

골반 방선균증

- 1 예 보고 -

순천향대학병원 해부병리과

김 대 중 · 진 소 영 · 이 동 화

=Abstract=

Pelvic Actinomycosis

- A case report -

Dae Joong Kim, M.D., So Young Jin, M.D., and Dong Wha Lee, M.D.

Department of Anatomical Pathology, Soonchunhyang University Hospital, Seoul

Actinomycosis involving the female genital tract has increased since the advent of the intra-uterine contraceptive devices (IUD): the incidence of actinomycosis in IUD users with pelvic inflammatory disease (PID) was reported to be between 17% and 30%. However, a definite relationship between actinomycosis and PID has not been demonstrated as yet.

We present a case of pelvic actinomycotic infection that was initially diagnosed by means of fine needle aspiration. A 57-year-old female presented with urinary frequency and difficulty for 10 days. Computerized tomographic findings showed a mixed heterogenous soft tissue mass in the left superior aspect of urinary bladder. Fine needle aspiration was done under the impression of urinary bladder cancer. Microscopically, smears disclosed many sulfur granules in necrotic background with many neutrophils, histiocytes, multinucleated giant cells and granulation tissue. These findings were confirmed by surgical removal of the mass.

Key words : Fine needle aspiration, Intrauterine device, Actinomycosis

서 론

1878년 Israel¹⁾에 의해 처음으로 인체 방선균증이 보고된 이래 골반내 방선균증은 IUD의 사용증가로 인하여 빈도가 증가하고 있으며, IUD와 관련된 골반감염증 중에서 가장 문제가 되고 있는 원인의 하나이다. 특별한 증상이 없는 IUD의 사용자중 자궁경 및 질도말에서 약 3% 정도의 방선균이 관찰되는 것으로 보고되어 있고²⁾ 이는 IUD가 자궁내막에 손상을 주어 방선균이 쉽게 집락을 형성할 수 있는 환경을 만들기 때문이다³⁾.

방선균증의 원인은 *A. israelii*가 대부분을 차지하며 드물게 *A. bovis*, *A. propionicus* 등도 보고되고 있다⁴⁾. *A. israelii*는 혐기성의, Gram 양성인 항산균으로서, 구강과 소화기에서는 정상적인 상주균이지만 질내에서는 정상적인 상주균이 아니다. 감염시에도 거의 대부분이 임상적으로 증상이 없으나 자궁내경관염, 자궁내막염, 난관난소염의 원인이 되며⁵⁾ 그 외 임상양상으로는 복부골반의 농양⁶⁾, 방선균성 농흉, 뇌농양 등의 소견을 보인다.

방선균증은 침범부위에 따라 두안부형, 흉부형, 복부형으로 분류하며 Robbin⁷⁾, Miller와 Wright⁸⁾에 의하면 두안부형이 가장 많고 Duncan⁹⁾, Harvey 등¹⁰⁾에 의하면 복부형이 가장 흔한 것으로 보고 하였다.

병리학적으로는 농무를 형성하는 화농성 병변이 특징이며, 농에서 "sulfur granule"을 육안적 그리고 현미경적으로 증명함으로써 진단에 도움이 되며, 전 세계적으로 많은 보고가 있으나 국내에서는 그 보고예가 드물고, 특히 본 예는 세침흡인 세포검사로 진단된 첫 예이다. 따라서 저자들은 최근에 골반내 연부조직에서 세침흡인 세포검사로 진단하고, 수술로 얻어진 조직소견으로 확진한 골반 방선균증 1 예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자는 39세 여자로서 약 10일전부터 발생한 빈뇨와 배뇨곤란을 주소로 내원하였다. 약 10년전부

터 IUD를 사용한 것 이외에는 특이사항은 없었다. 이학적 소견상 하복부에 연부종괴가 촉지되었고, 이 종괴에 의해 자궁은 커져있었으나 좌우 부속기는 정상이었다. 방광경상 방광의 천장에 종창이 관찰되었다. 골반 전산화단층촬영 소견상 자궁의 전상부 및 방광의 상부 전측부에 걸쳐서 연부종괴 소견이 관찰되었고, 크기는 4.5×4×4cm이며 주위 조직과 불분명한 외장성 종괴였다.

방광암의 진단하에 종괴로부터 세침흡인 세포검사를 하였다. 현미경 소견상 급성염증세포, 거대다핵세포, 그리고 조직구가 괴사물질을 배경으로 하여 과밀도로 관찰되어 농양의 소견을 보였다. 염증세포, 섬유아세포, 그리고 모세혈관으로 구성된 육아조직과 크기가 다양한 filamentous form의 방선균의 집락이 다수 관찰되었으며, 이러한 집락은 PAS염색에 양성반응을 보였다.

방선균증 진단하에 종괴를 포함한 방광의 부분절제술, 부분대장절제술, S장 결장의 분절절제술을 시행하였다. 종괴는 주로 방광의 좌측 천정부위의 외벽에 위치하였으며, 크기는 7.5×4×2cm이었으며 경계는 불확실하고 표면은 매우 불규칙하였다. 절단시 황회색으로서 섬유화소견과 함께 부분적으로 농양을 형성하는 소견을 보였다. 방광벽은 매우 두꺼워져 있었으며 장막에 화농성의 삼출물이 피복되어 주위 대장에 유착이 심하였으나 자궁은 정상이었다. 현미경 소견상 방광 외벽의 종괴는 다수의 백혈구로 구성된 화농성의 병소로 구성되어 있었으며 육아조직을 형성하는 농양의 소견을 보이면서 방광의 근육층까지 침범하였으며, 농양의 중심부위에서 난원형의 방선균의 집락이 관찰되었다. 이 방선균의 집락은 호산성으로 염색된 방사상 배열을 보이며 곤봉모양을 보였다. S장 결장의 장막과 대장은 농양소견을 보였으나 방선균은 관찰되지 않았다.

고 찰

방선균증은 20~30대의 젊은 층의 남자에서 주로 발생하며 증상으로 미열, 식욕부진 등의 미약한 전신적 반응이 있으며, 질병이 과급되면 급성 전신반

응, 체중감소, 빈혈 등의 증상을 보이는 질환으로서, 침범되는 장기에 따라 증상이 다르며 지금까지 많은 예가 보고되어 있다. 방선균증은 발병장소에 따라 경안부형, 흉부형 및 복부형으로 구분하며 저자에 따라서는 이차적으로 간장, 척수, 신장, 뇌실질, 생식기, 비장, 피하조직등을 침범하는 범발형을 추가하기도 한다¹¹⁾. 1950년대 이전까지는 경안부형이 63%로 가장 많았으나 그 후 penicillin의 영향으로 복부형이 63%로 증가되었으며, 여러 저자들에 의하여 다양하게 보고되고 있다¹⁰⁾. 특히 여성생식기에 있어서 방선균의 감염은 1960년대 초기에 IUD가 인구억제 수단으로 널리 사용됨으로써 빈도가 증가하고 있으며, IUD의 종류에 상관없이 장기간 사용할수록 감염율이 증가한다고 보고되고 있다²⁾ 일반적으로 IUD를 과거에 사용한 경력이 있거나 현재 사용중인 환자는 월경장애, 질감염의 빈도증가, 그리고 골반의 염증성 질환이 동반될 수 있으며, 장기간 사용할 때에는 배타-용혈성 연쇄상구균과 대장균에 의해 중요 합병증의 하나인 패혈증까지 병발될 수 있다²⁾. 1985년 Nayar등²⁾은 특별한 증상이 없는 IUD의 사용자 350명 중 자궁경 및 질도말에서 방선균이 약 3%정도 관찰되었으며, 이들에게는 골반 방선균증이 발생할 가능성이 높다고 보고하였다. IUD와 관련된 방선균증에 의한 골반 염증성 질환의 원인으로서 IUD 사용에 대하여 많이 보고되어 있으며^{12,13,14)}, IUD를 사용하는 골반 염증성 질환의 환자에서 방선균의 빈도는 17~30%로 보고되고 있다^{13,14)}. 1978년 Bhagavan과 Gupta¹²⁾는 부인과에 방문한 IUD 사용자의 자궁경 및 질도말에서 약 25% 정도에서 방선균을 관찰하였다.

세침흡인검사로 골반내 방선균증의 진단된 예는 국내에서는 보고된 바 없고, 외국잡지에서는 1984년 Lininger등¹⁵⁾이 10년전부터 IUD를 시행한 40세 여성에서 발생한 방선균에 의한 골반내 농양을 보고한 1예가 있고, 그 후 1987년 Shurbaji등¹⁶⁾은 43세 여성에서 간의 방선균증을 보고하였고, 1990년에 Kumar등¹⁷⁾은 55세 남자환자에서 서혜부의 방선균증을 1예 보고하였다. 본 질환의 발병기전에 대하여는 외부로부터 인체내로 침입하여 발생된다고 생각

하는 Bostroem¹⁸⁾의 외인성 가설과 균의 특성상 동물이나 인체의부에 천연적으로 존재하지 않고 오직 인체 체온하에서만 발육이 잘되는 혐기성 균체라는 Wolff와 Israelii의 내인성 가설이 있다. 그 후 구강, 편도선, 충치, 기도, 장관등에도 정상적으로 존재하는 것이 확인되어 내인성으로 감염된다는 설이 확인되었다¹⁹⁾. 정상적으로 존재하는 방선균이 조직의 손상이나 염증반응이 있을때 심부조직으로 침입하게 되며, 유발요인을 살펴보면 충치, 발치, 편도선 손상, 장천공, 편도선 손상, 천공성 충수염등이 있다.

방선균의 병소는 염증반응, 조직괴사 및 섬유화가 있으며 육아종성 반응보다 화농성 병변이 더욱 현저하며 많은 미세 농양과 농루가 형성된다²⁰⁾. 농양내에는 특징적인 무정형의 sulfur granule이 존재하며 이 과립의 중심부는 그림양성인 미세한 균사상체로 구성된다. 이 granule의 변연부에서 평형으로 방사되는 수지상돌기가 관찰되며 이들은 대부분 근봉모양을 보이며 H-E염색에서 호산성으로 염색이 된다. 이들 sulfur granule의 주위에는 많은 백혈구와 함께 임파구, 단핵구, 형질세포, 조직구등이 산재하고 있다. 특수염색으로는 PAS염색, Gram염색, methenamine-silver 염색등을 이용하여 비교적 용이하게 진단할 수 있다.

방선균증은 악성종양과 유사한 임상소견을 보일 수 있으며²¹⁾ 본증례도 수술전 임상진단은 방광암이었으며 세침흡인세포검사를 시행한 후에 골반내 방선균증으로 진단되었다. 본 증례는 국내에서 세침흡인 세포검사로 진단된 첫 예이며, 이 균체의 특징적인 형태학적인 소견으로 세침흡인 세포검사만으로 진단할 수 있으나 간혹 간균 혹은 구균성 세균의 집락으로 구성된 botryomycosis, 다양한 진균, 그리고 소위 pseudosulfur granule과 감별이 필요하다. 이들과는 균체의 형태와 염색상의 특성으로 용이하게 감별할 수 있다²¹⁾.

결 론

저자들은 최근에 골반내에서 발생한 방선균증을 세침흡인 세포학적 검사로 진단하여 조직절제후에



Fig. 1. Computerized tomography showing a mixed heterogenous soft tissue mass in the left superior aspect of urinary bladder, measuring 5.9×4.5 cm in size.

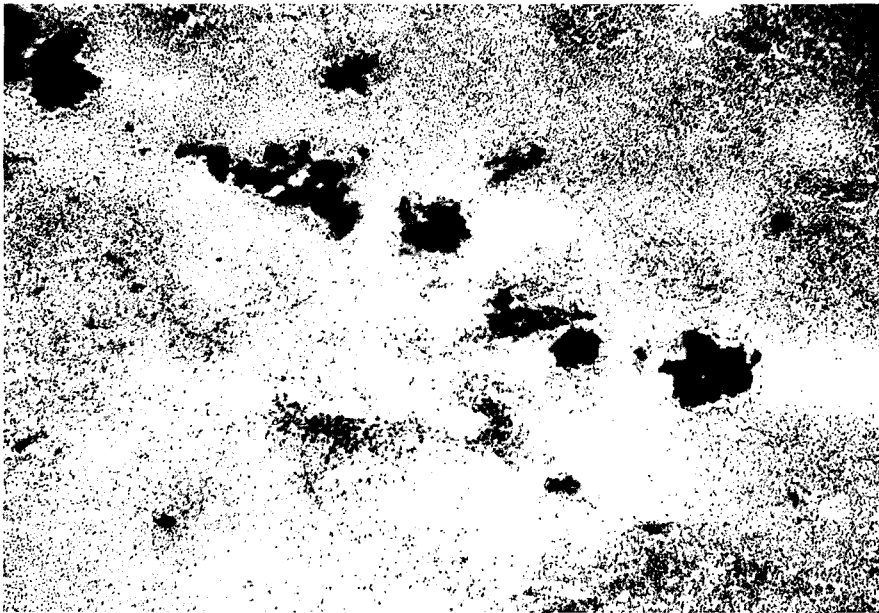


Fig. 2. FNA of suppurative abscess containing many numbers of sulfur granules and granulation tissue (H-E, ×40).

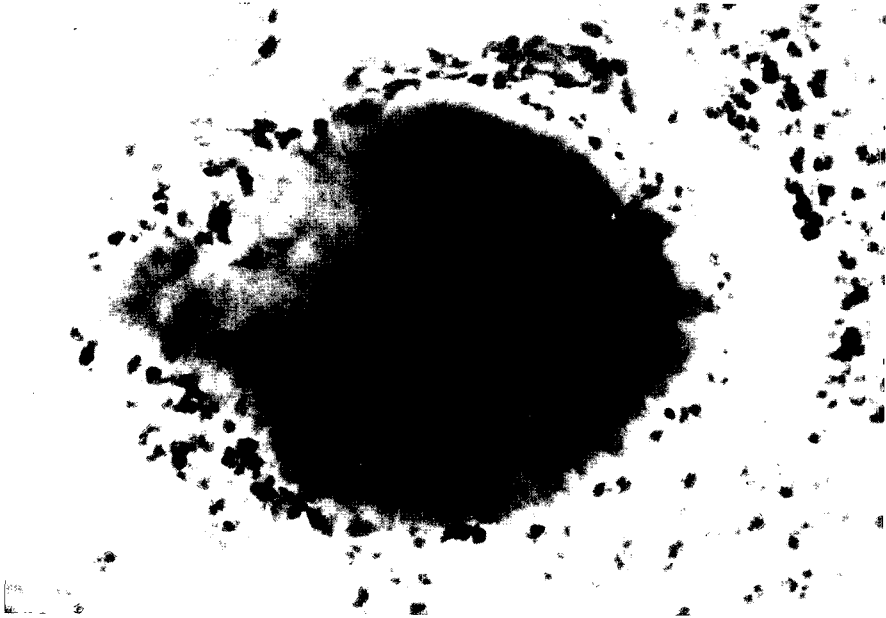


Fig. 3. FNA of a typical actinomycetes colony surrounded by granulocytes and peripheral palisading mycelia (H-E, $\times 400$).

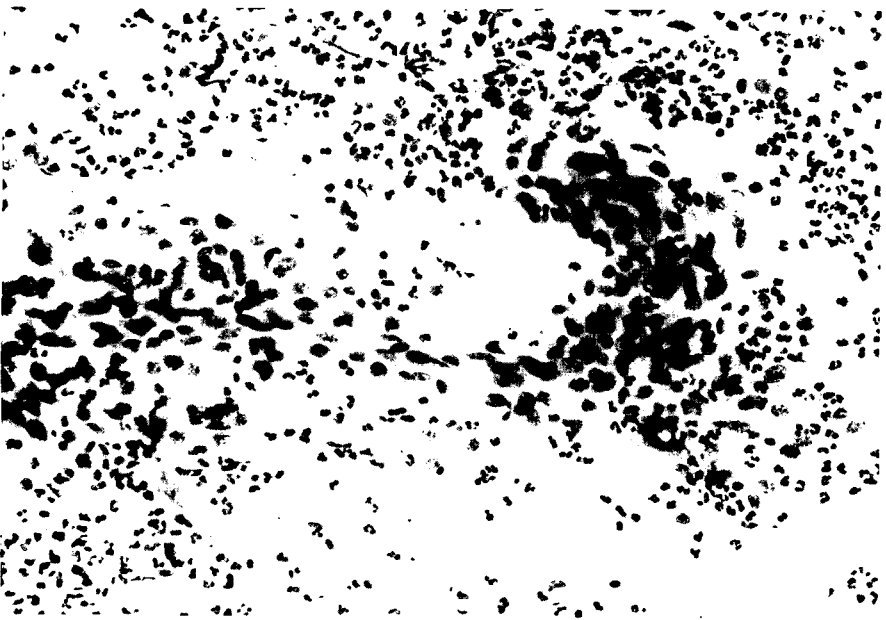


Fig. 4. FNA of a sheet of young fibroblasts in the suppurative background (H-E, $\times 200$).

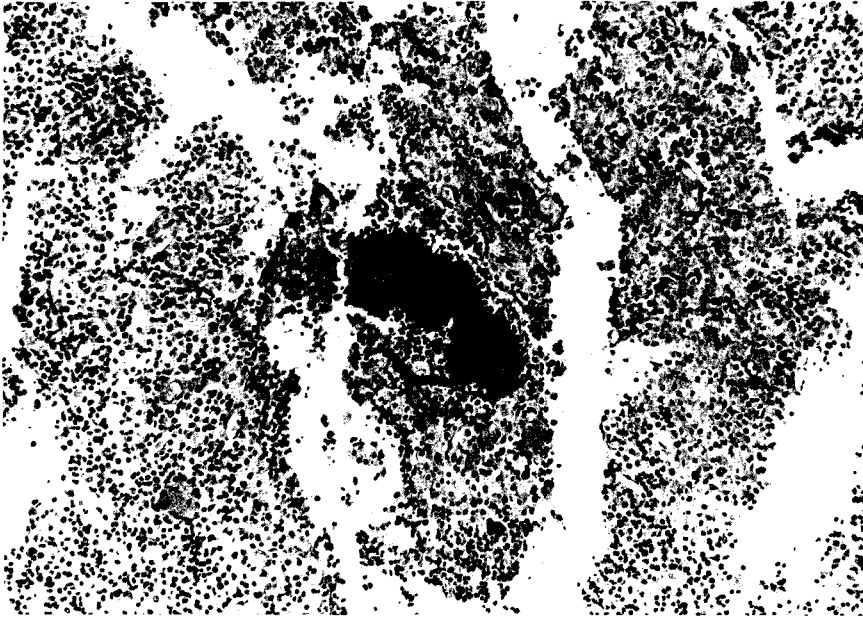


Fig. 5. Histologic finding reveals abscess containing a sulfur granule (H-E, $\times 100$).

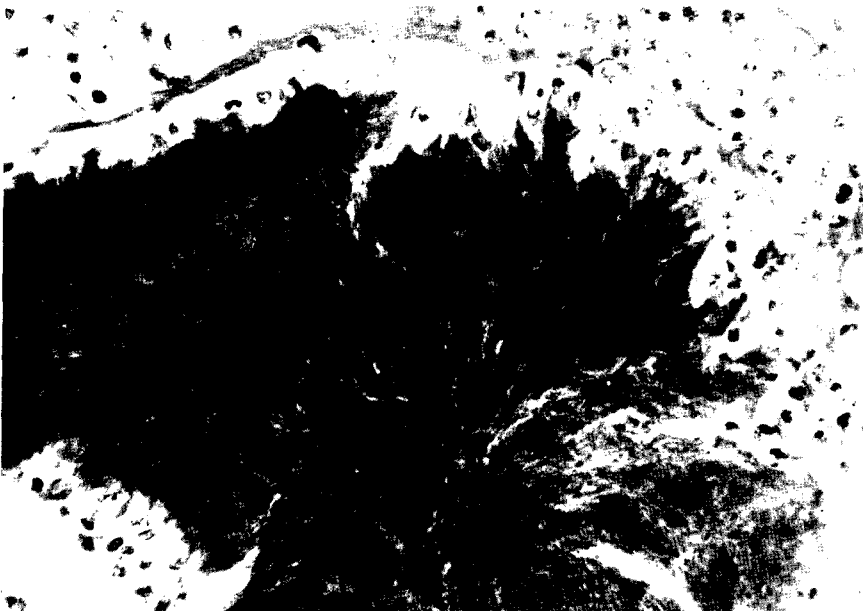


Fig. 6. Histologic finding reveals a portion of actinomycetic colony with PAS-positive radiating mycelia at the periphery (periodic acid-S hiff, $\times 400$).

확진하였기에, 도말표본의 광학현미경적 소견 및 문헌고찰을 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Israel J : Neue Beobachtungen auf den Gebiete der Mycosen des Menschen. *Virchows Arch Pathol Anat* 74 : 15-53, 1878
2. Nayar M, Chandra M : Incidence of actinomycetes infection in women using intrauterine contraceptive devices. *Acta Cytol* 29 : 111-116, 1985
3. Kanbour A, Harger J, Ryan J, Klionsky : The significance of the presence of actinomycetes in Paopanicol-aou smears of IUD users. *Acta Cytol* 24 : 76-77, 1980
4. Harrison TR : Principles of internal medicine. McG-McGraw-Hill Kogakusha, Tokyo, 8th ed 1977, pp 938-939
5. Yoonessi M, Crickard K, Cellino IS, Satchidanand SK : Association of actinomyces and intrauterine contraceptive devices. *J Reprod Med* 30 : 48-52, 1985
6. Adachi A, Kleiner GJ, Bezahler GH : Abdominal wall actinomycosis associated with an IUD. A case report. *J Reprod Med* 30 : 145-148, 1985
7. Robbins SL : Pathologic basis of disease, 2nd ed, Philadelphia, WB Saunders Co. 1979. pp 455
8. Miller BJ, Wright JL : Some etiologic concepts of actinomycosis of great omentum. *Surg Gynec Obstet* 146 : 412-414, 1978
9. Duncan JA : Abdominal actinomycosis : Changed concept *Am J Surg* 110 : 148-152, 1965
10. Harvey JC, Cantrell JR, Fisher AM : Actinomycosis : Its recognition and treatment. *Ann Int Med* 46 : 868-885, 1957
11. Coodley EL : Actinomycosis : Clinical diagnosis and management. *Postgrad Med* 46 : 73-78, 1969 .
12. Bhagavan BS, Gupta PK : Genital actinomycosis and intrauterine devices : Cytopathologic diagnosis and clinical significance. *Hum Pathol* 9 : 567-578, 1978
13. Burkman R, Schlesselman S, McGaffrey L, Gupta PK, Spence M : The relationship of genital tract actinomycetes and the development of pelvic inflammatory disease. *Am J Obstet Gyneco* 143 : 585-589, 1982
14. Duguid HL, Parratt D, Traynor RT : Actinomycetes-like organisms in cervical smears from women using intrauterine contraceptive devices. *Br Med J* 281 : 534-541, 1980
15. Lininger JR, Frabe WJ : Diagnosis of pelvic actinomycosis by fine needle aspiration. A case report. *Acta Cytol* 28 : 601-604, 1984
16. Shurbaji MC, Gupta PK, Newman MM : Hepatic actinomycosis diagnosed by fine needle aspiration. *Acta Cytol* 31 : 751-755, 1987
17. Kumar PV, Javid SA, Beddayat GR, Amrollahi A : An unusual case of actinomycosis diagnosed by fine needle aspiration cytology. *Acta Cytol* 34 : 908-910, 1990
18. Bostroem E : Untersuchungen uber die Aktinomykose des Menschen. *Beitr Z Path Anat Allg Path* 9 : 1-240, 1891
19. Slack JM and Gereneser MA : Revision of serological group of actinomyces. *J Bacteriol* 91 : 2107, 1966
20. 진송자, 이정길, 김춘원 : 간과 대망에 발생한 방선균증 1예. *대한병리학회지* 13 : 303-307, 1979
21. Spagnulolo PJ, Fransioli M : Intrauterine device-associated actinomycosis simulating pelvic malignancy. *Am J Gastroenterol* 75 : 144-147, 1981
22. Gupta PK : Intrauterine contraceptive devices : Vaginal cytology pathologic changes and clinical implications. *Acta Cytol* 26 : 571-613, 1982