

진균구를 동반한 비정형적 만성 침습형 진균성 부비동염 1예

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

정영도 · 김보문 · 강병준 · 신승헌

An Atypical Case of Chronic Invasive Fungal Sinusitis with Concurrent Fungal Ball

Young Do Jung, MD, Bo Mun Kim, MD, Byung Jun Kang, MD and Seung Heon Shin, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology, School of Medicine, Catholic University of Daegu, Daegu, Korea

— ABSTRACT —

Chronic invasive fungal sinusitis (CIFS) is a relatively rare disease which occurs in immunocompetent or immunocompromised patients. We report a case of CIFS in ethmoid sinus with concurrent fungal ball in maxillary sinus. After surgical debridement and antifungal therapy, CIFS recurred with submucosal invasion in nasopharynx and osteomyelitis of clivus. Although CIFS encompasses a slowly progressing invasive fungal disease but potentially aggressive. It should be noted that CIFS could progress and extend through submucosal route without evidence of mucosal lesion. (J Clinical Otolaryngol 2018;29:264-268)

KEY WORDS : Chronic invasive fungal sinusitis · Fungal ball · Osteomyelitis.

서 론

만성 침습형 진균성 부비동염은 비부비동을 침범하는 진균성 부비동염 중 비교적 드문 질환으로 면역저하가 있거나 정상 면역기능을 가진 환자에서도 발생할 수 있는 다양한 임상 양상을 보이고 있다.^{1,2)} 질환은 수주에서 수개월간 서서히 진행하며 특징적인 증상 없이 코막힘, 안면통, 콧물, 두통이나 코피 등으로 진료를 받게 된다. 진단이 늦어지는 경우 안와 침부 증후군에 의한 시

력감퇴, 안구 운동장애나 안구 돌출을 동반하기도 하고, 두개내로 침범하는 경우 정신상태 변화, 경련 등 두개내 합병증을 초래하기도 한다.^{1,3)} 최근 저자들은 진균구를 동반한 만성 침습형 진균성 부비동염을 진단하게 되었고 이 후 점막하 침윤을 통해 인접 해부학적 구조물을 침범하여 이차 수술이 필요하였던 환자를 경험하였다. 이는 과거 증례 보고된바 없는 점막하부에서 발생한 만성 침습형 진균성 부비동염으로 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

73세 여자가 한달 전부터 발생한 우측 안면, 특히 코입술주름(nasolabial fold) 부근의 둔통이 발생하였고 이 후 우측 안구통, 비통, 두통으로 진행되어 개인병원에서 약물 치료를 시행하였으나 증상 호전이 없어 삼차신경통

논문접수일 : 2018년 9월 13일

논문수정일 : 2018년 10월 26일

심사완료일 : 2018년 11월 27일

교신저자 : 신승헌, 42472 대구광역시 남구 두류공원로 17길 33

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

전화 : (053) 650-4071 · 전송 : (053) 650-4533

E-mail : hsseung@cu.ac.kr

의심 하에 신경과로 내원하였다. 환자는 10여년 전부터 인슐린 주사를 이용하여 당뇨를 조절하고 있었으며, 입원 후 시행한 혈당검사에서 당뇨병은 잘 조절되고 있었다. 시행된 뇌 자기공명영상에서 기저동맥(basilar artery)에 4 mm 크기의 동맥류와 우측 상악동과 사골동에 비침습형 진균성 부비동염 소견을 보여 신경외과와 이비인후과로 진료 의뢰되었다(Fig. 1). 신경외과의 경우 뇌동맥류 코일 색전술을 시행하려 했으나 심장 문제가 발견되어 시술이 보류되었고, 이비인후과에서 국소 마취하에 우측 부비동 내시경수술을 시행하였다. 수술 중 우측 상악동에서 진균구를 확인하고 제거하였으며 사골포와 중비갑개 사이 작은 괴사조직이 있어 진균구와 함께 조직검사를 시행하고 수술을 마쳤다. 수술당시 괴사조직으로 관찰되었고 침습적인 병변으로 의심되지 않

아 동결 절편검사는 시행하지 않았다. 수술 후 환자의 증상은 개선 되었으나 병리검사 결과 만성 염증조직과 함께 다수의 격벽과 45도의 균사각을 보이는 진균이 조직 내에서 관찰되어 2차 수술 보다는 침습형 아스페르길루스(Aspergillosis)로 확진되어 감염내과로 전과되어 voriconazole을 사용하였다(Fig. 2). 술 후 2주 경과 후에도 수술 중 괴사조직이 있었던 부위의 치유가 지연되어 그 부위의 조직검사를 시행하였으나 만성 염증으로 확인되었고 간헐적 두통 외에 특이 증상이 없어 총 7주간의 항진균제(Voriconazole)를 사용후 중단하였고 정기적인 외래 진료를 통한 경과관찰을 시행하였다. 수술 후 8개월째 외래로 내원하였고 2주 전부터 악화되고 진통제로 조절되지 않는 두통과 이통, 수면 장애가 있어 시행한 비내시경검사에서 우측 비인강부위 점막이

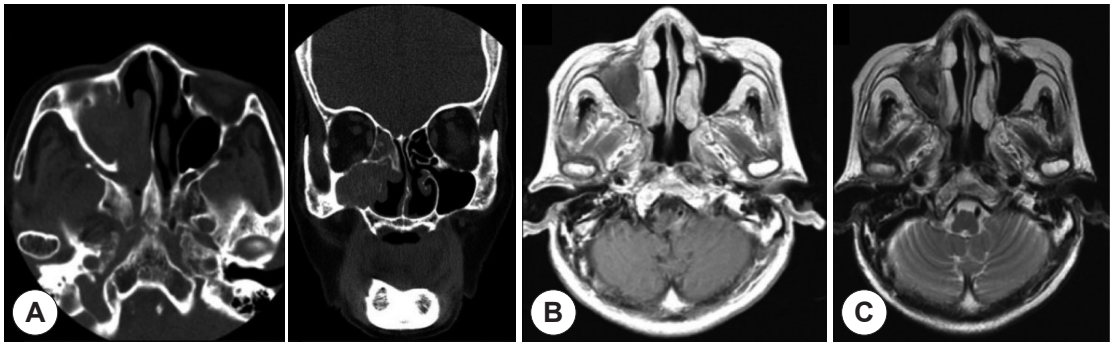


Fig. 1. Preoperative paranasal computed tomography and magnetic resonance imaging findings. A : Soft tissue density in right maxillary sinus with central hyperintense area and medial maxillary bony wall erosion. B, C : Central low signal in right maxillary sinus in T1 weighted image and signal void in T2 weighted image.

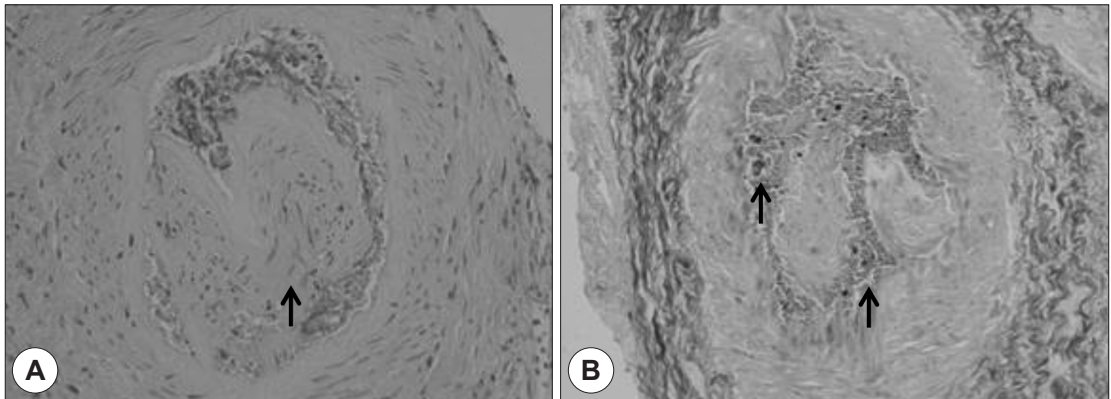


Fig. 2. Histopathologic findings. A : Hematoxylin and eosin stain of anterior ethmoid sinus mucosa shows fungal hyphae surrounded by inflammatory exudate (H&E \times 200). B : Gomori's methenamine silver stain shows the infiltration of fungal hyphae in sinus mucosa (GMS \times 200).

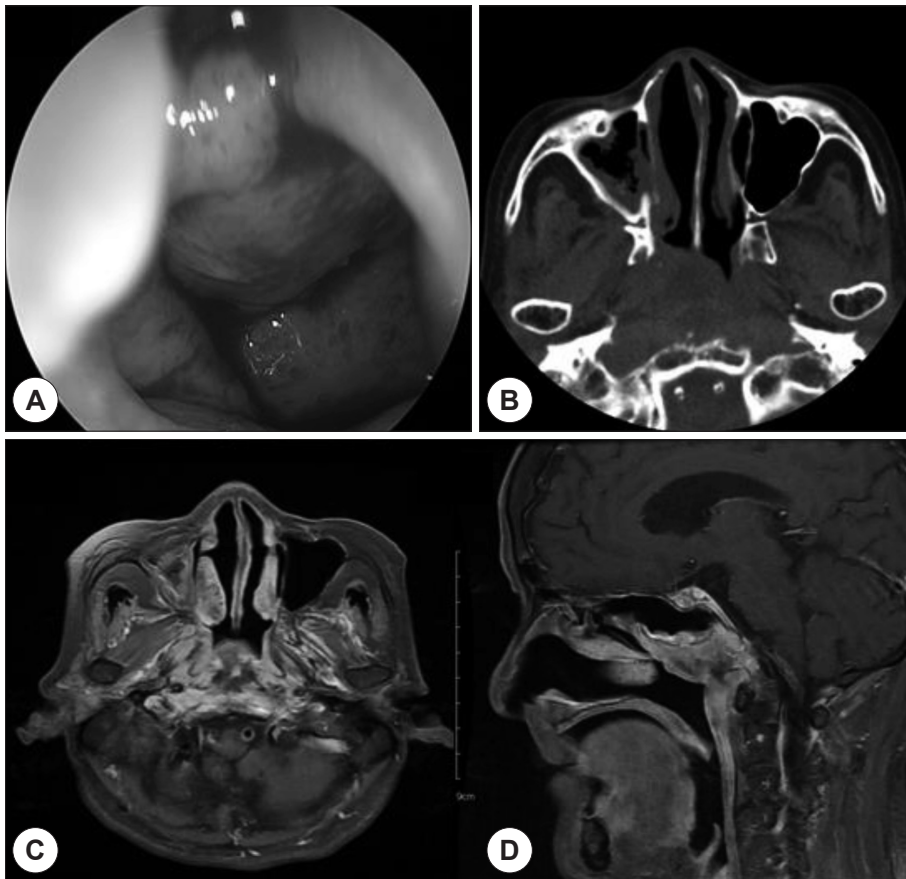


Fig. 3. Post-operative 8 months findings. A : Nasal endoscopy shows right nasopharyngeal mucosal bulging without mucosal pathologies. B : Paranasal computed tomography shows diffused bulging of right nasal pharynx. C, D : T1 weighted paranasal axial (C) and sagittal (D) magnetic resonance imaging show inflammatory change of nasopharyngeal mucosal space and clivus.

불거져 나온 것이 확인되어 전산화단층과 자기공명영상을 촬영하였다(Fig. 3). 영상학적 검사에서 익구개와(pterygopalatine fossa), 비인강과 사대(clivus)까지 침범되어 조영증강을 보이는 염증성 변화와 골수염 소견을 확인하였다. 부비동 내시경을 이용하여 점막하 염증조직이 의심되는 전사골동에서부터 접형동을 포함하여 사대(clivus)까지 포함하는 전반적인 점막을 모두 제거하였으며 조직검사에서 침습형 아스페르길루스가 확인되어 voriconazole을 투여 하였으며 이후 특별한 증상이나 불편감 없이 퇴원하였다. 퇴원 후에도 감염내과와 협진하여 지속적인 경우 voriconazole을 투여하며 특이소견 없어 경과관찰 하였고 첫번째 수술 후 13개월째 환자는 전

신 무력감으로 계단에서 넘어져 대퇴골 경부 골절(femur neck fracture)과 상완골 경부 골절(humeral neck fracture)이 발생하여 정형외과에 입원하였으나 전신상태가 악화되어 사망하였다.

고 찰

진균성 부비동염은 점막, 혈관, 골부 등 진균의 조직 내로의 침범 여부에 따라 침습형과 비침습형 부비동염으로 나누어진다. 침습형 부비동염은 병의 진행이 4주 이내에 광범위한 조직 파괴와 높은 치사율을 보이며 당뇨나 면역기능이 저하된 환자에서 흔히 발생하는 급성

전격성 진균성 부비동염과 병변이 12주 이상 진행되면서 균사에 의해 육아종을 형성하는 육아종성 진균성 부비동염과 비육아종성 만성 침습형 부비동염으로 나누어진다.^{4,5)} 본 증례는 진단 후 1년 이상 치료가 진행되었던 *Aspergillus*에 의한 만성 침습형 진균성 부비동염으로 진단 초기 당뇨병을 가지면서 침습형 부비동염이 발생한 사골동의 이웃한 부비동인 상악동 진균구를 동반하였고 병변의 확장이 점막하 조직을 통해 이루어진 비전형적 진균성 부비동염으로 기존에 보고된 증례와 다른 특이점을 보여 보고하는 바이다.

만성 침습형 진균성 부비동염은 당뇨나 후천성 면역 결핍증 등의 면역이 저하된 경우 뿐 아니라 정상적인 면역기능을 가진 경우에도 발생할 수 있다.⁵⁾ 특이한 증상 없이 안면통이나 압통, 비루, 코막힘, 코피 등의 증상이 나타날 수 있으며 주위 조직을 침범하는 경우 안구돌출, 안구통, 만성 두통, 경련 등의 증상을 보일 수 있다.^{6,7)} 본 증례의 경우 안면통, 안구통 등의 증상이 있었고 1차 수술 후 증상 개선이 있었으나 점막하로 침범한 병변이 후사골동, 비인강 및 골수염까지 확장 동반되면서 약물로 조절되지 않는 두통을 호소하였다. 1차 수술 후 정기적인 외래 진료에도 진균성 병변이 확장 진행되는 것을 확인할 수 없었던 것은 기존의 침습형 진균성 부비동염과 달리 병변이 점막하 조직을 따라 주변 조직으로 진행되어 진단이 늦어진 것으로 보이며, 1차 수술 시에 사골동 부분의 병변을 충분히 제거하지 않아 병변이 확대 진행된 것으로 생각된다. 과거 공격적인 진균구의 경우 침습형 부비동염으로 진행될 수 있다는 보고는 있었지만,^{8,9)} 본 증례의 경우 상악동 진균구를 동반한 사골동 침습형 진균성 부비동염으로 서로 다른 부비동에서 발생한 경우로 진균구와 침습형 진균성 부비동염과의 발병은 연관성이 없을 것이다. 진균구의 경우 주위조직으로 침범이 있는 경우 대부분 진균성 질환과는 무관한 염증성 병변이다.¹⁰⁾

침습형 진균성 부비동염의 경우 컴퓨터단층촬영에서 주위 골조직을 파괴하거나 부비동의 범위를 넘어 병변이 확장되어 악성 종양처럼 보일 수 있고, 자기공명영상에서는 진균의 혈관내 침범으로 조직 괴사가 발생하여 T1 강조영상에서 신호가 감소하고 T2 강조영상에서는 더욱 신호가 감소하는 신호 음성(signal void) 양상을 보

인다.¹¹⁾ 본 증례의 경우 우측 상악동에는 진균구에 의해 전산화단층촬영에서 고음영이 관찰되고 T1, T2 강조 영상에서 저신호 강도를 보이는 특징적인 소견을 보였으나 침습형 부비동염을 의심할만한 소견은 관찰되지 않았다. 조직학적 검사에서 상악동은 진균구, 전사골동 조직에서는 침습형 진균성 부비동염을 확인할 수 있었다.

만성 침습형 진균성 부비동염의 치료는 수술적 절제와 항진균제 투여를 원칙으로 하며 본 증례의 경우 1차 수술에서 침습형 부비동염을 예측하지 못하여 괴사조직 부위를 최소한 제거하게 되었으며, 침습형 부비동염의 확진 후에 7주간 voriconazole을 사용하였고 특별한 증상이 없어 치료를 중단하였다. 이는 대부분 침습형 진균성 부비동염의 경우 병변이 점막을 침범하게 되고 부비동 내시경검사를 통해 재발이나 병의 진행을 판단할 수 있으나 본 증례의 경우 수술 후 치유가 늦어지는 부위의 조직 검사에서 단순 염증으로 확인되었고 전신 증상의 개선이 있었으며, 병변이 비인강 점막하 조직으로 파급되고 사대 골수염으로 진행된 후에야 비인강 점막의 돌출을 확인하게 되어 치료가 지연되었다. 하지만 급성 전격성 진균성 부비동염과 달리 2차 수술을 통해 염증성 조직을 광범위하게 제거하고 항진균제의 사용으로 환자의 증상 개선과 침습형 진균성 부비동염의 진행을 차단할 수 있었다.

만성 침습형 진균성 부비동염은 진료 중 흔히 접할 수 있는 질환은 아니지만 급성 전격성 진균성 부비동염과는 확연히 다른 임상 경과를 보이며 수술적 절제와 항진균제의 사용으로 좋은 치료 결과를 얻을 수 있지만 주변 조직으로의 전파나 재발 방지를 위해서는 초기 치료에 보다 적극적인 내시경 및 방사선 검사 결과를 토대로 광범위한 절제술을 시행하여야 하며, 치료 후 경과 관찰 또한 반복적이고 지속적인 내시경 및 방사선 검사를 시행하여야 할 것이다.

중심 단어 : 침습형진균성부비동염 · 아스페르길루스 · 진균구.

REFERENCES

- 1) Vakharia KT, Durand ML, Hamilos DL, Geyer JT, Holbrook EH. An atypical case of chronic invasive fungal sinusitis and its management. *Otolaryngol Head Neck Surg*

- 2010;142:150-1.
- 2) Busaba NY, Colden DG, Faquin WC, Salman SD. Chronic invasive fungal sinusitis: a report of two atypical cases. *Ear Nose Throat J* 2002;81(7):462-6.
 - 3) Thurtell MJ, Chiu AL, Goold LA, Akdal G, Crompton JL, Ahmed R, et al. Neuro-ophthalmology of invasive fungal sinusitis: 14 consecutive patients and a review of the literature. *Clin Experiment Ophthalmol* 2013;41:567-76.
 - 4) Grosjean P, Weber R. Fungus balls of the paranasal sinuses: a review. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2007;264(5):461-70.
 - 5) Chakrabarti A, Denning DW, Ferguson BJ, Ponikau J, Buzina W, Kita H, et al. Fungal rhinosinusitis: a categorization and definitional schema addressing current controversies. *Laryngoscope* 2009;119(9):1809-18.
 - 6) Kim DK, Nam SK, Lee KA, Cho JH. A case of chronic invasive fungal sinusitis invading pterygopalatine fossa. *Korean J Otolaryngol Head Neck Surg* 2010;53:316-9.
 - 7) Shin SH, Choi SY, Lee YH. Chronic invasive fungal sinusitis progressed to skull base osteomyelitis. *J Clinical Otolaryngol* 2010;21:89-94.
 - 8) Robey AB, O'Brien EK, Richardson BE, Baker JJ, Poage DP, Leopold DA. The changing face of paranasal sinus fungus ball. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2009;118:500-5.
 - 9) Soler ZM, Schlosser RJ. The role of fungi in diseases of the nose and sinuses. *Am J Rhinol Allergy* 2012;26:351-8.
 - 10) Kim Y, Kim H, Kim HY, Cha J, Lee JY, Chung S, et al. Extrasinonasal infiltrative process associated with a sinonasal fungus ball: does it mean invasive fungal sinusitis? *Diagn Interv Radiol* 2016;22:347-53.
 - 11) Maroldi R, Ravanelli M, Borghesi A, Farina D. Paranasal sinus imaging. *Eur J Radiol* 2008;66(3):372-86.