

# A Case of Chronic Invasive Fungal Sinusitis after Endoscopic Sinus Surgery for Chronic Rhinosinusitis

Il-Woo Lee, Byung-Woo Yoon, Sung-Lyong Hong, and Kyu-Sup Cho

Department of Otorhinolaryngology and Biomedical Research Institute, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea

## 비부비동염으로 부비동 내시경수술 후 발생한 만성 침습성 진균성 부비동염 1예

이일우 · 윤병우 · 홍성룡 · 조규섭

부산대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

Received September 27, 2013

Revised November 1, 2013

Accepted November 15, 2013

Address for correspondence

Kyu-Sup Cho, MD

Department of Otorhinolaryngology

and Biomedical Research Institute,

Pusan National University

School of Medicine,

179 Gudeok-ro, Seo-gu,

Busan 602-739, Korea

Tel +82-51-240-7335

Fax +82-51-246-8668

E-mail choks@pusan.ac.kr

Chronic invasive fungal sinusitis is a relatively rare disease that can span from months to years in its clinical course and is described to be more common in immunocompetent patients. Most cases of chronic invasive fungal sinusitis are due to the *Aspergillus* species and have been treated with a combination of surgery and antifungal agents. However, the incidence is increasing with frequent use of antibiotics, cytotoxic drugs, and systemic corticosteroids. We report a case of chronic invasive fungal sinusitis with orbital complication in the patient who underwent endoscopic sinus surgery for chronic rhinosinusitis. Although chronic invasive fungal sinusitis is relatively rare, it is important for otolaryngologists to be aware of its diagnosis and treatment.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2014;57(7):477-80

**Key Words** *Aspergillosis* · Endoscopy · Fungi · Postoperative complications · Sinusitis.

## 서론

만성 침습성 진균성 부비동염은 비교적 드문 질환으로 국균(*Aspergillus*)에 의한 감염이 가장 흔한 것으로 알려져 있으며, 그 외에도 모균, 칸디다, 히스토플라스마, 콕시디오이데스 등도 원인이 될 수 있다.<sup>1)</sup> 안면부 통증, 혈성 비루, 비출혈 등의 비특이적인 증상을 호소하며 이와 동반하여 주위 구조물을 침범시에 해당 부위와 관련된 증상이 나타난다. 즉, 상악동 전벽 침범시에는 안면부종이, 안와 하벽 또는 내벽 침범시에는 안구돌출 및 시력장애가 발생하며, 두개저 침범시에는 만성 두통, 국소 신경증상, 의식저하 등의 증상이 발생할 수 있다.<sup>2)</sup> 치료방법은 아직 확립되지 않았으나 주로 수술적 절제 및 항진균제 투여의 병합 요법이 시행되고 있다.<sup>3)</sup> 저자들은 만성 비부비동염으로 부비동 내시경수술을 시행 받은 후 8개월이 지나 안와내 합병증을 동반한 만성 침습성 진균성 부비동염으로 진단된 환자를 성공적으로 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

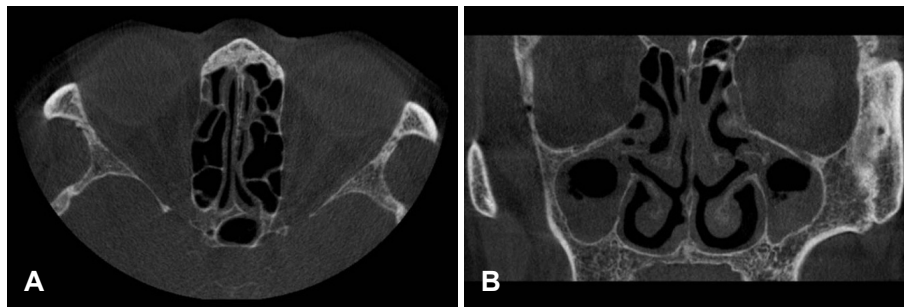
## 증례

약물로 조절이 잘 되는 고혈압 이외에 특이 병력이 없는 69세 여자 환자가 8개월 전 개인병원에서 촬영한 부비동 전산화단층촬영에서 양측 만성 비부비동염이 있어(Fig. 1) 부비동 내시경수술을 시행받았다. 수술 이후에 간헐적으로 두통을 호소하였으나 비내시경 소견에서 별다른 특이소견이 없어 계속 경과관찰만 하고 있던 중 내원 1개월 전부터 우측 안구통을 호소하여 외부 병원에서 시행한 전산화단층촬영검사 결과 우측 안와지판(lamina papyracea) 결손 및 해당 부위의 농양이 발견되었다. 비내시경을 이용하여 비강을 통해 안와지판을 일부 제거하여 농양을 배액한 후 광범위 항생제를 사용하였으나 증상 호전이 없고 염증이 지속되어 본원으로 전원되었다.

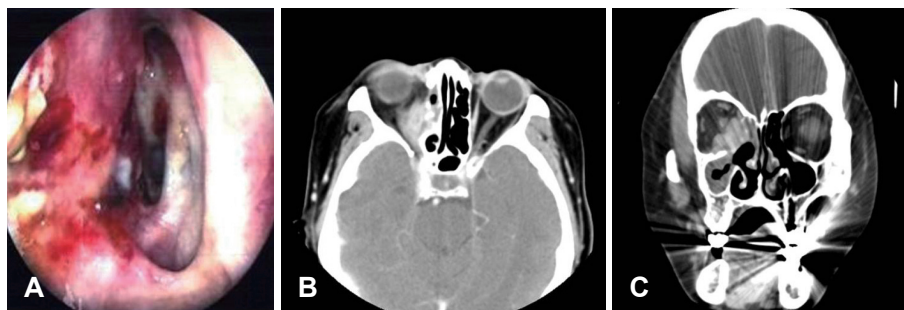
본원에서 시행한 비내시경 검사에서 우측 안와지판 부위에 괴사성 염증 병변이 관찰되었으며 우측 안구를 압박시 안와지판 부위에서 농성의 분비물이 배액되었다(Fig. 2A). 부비동 전산화단층촬영에서 안와지판의 소실과 함께 우측 사골동에 연

부 조직 음영이 관찰되었고 병변이 우측 안와 내로 확장되어 있는 소견이 보였으며 우측 상악동에도 연부 조직 음영이 관찰되었다(Fig. 2B and C). 안와 자기공명영상촬영에서 우측 사골동과 안와의 연조직이 T1 조영 증강 영상에서는 조영 증가되고 T2 강조 영상에서는 저신호 강도를 보이는 안와 농양이 의심

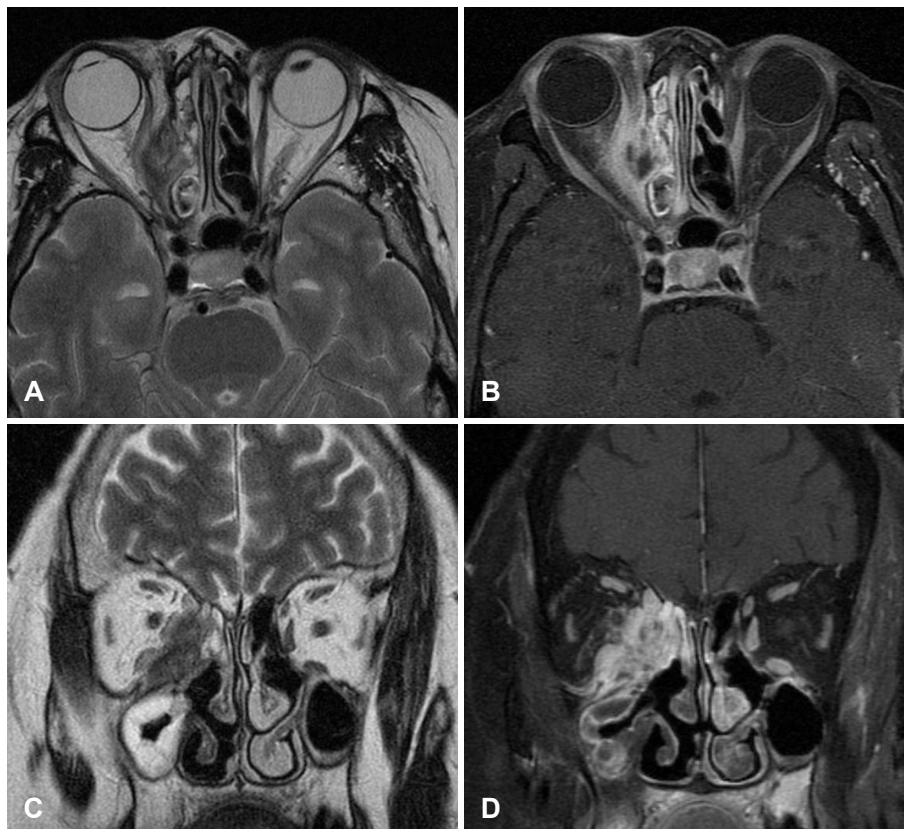
되었으나 두개저 및 두개내로의 침범 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 3). 그러나 악성 종양의 가능성도 완전히 배제할 수는 없어 외래에서 조직 검사를 시행하였다. 조직 검사 결과 국균의 조직침투소견이 관찰되어 수술시 내시경적 비내접근을 통해 안와지판 결손부에 발생한 농양의 배농 및 괴사조직 제거를



**Fig. 1.** Initial preoperative paranasal sinus computed tomography (CT) findings. Axial (A) and coronal (B) CT images show soft tissue density in both ethmoid sinus and maxillary sinus.

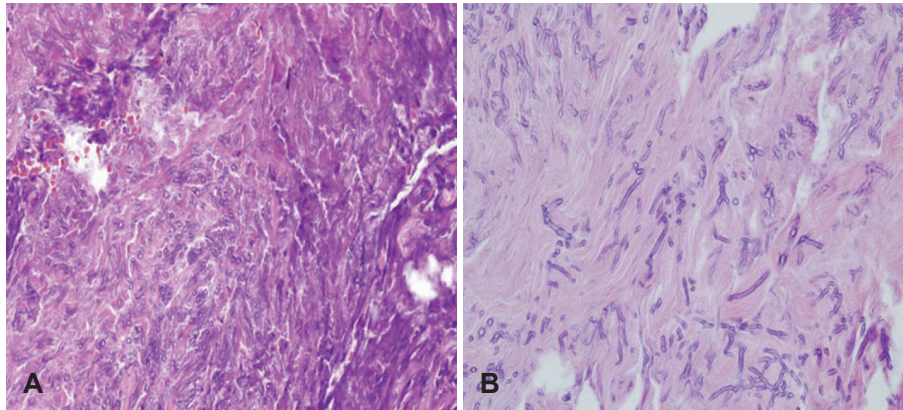


**Fig. 2.** Preoperative endoscopic and paranasal sinus computed tomography (CT) findings. Endoscopic finding of right nasal cavity shows necrotic inflammation and mucopurulent discharge in the right lamina papyracea (A). Axial (B) and coronal (C) CT images show soft tissue density in the right ethmoid sinus extending into orbit through defective lamina papyracea. The soft tissue density in the right maxillary sinus is also noted.

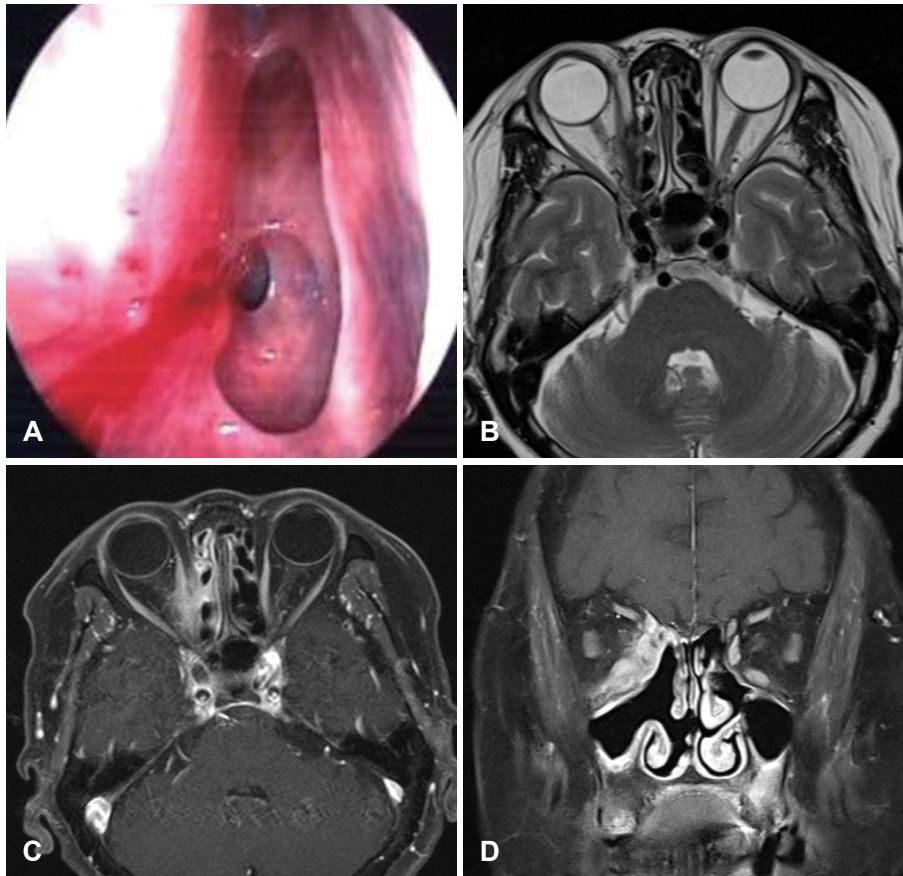


**Fig. 3.** Preoperative orbit magnetic resonance (MR) images. MR images show ill-defined right ethmoid sinus lesion extending to medial and posterior portion of right orbit with low signal intensity on T2 weighted image (WI) and diffuse enhancement on post-contrast T1WI. Axial T2WI (A). Axial gadolinium-enhanced T1WI (B). Coronal T2WI (C). Coronal gadolinium-enhanced T1WI (D).





**Fig. 4.** Histopathologic findings of chronic invasive fungal sinusitis. There are many inflammatory cells, necrotic debris, and fungus with septate hyphae (H&E stain,  $\times 400$ )(A). Periodic acid-Schiff staining shows *Aspergillus fumigatus* with septate 45 degree branching hyphae ( $\times 400$ )(B).



**Fig. 5.** Endoscopic and orbit magnetic resonance (MR) images at 4 months after treatment. Endoscopic finding of right nasal cavity shows no inflammation (A). MR images show much decreased ill-defined right ethmoid sinus lesion extending to medial and posterior portion of right orbit with low signal intensity on T2 weighted image (WI) and diffuse enhancement on post-contrast T1WI. Axial T2WI (B). Axial gadolinium-enhanced T1WI (C). Coronal gadolinium-enhanced T1WI (D).

시행하였다. 수술 중 제거한 괴사조직의 병리검사에서 다수의 격벽과 약 45도의 균사각을 보이는 국균의 밀집된 균사가 관찰되었으며, 주위 조직의 실질로 침윤되어 염증과 괴사를 일으키는 양상을 볼 수 있었으나 혈관 침윤은 거의 없어 만성 침습성 진균성 부비동염으로 진단하였다(Fig. 4).

환자는 수술 후 amphotericin B를 정맥투여 받았으나 이후 발생한 구역, 구토 및 혈중 크레아티닌의 상승으로 voriconazole 경구투여로 치료를 전환하였다. 수술 후 3주간 voriconazole 복용 후 증상의 호전을 보여 퇴원하였으며 이후 감염 내과 외래에서 3개월간 voriconazole을 더 복용한 후 증상은

완전 소실되었다. 치료 4개월 후 시행한 비강 내시경 검사에서 염증 소견은 관찰되지 않았으며 안와 자기공명영상촬영에서 농양은 더 이상 관찰되지 않았고(Fig. 5), 2년이 지난 현재 재발 소견 없이 경과 관찰 중이다.

## 고 찰

진균성 부비동염은 현미경하에서 균사의 점막, 혈관, 골부 등의 조직 침범 여부에 따라 침습성과 비침습성으로 분류할 수 있다. 침습성 진균성 부비동염은 급성 전격성 부비동염과 만

성 침습성 부비동염으로 분류되며, 급성 전격성 진균성 부비동염은 대부분 당뇨 및 면역 기능이 저하된 환자에서 발생하는 4주 이내의 병변을 의미하고 급격히 발생하며 치사율도 상당히 높다. 조직학적으로 점막, 점막하 고유층 및 골조직으로 진균의 침습 소견이 있고, 혈관 침윤을 나타내며, 혈관염, 혈전의 형성, 주위조직의 괴사 및 광범위한 호중구의 침윤을 보인다.<sup>4)</sup> 만성 침습성 진균성 부비동염은 만성 무통성(chronic indolent type)과 만성 육아종성(chronic granulomatous type)으로 나누기도 하지만 두 질환 모두 수개월에서 수년간 지속되며, 방사선 검사에서 부비동염의 소견을 보이고 면역학적 이상이 없는 사람에게서 발생하는 경우가 많다. 만성 육아종성은 균사에 대해 육아종을 주로 형성하여 부비동 또는 안와에 종괴 형태를 나타내고 안구의 돌출을 호소하는 경우가 많다.<sup>4)</sup> 만성 무통성은 균사가 밀집되어 있는 것이 특징적이고, 균사의 혈관침윤은 거의 없으며 주위의 염증반응이 심하지 않은 특징을 주로 나타낸다. 사골동과 접형동에서 주로 발생하며 면역학적 이상이 없는 사람에게서 발생하는 경우가 많으나 항생제, 항암제, 스테로이드 제제 등 면역 기능에 영향을 줄 수 있는 약물 사용에 의해 증가한다는 주장도 있다.<sup>3)</sup>

특이한 증상 없이 비염, 만성 부비동염, 상기도 알레르기 증상 등을 동반하며, 수개월에서 수년에 걸쳐 서서히 발병하여 조직 내로 침범하여 안와, 광대뼈, 경구개 등 주위 골 조직을 파괴하며, 침범 부위에 따라 안구돌출, 안구통, 만성 두통, 경련, 해면정맥동 증후군 등의 증상을 보인다.

진균성 부비동염의 진단은 진균사의 확인을 통해 이루어지며 특징적인 방사선학적인 소견이 도움을 줄 수 있으나 만성 진균성 부비동염에서의 진균 동정은 세균 동정에 비해 어려워 양성의 결과를 보이는 경우는 23~50%에 불과하다.<sup>5)</sup> 따라서 만성 침습성 진균성 부비동염의 진단은 점진적인 진행성 임상 양상의 확인과 함께 조직내 침투한 진균 균사를 확인하는 조직검사를 통해야 하며,<sup>3)</sup> 조직검사시에는 부비동 내의 충분한 양의 진균과 점막, 그리고 병변부위 및 인접한 골조직을 채취해야 한다.<sup>6)</sup> 국균은 병리조직학적으로 많은 격벽을 갖고 있으며, 분지된 균사가 약 45도로 배열되어 균사괴를 형성한다. 또한 균사가 주위의 조직 실질로 침윤되어 조직을 괴사시키는 양상을 볼 수 있다. 따라서 만성 침습성 진균성 부비동염의 성공적인 치료를 위해서는 비강내의 내시경 소견 및 방사선학적인 소견을 통해 초기에 발견하는 것이 중요하고 즉각적인 조직검사 및 수술적 치료를 통한 진균의 확인이 필수적이다.<sup>7-9)</sup> 본 증례에서는 8개월 전에 만성 비부비동염으로 수술한 병력이 있고 수술 이후에 계속 지속된 간헐적 두통이 있었으므로 처음 내시경 수술 이후에 진균성 부비동염이 서서히 진행하여 안와지판을 파괴하고 안와내 합병증을 유발한 것으로 생각할 수 있다. 하지

만 본 증례의 경우는 8개월 전에 처음 수술을 시행하였을 때 방사선 소견이 진균성 부비동염에 부합하지 않고 안와내 합병증이 생겼을 당시에 조직 검사를 시행하지 않아 진단이 늦어지면서 치료에 어려움이 있었다고 생각된다.

만성 침습성 진균성 부비동염의 치료는 주로 급성 전격성 진균성 부비동염에 준하여 수술적 절제 및 항진균제의 투여를 시행하고 있으나 현재 치료방법의 기준화는 확립되지 않은 상태이다.<sup>3)</sup> 환자의 전신적인 상태에 별다른 문제가 없을 경우 항진균제의 투여는 수술 직후부터 시행되어야 하며 6주 이상의 사용기간을 필요로 한다.<sup>10)</sup> 본 증례에서는 내시경적 비내접근을 통해 진균과 염증조직을 충분히 제거할 수 있었고 수술 후 충분한 기간 동안 항진균제를 사용하였다. 우선 amphotericin B를 정맥투여하였으나 부작용으로 인해 voriconazole 경구투여로 전환하여 장기간 사용한 후 재발소견 없이 경과관찰 중이다.

본 증례에서와 같이 통상적인 염증성 부비동염에 대한 치료에 잘 반응하지 않고 합병증을 동반하고 있는 만성 비부비동염의 경우에는 드물지만 항상 만성 침습성 진균성 부비동염의 가능성을 염두에 두고 적극적으로 반복적인 검사를 통한 진균성 부비동염의 조기진단이 필요하며 치료는 충분한 감염조직 제거 및 항진균제 사용이 필요할 것으로 생각된다.<sup>2)</sup>

## Acknowledgments

This work was supported by the year 2014 clinical research grant from Pusan National University Hospital.

## REFERENCES

- 1) Romett JL, Newman RK. Aspergillosis of the nose and paranasal sinuses. *Laryngoscope* 1982;92(7 Pt 1):764-6.
- 2) Stringer SP, Ryan MW. Chronic invasive fungal rhinosinusitis. *Otolaryngol Clin North Am* 2000;33(2):375-87.
- 3) 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.
- 4) 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.
- 5) Katzenstein AL, Sale SR, Greenberger PA. Allergic Aspergillus sinusitis: a newly recognized form of sinusitis. *J Allergy Clin Immunol* 1983;72(1):89-93.
- 6) deShazo RD, Chapin K, Swain RE. Fungal sinusitis. *N Engl J Med* 1997;337(4):254-9.
- 7) Yun DH, Chung YS, Lee BJ. Comparison of inflammatory cells infiltrating the maxillary sinus mucosa between chronic sinusitis and noninvasive fungal sinusitis. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2001;44(1):47-51.
- 8) Ahn JH, Kim YJ. Invasive aspergillosis of the maxillary sinus invading skull base: report of a case. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1999;42(5):652-5.
- 9) Chung YJ, Kim IS, Yun KS. A case of massive skull base erosion by fungus ball in the sphenoid sinus. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2008;51(5):491-4.
- 10) Kim DK, Nam SK, Lee KA, Cho JH. A case of chronic invasive fungal sinusitis invading pterygopalatine fossa. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2010;53(5):316-9.