

악하선에 발생한 방선균증

강릉대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *서울대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실 및 치학연구소
이진호 · 박인우 · 최항문* · 허민석* · 이삼선*

Actinomycosis of Submandibular Gland

Jin-Ho Lee, In-Woo Park, Hang-Moon Choi*, Min-Suk Heo*, Sam-Sun Lee*

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kangnung National University

*Department of Oral and Maxillofacial Radiology and Dental Research Institute, College of Dentistry, Seoul National University

ABSTRACT

Actinomycosis is defined as a chronic, specific, suppurative, granulomatous disease caused mainly by the anaerobic, gram positive organism, *Actinomyces israelii*. Actinomycosis in the salivary gland is a rare disease that is caused by an inhabitant of the normal flora. We report the case of the actinomycosis of submandibular gland. A 53-year old man presented with the swelling on left submandibular area. The lesion was not painful but had been increasing for about 10 days. In the CT view, the internal portion of the mass showed homogeneous moderate signal. The mass had continuities with the inferior portion of the left enlarged submandibular gland. In the MRI, there was a mass that showed a bulging pattern inferiorly in the left submandibular gland without bony invasion sign. The biopsy shows the colony of special organism. Many filaments are discovered with clubbed ends diffused from center of colony. We diagnosed this disease as actinomycosis in the submandibular gland by the postoperational biopsy. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol 2000 ; 30 : 132-137*)

KEY WORDS : actinomycosis, submandibular gland

방선균증은 19세기부터 임상적으로 보고되었다.¹ 방선균증(Actinomycosis)이라는 단어는 빛 모양이라는 그리스어 aktino와 진균류 감염으로 잘못 표현한 mykes라는 말에서 유래되었다.²

병리학적으로 방선균증은 선상, 분지형, 그람양성 혐기성 박테리아에 의한 감염성 질환이다.³⁻⁶ *Actinomyces israelii*가 주원인균이고, *A. naesulindii*, *A. viscosus*, *A. odontolyticus*, *A. meyeri*, *A. bovis*, *Arachnia proprionica* 등이 방선균증을 일으킨다.⁷⁻⁸ 대부분의 경우에 있어 주원인균들은 연쇄상구균과 포도상구균 등과 협력적으로 연관되어있으며, 감염은 주로 외상, 외과수술, 이전감염에 의한이다. 이들의 군집화 부위로는 건강한 환자에 있어서 편도 음와, 치태, 치석, 우식상아질, 치은열구, 치주낭 등을 들 수 있다.⁹

방선균증에서는 특징적으로 유허과립을 발견할 수 있는

데, 이는 감염에 의한 화농성 반응에 의해 나타날 수 있는 세균의 군락을 나타내는 큰 노란색의 반점이다. 그러나 모든 유허과립의 존재가 방선균증을 나타내는 것은 아니다.¹⁰⁻¹¹ 방선균증은 두경부에 있어 연조직 상처, 치주낭, 실활치, 발치와, 감염 편도 등 이전 외상부위를 통해 조직에 전파되는데, 임파절은 전파경로에 포함되는 경우에만 관여하게 된다. 방선균증은 섬유증에 의해 경결감을 보이며 결국 중심성의 농양을 형성한다. 감염은 표면까지 전파되어, 누공을 형성할 수가 있으며, 흔히 적절한 치료후 통증은 줄어들지만, 피부에 흉한 반흔을 남긴다.¹⁰ 진단은 비록 임상적 소견으로도 이루어지지만 주로 미생물과 조직학적 소견에 근거하여 이루어진다.

증 례 보고

1. 병력

53세의 남자환자로 좌측 악하부의 종창을 주소로 내원하였으며 1년 전 좌측 악하부의 농양으로 인해 절개와 배농을 받았으나 경결감은 계속되었다. 첫 증상이 발현 후 1

접수일 : 2000년 4월 11일 채택일 : 2000년 5월 18일

Correspondence to : Jin-Ho Lee

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kangnung National University, 123 Chibyun-dong, Kangnung-City, Kangwon-Do, Korea, 210-702

Tel) 0391-640-3135, Fax) 0391-640-3113

E-mail) xraylee@hanmail.net

년만에 좌측 악하부에 종창이 다시 발생되었다. 이 환자는 7-8년 정도 당뇨로 인한 약물치료를 받고 있는 상태였다.

2. 임상적 소견

좌측 악하부에 직경 4 cm 정도의 경결감을 보이는 종괴가 관찰되었으며 압통, 발적, 국소적 미열이 관찰되었고 구강내 종창은 없었으며 개구 장애 증상은 없었다.

3. 방사선학적 소견

파노라마 사진에서는 특별한 이상은 관찰되지 않았고 (Fig. 1), 후전방 가슴사진에서도 악성종양의 전이 등의 특별한 이상은 관찰되지 않았다.

초음파 영상에서 좌측 악하선 내부에 비교적 소엽성의 형을 보이는 13.5×21.4×17.0 mm 크기의 병소가 관찰되었다 (Fig. 2).

타액선 스캔상 concentration phase (20분 후)에서 양측 이하선과 악하선에 정상적인 방사능의 집적이 보였다. 타액선 스캔상 wash out phase에서도 비정상적인 소견은 관찰되지 않았다 (Fig. 3).

전산화단층영상에서 비후된 좌측 악하선 전하방으로 미만성 종창이 관찰되었으며, 내부엔 동질성의 중등도 신호 강도를 보였다. 이 종괴의 기원으로 악하선이 가장 가능성이 높고, 관련된 좌측 악하선의 비후가 관찰되었으며 타액선 가까이에 종괴가 위치하였고 악하선 하방에서 일부 연결된 양상을 보였다 (Fig. 4). Bone setting에서 골 침식 양상은 관찰되지 않았다.

자기공명영상에서 좌측악하선의 아래쪽으로 팽대된 양상을 보이는 종괴는 T1 강조영상과 T2 강조영상에서 타액선과 비슷한 정도의 신호 강도를 보였다 (Figs. 5, 6).

4. 조직병리학적 소견

술후 조직 검사시의 소견으로 특징적인 미생물의 군락이 관찰되었고, 그 중심으로부터 방사상으로 퍼진 곤봉화된 말단을 가지는 수많은 섬사가 관찰되었다 (Fig. 7).

5. 치료

치료로는 좌측 악하선의 부분적 절제술을 시행하였다.

고 찰

구강내 방선균은 치아 표면에 초기에 군집을 이루며 치태 내에 흔히 나타난다.¹² 구강 내에서 방선균증은 보통 시술이나 치성감염에 의해 발생한다. 임상적으로는 만성, 서행성 종창형과 우연히 발견되는 작은 만성 다발성 종창형, 동통성 파동형 종창을 일으키며 급성이고 빠르게 진행되는 형으로 나누어지는데¹³ 본 증례는 1년전부터 증상이 나타난 만성, 서행성 종창형에 속한다. 임상적인 증상은 대부

분의 경우 통증은 드물고 상악보다는 하악에 호발하며 연조직에 호발하지만 때때로 타액선이나 골, 얼굴과 목의 피부에도 나타나며 종창과 연조직의 경결감이 주된 증상이다.¹⁰ 방선균증의 호발부위는 두경부, 복부, 흉부, 피부, 생식기 부위이며, 이 중 50% 넘는 예가 두경부에서 호발한다.¹⁴⁻¹⁵ 두경부에서는 악하부, 턱밑, 그리고 협부의 연조직이 주된 호발부위이며, 하악각을 덮고 있는 영역이 가장 흔히 호발하는 부위이다. 타액선에 발생된 경우는 치아 원인으로 인해 직접 이환될 수도 있다.¹⁶ 타액선은 자주 이환되는 부위이며, 유기체에 의한 도관내 군집화는 악하선, 이하선 양측에 감염을 야기하며, 악하부와 저작부에 있어서의 농양의 형성을 일으키게 된다.¹⁷ 이하선에 생긴 경우 악관절 질환과 유사한 임상증상을 보일 수 있다. 방선균증은 retro-maxillary space, 악관절과 유문동과 측두골에서의 발생이 보고되었지만 측두하 공간에서는 보고된 적이 없다.⁵ 방선균증은 뼈에도 발생할 수 있으며 이것의 원인은 감염이 주위조직에서 전파된 것이다. 항생제가 개발되기 전에는 척추골이 자주 감염되었으며 약 76% 정도의 치사율을 보였으나 최근엔 구강위생상태의 향상과 감염의 확산이 항생제의 발달로 다른 부위의 발생비율은 줄어들었으며, 상대적으로 두경부에 비교적 발생비율이 높아졌으며, 특히 하악골이 주된 감염부위가 되었다.¹⁸ 드물게 발생하는 혀부위의 방선균증은 혀의 앞쪽 2/3와 혀의 가장자리 쪽에서 발생하는데 이 부분은 가장 상처가 생길 수 있는 가능성이 높은 부분이기 때문이며 대부분의 경우 감염의 일차적 원인은 구강내 외상이다.¹⁹

급성 단계에서 약물요법은 단단한 섬유화, 여러 개의 누공, 유황과립과 같은 방선균증의 특징적 증상이 나타나지 않게 한다. 가끔 이 질환의 임상적 증상이 악성 종양과 유사하게 나타나는데, 이는 부분적인 약물요법에 의해 방선균증의 특징적 증상 없이 종양성 종괴의 빠른 성장이 관찰되기 때문이다. 그러나 림프구와 형질세포, foam cell, 그리고 유황과립이 관찰되나 종양세포가 관찰되지 않아서 방선균증이라고 진단을 내릴 수 있다. 유황과립은 방선균 감염의 특징으로 생각되는데 방선균들은 군락을 생체 내에서만 형성한다. 이 자체가 중앙부에 화농성 괴사를 동반한 육아종성 염증반응의 단독종괴를 나타낸다. 괴사의 중앙부에서 발견되어지는 유황과립은 방사상의 바퀴모양 섬사 덩어리로 이루어지는데 이 섬사의 끝은 곤봉화되어 있다. 유황과립의 크기는 100-300 mm에서 2 mm 정도이다.¹² 방선균증은 육아종성, 화농성 성격을 모두 지닌 병적 현상인데 대부분 두 가지의 임상적 형태로 나타난다. 첫째는 단단한 경결감과 여러 개의 누공, 농양을 동반하는 만성질환이다. 다른 하나는 열과 통증, 파동성 종창을 동반하는 급성 질환이다. 이 질환의 임상적인 발현은 물론 이 두 가지 임상적 형태 안에서 변화하지만 대부분 나타나는 형태는 만성적인 것이다. 만성적 형태는 전형적으로 몇 주, 몇

달, 심지어는 몇 년동안 존재하는 잠행성의 종창을 나타내므로 오래 지속되는 두경부 병증의 감별진단에서 방선균증이 포함되어야 한다. 이것은 방선균증이 종종 악성종양이나, 만성 또는 육아종성 감염으로 오인되기 때문이다.²⁰

방선균증은 감염에서부터 악성종양까지 다양한 임상적 양상을 보일 수 있기 때문에 방선균증을 진단하는 과정에서 여러 가지 영상법이 중요한 역할을 할 수 있다. 비록 확진은 미생물학적이거나 조직학적 결과에 의해 이루어지지만 방선균증의 정확한 위치와 범위, 염증 양상의 구별, 종양과의 구별, 경계의 결정, 골 파괴 정도의 평가, 영향을 미친 타액선 결정, 치료반응의 결정 등의 작업에 여러 영상법들이 유용하게 사용되어 진다. 타액선에 발생하는 방선균증은 골까지 진행된 방선균증은 파노라마사진에서 punched-out pattern의 방사선 투과상을 보이며 전산화단층촬영에선 피질골의 파괴를 보이나, 골수의 골용해성 변화는 나타나지 않으며, 연조직과 타액선에서는 저밀도, 부정형 연조직 밀도 종괴를 보인다. 본 증례에서는 일반 방사선사진에서 별다른 특이한 소견을 관찰할 수 없는 악하선에 국한된 병소였다. 초음파 영상에서는 광범위한 경우 피질골의 파괴가 관찰될 수 있으며 연조직과 타액선의 경우엔 저반향점을 보이며 그 안쪽으로 고반향점이 흩어져 있는 양상을 보인다. Siegert는 두경부의 염증성 종창에 초음파 검사를 강력히 추천하였다.¹³ 그는 두 개의 형태로 농양이 나누어진다고 하였는데 첫째, echofree와 둘째, 약간의 internal echo를 보이는 형태로 분류하였다.¹³ 본 증례에서는 첫 번째 형태로 나타났다. Hardoff와 동료들은 핵의학검사가 종괴의 염증 성향을 확인하는데 도움이 된다고 하였으나¹³ 본 증례에서는 정상 소견을 나타내었다. 전산화단층촬영은 염증성 병소와 종양을 구분해주는 데 도움을 줄 수 있으며 핵의학검사 연구는 병소의 혈관 분포가 되어 있지 않다는 것을 보여줄 수 있다.²¹ 전산화단층촬영이나 초음파촬영 단독으로는 방선균증을 명확히 진단할 수는 없으나 초음파촬영은 병소의 염증성 성향을 예견하는 데 도움이 되고, 전산화단층촬영은 골 파괴와 병소의 확장 등을 알아내는데 도움이 된다. Ozaki는 전산화단층촬영법에서 방선균증은 경계가 뚜렷한 둥근 모양의 종괴라고 보고하였다.¹³ Lad와 그의 동료들은 전산화단층촬영법이 방선균증을 확진하는데 도움이 별로 되지 못한다고 하였으나 종괴의 경계와 커진 양상을 확인하는데 도움이 된다고 하였다.¹³ 본 증례에서도 종괴가 파괴적인 성향을 가지지 않았음을 증명하여 주었고 위치와 커진 양상, 주위 조직과의 관계를 확인하는데 도움이 되었다. 종괴는 비후된 좌측 악하선 하연과 연결된 양상을 보여 악하선이 종괴의 기원일 가능성을 보여 주었다. 타액선 조영상에서는 타액선이 이환되었다면 filling defect를 보이는 조영계의 pooling을 보이며 타액선이 이환되지 않았다면, 타액선이 부분적 전위를 일으키는 종괴의 압력 때문에 발생하는 pseudofilling

defect를 보인다.¹³

주요 타액선을 이환하는 육아종성 질병은 유육종증, 결핵, 비정형적 mycobacterial 감염, 매독, cat-scratch fever, toxoplasmosis, 방선균증을 포함한다.²²⁻²⁵

방선균증은 피사부위를 둘러싸는 섬유성반응을 형성함으로써 산화환원 능력과 항생제의 침투성이 적은 저혈관성 조직을 형성한다. 그러므로 치료는 보다 많은 용량과 장기간의 항생제 치료와 함께 외과적 시술이 중심이 되어야 한다.²⁶ 방선균증의 처치는 만성섬유화의 경우의 방선균증의 치료는 농양 배농과 농루의 절제와 지속적인 항생제의 투여이며, 공기를 빼어주는 것이 도움이 된다. 적절한 항생제의 치료가 행하여지지 않는다면 방선균증의 예후는 매우 불량하며, 이 질환은 만성적으로 계속 퍼질 것이다.⁹

본 증례에서는 좌측 악하부에 발생하여 단단한 종괴를 형성한 방선균증이 발병되었다. 방사선 사진 상에서 악성 종양임을 암시하는 뚜렷한 증거는 없었으나, 종괴가 타액선과 매우 인접하여 있었으며 비교적 빠른 성장을 보여 타액선에 발생한 종양임을 의심하게 되었다. 만성 염증 과정을 보이는 방선균증은 때로 임상적, 방사선학적 검사에서 악성 종양과 유사하여 부적절한 치료를 가져오므로 진단에 유의하여야 한다.

참 고 문 헌

1. Nagler R, Peled M, Laufer D. Cervicofacial actinomycosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1997; 83: 652-6.
2. Johnston JO, Rosenberg AE. Weekly Clinicopathological Exercises. N Engl J Med 1993; 329: 264-9.
3. Appiah-anane S, Tickle M. Actinomycosis. Br J maxillofac Surg 1995; 33: 248-9.
4. Balatsouras DG, Kaberos AK, Elipoulos PN, Kandiloros D, Economou CN. Cervicofacial actinomycosis presenting as acute upper respiratory tract. J Laryngol Otol 1994; 108: 801-3.
5. Keith DA, Glyman ML. Infratemporal space pathosis mimicking TMJ disorder. J Am Dent Assoc 1991; 122: 59-61.
6. Micheli E, Hurle R, Losa A, Chinaglia D, Ranieri A, Lembo A. Primary actinomycosis of the urachus. BJU Int 1999; 83: 144-5.
7. Petrone LR, Sivalingam JJ, Vaccaro AR. Actinomycosis: J Am Board Fam Pract 1999; 12: 158-61.
8. Bassiri AG, Girgis RE, Theodore J. Actinomycosis odontolytic thoracopulmonary infectious. Chest 1996; 109: 1109-11.
9. Regezi JA, Sciubba J. Oral Pathology 2nd ed. Philadelphia: W.B. Saunders Co; 1993. p. 45-46.
10. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral And Maxill of acial Pathology. Philadelphia: W.B. Saunders Co; 1995. p. 156-7.
11. Sarodia BD, Farver C, Erzurum S, Maurer JR. A young man with two large lung masses. Chest 1999; 116: 814-8.
12. Hamada S, Amano A, Kimura S, Nakagawa I, Kawabata S, Morisaki I. The importance of fimbriae in the virulence and ecology of some oral bacteria. Oral Microbiol Immunol 1998; 13: 129-38.
13. Sa'do B, Yoshiura K, Yuasa K et al. Multimodality imaging of cervicofacial actinomycosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1993; 76: 772-82.

14. Laskaris G. Oral manifestations of infectious diseases. *Dent Clin North Am* 1996; 40: 400-1.
15. Chen CH, Lai CL, Tsai TT, Lee YC, Perng RP. Foreign body aspiration into the lower airway in chinese adults. *Chest* 1997; 112: 129-33.
16. deB Norman JE, Mitchell RD. Unusal condition of the major and minor salivary glands. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1998; 27: 157-72
17. Lad SD, Chandy MJ. Cranio-facial actinomycosis : *Br J Neurosurg* 1991; 5: 361-70
18. Miller M, Haddad AJ. Cervicofacial Actinomycosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998; 85: 496-508.
19. Gerbino G, Bernardi M, Secco F, Sapino A, Pacchioni D. Diagnosis of actinomycosis by fine-needle aspiration. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996; 81: 381-2.
20. Evans J, Chan C, Gluch L, Fielding I, Eckstein R. Inflammatory pseudotumor secondary to actinomyces infection. *Aust N Z J Surg.* 1999; 69: 467-69.
21. Yonetsu K, Nakayama E, Yuasa K, Kanda S, Ozeki S, Shinohara M. Imaging findings of some buccomasseteric masses. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998; 86: 755-59.
22. Serrat Soto A, Lobo Valentin P, Redondo Gonzalez L, Sanz Santa Cruz C, Verrier Hernandez A. Oral sarcoidosis with tongue involvement. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 83: 668-71.
23. Norman JD, Mcgurk M. *Color Atlas and Text Of The Salivary Glands Diseases, Disorders and Surgery.* London: Mosby-Wolfe; 1995. p. 335-58.
24. Raizman MB, Haas JJ. Weekly clinicopathological exercise. *N Engl J Med.* 1998; 338: 313-9.
25. Som PM, Curtin HD. *Head and Neck Imaging.* 3rd ed. St. Louis: Mosby; 1991. p. 865-7.
26. Cintron JR, Del Pino A, Duarte B, Wood D. Abdominal actinomycosis. *Dis Colon Rectum* 1996; 39: 105-8.

Explanation of Figures

- Fig. 1.** There was no evidence of pathologic bony change which is related with chief complaints in panoramic view.
- Fig. 2.** There is a lobulating contoured mass about 13.5 × 21.4 × 17.0 mm in touch with left submandibular gland in neck ultrasonography. The border between mass and glandular tissue is ill-defined.
- Fig. 3.** In salivary gland scan, concentration phase image showed normal increased uptake in parotid and submandibular gland. There was normal image in wash out phase.
- Fig. 4.** There was a soft tissue mass, which is the diffuse swelling in antero-inferior region of enlarged submandibular gland. The mass had homogeneously moderated signal which is similar to submandibular gland (contrast medium-enhanced, soft tissue-setting, CT axial view).
- Fig. 5.** The mass had continuities with the inferior portion of the left enlarged submandibular gland (contrast enhanced T1 weighted coronal image).
- Fig. 6.** The mass showed intermediate signal intensity which is similar to the submandibular gland (T1 weighted axial image).
- Fig. 7.** There was significant colonies of microbes which consist of club-shaped filaments that formed a radiating pattern (× 400).



