

상악동 털곰팡이증에 동반된 상악동 방선균증 1예

이한솔, 김민정, 배승일, 박정민, 현명수, 이충기, 허지안

영남대학교 의과대학 내과학교실

Simultaneous Actinomycosis with Mucormycosis in Maxillary Sinus

Han Sol Lee, Min Jung Kim, Seung Il Bae, Jung Min Park,
Myung Soo Hyun, Choong Ki Lee, Jian Hur

Department of Internal medicine, College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea

Actinomycosis is a rare subacute-to-chronic infection that causes sinus fistula, tract, or abscess due to the invasion surrounding the soft tissue. Actinomyces colonize the mouth, colon, and vagina. Mucosal disruption may lead to infection at virtually any site in the body. Cervicofacial infection accounts for 50-60% of all actinomycosis cases. The mandible and nasopharynx are the sites of predilection, but maxillary sinus infection is rare. Reported herein is a case involving a 57-year-old female with acute myeloid leukemia who had simultaneous actinomycosis with mucormycosis in the maxillary sinus.

Key Words: Actinomycosis, Mucormycosis, Maxillary sinusitis, Acute myeloid leukemia

서 론

방선균증은 구강, 대장, 질 등에 정상 균 무리로 상재하는 그람양성의 혐기성균인 방선균이 점막 관련 조직을 침범하는 만성 감염성 질환이다.^{1,2} 방선균은 외상이나 염증으로 점막의 손상이 있는 경우 주위 연부 조직을 침범하여 농양이나 누공을 형성한다.^{2,4} 점막이 붕괴되면 신체 어느 부위라도 침범할 수 있으며, 목·얼굴 부위가 전체 방선균증의 50-60%를 차지한다.^{1,5}

목·얼굴 부위의 방선균증은 대부분 치원성으로 하악과 비인강에 발생하며, 상악동에 털곰팡이증과 동반되어 발생한 경우는 매우 드물다. 저자들은 강화 화학요법 후 호중구감소증 상태의 급성 백혈병 환자에서 상악동 털곰팡이증 치료 중에 동반된 상악동 방선균증 1예를 경험하였기에 문헌 고찰

과 함께 보고하는 바이다.

증 례

57세 여자 환자가 급성 골수성 백혈병으로 2차 강화 화학요법(고용량 Cytarabine, 3 g/m² D1, 3, 5)을 위해 입원하였다. 관해유도 화학요법(Idarubicin/Cytarabine, Idarubicin 12 mg/m² D1-3, Cytarabine 100 mg/m² D1-7)과 1차 강화 화학요법(고용량 Cytarabine, 3 g/m² D1, 3, 5) 시행 시 침습성 폐 아스페르길루스증으로 항진균제를 투여하였다. 5년 전 제 2형 당뇨병으로 진단받고, 경구혈당 강하제를 복용 중이었으며 혈당은 잘 조절되었다. 상악동 및 비강의 외상이나 수술력, 치과 치료력은 없었다.

강화 화학요법 시행 6일 후부터 중증의 호중구 감소(19.8/mm³)가 있었고, 강화 화학요법 시행 7일 후부터 열이 발생하였다. 체온은 38.3℃, 혈압 110/70 mmHg, 맥박 104회/분, 호흡 22회/분이었다. 이학적 검사에서 특이소견은 관찰되지 않았고, 말초혈액 검사에서 백혈구는 120/mm³였으며, 호중구는 거의 관찰되지 않았다. 혈색소 9.2 g/dL, 혈소판 수 52,000

Received: April 3, 2012, Accepted: June 9, 2012

교신저자: 허지안, 705-717, 대구광역시 남구 현충로 170
영남대학교 의과대학 내과학교실
Tel: (053) 654-8386, Fax: (053) 620-3849
E-mail: sarang7529@naver.com



Fig. 1. Paranasal CT image shows secretions with mild mucosal enhancement at the right maxillary sinus.

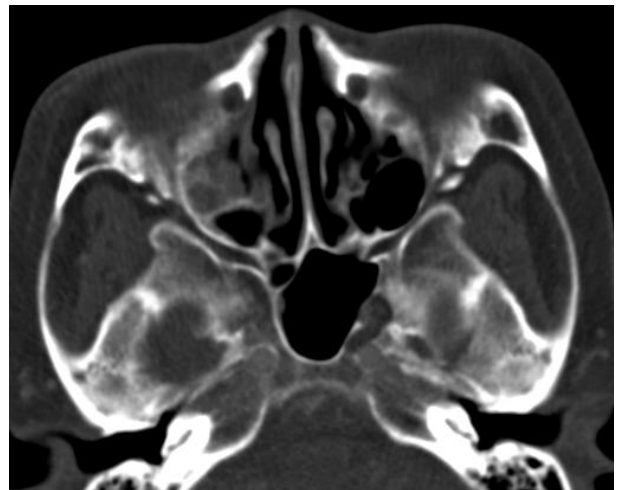


Fig. 2. Paranasal CT image shows the soft-tissue density and bone loss at the right maxillary sinus.

/mm³, 적혈구 침강속도 78 mm/hr, C-반응 단백질 24.151 mg/dL, 혈청 galactomannan assay (Platelia Aspergillus EIA, Bio-Rad, Korea) <0.5 IU/mL, 사구체 여과율 42.92 mL/min였다. 다른 혈청생화학 검사와 전해질 수치는 정상범위 내에 있었다. 혈액 및 소변, 객담에서 배양되는 세균 및 진균은 없었다. 호흡기감소성 발열로 Ceftazidime (2g 8시간 마다 정맥주사)을 3일간 투여하였으나 발열이 지속되어 Imipenem/cilastatin (250 mg 6시간 마다 정맥주사), Vancomycin (1g 12시간 마다 정맥주사)으로 변경하였다. 변경 후에도 발열이 지속되고 우측 뺨 부위의 통증을 호소하여 시행한 이비인후과 검사에서 비강 내 폐쇄는 없었으나, 황색의 점액성 분비물이 비강에서 관찰되었고, 컴퓨터단층촬영(Fig. 1)에서 우측 상악동염 소견이 보였다. 호흡기감소성 발열이 지속되는 상태로 침습성 진균 감염증 가능성이 크므로 Amphotericin B deoxycholate (1 mg/kg 24시간 마다 정맥주사)를 추가 투여하였다. Amphotericin B deoxycholate 추가 투여 5일 후부터 열이 내렸으나, 10일째에 다시 발열이 있어 우측 상악 부위의 심한 통증과 안구주위 부종을 호소하였다.

이비인후과 검사에서 비강의 폐쇄와 점액성 화농성 분비물이 관찰되었고, 컴퓨터단층촬영(Fig. 2)에서 우측 상악동에 연부 조직 음영과 골 손실이 관찰되고, 우측 비중격 만곡증 소견을 보였다. 내시경으로 관찰시 우측 하비갑개의 점막의 대부분이 녹아 빠져 노출되고, 비갑개의 뒤쪽과 위쪽은 뼈의 일부가 노출된 소견을 보였다. 내시경적 상악절제술을 시행하여 관찰한 현미경 소견에서 격막이 없이 분지하는 균사가 관찰되어(Fig. 3) 상악동의 털곰팡이증(Mucormycosis)으로 진단하였다. Amphotericin B deoxycholate (1.5 mg/kg

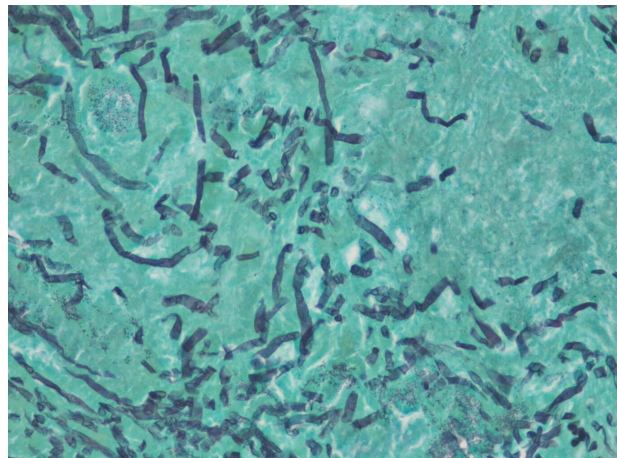


Fig. 3. Microscopy image of the right nasal mucormycosis. Non-separated hyphae with branching at 90° was observed (GMS stain, ×200).

를 증량 투여하였고, 이비인후과에서 매일 상처소독을 하였다. 항생제 투여 22일째(항진균제 18일째) 호흡기 감소증은 회복되었다. 항진균제 투여 54일째에 혈청 크레아티닌이 2.28 mg/dL로 증가하여 Liposomal Amphotericin B (1 mg/kg 24시간 마다 정맥주사)로 변경하였고, 증상이 호전되어 Itraconazole 경구제제로 변경하여 퇴원하였으며, 이비인후과에서 함께 경과 관찰을 하였다.

항진균제 투여 12주째에 안면 부종이 있었고, 이비인후과 검사 상 우측 상악동 내부에 치즈 양상의 분비물이 다시 차오르는 양상을 보였다. 우비강 내시경 검사(Fig. 4) 상 우측 상악동 내측 면에 뼈가 노출되어 있고, 비갑개 전부위에 딱지들이 보여 생검을 하였다. 발열은 없었으며, 말초혈액 검사에서 백혈구는 3,130/mm³, 혈색소 8 g/dL, 혈소판 수는 46,000/mm³

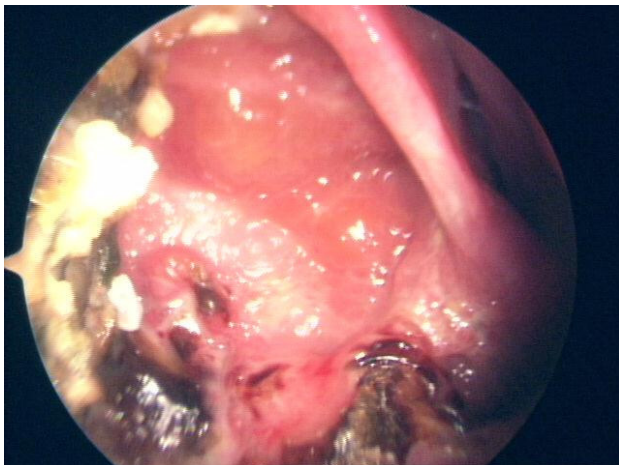


Fig. 4. Exposed medial maxillary wall bone, inflammatory mucosa, and maxillary sinus posterior and inferior wall crust were shown in the rhinoscopy.

였다. 생검 소견상(Fig. 5) 진균은 관찰되지 않았고, 그람염색, PAS (Periodic acid Schiff) 염색, GMS (Gomori methenamine silver stain) 염색에 양성인 유황과립(sulfur granule)이 관찰되어 방선균증으로 진단하였다. Cefixime (100 mg)을 1일 2회씩 3주간 복용 후 재발 없이 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

방선균은 주로 구강과 소화관에 상재하는 정상 균 무리로 주변 조직을 침범하여 천천히 진행되는 육아종 및 화농성 감염을 일으킨다.^{1,3,6,7} 진균과 비슷한 가느다란 실 모양 형태를 보여 수 십 년간 진균으로 잘못 알려졌다가 세균으로 다시 분류되었다. 편도염과 잇몸치아틈새에 높은 농도로 존재하여 잘못 나는 생치, 만성 편도염, 귀염, 유양돌기염, 치과 처치 등이 위험인자로 작용하며 하악 주위가 가장 많으며, 연조직 종창, 농양, 덩이 병변의 형태가 많다.^{1-5,8-11} 역학적으로는 매년 300,000명 당 1명 꼴로 발생하는 드문 감염 질환이며, 남자 환자 및 20세에서 60세 사이에 더 많이 발생한다.²

경부안면의 방선균증은 악성종양 및 노카르디아증(nocardiosis), 결핵성 림프절염, 한센병, 베게너육아종증(Wegener's granulomatosis), 세균성 골수염과 브루셀라병, 탄저병, 독소플라스마증(toxoplasmosis), 전염성 단핵구증 등 경부 림프절염을 동반하는 질환들과 감별진단에 유의해야 한다.^{5,7,9,10}

방선균증을 진단하기 위해서는 분비물 흡인술이나 생검을 시행할 수 있지만, 부적절한 배양기술 및 타 균주의 과다 성장과 이전의 항생제 치료 등으로 균주의 동정이 50% 미만이므로, 병소 조직의 병리조직학적 소견과 임상 병력이 진단

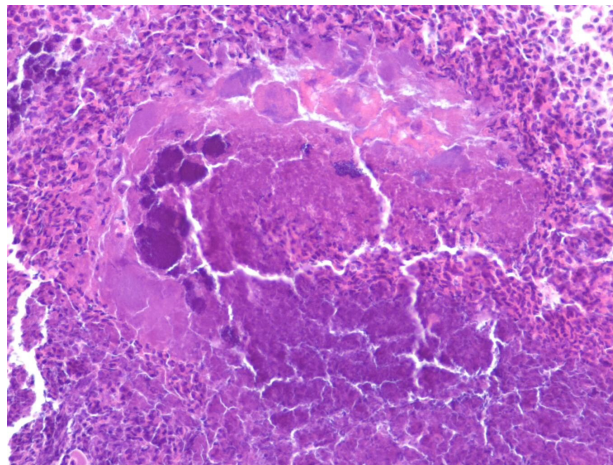


Fig. 5. Microscopic image of the right maxillary sinus actinomycosis. An amphiphilic granule is embedded in an abscess (H&E stain, x200).

에 중요하다. 병리조직학적 소견으로 만성 육아종성 염증반응으로 중심부 화농성 괴사를 동반한 주위 섬유화와 육아조직을 관찰할 수 있으며, 유황과립(sulfur granule)을 발견하거나 배양 및 PCR을 통해 진단할 수 있다.^{1,9,12} 유황과립은 약 40%에서 발견이 되며, 세침흡인 생검을 시행할 때에는 약 33%의 확률로 관찰할 수 있다.⁷

치료로는 항생제 치료와 수술 적 치료가 있으나, 비강과 부비동, 상악동의 방선균증은 수술적 요법을 함께 시행해야 한다. 방선균은 혐기성 조건에서 잘 자라기 때문에 자연개구공과 비강내의 개방성 상태를 유지시켜 주는 것이 중요하다.¹ 항생제 치료는 2주에서 6주간의 penicillin G 18-24 mU 정맥 주사와 6개월에서 12개월간의 경구용 항생제(penicillin 또는 amoxicillin) 복용이 추천된다.^{3-5,10-13} 또한 Doxycycline, 3세대 Cephalosporin (Ceftriaxone), Clindamycin 또는 Erythromycin의 약제를 사용할 수 있다.^{3,4,6} 고용량으로 장기간 치료를 하지 않으면 재발할 수 있다고 알려졌으며, 비교적 광범위하지 않은 질환은 배농과 항생제 치료를 같이 하는 경우 치료 기간을 줄일 수 있다.^{3-5,10,11} 털곰팡이증은 면역저하자, 특히 조절되지 않는 당뇨병 환자에서 혹은 장기간의 호중구 감소증과 함께 광범위 항생제를 투여받고 있는 백혈병 환자들에서 발생하며, 비-안-대뇌 털곰팡이증이 흔하다.

본 증례에서는 중증의 호중구감소증이 지속되는 상태에서 우측 상악동 털곰팡이증으로 상악동내 점막 손상이 발생하여 방선균이 유입됨으로써 상악동에 방선균증이 병발한 것으로 생각된다. 외국문헌 및 국내문헌을 고찰해보면 최근 진균감염 유발인자 증가 및 진단 기술이 향상되어 털곰팡이증이 비강과 부비동에 발병하는 빈도가 증가하는 추세이지

만, 상악동에 방선균과 동시 감염된 사례는 드물었으며, 국내에서는 현재까지 보고된 사례가 없었다. 본 증례와 같이 면역저하 환자에서 목-얼굴 부위의 털곰팡이증으로 확진하여 치료하는 경우라도 환자의 증상 호전이 느릴 경우 방선균증의 병발 감염을 고려하여 재진단을 위한 시도가 필요할 것으로 생각된다.

참고문헌

1. Choi JW, Lee TB, Hwang SH, Kim BH. A rare case of actinomycosis in nasal cavity with aspergillus sinusitis. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40:1844-7. Korean.
2. Brook I. Actinomycosis: diagnosis and management. *South Med J* 2008;101:1019-23.
3. Sharkawy AA. Cervicofacial actinomycosis and mandibular osteomyelitis. *Infect Dis Clin North Am* 2007;21:543-56, viii.
4. Won HR, Park JH, Kim KS. Simultaneous actinomycosis with aspergillosis in maxillary sinus. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2012 Mar 23 [Epub ahead of print].
5. Goldberg MH. Diagnosis and treatment of cervicofacial actinomycosis. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2003;15:51-8.
6. Belmont MJ, Behar PM, Wax MK. Atypical presentations of actinomycosis. *Head Neck* 1999;21:264-8.
7. Hwang JY, Park SY, Lee SY. A case of cervical actinomycosis misdiagnosed to malignant Tumor. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54:427-30. Korean.
8. Pant R, Marshall TL, Crosher RF. Facial actinomycosis mimicking a desmoid tumour: case report. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2008;46:391-3.
9. Roth M, Montone KT. Actinomycosis of the paranasal sinuses: a case report and review. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;114:818-21.
10. Finley AM, Beeson MS. Actinomycosis osteomyelitis of the mandible. *Am J Emerg Med* 2010;28:118.e1-4.
11. Richtsmeier WJ, Johns ME. Actinomycosis of the head and neck. *CRC Crit Rev Clin Lab Sci* 1979;11:175-202.
12. Stewart AE, Palma JR, Amsberry JK. Cervicofacial actinomycosis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;132:957-9.
13. Jung SI, Kim YS, Ki HK, Kim CK, Kim SW, Lee H, et al. Clinical manifestations of actinomycosis experienced at one university hospital. *J Korean Soc Chemother* 1999;17:221-8. Korean.
14. Woo HJ, Bae CH, Song SY, Choi YS, Kim YD. Actinomycosis of the paranasal sinus. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;139:460-2.