

토혈과 원통 모양의 토물을 주소로 내원한 *Trichosporon beigelii* 식도염 1례

대구효성가톨릭대학교 의과대학, 소아과학교실, ¹흉부외과학교실,
²임상병리학교실, ³병리학교실

박은정 · 황진복 · 안옥수¹ · 전창호² · 김용진³

A Case of *Trichosporon beigelii* Esophagitis Presenting Hematemesis with a Large Amorphous Material

Eun Jung Park, M.D., Jin-Bok Hwang, M.D., Wook Su Ahn, M.D.¹
Chang Ho Jun, M.D.² and Yong-Jin Kim, M.D.³

Department of Pediatrics, ¹Chest Surgery, ²Clinical Pathology and ³Pathology,
Catholic University of Taegu-Hyosung School of Medicine, Taegu, Korea

We experienced a case of *Trichosporon beigelii* esophagitis in a 16-month-old boy who was presented with hematemesis with a large amorphous material. A spit-out material was silky, 10×1.2 cm in size and like a part of hollow viscus organ. Emergent gastrofiberscopy revealed that this silky material was teared up from upper and to lower esophagus and was threw with hematemesis. It was suggested that pseudomembrane on esophagus was peeled off followed by mucosal bleeding. Pathologic study revealed this material was pseudomembrane with esophageal mucosa of *T. beigelii* esophagitis and was teared at lamina propria level from submucosa. (**J Korean Pediatr Gastroenterol Nutr 1999; 2: 74~79**)

Key Words: *Trichosporon beigelii*, Esophagitis, Hematemesis, Gastrofiberscopy

서 론

식도 진균증은 장기간의 항생제나 스테로이드, 장기 이식 수술에 따른 면역 억제제, 항암제의 사용이나 후천성 면역 결핍증 등과 같은 면역 기능이 억제되는 경우에 호발하며, 현재 이러한 영역의

소아 환자가 급증함에 따라 그 발병 빈도가 증가되고 있다. 특히, 진단적 예민도가 가장 높은 상부 위장관내시경 기술이 소아는 물론 어린 영유아에서도 확대됨에 따라 그 진단율 또한 높아지고 있다¹⁻³⁾.

식도 진균증은 면역 기능이 저하된 것으로 판단되는 심각한 원발 질환과 함께 연하 곤란, 연하통 등의 식도 증상을 보이거나, 이러한 환자의 입안에서 아구창이 관찰되면 의심할 수 있다²⁾. 그러나, 면역 결핍의 뚜렷한 병력이 부족하거나, 흉통, 상복부 통증, 구토, 토혈 등 비특이적이며 다양한 임상 증상으로 발현되기도 하여 진단을 위한 임상적

접수 : 1998년 7월 15일, 승인 : 1998년 9월 8일
책임저자 : 황진복, 705-718, 대구시 남구 대명4동 3056-6번지
대구효성가톨릭대학병원 소아과학교실
Tel: 053) 650-4237, Fax: 053) 623-7507

실마리를 얻는데 혼란을 겪을 수 있다^{3~5)}.

저자들은 토혈과 생체 조직으로 보이는 원형 토물을 주소로 내원한 16개월된 소아에서 응급 상부 위장관내시경 검사를 이용하여 토혈과 가막성 토물이 식도에서 유출되었다는 것을 확인하고, T 림프구의 일시적인 면역 기능 이상 소견을 보이면서 조직 병리 검사를 통하여 드문 원인균인 *Trichosporon beigeli*에 의한 진균성 식도염으로 진단된 1례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 박 ○○, 남아, 16개월

주 소: 선홍빛 토혈과 함께 배출된 원통형 토물

과거력 및 가족력: 재태연령 40주, 출생체중 2800 g로 출생력상 특기할 소견이 없었으며, 생후 4개월경 요로 감염으로 입원 가료한 병력이 있었으나, 이후 반복되는 감염의 병력은 없었다. 최근 제산제, H₂ 길항제, Omeprazole 등의 약물 복용력은 관찰되지 않았다. 가족력상 특기할 사항은 관찰되지 않았다.

현병력: 환아는 최근 2개월여동안 식욕부진, 잦은 보챌이 있었고, 체중이 생후 3개월에 7 kg (50 percentile), 6개월에 8.4 kg (50 percentile), 16개월에 9 kg (10 percentile)으로 성장 부전을 보였다. 최근 4~5일 동안 구토, 보챌 증세를 보였으며, 개인 병원을 방문하여 약물 치료를 받던 중 내원 2시간 전 약 50 cc의 선홍빛 토혈과 함께 10×1.2 cm 크

기의 원통형 토물(Fig. 1)이 있어 응급실을 내원하였다. 토물은 기생충학교실에서 관찰한 바 인체의 기생충은 아니며 변성된 생체 조직으로 추정된다는 소견을 보고받았다.

이학적 검사: 내원 당시 혈압 90/60 mmHg, 체온은 36.6°C, 맥박수 130회/분, 호흡수 30회/분였으며, 환아는 다소 처진 모습으로 오랫동안 아파 보였으며, 가벼운 탈수 소견을 보였고 구강 내에는 궤양, 아구창 등 특기할 병변이 관찰되지 않았다. 복부는 다소 팽만되어 보였으나 부드럽게 촉지되었으며 압통을 호소하는 부위는 관찰되지 않았고, 간비종대는 촉지되지 않았다. 림프절 종대, 부종도 관찰



Fig. 1. Vomitus looks like hollow viscus organ, measuring 10 cm in length and 1.2 cm in width. It was proved as degenerated squamous epithelium.

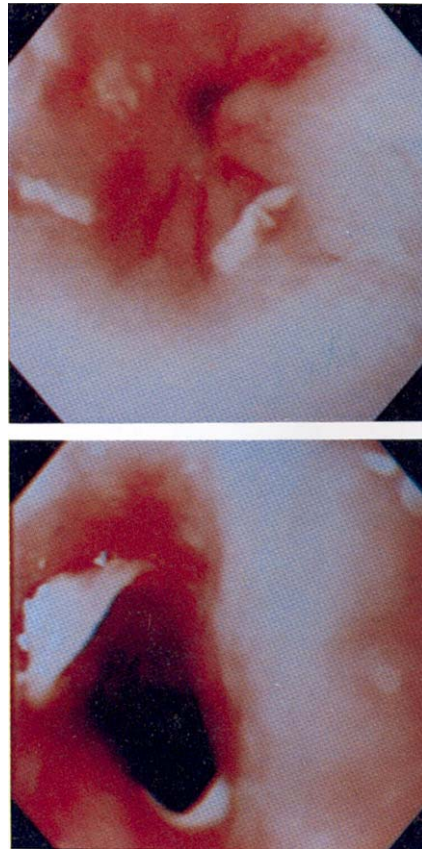


Fig. 2. Esophagoscopic examination shows that silky material was teared up from upper and to lower esophagus and was threw with hematemesis by mucosal bleeding.

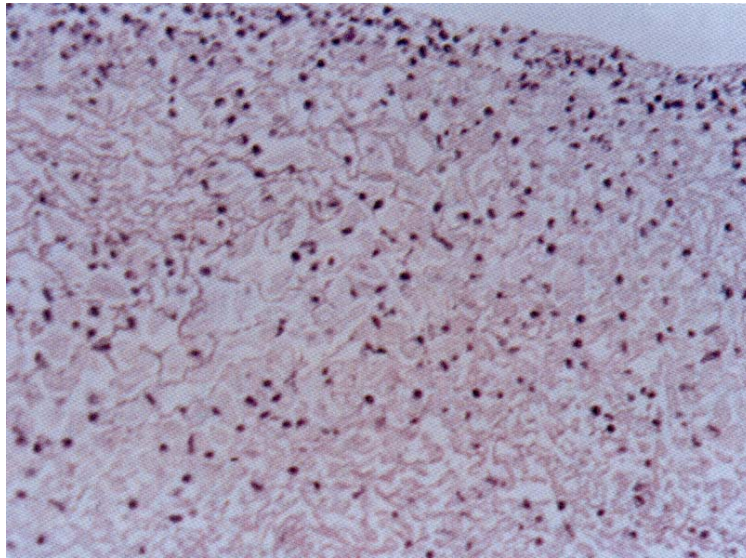


Fig. 3. Light microscopic examination of vomitus shows degenerated squamous epithelium of esophagus. Cellular outlines are still visible but nuclei are pyknotic. Inflammatory cells are superimposed (H&E, $\times 400$).

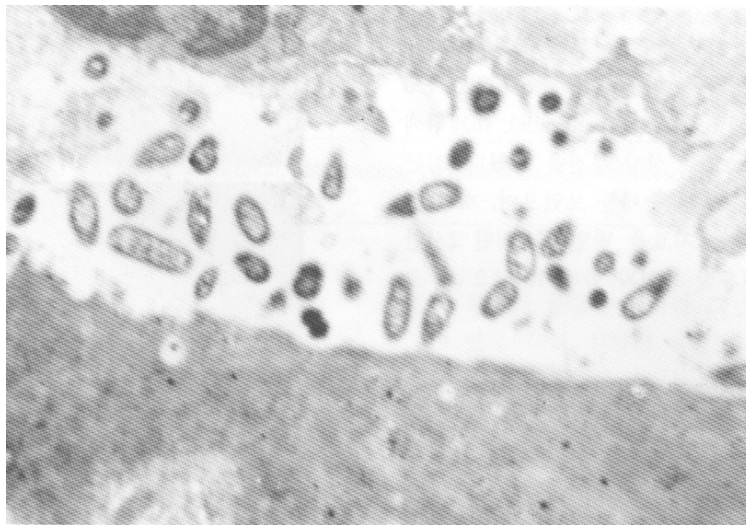


Fig. 4. Electronmicroscopically, numerous rod-like bacilli are in the necrotic exudate on the surface of esophageal mucosa(Uranyl acetate & lead nitrate, $\times 7,000$)

되지 않았다.

검사 소견: 내원 당시 시행한 검사소견상 말초혈액검사에서 혈색소 10.5 g/dl, 적혈구 용적치 31.5%, 백혈구 29,100/mm³ (호중구 46%, 림프구 39%), 혈소판수 316,000/mm³ 이었으며, 프로트롬빈 시간 12초, 부분 트롬보플라스틴 시간 30초, 출혈 시간은 2분으로 정상 소견을 보였다. CRP 0.4 mg/dl, 소변검사상 백혈구 30~40/HPF와 백혈구 원주 1~2/HPF 보였으나 소변 배양검사상 배양되는 균은 없었으며, 신장의 초음파 검사, DMSA 스캔 등 방사선학적 검사상 특이 소견은 없었다. 대변검사, 간기능검사, 뇌척수액검사는 정상 범위였다. 투베르쿨린 피부반응검사는 음성 이었으며, 면역학적 검사상 면역 글로블린치는 모두 정상 범위였으나, CD₄ 및 CD₈ 림프구 비는 0.98(2968/μL, 2998/μL)로 낮아져 있었다.

상부위장관내시경 검사 소견: 식도 상부와 하부에서 토물과 같은 크림색의 가막성 이물이 찢어진 모양으로 관찰되어 토물이 식도에서 유출되었음을 짐작할 수 있었으며, 식도 점막 부는 부종과 함께

출혈 소견이 관찰되어 가막성 조직이 원통형으로 식도 점막과 함께 분리되면서 다량의 출혈이 동반된 것으로 추정되었다(Fig. 2). 위, 십이지장 부에서는 특기할 만한 병변 소견은 관찰되지 않았다.

조직 검사 소견: 토물 조직은 길이 10 cm, 폭 1.2 cm로 크림색을 띄며 내강을 가진 원통형 이었고, 실크 같은 부드러운 촉감을 가졌으며 국소적으로 출혈 반이 관찰되었고, 토물의 상, 하부는 경계가 너털너털한 찢어진 모양을 보였다. 토물 및 식도내 가막성 조직은 현미경적으로 식도의 편평상피들이 허혈성 변성에 의하여 세포의 핵들이 거의 소실되었으나, 세포 윤곽은 호산성으로 아직도 뚜렷하였다(Fig. 3). 표면에는 급만성 염증 세포의 침윤과 함께 괴사 물질 및 미생물로 보이는 것들이 엉켜 있었고(Fig. 4), 점막하 조직은 붙어 있지 않았다. 토물의 도말 검사상 균사(hyphae), arthroconidia 및 blastoconidia 등이 관찰되었으며(Fig. 5), Sabouraud dextrose 배지에서 성장한 집락을 API 20 (bio-Merieux, France)으로 동정하여, *T. beigeli*가 동정되었다.

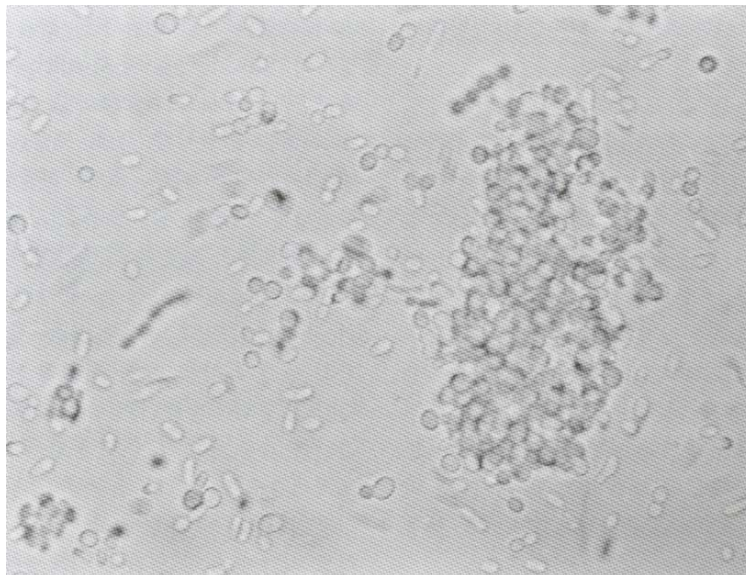


Fig. 5. Hyphae, arthroconidia and blastoconidia were noted on the wet smear of esophagus (×400)

임상 경과: 치료는 2주간 fluconazole을 투여하였으며 환아는 증세의 호전을 보였고 이후 다시 시행된 상부위장관내시경 검사상 식도 점막 부의 육안적, 조직학적으로 정상 소견이 관찰되었다. 현재 합병증 없이 정상적인 성장을 보이며, CD₄ 및 CD₈ 림프구 비가 1.45 (1801/ μ L, 2139/ μ L)로 정상화 되었으며 3년간 추적 관찰 중이다.

고 찰

소아에서의 식도 진균증의 증상은 일반적으로 연하통과 연하 곤란이 가장 흔하다고 알려져 있으며²⁾, 무증상, 흉통, 상복부 복통, 구토, 토혈 등 다양한 증세³⁻⁵⁾를 보일 수 있으나, 본 증례처럼 진균성 식도염의 가막성 조직이 토물로 유출된 경우는 문헌 고찰을 통하여 그 보고 레를 발견할 수 없었다. Young 등³⁾은 가장 흔한 증상이 토혈이며, 대부분의 환아에서 연하통이나 연하 곤란과 같은 특이적 식도 증상은 없었다고 보고한 바가 있으나, 이는 상당히 진행된 상태에서의 진균성 식도염의 임상 소견으로 추정할 수 있고, 최근 영유아에서도 상부위장관내시경 시술이 확대됨에 따라 상당히 진행된 시기에 보이는 토혈과 같은 증상이 나타나기 전에 미리 진단되는 경향이다.

김 등²⁾, Young 등³⁾의 보고에서 알수 있듯이 일반적인 식도 진균증은 면역 기능이 약화된 소아에서 호발하는 것으로 알려져 있으나, 드물게는 김과 장⁵⁾의 보고에서와 같이 면역 결핍의 병력이나 검사 소견이 뚜렷하지 않은 경우에도 발생할 수 있어 진단에 주의를 요한다. 본 증례에서도 뚜렷한 면역 결핍의 병력이나 검사 소견의 이상이 관찰되지 않았고, CD₄/CD₈ 비의 경미한 감소를 보였을 뿐이며, 이후 추적 검사상 6개월 이내에 정상 소견으로 회복된 특이한 병력을 보였다. Sood 등⁶⁾이 보고한 위산도의 극심한 저하를 유발할 수 있는 약물의 복용력이나, Stillman 등⁷⁾이 보고한 식도 운동성 질환의 병력은 관찰되지 않았다.

식도 진균증의 진단은 상부위장관내시경 시술을 통한 조직생검 혹은 brushing 검사의 이용이 가장

진단적 효용성이 높다⁸⁾. 내시경 소견은 단순 점막 발적에서부터 크림색의 위막형성까지 다양할 수 있는데, 본 증례에서는 이미 형성된 광범위한 삼출성 위막이 변성된 식도 점막과 함께 점막하 조직으로부터 원통형으로 찢어지면서 구토에 의하여 배출된 특이한 경우이다.

다핵구가 진균 감염에 대한 체내 방어 기능을 주로 담당하는데, 광범위 항생제를 사용하는 호중구 감소증 환자에서 아스페르길루스(*Aspergillus*), 모균병(mucormycosis), 트리코스포론증(trichosporonosis) 감염을 보일 수 있다. 효모균증(cryptococcosis), 콕시디오이데스진균증(coccidioidomycosis), 히스토프라즈마증(histoplasmosis)은 호즈킨 병, 림프종, 스테로이드나 면역 억제제로 치료 중인 T 림프구 기능이 저하된 환자에서 주로 보고되고 있다⁹⁾. 본 증례는 면역 결핍을 의심할 만한 과거력이 없고, 입원 당시 호중구 감소증은 없었으며, CD₄/CD₈의 비가 다소 감소된 소견을 보였으나, *T. beigelii*에 감염된 특이한 임상 소견을 보였다.

진균성 식도염의 가장 흔한 원인 균은 *Candida albicans*이다²⁾. 그 외에도 *Trichosporon cutaneum* (*beigelii*), *Candida krusei*, *Rhodotorula rubra* 등이 보고되고 있다³⁾. *T. beigelii*는 주로 *T. cutaneum*으로 알려져 있으며 분절 흩씨(arthrospore)를 형성하는 효모균으로 Deuteromycetes 강, Cryptococcaceae 과에 속하는 진균이다. 주로 토양에 상주 서식하며 때로는 사람의 피부, 소변, 객담에 정상적으로도 발견된다. 이러한 진균들은 건강한 숙주에서는 질병을 일으키지 않는다고 알려져 있으며 주로 숙주의 면역이 약해지는 경우, 즉 광범위한 스테로이드의 사용이나 면역 억제제 사용, 항암제 투여, 장기간의 항생제 사용, 또는 선천성 내지 후천성 면역 결핍증 환자에서 감염을 일으킬 수 있다. 피부 감염이 가장 흔하며 주로 홍반성 병변으로 나타나 조직생검으로 간단히 진단될 수 있으며 그 외 폐, 신장, 비장 등에 침범할 수 있다⁹⁾. 드문 경우로 위 식도 역류에 의한 협착성 식도염에서 보고된 바가 있다¹⁰⁾. 패혈증에 빠진 저출생 체중 신생아의 혈액 배양검사서 보고된 바¹¹⁾가 있으며, 그 외 소변,

객담, 소변 카테터배양에서 균종이 동정되었으며 거의 모든 경우에서 사망하였다. 진단은 주로 혈액 배양에서 효모균을 분리하는 것이 가장 확실하며 그 외 객담, 소변에서도 동정될 수 있다. 그러나, *T. beigeli*는 Amphotericin B에도 주로 내성을 보이며 칸디다와 구분이 어려워 진단과 치료가 늦어지는 경우가 많으므로 주의를 요한다¹²⁾.

식도 진균증의 합병증으로는 식도 연동 운동의 장애, 식도 게실, 균구(fungal ball)에 의한 폐색, 누공, 천공, 협착 등이 있으며 2차적 세균성 감염을 일으킬 수 있다^{2,5)}. 상부위장관내시경 조기 기술을 이용한 정확한 진단법의 이용과 이에 따른 적절한 항진균요법으로 이러한 합병증을 피할 수 있을 것이다.

요 약

토혈과 함께 변성된 생체 조직의 일부로 보이는 토물을 주소로 내원한 소아에서 응급 상부위장관 내시경 기술을 이용하여 식도 부에서 유출된 토혈과 토물로 진단하고, 조직 검사를 이용하여 드문 원인 균인 *T. beigeli*에 의한 진균성 식도염으로 진단된례를 경험하였다. 진균성 식도염에 의해 이미 형성되어 있던 가막성 조직은 변성된 식도 점막부의 상피 세포들로서 점막하 조직으로 부터 원통형으로 분리되었으며, 이때 발생한 구토에 의하여 토혈과 함께 토물로 배출된 희귀한 증례이다.

참 고 문 헌

1) Mathieson R, Dutta SK. Candida esophagitis. Dig Dis Sci 1983; 28: 365-70.
 2) 김호성, 김연우, 심재건, 박범수, 이환종, 김중곤 등. 내시경에 의해 확진된 영아 Candida 식도염 3례.

소아과 1994; 37: 269-75.
 3) Young C, Chang MH, Chen JM. Fungal esophagitis in children. Acta Paediatr Sin 1993; 34: 436-42.
 4) Lopez-Dupla M, Mora Sanz P, Pintado Garcia V, Valencia Ortega E, Uriol PL, Khamashta MA et al. Clinical, endoscopic, immunologic and therapeutic aspects of oropharyngeal and esophageal candidiasis in HIV-infected patients: a survey of 114 cases. Am J Gastroenterol 1992; 87: 1771-6.
 5) 김용주, 장세진. 만성 복통을 주증상으로 한 면역기능이 정상인 소아에서 발생한 식도 칸디다증 1예. 대한소화기내시경학회지 1997; 17: 55-8.
 6) Sood A, Sharma M, Jain AP, Chawla LS, Kumar R. Esophageal candidiasis following omeprazole therapy: a report of two cases. Indian J Gastroenterol 1995; 14: 71-2.
 7) Stillman AE, Larter W, Goldman DS. Longitudinal esophageal bands with esophageal aperistalsis: speculation on pathogenesis. Gastroenterology 1978; 74: 592-4.
 8) Young JA, Elias E. Gastro-esophageal candidiasis: diagnosis of brush cytology. J Clinical Pathol 1985; 38: 293-6.
 9) Leblond V, Saint-Jean O, Datry A, Lecso G, Frances C, Bellefiqh S, et al. Systemic infections with *Trichosporon beigeli* (*Cutaneum*). Cancer 1986; 58: 2399-405.
 10) Bottari M, D'Amore F, Buda CA, Magnano A, Melita G, Dell'Utri P, et al. Stenosing esophagitis caused by *Trichosporon beigeli*: presentation of a rare case. G Chir 1997; 18: 344-7.
 11) Yoss BS, Sautter RL, Brenker HJ. *Trichosporon beigeli*, a new neonatal pathogen. Am J Perinatol 1997; 14: 113-7.
 12) Fasano C, O'Keefe J, Gibbs D. Fluconazole treatment of children with severe fungal infections not treatable with conventional agents. Eur J Clin Microbiol Infect Dis 1994; 13: 344-7.