

기저 질환이 없는 소아에서 A군 사슬알균 균혈증에 동반된 감염성 가성동맥류 1예

김경하¹ · 이현주² · 오지은¹

고신대학교 의과대학 고신대학교복음병원 소아청소년과¹, 서울대학교 의과대학 분당서울대병원 소아청소년과²

Infectious Pseudoaneurysm Caused by Group A Streptococcus in a Child without Underlying Disease

Kyoung Ha Kim¹, Hyunju Lee², Chi Eun Oh¹

¹Department of Pediatrics, Kosin University Gospel Hospital, Kosin University College of Medicine, Busan; ²Department of Pediatrics, Seoul National University Bundang Hospital, Seoul National University College of Medicine, Seongnam, the Republic of Korea

Group A streptococcus is a common cause of upper respiratory infection in children; however, it is a rare cause of pseudoaneurysm in pediatrics with only limited reports of cases associated with cardiac surgery and underlying disease. We report a case of infectious pseudoaneurysm of the right internal iliac artery caused by group A streptococcus in a previously healthy 5-year-old boy who presented with scarlet fever and group A streptococcal bacteremia. He was admitted to the hospital with fever, rash on the whole body, and sore throat, accompanied by severe leg pain. He was treated with surgical removal and antibiotics. Because a pseudoaneurysm may develop in children without vascular-related underlying diseases, we should consider the possibility of this important clinical diagnosis in patients with scarlet fever.

Key Words: Streptococcus pyogenes; Aneurysm, infected; Scarlet fever; Child

서론

A군 사슬알균은 소아에서 흔하게 볼 수 있는 피부감염이나 상기도 감염을 주로 일으키지만 균혈증, 폐렴뿐만 아니라 심내막염, 골수염, 괴사성 근막염, 사슬알균독성쇼크증후군 등과 같은 침습성 질환의 원인이기도 하다¹⁾. A군 사슬알균에 의한 침습성 감염은 전 세계적으로 연간 660,000

명에게서 발병하고, 이로 인한 사망자는 연간 160,000명에 이른다²⁾. 2011–2013년 국내 소아에서 침습성 세균 감염의 원인균을 확인하기 위한 다기관 연구의 결과, A군 사슬알균에 의한 감염은 전체의 4.2%를 차지했다³⁾. 최근 소아에서 성홍열 발생이 증가하고 있는 것도 문제가 되는데, 질병관리본부의 감염병 감시연보에 따르면 성홍열 발생보고는 2011년 406명에서 2015년 7,002명으로 증가하였다⁴⁾.

감염성 가성동맥류는 모든 동맥류의 0.7%–3%를 차지하는 질환으로 대부분 균혈증이나 곰팡이 혈증으로 인한 동맥 내막염에 의해 발생하며 자연파열로 인해 사망률이 높은 질환으로 소아에서는 흔하지 않다⁵⁾. 감염성 가성동맥류를 일으키는 세균은 다양하지만, 주로 살모넬라균, 포도알균, 사슬알균, 녹농균 등에 의해 발생한다. 복강 내 동맥류의 경우 살모넬라와 같은 그람음성균이 원인이 되는

접수: 2017년 6월 8일

수정: 2017년 8월 9일

승인: 2017년 8월 25일

책임저자: 오지은

고신대학교 의과대학 고신대학교복음병원 소아청소년과

Tel: 051)990-6532, Fax: 051)990-3065

E-mail: shine707@hanmail.net

경우가 흔하다⁶⁾. A군 사슬알균에 의한 동맥류는 극히 드문 편인데, 대부분 균혈증과 관련되며 어깨, 허리, 목 또는 복부 통증 등 동맥류가 형성된 위치에 따라 동맥류 관련 급성 증상이 생긴다⁷⁾.

저자들은 성홍열 증상으로 병원에 온 소아에서 A군 사슬알균 균혈증과 함께 내장골동맥의 감염성 가성동맥류가 진단된 사례를 경험하였기에 보고하고자 한다.

증례

5세 남아가 열과 발진이 있어 응급실에 왔다. 3일 전부터 기침이 시작되면서 2일 전 미열이 나기 시작하였고, 내원 1일 전 고관절, 허벅지, 양측 무릎으로 이동하는 양상의 다리 통증과 함께 어깨, 등, 몸통으로 발진이 생겼다.

내원 시 활력징후는 혈압 90/60 mmHg, 맥박 156회/분, 호흡 36회/분, 체온 39.4°C였으며 전신 위약감과 함께 전신 발진, 인후통, 기침, 양하지 통증, 항문 주위 통증을 호소하였다. 과거력에서 다른 특이사항은 없었으며, 예방접종은 시기에 맞춰 적절히 이루어졌으며 성장과 발달에는 이상이 없었다. 환자의 혀에는 붉은 유두 모양의 돌기가 있으면서 인후 발적이 동반되어 있었고 몸통을 위주로 전신에 경계가 명확하고 누르면 하얗게 변하는 홍반이 있었으며, 팔꿈치, 겨드랑이, 서혜부에는 파스티아 라인(Pastia's line)이 보였다. 양 하지의 움직임 제한, 절뚝거림은 없었으며 관절에 국한된 부기나 발적은 없었다.

당일 응급실에서 시행한 혈액검사상 혈색소 10.7 g/dL, 백혈구 8,240/mm³, 혈소판 171,000/mm³, 아스파르테이트아미노전달효소 145 IU/L, 알라닌아미노전달효소 25 IU/L, 혈액요소질소 10 mg/dL, 크레아틴 0.53 mg/dL, 고감도 C-반응단백농도는 7.613 mg/dL (참고치, 0.06-0.79 mg/dL)으로 증가되어 있었다. 목구멍면봉채취법으로 시행한 신속 A군 사슬알균 항원검사 결과는 음성이었다. 경험적 항생제로 세파졸린, 클린다마이신으로 치료를 시작한 후 피부 발진은 하루 만에 호전되었으나 열과 다리 통증이 지속되었다. 내원 3일째에 입원 첫날 시행한 혈액배양검사서 그람양성구균이 자란다고 보고를 받았고, 이때 혈액검사서 고감도 C-반응단백농도는 16.31 mg/dL으로 입원 당시보다 증가하여 있었다. 발열도 계속 반복되어 심장초음파를 시행하였으나 특이소견은 없었다.

내원 4일째, 인두배양검사에서는 균이 동정되지 않았지만, 혈액배양에서는 A군 사슬알균이 자랐다고 보고되었다. 항균제 감수성 검사결과에 따라 항균제를 페니실린 G

와 클린다마이신으로 변경하였다. 항생제 시작 3일째 시행한 혈액배양검사서 균이 자라지 않았으나 환자가 다리 통증을 지속적으로 호소하여 뼈스캔검사(Fig. 1)를 시행하였고, 오른쪽 엉치 엉덩골에서 혈액 관류량이 증가하는 것을 확인하였다.

내원 5일째 시행한 하지 자기공명영상(Fig. 2A)에서 오른쪽 내장골동맥에 종괴가 확인되었으며, 이어서 시행한 하지 도플러초음파에서 5.4 cm 정도의 가성동맥류가 확인되었다. 동맥류의 크기와 위치 확인을 위해 혈관 조영 컴퓨터단층촬영(Fig. 2B)을 시행하였고, 오른쪽 내장골동맥의 전방 가지 기시부에서 동맥류 목이 나오는 가성동맥류를 재확인하였다.

환아는 하지 아래쪽으로 혈류가 원활하지 않으면서 지속적인 통증을 보이는 종괴 효과가 있었으므로 동맥류 봉합술을 하기 위해 응급수술을 시행하였다. 하지만 병변 부위 출혈이 심해 동맥류의 경부결찰술만 시행하였고 2차 수술을 계획하였다. 1차 수술 이후에도 환자는 발열과 하지 통증이 지속되었다. 감수성인 항균제를 사용하는데도 열이 지속되어 내원 7일째 정맥용 면역글로불린 1 g/kg을 2일간 사용하였다. 내원 9일째, 재수술을 위해 타 병원으로 전원하여 동맥류 봉합술을 시행하였고 수술 이후 4주간 항균제 투약 후 퇴원하였다(Fig. 3).

발병 1년 뒤 하지 컴퓨터단층촬영을 시행하였고 동맥류

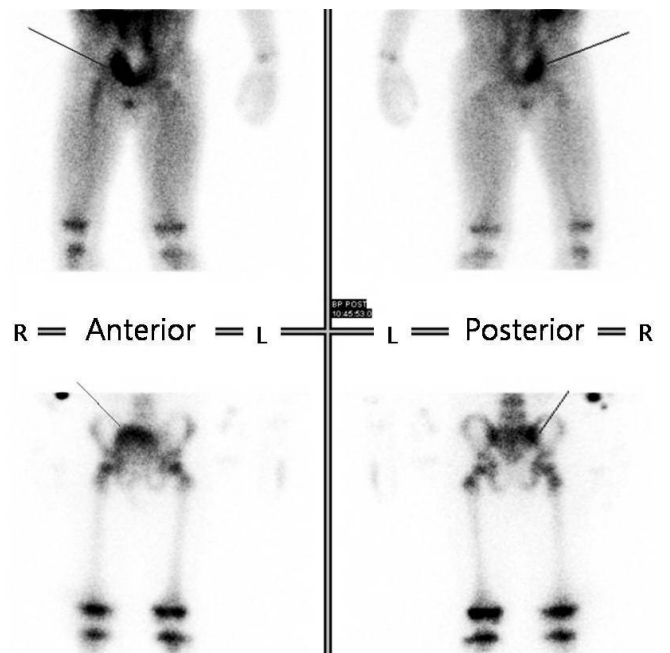


Fig. 1. Bone scan. There are increased perfusion and blood pool activity on right sacroiliac joint (solid lines).



Fig. 2. (A) Magnetic resonance imaging of lower extremities. Fusiform signal void with heterogeneously high signal lesion (asterisk) seems to be arising from right internal iliac artery. (B) Computed tomography angiography of lower extremities. There is a large pseudoaneurysm in pelvic cavity, which originates from the anterior branch of right internal iliac artery (arrow).

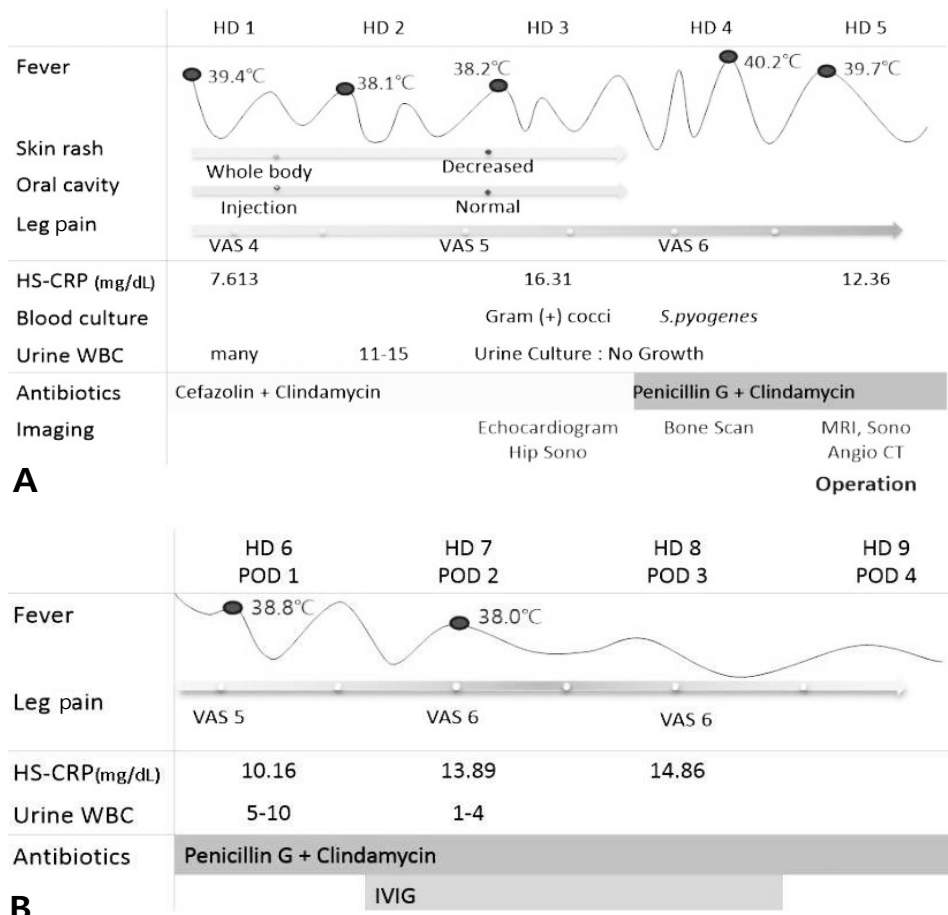


Fig. 3. (A) The clinical course before the operation. (B) The clinical course after the operation. Abbreviations: HD, hospital day; VAS, visual analogue scale for pain; HS-CRP, high-sensitivity C-reactive protein; WBC, white blood cell; Sono, ultrasonography; MRI, magnetic resonance imaging; Angio CT, computed tomography angiography; POD, postoperative day; IVIG, intravenous immunoglobulin; *S. pyogenes*, *Streptococcus pyogenes*.

의 재발은 없었다. 발병 23개월 후, 열이 나고 성홍열양 발진이 생기면서 복통이 동반되어 응급실을 방문하였다. 신속 A군 사슬알균 항원검사서 양성임을 확인하고 암피실린과 클린다마이신을 투약하였다. 복부초음파와 복부 자기공명영상을 시행하여 가성동맥류의 재발 여부를 확인하였으나 이상 소견은 없었다. 인두배양검사와 혈액배양검사에서 균은 동정되지 않았고 항생제 치료 2일 뒤 증상이 호전되었다. 입원 7일째에 퇴원하여 아목시실린 복용 지속하면서 총 14일간 항생제 사용 후 치료 종결하였다.

고찰

본 증례의 환아는 기저 질환이 없던 건강한 환아로, A군 사슬알균에 의한 침습성 감염과 함께 우측 내장골동맥에 가성동맥류가 생겼다. 소아에서는 감염성 가성동맥류의 발생보고가 매우 드문 편으로 대부분 대동맥 축착 등과 같은 선천성 심질환 및 복원 수술, 타카야수 동맥염, 가와사키병, 결체조직질환, 제대 카테터, 외상 등 기저 질환이 있는 경우였으며 대부분 포도알균이 원인균이다⁷⁻¹⁰. PubMed에서 검색 가능한 A군 사슬알균에 의한 감염성 가성동맥류의 소아 증례는 5건 정도로 보고되어 있다^{5,11-13}.

대부분 감염성 가성동맥류의 경우 진단 이전 항생제 사용으로 인해 혈액에서 균이 동정되지 않는 경우가 25% - 37% 정도 있을 수 있으며 동맥류 세포벽 조직에서도 22% - 50%는 균이 동정되지 않는다고 한다⁶. 본 환아의 경우, 가성동맥류에 대한 생검은 시행하지 않았지만, 혈액에서 균이 동정된 것으로 보아 침습성 A군 사슬알균에 의한 가성동맥류로 생각되었다.

본 환아는 항생제 치료에도 불구하고 지속적인 발열과 다리 통증 등의 중괴 효과가 지속되어 제거 수술을 시행한 사례로 감염성 동맥류는 파열의 가능성이 높기 때문에 동맥류 크기와는 상관없이 제거 수술을 권장하고 있으며 지속적인 항생제 치료가 필요하다. 하지만, 적절한 항생제 사용 기간 및 수술적 치료의 시기와 방법에 대한 의견들이 분분한데, 상황에 따라 감염성 동맥류가 발견되는 즉시 수술을 하거나, 수술 시 무균상태를 만들기 위해 항생제 사용 이후 수술을 하기도 한다. 수술 이후 원인균에 따라 6-8주 정도 항생제 사용을 권유하나 명확히 정해져 있지는 않다¹⁴.

침습성 A군 사슬알균 감염 시 치료는 페니실린과 함께 발열외독소 초항원과 같은 사슬알균 단백질의 전사와 축소를 위해 클린다마이신을 병합하여 투여하는 것을 권장

하고 있다. 또한 사슬알균독성쇼크증후군과 같은 심각한 침습성 질환의 경우, 면역글로블린 치료를 시도하고 있으나 그 효능에 대해서는 의견들이 분분하다¹⁵. 1999년 Kaul 등¹⁶의 연구에 따르면, 15명의 환자들 중 면역글로블린을 사용했을 경우 사망률이 확연하게 감소하였다고 하며, 2002년에서 2004년까지 호주, 빅토리아주에서 있었던 84건의 침습성 사슬알균 감염에서 클린다마이신과 면역글로블린을 병합하여 치료한 경우 치명률은 7%로 낮게 확인되었다^{16,17}. 이와 반대로 면역글로블린을 사용한 그룹과 사용하지 않은 그룹의 사망률이 4.5%로 동일하여 면역글로블린의 사용이 효과가 없다는 연구도 있다¹⁸. 본 환아는 초기에 항균제를 사용하였고, 열이 지속되어 발병 제 7일째 면역글로블린을 사용하였다.

본 증례의 환자는 침습성 A군 사슬알균 감염 이후 23개월이 지나서 다시 A군 사슬알균 감염이 의심되는 상황이 있었으나, 이 때는 침습성 감염으로 진단되지는 않았다. 침습성 감염을 일으킨 균주에 대해 유전형 분석을 시행하지는 못했고, 두 번째 감염 시에는 균 동정이 되지 않았다. A군 사슬알균에 의해 인두염이 반복적으로 발생할 수 있다는 것은 알려져 있으나, 침습성 감염이 반복된 사례는 기저 질환이 있거나 면역저하 상태의 환자에서만 보고되었다^{19,20}.

본 환자는 처음에 성홍열이 의심되는 상황에서 다리 통증을 호소하면서 병원을 찾았고, 항균제 사용에도 불구하고 열이 지속하던 중 가성동맥류를 발견하였다. 최근 국내에서 성홍열 환자 발생 보고가 늘고 있으므로 성홍열 환자를 진료할 때 침습성 감염에 대해서 경각심을 가지고 자세히 관찰해야 하겠다.

References

1. Shulman ST. Group A Streptococcus. In: Kliegman RM, Stanton BM, Geme J, Schor NF, editors. Nelson textbook of pediatrics. 20th ed. Philadelphia: Elsevier Inc., 2016: 1327-37.
2. World Health Organization. The current evidence for the burden of Group A Streptococcal diseases [Internet]. Geneva: WHO; c2017 [cited 2017 Nov 18]. Available from: http://www.who.int/maternal_child_adolescent/documents/fch_cah_05_07/en/.
3. Lee HJ. Multicentric approach for analysis of serotypes of pneumococcus isolated from invasive infections in

- Korean children (3rd year) [Internet]. Seoul: Korea Centers for Disease Control and Prevention; 2013 [cited 2017 Nov 18]. Available from: <http://cdc.go.kr/CDC/cms/cms/Download.jsp?fid=28&cid=61767&fieldName=attach1&index=1>.
4. Korea Centers for Disease Control and Prevention. Infectious diseases surveillance yearbook, 2014 [Internet]. Cheongju: Korea Centers for Disease Control and Prevention; 2015 [cited 2017 Nov 18]. Available from: http://cdc.go.kr/CDC/cms/content/mobile/86/69386_view.html.
 5. Barth H, Moosdorf R, Bauer J, Schranz D, Akinturk H. Mycotic pseudoaneurysm of the aorta in children. *Pediatr Cardiol* 2000;21:263-6.
 6. Biswas JS, Lyons OT, Bell RE, Price N. Extra-aortic mycotic aneurysm due to group A Streptococcus after pharyngitis. *J Clin Microbiol* 2013;51:2797-9.
 7. Bergsland J, Kawaguchi A, Roland JM, Pieroni DR, Subramanian S. Mycotic aortic aneurysms in children. *Ann Thorac Surg* 1984;37:314-8.
 8. Restrepo MS, Turek JW, Reinking B, Bergen NV. Mycotic aneurysm in a child with history of coarctation of the aorta repair. *Ann Pediatr Cardiol* 2014;7:138-41.
 9. Sarkar R, Coran AG, Cilley RE, Lindenauer SM, Stanley JC. Arterial aneurysms in children: clinicopathologic classification. *J Vasc Surg* 1991;13:47-56.
 10. Millar AJ, Gilbert RD, Brown RA, Immelman EJ, Burkimsher DA, Cywes S. Abdominal aortic aneurysms in children. *J Pediatr Surg* 1996;31:1624-8.
 11. Chantepie A, Robert M, Pelletier J, Gold F, Mercier C, Lacombe A, et al. Mycotic aneurysm of bronchial artery. Apropos of a case in an infant. *Chir Pediatr* 1980;21:407-10.
 12. Tachibana K, Takagi N, Kannki K, Higami T. Mycotic aneurysm of ascending aorta in an infant. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2013;21:79-81.
 13. Hoffman MA, Ramey AK, Hammel J, Truemper E, Kutty S, Chatterjee A. Recurrent mycotic aneurysm in a 2-year-old boy with group A Streptococcus bacteremia. *Pediatr Infect Dis J* 2012;31:1080-2.
 14. Kim YW. Infected aneurysm: current management. *Ann Vasc Dis* 2010;3:7-15.
 15. Ferretti JJ, Stevens DL, Fischetti VA. Streptococcus pyogenes: basic biology to clinical manifestations [Internet]. Oklahoma City: The University of Oklahoma Health Sciences Center; 2016 [cited 2017 Nov 18]. Available from: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK333424/pdf/Bookshelf_NBK333424.pdf.
 16. Kaul R, McGeer A, Norrby-Teglund A, Kotb M, Schwartz B, O'Rourke K, et al. Intravenous immunoglobulin therapy for streptococcal toxic shock syndrome: a comparative observational study. The Canadian Streptococcal Study Group. *Clin Infect Dis* 1999;28:800-7.
 17. Carapetis JR, Jacoby P, Carville K, Ang SJ, Curtis N, Andrews R. Effectiveness of clindamycin and intravenous immunoglobulin, and risk of disease in contacts, in invasive group A streptococcal infections. *Clin Infect Dis* 2014;59:358-65.
 18. Shah SS, Hall M, Srivastava R, Subramony A, Levin JE. Intravenous immunoglobulin in children with streptococcal toxic shock syndrome. *Clin Infect Dis* 2009;49:1369-76.
 19. Ogawa T, Terao Y, Sakata H, Okuni H, Ninomiya K, Ikebe K, et al. Epidemiological characterization of Streptococcus pyogenes isolated from patients with multiple onsets of pharyngitis. *FEMS Microbiol Lett* 2011;318:143-51.
 20. Rasmussen M. Recurrent sepsis caused by Streptococcus pyogenes. *J Clin Microbiol* 2011;49:1671-3.

요약

A군 사슬알균에 의한 감염성 가성동맥류는 심장 수술 과거력이나 혈관 질환이 있는 환자에서 보고 되어 왔다. 저자들은 이전에 건강하던 5세 남아가 성홍열이 의심되는 상태에서 하지 통증을 호소하여 원인을 찾던 중 A군 사슬알균 균혈증과 함께 오른쪽 내장골동맥의 감염성 가성동맥류를 확인한 사례를 경험하였다. 기저 질환이 없던 성홍열 환자에서도 균혈증뿐만 아니라 가성동맥류와 같은 심각한 침습성 합병증이 생길 수 있으므로 성홍열 환자 진료 시 주의가 필요하다.