

A Case of Fungal Infection in the Onodi Cell with Diplopia

Ho Joong Kim, Seung Youp Shin, Sung Wan Kim, and Joong Saeng Cho

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Kyung Hee University, Seoul, Korea

복시를 주소로 내원한 환자 1예

김호중 · 신승엽 · 김성완 · 조중생

경희대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received March 24, 2014

Revised May 12, 2014

Accepted May 23, 2014

Address for correspondence

Seung Youp Shin, MD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
School of Medicine,
Kyung Hee University,
23 Kyungheedaero-ro,
Dongdaemun-gu,
Seoul 130-872, Korea
Tel +82-2-958-8474
Fax +82-2-958-8470
E-mail ssy6604@naver.com

The orbital apex syndrome is a very rare complication of fungal sinusitis, as well as of other conditions, and is characterized by blindness, diplopia, proptosis of the eye and ophthalmoplegia. We present a case of diplopia caused by a fungal ball in the Onodi cell. A 62-year-old woman, diagnosed with orbital apex syndrome and suffering from ophthalmalgia and diplopia in the right eye, was presented to our outpatient clinic. Computed tomography showed a soft tissue lesion occupying the right Onodi cell with chronic inflammation. Patients who have an Onodi cell carry a high risk for optic nerve injury, so endoscopic sinus surgery using navigation was performed. Histopathology examination confirmed the diagnosis of a fungal ball. We experienced a rare case of a fungal ball in the Onodi cell, which caused damage to the adjacent cavernous sinus structure and led to diplopia and orbital pain. We present this case with a brief review of these disease entities. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2014;57(11):792-4

Key Words Diplopia · Fungal ball · Orbital apex syndrome.

서론

안와 선단부에는 여러 신경 및 정맥, 동맥이 지나가며, 염증 및 여러 가지 원인에 장해를 받게 되면 안근마비, 안검하수, 시력저하 및 시력상실이 오게 되며, 이를 orbital apex syndrome (OAS)이라 한다. OAS는 좋지 않은 예후로 인해 신속한 진단과 치료가 시행되어야 한다.¹⁾

Onodi cell은 사골동의 후방, 접형동의 상 외측에 위치해 있어 해부학적 특성상 시신경, 내경동맥 및 해면동 등 중요한 구조물과 근접해 있으며, 부비동 전산화단층촬영으로 확인이 가능하나 기존의 보고된 자료보다 해부학적 변이가 많아 실제 수술 진행 시 Onodi cell을 찾기가 쉽지 않다.²⁾ 따라서 Onodi cell과 연관된 수술 진행시에는 시신경과 관련한 치명적인 결과를 초래할 수 있다.

접형동과 Onodi cell에 발생한 염증 및 점액낭종, 진균감염에 의한 시력저하는 드물며, 특히 Onodi cell의 진균 감염에 의한 시력저하는 동반하지 않은 복시, 안구통증, 안면부 이상

감각을 호소한 예는 없다. 이에 점액낭종이 아닌 Onodi cell에 국한된 진균성 부비동염에 의한 복시증상을 주소로 내원한 환자를 네비게이션을 이용한 내시경적 부비동 수술로 치료하여 증상을 회복하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

62세 여자 환자로 약 2개월 전부터 시작된 우측 안구 통증 및 감각이상, 복시를 주소로, 외부 병원 안과 외래에 내원하여 시신경염 진단 하에 스테로이드 치료를 받고 증상이 호전되었으나, 수일 후 상기 증상이 재발하여 본원 안과 외래를 내원하였다. 시행한 시력검사에서 우측 0.8, 좌측 0.9로 시력 저하 현상은 없었으나, 우측 구심성 동공 장애 및 황반 부종 소견을 보여 시신경염 진단 하에 입원하여 스테로이드 치료(25 mg q 6 hrs, 3 days)를 시행하였고, 시행한 부비동 부위 컴퓨터단층촬영의 수평단면에서 우측 사골동의 상외측에 위치한 Onodi cell에 치밀하고, 균일한 종괴가 관찰되었다(Fig. 1A).

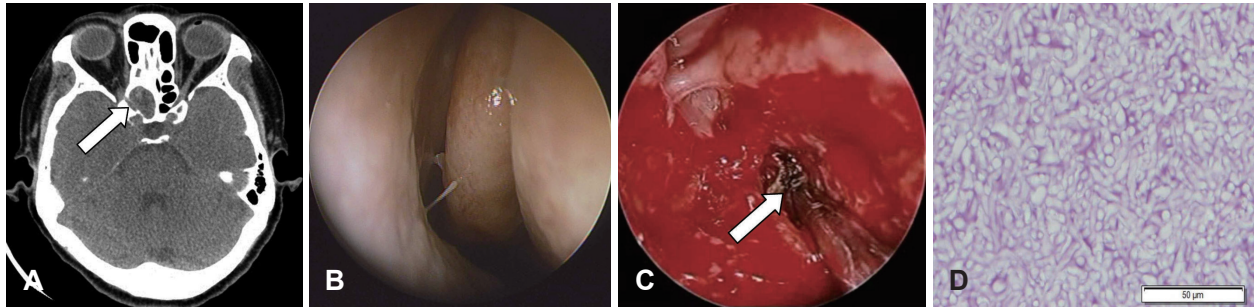


Fig. 1. Preoperative PNS CT scan shows a soft tissue lesion occupying large right posterior ethmoidal air cell (Onodi cell) with chronic inflammation (white arrow)(A). Preoperative endoscopic findings show normal nasal mucosa (B). Fungal materials were noted in the right Onodi cell (white arrow)(C). Biopsy report. Periodic acid stain ($\times 50 \mu\text{m}$) stained slide shows fungus with chronic inflammation (D).

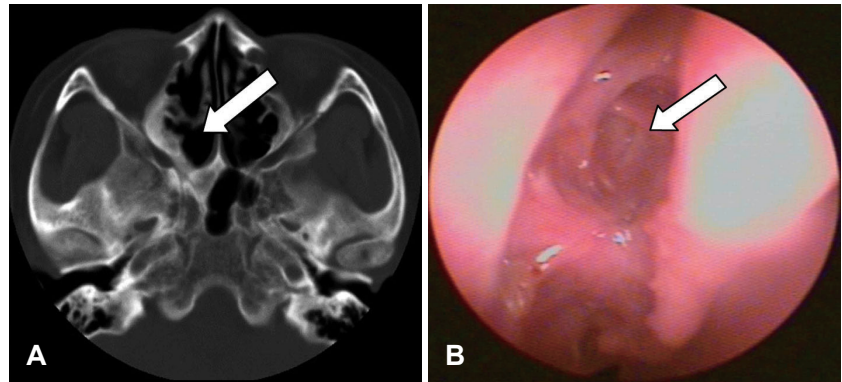


Fig. 2. Postoperative CT scan after 4 months shows mild mucosal thickening (white arrow) (A). Fibroscope shows that fungal materials and inflammation in the Onodi cell have completely resolved (white arrow)(B).

이비인후과로 의뢰되어 외래에서 시행한 비강 내시경 소견상 부비동염 및 용종 소견은 없었고(Fig. 1B), 신체검사에서는 특이 소견 보이지 않았으나, 우측 안면부 Onodi cell에 있는 덩어리를 제거하기 위해 네비게이션을 이용한 부비동 내시경 수술을 예정하고 다른 약물 및 주사치료는 하지 않았으며, 안과에서 스테로이드 60 mg을 처방하여 15일간에 걸쳐 감량하였다. 수술은 전 구상돌기 절제술과 전방사골절제술을 시행 한 뒤, 우측 사골동의 상외측에 있는 Onodi cell을 확인하고 네비게이션을 이용하여 하내측으로 조심스럽게 접근하였다. 우측 Onodi cell 주변부로 골화 현상이 관찰되어 이를 모두 제거하였고, 안쪽으로 노란색의 진균종을 확인할 수 있었다(Fig. 1C). 모든 진균종을 큐렛을 이용하여 제거하였고, 세척을 진행하였다. 수술 후 2세대 세팔로스포린계 항생제(Cefotiam bid) 및 항히스타민제(Singulair qd, Rinoebastel bid), 비스테로이드성 소염진통제(Somalgen tid)를 사용하였고, 2일 후 환자는 시력 저하 및 복시가 조금씩 호전되고 있다고 표현하였으며, 안구 통증 및 이상감각은 모두 소실되었다. 수술 후 3일째 환자는 퇴원하였고, 퇴원약으로는 입원 시 사용한 약물을 동일하게 사용하여 7일간 유지하게 하였다. 수술 후 7일째 외래 내원하여 시행한 비내시경 검사에서 수술 부위 특이 이상 소견 및 합병증 없이 치유되는 소견을 보였고 우측 시력은 0.6으로 측정되었고, 병리조직학적 검사 결과 진균종으

로 확인되었다(Fig. 1D).

수술 4달 후 수술 부위에 날카로운 통증 소견을 호소하여 시행한 컴퓨터단층촬영에서는 특이 소견 없이 잘 치유된 Onodi cell을 보여주었고(Fig. 2), 우측 시력은 0.8로 측정되었다. 수술 후 5개월에 외래 내원 시 환자는 특이 소견이 없는 상태로 치료를 종결하였다.

고 찰

종양, 점액종 및 진균 감염은 안와부 및 시신경관 내에 염증을 일으킬 수 있으며 이러한 병변은 시신경 유두의 부종을 유발하고, 점진적인 시력 저하와 복시를 초래할 수 있다.³⁾ 특히 접합동의 후외측에 존재하며 시신경을 둘러싸고 있는 Onodi cell에 점액종 또는 진균 감염이 발생하게 되면, 부비동 또는 시신경에 압력을 가할 수 있고, 이는 시신경과 관련된 질환인 안와첨부 증후군, 시신경염, 시신경관 증후군, 시신경 교종 등을 유발할 수 있다. 특히 Onodi cell에 곰팡이나 점액종이 발생하면, 시신경을 압박하고, 시신경 유두의 부종을 초래하게 되며 대부분은 정상적인 시력을 보이나, 일부에서는 가벼운 색감저하에서부터 드물게 복시, 시력저하 등을 유발할 수 있다.⁴⁾

OAS는 안와 누두 첨단부 주위에 병변이 진행되어 시신경관과 상안와열에 영향을 끼치게 되는 질환으로, 병변이 연관된 정

도에 따라 안구 돌출, 결막부종, 안근마비가 나타나며, 심할 경우에는 시력 상실에까지 이어지게 된다.⁵⁾

Onodi cell은 사골동의 후하방쪽에 위치한 공간으로, 시신경을 포함할 가능성이 있는 중요한 해부학적 지표이기 때문에, 술자는 수술 전, 후에 Onodi cell을 꼭 확인하여 시신경에 영향을 주었는지 확인할 필요가 있으며, 이는 부적절한 부비동염 수술을 줄이는 중요한 단계라 할 수 있다.²⁾

또한 내시경을 이용한 부비동 수술 중 받는 피해를 최소화하기 위해 네비게이션을 사용 할 수 있다.

진균성 부비동염이란 진균 균에 의해 부비동에 발생하는 염증을 말하며, 만성부비동염 환자의 10% 정도로 알려져 있었으나 진균 배양 기술과 분자 생물학적 진단 기법의 발전으로 진균성 비부비동염의 진단율이 증가하고 있으며,⁶⁻⁸⁾ 최근에는 부비동염 환자의 90% 이상이 진균과 연관이 있다는 보고가 있으나, 비강이나 부비동에 존재하는 진균이 반드시 부비동염을 유발하는지에 대해서는 논란과 연구가 진행되고 있다.⁹⁾ 진균성 부비동염의 분류는 현재까지도 논란이 있고 약간의 차이를 보이지만 대개 침습형(invasive form)과 비침습형(non-invasive form)으로 나뉜다. 침습형에는 급성 전격형 진균성 부비동염(acute fulminant invasive fungal sinusitis), 만성 침습형 진균성 부비동염(chronic invasive fungal sinusitis), 만성 육아종성 침습형 진균성 부비동염(granulomatous invasive fungal sinusitis)이 속하고 비침습형에는 진균구(sinus mycetoma: fungus ball), 알레르기성 진균성 부비동염(allergic fungal sinusitis)이 속한다.¹⁰⁾

급성 전격형 진균성 부비동염은 급속히 진행하여 조직을 침범하는 것이 특징적이며 적절한 치료를 하지 않으면 안와와 두개내 침범으로 인해 사망률이 50~80%에 이른다.¹¹⁾

만성 육아종성 침습형 진균성 부비동염은 비교적 드문 질환으로 수개월에서 수년간 진행하며, 면역 장애 질환이 없는 환자에서 더 흔한 임상양상을 보인다. 조직검사로 진단하며 조직 소견상 흔히 점막을 침범한 진균이 관찰되나 그 정도가 제한적이다. 진균은 육아종 안에 둘러싸여 있으며 광범위한 조직 괴사, 혈관침습, 다형 백혈구의 침윤은 흔히 보이지 않는다.¹²⁾

진균성 부비동염에 의해 복시가 발생한 경우 국내에서 4예 확인하였고, 복시의 원인은 접형동염 2예, 전두동염 1예, 상악동염 1예 있었으며 모두 진균감염으로 확인하였다. Onodi cell에 진균이 감염된 보고는 있었으나 시력저하만 있었고 복시는 동반되지 않았으며, 복시가 동반된 경우는 본 증례가 처음이었다. 세균성 부비동염에서 염증이 안와부 및 안구에 파급

되면 복시가 발생할 수 있으나 컴퓨터단층촬영 및 병리조직 검사 결과 세균성 감염에 의한 복시는 아닌 것으로 확인하였다.

본 증례에서는 진균에 감염된 Onodi cell을 경험하였고, 안와벽에는 침범하지 않았으나, 감염된 Onodi cell의 크기에 따른 mass effect로 안와 침부를 지나가는 시신경에 압력이 가해져 시신경염이 발생하였고, OAS 진단 하에 수술적 치료를 시행하였다. 수술적 정확성을 높이기 위해 네비게이션을 이용한 내시경적 부비동 수술을 하였고 Onodi cell에 있는 진균을 모두 제거하였다. 수술 후 복시 및 안구통증은 모두 호전되었고, 이후 외래를 통한 경과 관찰에서 특이 소견을 보이지 않았다. 접형동이 아닌 Onodi cell에서도 시신경의 근접성 때문에 진균성 부비동염에 의한 복시가 발생할 수 있음을 알 수 있었으며, 적절한 수술적 치료와 약물치료로 증상이 호전된 진균성 부비동염을 경험하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Klink T, Pahnke J, Hoppe F, Lieb W. Acute visual loss by an Onodi cell. Br J Ophthalmol 2000;84(7):801-2.
- 2) Driben JS, Bolger WE, Robles HA, Cable B, Zinreich SJ. The reliability of computerized tomographic detection of the Onodi (Sphenothmoid) cell. Am J Rhinol 1998;12(2):105-11.
- 3) Kitagawa K, Hayasaka S, Shimizu K, Nagaki Y. Optic neuropathy produced by a compressed mucocele in an Onodi cell. Am J Ophthalmol 2003;135(2):253-4.
- 4) Fukuda Y, Chikamatsu K, Ninomiya H, Yasuoka Y, Miyashita M, Furuya N. Mucocele in an Onodi cell with simultaneous bilateral visual disturbance. Auris Nasus Larynx 2006;33(2):199-202.
- 5) Cho SH, Jin BJ, Lee YS, Paik SS, Ko MK, Yi HJ. Orbital apex syndrome in a patient with sphenoid fungal balls. Clin Exp Otorhinolaryngol 2009;2(1):52-4.
- 6) Shin SH. Clinical characteristics and treatment of fungal rhinosinusitis. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54(7):454-61.
- 7) Torres C, Ro JY, el-Naggar AK, Sim SJ, Weber RS, Ayala AG. Allergic fungal sinusitis: a clinicopathologic study of 16 cases. Hum Pathol 1996;27(8):793-9.
- 8) Kupferberg SB, Bent JP 3rd, Kuhn FA. Prognosis for allergic fungal sinusitis. Otolaryngol Head Neck Surg 1997;117(1):35-41.
- 9) Ponikau JU, Sherris DA, Kern EB, Homburger HA, Frigas E, Gaffey TA, et al. The diagnosis and incidence of allergic fungal sinusitis. Mayo Clin Proc 1999;74(9):877-84.
- 10) deShazo RD, O'Brien M, Chapin K, Soto-Aguilar M, Gardner L, Swain R. A new classification and diagnostic criteria for invasive fungal sinusitis. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1997;123(11):1181-8.
- 11) Kim DK, Heo ST, Kim SH, Kim DW. New treatment for isolated invasive aspergillosis of sphenoid sinus in immunocompetent subjects: sphenoid nasalization combined with voriconazole. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2014;57(2):124-7.
- 12) Jang YJ, Kim JS. Non-surgical management of fungal sinusitis. J Rhinol 2007;14(2):76-81.