



A Case of Visual Loss Caused by Invasive Fungal Sinusitis of the Onodi Cell

Tae Woo Gim, Seok Chan Yoo, Seok Yoon Lee, and Jong In Jeong ^{ID}

Department of Otorhinolaryngology, School of Medicine, Keimyung University, Daegu, Korea

Onodi Cell에 발생한 침습형 진균성 부비동염에 의한 시력 저하 1예

김태우 · 유석찬 · 이석윤 · 정종인

계명대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received May 26, 2020

Revised June 12, 2020

Accepted June 22, 2020

Address for correspondence

Jong In Jeong, MD

Department of Otorhinolaryngology,

School of Medicine,

Keimyung University,

1035 Dalgubeol-daero, Dalseo-gu,

Daegu 42601, Korea

Tel +82-53-258-7905

Fax +82-53-258-4540

E-mail hydeath1@nate.com

Invasive fungal sinusitis is common in immunodeficiency patients and can spread into the orbit or intracranial cavity. The Onodi cell, which is one of the anatomical variations of the ethmoid sinus, refers to the space that has been pneumatized superolateral to the sphenoid sinus. We experienced a case of invasive fungal sinusitis that caused vision loss by invading the Onodi cells. Endoscopic sinus surgery and antifungal treatment successfully recovered the patient's vision and we herein report on the case with a review of the literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2021;64(4):273-6

Key Words Invasive fungal infections · Optic neuritis · Sinusitis.

서론

진균성 부비동염은 비교적 흔한 질환으로, 1893년 Mackenzie¹⁾가 상악동 내 진균구를 발표한 이후 최근 수년간 발병 빈도가 지속적으로 증가하고 있다.

진균성 부비동염은 환자의 면역학적 상태와 조직 병리학적 기준에 따라 비침습성과 침습성으로 나눌 수 있고, 침습성은 다시 급성 침습형과 만성 침습형으로 나뉜다.²⁾

침습형 진균성 부비동염은 일반적으로 당뇨, 이식 및 항암 치료 등의 면역결핍 환자에서 흔하며, 치료는 침범 부위의 광범위한 외과적 절제가 기본 원칙이고, 전신적 항진균제 투여와 기저질환의 치료가 필요하다.³⁾

Onodi cell은 사골동의 해부학적 변이 중 하나로, 후사골동의 측상방으로 함기화된 공간을 의미하며, 정상인에서 8~

14%의 비율로 존재한다.⁴⁾

Onodi cell은 시신경이 주행하는 시신경관의 내측에 위치하기 때문에 이 공간의 병변 발생 시 안구돌출, 복시, 시력 저하 등의 증상을 동반할 수 있다.⁵⁾

진균성 부비동염이 Onodi cell에 국한되어 나타나는 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있으며, 이중 안와를 침범하여 시력 저하를 유발한 예는 더욱 드물게 보고되고 있다.^{6,7)}

최근 저자들은 기저질환이 없는 정상 면역 환자에서 발생한 Onodi cell에 국한된 침습형 진균성 부비동염이 시력 저하를 유발하여 부비동 내시경 수술 및 항진균제를 통해 시력을 회복하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

당뇨, 면역 저하 등의 기저질환이 없는 86세 여자 환자가 2주 전부터 발생한 시력 저하로 본원 안과에 내원하였다.

시력검사상 우측은 빛을 인지하는 상태(light perception)

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

였으며 좌안은 0.5로 측정되었고, 양안 안저검사 및 안구 운동은 정상 소견을 보였다. 시신경염 의심하에 시행한 MRI상 T1, T2 강조영상에서 우측 후사골동의 저신호강도의 종괴성 병변이 관찰되어 이비인후과로 의뢰되었다(Fig. 1).

환자는 상기 증상 발생 3주째 이비인후과 외래에 내원하였고, 코막힘, 비루, 안면통 등의 비과적 증상은 없었으며 비내시경 소견상 부비동염 소견은 관찰되지 않았다. 부비동 CT상 우측 접형동의 상방에서 관찰되는 Onodi cell 내 연조직 음영이 관찰되고, Onodi cell의 상방에서 골벽 결손과 두개 내 침범이 의심되는 소견이 확인되었다(Fig. 2). 검사결과를 종합적으로 고려하여 우측 Onodi cell 진균성 부비동염 가

능성하에 신경외과와 협진 수술을 계획하였다.

환자는 시력 저하 발생 4주째 전신마취 하에 부비동 내시경 수술을 시행받았다. 수술 소견상 우측 Onodi cell은 점도가 높은 진흙같은 적갈색의 물질로 가득 채워져 있었다. Onodi cell의 천장과 cell 내에 위치한 시신경관의 뒤쪽 일부에서 골 괴사 소견이 확인되어 진균과 괴사 부위를 모두 제거하였고, 안와골막과 두개저 경막은 온전한 상태임을 확인하였다. 수술 후 비출혈, 뇌척수액 비루 등의 급성기 합병증은 관찰되지 않은 상태로 술후 1일째 퇴원하였다.

술후 병리 조직학적 검사 결과 Onodi cell과 두개저에서 채취한 골수강에서 *Aspergillus niger*로 확인되어, 침습성 진균

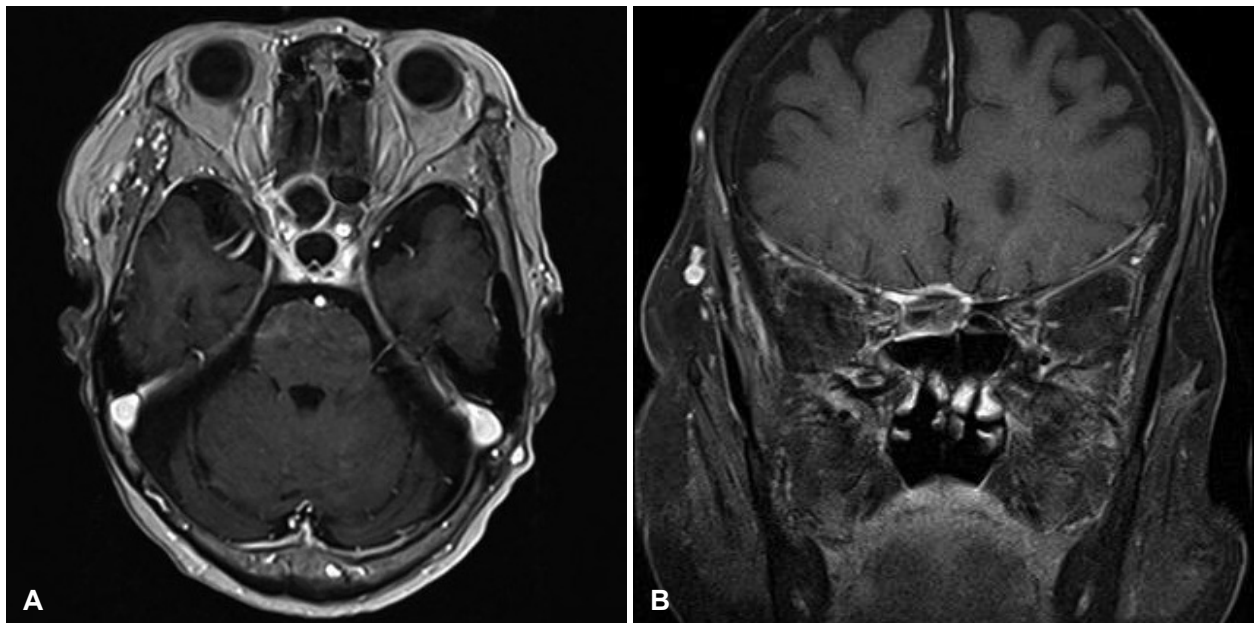


Fig. 1. Preoperative brain MRI. MRI revealed a mass like lesion showing low-signal intensity in the right posterior ethmoid sinus. Regional mild enhancement was visible at right orbital apex (A). Suspicious epidural inflammation is observed (B).

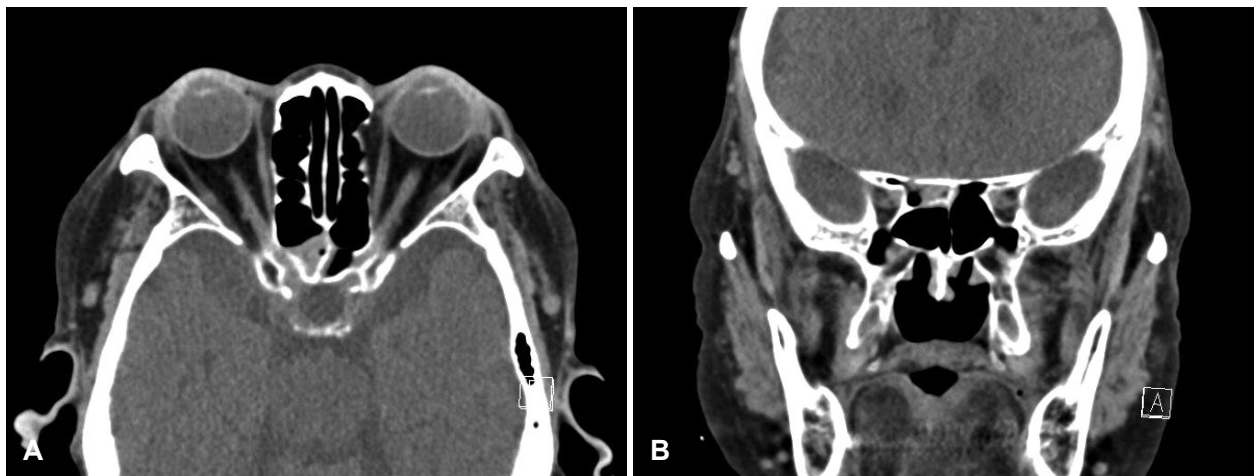


Fig. 2. Preoperative paranasal sinus CT. Right posterior ethmoid sinus is filled with abnormal soft tissue density (A). Focal bony defect in ethmoid roof is observed (B).

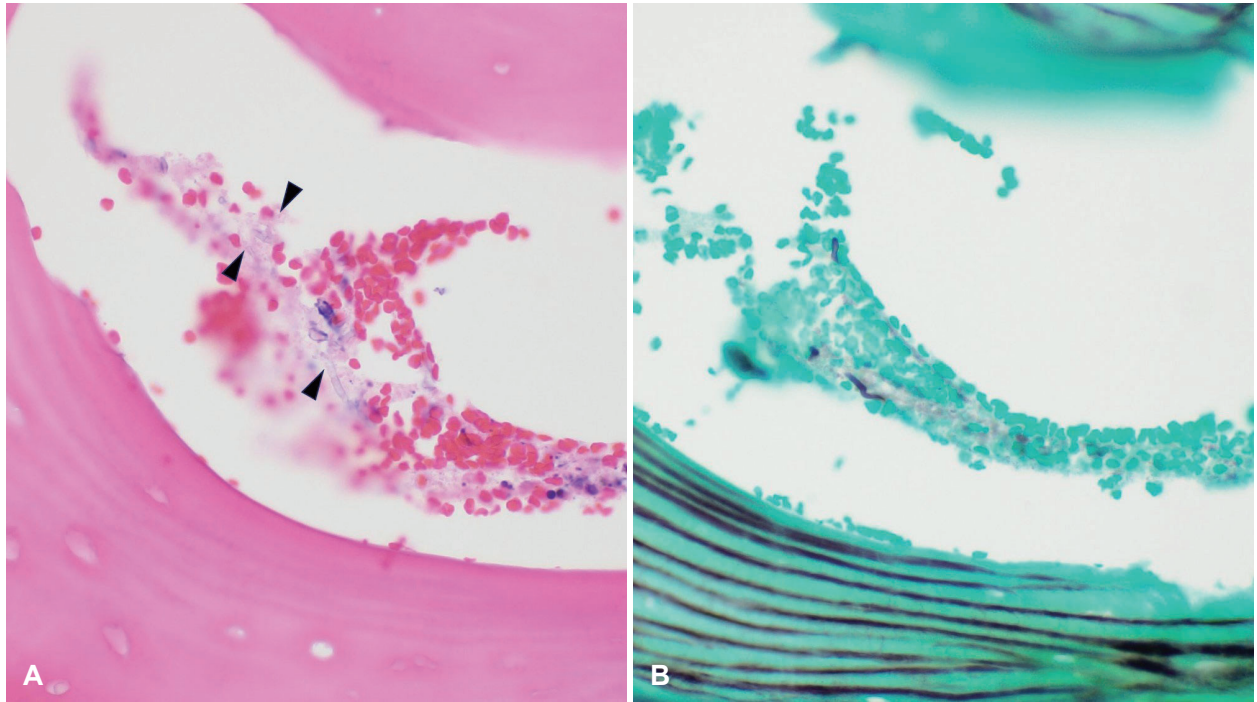


Fig. 3. Histopathologic findings. Faint long and slender fungal hyphae (arrowheads) are observed in bone marrow cavity of the clival bone (hematoxylin and eosin stain, $\times 400$) (A). The fungal hyphae are stained as black color (Gomori methenamine silver stain, $\times 400$) (B).

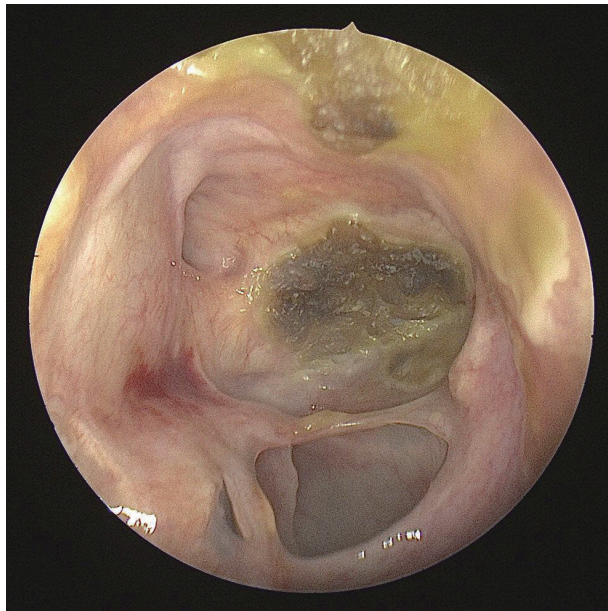


Fig. 4. Postoperative endoscopic findings. After 2 months, mucosa was healed without recurrence.

성 부비동염으로 진단하였다(Fig. 3). 감염내과 협진하에 술 후 4주간 voriconazole 경구 투여를 시행하였고 약물혈중농도를 측정하며 약제 용량을 조절하였다. 외래 추적 관찰하며 술 후 3주 째부터 주관적인 시력 호전이 있었고, 술 후 33일째 시행한 시력검사상 우안 0.4로 술전에 비해 상당 부분 호전되

었다. 비내시경 검사상 수술 부위는 재발 소견 없이 양호한 점막 상태를 보였다(Fig. 4).

고 찰

최근 수년간 진균성 부비동염의 발병 빈도는 지속적으로 증가하고 있는데,¹⁾ 이는 광범위한 항생제의 남용, 영상진단 장비의 발달, 진균 배양과 분자생물학적 진단 기술의 발달, 악성종양 및 면역 기능 저하를 동반하는 환자의 증가, 이식 환자의 증가 등이 원인으로 알려져 있다.^{1,2)}

시신경염은 탈수초화, 감염 등에 의한 시신경의 급성 혹은 아급성의 염증으로 원인을 알 수 없는 특발성이 가장 많고 그 외 다발성 경화증, 자가면역질환, 종양 등에 의해 발생할 수 있으며, 부비동염에 의한 경우는 드문 것으로 알려져 있다.⁸⁾

진균성 부비동염이 시신경염을 일으키는 기전으로 부비동염증에 의한 직접 전파가 가장 흔한 경로이며, 시신경관의 틈과 골벽 결손 부위를 통해 염증이 전파되어 이차적 시신경염을 일으킨다.⁹⁾

그리고 시신경에 직접적인 종물 영향으로 시신경을 압박하고 시신경 유두의 부종을 초래하여 시신경염, 안와첨부 증후군 등을 유발할 수 있고, 그 외에 염증 부산물이 정맥 또는 림프관을 통해 시신경으로 유입되어 발생하는 경우도 보고되고 있다.^{10,11)}

본 증례의 경우 수술 소견상 시신경관과 두개저 일부의 골 괴사 소견이 확인되어 골벽 결손 부위를 통한 진균 감염의 직접 전파로 인해 시력 저하가 발생한 것으로 생각된다.

진균성 부비동염에 의한 시신경염의 치료로는 병변 부위를 수술적으로 광범위하게 제거하는 것이 가장 중요하고, 전신적인 항진균제를 사용하며, 스테로이드가 도움이 될 수 있다.¹¹⁾ 또한 당뇨나 면역 저하 등의 선행질환에 대한 적절한 치료가 함께 이루어져야 할 것이다.

Onodi cell의 진균 감염에 의한 시신경염은 국내 2예로 매우 드물게 보고되고 있으나,^{6,7)} Onodi cell 침습형 진균성 부비동염에 의한 시신경염은 아직 보고된 바 없다.

국내에서 발표된 2예에서는 공통적으로 수술적 치료와 스테로이드 치료를 하였으나, 본 증례에서는 스테로이드 사용을 하지 않았고 수술 후 경구용 항진균제 치료만으로 시력을 회복할 수 있었다. 결과적으로 볼 때 침습형 진균성 부비동염에서 수술적 치료와 술후 항진균제 치료가 중요하며 스테로이드는 시신경 및 주위조직의 부종을 감소시켜 시력의 회복을 도울 수는 있으나 필수적이지는 않다고 볼 수 있다.

침습형 진균성 부비동염의 경우 *Aspergillus fumigatus*가 80~90%, *Aspergillus flavus*가 5~10%로 대부분을 차지한다.¹²⁾ 이전 발표된 2예의 조직검사 결과에서는 Aspergillosis 로만 보고하였고,^{6,7)} 본 증례에서는 *Aspergillus niger*로 확인되었는데 이는 침습형 진균성 부비동염에서 1~5% 확률로 발견되는 상대적으로 드문 균주로 알려져 있다.¹²⁾ 진균성 부비동염의 여러 균주들 간의 비교에 대한 정보는 아직 부족한 실정므로, 앞으로 이에 관한 연구가 이루어진다면 진균성 부비동염 감염 시 환자의 임상 양상 및 예후 등에 대해 더욱 잘 이해할 수 있을 것으로 생각된다.

Voriconazole은 트리아졸 항진균제로 최근 연구에서 침습성 국균증의 치료 효과가 보고되고 있다.¹³⁾

Amphotericin B는 정맥 투여만 가능하고 고용량에 따른 신독성의 위험이 높지만, voriconazole은 경구 제제가 가능하며 신독성의 위험이 낮고, 최근 여러 연구에서 침습성 국균증 환자의 치료 시 voriconazole이 amphotericin B보다 우수한 제제임을 보고하고 있다.^{13,14)}

저자들은 Onodi cell에 국한된 침습형 진균성 부비동염이 시력저하를 유발한 드문 증례를 경험하였고, 본 증례를 통해 부비동 내시경 수술과 voriconazole의 투여는 효과적인 침

습형 진균성 부비동염의 치료 방법이 될 수 있을 것으로 생각한다.

Acknowledgments

None.

Author Contribution

Conceptualization: Tae Woo Gim. Investigation: Seok Chan Yoo, Seok Yoon Lee. Writing—original draft: Tae Woo Gim, Jong In Jeong. Writing—review & editing: Tae Woo Gim, Jong In Jeong.

ORCID

Jong In Jeong <https://orcid.org/0000-0002-5082-4476>

REFERENCES

- 1) Mackenzie JJ. Preliminary report on aspergillus mycosis of the antrum maxillae. Johns Hopkins Hospital Bulletin 1893;4:9-10.
- 2) Shin SH. Clinical characteristics and treatment of fungal rhinosinusitis. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54(7):454-61.
- 3) deShazo RD, Chapin K, Swain RE. Fungal sinusitis. N Engl J Med 1997;337(4):254-9.
- 4) Driben JS, Bolger WE, Robles HA, Cable B, Zinreich SJ. The reliability of computerized tomographic detection of the Onodi (Sphenoethmoid) cell. Am J Rhinol 1998;12(2):105-11.
- 5) Loo JL, Looi AL, Seah LL. Visual outcomes in patients with paranasal mucocoeles. Ophthalmic Plast Reconstr Surg 2009;25(2):126-9.
- 6) Jeong JH, Kim TH, Yoo HS, Lee YJ. A case of fungal infection in Onodi cell with visual loss. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52(9):776-80.
- 7) Han YS, Yang CM, Shin JH, Park IK. A case of optic neuropathy caused by fungal ball in an Onodi cell. J Korean Ophthalmol Soc 2014;55(3):426-31.
- 8) Kanski JJ. Clinical ophthalmology. 4th ed. Butterworth-Heinemann: Reed educational and professional publishing;1999. p.590-3.
- 9) Kountakis SE, Maillard AA, Stiernberg CM. Optic neuritis secondary to sphenoethmoiditis: Surgical treatment. Am J Otolaryngol 1995; 16(6):422-7.
- 10) Fukuda Y, Chikamatsu K, Ninomiya H, Yasuoka Y, Miyashita M, Furuya N. Mucocoele in an Onodi cell with simultaneous bilateral visual disturbance. Auris Nasus Larynx 2006;33(2):199-202.
- 11) Awerbuch G, Labadie EL, Van Dalen JT. Reversible optic neuritis secondary to paranasal sinusitis. Eur Neurol 1989;29(4):189-93.
- 12) Akhaddar A, Gazzaz M, Albouzi A, Lmimouni B, Elmostarchid B, Boucetta M. Invasive Aspergillus terreus sinusitis with orbitocranial extension: Case report. Surg Neurol 2008;69(5):490-5.
- 13) Denning DW, Ribaud P, Milpied N, Caillet D, Herbrecht R, Thiel E, et al. Efficacy and safety of voriconazole in the treatment of acute invasive aspergillosis. Clin Infect Dis 2002;34(5):563-71.
- 14) Herbrecht R, Denning DW, Patterson TF, Bennett JE, Greene RE, Oestmann JW, et al. Voriconazole versus amphotericin B for primary therapy of invasive aspergillosis. N Engl J Med 2002; 347(6):408-15.