

위절제술 후 *Streptococcus mitis*에 의한 비장 Botryomycosis 1예

울산대학교 의과대학 강릉아산병원 ¹내과, ²병리과

한양희¹ · 이상진¹ · 권준성¹ · 최규호¹ · 김문호¹ · 송은희¹ · 강길현²

A Case of Splenic Botryomycosis Caused by *Streptococcus mitis* in a Patient with a Previous Distal Gastrectomy

Yang Hee Han¹, Sang Jin Lee¹, Jun Sung Kwon¹, Kyoo Ho Choi¹, Moon Ho Kim¹, Eun Hee Song¹, and Gil Hyun Kang²

Departments of ¹Internal Medicine and ²Pathology, Gangneung Asan Hospital,
University of Ulsan College of Medicine, Gangneung, Korea

Botryomycosis is an uncommon chronic suppurative bacterial infection of the skin and visceral organs seen primarily in immunocompromised patients. Here, we report a case of splenic botryomycosis caused by *Streptococcus mitis* in a 53-year-old immunocompetent woman with a history of distal gastrectomy for advanced gastric cancer. (Korean J Med 2015;88:608-611)

Keywords: Botryomycosis; Gastrectomy; Spleen; *Streptococcus mitis*

서 론

Botryomycosis는 임상적 및 조직학적으로 진균성 감염 질환이나 방선균증과 매우 유사한, 드물게 발생하는 만성적인 화농성 세균 감염이다. Botryomycosis의 전형적인 조직학적 소견은 과립 형태의 세균 집락을 포함하는 농양 및 이를 둘러싸는 미세한 호산성 과립의 형성을 특징으로 한다. 근육과 뼈에 대한 침범을 포함하는 피부형이 상대적으로 흔하며 보고된 증례의 75%를 차지한다[1]. 내장형은 드문 편이나 1913년 Opie [2]에 의해 사람의 내장 장기에 침범한 예가 보고된 이후 많은 증례보고가 있어 왔다. 내장형 botryomycosis는 폐, 간, 안구, 장, 뇌, 신장, 전립선 등을 침범할 수 있으나 폐

에 발생한 예가 가장 많았다[3].

Botryomycosis는 주로 당뇨병, 간 질환, 낭포성 섬유증, human immunodeficiency virus (HIV) 감염 등의 기저 질환 및 스테로이드 사용력, 수술 후 스트레스 등과 관련된 것으로 알려져 있으나 위험 요인을 확인할 수 없는 경우도 있었다[3]. 지금까지 사람에서 발생한 botryomycosis는 200예[4]가량 있지만 전 세계적으로 비장을 침범한 사례는 2예[5,6]밖에 없으며 우리나라에서는 아직 보고된 증례가 없었다. 이에 저자들은 53세 여자 환자에서 진행성 위암으로 원위부 위절제술 이후 합병된 비장 botryomycosis 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: 2014. 6. 5

Revised: 2014. 7. 15

Accepted: 2014. 8. 20

Correspondence to Sang Jin Lee, M.D.

Department of Internal Medicine, Gangneung Asan Hospital, University of Ulsan College of Medicine, 38 Bangdong-gil, Sacheon-myeon, Gangneung 210-711, Korea

Tel: +82-33-610-3948, Fax: +82-33-641-8130, E-mail: sangjin@naver.com

Copyright © 2015 The Korean Association of Internal Medicine

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례

주 소: 53세 여자(153 cm/80 kg)가 내원 1주일 전부터 발생한 좌측 상복부 통증을 주소로 응급실에 내원하였다.

현병력: 평소 건강했던 환자는 내원 1개월 전 건강검진에서 위 전정부에 진행성 위암이 확진되어 내원 16일 전 원위부 위절제술을 시행 받았다. 위절제술 전에 시행한 복부 전산화 단층촬영상 비장에서 관찰된 특이소견은 없었으며, 수술 후에도 특이 합병증 없이 퇴원하였으나 내원 1주일 전부터 좌측 상복부 및 옆구리 통증이 시작되었고 내원 시 복부 전반에 걸친 통증 악화 및 동반된 발열이 있었다.

과거력 및 사회력: 3년 전부터 고혈압으로 약물 복용 중이며 5개월 전 자궁근종에 대한 전자궁 적출술을 시행한 병력이 있으나 당뇨나 간염 그리고 폐결핵의 병력은 없었다. 사회적인 음주는 하였으나 비흡연자였다.

이학적 소견: 응급실 내원 당시의 혈압은 113/79 mmHg, 체온은 38.5°C, 맥박수는 92회/분, 호흡수는 22회/분이었고 의식은 명료하였다. 환자는 급성 병색을 보였고 결막은 창백하였으며 복부 진찰 시에 좌측 상복부 압통 및 반발통이 있었다.

검사실 소견: 내원 당시의 말초 혈액 검사상 백혈구 43,000/mm³, 해모글로빈 8.4 g/dL, 혈소판 473,000/mm³, 프로트롬бин 61% (international normalized ratio [INR] 1.44)였다. 혈청 생화학 검사에서 총 단백 6.6 g/dL, 알부민 3.1 g/dL, BUN 30.1 mg/dL, Cr 1.2 mg/dL, AST 16 IU/L, ALT 12 IU/L, alkaline

phosphatase (ALP) 398 IU/L, Total bilirubin 1.3 mg/dL, C-reactive protein (CRP) 30.6 mg/dL였다. HBsAg 음성, HBsAb 음성, HCV-Ab 음성, Anti-HIV 음성이었고, 전해질 검사상 나트륨 이온 133 mEq/L, 칼륨 이온 3.0 mEq/L, 염소 이온 95 mEq/L였다. 동맥혈 가스 검사상 pH 7.55, pCO₂ 26 mmHg, pO₂ 59 mmHg, Bicarbonate 22.7 mmol/L, SaO₂ 94%였다.

방사선 소견: 복부 전산화 단층촬영상에서 비장 및 위 주위 공간에 혈종이 있고 비장 정맥에 혈전이 관찰되었다. 비장 전위부의 경계가 불명확하며 저음영으로 보여 비장 경색 및 파열 가능성이 높았다(Fig. 1).

조직 검사 소견: 복부 전산화 단층촬영에서 보인 소견에 대해 비장절제술 및 위전절제술을 시행하였다. 적출된 비장은 파열되어 있었으며 절단면에서 광범위한 백색의 결절성 괴사 소견을 보였다. Hematoxylin-Eosin 염색에서 주변부에 호산성 염증세포들이 둘러싸고 있는 액화성 괴사 및 다수의 농양이 있었고 농양 속에서 과립상 물질이 관찰되었다. 과립량 물질은 Periodic acid-Schiff (PAS) 염색 양성, Gomori's methenamine silver (GMS) 염색 음성이었으며 그램 염색에서 양성으로 염색되는 다수의 세균이 관찰되었다. 방선균 혹은 진균과는 다르게 사상체 및 균사를 확인할 수 없어 botryomycosis로 진단하였다(Fig. 2).

치료 및 경과: 적출된 비장에서 그람 양성 균주가 보이고 내원 시 시행한 혈액 배양 검사에서 자란 *Streptococcus mitis* 가 Penicillin에 감수성이 있어 ampicillin + sulbactam을 사용



Figure 1. Abdomen computed tomography at admission shows a splenic infarction with splenic vein thrombosis and rupture, with a hematoma in the perisplenic space. (A) Axial view. (B) Transverse view.

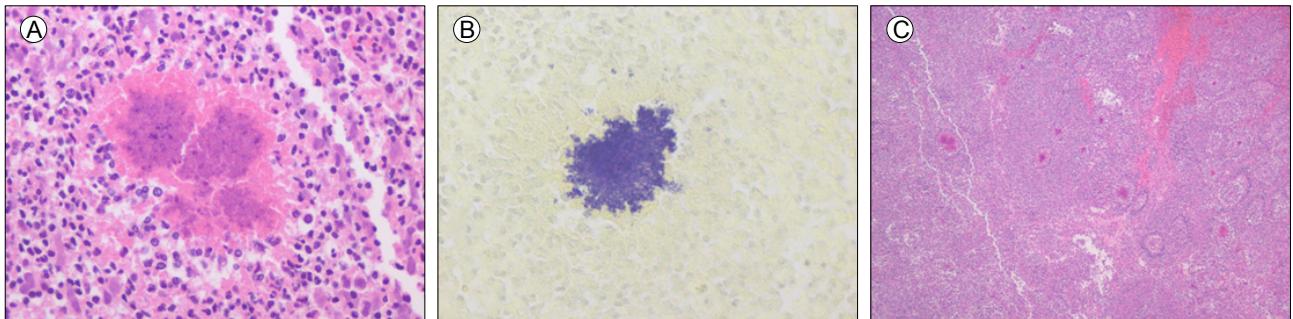


Figure 2. The splenectomy specimen shows evidence of botryomycotic granules. (A) H&E staining of a splenic abscess shows eosinophilic grains (400 \times magnification). (B) The grains were composed of Gram-positive cocci (400 \times magnification). (C) A splenic abscess with eosinophilic grains (H&E 40 \times magnification).

하면서 경과관찰하였다. 비장이 적출된 상태이고 비장절제술 2주 및 4주 후 추적한 복부 전산화 단층촬영에서 감염성 체액(*infected fluid*) 등의 악화 소견이 없었으며 발열, 복통 등의 증상이 호전되어 4주간 항생제 유지 후 퇴원하였다. 퇴원 후 3년 동안 외래에서 추적 관찰 중으로 추적한 복부 전산화 단층촬영에서 재발 소견은 보이지 않았다.

고 찰

Botryomycosis는 그리스 어원상 *botrys* (포도송이)와 *mycosis* (곰팡이)에서 유래된 것으로 Bollinger는 1870년에 최초로 말의 폐에서 호산성 물질에 둘러싸인 밀집된 미생물 덩어리를 분리해 냈으며, 1884년 Rivolta가 이러한 포도송이 모양의 과립에 대해 botryomycosis로 명명하였다[2]. Opie가 1913년에 인간의 간에서 발생한 botryomycosis를 처음으로 보고하였으나 원인균은 알 수 없었고, 1919년 Magrou가 botryomycosis의 원인균으로 *Staphylococcus aureus*를 처음 분리해냈다[2,7].

원인균을 포함하여 과립을 형성하는 질환에는 botryomycosis 외에도 진균증(mycetoma), 방선균균증(actinomycetoma), 방선균증(actinomycosis)이 있다. Botryomycosis는 과립형 세균증(bacteriosis)으로 원인 물질은 사상체가 없는 호기성 및 혐기성 그람 양성 혹은 그람 음성 세균이며[4,8], 이들의 예로는 *Staphylococcus aureus* (40%), *Pseudomonas aeruginosa* (20%), coagulase-negative *Staphylococci*, *Streptococcus species*, *Escherichia coli*, *Proteus species* 등이 보고되었고[1] 최근 acquired immune deficiency syndrome (AIDS)와 같은 면역 저하자에 있어 *Pneumocystis jirovecii*, *Serratia marcescens*, *Actino-*

bacillus lignieresii, *Moraxella species* 등이 보고되었다[4,5]. 이번 증례에서는 혈액 배양 검사에서 *Streptococcus mitis*가 동정되었고 적출된 비장에서는 호산성 과립에 둘러싸여 있는 그람 양성균을 확인했다.

Botryomycosis는 원인균의 침범 부위에 따라 피부형과 내장형으로 분류된다[7]. 피부형은 전체 증례의 75%이고 상대적으로 좋은 예후를 보이며 손, 발, 머리 같은 노출된 피부에 잘 생기나 이차적으로 감염되는 경우 근육과 뼈를 침범할 수 있다. 내장형은 드물며 폐, 간, 신장, 뇌, 위장관, 눈, 전립선, 복막강(peritoneal space), 비장, 구강(oral cavity), 심장, 심장막(pericardium)을 침범할 수 있고[4,5] 대부분 치료에 잘 반응하였으나 동시에 여러 장기를 침범한 경우 사망한 예도 있었다[5-7]. 내장형 botryomycosis 중 침범된 장기에서 기원하면 원발성이고 원발 피부(cutaneous) 병변으로부터 내부 장기로 파급되면 속발성이라 하는데[4,9] 본 증례에서는 수술 후 절개 부위 및 문합 부위에 관련하여 원발된 피부 병변이 없었기 때문에 수술이 요인이 된 원발성 비장 botryomycosis로 진단했다.

Botryomycosis의 발생기전은 아직 명확히 밝혀진 것이 없지만 원인 세균의 독성이 낮음에도 불구하고 숙주의 이상 면역성을 유발하여 원인균의 침범을 용이하게 만드는 소인적 요인이 관여하는 것으로 알려져 있다. 이러한 소인적 요인에는 HIV 감염, 낭포성 섬유증, 당뇨, 간 질환 외에도 수술, 피부 외상, 생선 뼈 같은 이물질의 삽입, 스테로이드 치료, 알코올 중독, 영양실조 및 사구체신염 등이 있다[9]. 특히 내장형 botryomycosis 중 여러 증례가 입원 환자에서 수술과 관련되어 병원성 미생물에 의해 발생됨이 보고되었다[4]. 본 증례에서 위절제술 전 비장에서 발견되었던 특이소견은 없

었고 수술 후 감염이 발생하였으며 면역 기능이 정상인 환자에서 botryomycosis 발생에 관여하는 소인적 요인 중 확인된 것은 수술이었다.

원발성 내장형 botryomycosis는 비특이적인 증상을 보이고 특징적인 방사선 소견이 없어 비감염성 질환과 혼동되는 경우가 종종 있으며 종양으로 오진되기도 한다. Vasishta 등[5]이 비장 botryomycosis에 대해 보고한 증례를 보면 30세 남자가 6개월 동안 복부 전반에 걸친 통증 및 체중 감소가 있었으며 복부 초음파상에서는 5 cm 크기의 종양으로 보였고 비장 농양과 감별이 필요했다.

Botryomycosis의 진단은 조직학적으로 과립량 물질 내에서 사상체가 없는 원인 세균을 발견하는 것으로 이루어진다. Botryomycosis의 조직학적 소견은 주변부에 다핵의 거대한 세포와 섬유성 결체조직을 가지는 상피성 육아종 및 과립성 조직 혹은 섬유화가 있으면서 이들에 의해 둘러싸인 중심부의 화농성 괴사로 특징을 수 있다[10]. 그리고 농양의 가운데에는 부정형의 호산성 물질에 의해 둘러싸인 세균 집락을 관찰할 수 있는데 이것을 Splendore-Hoeppli 현상[8,10]이라 하며 botryomycosis 외에도 진균종(mycetoma), 방선균균종(actinomycetoma), 방선균증(actinomycosis)에서 관찰될 수 있다. 진균종은 진균을 위한 특수 염색(Periodic acid-Schiff 및 Gomori's methenamine silver 염색)에 양성이나 그람 염색에 음성을 보이는 균사로 감별할 수 있고 botryomycosis는 PAS 염색에 양성이고 그람 염색에 양성 혹은 음성의 포도송이 모양의 과립을 볼 수 있어서 사상체를 보이는 방선균증 및 방선균균종과 감별할 수 있다. 본 증례에서는 호산성 물질에 둘러싸인 PAS 및 그람 염색 양성의 사상체가 없는 과립 형태의 세균 집락을 관찰하여 botryomycosis로 진단할 수 있었다.

본 증례에서는 비장 절제 후 4주간의 항생제 치료를 했다. 다른 비장 침범 증례에서도 수술적 절제 후 항생제 사용으로 호전을 보였으나 비장 외에 다른 장기도 침범된 1예에서는 환자가 회복되지 못하고 사망하였다[5,6]. Botryomycosis 치료에 있어 가능한 여러 방법이 시도되어 왔으나 현재까지는 수술적 절제와 적절한 항생제를 병합하는 것이 가장 효과적인 치료로 알려져 있다[4].

요 약

Botryomycosis는 과립상 물질을 형성하는 만성 화농성 육

아종 감염 질환이고 세균이 원인이며 조직학적으로 진균종, 방선균균종, 방선균증과 감별된다. Botryomycosis의 발생에 있어 세균의 독성에 대한 숙주의 국소적인 면역체계 이상이 원인이 될 수 있으나 아직 명확하게 밝혀진 것은 없다. 내장형 botryomycosis는 비특이적인 증상을 보이고 특징적인 방사선 소견이 없어 종양으로 오진되기도 하므로 진단에 주의를 요한다. 지금까지 전 세계적으로 사람에서 발생한 botryomycosis는 200예 이상의 보고가 있었으나 비장을 침범한 사례는 2예밖에 없었으며 우리나라에서 보고된 증례는 없었다. 이에 저자들은 면역 기능이 정상인 53세 여자에서 위암 진단 후 시행한 위절제술에서 합병된 *Streptococcus mitis*에 의한 botryomycosis의 비장 침범 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어: Botryomycosis; 위절제술; 비장; 스트렙토코쿠스미티스

REFERENCES

1. Bersoff-Matcha SJ, Roper CC, Liapis H, Little JR. Primary pulmonary botryomycosis: case report and review. Clin Infect Dis 1998;26:620-624.
2. Opie EL. Human botryomycosis of the liver. Archives of Internal Medicine 1913;11:425.
3. Bae KW, Kim YS, Jee YK, et al. A case of primary pulmonary botryomycosis by *Gemella morbillum*. Korean J Med 2005;68:587-591.
4. Padilla-Desgarennes C, Vázquez-González D, Bonifaz A. Botryomycosis. Clin Dermatol 2012;30:397-402.
5. Vasishta RK, Gupta N, Kakkar N. Botryomycosis-a series of six integumentary or visceral cases from India. Ann Trop Med Parasitol 2004;98:623-629.
6. Carson HJ, Perkins JT. Visceral botryomycosis in a case of *Erysipelothrix rhusiopathiae* endocarditis. Hum Pathol 2005;36:117-119.
7. Winslow DJ. Botryomycosis. Am J Pathol 1959;35:153-167.
8. Kim YS, Kwon SH, Jee YK, et al. A case of visceral botryomycosis accompanied by early lung cancer. Korean J Med 1998;54:427-432.
9. de Vries HJ, van Noesel CJ, Hoekzema R, Hulsebosch HJ. Botryomycosis in an HIV-positive subject. J Eur Acad Dermatol Venereol 2003;17:87-90.
10. Charles AK, Hunt JB, Walker JM. Renal botryomycosis. Histopathology 1993;22:293-294.