

A Case of Cervical Actinomycosis Misdiagnosed to Malignant Tumor

Jun Yeon Hwang, Sang Yong Park and Sei Young Lee

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Chung-Ang University, Seoul, Korea

악성 종양으로 오인된 경부 방선균증 1예

황준연 · 박상용 · 이세영

중앙대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received October 18, 2010

Revised March 28, 2011

Accepted April 4, 2011

Address for correspondence

Sei Young Lee, MD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

College of Medicine,

Chung-Ang University,

102 Heukseok-ro, Dongjak-gu,

Seoul 156-755, Korea

Tel +82-2-6299-1780

Fax +82-2-6299-1769

E-mail syleemd@cau.ac.kr

Actinomyces are gram positive anaerobes which exist as normal flora in the oral and digestive tract. Actinomycosis is a very rare subacute or chronic infectious disease that causes sinus fistula, tract or abscess due to the invasion of surrounding soft tissue when normal mucosa is damaged by inflammation. Clinically, it is categorized into cervicofacial, thorax, abdomen, pelvis, and systemic infection, in which cervicofacial infection accounts for 50% of all actinomycosis. With various nonspecific clinical manifestations and uncertain results of fine needle aspiration cytology and culture examination, treatment may be difficult since it may be misdiagnosed as malignancy or tuberculosis. Along with literature, we present a case of a 57-year old male patient with cervical actinomycosis in the submandibular mass, which was mistaken for malignancy.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:427-30

Key Words Cervicofacial actinomycosis · Malignant neoplasms.

서 론

증 례

방선균증은 구강이나 소화기관 내에 정상적으로 존재하는 그람양성의 혐기성세균이 구강 내 외상이나 수술, 염증으로 인한 정상 점막의 손상 시 주위 연부 조직을 침범하여 피부루(fistula), 피부낭(sinus)이나, 농양을 형성하는 매우 드문 아급성 또는 만성 감염성 질환으로 임상적으로 경부안면, 흉부, 복부, 골반부, 전신 감염 등으로 분류되고 있으며, 이 중 경부안면의 감염이 방선균증의 50%를 차지하고 있다.^{1,2)} 방선균증은 다양한 임상증상을 가질 수 있으며 세침흡인검사로 진단되지 않는 경우가 많아, 일부 환자에서 악성 종양이나 결핵 등으로 오인될 수 있으므로 치료에 주의를 기울여야 한다.³⁾ 저자들은 악하선 부위의 종물로 내원한 57세 남자 환자에서 임상적으로 악성 종양이 의심되었으나 수술 후 경부 방선균증으로 진단된 1예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

57세 남자 환자가 내원 5개월 전부터 발생한 우측 악하선 부위의 종물을 주소로 내원하였다. 과거력에서 고혈압, 당뇨, 외상이나 수술을 받은 적이 없었으며 가족력에서도 특이소견은 없었다. 내원 당시 이학적 검사에서 우측 악하선 주위에 압통을 동반하지 않고, 둥글고 단단하며, 발적을 동반하며 피부에 유착되어 있어 잘 움직이지 않는 약 5×4 cm 크기의 종물이 관찰되었고(Fig. 1), 그 외 구강, 비강, 경부에 특이소견은 없었다. 경부전산화단층촬영과 자기공명영상 소견상 좌측 악하선 근처에 경계가 불분명한 3×4 cm 크기의 종물이 관찰되었으며, 주변 하악골의 골막반응과 골미란 소견이 관찰되었고, 피하지방층과 우측 하악설골근(mylohyoid muscle)의 침습이 관찰되었으며 경부 림프절에는 특이 소견이 관찰되지 않았다(Fig. 2). 이학적 검사와 영상학적 소견에 따라 피부와 하악골을 침습한 악성 종양을 의심하여 세침흡인검사를 시행

하였다. 세포병리 소견에서 투명하고 거품같은 세포질을 가진 둉근 세포 군집이 심한 염증성 배경 및 간질세포 덩어리와 함께 관찰되어 소타액성 기원의 원발성 종양 중 투명세포를



Fig. 1. Gross photograph of the patient shows that reddish cervical neck mass is submandibular area.

보일 수 있는 다양한 종양(다형성선종, 선방세포암종, 저등급 점막표피양암종, 투명세포암 등)들이 감별진단으로 제시되었으나 정확한 진단명은 확인되지 않았다(*Fig. 3*). 그 뒤 다시 초음파 유도 자동 총생검을 시행하였으나 염증이 동반된 섬유조직 이외에 특이소견은 관찰되지 않았다.

이에 진단 및 치료의 목적으로 전신마취 하에 절제 및 생검을 시행하였다. 수술은 먼저 종물의 일부를 떼어내 동결절편 검사를 시행한 후 악성일 경우 하악골 절제를 포함한 광범위한 수술을 하기로 하였다. 수술 소견을 보면 피부피판과 유착이 되어있는 경계가 불분명하며 단단한 종물이 관찰되었으며, 2번에 걸쳐 종물의 일부를 채취하여 동결절편검사를 시행하였으나 모두 농양과 지방괴사 소견만 관찰되고 종양 세포는 관찰되지 않았다. 따라서 계획했던 광범위 절제 수술 대신 종물만을 제거한 후 수술을 종결하였으며, 하악골에는 약간의 골미란이 관찰되었으나 종물과 하악골 사이에 유착은 관찰되지 않았다. 종물의 크기는 3.2×2.6×2.2 cm였다(*Fig. 4*).

술 후 병리조직검사 결과 그람염색, PAS염색, GMS염색에

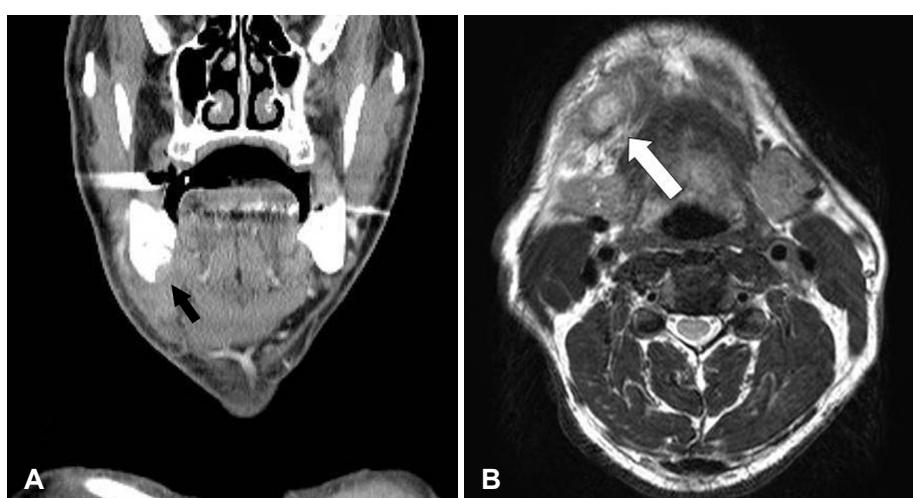


Fig. 2. Preoperative contrast-enhanced computed tomographic image (A) and T2 weighted magnetic resonance imaging (B) show that several well enhancing nodules (8, 10, 15 mm) with infiltration is right submandibular space (white arrow) and periosteal reaction and erosion in right ramus of mandible (black arrow).

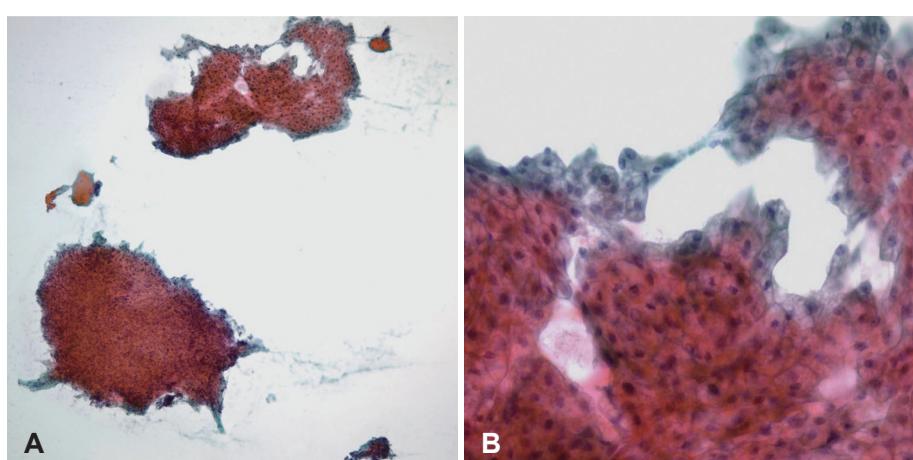


Fig. 3. A few fragments of tissue are admixed with lymphocytic tangles (papanicolaous stain, $\times 100$) (A). High magnification view shows a cluster of round cells with clear, vacuolated cytoplasm (papanicolaous stain, $\times 400$) (B).

모두 양성인 유황과립(sulfur granule)이 발견되어 방선균증으로 최종 진단되었다(Fig. 5). 환자는 술 후 7일째 출혈이나 부종 등 기타 합병증 없이 퇴원하였고, 이후 감염 내과로 전과되어 amoxicillin-clauulanate(Augmentin® 625 mg)를 경구로 1일 3회씩 4개월간 치료하였으며, 술 후 16개월간 재발 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

방선균은 사람에서 주로 구강과 소화관내에 정상 균주로 존재하며, 피막이나 포자 없이 필라멘트를 가지고 있는 그람 양성 비항산균 혐기성 박테리아로 천천히 자라는 특징을 가지며, 주로 국소적인 화농성 감염을 일으킨다.^{2,4)} Bollinger가 1877년 가축에서 *Actinomycosis bovis*를 처음 발표하였고, 1년 뒤 Israel이 인간에서 처음 발견하여 *A. israelii*라 명칭하였다.²⁾ *A. israelii*는 인체에서 방선균증을 일으키는 가장 흔한 원인균이며 *A. viscous*, *A. odontolyticus*, *A. naeslundii* 등도 인체 감염을 유발할 수 있다.^{2,4)}

방선균증은 40세 이상의 남성에서 호발하며, 전 세계적으로 고루 분포하고 있다.⁵⁾ 발생 부위는 두경부에서 55%, 복부

20%, 흉부 15%, 기타부위에서 10% 정도로 보고되고 있다.^{2,4,6)} 이비인후과 영역 내의 방선균증에 대한 국내의 보고들을 살펴보면 현재까지 타액선 5예, 비부비동 7예, 경부 1예, 구인두 1예, 안면부위 1예, 후두 1예 등 모두 16예가 대한이비인후과학회지에 보고되어 아주 드문 질환으로 여겨지는 않는다. 하지만 대부분 치료 전에 진단이 이루어진 경우가 많았으며, 현재까지 수술 전 세침흡인 검사에서 종양으로 의심되고 더불어 피질골(cortical bone)의 미란(erosion)을 동반하여 악성 종양으로 오인된 예는 보고된 적이 없었다.^{7,8)}

두경부에서 병변의 발생은 구강내 위생상태가 좋지 않거나, 치과적 시술, 외상 등에 의해 정상적인 점막이 손상된 경우 혐기성 환경으로 방선균이 유입되어 일어난다.²⁾ 또한 성인의 경우, 당뇨, 면역 억제자, 영양실조, 악성 종양이나 방사선 치료에 의한 국소적 조직 손상이 있는 경우도 방선균이 활발한 활동을 보인다.¹⁰⁾ 안면부에서 방선균의 감염은 주로 구강내의 *Actinomycetaceae*가 주원인균으로 하악골에서 가장 많이 발생한다.

두경부에서의 방선균증은 연부조직 침윤에 의한 통증을 동반하지 않으며, 서서히 자라는 경화를 동반하는 전형적인 만성적 육아종성 감염을 보인다. 흔하지는 않지만, 빨리 진행하는 급성질환으로 발열, 동통, 파동, 종창, 화농 등의 전형적인 화농성 감염양상을 보일 수도 있다.¹¹⁾ 악하 공간의 감염과 저작근의 감염이 동반되면 심한 통증과 개구장애를 초래하기도 한다.

방선균증의 진단은 병리조직학적으로 만성 육아종성 염증 소견을 보이면서 변변 내 특징적인 소견인 유황과립(sulfur granule)이 관찰되고, 배양결과에서 방선균이 검출되면 결정된다. 병리조직학 검사에서는 중심부에 화농성 괴사를 보이고 주위에 섬유화와 육아조직이 관찰되며, 농양의 중심부에는 세균의 집단이 방사형 사상체와 호산구성 초자양물질에 의해 둘러싸인 유황과립이 특징적인 소견이며 약 40%에서

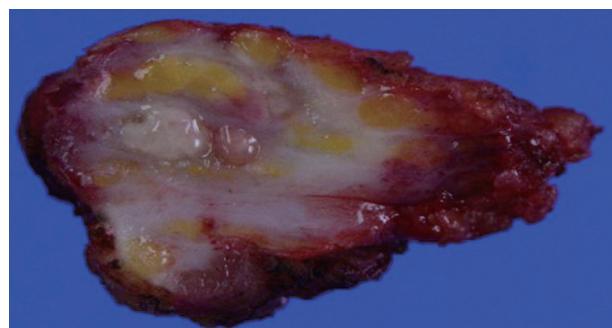


Fig. 4. Gross mid cutting specimen shows a 3.2×2.6×2.2 cm sized central necrotic mass with rough and reddish surface.

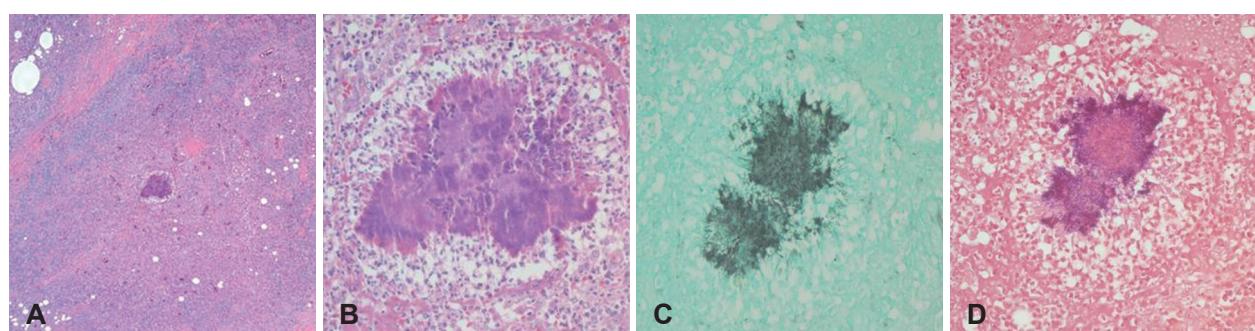


Fig. 5. Histopathologic findings. The low magnification view shows diffuse suppurative inflammation with a central bacterial colony (H&E stain, $\times 40$)(A). The bacterial colonies composed of radiating filamentous organisms (H&E stain, $\times 400$)(B). The gram-positive, long filamentous organisms are highlighted by Gomori-methenamine silver stain (C: Gomori-methenamine silver stain, $\times 400$, D: gram stain, $\times 400$)(C and D).

발견된다.^{1,2,4)} 균배양 검사에서는 부적절한 배양기술, 타균주의 과다성장, 이전의 10일 이내의 항생제 치료 때문에 방선균이 동정될 확률은 50% 미만으로 나타나기에 세심한 주의가 필요하다.^{1,2,12)} 방선균이 의심되는 환자 중 세침흡인검체 내에서 유황과립을 관찰할 수 있는 확률은 33% 정도이며, 유황과립 이외의 나머지 소견은 다른 염증 소견과 비슷하므로 세침흡인검사만으로 진단을 할 경우 매우 어려움이 있다.^{2,12)} 국내에서도 이하선 부위에 발생한 방선균증이 술 전 세침흡인검사와 배양 검사에서 확인이 되지 않아, 염증성 질환과 종양 의심하에 절제 및 생검을 시행한 예가 보고되었고,⁹⁾ Pant 등¹³⁾도 안면부에서 발생한 방선균증이 여러 검사에 의해 확인되지 않아 신경초종 의증하에 절제 및 생검을 시행하여 처음에는 유전증(desmoids tumor)으로 진단되었으나, 종괴 중심부위에서 방선균증이 발견되어 방선균증에 의한 섬유조직의 변화로 오인한 경우를 보고하였다. 본 예의 경우에서도 술 전 세침흡인검사에서 정확한 진단명이 확인되지 않았으며 검사 도중 바늘이 피부를 뚫고 들어가면서 진피내의 누출분비선(eccrine gland)이나 피지선(sebaceous gland)과 종괴내의 clear cytoplasm을 갖는 세포들이 섞이면서, 양성 종양의 대형선종과 악성 종양의 저악성도의 점액표피양암종, 선방세포암종 등으로 판독되었다고 생각되며 이후 초음파 유도 자동총생검에서도 염증 소견 이외에 특이 소견이 관찰되지 않아 진단에 어려움을 겪었었다.

안면부에 생긴 병변은 이전의 치과수술 병력, 안면 부종, 놓이 배출되는 누공 등으로 진단이 비교적 쉽지만, 안면부 이외의 두경부에 생긴 병변은 악성종양, 선천성 낭종, 진균성 감염, 결핵성 림프절염, 나병, 세균성 골수염과 Wegener's granulomatosis, 약물요법에 반응을 보이지 않는 만성 부비동염 등과 감별진단에 유의하여야 한다.^{2,3,11,14)}

치료는 크게 증상이 심하지 않은 경증과 화농, 섬유화 동반, 피부루 형성, 괴사조직 등의 합병증을 동반한 중증에 따라 달라지게 된다. 경증인 경우 약물요법을 하며 투여 기간은 여러 가지 의견이 있으나 수일에서 수주간 고용량의 penicillin 정맥주사와 3개월에서 12개월간의 경구용 항생제 투여를 실시한다.^{2,4)} Penicillin에 민감한 환자에게는 erythromycin, tetracycline, clindamycin, rifampin, chloramphenicol, streptomycin, 1세대 cephalosporins, imipenem, lincomycin, ampi-

cillin 등을 사용할 수 있다.^{2,11)} 합병증을 동반한 중증인 경우 병변 괴사조직의 제거를 위해 수술적 치료가 필요하다. 하지만, 수술적 치료만으로는 효과가 없으므로 보조 항생제 요법을 사용하여야 한다. 수술적 치료는 항생제가 반응을 하지 않거나, 비강내 질환, 괴사조직, 섬유조직의 제거가 필요한 경우, 방사선 과괴사가 있는 경우 등에 적용한다.^{1,2,12,15)}

본 증례와 같이 골미란이 발생한 방선균증에서 술 전 세침흡인검사상 방선균증에 대한 특이한 소견이 관찰되지 않아 결과가 불확실할 경우, 악성 종양으로 오인할 수 있으므로 정확한 진단을 위해 세심한 주의를 기울여야 한다.

REFERENCES

- 1) Choi JW, Lee TB, Hwang SH, Kim BH. A rare case of actinomycosis in nasal cavity with aspergillus sinusitis. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1997;40(12):1844-7.
- 2) Bennhoff DF. Actinomycosis: diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. Laryngoscope 1984;94(9):1198-217.
- 3) Sharkawy AA. Cervicofacial actinomycosis and mandibular osteomyelitis. Infect Dis Clin North Am 2007;21(2):543-56, viii.
- 4) Fradis M, Zisman D, Podoshin L, Wellisch G. Actinomycosis of the face and neck. Arch Otolaryngol 1976;102(2):87-9.
- 5) Finley AM, Beeson MS. Actinomycosis osteomyelitis of the mandible. Am J Emerg Med 2010;28(1):118, e1-4.
- 6) Scott A, Stansbie JM. Actinomycosis presenting as a nasopharyngeal tumor: a case report. J Laryngol Otol 1997;111(2):163-5.
- 7) Belmont MJ, Behar PM, Wax MK. Atypical presentation of actinomycosis. Head Neck 1999;21(3):264-8.
- 8) Hong SJ, Joo JB, Kim YJ, Lee BJ. Three cases of actinomycosis of the head and neck. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2000;43(11):1259-62.
- 9) Park BG, Kim TH, Kim JH, Han DH. A case of actinomycosis arising in parotid gland. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2004;47(5):486-9.
- 10) Feder HM Jr. Actinomycosis manifesting as an acute painless lump of the jaw. Pediatrics 1990;85(5):858-64.
- 11) Miller M, Haddad AJ. Cervicofacial actinomycosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Oral Endod 1998;85(5):496-508.
- 12) Burns BV, al-Ayoubi A, Ray J, Schofield JB, Shotton JC. Actinomycosis to the posterior triangle: a case report and review of the literature. J Laryngol Otol 1997;111(11):1082-5.
- 13) Pant R, Marshall TL, Crosher RF. Facial actinomycosis mimicking a desmoids tumour: case report. Br J Oral Maxillofac Surg 2008;46(5):391-3.
- 14) Roth M, Montone KT. Actinomycosis of the paranasal sinuses: a case report and review. Otolaryngol Head Neck Surg 1996;114(6):818-21.
- 15) Robinson JL, Vaudry WL, Dobrovolsky W. Actinomycosis presenting as osteomyelitis in the pediatric population. Pediatr Infect Dis J 2005;24(4):365-9.