회맹부 궤양과 재발성 하부 위장관 출혈로 나타난 복부 방선균증 1예

가톨릭대학교 부천성모병원 내과학교실

박진영 · 한석원 · 김창환 · 김태호 · 장재혁 · 맹일호 · 이미정 · 임윤선 · 김지훈 · 남성민

A Case of Abdominal Actinomycosis Presenting as Ileocecal Ulcers and Recurrent Lower Gastrointestinal Bleeding

Jin Young Park, M.D., Sok Won Han, M.D., Chang Whan Kim, M.D., Tae Ho Kim, M.D.,
Jae Hyuck Chang, M.D., Il Ho Maeng, M.D., Mi Jeong Lee, M.D., Yun Sun Im, M.D.,
Ji Hun Kim, M.D., Sung Min Nam, M.D.

Department of Internal Medicine, The Catholic University of Korea, Bucheon St. Mary's Hospital, Bucheon, Korea

Abdominal actinomycosis is a rare chronic suppurative infection that is difficult to diagnose precisely without an operation. It also tends to be misdiagnosed as a malignancy, intestinal tuberculosis, diverticular disease, or Crohn's disease. A 54-year-old man presented with loose stools, hematochezia, and vague abdominal pain in the right lower quadrant. He had had a history of hematochezia and recurrent colon ulcers on colonoscopy seven times within the past 3 years. A colonoscopy at admission revealed multiple, variably sized and shaped ulcerations in the terminal ileum, cecum, and ascending and transverse colons. Biopsies from the cecal ulcer demonstrated sulfur granules. This is the first cases of abdominal actinomycosis presenting as a recurrent lower gastrointestinal hemorrhage due to ileocolic ulcerations in Korea. (*Intest Res* 2012;10:309-313)

Key Words: Actinomycosis; Gastrointestinal Hemorrhage

서 론

방선균증은 만성화농성 육아종성 질환으로 발생 부위에 따라 경안부형, 흉부형 및 복부형으로 나눌 수 있다. 이 중 복부 방선균증은 전체의 약 20% 정도로 급성 충수돌기염, 대장계실염, 천공성 위장관 질환 등의 선행질환을 앓고 난 다음 수 주 내지 수 개월 후에 발병한다.¹ 방선균증은 병변의 농, 조직생검, 수술로 절제된 검체 등에서 황과립(sulfur granule)을 증명하면 확진이 가능하지만, 전형적인 증상이 없고 방선균

의 배양이 어렵기 때문에 정확한 진단이 어렵다. 또한 종괴의 형태로 나타나는 경우 만성적인 경과를 보여 악성종양으로 오인되기도 한다.^{2,3}

저자들은 3년 전부터 혈변 증상이 나타나 수 차례 대장내시경 및 결장 궤양 부위의 조직생검을 시행하였으나, 염증 소견 외에 특이 소견이 없어 보존적 치료만 시행하였던 말기신부전 환자가 최근 혈변 증상이 다시 발생하여 입원 후 시행한 대장내시경 및 조직학적 검사에서 황과립을 증명함으로써 복부 방선균증으로 진단하고 페니실린 치료 후 혈변 증상과 결장 궤양

접수 : 2011년 9월 7일 수정 : 2011년 12월 16일

승인 : 2011년 12월 19일

• 연락처 : 한석원, 경기도 부천시 원미구 소사2동 (420-717)
가톨릭대학교 부천성모병원 내과
Tel: 032) 340-7006, Fax: 032) 340-2669
E-mail: swan54@yahoo.co.kr

Received September 7, 2011. Revised December 16, 2011.

Accepted December 19, 2011.

• Correspondence to : Sok Won Han, M.D., Department of Internal Medicine, The Catholic University of Korea, Bucheon St. Mary's Hospital, Sosa-dong 2, Wonmi-gu, Bucheon 420-717, Korea
Tel: +82-32-340-7006, Fax: +82-32-340-2669
E-mail: swan54@yahoo.co.kr

이 현저히 호전된 1예를 경험하였다. 국내에서는 아직 결장궤양 및 혈변이 주증상으로 나타난 복부 방선균 증의 보고가 없기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

54세 남자가 내원 당일 5차례 혈변이 발생하여 응급실을 경유하여 입원하였다. 과거력에서 환자는 15년 전부터 말기 신부전으로 주 3회 혈액투석 중이었고, 15년 전과 1년 전에 혈액투석을 위한 좌측 아래팔 동정맥류 수술 외에 복부수술의 기왕력은 없었다. 환자는 내원 3년 전에 혈변 증상으로 타 병원을 방문하여 대장내시경을 통한 조직검사 결과, 방선균증으로 진단받고 본원으로 전원되었다. 당시 본원에서 재시행한 대장내시경에서 회맹부와 상행결장에 다발성 궤양과 발적 소견이 관찰되어 회맹부와 상행결장의 궤양에서 조직검사를 시행하였으나 염증 외에 특이 소견이 없어, 감염성 장염 의심 하에 수일간 3세대 세팔로스포린 계통 항생제 치료를 하였고, 환자는 증상이 호전되어 퇴원하였다. 퇴원 후에도 환자는 3-6개월마다 혈변이 재발하여 2년간 총 7차례 입원하였으며, 입원할 때마다 혈변의 원인을 찾기 위하여 시행한 위내

시경은 정상이었고, 대장내시경에서 회맹부와 상행결장의 다발성 궤양이 관찰되어 생검을 시행하였으나, 염증 소견만 관찰되어 일시적으로 3세대 세팔로스포린 계통 항생제 치료만 받았었다.

환자는 키 180 cm, 체중 70 kg의 건장한 체격이었고 내원일에 혈변 외에 특별한 복부 불편감은 없었으며, 말기 신부전으로 만성 병색이었으나 전신상태는 비교적 양호해 보였고 의식은 명료하였다. 피부는 정상 소견이었고, 결막은 창백하지 않았으며, 공막에 황달 소견은 없었다. 흉부 진찰 소견은 정상이었고, 복부팽만은 없었고, 장음도 정상이었다. 복부 표면에 배출 농루나 반흔 조직은 볼 수 없었으며, 직장 수지 검사에서 이상 소견은 없었다. 내원 당시 혈압은 70/50 mmHg, 맥박은 113회/min, 체온은 36°C였다. 말초혈액 검사는 백혈구 $21,240/\text{mm}^3$ (호중구 74%), 혈색소 15.7 g/dL, 혈소판 $231,000/\text{mm}^3$ 이었고, 혈청 생화학검사는 총단백 6.8 g/dL, 알부민 4.1 g/dL, 총빌리루빈 0.5 mg/dL, alkaline phosphatase 44 IU/L, AST 20 IU/L, ALT 30 IU/L, γ -GT 13 IU/L으로 정상이었으며, BUN 63.9 mg/dL, creatinine 8.8 mg/dL, ESR 32 mm/hr, CRP 14.23 mg/dL로 상승되어 있었다. 심전도는 동성빈맥이었고, 흉부단순촬영과 복부단순촬영에서 이상은 없었으며, 위내시경에서는 위축성 위염만 관찰되었다.

Fig. 1. Colonoscopic findings. Diffuse erosive mucosa with fresh blood is seen in the proximal ascending colon (A). A small, irregular ulcer with hyperemic, nodular, surrounding mucosa is seen in the proximal transverse colon (B).

Fig. 2. Abdomino-pelvic CT findings. A thickened wall is seen in the cecum (A). An ulceration in the cecum (white arrow) and a thickened wall in the ascending colon (B).

대장내시경에서 말단 회장부위의 궤양 및 협착, 맹장부위부터 횡행결장까지 다양한 크기의 궤양과 점막의 발적 및 부종이 관찰되었고, 상행결장에는 혈액이 고여 있었으며, 맹장에는 1.5 cm 크기의 깊은 궤양이 관찰되었으나 종괴는 형성하지 않았다(Fig. 1). 대장내시경의 육안적 소견에서 장결핵 또는 염증성 장질환을 의심하여 맹장부위 궤양에서 조직검사 및 세균배양 검사를 시행하였다. 복부전산화단층촬영에서도 말단 회장부위의 비후와 맹장부위의 궤양 및 주변으로 염증성 변화 등이 관찰되었다(Fig. 2). 대장내시경 3일 후에 보고된 맹장 궤양의 병리조직학적 소견에서 만성 염증성 궤양 안에 황과립이 포함되어 있어(Fig. 3) 복부 방선균증을 진단할 수 있었다. 환자는 이후 입원 중에 3-4회 혈변 증상이 재발하였고 혈색소가 최저 6.8 g/dL까지 감소하였으나, 수혈 및 보존적 치료와 4주간 페니실린 G 2,000만 IU를 매일 정맥 주사하는 치료를 시행하면서 점차 혈변이 감소하였고, 증상이 호

Fig. 3. Pathologic findings. Typical sulfur granules (arrow) (A: H&E stain, $\times 100$; B: H&E stain, $\times 200$).

전되어 입원 4주만에 퇴원하였다. 환자는 퇴원 후 외래에서 경구 독시사이클린 200 mg/day을 8개월 동안 복용하면서 혈변 증상이 재발되지 않고 양호한 경과를 보였으며, 치료 8개월 후 시행한 추적 대장내시경에서 전체 대장에 걸쳐 거의 정상 점막이 관찰되었다(Fig. 4).

고 찰

방선균주는 인체의 구강, 위장관 및 여성 생식기에 정상적으로 상주하는 그람 양성 간균으로 건강한 점막은 침투하지 못하다가 장관염, 수술, 외상 등으로 인하여 상피조직이 파괴된 경우 점막 내로 침투하여 내인성 감염을 일으킨다.⁴ 방선균은 조직의 염증이 진행함에 따라 육아성 조직, 섬유화, 다발성 농양, 염증성 종괴를 형성하고, 때로는 인접장기에 누공을 형성하여 배농되면서 황과립을 배출한다.⁵ 방선균증은 조직학적으로 황과립을 확인하거나, 방선균을 배양하면 진단할 수 있으나 감염조직의 무기 배양에 수 주 또는 수 개월의 시간이 필요하므로 임상적으로 잘 이용되지 않는다.⁶ 황과립은 약 50%에서 발견되는데, 방선균증 뿐 아니라 노카르디아, 연쇄상구균, 포도상구균 등에서도 비슷하게 나타날 수 있어 감별 진단이 필요하다.

Cope⁷는 방선균증을 경안부형(cervicofacial form, 56.8%), 복부형(abdominal form, 22.3%), 흉부형(thoracic form, 15%), 기타형(other form, 5.9%; 피부, 신장, 간, 난소, 관절 및 중추 신경계)으로 구분하였다. 복부 방선균증은 전체의 20-25% 정도를 차지하며,⁸ 충수돌기, 맹장, 위, 대장, 이차적 복강내 농양 순으로 호발한다.⁹ 복부 방선균증은 주로 복통과 종괴의 임상 증상으로 나타나며 만성적인 경과를 취하고, 식욕부진, 발열, 변

Fig. 4. Colonoscopic findings. Complete healing of ulcerations at cecum and ascending colon.

비, 설사, 구토 등의 비특이적인 증상들이 관찰될 수 있으며, 직장에서 발병된 경우는 뒤무직 등의 증상으로 나타날 수 있다.¹⁰ 국내에 보고된 약 100예를 검토해 본 결과, 복부 방선균증의 주증상은 복통 및 종괴였다.^{3,6,10,11} 이번 증례와 같이 위장관출혈 증상으로 발현된 경우는 Yoo 등¹¹이 보고한 8예 중 1예에서 흑색변이 주증상으로 언급되어 있었으나, 환자의 병력이나 병변의 위치 등에 대해서는 자세히 소개되지 않았다. 또 토혈을 주증상으로 진단한 위방선균증에 대한 증례보고가 1예 있었으나,¹² 혈변이 주증상으로 나타난 증례보고는 없었다. 외국에서는 Kodalli 등¹³이 혈액투석을 하는 말기신부전 환자에서 흑색변과 혈변으로 발현한 복부 방선균증을 처음으로 보고하였다. 이번 증례와 비교해 보았을 때 유사한 점은 첫째, 중년의 말기 신부전 남자 환자로 혈액투석을 하고 있었고, 둘째, 혈변이 주증상으로 나타났다는 점, 셋째, 맹장 주변 부위의 다발성 궤양 소견을 보였다는 점 등이었다. 미국의 증례보고에서는 말기 신부전이라는 면역저하 상태가 복부 방선균증 발병 소인으로 연관이 있는지에 관해서는 언급되어 있지 않았다. 이번 증례와 차이점은 수술로 확진 및 치료를 시행한 데 반해, 이번 증례는 대장내시경 및 조직생검에서 방선균증이 확인되어 수술적 치료가 아닌 내과적 치료로 환자의 증상이 호전되었다는 점이다.

방선균증은 신체 검진에서 복부종괴의 촉진 및 누공을 관찰할 수 있는데, 이로 인해 악성종양이나 크론병으로 오진되는 경우도 있으며, 게실 농양, 결핵 등과 증상이 비슷하여 감별 진단이 어렵다.¹⁴ 방선균증의 진단에 있어서 방사선학적 진단은 유효성이 높지 않으나 복부전산화단층촬영에서 침윤성 종괴를 형성하고, 결합조직형성이 심하며, 장벽 밖으로 염증이 주로 전개되는 경우 방선균증을 의심할 수 있으므로 대장암과의 감별에 도움이 될 수 있다.¹⁵ 대장내시경 소견은 다양하여 발적, 부종, 미란 및 궤양의 양상을 보이거나 심한 경우 결절이나 종괴와 같은 모양을 보이기도 하지만 정상 점막을 보이기도 한다.⁴ 따라서 대장내시경은 때때로 진단과 치료 후 반응 평가에 도움이 될 수 있지만, 특징적인 소견이 없고 조직검사에서 황과립이 나타나지 않을 수도 있으므로 확진을 얻는 방법으로는 완전하지 않다고 할 수 있다.

이번 증례의 경우, 신체검진에서 특이소견이 없었고, 복부전산화단층촬영에서 말단 회장부위의 비후와 맹장의 궤양 소견을 보였으며, 대장내시경에서 말단 회장, 맹장, 상행결장 부위에 다발성 궤양이 관찰되었으나 이러한 소견으로 특정질환을 진단할 수 없는 상

태이므로 대장내시경을 통한 조직검사에서 황과립이 관찰되지 않았다면 복부 방선균증을 진단할 수 없었던 경우였다. 국내에 보고된 바에 따르면,^{10,11,16} 복부 방선균증에서 대장내시경을 시행한 경우, 충수돌기, 회맹부에 협착과 발적, 부종으로 나타나는 경우가 흔했고, 본 증례와 같이 궤양으로 나타난 경우는 1예만 있었다.¹⁶ 또한 개복 수술 없이 대장내시경과 조직생검을 통해 복부 방선균증을 진단한 경우가 국내에서는 1예¹⁷만 보고되어 있을 만큼 병변을 수술적으로 적출하지 않고 방선균증을 진단하는 것은 어려운 것으로 알려져 있다.

방선균증은 항생제 투여로 90%까지 치료될 수 있지만 진단이 어렵기 때문에 진단 및 치료를 위하여 수술적 방법이 필요한 경우가 대부분이다.¹⁸ 내과적 치료는 병변의 광범위한 섬유화와 재발 위험성 때문에 장기간의 치료를 요하며 치료기간은 질병의 위치와 심각한 정도에 따라 다르지만 치료원칙은 페니실린 G를 매일 천만에서 2천만 단위씩 4주에서 6주까지 정주하고, 방선균증의 소견이 완전히 없어질 때까지 경구용 페니실린을 6개월에서 12개월 더 사용하는 것이다.¹⁷ 그러나 심한 조직반응으로 비교적 혈관분포가 적은 종괴를 형성한 경우, 심한 농양이나 커다란 종괴를 형성한 경우, 치료에 반응을 보이지 않는 배농구를 가진 경우에는 항생제 투약의 방법만으로 치료효과를 기대하기가 어렵기 때문에 수술적 치료가 필요하다.¹⁹ 이번 증례에서와 같이 내시경 조직검사를 통해 수술적 치료가 아닌 내과적 항생제 치료로 호전된 방선균증의 경우가 국내에서는 드물게 보고되었다.^{10,16,17,20}

이번 증례는 복부 방선균증을 의심하지 않았다면 진단하기 어려운 예였다. 복부 방선균증의 매우 드문 증상인 혈변이 주증상이었고, 대장내시경에서 말단 회장, 맹장, 결장에 염증성 장질환이나 장결핵 등 다른 질환에서도 보일 수 있는 다발성 궤양의 소견만 있었기 때문이다. 결과적으로 이번 증례는 조직검사를 통해 복부방선균증을 진단하였고, 그 결과 수술적 치료가 아닌 항생제 약물치료로 증상이 호전된 드문 예로써 의미가 있다고 생각되어 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Mandell GL, Douglas Jr RG, Bennett JE. Principles and practice of infectious diseases. 2nd ed. New York: Churchill Livingstone, 1985.
2. Harris LA, DeCosse JJ, Dannenberg A. Abdominal actinomycosis: evaluation by computed tomography. Am J Gastroenterol 1989;84:198-200.

3. Choi SH, Park SM, Kim YH, Kim IC. A case of abdominal actinomycosis. *Korean J Gastroenterol* 1992;24:1463-1467.
4. Kaya E, Yilmazlar T, Emiroğlu Z, Zorluoğlu A, Bayer A. Colonic actinomycosis: report of a case and review of the literature. *Surg Today* 1995;25:923-926.
5. Fowler RC, Simpkins KC. Abdominal actinomycosis: a report of three cases. *Clin Radiol* 1983;34:301-307.
6. Kim SK, Chung JM, Kim DH, et al. A case of abdominal actinomycosis. *Korean J Gastroenterol* 1998;31:558-561.
7. Cope VZ. Actinomycosis. London: Oxford University press, 1938.
8. Evans TN, Fitzgerald EJ. Abdominal actinomycosis. *Br J Clin Pract* 1990;44:499-500.
9. Miller RE, Katz S. Actinomycosis of the transverse mesocolon. *Am J Surg* 1971;122:414-416.
10. Kim MK, Sun BH. Clinical analysis of actinomycosis: 66 cases of Korean experience. *J Korean Surg Soc* 1997;52:702-710.
11. Yoo SW, Park SW, Kim GW, Son CM. Clinical analysis of abdominal actinomycosis: 8 cases. *J Korean Surg Soc* 2003;64: 251-255.
12. Jang NS, Yu DG, Jo HC, Bae BJ. Submucosal gastric actinomycosis in a hematemesis patient. *J Korean Surg Soc* 2001;60:345-348.
13. Kodali U, Mallavarapu R, Goldberg MJ. Abdominal actinomycosis presenting as lower gastrointestinal bleeding. *Endoscopy* 2003;35:451-453.
14. Deshmukh N, Heaney SJ. Actinomycosis at multiple colonic sites. *Am J Gastroenterol* 1986;81:1212-1214.
15. Garner JP, Macdonald M, Kumar PK. Abdominal actinomycosis. *Int J Surg* 2007;5:441-448.
16. Baek JT, Lee DS, Ahn BM, et al. A case of abdominal actinomycosis developed in upper gastrointestinal tract. *Korean J Gastrointest Endosc* 2002;25:453-456.
17. Kim DU, Han DS, Lee HL, et al. A case of abdominal actinomycosis confirmed by colonoscopic biopsy. *Korean J Gastrointest Endosc* 2002;25:461-465.
18. Kim H, Lee WK, Kim SH, et al. A case of abdominal actinomycosis. *Korean J Gastrointest Endosc* 2000;20:307-311.
19. Alvarado-Cerna R, Bracho-Riquelme R. Perianal actinomycosis--a complication of a fistula-in-ano. Report of a case. *Dis Colon Rectum* 1994;37:378-380.
20. Son SH, Kim BS, Huh KC, Park SK. Abdominal actinomycosis initially diagnosed as a colorectal cancer or periappendiceal abscess. *Korean J Gastrointest Endosc* 2000;21:717-722.