

족부의 골을 침범한 전신성 분아균증 -1예 보고-

인제대학교 일산백병원 정형외과

조진호·서진수·김진환

Systemic Blastomycosis with Osseous Involvement of the Foot - A Case Report -

Jin-Ho Cho, M.D., Jin-Soo Suh, M.D., and Jin-Hwan Kim, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Inje University, Ilsan Paik Hospital, Goyang, Korea

=Abstract=

We report a patient who presented with three months of foot pain, lytic navicular bone lesions in the foot, and a painless ipsilateral leg skin ulcer. Bone and skin biopsies revealed organisms compatible with Blastomyces. Systemic blastomycosis is very rare, especially with bone involvement in the foot.

Key Words: Foot, Navicular bone, Blastomycosis

서 론

분아균증은 매우 드문 질환이며 가끔씩 골을 침범하는 소견을 보일 수 있다. 특히 수족부 등의 말단부의 골 침범은 아직 보고된 바가 없다. 저자들은 족부 주상골을 침범하는 전신성 분아균증을 체험하였고 초기 진단에 어려움을 겪었던 바 족부의 만성적인 동통의 감별진단에 도움을 줄 것으로 사료되어 그 임상 예를 보고 하고자 한다.

증례 보고

27세 여자 환자로 3개월 전부터 시작된 좌측 중족부 동통, 특히 체중 부하 보행시 악화되는 증상으로 내원하였다. 비스테로이드성 소염제 및 진통제에 반응하지 않는 상태였다. 외상의 병력은 없었다. 족부 동통이 발생하고 몇주 후에 약 2.5 cm 크기의 동통을 동반한 결절성 피부 병변이 슬와부에 생겼으며 그 후에 그곳에서 맑은 액체가 배어 나왔다. 족부 동통이 발생하기 몇주 전에 개인병원에서 폐렴으로 진단 받고 약 2주간의 항생제 처방을 받은후 호흡기 증상은 호전되었다. 당시 현미경학적 검사는 시행하지 않았다. 과거력상 우울증과 소아 천식을 앓았으나 근래에는 문제가 된 적은 없었다. 열이나 오한은 없었고, 체중의 감소나 식욕의 변화 또한 없었다. 환자는 약 15년간 하루에 한갑반 정도의 흡연을 한 경력이 있으나 성병이나 악성종양, 면역 저하 질환, 약물 남용, 감염 등의 병력은 없었다.

농촌 주부로서 임신이나 출산 경력은 없었고 약간 비만한 상태였고 청진이나 활력 징후는 정상 소견이었다. 좌측 족부 검사에서 내측 중족부에 심한 압통을 호소하였다. 동

• Address for correspondence

Jin-Soo Suh, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery Ilsan Paik Hospital
2240, Daehwa-dong, Ilsanseo-gu, Goyang-si, 411-706, Korea
Tel: +82-31-910-79680, Fax: +82-31-910-7967
E-mail: sjs0506@ilsanpaik.ac.kr

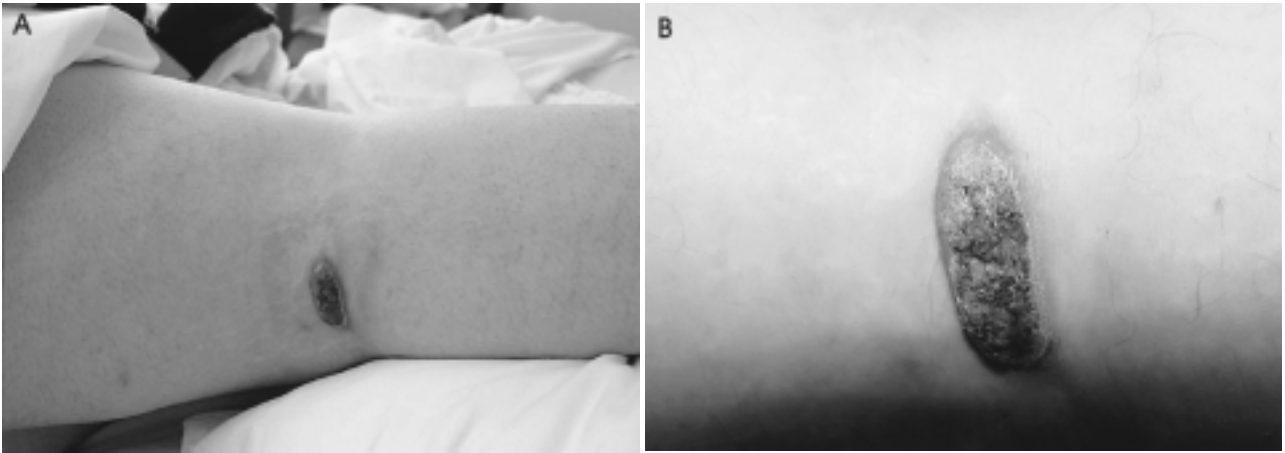


Figure 1. (A) Left leg popliteal fossa skin plaque. (B) Close up.



Figure 2. (A) Sagittal MRI one month after onset of pain, revealing decreased signal intensity in navicular (T1 WI), (B) and increased signal intensity navicular with associated soft tissue edema (fat suppressed T2 WI).

통으로 인해 수동적 또는 능동적 관절운동을 하기 힘든 상태로 우선 감염이나 악성종양을 의심하였으나 족부의 피부는 부종 외엔 정상이었다. 좌측 슬와부에 약 4×2 cm 크기 이면서 약간의 크림 같은 삼출을 보이는 붉은색의 육아종성 판(plaque)이 관찰되었다(Fig. 1). 서혜부와 슬와부에 선종(adenopathy)은 없었다.

내원 2달전 타병원에서 촬영한 족부 단순 방사선 사진은 정상 소견이었다. 이후에 시행한 자기공명영상 검사에선 T1 강조 영상에서 족부 주상골의 신호가 전반적으로 감소된 소견이었고 지방억제(fat suppressed) T2 강조 영상에서는 주상골과 함께 그 주변부까지 광범위하게 신호가 증가되어 있어 종양에는 잘 맞지 않는 소견이었다(Fig. 2). 증상 발현 후 약 3개월이 지나 본원에서 촬영한 족부 단순 방사선 사



Figure 3. Lateral foot radiograph at presentation in our clinic, three months after onset of pain, revealing destructive lytic lesion in proximal navicular.

진은 근위 주상골에 경계가 잘 지어지는 낭종이 거주상 관절로 침범되어 있었으나 거주상 관절 간격은 비교적 잘 유지되어 화농성 관절염과도 맞지 않는 소견이었다(Fig. 3). 족부 전체에 골음영이 감소된 소견이었고 족부 단층 컴퓨터 촬영 사진에선 다발성 용해성 병변이 보였으며, 주상골 근위부에 관절면을 침범한 커다란 낭종이 관찰되었다(Fig. 4). 임상 검사에서는 C 반응성 단백: 2.0 mg/L, 적혈구 침강 속도: 30 mm/hr, 백혈구 수치는 정상 범위이었다.

감별해야 할 질환으로는 종양, 세균성보다는 진균성이나 결핵성 만성 다발성 감염 질환 등을 염두에 두고 주상골 주위에 절개 생검을 시행하였다. 주상골에 생긴 낭종에선 점액성 물질이 관찰되었으며, 배양검사와 조직검사를 시행하였다. 배양검사는 거주상골 관절의 활액막 액에서도 시행하였다. 수술중 시행한 동결 생검 검사는 육아종성 급만성 염

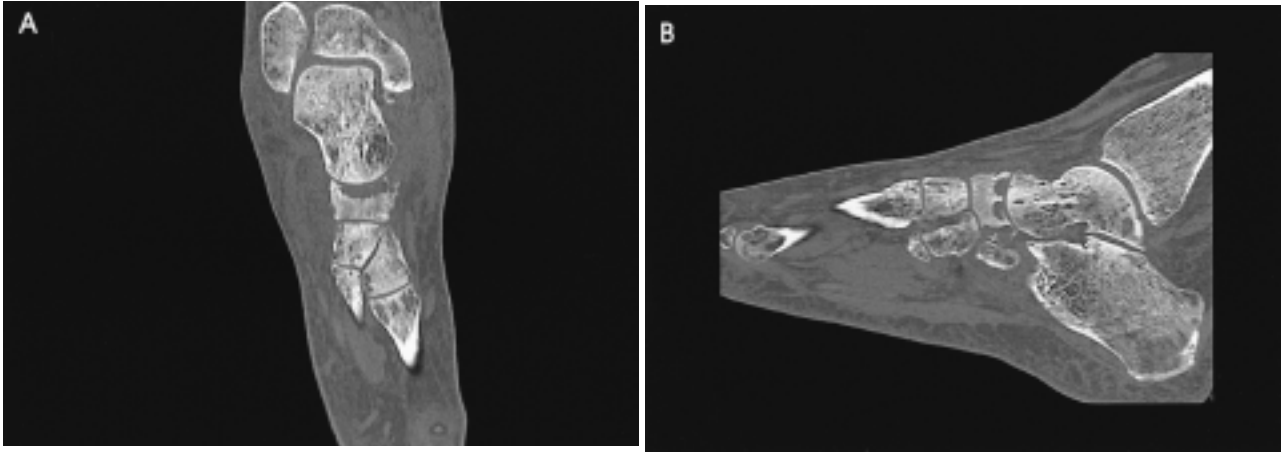


Figure 4. CT scans revealing diffuse foot and ankle lytic lesions with the largest erosive lesion in the proximal navicular on coronal (A) and sagittal images (B).

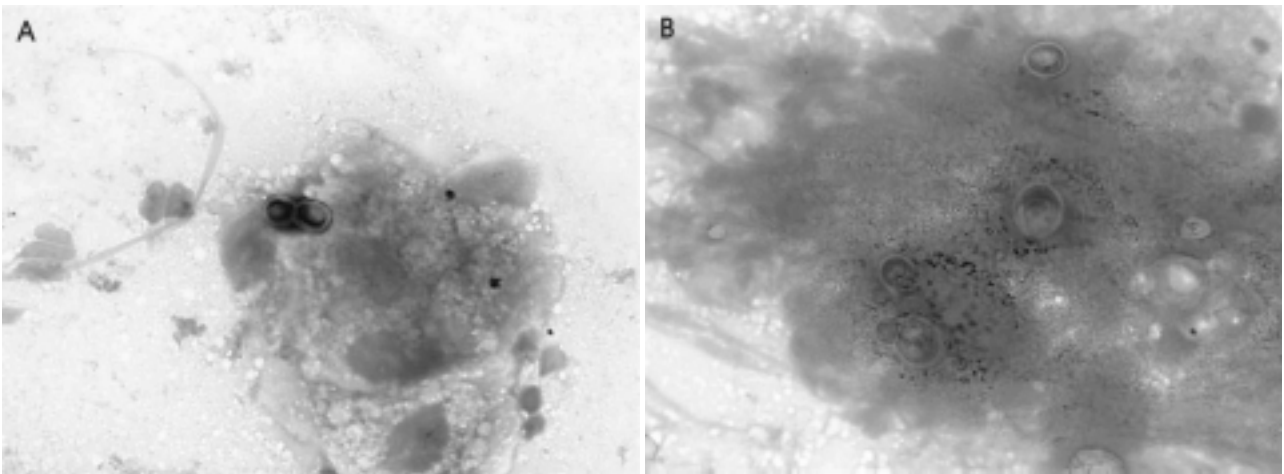


Figure 5. (A) Microscopic blastomycosis from foot navicular biopsy: spherical yeast forms with budding apparent (H&E, ×40). (B) magnification (H&E, ×200).

증의 소견이었고 상처는 세척술후 봉합하였으며, 석고 고정 후 비 체중 부하를 실시하였다.

*Blastomyces dermatitidis*가 그람염색과 Calcoflor 염색에서 관찰되었으며(Fig. 5), 후에 배양 검사에서도 양성으로 나왔다. 조직 검사에서도 다발성 괴사성 육아종성 염증 세포들이 보였으며, 두꺼운 벽과 넓은 기저부를 가지는 구형의 효모 모양을 한 분아균과 일치하는 소견을 보였다.

추후에 시행한 단순 흉부 방사선 사진과 컴퓨터 단층 촬영에서 우측 상엽부에 선상의 음영이 관찰되었다. 좌측 하지 슬와부의 판에서 실시한 조직검사는 거대세포들, 산재된 형질 세포들과 넓은 기저부를 가진 효모 같은 형태들을 띠는 만성 화농성 염증성 질환으로 나왔는데, 이는 분아균증

과 일치하였다. 말초 혈액 면역 병리 검사에선 정상의 T세포와 B세포를 보였고 간효소들과 전해질도 정상이었다. 에이즈 검사 또한 음성이었다.

경구용 진균제 (itraconazole) 200 mg을 하루에 2회 투여하여 치료하였고 투여후 수주이내 동통 및 종창이 극적으로 소실 되었고 슬와부의 궤양도 완전 치유되었다. 비체중 부하 단하지 석고 고정 3개월 이후에 UCBL보조기를 착용하여 과도한 보행이나 스포츠활동 이외에는 불편없이 지내고 있다.

고찰

*Blastomyces dermatitidis*는 동종 이형의 진균이다. 토양에 서식하며 가지 모양의 균사로 형성된 다세포성 곰팡이이다. 곰팡이는 포자(conidia)를 공기중으로 배출한다. 사람의 체온 정도에서 진균은 효모 같은 단세포 형태로 자라는데 구형이거나 타원의 형태를 띠며 가지들을 만들어 낸다. 효모세포는 두껍고 굴절성이 있는 세포벽으로 구성된다. 호흡기를 통한 감염은 포자를 흡입함으로써 생긴다. 호흡기 감염은 증상이 없거나 자연 치유되는 급성 폐렴을 유발하거나 만성 폐렴을 일으키기도 한다, 전신성 감염은 드물게 일어나나 만약 생기면 어떠한 기관에도 갈 수 있으며 골, 관절, 피부, 중추 신경계에 가장 흔히 갈 수 있다. 북미에서 분아균은 남동부 그리고 남중부 특히 미시시피와 오하이오 강 유역을 따라 풍토병으로 자리잡았다.

저자들의 증례에서 몇 가지 드문 현상을 보였다. 폐, 피부 그리고 골 등 다발성 기관을 침범하였는데 Alfred 등¹⁾은 326예의 분아균증에서 82.8%는 한가지 기관만 침범하였는데, 폐 91.4%, 피부 18.1%, 골 4.3%, 비뇨생식기 1.8%, 신경계 1.8% 순이었다¹⁾. 골성 침범은 1950년대부터 최근까지 보고가 되고 있다²⁻³⁾. 그러나 많은 골성 침범에 있어서 장골 원위부에 주로 침범하였고 본 증례와 같이 족부 등의 말단부를 침범하는 것은 보고된 바가 없다³⁾.

본 증례에서 족부 증상이 나타나기전 생긴 폐렴은 분아균주가 폐를 침범하여 생겼다고 보여진다. 환자의 호흡기 증상은 자연 치유를 보였고 나중에 촬영한 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서는 만성 호흡기 감염과 일치하는 만성 반흔의 소견만을 보였다. 이로서 폐침범 후에 피부와 족부 골로 균주가 이행한 것으로 추정할 수 있다. 궁극적으로 진단을 하기 위해 족부 주상골 낭종의 조직학적 소견이 필요하였다. 피부 병변은 초기에 진균증을 의심하게 보이지 않았고 족부의 병변과도 관련이 없어 보였다. 그러나 조직검사 후에 이 피부 병변이 분아균증을 가장 의심케 하는 소견임을 알수 있었다.

골을 침범하는 분아균증은 진단이 흔히 늦어질 수 있다. 본 증례에서도 증상이 생기고 3개월이 지나서야 골 생검이 이루어 졌다. 이와 같은 지연 현상은 이미 보고된 문헌에서도 흔히 볼 수 있는데 이는 진균증 보다는 종양이나 결핵을 먼저 생각하기 때문으로 보인다. 미국 미시시피 대학의 경우 123예의 분아균증에서 단지 18% 만이 초기에 진단되었다고 하였다⁴⁾. 저자들의 경우에서도 증상 발현후 3개월이 지나 골조직 검사 결과가 나온 후에 피부 병변이 진균으로 인한 것임을 알게 되었다.

치료로는 부골 제거술 등의 수술적 처치가 요구될 수 있으나 저자들의 경우 절개생검시 점액성 물질 세척만으로 부가적인 수술은 필요치 않은 상태였기에 간기능 검사와 같은 혈액 검사를 주기적으로 실시하면서 약 1년간 경구용 진균제를 복용하여 치료하였으며, 증상의 재발 소견이 없어 약물 치료를 중지 하였다. Amphotericin B는 생명을 위협하거나 중추 신경계를 침범한 경우에만 적용이 된다고 하였다⁵⁾.

REFERENCES

- 1) Alfred KS and Harbin M: *Blastomycosis of bone; report of a case. J Bone Joint Surg, 32-A: 887-889, 1950.*
- 2) Chapman SW, Bradsher RW Jr & Campbell GD Jr: *Practice guidelines for the management of patients with blastomycosis. Clin Inf Dis, 30: 679-83, 2000.*
- 3) Chapman SW, Lin AC, Hendricks KA, et al: *Endemic blastomycosis in Mississippi: epidemiological and clinical studies. Semin Respir Infect, 12: 219-228, 1997.*
- 4) Lemos LB, Guo M and Baglia M: *Blastomycosis: organ involvement and etiologic diagnosis. A review of 123 patients from Mississippi. Ann Diagn Pathol, 4: 391-406, 2000.*
- 5) Saiz P, Gitelis S, Virkus W, Piasecki P, Bengana C & Templeton A: *Blastomycosis of long bones. Clin Orthop Relat Res, 421: 255-259, 2004.*