

대장암 및 충수돌기 주위 농양으로 오인된 복부 방선균증

계명대학교 의과대학 내과학교실

손수호 · 김병상 · 허규찬 · 박승국

Abdominal Actinomycosis Initially Diagnosed As a Colorectal Cancer or Periappendiceal Abscess

Soo Ho Son, M.D., Byung Sang Kim, M.D., Kyu Chan Huh, M.D., and Soong Kook Park, M.D.

Department of Internal Medicine, Keimyung University College of Medicine, Taegu, Korea

Background/Aims: Colonic actinomycosis is a rare disease with clinical and radiographic findings that overlap those of other inflammatory and neoplastic conditions. We performed this study to analyze clinical manifestation, characteristic radiologic findings of 5 cases of abdominal actinomycosis, which was initially diagnosed as a colorectal cancer or periappendiceal abscess. **Methods:** We analyzed chief complaint, predisposing factor, presence of leukocytosis and sulfur granule, involved site, presence of LN involvement and abdominal CT findings, retrospectively. **Results:** The most common clinical manifestation was abdominal pain. In 3 cases, predisposing factors were identifiable, which were intrauterine contraceptive device (IUD), previous appendectomy, and diabetes mellitus (DM) respectively. Leukocytosis was noted in 4 cases (80%) and sulfur granule in all 5 cases. Sigmoid colon was the most common involved site (4 cases) followed by appendix and rectum. On computed tomography, inhomogeneous mass or severe inflammation along the bowel wall or serosa was noted. Explorations were performed in 4 cases. Preoperative diagnosis was a colorectal cancer in 3 cases and periappendiceal abscess in 1 case. **Conclusions:** Actinomycosis should be born in mind in the differential diagnosis of patients with IUD, previous appendectomy and DM, presenting leukocytosis and CT finding of inhomogeneous mass and relatively uncommon LN involvement to eliminate unnecessary explorations. (*Korean J Gastrointest Endosc* 2000;21:717–722)

Key Words: Abdominal actinomycosis, Colorectal cancer, Periappendiceal abscess

서 론

대장 및 직장에 발생한 방선균증은 드물게 볼 수 있는 만성 화농성 육아종성 질환으로 다발성 농양 및 배출루(sinus)를 가지며 사람의 구강, 위점막 혹은 여성의 생식기에 상주하는 그람 양성의 혐기성 혹은 미호기성

접수 : 2000년 4월 19일, 승인 : 2000년 6월 24일

연락처 : 손수호, 대구시 중구 수동 18번지

우편번호: 700-220, 운정재단 광병원 내과

Tel: 053-605-3345, Fax: 053-253-3017

의 Actinomyces에 의한 감염으로 발생한다.¹ 방선균증의 주된 감염 부위는 크게 경안부, 흉부, 복부 및 골반부, 그리고 전신 파급형으로 구별된다.² 현재까지 보고된 방선균증은 낮은 발생 빈도와 특징적인 임상증상의 결여로 진단이 어려우며 특히 대장 및 직장에 발생한 방선균증의 경우, 대개 임상적, 방사선학적 소견이 대장암과 유사하여 대장암 및 다른 질환으로 오인되어 수술 후에 확진되는 경우가 많다. 이에 저자 등은 대장 및 직장에 발생한 방선균증에 있어 불필요한 수술 및 처치를 줄일 수 있으리라는 기대로 대장암 및 충수돌기 주위 농양으로 오인된 방선균증 환자의 임상 양상

및 검사실 소견, 그리고 방사선학적 소견 등을 분석하였다.

대상 및 방법

1) 대상

1995년 3월부터 1999년 6월까지 계명대학교 동산의료원에서 변비나 복통 등을 주소로 내원하여 복부 전산화단층촬영과 대장조영술 또는 대장내시경 등을 통하여 대장암 및 충수돌기 주위 농양 의심하에 개복 수술을 하여 복부 방선균증으로 확진된 4예와 대장내시경을 통한 조직 검사로 확진된 1예를 대상으로 하였다. 이들의 연령분포는 38세부터 68세로 평균 53세였으며 성별은 남자가 3예, 여자가 2예이었다.

2) 방법

대상 환자의 증상, 유발 인자와 검사실 소견상 백혈구 증가의 유무 및 조직 생검상 유황 과립(sulfur granule)의 존재 유무, 병소의 침범 부위와 임파선 침범 유무, 복부 전산화단층촬영상 비균질 종괴 형성과 주위 조직 침범 및 대장 내강의 협착 유무를 후향적으로 조사하였다.

결 과

임상 증상은 전 예에서 복통을 호소하였고 변비가 4예, 체중 감소가 2예에서 있었으며 그 외 배뇨 장애, 이급후증(tenesmus), 소화 불량 등이 각각 1예에서 있었고 (Fig. 1), 진찰 소견상 국소적 압통 및 복부 종괴가 촉진

되었다. 5예 중 3예에서 자궁 내 피임 장치, 충수돌기 절제술 기왕력, 당뇨 등의 유발 인자를 각각 볼 수 있었으며 검사실 소견상 5예 중 4예에서 백혈구 증가가 있었고 5예 모두 조직 생검상 유황 과립이 관찰되었다 (Table 1).

전 예에서 단순히 한 부위만을 침범한 경우는 없었고 대개 주위 조직과 염증성 괴사 조직을 형성하거나 유착을 일으켰으며 발생 부위별로는 S상 결장이 4예로 가장 많았고 다음은 충수돌기와 직장이 각각 3예, 회맹장부와 자궁이 각각 2예, 요관, 임파선에도 각각 1예씩 나타났다 (Fig. 2). 복부 단층촬영상 전 예에서 주위 조직과의 유착 소견을 보였고 4예에서는 비균질 종괴를 동반하였으며 3예에서 대장 내강 협착 소견을 나타내었다 (Fig. 3).

5예 중 1예만이 수술 전 대장내시경하 조직 검사상

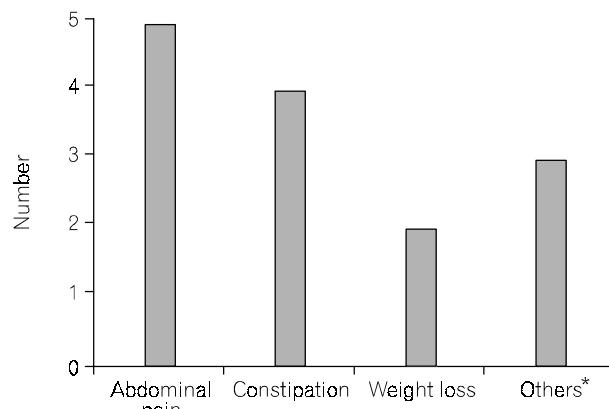


Figure 1. Clinical manifestation in 5 cases of abdominal actinomycosis. *, dysuria, tenesmus, and dyspepsia.

Table 1. Characteristic Findings in 5 Cases of Colonic Actinomycosis

Case	1	2	3	4	5
Age	53	68	49	38	55
Sex	Female	Male	Male	Male	Female
C/C	Constipation	Constipation	Abdominal pain	Abdominal pain	Constipation
Pred factor	-	DM	-	Previous appendectomy	IUD
Leukocytosis (>11,000/mm ³)	+	-	+	+	+
Sulfur granule	+	+	+	+	+
Preop dx	Colorectal ca	Periappendiceal abscess	Colorectal ca	Colorectal ca	
LN involve	+	-	-	-	-
Treatment	Op & Abc	Op	Op & Abc	Op & Abc	Abc

C/C, chief complaint; Pred, predisposing; DM, diabetes mellitus; IUD, intrauterine contraceptive device; Preop dx, preoperative diagnosis; ca, cancer; Periappendiceal, periappendiceal; LN, lymph node; Op, operation; Abc, antibiotics.

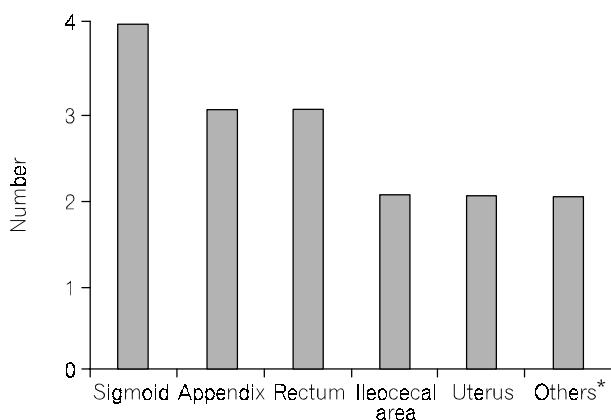


Figure 2. Involved sites in 5 cases of abdominal actinomycosis. *, ureter and lymph node.

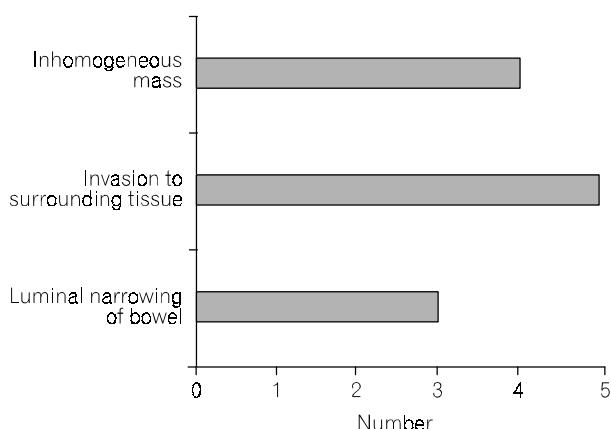


Figure 3. Abdominal CT findings in 5 cases of abdominal actinomycosis.

방선균증으로 확진되었으나 이 경우도 대장내시경과 방사선 소견으로 대장암을 의심하였고, 수술 후 진단한 4예의 경우에 있어 3예는 대장암으로, 나머지 1예는 충수돌기 주위 농양으로 오인되었으나 술후 병리 조직검사에서 방선균증을 진단할 수 있었다.

고 찰

방선균증은 만성 화농성 육아종성 질환으로 원인균은 *Actinomyces israelii* (*A. israelii*)로서 그람 양성이며 포자 형성을 하지 않는 미호기성 세균으로 구강 내나 장내, 또는 여성의 생식기에 존재하는 정상 균주이다. Berardi³는 1846년 Bradshaw가 최초로 복부 방선균증 환자를 보고하였다고 하였으며 그 후 Harz⁴는 이를 방사형의 진균 혹은 현미경에서 보이는 모양에 따라 방선균이라고 명명하였다. 이것은 처음에는 진균으로 여-

겨졌으나 사실상 그람 양성의 사상 세균으로서 핵막의 결손이라든지 세포벽의 구성 성분인 키틴(chitin)의 부재, 분열에 의한 번식 등과 무엇보다도 중요하게 페니실린에 의해 성장이 억제되며 암포테리신 B에 반응이 없다는 사실로 미루어 Schaal 등⁵은 진균보다는 세균으로 분류된다고 주장하였다. 방선균증은 전 세계적으로 분포하고 발생 빈도는 다양하며 대개 여자보다 남자에서 3배 정도 많다.³ *A. israelii*가 사람에서 발견되는 방선균증 중 가장 흔한 세균이지만 *Actinomyces naeslundi*, *Actinomyces odontolyticus*, *Actinomyces propionica* 등 다른 세균들도 사람에서 발견된다. 방선균증이 특징적으로 주위의 육아성 조직과 연결된 다수의 농양들과 섬유화로 이루어진 단단한 병소를 형성한다고 하였으며⁵ 본 증례에서도 5예 모두 복부 단층촬영상 주위 조직과의 유착 소견을 볼 수 있었고, Udagawa 등⁶과 Alvarado-Cerna 등⁷은 이러한 병소들은 보통 균이 직접 침범함으로써 생기며 혈행성이나 임파성 전염은 드물다고 보고한 바 있다. 주된 감염 부위에 따라 경안부, 흉부, 복부 및 골반부, 그리고 전신 과급형으로 구별되며² Putaman 등⁸은 두경부형 60%, 그리고 복부 및 흉부가 각각 20%로 부위별 빈도를 보고한 바 있다. 방선균이 대장을 침범하는 경위는 크게 세 가지로서 혈류에 의한 감염과 균을 직접 삼키는 경우, 말단 부위에 있는 장에서의 세균 증식에 의한 경우이다.⁷ 방선균은 정상적으로 대장에 존재하며 특히 정체가 심한 부위, 즉 맹장과 충수에 많이 존재하나 정상 점막을 통과하지는 않으며 질환을 일으키기 위해서는 장점막의 손상이 있어야 한다. 따라서 충수염, 장천공, 수술 기왕력, 이물질이나 종양 등이 선행 요인이 될 수 있다고 보고한 바 있으며⁹ 본 증례 4, 5에서도 각각 충수돌기 절제술 기왕력과 자궁 내 피임 장치 등의 유발 인자를 찾아낼 수 있었다. 세균이 장점막을 침투하면 지속적으로 균이 전파되어 복부 내 세균 증식의 주요한 원인이 되며 감염이 진행되면서 육아 조직, 섬유성 조직, 다수의 농양, 누공 등이 생길 수 있다. 이 질환은 대개 서서히 진행하며 정확한 진단이 내려지기 전까지 한 달에서 수 년 정도의 비특이적인 증세가 있고 동반되는 소견으로는 변비, 복통, 체중 감소, 오한, 백혈구 증가, 복부 종괴, 누공 등이 있을 수 있으며¹⁰ 본 증례에서도 변비나 복통을 주소로 내원한 경우가 많았고 5예 중 4예에서 백혈구 증가 소견이 관찰되었다. 방선균증은 암종이나 육종, 계실 농양, 염증성 장질환이나 결핵 등과 감별이 어려워 진단이 매우 어렵고 10% 미만에서 술전 진단이 가능하다.^{11,12} 비교적 특징적 소견인 유황 과립은 고름

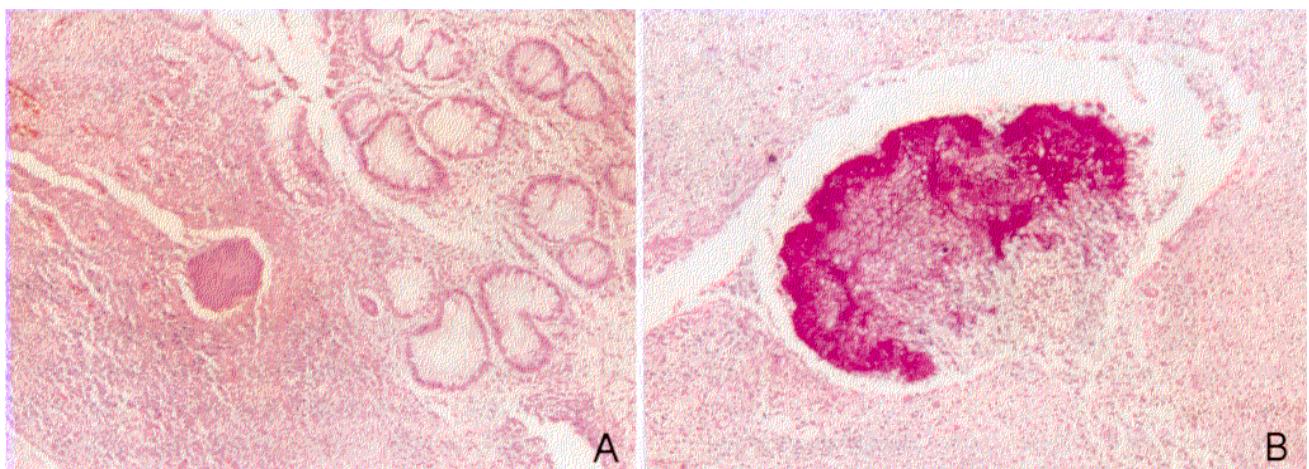


Figure 4. Characteristic “sulfur granules” of the actinomycosis. (A) Photomicrograph shows actinomycotic abscesses containing sulfur granules with radiating filaments (PAS stain, $\times 40$). (B) A magnified view of the characteristic sulfur granule (PAS stain, $\times 400$).

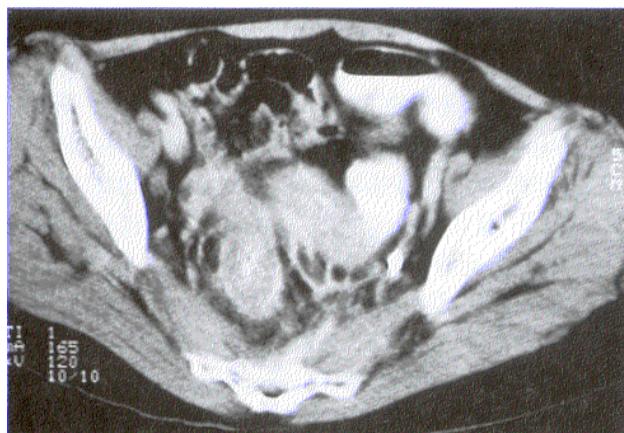


Figure 5. Abdominal CT scan shows diffuse wall thickening with luminal narrowing of rectum extending to sigmoid colon with pericolic fat infiltration.

에서 얻어지며 때로는 육안으로 보이기도 하나 50%에서만 관찰되며 노카르디아나 연쇄상 구균, 포도상 구균 등에서도 방선균증 때 보이는 유황 과립과 비슷한 소견을 보일 수 있다고 알려져 있다.¹³ 본 증례의 경우 5 예 모두에서 유황 과립이 관찰되었는데(Fig. 4A, B) 이는 대부분이 수술 후 진단이 됨으로 인해 충분한 조직 채취가 가능하여 높은 관찰률을 보인 것으로 생각된다. Cintron 등¹⁰은 복부 방선균증 환자 2예의 보고에서 방사선학적인 검사가 진단에 있어 매우 유용하지는 않지만 복부 전산화단층촬영의 경우 부분적 감쇠를 동반한 고형성 종괴라든지 조영제 주입 시 증강되는 두꺼운 벽을 가진 낭종 등의 소견을 보임으로써 비교적 도움이 된다고 하였으며 본 증례에서는 비균질 종괴 형성



Figure 6. Barium enema shows diffuse wall thickening of rectosigmoid area with luminal narrowing.

소견이 4예에서 관찰되나 두꺼운 벽을 가진 낭종은 관찰되지 않았다(Fig. 5). 종괴는 관강 내, 외 모두에 생길 수 있고 침윤에 의해 생기며 심한 결합조직 형성반응(desmoplastic reaction)과 상관있고 악성 종양의 진행 과정과 구분이 어렵다.^{14,15} 본 증례에서도 여러 장기의 침범을 볼 수 있었고 비교적 많은 장기 침범에 비해 증례 1에서만 임파선 침범이 관찰되어 악성 종양에 비해 상

대적으로 적은 임파선 침범 소견을 보였다(Table 1). 대장 조영 촬영술상 대장 방선균증의 특징적인 소견은 없으며 Uchiyama 등¹⁶은 내강이 좁아진 소견과 용종 모양의 병변을 보고한 바 있으며 본 증례의 경우 대장 조영 촬영술을 시행한 4예 중 3예에서 내강이 좁아진 소견이 관찰되었다(Fig. 6). 약물 요법만으로도 방선균증을 박멸시키는 데 효과적이지만 상당량의 2차성 섬유화를 동반하므로 장기간의 치료를 요하며 매일 페니실린 G 1,000만에서 2,000만 단위로 4주에서 6주간 주사 후 경구용 페니실린 VK를 퀼로그램당 25 mg에서 30 mg씩 6시간마다 6개월에서 12개월간 투여가 권장된다.¹⁷ Tetracycline이나 erythromycin으로 대치할 수 있으며⁷ 다른 세균에 의한 중복 감염이 혼하므로 4주 치료에 반응이 없을 때에는 주의깊게 관찰해야 한다. 그러나 심한 조직 반응에 의해 생긴 무혈성 공간에 있는 병소의 경우 약물 요법이 효과적이지 않으며 따라서 농양이나 축농(empyema)이 동반되었을 때, 치료에 반응이 없는 누공 등이 생겼을 때나 암이 완전히 배제되지 않는 경우는 수술적 치료가 권장되며¹⁷ 대개 수술적 치치 또는 약물 요법으로 90%가 치료된다.¹⁰ 저자 등은 본 연구를 통해 자궁 내 피임장치, 충수돌기 절제술 기왕력, 당뇨병 등의 유발 인자가 동반되어 있고 검사실 소견상 백혈구 증가를 보이면서 방사선학적 소견상 비균질 종괴를 동반하거나 주위 조직과의 유착이 심하며 비교적 많은 장기 침범에도 불구하고 적은 임파선 침범을 보이는 경우는 복부 방선균증을 염두에 둠으로 불필요한 수술을 줄일 수 있으리라 생각된다.

요 약

목적: 대장 및 직장에 발생한 방선균증은 드문 질환으로 임상 양상이나 방사선학적 소견이 다른 염증성 장질환이나 종양과의 감별이 어려운 것으로 알려져 있다. 이에 저자 등은 대장 암 또는 충수돌기 주위 농양으로 오인된 5예의 대장 및 직장에 발생한 방선균증의 임상 양상 및 경과와 방사선학적 소견 등을 분석해 봄으로서 불필요한 수술을 줄일 수 있으리라 생각된다.

대상 및 방법: 대장암 및 충수돌기 주위 농양으로 오인된 복부 방선균증 환자 5예를 대상으로 환자의 주증상, 유발 인자와 검사실 소견상 백혈구 증가의 유무 및 조직 생검상 유황 과립의 존재 유무, 장기의 침범 부위와 임파선 침범 유무, 복부 전산화단층촬영상 비균질 종괴 형성과 주위 조직 침범 및 대장 내강의 협착 유무를 후향적으로 조사하였다. **결과:** 임상 증상은 주로 복통을

호소하였으며 유발 인자로는 5예 중 3예에서 자궁 내 피임 장치, 충수돌기 절제술 기왕력, 당뇨 등이 각각 있었다. 검사실 소견상 4예에서 백혈구 증가가 있었고 5예 모두에서 조직 생검상 유황 과립이 관찰되었다. 침범 부위별로는 S상 결장이 4예, 충수돌기와 직장이 각각 3예씩 있었으며 임파선 침범은 1예에서만 관찰되었다. 복부 단층 촬영 소견상 비균질 종괴가 보이거나 주위 장벽이나 장막을 따라서 심한 염증이 동반된 소견 등을 관찰할 수 있었다. 4예에서 수술을 했으며, 이중 3예는 대장암으로 1예는 충수돌기 주위 농양으로 오인하였다. **결론:** 대장 및 직장에 발생한 방선균증은 임상 양상과 방사선학적 소견이 종양과 유사하여 감별이 어려운 질환이다. 따라서 자궁 내 피임장치, 충수돌기 절제술 기왕력, 당뇨병 등의 유발 인자가 동반되어 있고 백혈구 증가를 보이면서 방사선학적 소견상 비균질 종괴를 동반하거나 주위 조직과의 유착이 심하며 비교적 많은 장기 침범에도 불구하고 적은 임파선 침범을 보이는 경우는 한 번쯤 복부 방선균증을 염두에 둠으로 불필요한 수술과 치치를 줄일 수 있으리라 생각된다.

색인단어: 복부 방선균증, 대장 및 직장암, 충수돌기 주위 농양

참 고 문 헌

1. 김인섭, 김홍용, 이혁상 등. 복부 방선균증. 대한소화기병학회지 1983;15:151-156.
2. Robbins TS, Scott SA. Actinomycosis; the disease and its treatment. Drug Intell Clin Pharm 1981;15:99-102.
3. Berardi RS. Abdominal actinomycosis. Surg Gynecol Obstet 1979;149:257-266.
4. Harz CO. Actinomycosis bovis eine neuer schimmel in den Geweben des Gindes. Jahresberd. Konigl Central-Thierarzneishule zu Muncen 1879;125:1877-1879.
5. Schaal KP, Beaman BL. The biology of the actinomycetes. London: Academic Press 1984.
6. Udagawa SM, Portin BA, Bernhoft WH. Actinomycosis of the colon and rectum: report of two cases. Dis Colon Rectum 1974;17:687-695.
7. Alvarado-Cerna R, Bracho-Riquelme R. Perianal actinomycosis-a complication of a fistula-in-ano. Dis Colon Rectum 1994; 37:378-380.
8. Putamen HC, Dokerty MB, Waugh JM. Abdominal actinomycosis. Surgery 1950;28:781-799.
9. Fowler RC, Simpkins KC. Abdominal actinomycosis: a report of three cases. Clin Radiol 1983;34:301-307.
10. Cintron JR, Del Pino A, Duarte B, Wood D. Abdominal actinomycosis: report of two cases and review of the literature.

- Dis Colon Rectum 1996;39:105-108.
11. Deshmukh N, Heaney SJ. Actinomycosis at multiple colonic sites. Am J Gastroenterol 1986;81:1212-1214.
 12. Thompson RJ, Watts R Jr, Thompson WC. Actinomycetoma masquerading as an abdominal neoplasm. Dis Colon Rectum 1982;25:368-370.
 13. Weese WC, Smith IM. A study of 57 cases of actinomycosis over a 36 year period. A diagnostic 'failure' with good prognosis after treatment. Arch Intern Med 1975;135:1562-1568.
 14. Ha HK, Lee HJ, Kim H, et al. Abdominal actinomycosis: CT findings in 10 patients. AJR Am J Roentgenol 1993;161:791-794.
 15. Chan YL, Cheng CS, Ng PW. Mesenteric actinomycosis. Abdom Imaging 1993;18:286-287.
 16. Uchiyama N, Ishikawa T, Miyakawa K, et al. Abdominal actinomycosis: barium enema and computed tomography findings. Am J Gastroenterol 1997;32:89-94.
 17. Goldwag S, Abbott PL, Watts B. Case report: percutaneous drainage of periappendiceal actinomycosis. Clin Radiol 1991; 44:422-424.