

소아 폐 방선균증 1예

서울대학교 의과대학 소아과학교실

김세영 · 김호성 · 고영률 · 이환중

= Abstract =

Pulmonary Actinomycosis in a Pediatric Patient

Se Young Kim, M.D., Ho Sung Kim, M.D., Young Yull Koh, M.D. and Hoan Jong Lee, M.D.

Departments of Pediatrics Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

Pulmonary actinomycosis is a rare disease characterized by chronic suppurative granulomatous inflammation. It occurs in patients with chronic bronchitis, bronchiectasia or pulmonary emphysema by aspiration of foreign bodies or direct invasion of Actinomyces. It is confirmed histologically by the presence of sulfur granules on the biopsy specimen. We experienced a case of pulmonary actinomycosis in a 11 year-old female. She had been suffering from productive cough, blood-tinged sputum and progressive pneumonic consolidation for previous 3 years and did not respond to antibiotic therapy or anti-tuberculous medications. Percutaneous lung needle aspiration biopsy revealed pulmonary actinomycosis. She was initially managed with Na-penicillin G 300,000 unit/kg/day or clindamycin 45mg/kg/day for 1month but symptom did not improve. After all she received right pneumonectomy because of massive hemoptysis and was medicated with Na-penicillin G for 3 weeks and oral clindamycin for 3 months. She has been doing well without recurrence of actinomycosis for postoperative 2 years.

Key Words: Pulmonary actinomycosis

서론

방선균증(Actinomycosis)은 만성 화농성 육아종성 질환으로 안면경부, 흉곽, 복부를 가장 흔히 침범한다. 그 원인균인 방선균은 천천히 자라는 사상(filamentous)의 그람 양성 세균으로, 내인성의 구강 잡균이다¹⁾. 이 균종은 우치(carious teech), 치면 세균막(dental plaque), 치은 음와 및 편도 음와(gingival and tonsillar crypts)에 주거한다. 방선균의 흉곽 감염(thoracic infection)은 감염된 구강 내용물을 흡인함으로써 발생하며, 폐, 흉막, 종격동, 흉벽을 침범할 수 있다.

저자들은 소아에서는 아직 국내에서 보고된 적 없는

폐방선균증 1례를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자: 김○희, 여아, 11세

주소: 3년전부터 지속된 다량의 객담을 동반한 기침

현병력: 환아는 내원 3년전 39℃ 이상 오르는 고열과 기침, 객담이 발생하여 소아과 의원에서 15일간 경구 투약하였다. 3-4일 후에 발열은 소실되었으나 기침은 지속되어서 2개월후에 다른 병원을 방문했고, 폐렴 진단하에 치료를 받던 중 혈액이 섞인 객담이 동반되어 폐결핵 의심하에 6개월간 항결핵제를 복용하였

다. 그러나 다량의 객담을 동반한 만성 기침은 지속되었고, 객담은 때로 악취가 나며 주로 아침에 많이 배출되었다.

환아는 내원 2년전에 모 종합 병원에 입원하여 시행한 흉부 방사선 소견상 우중엽과 우하엽에 폐렴성 경결의 소견을 보여 기관지경 검사를 시행받았다. 시술 중 우중엽 기관지에서 1cm길이의 갈색의 부들부들한 술잎 모양의 이물질이 적출되었으며 병변의 생김새 비특이적 염증 반응 외에 다른 소견은 없어 외래에서 추적 관찰받았다. 이후 1년동안 만성 기침은 지속되었으나 객담의 양은 조금씩 감소하던 중, 흉부방사선 소견상 폐렴성 경결이 심해져서 상기 종합 병원에 재입원하였다. 당시에 시행한 기관지 조영술상 우중엽 기관지의 폐색 소견은 없었으며 우중엽과 우하엽 기관지가 확장되어 있어 우측 폐절제술을 권유받았으나 이를 거부하였다. 이후 cefamandol과 gentamicin, cefotaxime과 amikacin등의 항생제를 투여하였으나 만성 기침과 화농성 객담이 지속되어서 본원으로 전원되었다.

과거력: 환아는 집에서 만삭 정상 분만하였으며 출생시 체중은 모르나 주산기 문제없이 성장하였다. 7세경에 수두를 앓았으며 내원 2년전에 치과에서 우치에 인공막을 씌우는 치료를 받은 적은 있었으나, 영구치를 발치한 적은 없었고, 특별한 흡인, 경련 발작, 의식 소실의 과거력은 없었다.

가족력: 환아는 2남매중 둘째 여아로 태어났으며, 부모 및 오빠는 건강하였고, 할머니가 천식을 앓고 있었다. 외할머니는 당뇨 및 고혈압이 있었다.

이학적 소견: 환아는 아파보이지 않았고 체격은 마르지 않았으며, 입원당시 혈압은 105/65mmHg, 맥박은 120회/분, 호흡수 24회/분, 체온은 36.5℃였다. 두경부 진찰상 이상 소견없었고 구강은 깨끗하였고 우치는 없었으며 상악동·압통도 없었다. 흉부는 대칭적으로 팽창하였고 퇴축(retraction)은 없었으며 폐음은 깨끗하였으나 우측 폐야에서 호흡음이 감소되어 있었다. 심음은 규칙적이었고 심잡음은 들리지 않았다. 복부는 부드러웠고 압통이나 반발통은 없었고, 간, 비장, 신장은 만져지지 않았으며 장음은 활발하였다. 늑척추 각 압통은 없었고 사지의 함입부종이나 청색증은 없었지만 손가락과 발가락의 곤봉지가 관찰되었다. 피부에 발진은 없었다.

검사소견: 입원시 말초 혈액 검사상 혈색소 11.1g/dL, 적혈구 용적치 35.5%, 백혈구수 9310/mm³이었

고 혈침 속도는 56mm/hr로 높았다. 호산구수는 290/mm³이었다.

혈청 전해질 농도를 포함한 혈액 일반화학검사 결과는 정상 범위에 속해있었다. CRP는 3+였고 Mantoux test는 음성이었다. 객담 배양검사에서 병원성 세균, 결핵균, 진균 등은 분리되지 않았으며, IgE RAST(Dermatophagoides pteronyssinus, Dermatophagoides farinae, Aspergillus fumigatus, 소나무, 고양이상피, 집먼지)와 IgE PRIST는 증가되어 있지 않았다. 흉부 방사선 소견상 우측 전체 폐야에 폐렴성 경결이 있었으며 내부에 다수의 공기낭(air cysts)들이 관찰되었다(Fig. 1). 경피 폐생검 소견에서 폐방선균증의 특징적인 소견이 관찰되었다.

치료 및 경과: 생검결과 폐방선균증으로 진단되어 Na penicillin G 30만 unit/kg/day로 치료를 시작하였다. 치료 시작후 2주일만에 고열이 발생하여 항생제로 인한 것으로 생각하고 항생제를 clindamycin 45mg/kg/day로 바꾸어 투약하였다. 약 1개월간 항생제를 투여하였으나 증상 및 흉부 방사선 소견의 호전이 없던 중 제 41병일 다량의 객혈이 있어서 제 45병일에 우측 전폐절제술을 시행하였다. 수술후 조직 소견은 폐방선균증, 기관지 확장증, 폐렴성 경결을 보였다. 수술후 2주동안 Na penicillin G와 clindamycin을 병용하였으며, 이후 7일동안 Na penicillin G 30만 unit/kg/day 투여하던 중 백혈구 감소증이 나



Fig. 1. Chest PA showed poorly defined mass-like haziness with ill-defined cavitory lesion in the right middle and lower lung.

타나서 제 67병일부터 clindamycin 30mg/kg/day 경구 투약으로 바꾸었다. 제 72병일에 염증 반응이 호전되고 별다른 증세없이 clindamycin 경구약 가지고 퇴원하였으며 퇴원후 2개월간 경구 clindamycin을 투여받아 수술 전후로 총 4개월간 항생제가 투여되었다. 치료 완료후 2년간 외래 추적 관찰에서 환아는 호흡기 이상 증세 없고 호흡음은 깨끗하며 다른 이학적 소견들도 정상이었다.

고 찰

방선균증은 만성 화농성 육아종성 질환으로 혐기성 혹은 조건 무산소성 방선균(anaerobic or facultative anaerobic Actinomyces)이다. 이 균은 천천히 자라는 사상의 세균으로, 곰팡이균보다는 더 가늘게 분지를 형성하는 사상(branching filaments)으로 되어있다²⁾. 곰팡이균과 달리, 포자원성 또는 사상 발아(sporogenic or filamentous budding)로 번식하는것이 아니라 분열(fission)로 번식한다. 이 균은 구강 점막 내 정상 균총으로 치조(tooth socket), 치은, 치주, 우치내부, 타액에 있으며, 자연계의 다른 어떤곳에도 존재하지 않는 그람 양성균(Gram-positive organism and non-acid fast)이고 대부분 혐기성(anaerobic to microaerophilic)이며 30℃ 이하 온도에서는 성장하지 못한다²⁻⁶⁾.

방선균은 독력이 아주 약하며 정확한 병인론은 알려져 있지 않지만, 탐식 세포에 탐식된 후 죽지않고 살아 있다가 염증 반응을 유발하고 천천히 진행하여 괴사 및 농양을 형성하는 것으로 알려져 있다⁷⁾. 주로 면역 저하 환자에서 기회 감염을 일으키는 경우가 많고 이전의 여러가지 보고에 의하면 모든 방선균 감염의 3-7%가 15세 미만의 소아에서 일어난다²⁾.

방선균증의 임상 양상은 안면경부형(cervicofacial form), 폐흉곽형(pulmonothoracic form), 복부형(abdominopelvic form)의 세가지 형태로 구별된다.

안면경부형은 작은 구강 점막손상을 통해 원인균이 피하조직으로 들어가서⁵⁾, 혀, 후두, 하인두, 누선, 누소관, 하악골, 턱, 부비동, 두피, 구개, 이하선 등에서 무통성 농양을 형성할 수 있다. 초기에는 다소 딱딱한 덩어리였다가 점차 농양이 형성되면서 부드러워지고 해부학적 평면과 무관하게 어떠한 주위조직으로든지 퍼질 수 있는 데 뇌신경이나 경추를 타고 퍼지면 뇌막

염이나 사망에 이를 수도 있고, 폐나 흉막강으로 직접 퍼질수 있으며, 림프행성이나 혈행성 전파는 드물다^{1,2)}.

폐흉곽형은 주로 만성 기관지염, 폐기종, 기관지 확장증 환자에서 발생하며³⁾ 구강내 이물질의 폐흡인^{2,8,9)}, 경부 병변으로부터 직접 전파되거나 혹은 복부 병변의 직접 전파로 시작된다. 감염 초기에는 아급성 폐렴으로 기침, 미열, 화농성 객담이 있다가, 작은 폐농양이 형성되면서 혈액이 섞인 객담이 나타난다. 만성 괴사성 범발성 폐렴(chronic necrotizing diffuse pneumonia)으로 진행하면서 흉통, 호흡 곤란, 발열, 침한(night sweat), 빈혈이 발생하고 흉막과 흉곽벽에까지 진행하면 외부로 배농관(drainage sinus)이 형성되어 표면으로 배액된다. 이 과정에서 상완 신경총 증후군(brachial plexus syndrome), 상대 정맥 증후군(superior vena cava syndrome)이 발생할 수도 있다^{2,3,10,11)}. 흉부 방사선 소견은 주로 폐문에서 뻗어나가는 다수의 경결이 보이며 대부분 양측성이고, 폐야의 하부 절반이 주로 침범된다. 공동성 폐렴, 흉막액 및 흉막협착이 나타날 수 있고 폐문이나 종격동 림프절종대가 없는 것이 특징이다^{3,12)}. 본 환자에서 흉부방사선 소견은 우측폐의 상엽 일부와 중엽 및 하엽에 걸쳐 광범위한 폐렴성 경결의 소견을 보였으며 병변의 내부에 다수의 공기낭이 보였다.

복부형의 대부분은 생선뼈, 닭뼈, 창상, 총상, 수술 후 또는 궤양천공, 충수염 등으로 인한 위장관벽의 천공에서 유래한다⁵⁾. 초기의 증세는 아주 천천히 진행되며 침범된 장기에 따른 증세가 나타난다. 국소 동통, 황달, 체중 감소, 발열, 오한, 구토, 침한이 발생하고, 만성형에서는 불분명한 복부 동통이 가끔씩 있다가, 간조직 침범이 잘 되기 때문에 황달이 나타나는 경우가 많다. 10%에서 간종대 또는 비종대가 있고, 담낭과 요도를 침범할수 있다. 척추로 퍼지면, 척수 손상 및 요근 농양(psoas abscess)이 생길 수 있고, 복벽을 통과하여 배농관이 형성되어서 농 및 유황 과립이 외부로 나올 수도 있다. 감별 진단으로는 복부 종양, 아메바증, 간농양, 요근 농양, 만성 충수염, 신우신염 등이 있다.

방선균증의 진단은 적절한 배지에서 균주의 증식으로 확진하거나, 생검 조직에서 육안상으로 또는 Hematoxylin & Eosin 염색 광학 현미경상으로 유황 과립을 확인함으로써 가능하다. 유황 과립은 방선균의

작은 분엽 세립체 마이크로콜로니(tiny lobulated grainy microcolonies)이며, 황백색의 단단한 구형 또는 분엽상을 형성하고 있다²⁾. 직경은 25-3700 μ m이며 둥근모양 또는 도우넛 모양이고, 중심에 호염기성 염색이 되고 표면은 호산성 염색이 되는 곤봉체(clubs)이다³⁾. 이러한 유황 과립과 유사한 과립으로 보이는 균주는, 노르카디아증, 포도상 구균, 콕시디오이데스 진균증, 국균(*Aspergillus*)이 있다. 이 밖에 방선균증을 임상적으로 진단할수 있는 혈청학적 검사나 피부검사 등은 없다.

감별 진단으로는 결핵¹²⁾, 종양³⁾, 또는 분아균증(blastomycosis), 콕시디오이데스 진균증, 국균증(*aspergillosis*), yersinia 감염증, 아메바증, 간농양, 매독성 고무종(gumma), 야토병(tularemia), 세균성 골수염 등의 각종 감염증이 있다.

방선균증의 치료는 일차적으로 내과적 항생제 요법을 쓴다. 치료의 선택 약제는 penicillin-G이다. 고용량으로 성인은 1-2천만unit/일을 2-3개월 동안 주사하고, 소아는 400,000 unit/kg/day를 6-8주간 치료한다. 차선 약제로 erythromycin, clindamycin, vancomycin, lincomycin, tetracyclin, minocycline, doxycycline, chloramphenicol 등이 있다. oxacillin과 methicillin은 치료 효과가 떨어지고, amphotericin-B와 nystatin은 방선균증에 효과가 없다. 내과적 치료에 반응을 보이지 않거나 다량의 객혈 등이 있을 경우에는 수술적 요법이 필요하다. 병변의 수술적 치료는, 감염 부위의 절개 및 배농, 사골(devitalized bony sequestra)의 절제 및 소파술이 있으며 수술 전에는 30-45일 동안 상기의 항생제를 써야 한다.

본 환자의 경우 3년 정도의 만성적인 기침, 객담, 객혈 등이 있으면서 만성적인 폐렴성 경결이 흉부 방사선 소견에서 보여졌으며 일반적인 항생제나 항결핵제에 반응을 보이지 않았고 객담 배양 검사에서도 음성의 소견을 보여 전형적인 세균성 폐렴이나 결핵과는 다른 양상을 보였다. 따라서 이와 같이 수개월 이상의 비교적 느린 경과를 보이며 흉부 방사선 소견상 폐 조직의 해부학적인 구조와는 관계 없는 폐렴성 소견을 보이는 경우 폐흡인 생검술 등의 적극적인 진단술을 이용하는 것이 필요하다고 생각된다. 본 환자에서 폐방선균증의 원인으로 생각될 수 있는 기관지 내시경상의 이물질은 그 정확한 성분이 확인되지 않아 폐흡인의 증거로서 불충분하다고 생각된다. 본 환자는 진단

후 약 1개월간 Na penicillin G와 clindamycin 등으로 치료를 받았으나 병변이 광범위하고 폐조직의 파괴가 심해 내과적 치료에 반응을 보이지 않았다. 수술후에도 약 3주간의 정주 Na penicillin G와 3개월간의 경구 clindamycin을 투여 받은 후 완치되었다. 그러나 국내의 성인에서의 보고에서, 비교적 병변이 심한 경우에도 장기간의 항생제 요법으로 호전을 보인 경우도 있어 수술적 요법 전에 먼저 내과적 요법을 사용하는 것이 바람직하다고 생각된다.

요 약

저자들은 3년 이상의 병력을 가진 만성 기침, 다량의 화농성 객담, 혈액 섞인 객담을 보이는 환자에서 폐방선균증 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Spinola SM, Bell RA, Henderson FW: Actinomycosis: A Cause of Pulmonary and Mediastinal Mass Lesions in Children, *Am J Dis Child* 135: 336-339, 1981
- 2) Bennhoff DF: Actinomycosis; Diagnostic and Therapeutic Considerations and A Review of 32 Cases, *Laryngoscope* 94:1198-1217, 1984
- 3) Scully RE: Case Records of the Massachusetts General Hospital; Weekly Clinicopathological Exercises, *N Engl J Med* 309: 1171-1178, 1983
- 4) James R, Heneghan MA, Lipkany V: Thoracic Actinomycosis, *Chest* 87:536-537, 1985
- 5) Legum LL, Greer KE, Glessner SF: Disseminated Actinomycosis, *Southern Medical Journal* 71:463-465, 1978
- 6) King JW, White MC: Pulmonary Actinomycosis, *Arch Intern Med* 141:1234-1235, 1981
- 7) Varkey B, Landis FB, Tang TT, Rose HD: Thoracic Actinomycosis, *Arch Intern Med* 134: 689-693, 1974
- 8) Dicipinigitis PV, Bleiweiss IJ, Krellenstein DJ, Halton KP, Teistein AS: Primary Endobronchial Actinomycosis in Association with Foreign Body Aspiration, *Chest* 101:283-285, 1992
- 9) Suzuki JB, Delisle AL: Pulmonary Actinomycosis of Periodontal Origin, *J Periodontol* 55:

581-584, 1984

- 10) Webb WR, Sagel SS: *Actinomycosis involving the Chest Wall: CT Findings*, *AJR* 139:1007-1009, 1982
- 11) Stanley SL Jr., Lusk RH: *Thoracic actinomycosis presenting as a brachial plexus syndrome*, *Thorax* 40:74-75, 1985
- 12) Han CH, Im J, Park KS, Han MC: *Pulmonary Actinomycosis: CT Findings*, *J of Korean Radiological Society* 25:901-906, 1989
- 13) Graybill JR, Silverman BD: *Sulfur Granules*: *Arch Intern Med* 123:430-432, 1969
- 14) Weese WC, Smith IM: *A Study of 57 Cases of Actinomycosis Over a 36-year Period*, *Arch Intern Med* 135:1562-1568, 1975