

영아의 안면부에 발생한 피부림프형 스포로트리쿰증 1예

대구가톨릭대학교 의과대학 피부과학교실

현동녘 · 원종훈 · 박준수 · 정 현 · 전재복

= Abstract =

A Case of Lymphocutaneous Sporotrichosis on the Infantile Face

Dong Nyeok Hyun, Jong Hoon Won, Joon Soo Park, Hyun Chung and Jae Bok Jun

Department of Dermatology, The Catholic University of Daegu School of Medicine, Daegu, Korea

Sporotrichosis is a chronic cutaneous fungal infection caused by *Sporothrix (S.) schenckii*. It is subdivided into three groups by clinical manifestation: lymphocutaneous, fixed cutaneous, disseminated sporotrichosis. Lymphocutaneous sporotrichosis is most common type and involves upper extremities usually. The incidence of lymphocutaneous sporotrichosis on the face is very low, especially in children. We report a case of lymphocutaneous sporotrichosis on face in a 10-month-old girl. The lesions represented linear three small erythematous papules on the right cheek. The fungal culture on Sabouraud's dextrose agar showed dark brown to black colored wrinkled colonies. The microscopic examination showed septated, branched mycelia and clustered conidia in slide culture of *S. schenckii*. The patient was treated with oral administration of potassium iodide and the lesions were cured completely.

[Kor J Med Mycol 2008; 13(2): 75-79]

Key Words: Infantile face, Lymphocutaneous sporotrichosis

서 론

스포로트리쿰증은 *Sporothrix (S.) schenckii*에 의해 발생하는 피부 및 피하조직의 만성 육아종성 진균 감염증으로 피부외상이나 식물, 토양 및 동물과의 접촉, 그리고 균의 흡입을 통하여 주로 감염된다^{1,2}. 임상적으로 피부림프형, 고정형, 전신형으로 분류하며, 이 중 피부림프형이 가장 흔한 형태로 전체의 약 75%를 차지한다^{2,3}. 피부림프형은 주로 성인에서 발병하고 상지에 호발하며, 임상적으로 림프관을 따라 선상으로 배열된 결절과 궤양이 특징적으로 관찰된다^{1,4}. 안면부에 흔하게

발생하는 고정형과는 달리, 안면부에 발생한 피부림프형 스포로트리쿰증은 흔하지 않은 편이며, 특히 소아에서는 현재까지 국내 문헌상 보고된 바가 없는 매우 드문 증례로 생각된다¹.

저자들은 10개월된 영아의 안면부에 발생한 피부림프형 스포로트리쿰증 1예를 경험하고 보고된 바 없는 매우 드문 증례로 생각하여 문헌 고찰과 함께 보고한다.

증 례

환 자: 김 O O, 10개월, 여아

주 소: 우측 뺨에 선상으로 배열된 쌀알 크기의 3개의 적색 구진

현병력: 내원 약 3개월 전 우측 뺨 안쪽에서 적색의 구진이 발생하여 단순 관찰하였으나 내원

†별책 요청 저자: 박준수, 705-718 대구광역시 남구 대명 4동 3056-6, 대구가톨릭대학교 의과대학 피부과학교실
전화: (053) 650-4161, Fax: (053) 650-4891
e-mail: g9563009@cu.ac.kr



Fig. 1. Linearly arranged, three erythematous papules on the right cheek

1개월 전부터 점차 병변이 우측 하방으로 번지면서 선상의 배열을 나타내었다 (Fig. 1).

과거력 및 가족력: 특기 사항 없음

피부 소견: 우측 뺨에 2~4 mm 크기의 3개의 적색 구진이 선상으로 배열된 양상을 보였다.

이학적 소견: 피부 소견 외 특기 사항 없음

병리조직학적 소견: 얼굴의 병변에서 펀치 생검 후 실시한 병리조직학적 검사상 표피의 위상 피중성 과형성, 표피결손이 보이며, 진피내에 림프구, 조직구, 형질세포 및 거대세포로 구성된 만성 염증성 육아종이 관찰되었으나 성장체는 관찰되지 않았다 (Fig. 2). 또한 PAS 염색상에서도 음성 소견을 보였다.

진균학적 소견: 피부 병변에서 실시한 KOH 검사상 음성이었고, 병변의 일부를 채취하여 Sabouraud 배지에 접종하여 25℃에서 7일간 배양한 결과 암갈색의 집락을 형성하였다 (Fig. 3). 형성된 집락을 슬라이드 배양하여 lactophenol cotton blue로 염색한 후 현미경으로 관찰한 결과 분지된 균사의 첨단부와 측면부에 화분상의 분생자 집단이 관찰되어 *S. schenckii*로 동정하였다 (Fig. 4).

역학적 고찰: 환아는 아파트에 거주하며 외부 활동이 거의 없는 상태로 보호자가 기억하는 외상의 병력은 없었고, 병변 발생시 자가 보행이 불가능한 상태였다. 가족 모두 특이 외부 활동이 없는 상태였으며, 실내에서 관상용 식물을 많이

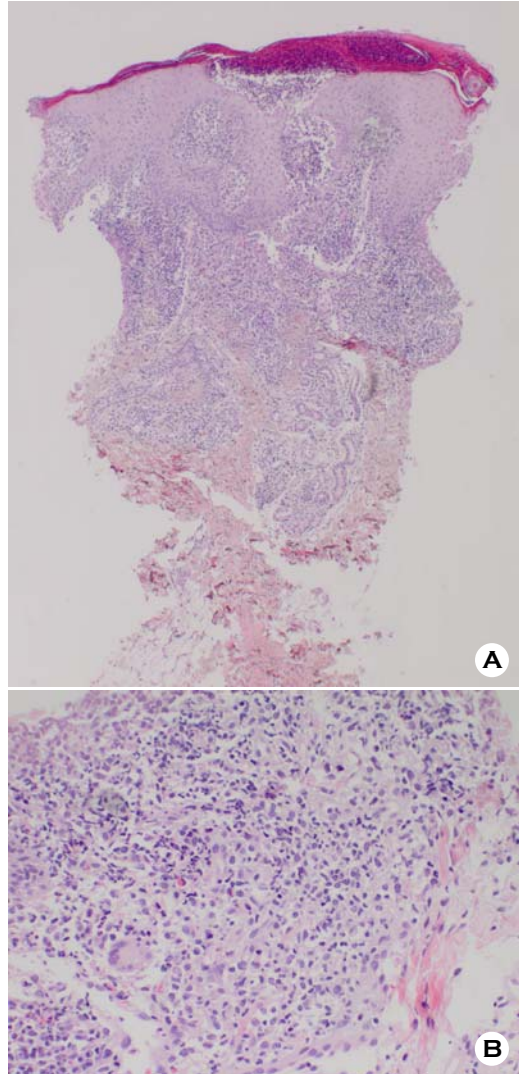


Fig. 2A. Histologic examination revealed pseudoepitheliomatous hyperplasia and loss of epidermis partially (H & E stain, ×40).

Fig. 2B. Granulomatous infiltration composed of lymphocytes, histiocytes, plasma cells and giant cells were seen in dermis (H & E stain, ×200).

재배하였다.

치료 및 경과: 요오드화 칼륨 포화용액을 1방울/1회, 하루 3회로 치료를 시작하였으며, 점차 증량하여 5방울/1회, 하루 3회로 3개월간 총 68 gm 투여 후 병변은 호전을 보였으며, 현재 추적 관찰중이다.

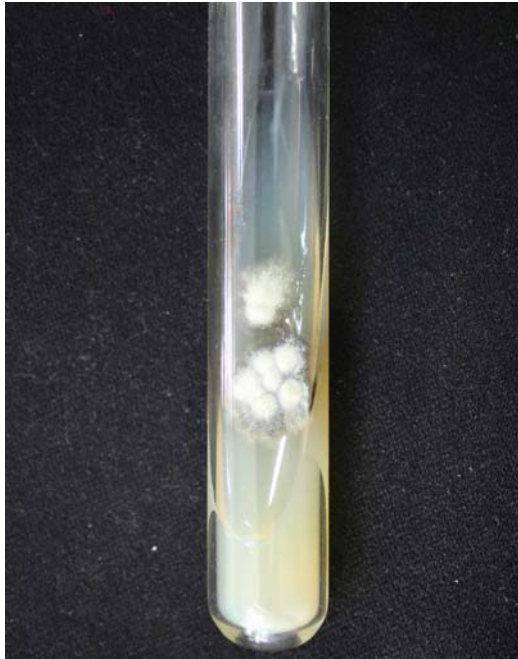


Fig. 3. Dark brown colonies on Sabouraud's dextrose agar at 25°C for 7 days



Fig. 4. Septated mycelia and clustered conidia were seen in slide culture of colonies of *S. schenckii* (Lactophenol cotton blue stain, ×200).

고 찰

스포로트리쿰증은 *S. schenckii*에 의한 만성 육아종성 진균 감염증으로 피부, 피하조직 및 여러 장기를 침범한다. 원인균인 *S. schenckii*는 자연계에 널리 존재하여 토양, 부패한 야채류, 나무, 식물가시 및 동물 등에서 발견되며 주로 농부, 원예가, 노동자 등에서 발병한다. 우발적인 외상에 의해 발생하는 경우가 많으며, 최근 각종 질환 및 약물의 오남용 등으로 인해 면역이 저하된 성인에게서도 발생이 증가하고 있는 추세이다^{1,2,5,6}.

본 증은 임상적으로 감염되는 양상과 경로에 따라 피부립프형, 고정형, 전신형으로 나눌 수 있다³. 피부립프형은 균의 접종 후 7~30일간의 잠복기를 거친 후 무통성의 단단한 결절 또는 궤양이 원발 병소에서 발생하기 시작하며, 수 일 혹은 수 주 내에 림프관을 따라 근위부 방향으로 선상배열된 결절과 궤양이 속발하는 양상을 보인다^{1,7}. 고정형은 림프관의 침범 없이 균 접종 부위

에 주로 가피로 덮힌 궤양 또는 육아종성 결절이 발생하고 다양한 임상양상을 나타낸다^{1,2,8}. 전신형은 초기 병소가 발생한 후 자가접종이나 혈행성으로 전파되어 림프관의 주행과는 무관하게 신체 여러 부위에 감염을 일으킨다. 이 같이 임상양상의 차이를 보이는 이유는 아직 명확하게 밝혀지지 않았으나 균 접종 부위와 양, 개체의 면역 상태, 균주의 병원성 차이 등이 관여하리라 생각되고 있다^{1,3}.

스포로트리쿰증은 외상을 잘 받을 수 있는 손, 발을 포함한 사지와 안면부와 같은 노출 부위에 주로 발생하며 각 병형별로 호발 부위의 차이를 보이는데 피부립프형은 사지, 특히 우측 상지에, 고정형은 안면부에서 많이 발생한다^{1,7,9}. 안면부에 피부립프형이 발생하는 경우는 드문 편으로 국내 문헌상 총 5예의 보고가 있었으며, 신원정보를 확인할 수 없는 1예를 제외하고는 46~57

Table 1. The reported cases of lymphocutaneous sporotrichosis on the face in Korean dermatologic literatures

Author	Year	Sex/Age	Site	Trauma	Duration	Treatment
Jeon et al.	1976	F/57	Nose, Lt. cheek	Yes	1 mo	KI
Park et al.	1988	M/53	Nose, Cheek	Yes	6 mo	Ketoconazole → KI
Yim et al.	1997	-	Face	-	-	-
Chon et al.	2001	F/46	Forehead	Yes	1 mo	KI
		F/56	Cheek	Yes	9 mo	KI
Present case	2007	F/10 mo	Rt. cheek	No	3 mo	KI

-: not described in the article

세로 중장년층에서 발생하여 본 증례와 같이 영아에서 발생한 예는 없었다. 상세정보를 확인할 수 없는 1예를 제외하고는 모두 외상의 병력이 있었으며, 유병기간은 1개월부터 9개월까지로 다양하게 나타났고 모든 예에서 요오드화 칼륨 포화용액을 사용하여 치료하였다 (Table 1)^{1,7,10,11}.

영아에서 발생한 스포로트리쿰증은 매우 드문데 그 이유는 본증이 주로 농사 등의 야외 활동 등을 통한 균 접촉이 원인이 되는 경우가 많기 때문이다. 국내 문헌상 스포로트리쿰증은 대부분 중년 이후에서 호발하며 영아에서 발생한 경우는 3예만이 있을 뿐으로 본 증례와 같이 영아의 안면부에 발생한 피부림프형 스포로트리쿰증은 보고된 예가 없었으며, 외국 문헌 검색상에서도 유사한 증례를 찾을 수가 없었다^{8,12,13}. 본 증례의 경우 집에서 관상용 식물을 많이 재배하는 것으로 보아 우연히 발생한 경미한 외상 혹은 부모의 손을 통한 접촉 등이 발생 원인으로 추정된다.

진단은 배양검사를 통한 진균의 증명으로 확진할 수 있으며, 이 외에도 임상 및 조직학적 소견과 sporotrichin 반응검사 등이 진단에 도움을 줄 수 있다. 균의 집락 형태는 두 가지 모양으로 Sabouraud 배지에 접종하여 25℃에서 배양하면 균사형의 균집락을 형성하며, brain heart infusion 배지에 접종하여 37℃에서 배양하면 효모형 균집락을 관찰할 수 있다. Sabouraud 배지나 대부분의 진균배지에서 배양된 집락을 현미경으로 관찰하면 분지된 격벽이 있는 가느다란 균사의 측벽 혹은 첨단부에 화분상 또는 포도송이 모양의

분생자 집단을 확인함으로써 진단할 수 있다¹². 본 증례에서도 실온에서 배양한 Sabouraud 배지에서 암갈색의 주름진 균사형의 균집락을 형성하였으며, 현미경적 검사상 균사의 측벽과 첨단부에서 화분상의 분생자 집단을 관찰할 수 있었다.

원발 병소의 병리조직학적 검사상 표피에서 가피형성, 표피결손, 위상피증성 과형성, 작은 농양 등이 보이며, 진피에서는 림프구 및 형질세포로 구성된 염증세포의 침윤 속에 작은 농양, 정상체, 작은 육아종이 산재하는 것을 관찰할 수 있다. 진행된 병변에서는 육아종의 중심부에서 호중구로 이루어진 화농성 구역, 조직구와 거대세포로 구성된 결핵양 구역, 림프구와 형질세포로 구성된 원형세포 구역의 3 구역으로 구성된 염증세포의 침윤이 특징적으로 관찰된다. 일반적으로 H & E 표본에서 균요소가 확인되는 경우는 드문 것으로 알려져 있으며, 본 증례에서도 표피의 위상피증성 과형성, 표피결손 및 진피내의 만성염증성 육아종의 소견은 관찰되었으나 균요소는 확인할 수 없었다¹².

스포로트리쿰증의 치료는 전통적으로 피부형에는 요오드화 칼륨 포화용액, 피부외형에는 amphotericin B를 사용하며 이 외에도 griseofulvin, ketoconazole, flucytosine, fluconazole, itraconazole 및 terbinafine 등이 효과가 있다. 또한 국소온열요법 및 외과적 절제술 등의 치료법 등이 보조적으로 사용될 수 있다¹⁴. 본 증례에서도 요오드화 칼륨 포화용액을 3개월간 사용하여 병변의 호전을 보였다.

저자들은 영아의 안면부에 발생한 피부립프형 스포로트리쿰증 1예를 경험하고, 국내에 보고가 없는 드문 증례로 생각하여 문헌 고찰과 함께 보고한다.

참 고 문 헌

1. 전택환, 윤석권, 김한욱. 스포로트리쿰증 45예에 대한 임상적 관찰 및 균 검출 방법에 따른 균요소 발견빈도. 의진균지 2001; 6: 17-25
2. 이용환, 김수호, 서무규, 하경임, 김정란. 고정형 스포로트리쿰증 2예. 의진균지 2006; 11: 154-158
3. 김기홍, 전재복, 유희준. 피부 및 심재성 진균증. 피부과학. 개정 4판. 서울: 여문각, 2001: 310-340
4. 조양훈, 이무형, 심우영, 허충림. 비전형적인 임상양상을 보인 피부립프형 스포로트리쿰증 1예. 대피지 1996; 34: 660-663
5. Tobin EH, Jih WW. Sporotrichoid lymphocutaneous infections: etiology, diagnosis and therapy. Am Fam Physician 2001; 63: 326-332
6. da Rosa AC, Scroferneker ML, Vettorato R, Gervini RL, Vettorato G, Weber A. Epidemiology of sporotrichosis: A study of 304 cases in Brazil. J Am Acad Dermatol 2005; 52: 451-459
7. 임채성, 권경술, 장호선, 정태안, 오창근. 최근 30년간 스포로트리쿰증 임상 병형의 추세에 대한 관찰. 의진균지 1997; 2: 43-49
8. 권혁진, 박광영, 나건연, 김상원. 영아에 발생한 고정형 스포로트리쿰증에서의 itraconazole 치험 1예. 대피지 1992; 30: 393-397
9. 국정표, 이승철, 전인기, 김영표. 비호발 부위에 발생한 고정형 스포로트리쿰증 1예. 대피지 1990; 28: 606-610
10. 전의식, 김병수, 서순봉. 안면에 발생한 sporotrichosis 3예. 대피지 1976; 14: 51-56
11. 박미순, 전인기, 김영표. 고정형에서 임파형으로 속발된 스포로트리쿰증 1예. 대피지 1988; 26: 405-409
12. 이성재, 김정희, 변동길. Cutaneous sporotrichosis 2예. 대피지 1970; 8: 91-94
13. 김상원, 서순봉. 생후 1개월에 발생한 non-lymphatic sporotrichosis의 1예. 대피지 1987; 16: 167-170
14. 원영호, 전선도, 김성진, 이승철. 피부 스포로트리쿰증에서 itraconazole 경구 투여의 효과에 대한 관찰. 의진균지 1998; 3: 172-178