

분선충에 의한 대량감염 증후군

— 1에 보고 —

연세대학교 의과대학 병리학교실

최 수 임 · 홍 순 원 · 이 광 길

서 론

분선충은 온난다습한 지역에서 감염율이 높은 선충류로 자가감염 경로를 거쳐 대량감염이 생길 수 있으며¹⁻³⁾, 대량감염은 주로 전신질환, 악성 종양 및 면역억제 상태에 있는 경우에 관찰된다⁴⁾. 우리나라에서는 지금까지 문헌상 6예가 보고되어 있는데, 조직 표본상 확인된 예는 없고 대부분이 분변에서 유충이 발견된 예들이며, 이들은 특이한 증상이 없었던 2예^{5,6)}, 복수를 동반한 1예⁷⁾, 위내시경 검사상 십이지장 점막에서 우연히 발견된 1예 및¹⁰⁾, 대량감염으로 생각되었던 2예^{8,9)}이다. 저자들은 류마치스성 관절염의 치료를 위해 부신피질 호르몬 제제를 장기간 사용하였고, 신증후군 치료를 위해 면역억제제를 사용하여 면역기능이 저하된 환자에서 분선충의 대량감염을 조직검사서 확인한 1예를 보고하는 바이다.

증례 보고

1. 임상 소견

환자는 52세 여자 환자로 6개월간의 전신부종과 1개월간의 전신쇠약을 주소로 본원 내과에 입원하였다. 환자는 약 30년전부터 다발성 관절통이 있어서 류마치스성 관절염의 진단하에 스테로이드 제제를 복용하여 왔으며, 1년전 양안의 백내장으로 수술을 받았고, 같은 시기에 전신부종 및 호흡곤란이 있어서 다른 병원에서 약 45일간 입원치료를 받으면서 미세변화형 신증후군으로 Cyclosporin을 투여받았다. 스테로이드 제제(Prednisolone 10 mg/day)를 간헐적으로 복용해 오던 중 약 1개월 전부터 전신쇠약이 있어 본원에 입원하였다.

내원 당시 환자는 전신쇠약감, 다발성 관절통 및 오심을 동반한 복부불쾌감을 호소하였다. 이학적 검사상 만성 병색과 탈수현상을 보였고 흉부청진상 grade III/IV의 수축 중기 심잡음이 들렸고, 복부 촉진상 간장이 늑하방 2수지 간격으로 만져졌으며 경골 전부 함요부종과 수부, 족부 및 주관절에 변형이 있었다. 임상병리학적 검사 소견상 백혈구 14,600/mm³ (중성백혈구 83%, 림프구 10%, 단핵구 7%), hemoglobin 11.2 g%, hematocrit 33.9%, 혈소판 304,000/mm³였으며 뇨 검사상 당뇨 ++, 뇨단백 ++, 혈뇨 ++이었다. 전해질 검사 및 간기능 검사는 정상 범위였고 Rheumatoid factor가 양성이었다. 대변검사에서는 잠혈반응이 음성이었고 충란이나 기생충은 관찰되지 않았다.

입원후 발열과 설사, 변비 및 복부팽만이 있어, 위내시경 검사, 복부초음파 검사, barium 관장검사, 소장검사등을 시행하였으나 특이소견은 없었으며 그 후 변비와 미열이 지속되었다. 항생제(Cefamezine 3.0 g/day, Tobramycin 60 mg/day)를 정맥내로 주사하였으나 발열은 소실되지 않았고, 신증후군의 치료를 위해, 계속 Prednisolone (60 mg/day)과 Cytoxan (100 mg/day)을 투여하였다. 입원 36일째 두통과 경미한 경부 강직이 있어 뇌척수액 검사와 뇌단층촬영을 시행하였다. 뇌척수액 검사에서는 압력이 210 mg, 단백 38 g%, 당 50 g%였고, 뇌척수액 배양에서 장내구균이 자라서 세균성 뇌막염을 생각하였다. 그 후부터 Cytoxan을 중단하고 Prednisolone의 용량을 줄여 20 mg/day로 복용하였으며, 항생제를 Cefobid(3.0 g/day)와 Neticin(150 mg/day)로 바꾸었다. 입원 40일째부터 복부팽만 및 불편감이 있었고 44일째 다시 우하복부 동통 및 국소적인 압통이 있어 급성 충수돌기염으로 생각하고 입원 46일째 시험개복하여 충수돌기 내에서 barium 관장검사 물질을

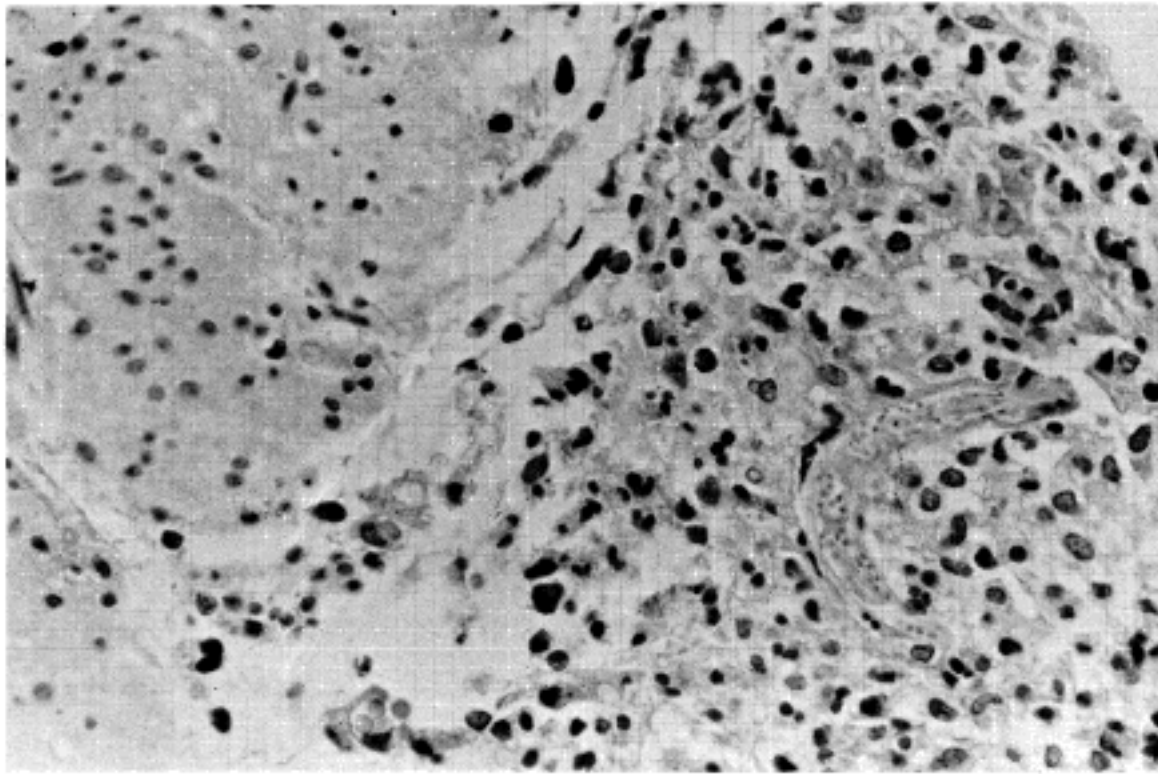


Fig. 1. A small ill defined granuloma with a longitudinally sectioned parasite is seen in the serosa of the appendix. (H&E, x400).

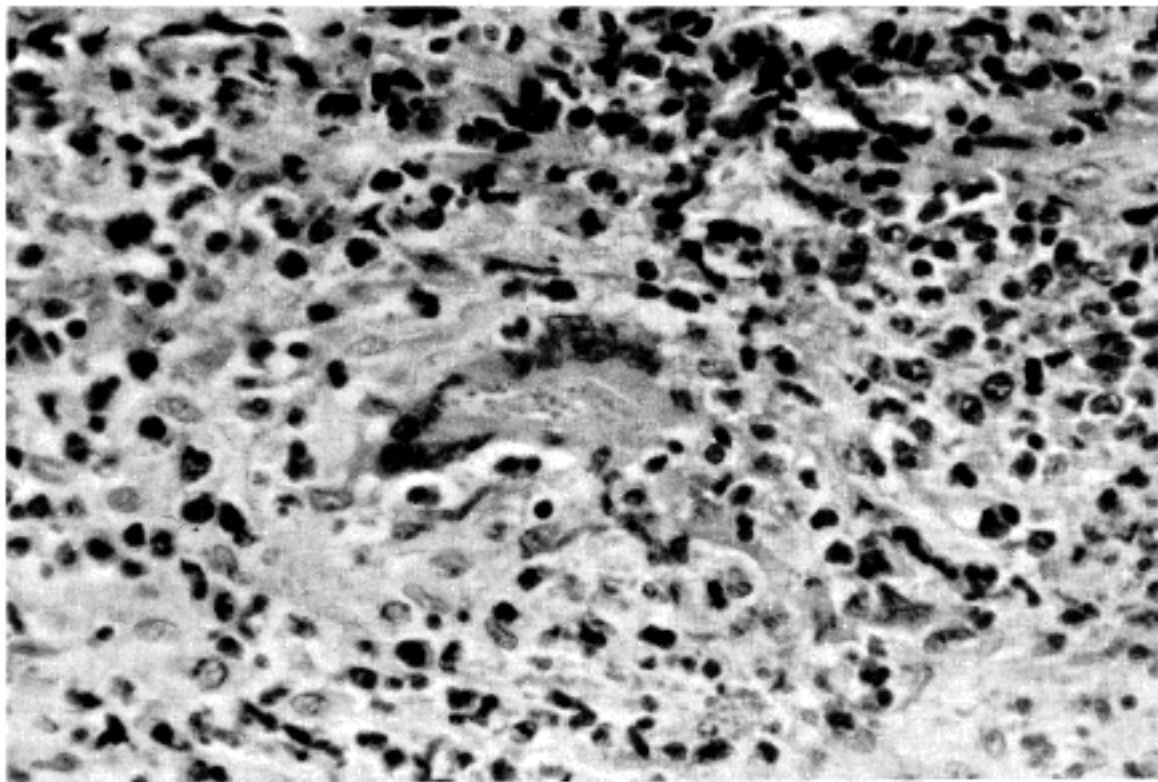


Fig. 2. The sections of the mesenteric lymph node revealed foreign body granuloma. A fragment of the parasite is seen in the foreign body giant cell. (H&E, x400)

관찰하였고 충수돌기 절제술과 장간막에서 약간 커져있는 림프절 생검을 시행하였다. 수술 후 5일경부터 복통과 변비가 있어 초음파 검사와 소장 X-선 검사를 시행한 후 소장폐쇄 소견이 있어 개복한 결과 공장이 심하게 확장되어 있는 것과 장 전체의 장축면과 장간막에 백색의 물질이 덮혀있는 것을 관찰하였다. 공장을 절개하여 점도가 높은 회백색의 물질들을 관찰하였고 공장조직을 생검한 후 공장-횡행결장 조루술을 시행하였다. 수술 1일째 저녁 호흡곤란이 있어 삽관하고 기계호흡을 시행하던 중 무뇨증과 정신혼탁 및 다발성 기관부전상태에서

재수술 5일만에 사망하였다.

2. 병리학적 소견

절제한 충수돌기는 길이가 7cm, 장경이 0.8cm이었고 외표면이 비교적 평탄하였고 절단면에서도 별 특이한 소견은 관찰되지 않았다. 광학현미경상 충수돌기에서는 염증이 거의 관찰되지 않았으나 장막층에서 미세한 육아증이 관찰되었고 그 중앙부위에는 기생충체의 일부가 절단된 것으로 보이는 구조물이 있었다(Fig. 1). 같이 생검된 장간막 림프절에서도 호산구와 이물질형 거대세포

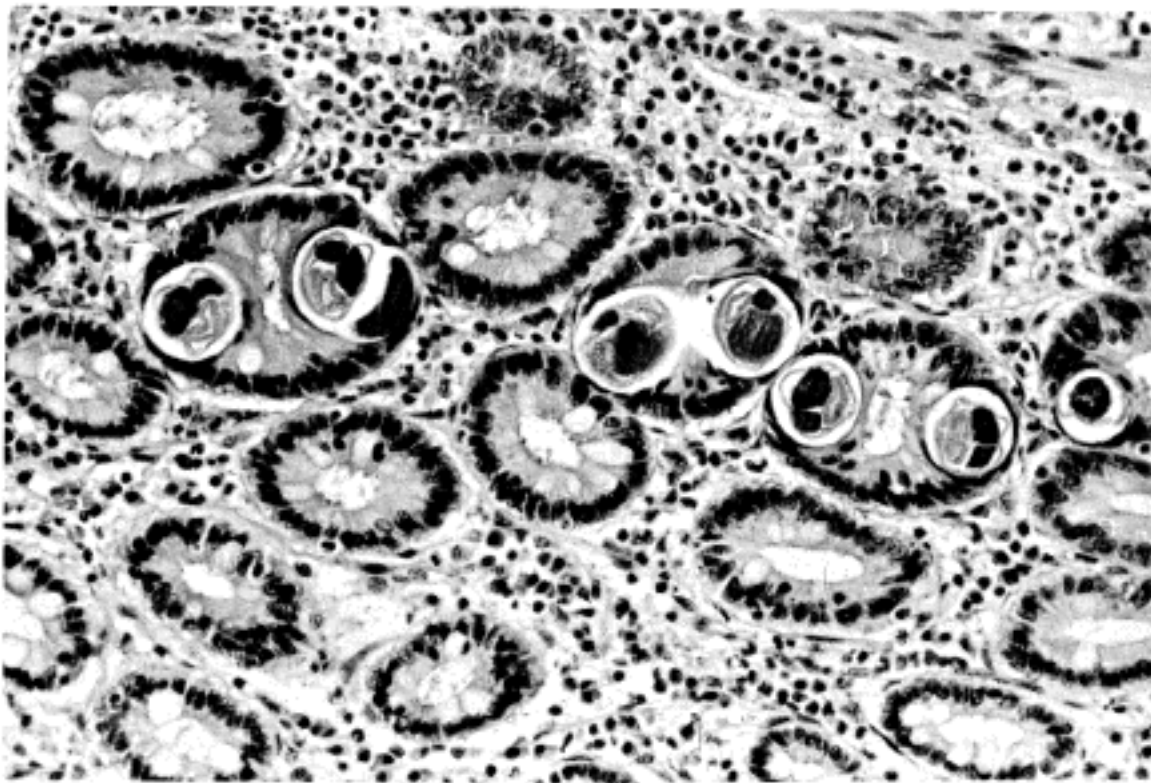


Fig. 3. The biopsied jejunal mucosa revealed many females of the *Strongyloides stercoralis*. Note the intestine and 2 sections of the reproductive tube (H&E, x200).

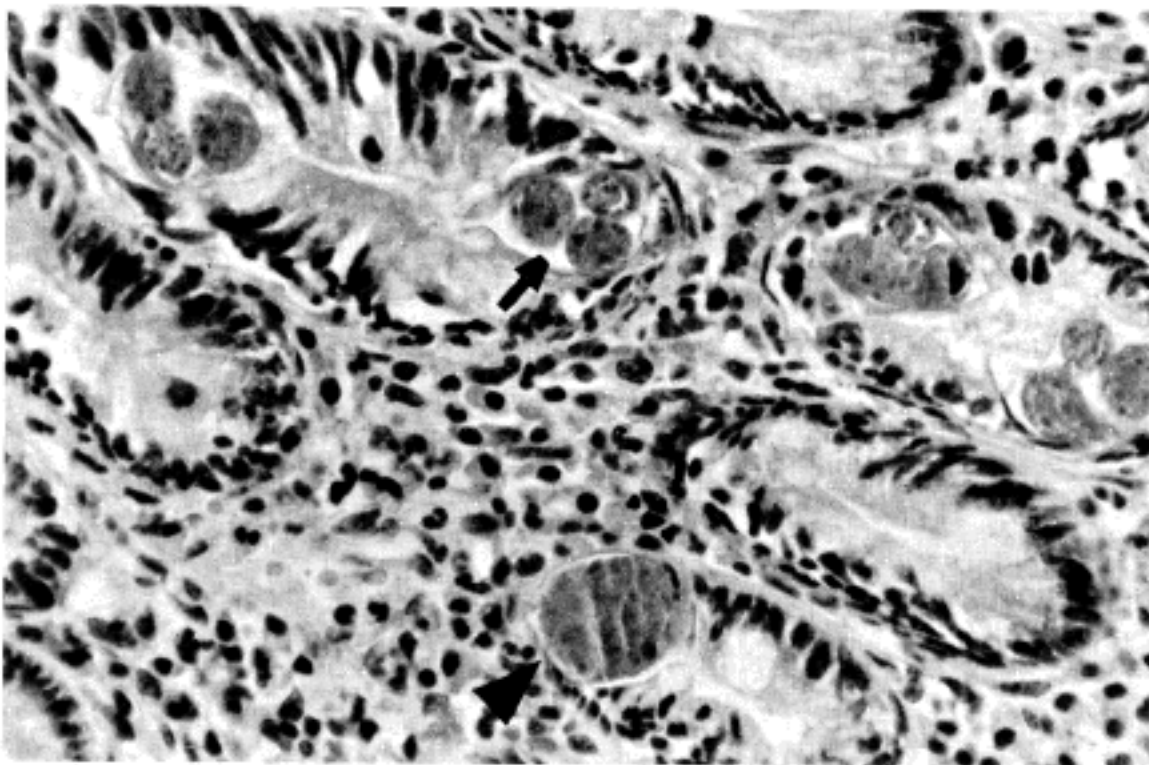


Fig. 4. Cut surfaces of the filari-form larvae (→) and an egg (◄) are also noted in the jejunal mucosa (H&E, x400).

들 가진 육아종이 관찰되었고 거대세포내에서 충수돌기에서의 것과 같은 기생충체의 일부가 발견되었다(Fig. 2).

소장계쇄소견이 있어 시험개복하고 생검된 공장조직에서는 점막층과 근육, 장막층에서 많은 기생충의 성충, 유충 및 충란을 관찰할 수 있었다. 성충의 절단면에서 2개의 생식관과 1개의 장관이 관찰되었고 직경은 0.2 mm 정도였다(Fig. 3). 직경 20~50 μm의 필라리아형과 랍디토이드형 유충도 다수 관찰되었고(Fig. 4) 충란들은 크기가 평균 50×30 μm이었다.

고 찰

분선충은 토양에서 자유생활을, 인간에서 기생생활을 각각 완수할 능력이 있는 선충류로써 열대지방이나 온난 다습한 지역에서 감염율이 높다^{1~3)}. 이 기생충은 분변으로 랍디토이드형 유충으로 배출되어 토양에 있는 동안 필라리아형 유충으로 변태하여 피부를 통해 감염될 수도 있고 랍디토이드형 유충이 자유생활세대의 성충으로 자라다가 조건이 좋지 못하면 감염능력이 있는 필라리아형

유충으로 변한다. 그 이외에도 자가감염 경로를 거칠 수 있는데 이 때에는 랩디토이드형 유충이 숙주의 장관내에 있는 동안 필라리아형 유충으로 되어 직접 장관벽을 뚫거나 항문 주위 피부를 통해 침습할 수 있다. 사람이 필라리아형 유충에 감염될 경우 진피내의 혈관으로 들어가 혈류를 따라 체의 모세혈관으로 운반되고 체포로 뚫고 나오게 된다. 여기서 유충이 기관지, 식도로 옮겨간 후 장관내에서 암컷 성충으로 성숙되어 충란을 낳게 되며 숫컷 기생성충의 존재에 관해서는 논란이 많다.

분선충의 감염을 의심할 수 있는 임상적 증세 및 증후 들로써는 설사, 복통, 오심, 구토, 변비 등의 위장관 증세, 발진, 두드러기, 소양증 등의 피부 증세 및, 기침, 천명 등의 폐장 증세 등이 있고⁹⁾, 이때 진단은 분변에서 유충을 발견해야 하며, 발견이 되지 않더라도 의심이 될 경우에는 십이지장 흡인물에서 유충을 관찰할 수 있으며¹⁰⁾ 분변에서 필라리아형 유충이 발견되면 대량감염의 증거가 될 수 있다¹¹⁾.

분선충에 감염될 경우 장관에서 볼 수 있는 조직학적 소견을 De Paola는 ① 카타르성 ② 부종성 및 ③ 궤양성으로 구분을 하였고¹²⁾ 조직에서 유충이 관찰될 경우 감별 해야할 것으로는 회충, 아메리카 구충, 개구충 등이 있는데¹³⁾ 이때 유충의 절대적인 길이나 넓이는 측정하기가 어렵고 별 의미가 없으며 중간부위의 횡단면에서 유충의 상대적 크기, 장관의 종류, 외익의 유무 및 배설계의 존재 및 크기를 비교해 보면 쉽게 감별이 된다고 한다¹³⁾. 회충은 중장의 장경이 14~6 μm 이며 외익이 현저하고, 아메리카 구충은 중장의 장경이 26~50 μm 이며, 성충은 전 1/3의 다면에서는 식도가 관찰되고, 후 2/3의 부위에서는 1개의 장관과 2개의 생식기가 관찰된다.

분선충의 생활사에서 특이한 것은 자가감염에 의한 대량감염인데 지난 20년간 문헌상 많이 보고되어 있으나^{14~20)} 그 병인 기전은 아직 확실히 알려져 있지 않고, 백혈병 림프종, 호지킨 병등의 혈액종양, 나병, 매독, 전신성 루푸스, 부신피질 호르몬 제제 사용, 영양실조등이 있을 경우에 잘 생기는 것으로 되어 있으나^{21,22)}, 그런 질환이 없는 경우에도 대량감염증이 보고되어 있다^{23,24)}. 본 증례는 류마치스성 관절염의 치료를 위해 장기간 부신피질 호르몬 제제를 사용하였으며 신증후군의 치료를 위해 면역억제제를 사용한 환자였고 필라리아형 유충이 충수돌기의 장막층과 장간막 림프절 및 장의 점막과 장벽에서 관찰된 것으로 보아 대량감염증이 생긴

것으로 생각된다. 본 증례에서 뇌척수액 배양에서 그람 음성 장내세균이 자란 것도 유충이 장벽을 뚫고 들어갈 때 장내세균이 함께 혈류로 들어간 것으로 생각되며 이에 의한 패혈증으로 사망한 것으로 생각된다.

우리나라에서는 분선충증이 문헌상 6예가 보고되어 있다. 소동이 1959년 복수를 동반한 1예를 보고한 이래⁷⁾ 요코가와 흡충과 함께 분변에서 랩디토이드형 유충을 발견한 1예⁸⁾와 교통사고 환자의 분변에서와⁹⁾ 위내시경 검사중 우연히 발견된¹⁰⁾ 2예가 있다. 1985년 최등이 류마치스성 관절염의 치료를 위해 장기간 부신피질 호르몬 제제를 사용한 환자의 분변에서 랩디토이드형 유충을 발견한 1예를 보고하였는데¹¹⁾, 설사, 탈수증세, 복통, 오심, 구토 및 쇼크등의 증세 및 설사 10일 전부터 있었던 기침 및 호흡곤란의 증세등으로 미루어 대량감염이 된 것으로 생각하였으나 조직학적으로 확인되지는 않았고, 1988년 홍등은 객담검사와 설사변에서 충체를 다량 수집하여 대량감염을 확인하였다⁹⁾.

본 증례는 면역기능이 저하된 상태에서 분선충의 대량 감염이 이루어진 에로써 병리조직학적으로 확인되어 보고하는 바이다.

결 론

분선충증은 우리나라에서도 발견되는 기생충증이나 표본상에서 충체가 동정된 예는 아직도 보고되지 않았다. 저자들은 면역기능이 저하된 상태에서 분선충의 대량 감염증을 조직표본으로 확인한 1예를 보고하는 바이다.

환자는 52세 여자로서 전신부종과 전신쇠약을 주소로 내원하였다. 과거력상 30년전부터 류마치스성 관절염이 있어서 스테로이드제제를 사용해 왔으며 내원 7개월전부터 전신부종과 운동시의 호흡곤란으로 다른 병원에 입원하여 미세변화형 신증후군의 진단하에 스테로이드와 면역억제제로 치료를 받았고 약 1개월전부터는 전신쇠약이 있어 본원에 입원하였다. 만성 신부전증과 류마치스성 관절염의 진단하에 치료하던 중 심한 복통이 있어 급성 충수돌기염의 임상진단하에 충수돌기 절제술과 장간막 림프절 생검을 시행하였다. 조직검사상 충수돌기의 장막층과 림프절내에서 이물질형 육아종이 관찰되었고 그 중앙부위에 충체의 일부가 관찰되었다. 그후 환자는 소장폐쇄 소견이 있어 개복한 결과 소장과 장간막 전

체가 백색의 물질로 덮혀있는 것을 관찰하고 공장 생감을 시행하였다. 조직검사상 이 공장의 점막과 점막하층에서 충란과 유충 및 성충을 확인하여 분선충증으로 진단하였다. 환자는 호흡곤란과 다발성 기관부전증으로 사망하였다.

참 고 문 헌

- 1) **Marcial-Rojas RA:** *Pathology of protozoal and helminthic diseases with clinical correlation.* Huntington NY, Robert E. Krieger Publishing Company, 1975, p 711
- 2) **Binford CF, Connor DH:** *Pathology of tropical and extraordinary diseases.* Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, 1976, p 428
- 3) **Beaver PC, Jung RC, Cupp EW:** *Clinical parasitology, 9th Edition.* Philadelphia, Lea & Febiger, 1984, p 253
- 4) **Davidson RA, Fletcher RH, Chapman LE:** *Risk factors for strongyloidiasis, a case-control study.* Arch Intern Med 144:321, 1984
- 5) 서병설, 임한중, 한용철 : *Metagonimiasis*의 1예. 기생충학잡지 6:36, 1969
- 6) 조승열, 채종일, 양용석, 서병설 : 분선충 감염의 1예. 기생충학잡지 15:163, 1977
- 7) 소진탁 : *Strongyloides stercoralis*로 인한 복수 1예. 대한의학협회잡지 2:91, 1959
- 8) 최규식, 황영남, 김연자, 양운모, 윤경, 김재진, 민득영, 이근태 : 분선충에 의한 대량감염 증후군. 기생충학잡지 23:236, 1985
- 9) 홍성중, 신진식, 김선영 : 분선충의 hyperinfection 1예. 기생충학잡지 26:221, 1988
- 10) **Chi JG, Sung RH, Cho SY:** *Tissue parasitic disease in Korea.* J Kor Med Sci 3:51, 1988
- 11) **Milder JE, Walzer PD, Kilgore G, Rutherford I, Klein M:** *Clinical features of Strongyloides stercoralis infection in an endemic area of the united states.* Gastroenterol 80:1481, 1981
- 12) **Jones DA, Abadie SH:** *Studies in human strongyloidiasis. II. A comparison of the efficiency of diagnosis by examination of feces and duodenal fluid.*
- 13) **Eveland LK, Kenney M, Yermakov V:** *Laboratory diagnosis of autoinfection in strongyloidiasis.* Am J Clin Pathol 63:421, 1975
- 14) **De Paola D:** *Patologia da Estrongiloidiase.* Bol Cent Est Hosp Serv Est 14:3, 1962, cited by Marcial-Rojas RA: *Pathology of protozoal and helminthic diseases with clinical correlation.* Huntington NY, Robert E. Krieger Publishing company, 1975, p 722
- 15) **Nichols RL:** *The etiology of visceral larva migrans. II. Comparative larval morphology of Ascaris lumbricoides, Necator americanus, Strongyloides stercoralis and Ancylostoma caninum.* J Parasitol 42:363, 1956
- 16) **Cruz T, Reboucas G, Rocha H:** *Fatal strongyloidiasis in patients receiving corticosteroids.* N Engl J Med 275:1093, 1965
- 17) **Rogers WA Jr, Nelson B:** *Strongyloidiasis and malignant lymphoma. "Opportunistic infection by a nematode."* JAMA 195:685, 1966
- 18) **Rivera E, Maldonado N, Velez-Garcia E, Grillo A, Malaret G:** *Hyperinfection syndrome with Strongyloides stercoralis.* Ann Int Med 72:199, 1970
- 19) **Purtilo DT, Meyers WA, Connor DH:** *Fatal strongyloidiasis in immunosuppressed patients.* Am J Med 56:488, 1974
- 20) **Dwork KG, Jaffe JR, Lieberman HD:** *Strongyloidiasis with massive hyperinfection.* NY State J Med 1230, 1975
- 21) **Liepmann M:** *Disseminated Strongyloides stercoralis, a complication of immunosuppression.* JAMA 213:387, 1975
- 22) **Scully RE, Mark EJ, M Neenly BU:** *Case records of the Massachusetts General Hospital.* N Eng J Med 314:903, 1986
- 23) **Hakim SZ, Genta RM:** *Fatal disseminated strongyloidiasis in a Vietnam war veteran.* Arch Pathol Lab Med 110:809, 1986
- 24) **Scully RE, Mark EJ, M Neely WF, M Neely BU:** *Case records of the Massachusetts General Hospital.* 317:1332, 1987
- 25) **Igra-Segman Y, Kapila R, Sen P, Kaminski ZC, Louria BD:** *Syndrome of hyperinfection with Strongyloides stercoralis.* Rev Infect Dis 3:397, 1981
- 26) **Smallman LA, Young JA, Shortland-Webb WR, Carey MP, Machael J:** *Strongyloides stercoralis hyperinfestation syndrome with Escherichia coli meningitis: report of two cases.* J Clin Pathol 39:366, 1986

— Abstract —

Hyperinfection Syndrome with *Strongyloides Stercoralis*

— Report of a case —

Sooim Choi, M.D., Soon Won Hong, M.D.
and Kwang Gil Lee, M.D.

*Department of Pathology, Yonsei University
College of Medicine*

Strongyloides stercoralis is a nematodes and is prevalent in the tropical regions. In Korea, 6 cases have been reported in which the parasites were identified in feces. We report a case of hyperinfection syndrome with *Strongyloides stercoralis* confirmed in the tissue sections.

A 52-year-old woman was admitted to the hospital because of generalized edema and weakness. She received steroid therapy for 30 years because of rheumatoid arthritis. One year ago, generalized edema and dyspnea were developed and she was diagnosed as minimal change nephrotic syndrome for which she received cyclosporin. On admission, she complained of generalized weakness and edema, multiple arthralgia and abdominal discomfort with nausea. The white-cell

count was 14,600 without eosinophilia. A stool specimen was negative for occult blood, ova or parasites. Right lower quadrant abdominal pain and tenderness were developed, and the exploratory laparotomy was done under the impression of the acute appendicitis. An appendectomy with a biopsy of mesenteric lymph nodes was performed. From the 5th day after operation, the patient began to complain of the abdominal pain and constipation. Under the impression of adhesion bad formation, the laparotomy was done and disclosed that the proximal ileum was markedly dilated. On jejunotomy, a great amount of formed stool and barium was noticed in the proximal portion of small bowel. The jejunal tissue was biopsied. Grossly, the appendix was unremarkable. Microscopically, the inflammatory reaction was nearly absent, but in serosa, minute granulomas were found which contain a part of the parasite. Same feature was noted in the mesenteric lymph node. The biopsied jejunum contains numerous adult female, filariform and rhabdiform larvae and eggs in the mucosa, submucosa and muscle wall. Their morphology was compatible with *Strongyloides stercoralis*. The patient died 5 days later in the state of multiple organ failure.

Key Words: *Strongyloides stercoralis*, Hyperinfection, Immunosuppression