

하악지치 발치 후 우측 교근에 발생한 방선균증의 치험례

이은영 · 김경원

충북대학교 의과대학 구강악안면외과학교실, 의학연구소

Abstract

ACTINOMYCOSIS OF THE RIGHT MASSETER FOLLOWING THE EXTRACTION OF LOWER THIRD MOLAR

Eun-Young Lee, Kyoung-Won Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,

College of Medicine and Medical Research Institute, Chungbuk National University

Actinomyces is a part of the normal oral flora, but under certain circumstances it may become pathogenic. Actinomycosis is a chronic granulomatous infective disease caused by microaerophilic Gram-positive bacteria of the genus actinomyces. It can involve almost any system, but principally affects the head and neck. Because the lesions in the submandibular region and the angle of the jaw give the face a swollen, indurated appearance, actinomycosis of mandible can be easily misdiagnosed in its acute or early state of infection. In these cases the disease usually presented as a swelling suggestive of an abscess or mimicking a neoplasm. The yield from standard cultures was poor and repeated sampling and anaerobic culture may be needed to obtain a positive culture. So actinomycosis should always be considered in a differential diagnosis of all infections of the cervicofacial area. Diagnosis of actinomycosis is made based on the histopathology, the clinical presentation and past dental history.

We experienced a case of actinomycosis in the masseter muscle and present the case with review of literature.

Key words: Actinomycosis

I. 서 론

방선균증(actinomycosis)은 만성 화농성 육아종성 세균 감염증으로 주로 목과 얼굴, 폐, 복부를 침범하며 세계적으로 1천 예 이상의 많은 보고가 있었으나, 질병 발생빈도의 감소와 여러 종류의 항생제에 감수성을 보이는 원인균으로 인해 임상적 진단이 어려워 현재는 드물게 보고되고 있다^{1,2)}. 방선균증의 원인균은 *Actinomyces israelii*와 *Arachnia propionica*이며, 드물게 *Actinomyces naes-*

lundii, *Actinomyces viscosus*, *Actinomyces odontolyticus* 등이 있다¹⁾. 방선균은 구강 및 소화관, 누관, 호흡기에 서 정상 세균총으로 존재하고, 감염자와 접촉으로는 전염되지 않는다³⁾. 방선균증은 임상 양상에 따라 두경부형, 복부형, 흉부형으로 분류되며 이중 두경부형이 가장 많은 것으로 보고되고 있다⁴⁾. 두경부형 방선균증의 임상증상은 일반적인 악안면부 감염성 증상과 유사한 부종, 농양, 육아종, 골수염, 개구장애 등의 소견을 보이고 방사선학적 검사에서는 감염 및 종양의 양상을 보이기 때문에 감별진단이 중요

* 이 논문은 2007년도 충북대학교병원 연구비에 의하여 연구되었음.

하다. 또한 일반적 감염성 질환과 달리 재발이 흔하므로 치료는 외과적 처치와 더불어 장기간의 항생제 요법과 예후 관찰이 필요하다.

저자들은 하악 우측 지치주위염 및 우측 협부 농양으로 치료받고, 발치 6개월 후 다시 우측 협부 종창 및 개구제한으로 내원한 29세 남성의 두경부형 방선균증을 경험하여 방선균증의 일반적인 증상과 진단 과정 및 치료에 대한 보고를 하고자 한다.

II. 증례보고

2006년 11월 말 우측 협부의 경결성 종창으로 본원에 내원한 29세 남자 환자는 특기할만한 전신병력은 없었다. 기왕력조사에서 2006년 3월 말, 2개월 전부터 발생한 우측 협부 및 악하부에 종창으로 타병원을 방문하여 항생제치료 (2세대 세팔로스로린제제, 10일) 및 구강 내 절개 및 배농술을 처치 받은 후 주증상은 호전되었으나 시술 2주 뒤인

2006년 4월 초, 동측 하악우각부에 종창과 종괴가 재발되어 다시 구외법으로 절개 및 배농치료를 받았다. 종창의 원인을 확인하고자 시행된 타액선 조영술에서 이환측 이하선의 미만성 증대의 소견이 관찰되었고 하악골 컴퓨터단층사진촬영과 본스캔촬영에서 우측하악부위에 심부 골수염의 소견이 관찰되었다. 2006년 5월 중순, 치료를 위해 이환측 상하악 제3대구치 발치를 시행하고 약 3주간 항생제를 투여하면서 하악 제3대구치 발치와로 배농을 유지하였다. 그러나 2006년 9월 말 (발치 후 4개월 2주)부터 다시 동측에 부종이 발생하여 7일간의 항생제치료를 받았으나 2개월 동안 치유되지 않아 본원으로 내원하였다.

내원 당시 임상 검사소견으로 우측 협부에 광범위한 종창과 함께 누공이 형성되어 있었고, 약 15mm 이하의 개구장애를 보였으며 (Fig. 1), 구강 내 소견으로 6개월 전 발치한 #48 발치와는 완만한 치유상을 보였고, 비교적 양호한 치주상태와 구강위생 상태를 보여, 특기할만한 원인치를 찾지 못하였다. 파노라마 방사선사진상에서 #48 발치와 및 주변



Fig. 1. Photographs at the first medical examination; A swollen, hard induration and fistular formation on the right cheek area. A. Frontal view, B. Lateral view.

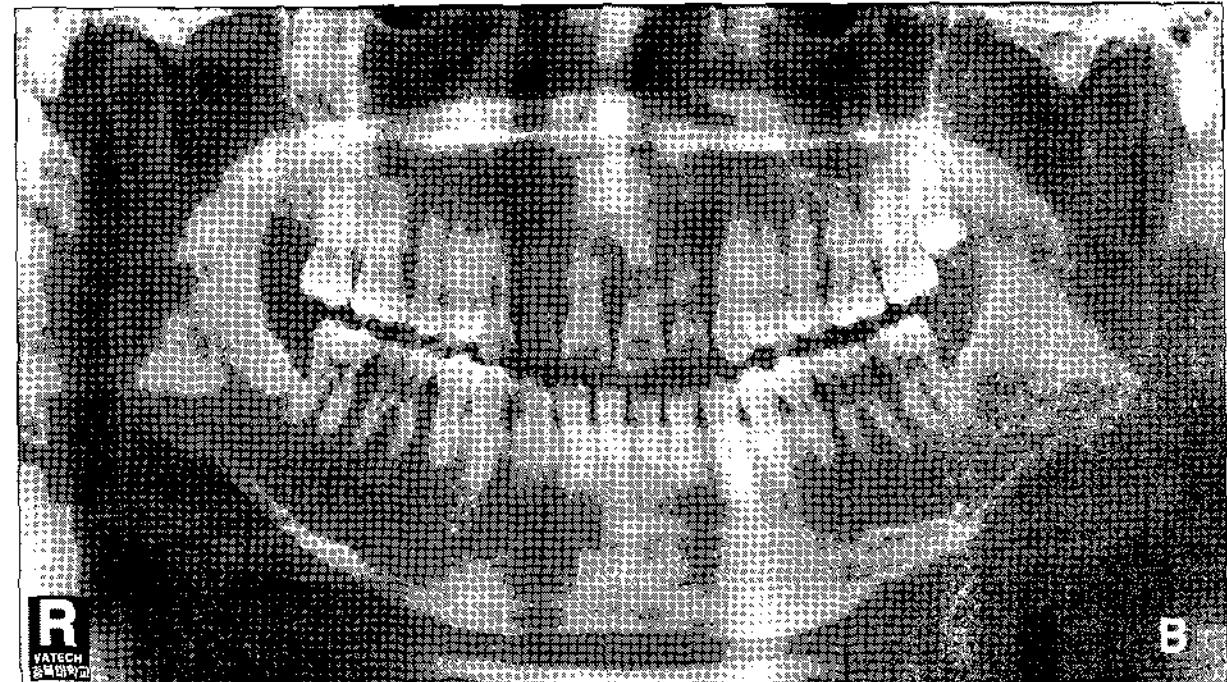
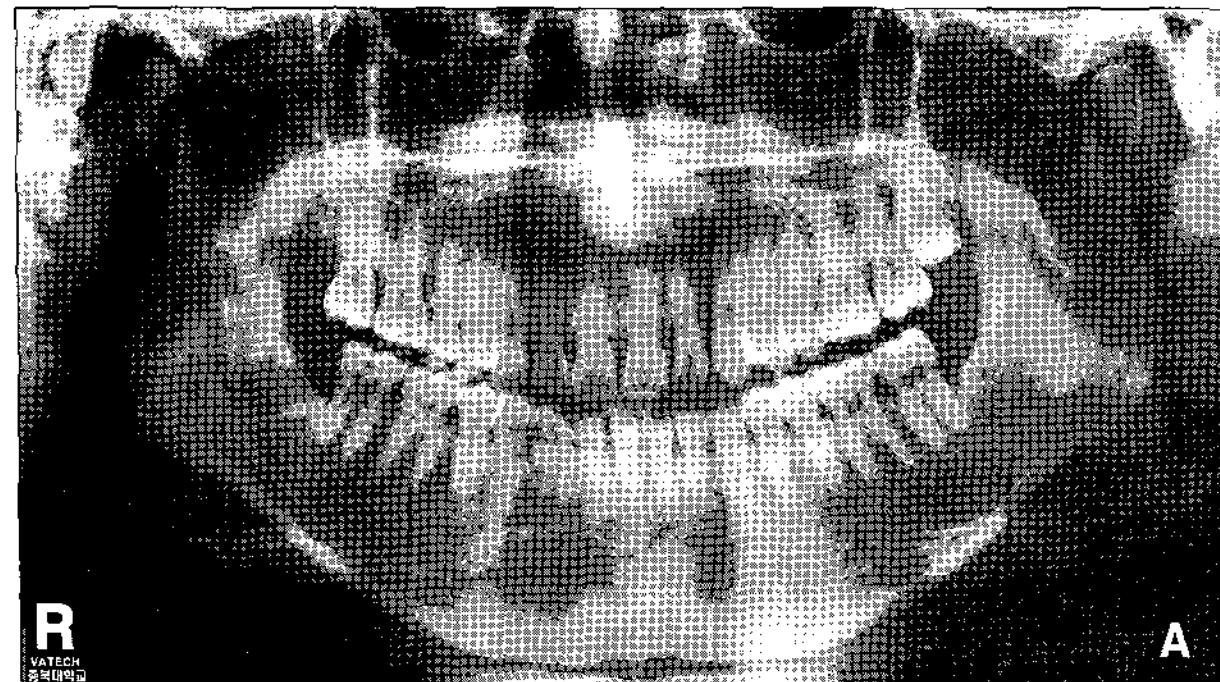


Fig. 2. Panoramic view. A. Pre-operative; There is no specific lesion except the extraction site of #48. B. 6months post-operative; It shows good healing process on #48 extraction site.

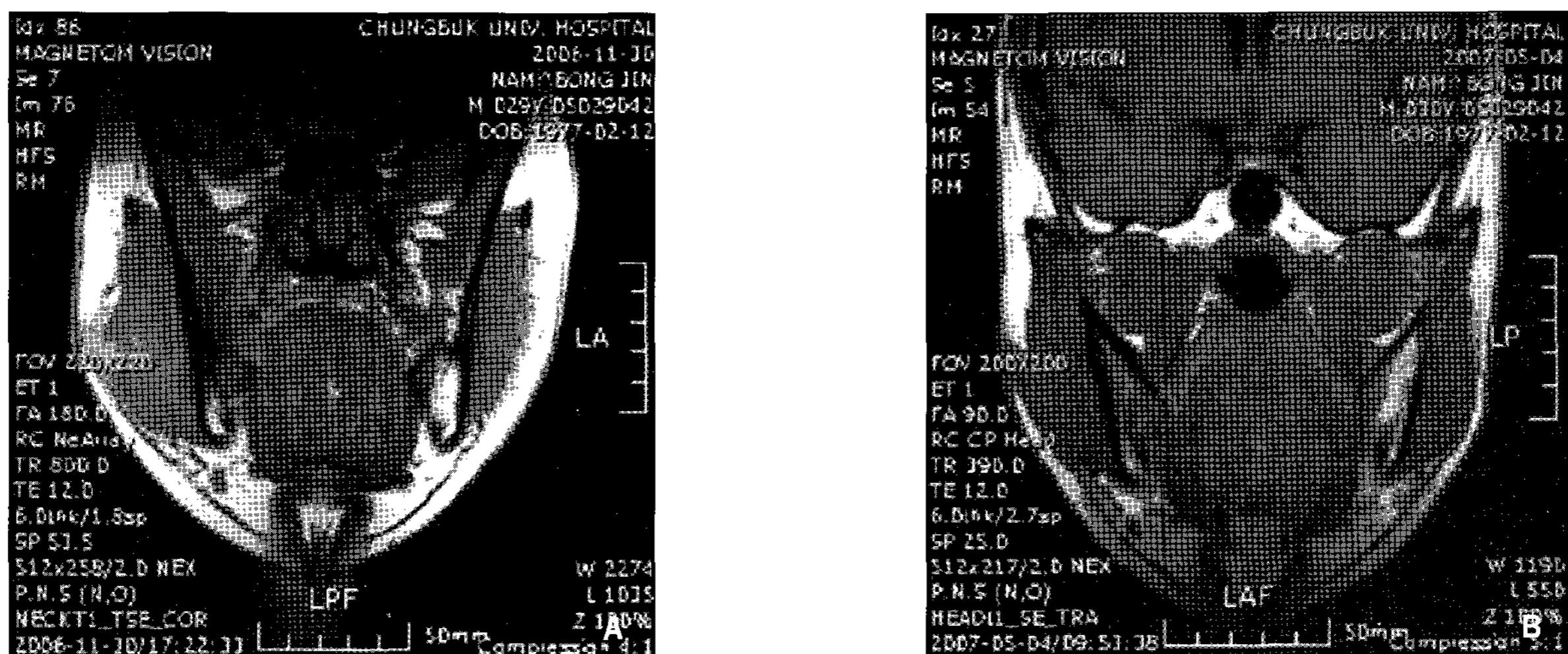


Fig. 3. A. Pre-operative MRI results, showing a right buccal mass that has spread from the skin to the masseter muscle. B. Post-operative MRI (6months later): The right masster muscle is on the decrease compared with the preoperative status.

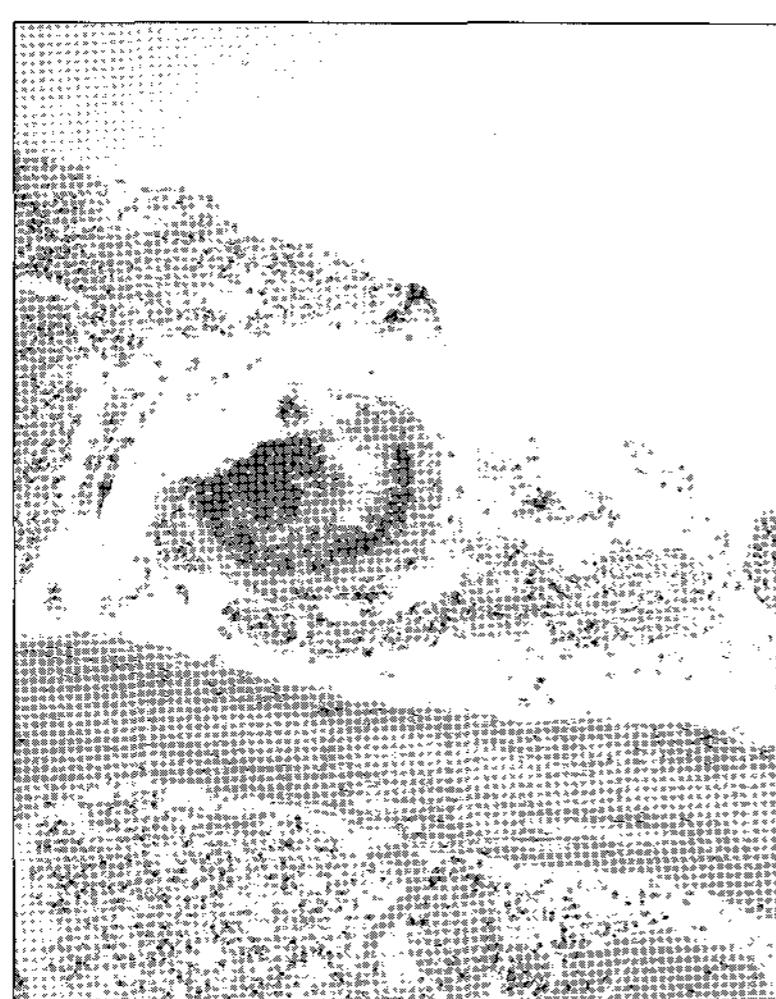


Fig. 4. Histological finding: Many inflammatory cells were identified around small granulation. Abundant filamentous actinomycetes colonies. (H&E stain $\times 200$)

골의 특이사항은 없었으며(Fig. 2a), MRI에서 우측 교근이 좌측에 비해 전반적으로 비후되었고 피하조직과의 경계가 불분명하고 연조직이 침습되어 있었으며 교근 전방부에 장경 1cm 미만의 농양이 형성되어 주위에 염증성 소견이 관찰되었다. 인접한 하악골 상행지의 골수부분에서는 비정상적인 조영증강(signal intensity)이 관찰되어 만성 골수염이 의심되었다 (Fig. 3a). 이화학적 검사소견으로 백혈구 $11.95 \times 10^3/\text{mm}^3$ 이외에 특기할만한 이상소견은 없었다.

임상검사와 방사선 사진검사를 통해 염증성 질환으로 진단하고 예방적 항생제를 투여한 후 배농을 위해 우측협부에

절개를 시행하였다. 배농 당시 녹황색과립이 포함된 소량의 농이 관찰되어 미생물 배양검사를 시행하였고 절개부위 내측 조직을 절제하여 병리조직학적 검사를 시행하였다. 미생물 배양검사에서 녹농균(*pseudomonas aeruginosa*)이 배양되었으며, 조직검사 상 염증성 질환(microabscess)으로 진단되었다. 농에서 관찰된 과립과 5개월 전 우측 하악 협부 농양으로 두차례 실시한 절개 및 배농과 #48 발치한 후 뚜렷한 원인요인 없이 동일한 부위에 반복적으로 부종과 개구장애를 동반한 염증성 질환이 발생한 점으로 방선균증이 의심되었으나 미생물검사와 조직검사에서 방선균증의 징후를 발견하지 못하였다. 방선균증의 정확한 진단을 위해 이환측 협부 절개 및 배농 시 채취한 조직표본을 재검한 결과 추가로 제작된 조직표본에서 소수의 설파과립을 발견하여 방선균증으로 확진할 수 있었다(Fig. 4).

재발이 잘되는 방선균증의 치료를 위해 지속적 배농을 유지하도록 절개 초기에는 실리콘 드레인을 삽입하고, 매일 생리식염수 세척 및 절개부위의 조기폐쇄를 방지하기 위해 바셀린 거즈를 삽입하여 약 3주간 개방 드레싱을 유지하였다. 항생제 치료를 위해 본원 감염내과로 입원하여 약 2주 동안 초기 항생제 감수성 검사에서 확인된 3세대 cephalosporins제제인 ceftazidime 2.0g을 매 8시간마다, β -lactamase inhibitors가 포함된 페니실린제제 (상품명: Tazocin) 2.25g을 매 6시간마다 정맥주사 하였다. 치료 후 배농양은 감소하고, 개구는 약 30mm가 되었으며 종창도 감소하였다. 항생제 정맥주사 2주후 백혈구감소증(moderate leukopenia)과 혈소판감소증(moderate thrombocytopenia)이 발생하여 약 4일간 정맥주사를 중단하고 이후

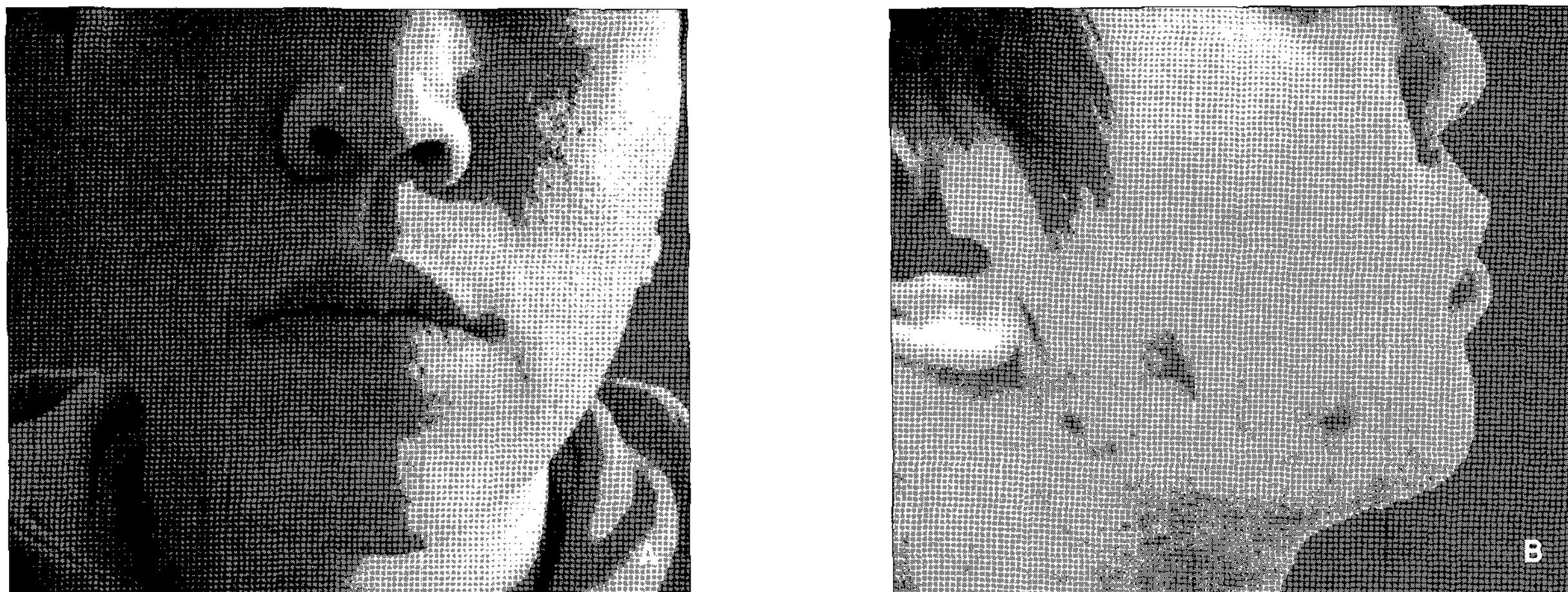


Fig. 5. Post-operative photographic view; 6 months postoperatively, a near-natural facial contour was attained and there was no sign of recurrence. A. Frontal view, B. Lateral view.

Amoxicillin+Clavulanic acid제제 (상품명: Augmentin)를 약 6개월간 투약하였다. 투약기간동안 우측 협부 종창 (Fig. 5) 및 개구량도 정상으로 회복되었고, 파노라마 방사선사진상 #48 발치와의 치유도 양호하였다(Fig. 2b). 절개 및 배농과 약 6개월간의 항생제 치료 후 촬영한 MRI 검사에서 치료 전 MRI에 비해 현저하게 교근의 크기 및 조영증강도 감소하였고, 하악골 상행지의 조영증강도 감소하여 양호한 치유상태를 확인하였다(Fig. 3b). 투약종료 6개월 후 까지 협부종창, 개구장애 등의 재발소견은 관찰되지 않았다.

III. 총괄 및 고찰

방선균증의 두경부형 감염 경로는 구강점막, 치은, 치석, 편도 등에 정상균주로 존재하던 균주가 점막 손상 및 괴사조직 존재 시 점막 하로 침투하는 것이다. 일반적으로 방선균은 침투성이 약한 균주이므로 발치 등의 선행되는 외상이 중요 원인으로 알려져 있고, 유발인자로는 구강위생 불량, 당뇨, 악성종양, 기타 소모성 질환, 스테로이드 장기 투여 등이 있다⁵⁾. 그러나 감염은 장기간의 면역억제 요법을 받은 환자와 일반 건강인에서의 발생빈도 차이가 없는 점으로 보아 숙주의 면역상태와 연관이 없는 것으로 알려졌다^{1,2)}. 일반적으로 구강위생이 불량한 성인 남자에서 잘 생기며 연령별 발생 빈도는, 30대에서 40대 사이에 호발하는 양상을 보이며 10세 이하에선 드물고, 도시와 농촌의 발생빈도가 유사하고 남자 대 여자의 발생비가 3~4대 1로 보고되었다⁶⁾.

두경부 영역의 경우, 방선균증은 발병위치와 조직 침투성

상에 따라 다양한 증상을 수반하며 감염이 발생하면 직접전이와 혈행성 전이를 일으킬 수 있다¹⁾. 직접 전이 시 급성 염증 반응이 일어나 연조직의 부종과 통증 및 피부표면에 다발성 누공이 발생되며, 배농되면서 국소적 결절을 형성하는 연조직 농양이 생긴다. 누공으로 배출된 삼출물은 유황과립(sulfur granule)이라 불리는 작고, 황녹색의 석회화구조물을 포함하고 있다⁶⁾. 정상 보호벽이 상실된 구강점막으로 침투한 균주는 혈행성으로 근막과 관계없이 확산되며 골 내부로 감염되면 골 파괴를 일으키는 골수염과 때때로 신생골 형성없이 현저한 골비후와 골경화증이 관찰되기도 하며, 상악골 감염 시 상부로 확산되어 두개골 감염, 뇌막염, 또는 뇌종양을 일으키거나 누선이나 타액선을 침범하여 부비동 내의 안와까지 확산된다⁷⁾. 일반적으로 발병의 경로는 1차적으로 점막, 치석 등에 존재한 방선균이 잠행적으로 연조직, 상악동, 골에 파급되어 2차 감염으로 진행된다. 초기 임상소견으로 미열, 권태, 쇠약 등을 보이나 전신적 반응은 경미하고, 병변의 파급이 지속되면서 체중감소, 빈혈, 그리고 천천히 자라는 무통성의 종괴형태로 다발성 농양 및 배농로 형성과 황백색의 과립을 포함하는 농을 관찰할 수 있고 급성인 경우 발한, 오한, 발적을 갖는 융기된 압통성 종괴의 형태를 갖는다⁷⁾. 육안적으로 종창은 단단한 경계를 이루며, 주위 조직과의 경계는 불분명하고 피부는 암적색이며, 절단면에서는 다양한 크기의 농소 및 배농로를 보이며 섬유화조직이 산재되어 있다⁷⁾. 인접 임파절을 직접 침범하지 않는 경우 임파종창(lymphadenopathy)은 드물다. 이화학적 검사 소견에서 백혈구증가증과 적혈구증가증을 보이기도 한다⁸⁾.

임상적 진단은 서서히 진행되는 특징과 외상 또는 점막 손상과 같은 선행질환의 확인으로 가능하나 특이한 증세가 없어 조기 진단이 어려운 방선균증은 유황 과립에서 원인균을 배양 동정함으로써 확진할 수 있다. 일차적으로 brain heart infusion agar plate를 이용하여 방선균주를 분리한 후 *Actinomyces* broth에 심부 배양하여 균을 동정한다. 그러나 방선균주를 배양하는 것은 용이하지 않다. 우선 단단한 종괴를 이루기 때문에 형성된 농의 양이 적어, 혐기상태를 유지하면서 배양샘플을 채취하기 어렵다. 또한, 혐기성 배양기술의 부족, 균주의 과다성장, 혼합 감염, 이전 항생제 치료 등으로 균이 배양 동정되는 경우는 50% 미만이다⁸⁾. 그러므로 조직샘플을 채취하여 병리조직학적 검사를 통해 특징적인 유황 과립을 관찰함으로써 진단할 수 있다. 유황 과립은 방선균 집락, calcium phosphate기질, 세포부스러기, 관련 미생물들로 구성되며 유황 과립을 보이는 경우는 방선균증 외에 nocardia, mycetoma, streptomyces 등이 있으므로 감별진단을 위해 특수 염색으로 PAS(Periodic Acid Schiff, 이하 PAS), Gram, Zeihl-Neelsen 염색을 시행한다^{1,2,3)}. 본 증례에서도 방선균증의 원인균인 *Actinomyces israelii*와 *Arachina propionica*는 배양, 동정되지 않았으며 생검 시 제작된 조직표본에서 방선균증의 특징적 소견인 방사형 사상체에 둘러싸인 세균집락의 수가 적어 1차 판독에서 간과되었다. 진균 감염에 대한 감별진단을 위해 실시한 특수염색검사의 결과는 음성으로 진균감염은 배제되었다. 그러나 임상검사에서 원인 요인 없이 반복적으로 농양이 재발되었으며, 배농 시 유황과립의 소견이 관찰되어 제작된 조직표본을 재검한 결과 방선균증의 특징적인 조직학적 소견을 발견하여 방선균증의 진단이 가능하였다. 방선균증에서 조직 변화는 일종의 급성 농양으로 중심부에 화농성 괴사를 보이고 주위에 육아조직과 심한 섬유화를 포함하는 중심 동공으로 이루어져 있다. 군집의 중심부는 헤마토실린 염색에 양성을 보이고 다소 무정형을 보이는 반면, 변연부는 에오신과 PAS 염색에 양성으로 염색되는 사상균들이 햇살 또는 방사상으로 배열되어 있다⁷⁾ (Fig. 4).

허 등의 증례에서도, 본 증례와 같이 지치 발치 후 개구장애를 동반한 교근부위의 무통성의 종창으로 임상검사에서 원인치를 찾지 못하였고, CT 소견상 우측 교근의 비후와 하악 우각부의 골막 거상 및 MRI 소견 상 우측교근내에 기시한 종양이 관찰되고 인접한 하악골 경화 소견을 보여 단순한 염증성 위종양, 섬유증 및 악성종양을 감별진단하기 위해 조직병리학적 검사를 시행하여 방선균증을 확인하였다⁹⁾.

일반적으로 방선균증의 치료는 외과적 절제, 배농 및 항생제 투여를 병행한다. 항생제는 penicillin이 효과적이나 용량 및 사용기간에 대한 정확한 지침은 없다. penicillin G를

1000~2000만 units를 수일에서 1개월 동안 매일 정맥주사하고 경구용 penicillin 250~500mg을 하루 4~6회 투여하는데 발생부위 및 정도에 따라 수개월에서 2년까지 치료하며 병변 소실 후 4~6주까지 치료한다¹⁰⁾. Penicillin allergy 환자는 minocycline, sulfonamide, erythromycin, tetracycline, cephalosporin, streptomycin, clindamycin 등을 사용하여 효과적인 치료를 할 수 있다³⁾. 완치율은 두경부형인 경우 90%, 복부형은 80%, 흉부형은 40%로 보고되었다⁶⁾. 특히 방선균은 혐기성 상태에서 잘 자라므로 개방성 상태를 유지하는 것이 중요하다. 본 증례에서도 교근내부의 개방성 상태를 유지하고자 2주 이상 누관을 통한 배농과 조기 폐쇄를 방지하고자 바세린 거즈를 함입하여 양호한 경과를 관찰하였다.

IV. 결 론

두경부에 발생한 방선균증은 괴사조직의 제거, 누공의 절제, 농양의 배농, 골조직 소파술과 함께 항생제를 장기간 사용하면 대부분의 경우 반복적인 재발없이 완치함을 문헌을 통해 확인할 수 있었다. 그러나 방선균증은 임상적으로 단순한 염증성 질환이나, 종양 등으로 오진할 수 있으며, 단순한 염증성 질환으로 진단하고 단기간 치료를 한 경우 재발의 가능성이 있다. 채취된 농에서의 원인균 동정이 어려운 경우, 방선균증의 진단을 위한 중요사항은 발치 등 악안면부 영역의 외상 및 반복적 감염성 질환 등의 기왕력과 절개 및 배농 시 설파과립의 확인 그리고 조직병리학적검사 시 특징적인 세균군락을 확인하는 것이다. 저자 등은 개구장애를 동반한 우측 교근에 발생한 종괴를 주소로 내원한 환자의 임상검사, 방사선학적 검사, 조직병리학적 검사를 통해 방선균증으로 진단한 환자를 장기간 항생제 투여, 누공절제술과 누관을 통한 개방성 상태를 유지하며 배농하여 양호한 치유 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

- Pine L : *Actinomyces and Microaerobic Actinomycetes*. In Infectious Diseases and Medical Microbiology, Braude AI(ed), 2nd ed. Philadelphia, WB Saunders, 1986, p. 391.
- Yang CW, Sim WT, Lee MH et al : A case of lingual actinomycosis. Kor J Dermatol 28 : 611, 1990.
- Bennhoff DF, Cleveland OH : *Actinomycosis: Diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases*. Laryngoscope 94 : 1198, 1984.
- Weese WC, Smith IM : A study of 57 cases of actinomycosis over 36-year period. Arch Intern Med 135 : 1562, 1975.
- Waryne, Ozaki : Cervicofacial actinomucoses following sagittal splint ramus osteotomy: A case report. J Oral Maxillofac Surg 50 : 651, 1992.

6. Richsmeier WJ, John ME : Actinomycosis. Clinical Infectious Disease 26 : 1255, 1998.
7. KIM JS, Chon YC, Min BJ : Cervicofacial Actinomucosis following trauma. Oral Biology Research 28(3) : 5, 2004.
8. Joung YH, Kim SH, Cho HR et al : A case of submandibular actinomycosis. KHM 16(1) : 102, 2000.
9. Heo JY, Kim IK, Oh SS et al : Facial actinomycosis follow-
- ing the extraction of lower third molar. KAOMFPRS 23(1) : 83, 2001.
10. Arnold HI, Odom RB, James WD : Andrews' Diseases of the skin, 8th ed. Philadelphia, WB Saunders, 1990, p. 370.

저자 연락처

우편번호 361-711

충북 청주시 흥덕구 개신동 62번지

충북대학교 의과대학 구강악안면외과학교실

이 은 영

원고 접수일 2008년 2월 20일
게재 확정일 2008년 5월 13일

Reprint Requests

Eun-Young Lee

Dept. of OMFS, College of Medicine and Medical Research Institute,
Chungbuk National Univ.
Gaeshin-dong 62, Heungdeok-gu, Cheongju, Chungbuk 361-711, South Korea
Tel: 82-43-269-6296
E-mail: ley926@chungbuk.ac.kr

Paper received 20 February 2008
Paper accepted 13 May 2008