

접형동 국균증에 의한 실명 치험 1예

경상대학교 의과대학 이비인후과학교실,¹ 연세대학교 의과대학 이비인후과학교실²

권오진¹ · 전시영¹ · 김경수² · 김진평¹

Blindness Secondary to Sphenoid Fungus Ball

Oh Jin Kwon, MD¹, Sea Yuong Jeon, MD¹, Kyung Su Kim, MD² and Jin Pyeong Kim, MD¹

¹Department of Otorhinolaryngology, Gyeong-Sang National University Hospital, Chinju; and

²Department of Otorhinolaryngology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

ABSTRACT

The close vicinity of the optic nerve to the sphenoid sinus may cause visual loss in the sphenoid fungus ball. We present a case of blindness secondary to sphenoid fungus ball without any evidence of orbital invasion in imaging studies. A 61-year-old man, suffering from uncomplicated diabetes, was referred for right visual loss that developed 1 day ago. He perceived hand motion on the right. CT and MRI revealed a fungus ball in the right sphenoid sinus. However, there was no evidence of orbital invasion. Endoscopic sphenoidotomy was performed to remove the fungus ball. Systemic mega-dose steroid and amphotericin B were started because he lost the light perception 3 days after surgery. Biopsy revealed aspergillus fungus ball and no evidence of mucosal invasion. However, blindness was not reversed. Evidence of orbital invasion in imaging diagnosis is elusive in sphenoid fungus ball; therefore, systemic antifungal treatment should be initiated and early endoscopic sphenoidotomy should be performed in case of rapidly progressing visual loss, especially in diabetic or immunocompromised patients. Mega-dose steroid therapy for optic neuropathy should be selective because it may aggravate underlying systemic diseases to cause early termination of systemic antifungal treatment.

KEY WORDS : Blindness · Sphenoid sinus · Fungus ball · Sphenoidotomy.

서 론

국균증은 비침습형 진균성 부비동염으로 상악동에 호발한다. 접형동에 국한된 국균증은 비교적 드문 질환이며 그 임상적 양상도 다른 고립성 접형동 질환에서와 같이 잠행성이며 비 특이적이다. 그러나 해부학적으로 접형동은 안와 및 시신경과 인접해 있으므로, 접형동 국균증에서 시력저하와 같은 시각장애가 초래될 수 있다.¹⁾

시력저하를 동반한 접형동 국균증은 진균감염의 침습 여부를 판단하여 전신적 항진균제의 투여를 신속히 결정하여야한다. 그러나 임상적으로는 그 침습여부를 판단하기가 어렵고, 침습의 확진 없이 전신적 항진균제의 투여를 결정하기는 어렵다. 또한 시력저하의 치료에 사용하는 전신적 대용량

논문접수일 : 2008년 3월 7일 / 심사완료일 : 2008년 6월 30일

교신저자 : 전시영, 660-702 경남 진주시 칠암동 90

경상대학교 의과대학 이비인후과학교실

전화 : (055) 750-8174 · 전송 : (055) 759-0613

E-mail : syjeon@nongae.gsnu.ac.kr

스테로이드는 당뇨와 같은 환자의 기왕증을 악화시키고, 경우에 따라 기회감염의 합병증을 초래할 수 있다.

저자들은 최근 접형동 국균증에 의한 실명 1예를 경험하였기에 접형동 국균증의 진단과 치료에 있어 임상적 우선 순위에 대한 문헌고찰과 함께 그 증례를 보고하고자 한다.

증 례

61세 된 남자 환자로 내원 4일전부터 시작된 두통과 하루 전부터 시작된 우측 시력저하와 복시를 주소로 본원 신경과로 입원하였다. 20년 전부터 당뇨로 치료 중이었으며 신경과로 입원 후 시행한 뇌 자기공명촬영 및 부비동 단층촬영상 우측 접형동에 국한된 진균구로 진단되어 이비인후과로 전과되었다.

환자의 우안은 2 m 거리에서 손의 움직임을 감지할 정도의 시력감소를 보였으며 6번 뇌신경 마비에 따른 복시, 두통 및 안구통 등의 소견을 보였다. 비내시경 소견 상 우측 접

사함요(sphenoethmoidal recess)내 비용 소견과 함께 농성 비루가 관찰되었다(Fig. 1). 뇌 자기공명촬영상 T1 및 T2 강조영상에서 우측 접형동 내에 불균질한(heterogeneous) 신호강도를 보였다. 부비동 단층촬영상 우측 접형동 내에 진균구의 특징적인 부분적 고음영 소견을 보였으며 우측 접형동의 외측벽 침식(erosion) 소견을 보였다. 뇌 자기공명 촬영과 부비동 단층촬영의 조영증강 검사에서 안와 및 해면정 맥동으로의 침습 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2, 3). 일반 혈액검사 상 백혈구 수치는 정상이었으며 급성 감염을 시사하는 백혈구 증가증이나 면역결핍을 시사하는 호중구 감소 증은 보이지 않았다.

술 후 두통은 호전되었으나 시력 및 외안근 마비의 호전 소견은 관찰되지 않았으며 술 후 3일째 우안 시력이 악화되어 빛을 감지 할 수 없을 정도의 감소를 보였다. 이에 술 후 3일째부터 전신적인 항진균제(amphotericin B, 4일간 0.25

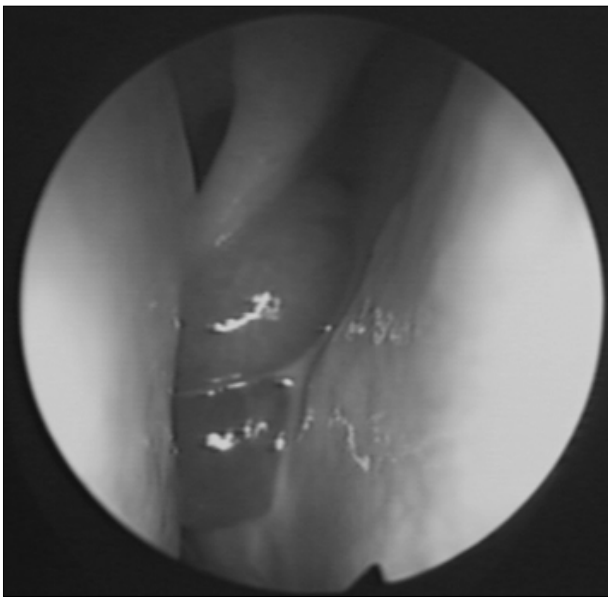


Fig. 1. Nasal endoscopy. Small polyps are localized in the right sphenoethmoidal recess.

mg/kg/day로 투여 후 3일간 0.5 mg/kg/day로 증량 투여 하여 총 162.5 mg 사용) 및 대용량 스테로이드(solumedrol, 2일간 60 mg/Kg/day로 투여 후 6일간 단계적으로 감량) 치료를 시작하였다. 전신적인 항진균제 및 스테로이드 치료를 시작한 다음날 우안 시력은 1 m 거리에서 손의 움직임을 감지할 정도로 호전되었다. 하지만 대용량 스테로이드 치료는 인슐린 치료에도 불구하고 당뇨의 악화를 초래하였으며 치료 시작 7일째 폐렴이 병발하였다. 따라서 폐렴 치료를 위하여 항진균제 및 스테로이드 치료는 중단하였고 항생제를 교체하였다(ciprofloxacin 800 mg/day, i.v., and amikacin 500 mg/day, i.v.).

환자는 이비인후과로 전과된 날 우측 접형동의 진균구를 의심하여 비내시경 수술을 시행하였다. 접형동 내에서 진균구로 의심되는 회갈색의 물질이 관찰되었으며 접형동 내 점막은 염증성 부종 소견을 보였으나 시신경은 노출되어 있지 않았다. 진균구로 의심되는 물질을 완전히 제거한 후 침습형 진균성 감염을 확인하기 위해 접형동 내 점막의 일부를 채취하여 조직검사를 의뢰하였다. 술 후 병리 조직학적 검사 상 국균증으로 진단되었으며 국균의 부비동 점막내로의 침범은 보이지 않았다.

술 후 17일째 폐렴이 완치되어 퇴원하였으며 퇴원 시에 시력은 2 m 거리에서 손의 움직임을 감지할 정도로 호전되었으나 6번 뇌신경 마비는 호전되지 않았다.

외래경과 관찰 중 술 후 43일째 두통의 악화와 함께 빛을 감지할 수 없을 정도로 시력이 악화 되었다. 본원 감염 내과로 입원하여 시행한 뇌 자기공명촬영상 우측 안와 내에 현저한 조영증강을 보이는 침습소견이 관찰되었다(Fig. 4). 이에 항진균제 치료를 다시 시행하였다. Amphotericin B 1 mg/kg로 시작하여 입원 3일째 1.2 mg/kg로 증량 하였으며 입원 15일째 퇴원 시까지 총 1,056 mg을 사용하였으나 증상 호전은 없었다.

환자는 자의에 의해 퇴원한 후 다른 병원에 입원하였다.

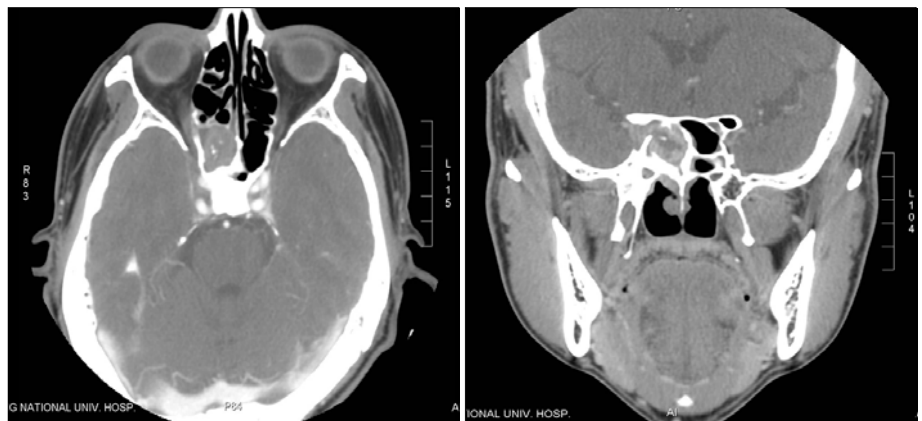


Fig. 2. Preoperative contrast-enhanced CT scan shows sphenoid recess and the sphenoid sinus on the right side are obliterated with opacity and hyperdense foci are localized in the right sphenoid sinus. There is a small bony dehiscence or erosion on the lateral wall of the right sphenoid sinus.

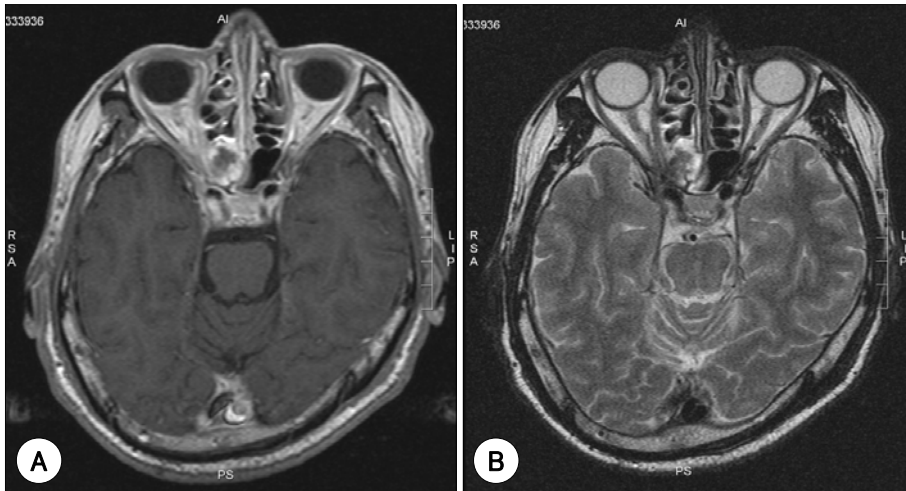


Fig. 3. Preoperative MRI. A : T1-weighted enhancement axial image. B : T2-weighted axial image. The enhancement images show linear mucosal enhancement in the right sphenoid sinus. However, there is no clear enhancement in the orbital apex and the cavernous sinus.

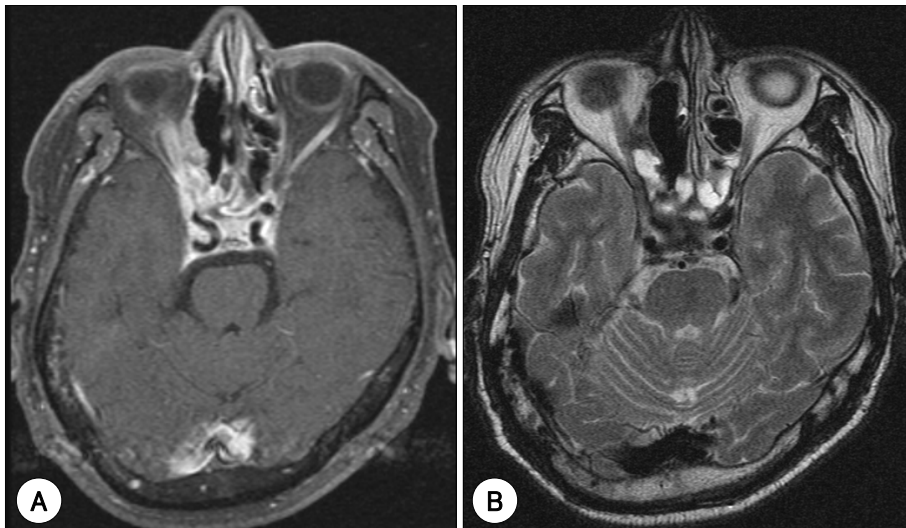


Fig. 4. Postoperative MRI. A : T1-weighted enhancement axial image. B : T2-weighted axial image. T1-weighted enhancement image show ill-defined enhancement into the orbital apex

당시 우안 시력은 빛을 감지할 수 없었으며 좌안 시력도 저하되어 손의 움직임만을 감지할 정도였다. 다른 병원 입원 후 voriconazole 투여(7일간 6 mg/Kg/day로 투여 후 2개월간 경구로 200 mg/day 투여)와 함께 비내시경 수술을 다시 시행 받았다. 수술 시 접형동 내에 진균구를 의심할만한 소견은 관찰되지 않았으며 접형동 점막의 병리 조직학적 검사 상 만성 비 특이적 염증으로 진단되었다. 퇴원 후 2개월간의 voriconazole 투여 종료 후 좌안 시력은 이전 수준으로 회복되었으나 우안 시력은 회복되지 않고 실명으로 판정되었다.

고 찰

진균구는 침습형 질환이 아니다. 하지만 면역 결핍자에게는 급성 침습형 질환으로 진행할 수 있다. 진균구가 신장 이식술 이후 면역기능이 저하된 경우에서 침습형으로 전환된

예가 보고된바 있다.²⁾ 침습형 진균성 부비동염에서 치료 시작 시점은 아주 중요하다. 침습형 여부를 조기에 의심 및 진단하여 가능한 빨리 그에 적합한 치료를 시작하는 것이 침습형 진균성 부비동염 치료의 목표이다.³⁾ 침습 여부를 진단하기 위한 초기 단계에서 우선시 되어야 할 점은 침습형 감염의 발병 가능성이 높은 환자 군을 파악하는 것이다. 기본적으로 발병 가능성이 높은 군은 면역기능이 저하된 군이다. AIDS, 혈액암, 장기 이식, 조절되지 않는 당뇨 등에 의해 호중구 기능이 저하된 군에서 발병하기 쉽다. 500 cells/mL 이하의 절대 호중구 수치는 침습형 진균성 부비동염 발병과 밀접한 관련성이 있다고 보고되고 있다.⁵⁾ 저자가 치험한 예에서는 입원당시 당뇨는 잘 조절되고 있는 상태였으며 절대 호중구 수치도 정상범위였으므로 환자의 면역기능은 정상이라고 생각된다.

접형동내 진균구는 아주 드물며 증상 또한 비 특이적이다.¹⁾ 하지만 해부학적으로 시신경과 인접하여 시력저하와 같

은 시각장애를 초래할 수 있다. 고립성 접형동 질환에 의해 병발된 6명의 복시 환자 중 3명이 국균증 감염이었다는 보고도 있다.⁶⁾ 본 증례는 증상이 없었던 접형동내 진균구가 침습형으로 진행되면서 두통과 함께 급격하게 시력저하 및 6번 뇌신경 마비를 유발한 경우라고 생각된다. 접형동내 진균구에서 급격한 시력감소를 보인다면 침습형으로의 진행 여부를 반드시 의심해 보아야할 것으로 생각된다.

침습형 진균성 부비동염에서의 부비동 단층촬영 소견은 비 특이적이며 수술 및 병리학적 소견과도 잘 일치하지 않는다.³⁾ 자기공명촬영이 단층촬영보다는 안와 및 두개 내로의 침습 여부를 확인하기에 우수하다. 침습형 진균성 부비동염 환자의 12%에서 부비동 단층촬영상 정상 소견을 보였다는 보고도 있다.⁵⁾ 본 증례에서는 부비동 단층촬영 및 자기공명촬영 상 전형적인 우측 접형동내 진균구 소견을 보였으며 우측 접형동의 외측벽 침식 소견을 보였으나 안와 및 해면정맥동으로의 침습 소견은 관찰되지 않았다. 하지만 시력 저하가 다시 발생한 후 촬영한 자기공명촬영 상 우측 안와내로 조영증강이 보이는 현저한 침습소견이 관찰되었다.

진균구의 치료는 수술적인 방법이 주된 치료이다. 즉 진균구를 완전 제거하여 부비동의 환기와 배액을 원활하게 해주는 것이다. 진균구와는 달리 침습형 진균성 부비동염의 경우는 수술 후 항진균제 치료의 전신적 투여 요법이 필요하다. 침습형 진균성 부비동염이 의심된다면 조기에 적극적인 비내시경 수술을 통해 부비동 내 점막의 광범위한 절제가 필요하다. 그리고 절제한 점막은 병리학적 검사를 통해 침습 여부를 증명할 필요가 있다. 침습형 진균성 부비동염의 확진은 병리학적으로 침습 여부를 확인함으로써 이루어진다. 만일 술 후에 침습형 진균성 부비동염이 잔존한다고 생각되면 48시간에서 72시간 내에 재수술이 시행되어야 한다.⁵⁾ 본 증례에서는 비내시경 수술을 통해 접형동내 진균구는 제거하였으나 점막은 보존하였다. 하지만 술 후 3일째 시력은 악화되어 빛을 감지 할 수 없을 정도의 감소를 보였다. 그러므로 접형동 진균구로 인한 진행성 시각장애가 있는 경우 비내시경 수술과 동시에 항진균제 치료가 이루어져야 하며, 술 후 호전이 없는 경우 재수술을 시행하여 부비동내 모든 점막을 제거하여 병리학적으로 진균의 침습 여부를 확진하여야 한다고 생각된다. 본 증례와 유사하게 비내시경 수술 후 시각장애가 악화된 접형동 진균구 환자에게서 술 후 스테로이드 치료 없이 항진균제 치료만을 시행하여 시각장애가 회복된 예가 보고된바 있다.⁴⁾

복시 및 시각장애를 호소하며 자기공명촬영상 안와의 조영증강을 보이거나 조직검사상 만성 염증 소견을 보이는 경우 Tolosa-Hunt syndrome 역시 감별해주어야 한다.^{7,8)} 본 증

례에서는 접형동내에서 aspergillus가 동정되었고 72시간 이상의 스테로이드 치료에 반응을 하지 않은 점과 퇴원 후 시력이 다시 악화되었을 때 다른 병원에서 시행한 항진균제 치료에 반응을 보인 점을 미루어 볼 때 Tolosa-Hunt syndrome일 가능성은 적다고 생각된다.

침습형 진균성 부비동염 병발의 또 다른 위험 요소는 장기간의 스테로이드 사용과 2주 이상의 전신적인 항생제 사용이다.⁵⁾ 본 증례에서 항진균제와 함께 전신적 항생제 치료를 위한 전신적인 대용량 스테로이드 치료를 병행하였고 이는 환자의 당뇨를 악화시켰고 결과적으로 폐렴을 유발시켰다. 즉, 전신적인 대용량 스테로이드 치료는 환자의 기저 질환을 악화시키거나 기회 감염을 유발함으로써 항진균제 치료 경과에 악 영향을 미칠 수 있다. 본 증례에서도 항진균제 치료는 폐렴으로 인해 조기 종결되었고 결과적으로 불완전 완치와 재발을 유발하였다.

본 증례가 시사하는 바는 다음과 같다. 방사선학적 소견만으로 진균성 부비동염의 침습 여부를 확인하기는 매우 어려우며, 당뇨나 면역 결핍 환자에서 급격한 진행성 시각 장애가 있는 경우 침습형 진균성 부비동염에 준하여 치료를 시작해야한다고 생각된다. 치료는 비내시경 수술과 함께 항진균제 치료가 조기에 신속히 이루어져야 하며 대용량 스테로이드 치료는 환자의 기왕력에 따라 신중히 선택해야 되리라 생각된다.

중심 단어 : 실명 · 접형동 · 국균증 · 접형동사골동절제술.

REFERENCES

- 1) Sung BG, Jeon SY, Kim JP, Ahn SK, Park JJ, Jeong JH. Clinical Analysis of Isolated Sphenoid Sinus Lesion. *J Rhinol* 2005;12:97-100.
- 2) Gungor A, Adusumilli V, Corey JP. Fungal sinusitis: progression of disease in immunosuppression-a case report. *Ear Nose Throat J* 1998; 77:207-10.
- 3) Ferguson BJ. Definitions of fungal rhinosinusitis. *Otolaryngol Clin North Am* 2000;33:227-35.
- 4) Kim CH, Cho MJ, Kim HJ, Ahn JH. A case of optic neuritis secondary to fungal sphenoid sinusitis. *Korean J Otolaryngol* 2004;47:594-7.
- 5) Gillespie MB, O'Malley BW. An algorithmic approach to the diagnosis and management of invasive fungal rhinosinusitis in the immunocompromised patient. *Otolaryngol Clin North Am* 2000;33:323-34.
- 6) Lee LA, Huang CC, Lee TJ. Prolonged visual disturbance secondary to isolated sphenoid sinus disease. *Laryngoscope* 2004;114:986-90.
- 7) Mora-de-Oriate J, Pascual-Perez-Alfaro R, Izquierdo-Vazquez C, Gonzalez-Ruiz M, Aguirreberia-Olmos A, Diez-Villalba R. Painful ophthalmoplegia (pseudotumor of orbit and Tolosa-Hunt syndrome). *Arch Soc Esp Oftalmol* 2007;82:509-12.
- 8) Marcet MM, Yang W, Albert DM, Salamat MS, Appen RE. Aspergillus infection of the orbital apex masquerading as Tolosa-Hunt syndrome. *Arch Ophthalmol* 2007 Apr; 125 (4) :563-6.