

폐방선균에 의해 발생한 폐동맥류 1예

고려대학교 의과대학 내과학교실, ¹병리학교실, ²방사선과학교실

김연호, 한우식, 김청호, 이승룡, 이상엽, 김제형, 신 철,
심재정, 인광호, 강경호, 유세화, 김광일¹, 김한겸¹, 오유환²

=Abstract=

A Case of Pulmonary Artery Aneurysm by Pulmonary Actinomycosis

Youn Ho Kim, M.D., Woo Sik Han, M.D., Chung Ho Kim, M.D.,
Sung Yong Lee, M.D., Sang Yeub Lee, M.D., Je Hyeong Kim, M.D.,
Chol Shin, M.D., Jae Jeong Shim, M.D., Kwang Ho In, M.D.,
Kyung Ho Kang, M.D., Se Hwa Yoo, M.D., Gwang Il Kim, M.D.¹,
Han Kyeom Kim, M.D.¹, Yu Whan Oh, M.D.²

*Department of Internal medicine, ¹Department of Pathology,
and ²Department of Diagnostic radiology, College of Medicine Korea University, SEOUL, KOREA*

Pulmonary aneurysm is a rare vascular anomaly. Infection is one of major causes of pulmonary aneurysms. Pulmonary aneurysm by pulmonary actinomycosis is a rare case. Our case is maybe the first case in Korea, so far similar case has not been reported Worldwide written in English. We describe a 73-year-old man with aneurysm of pulmonary artery caused by actinomycosis infection on lung. We detected aneurysm by angiography of pulmonary artery, and actinomycosis infection was revealed by confirm sulfur granules on specimens taken by percutaneous needle aspiration(PCNA). Antibiotic therapy was applied to this patient and aneurysm was embolized with coils. With this therapy, the patient was successfully managed and improved. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 2004, 56:210-215)

Key words : Actinomycosis, Pulmonary artery aneurysm, Hemoptysis.

Address for correspondence :

Sang Yeub Lee, M.D.

Department of Internal Medicine, College of Medicine, Korea University

126-1, 5Ga, Anam-dong, Sungbuk-gu, Seoul, 136-705 Korea

Phone : 02-920-5570 Fax : 02-929-2045 E-mail : pulsy0309@hotmail.com

서 론

폐동맥류는 드문 혈관질환으로서 Deterling¹이 1947년에 10만명을 부검한 결과 8명만을 발견해서 보고할 정도로 드물다. 폐동맥류의 원인으로는 40%-50% 정도는 선천성 심장질환(TOF, PDA, VSD)등과 관계가 있고 다음으로 흔한 원인으로는 감염을 들 수 있다². 그 이외의 다른 원인으로는 베타병, 거대세포성 동맥염, Hughes-Stovin중후군등의 혈관염과 자상후에 생기는 외상후 폐동맥류등이 알려져 있다.

조직학적으로 감염성 동맥류는 매독균과 결핵균에 의해 생긴 것들이 주로 보고 되었고 결핵균에 의한 생긴 것은 라스무센 동맥류(Rasmussen's aneurysm)³이라고 알려져 있다.

감염성 동맥류중 결핵균에 의해 생긴 것은 1882년에 weigert⁴에 의해서 보고된후 Long⁵에 의해서 1945년부터 1998년 까지 발생예를 모아 고찰해서 39예를 보고 한적이 있으나, 폐방선균에 의한 동맥류의 발생은 지금까지 저자들이 아는한 영문학회지나 국내학회지에 보고된 적이 없을 정도로 드물다.

저자들은 내원 한달전부터 미열과 객혈, 객담을 동반한 71세의 남자에서 폐동맥 혈관조영술과 경피적 세침 생검 흡입술에 의해 확진된 폐방선균에 의한 동맥류 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 오○영, 71세, 남자

주 소 : 약 한달동안의 미열과 객담을 동반한 객혈

현병력 : 당뇨와 고혈압으로 91년부터 본원 내과에서 경과 관찰하면서 항고혈압약과 인슐린 치료 받고 있는 분으로 한달전부터 미열과 객담, 객혈이

있어 외래에서 시행한 단순 흉부 촬영결과 우측폐의 상엽에 공동성병변 또는 종괴소견이 보여 내원하였다.

과거력 및 가족력 : 91년부터 당뇨와 고혈압으로 항고혈압제와 인슐린으로 치료중이며, 2002년 11월 급성심근경색으로 경피적 관상동맥 풍선 성형술 및 도관삽입술을 시행받았다. 2002년 11월 급성심근경색으로 입원당시 만성 신기능감소를 진단받았고, 흡연력은 50년간 하루에 한갑씩 흡연해오다 작년 11월부터 금연하였다.

이학적 소견 : 혈압 90/60mmHg, 맥박 68회/분, 체온 37.8도, 호흡수 20회/분이었고 만성 병색을 보였고 결막은 창백하였고 경부와 액와부에 만져지는 종물이나 림프절 비대는 없었다. 흉부청진상 심음은 규칙적이고 심잡음은 들리지 않았으며 호흡음은 우측상엽에서 감소된 소견이 보였으나 수포음은 들리지 않았다. 복부촉진상 간비장종대는 관찰되지 않았고 사지부종은 관찰되지 않았다.

검사실소견 : 내원 당일 말초혈액검사상 혈색소 5.7mg/dl, 헤마토크리트는 19.6% 백혈구 14,100/uL 혈소판 499,000/uL이었다. 간기능검사상 Aspartate aminotransferase와 Alanine aminotransferase는 정상 소견을 보였고 단백질은 5.3g/dl, 알부민은 2.8g/dl소견을 보였다. BUN과 Creatinine는 각각 49mg/dl와 1.8mg/dl소견을 보였으며 전해질은 정상 소견을 나타내고 있었다. 혈당은 287mg/dl, HbA1C는 7.7%이었으며 적혈구 침강율(erythrocyte sedimentation rate), C-reactive protein은 각각 91mm/hr, 143mg/dl로 증가된 소견을 보였다. 혈액응고검사는 모두 정상 범위안에 있었다.

미생물검사 : 혈액배양검사와 객담배양검사에서 균이 배양되지 않았다.

방사선학적 소견 : 내원당시 단순 흉부 촬영 소견은(Fig. 1) 우폐 상엽의 내부에 공기액체층이 관찰되는 직경 6cm크기의 공동성 병변을 보였고 흉부 전산화 단층촬영결과 우폐 상엽과 하엽의 상분절

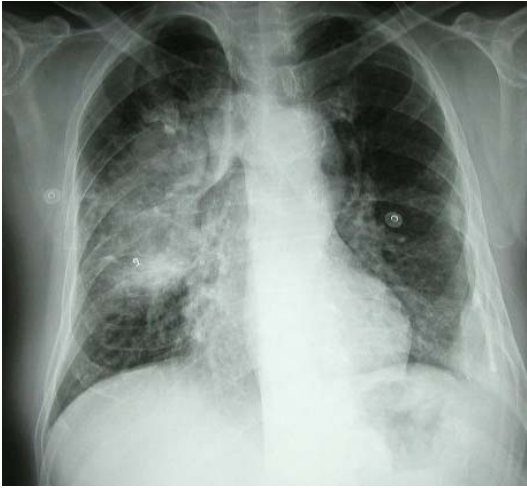


Fig. 1. Chest PA of the patient on admission. About 6cm sized, cavitary mass lesion with internal air fluid level is noted in rt upper lung field.

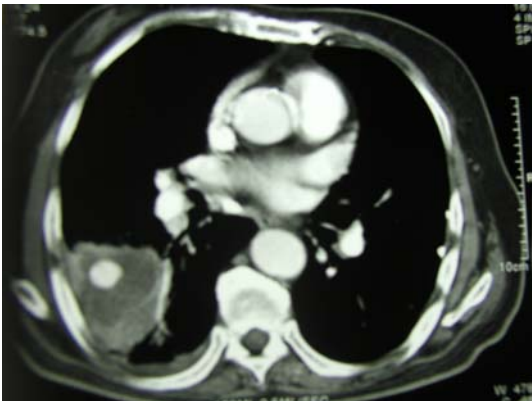


Fig. 2. Chest CT scan of the patient before embolization.

About 7.5×7cm sized low attenuating lesion with internal multifocal air densities are seen in rt upper lobe and superior segment of rt lower lobe. And about 2cm sized well defined enhancing nodular lesion is seen within this low attenuating lesion.

에 걸쳐 있으면서 다수의 공기음영을 포함하는 7.5cm×7cm의 저음영 병변 소견을 보였다. 병변 내부에는 직경 2cm가량의 조영이 증가된 결절성

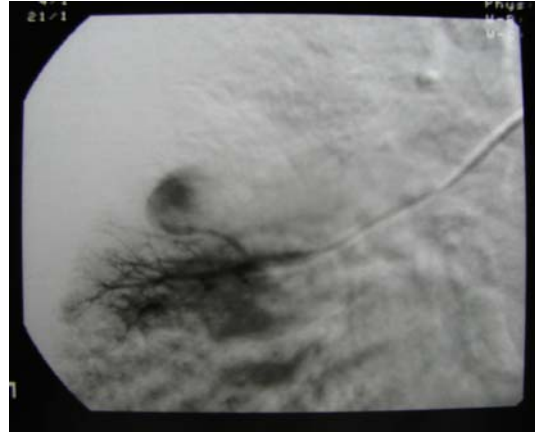


Fig. 3. Pulmonary arteriography of the patient after hemoptysis. a aneurysm arising from small branch of pulmonary artery is seen in superior segment of rt lower lobe.

병변의 소견이 관찰되었다(Fig. 2).

환자가 하루에 20-30ml가량의 지속적인 객혈이 있어, 출혈 부위 발견과 지혈을 위해 우측늑간동맥과 기관지동맥의 선택적 조영술과 폐동맥 조영술을 시행하였다. 우측늑간동맥과 기관지동맥에서는 출혈부위를 발견할 수 없었으나 폐동맥 조영술결과 우폐하엽에 직경 1.5cm가량의 동맥류를 발견하고, Gianturco coil과 Tornado microcoil을 이용하여 색전하였다. 색전술후에 동맥조영술상에 더 이상 동맥류는 관찰되지 않았다(Fig. 3).

병리학적소견 : 환자의 폐병변에서 흉부전산화 단층촬영 유도하에 경피적세침검사를 하여서 표본을 얻었다. 도말된 표본은 대부분 풍부한 다핵구와 괴사된 세포 찌꺼기들로 구성되어 있으며 곳곳에 특징적인 방선균증의 소견인 유황과립을 관찰할 수 있었다(Fig. 4).

치료 및 경과 : 환자는 폐방선균감염이 확인되기 전까지는 공기음영을 동반한 폐농양으로 생각하고 3세대cephalosporin과 clindamycin으로 치료를 시작하였다. 조직검사서 유황과립이 확인된 후 ampicillin/sulbactam으로 항생제를 바꿔 투여하였

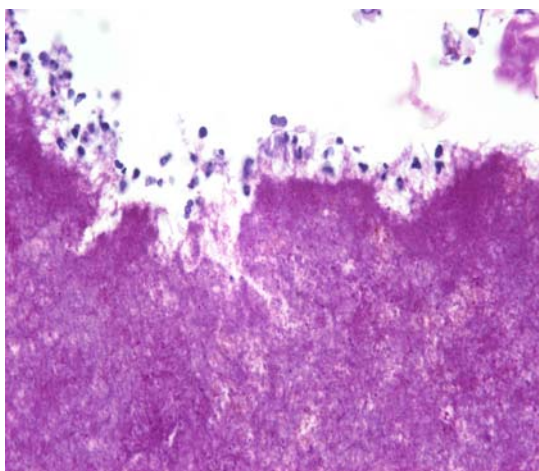


Fig. 4. Sulfur granules collected from this lesion delicate filamentous bacilli at the periphery of the crushed granules(PAS ×800).

다. 단순 흉부 촬영상 병변의 크기가 감소되는 소견 보이고 임상적으로 열이 떨어 지면서 객담배출이 줄어 경구 항생제로 바꿔 퇴원후 외래에서 투약하면서 경과 관찰하고 있다. 외래에서 추적검사한 단순 흉부 촬영소견상 이전에 보였던 우폐 상엽의 공동성병변이 관찰되지 않고 호전된 소견을 보였다(Fig. 5).

고 찰

폐방선균증은 국내외 학회지에 여러예가 보고되었으나 폐방선균 감염에 의한 합병증으로 동맥류가 발생한 예는 저자들이 검색한 결과 국내외 학회지에 보고된 적이 없다⁶.

방선균증은 혐기성의 그람 양성균인 *actinomyces*속(genus)의 세균에 의해 발생하는 화농, 조직 괴사 및 섬유화를 특징으로 하는 만성 감염질환으로 방선균증시 생기는 고름은 유황과립(sulfur granule)을 함유한다⁷. 방선균증은 주로 경안부에 침범하는데 흉부감염은 Cope⁸에 의하면 18%를



Fig. 5. As compared with previous film, the pulmonary hemorrhage due to aneurysm in rt mid to upper lung field is nearly resolved.

차지하는 것으로 알려졌고, 주로 불결한 구강위생이 있는 환자에서 직접적인 전파나 혈액학적 전이에 의하여 흉부 감염을 일으키는 것으로 알려졌다.

감염성 동맥류는 항생제가 널리 사용되기 이전의 시대에는 대부분이 감염성 심내막염과 관계되었으나, 항생제 사용이 널리 보급된 이후로는 주로 개발도상국과 저개발 국가에서 매독과 결핵감염(라스무센 동맥류)과 연관되어 보고 되고 있다. 폐방선균 감염에 의한 동맥류의 예는 아직 보고된 적이 없는데, 따라서 그 발생기전은 논의된 바 없다. 아마도 방선균에 의한 만성적으로 지속되는 혈관주위의 염증에 의해 발생될 것으로 생각된다. 즉 염증이 지속되면 혈관내막과 혈관중간막이 육아조직으로 대체되고 동맥혈관벽이 약화되기 시작한다. 염증이 더욱 심해짐에 따라 육아조직은 섬유소로 대체되고 동맥혈관벽은 얇아지고, 결국 동맥류가 생성되는 것으로 생각된다⁹. 이 동맥류가 파열되면 출혈이 발생하게 된다.

흉부 방선균증은 진단이 어려운데 그 원인으로서는 penicillin항생제의 광범위사용에 따른 임상증상

의 빠른 소실, 부적절한 혐기균 배양, 구강내 상재균으로 존재, 결핵이나 폐암과 유사한 흉부방사선 소견 등 때문이다. Flynn¹⁰의 의하면 40%에서 종괴와 유사한 음영을 보인다고 하였고, 단순한 방법으로 진단이 잘 안되는 경우는 경피적 세침흡입술이나 기관지내시경을 이용한 진단을 권장하고 있다. 본 증례에서도 종괴와 유사한 음영을 보이고 동맥류가 동반되어 결핵을 감별하였는데 기관지내시경 검사상 특이 소견 없어 경피적 세침흡입술로 확진하였다.

폐방선균증의 치료로는 일차약으로 penicillin을 투여하며 페니실린을 못쓰는 경우는 clindamycin, EM, ceftriaxon등을 사용한다. 약물요법으로 약 90%정도의 근치율을 보이는 것으로 알려져 있다. 그런데 본 증례에서처럼 출혈을 동반한 동맥류와 폐방선균증 대한 치료는 아직 정해진 치료방침이 없다. 본 증례에서 환자는 내원당시 혈색소 수치가 5.9mg/dl로 낮고 지속적인 객혈이 있어 폐동맥 조영술을 통해 동맥류 위치를 확인하였고, 동맥류의 크기가 직경 1.5cm가량으로 작아서 coil을 이용한 색전술을 시행하여 동맥류에 의한 출혈을 효과적으로 막을 수 있었다. Sanyika¹¹도 심한 객혈을 동반한 결핵성 공동성 변병을 가진 환자를 폐동맥 조영술을 이용해 80%의 환자에서 성공적으로 치료한 것을 보고한 바 있고 그 중 38%는 라스무센 동맥류였다고 보고하였다. 폐방선균증은 진단이 어려우나 일단 확진이 되면 장기간 항생제 사용에 의해 치료반응이 좋고 사망하는 경우는 많지 않다. 그러나 본 증례에서와 같이 폐방선균증과 폐동맥류가 합병된 경우는 대량출혈의 가능성이 있으므로, 정확한 진단과 적절한 치료가 이루어지지 않는다면 환자가 사망할 수도 있을 것이다. 저자들은 폐방선균에 의해 발생한 폐동맥류 1예를 치료 경험과 더불어 보고하였다. 이 연구가 폐방선균증의 진단과 치료에 도움을 줄 것으로 사료된다.

요 약

저자들은 폐동맥류를 동반한 폐방선균증을 경피적 세침 흡입술을 통해 진단하였다. 출혈을 동반한 폐동맥류는 폐동맥조영술을 시행하여 색전하였고 적절한 항생제를 사용하여 임상적으로 호전된 폐방선균증 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Deterling RA, Clagett DT. Aneurysms of the pulmonary artery:Review of the literature and report a case. *Am Heart J* 1947;34:471-98.
2. Bhandari AK, Nanda NC. Pulmoary artery aneurysm:Echocardiographic features in 5 patients. *Am J Cardiol* 1984;53:1438-41.
3. Auerbach O. Pathology and pathogenesis of pulmonary artery aneurysm in tuberculous cavities. *Am Rev Tuberc* 1939;39:99-115.
4. Weigert C. Ueber venetuberkel und thre beziehung zur tuberculosen blutinfektion. *Vir chows Arch Pathol Anat* 1882;88:307-379.
5. Long R, Guzman R, Greenberg H, Safneck J, Hershfield E. Tuberculous mycotic aneurysm of the aorta. *Chest* 1999;115:522-30.
6. 백수홍, 서해숙, 조영수, 임연식, 조동일, 유남수. 객혈을 동반한 폐방선균증 1예. *결핵 및 호흡기질환* 1992;39:255-60.
7. Murray, Nadel. *Textbook of Respiratory Medicine*. 3rd ed. Philadelphia: W.B saunders; 2000.
8. Cope Z. Pulmonary actinomycosis. *Ann Surg* 1946;124:535.

9. 김혜영, 송관식, 구진모, 이진성, 이경수, 임태환. Thoracic Sequelae and complications of Tuberculosis. *RadioGraphics* 2001;21:839-860.
 10. Flynn HW, Felson B. The roentgen manifestation of thoracic actinomycosis. *Am J Roentgenol* 1970;110:707-16.
 11. Sanyika C, Corr P, Royston D, Blyth DF. Pulmonary Angiography and Embolization for severe hemoptysis due to cavitary pulmonary tuberculosis. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1999; 22:457-460.
-