clinical aspects and treatment outcomes. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1996 Jul;115(1):49-52.
2. Lee LA, Huang CC, Lee TJ. Prolonged visual disturbance secondary to isolated sphenoid sinus disease. *Laryngoscope* 2004 Jun;114(6):986-90.
3. Wang ZM, Kanoh N, Xu R, Dai CF, Chi FL, David I, et al. Isolated sphenoid sinus disease: an analysis of 122 cases. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2002 Apr;111(4):323-7.
4. Lawson W, Reino AJ. Isolated sphenoid sinus disease: an analysis of 132 cases. *Laryngoscope* 1997 Dec;107(12 Pt 1):1590-5.
5. Ruoppi P, Seppa J, Pukkila M, Nuutinen J. Isolated sphenoid sinus diseases: report of 39 cases. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000 Jun;126(6):777-81.
6. Martin TJ, Smith TL, Smith MM, Loehrl TA. Evaluation and surgical management of isolated sphenoid sinus disease. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2002 Dec;128(12):1413-9.
7. Cakmak O, Shohet MR, Kern EB. Isolated sphenoid sinus lesion. *Am J Rhinol* 2000 Jan-Feb;14(1):13-9.
8. Sethi DS. Isolated sphenoid lesions: diagnosis and management. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999 May;120(5):730-6.
9. Naim UR, Jamjoom A, Al HSS, Jamjoom ZA, Al SMO, Aziz SA. Cranial and intracranial aspergillosis of sino-nasal origin. Report of nine cases. *Acta Neurochir* 1996;138(8):944-50.
10. Willard CC, Eusterman VD, Massengil PL. Allergic fungal sinusitis: report of 3 cases and review of literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003 Nov;96(5):550-60.
11. Uri N, Cohen-Kerem R, Elmalah I, Doweck I, Greenberg E. Classification of fungal sinusitis in immunocompetent patients. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2003 Oct;129(4):372-8.
12. Sepkowitz K, Armstrong D. Space-occupying fungal lesions. In: Scheld WM, Whitley RJ, Durack DT. *Infections of the central nervous system.* 2nd ed. Philadelphia: Lippincott-Raven. 1997. p.741-62.
13. Kameswaran M, Al-Wadei A, Khurana P, Okafor BC. Rhinocerebral aspergillosis. *J Laryngol Otol* 1992 Nov;106(11):981-5.
14. Denning DW. Therapeutic outcome in invasive aspergillosis. *Clin Infect Dis* 1996 Sep;23(3):608-15.
15. William EB, Gail AM. Antifungal therapy. In: Kenneth LT, Joseph BM. *Infectious diseases of the central nervous system.* F.A Davis. 1993. p.328-43.