

스파르가눔증을 동반한 호산구성 지방층염

김경덕¹, 김재왕²¹제주대학교 의학전문대학원, ²제주대학교 의학전문대학원 피부과학교실

(Received March 21, 2013; Revised March 28, 2013; Accepted April 4, 2013)

Abstract

Eosinophilic panniculitis accompanied with sparganosis

Kyeong-Deok Kim¹, Jae-Wang Kim²¹Jeju National University School of Medicine²Department of Dermatology, Jeju National University School of Medicine, Jeju, Korea

Eosinophilic panniculitis is characterized by a predominant infiltration of eosinophils in the subcutaneous fat lobules. It has been presented in patients with a variety of clinical conditions including parasitic infestation, eczema, drug, insect bite, systemic vasculitis and allergy. Sparganosis is a parasitic infestation caused by the plerocercoid larva, *Sparganum mansoni*. Herein, we present a case of eosinophilic panniculitis caused by sparganum. The final diagnosis was confirmed through the histopathologic findings and serum ELISA tests. (J Med Life Sci 2013;10(1):17-20)

Key Words : Eosinophilic panniculitis, Sparganosis

서론

호산구성 지방층염(eosinophilic panniculitis)는 피하지방층 소엽에서 호산구의 현저한 침윤이 관찰되는 질환군으로서 현재는 각종 피부질환 혹은 전신질환에 동반되는 비특이적 반응으로 간주하고 있다^{1,2}. 임상적으로는 가려움증이나 통증을 수반한 홍반성 구진, 판, 결절, 자색반(purpura) 등으로 나타나며, 기생충감염, 각종 습진, 약물, 곤충물림, 전신혈관염, 알레르기, 결절홍반, 세균감염, 림프종, 정신질환 등 다양한 조건에서 발생한다^{3,4}. 스파르가눔증은 스파르가눔(sparganum)에 의한 인체내감염으로 개나 고양이를 종숙주로 하는 조충(cestode)인 *Spirometra mansoni*의 충미충(plerocercoid) 유충인 *Sparganum mansoni*에 의한다^{5,6}. 그러나 스파르가눔증(sparganosis)과 연관되어 발생한 호산구성 지방층염은 드문 편이며 현재까지 국내에서 스파르가눔증과 연관된 병례는 2예만 보고된 바 있다^{7,8}. 저자들은 배의 홍반성 결절로 내원하여 피부병리조직검사를 통해 호산구성 지방층염 소견을 동반한 스파르가눔증으로 진단된 사례를 경험하여 보고하는 바이다.

증례

58세 남자가 내원 3개월 전부터 배 중앙에 발생한 홍반성 결절을 주소로 내원하였다. 병변은 압통을 동반하고 용기된 4 × 3 cm 크기의 홍반성 피하결절이었다(Fig. 1).

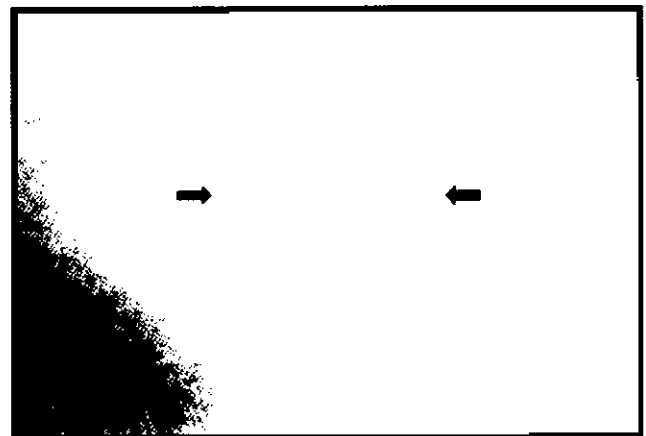


Figure 1. A solitary erythematous tender infiltrative nodule(arrows) on his abdomen.

배의 결절 중앙에서 시행한 피부병리조직검사에서 그물진피와 피하지방층 소엽에 걸쳐 주로 성숙된 호산구로 구성된 염증세포들의 조밀한 침윤이 관찰되었다(Fig. 2A, 2B).

Address for correspondence: Jae-Wang Kim
Department of dermatology, Jeju National University School of Medicine, 66 Jejudaehakno, 690-756, Jeju, Korea
E-mail: rulid@jejunu.ac.kr

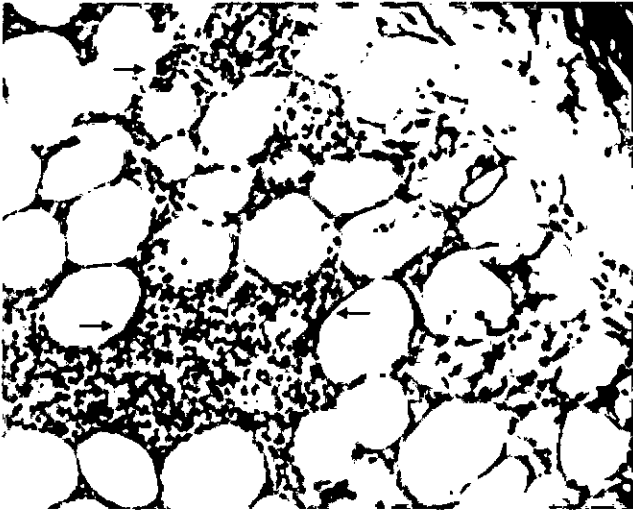


Figure 2. (A) The heavy inflammatory infiltration(arrows) including eosinophils in the lobules of subcutaneous fat(H & E, × 200).

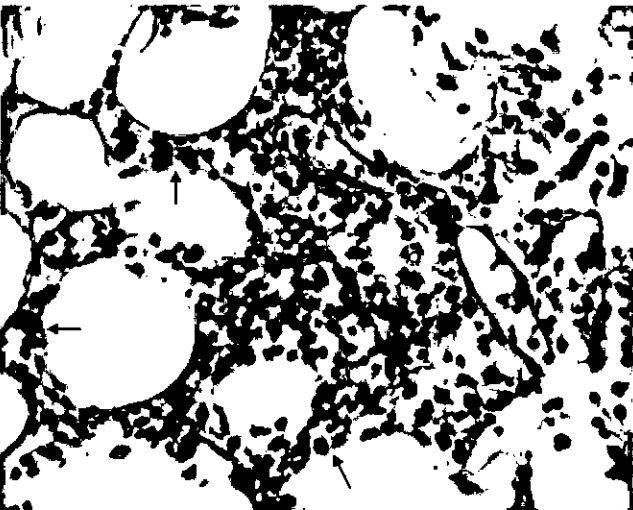


Figure 2. (B) Abundant eosinophils(arrows) in the mixed inflammatory infiltrates that concentrated within the lobules of subcutaneous fat(H & E, ×400).

조직괴사와 섬유화로 인해 피하지방층의 정상적 소엽과 중격 구조가 소실되었으며, 불규칙한 형태와 크기의 공동들이 피하지방과 아래 그물진피에 흩어져 존재하였다. 연속절편검경에서 큰 공동 안에 기생충 충체임을 시사하는 피막에 둘러싸인 타원형의 단백 절편이 관찰되었다(Fig. 3A). 그 중심에는 과립형태의 작은 호염기성 석회질체(calcareous bodies)와 방추모양의 호산성 결정체(Charcot-Leyden crystal)가 다수 관찰되었다(Fig. 3B). 일반 혈액검사에서 백혈구 12,700/mm³(정상범위: 4,000~7,000/mm³), 호중구 65%(정상범위: 50~70%), 림프구 15%(정상범위: 20~40%), 호산구 17%(정상범위: <5%) 2,159/mm³(정상치: <500/mm³), CRP 10.2 mg/dL(정상범위: <0.3 mg/dL), ESR 40

mm/hr(정상범위: <10 mm/hr)였으며, 간기능 검사, 전해질, BUN/Cr, 요검사, 가슴 X-선 검사 등은 정상이었다. 총 IgE는 350 IU/mL(정상치: <90 IU/mL)로 증가되어 있었으나 IgG, IgA, IgM은 정상 범위였으며, RPR, ANCA, FANA, ACE, 항dsDNA 항체, 항Scl-70 항체 등도 음성이었다. 조직검체에서 시행한 세균배양검사 및 진균배양검사는 음성이었다.

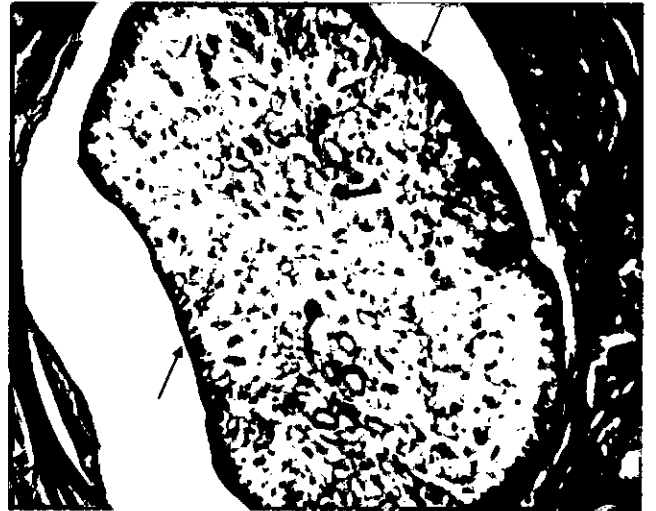


Figure 3. (A) An encapsulated elliptical proteinaceous parasite(arrows) in a cavity, representing *Sparganum manson*(H&E, ×200).

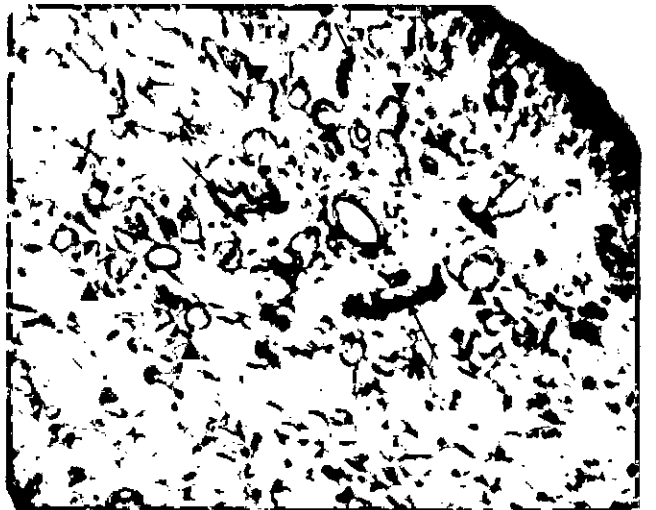


Figure 3. Multiple ovoid granular basophilic calcareous bodies(arrowheads) and spindle shaped to fusiform eosinophilic Charcot-Leyden crystals(arrows) in the parasite(H&E, ×400).

다음 방문 시 환자의 병력에 대해 다시 청취하였는데 내원 6개월 전 뱀으로 만든 술을 서너 차례 마신 적이 있었다. 그러나 개구리, 민물가재, 민물고기, 돼지고기 등을 생식하거나 개울이나 약수터에서 물을 마신 적은 없었다고 한다. 기생충 특이항체에

대한 혈청 효소면역측정법(ELISA)에서 폐흡충(*Paragonimus westermani*), 낭미충(*cysticercus*, *Taenia solium*), 간흡충(*Clonorchis sinensis*), 개회충(*Toxocara canis*) IgG는 음성이었으나, *Sparganum mansoni* IgG는 양성이었다(0.634 IU/L, 정상: 0.22 IU/L 미만). 이상의 소견으로 호산구성 지방층염을 동반한 스파르가눔증으로 최종 진단하고 배의 결절 병변에 대해서는 국소마취하에 외과적 절제술을 시행하여 제거했으며, 경구 Praziquantel 1,800 mg(25 mg/kg)을 1일 3회씩 2일간 투여하였다. 2개월 후 피부병변은 완전히 소멸되었고 추적 관찰 중인 현재까지 재발 소견은 보이고 있지 않다.

고 찰

호산구성 지방층염은 병리조직학적으로 피하지방층의 현저한 호산구 침윤이 관찰되는 반응성 질환군으로 여러 전신질환과 연관되어 발병한다^{1,2}. 호산구성 지방층염이라는 용어는 Burket 등³이 상기도의 사슬알균 감염에 의해 임상적으로는 다리에 축지성 자색반을 나타내고, 조직학적으로 피하지방층의 소엽과 중격에서 호산구를 포함하는 육아종성 염증반응과 섬유화 소견이 관찰되는 증례들에 최초로 적용한 바 있다. 과거에는 본 증례를 호산구성 연조직염(eosinophilic cellulitis) 등과 감별해야 하는 단일 질환으로 인식하였으며, 다리의 가려운 홍반성 결절, 두드러기양판, 구진, 물집 등을 동반하면서, 전신 스테로이드나 옥화칼륨포화용액(potassium iodide saturated solution) 투여에 잘 반응하고, 자연 치유되는 특징을 강조해왔다^{3,4}. 그러나 호산구성 지방층염은 다양한 피부질환이나 전신질환을 수반하게 되므로 그 기저질환의 진행 정도에 따라 임상적 경과와 예후가 결정된다. 호산구성 지방층염을 유발하거나 연관된 이상으로는 절지동물물림, 결절홍반, 약물 주입에 따른 주사육아종(injection granuloma), 결절다발동맥염(polyarteritis nodosa), 천식, 아토피피부염, 접촉피부염, 기생충감염, 곰팡이감염, 세균감염, 바이러스감염, 경피증, 전신홍반루푸스, 쇼그렌증후군, 유육종증, 갑상샘질환, 귀밑샘염, 림프종, 백혈병, 자궁암, 골은창자암, 정신질환 등이 다양하게 보고되었다¹⁻⁶.

호산구성 지방층염의 피부병변으로는 결절이 가장 흔하지만 때로 판, 구진, 구진비늘, 자색반, 물집, 고름물집, 그물모양을혈반(livedo reticularis), 궤양, 혈관부종, 두드러기 등 다양한 형태로 나타날 수 있다⁹. 병변의 발생부위는 팔, 다리, 손, 발, 얼굴, 배 등으로 다양하며 호발 부위는 따로 없다. 본 증례에서는 배의 홍반성 침윤결절로 나타났다.

기생충 감염과 관련된 호산구성 지방층염으로는 턱구충증(gnathostomiasis), 개회충증(toxocarasis), 스파르가눔증, 폐흡충증, 간질충(간충, *Fasciola hepatica*) 등이 보고되었다^{7,8,11-14}. 스파르가눔증은 한국, 일본, 중국 등 동아시아 지역에서 호발한다. 주된 감염경로는 충미충 유충인 *Sparganum mansoni*에 제1 중간숙주인 물벼룩이 감염된 후 그 물벼룩에 오염된 물을 섭취하거나, 스파르가눔의 제2 중간숙주인 개구리, 뱀, 민물고기 등을 생식하거나 접촉한 경우, 이들을 섭취한 포유류를 생식한 경우, 부

주의한 조리로 스파르가눔에 오염된 경우이다^{9,10}. 본 환자는 발병 6개월 전 뱀으로 만든 술을 마신 적이 있으므로 이를 통해 감염된 것으로 추정된다. 스파르가눔증에 의한 피부병변은 특징적으로 이동성 피하결절이나 유충피부유주증(cutaneous larva migrans)을 연상시키는 뱀이 기어간 형상(serpiginous)의 이동성 판을 형성하며, 때로 통증, 출혈, 농양 등을 동반한다⁹. 본 증례는 그러한 스파르가눔의 이소성 기생(ectopic infestation)에 의한 병변과 달리 홍반성 결절을 이루면서 조직소견상 호산구성 지방층염으로 나타났다는 점에서 특이하다고 볼 수 있다.

스파르가눔증은 병리조직학적으로 충체가 빠져나간 후 생성되는 불규칙한 형태의 공동이 특징이고 그 주변으로 호산구, 림프구, 조직구, 형질세포의 침윤과 함께 조직괴사, 섬유화 등을 동반한다⁷. 때로 병소의 일부에서 석회질체(calcareous bodies, calcareous corpuscles, calco-spherules)와 Charcot-Leyden 결정체가 발견되기도 한다. 석회질체는 스파르가눔증이나 낭미충증 등의 초충 실질 내부에 있는 호염기성 구조물로 동심원, 층모양, 과립모양으로 충체의 근섬유와 섞여 존재하는데 갈슘, 인, 마그네슘 등의 무기물, 단백질, 다당류로 구성되어 무기물의 이동을 조절하는 기능을 갖는다¹⁵. 방추모양 혹은 바늘 형태의 가늘고 끝이 뾰족한 호산성 Charcot-Leyden 결정체는 호산구 과립에서 유래하는 galectin 단백질 주성분으로 lysophospholipase 기능을 가지며, 천식, 궤양대장염 등에서도 가끔 발견된다¹⁶. 이 증례에서도 호산구성 지방층염의 조직소견 이외에 조직절편 중 스파르가눔증의 특징적인 미세소견인 Charcot-Leyden 결정체와 석회질체가 다수 관찰되었다.

호산구성 지방층염의 치료는 기저질환을 규명하여 해결하는 것이다. 본 증례에서는 호산구성 지방층염의 발병인자였던 스파르가눔증의 치료를 위해 외과적 절제술을 시행하면서 praziquantel을 투여하여 호전을 보였다. 스파르가눔증의 치료로는 외과적 절제, praziquantel, albendazol, mebendazol 등의 투여, 40% ethylalcohol 및 procaine 병변내주입 등이 시도된다^{8,10}.

조직학적으로 피하지방층에 호산구 침윤을 보이는 질환으로 호산구성 연조직염, 호산구성 근막염, 특발성 과호산구증후군, Churg-Strauss 증후군 등이 있다⁹. 본 증례에서는 연속절편검정에서 기생충 충체를 포함한 특징적인 병리조직학적 소견들이 관찰되었고, 혈청 ELISA 기생충항체 검사의 결과를 통해 전술한 다른 질환의 가능성을 모두 배제하고 스파르가눔증을 동반한 호산구성 지방층염으로 확진하였다. 국내에서는 호산구성 지방층염의 발병 원인에 대한 대규모의 역학 연구는 진행된 바 없다. 그러나 한국인에서는 불특정 보양식품에 대한 선호도가 높고, 육류 생식 등의 식습관이 남아 있기 때문에 스파르가눔증 등 기생충 감염이 근절되지 않고 있어 호산구성 지방층염의 발병 원인 중에 기생충 감염이 적지 않을 것으로 추정된다. 따라서 조직소견에서 호산구성 지방층염이 확인된 환자에서는 기생충 감염 여부에 대한 평가를 필수적으로 시행해야 할 것으로 판단한다.

참 고 문 헌

1. Requena L, Sanchez-Yus E. Panniculitis. Part II. Mostly lobular panniculitis. *J Am Acad Dermatol* 2001;45:325-361.
2. Adame J, Cohen PR. Eosinophilic panniculitis: diagnostic considerations and evaluation. *J Am Acad Dermatol* 1996;34:229-234.
3. Burket JM, Burket BJ. Eosinophilic panniculitis. *J Am Acad Dermatol* 1985;12:161-164.
4. Winkelmann RK, Frigas E. Eosinophilic panniculitis: a clinicopathologic study. *J Cutan Pathol* 1986;13:1-12.
5. McNutt NS, Moreno A, Contreras F. Inflammatory diseases of the subcutaneous fat. In: Elder D, Elenitsas R, Jaworsky C, Johnson B Jr, editors. *Lever's histopathology of the skin*. 10th ed. Philadelphia: Lippincott-Raven. 2009:509-538.
6. Glass LA, Zaghoul AB, Soloman AR. Eosinophilic panniculitis associated with chronic recurrent parotiditis. *Am J Dermatopathol* 1989;11:555-559.
7. Choi MJ, Lee SW, Hyun JS, Kim TY, Lee JY, Cho BK. A case of sparganosis with eosinophilic panniculitis. *Ann Dermatol* 2002;14:243-246.
8. Lee HW, Oh SH, Lee MW, Choi JH, Moon KC, Koh JK. A case of sparganosis with eosinophilic panniculitis in a patient with rectal cancer. *Korean J Dermatol* 2005;43:821-825.
9. Sun YW, Yoon TJ, Sohn WM, Lee JH, Kim TH. Sparganosis mimicking cutaneous larva migrans. *Ann Dermatol* 2000;12:292-294.
10. Shin SW, Lee SW, Cha SH, Park SD. Two cases of sparganosis. *Korean J Dermatol* 1999;37:1361-1379.
11. Lee HS, Woo SH, Park JH, Kim SN, Kye UC. A case of eosinophilic panniculitis associated with paragonimiasis. *Korean J Dermatol* 2003;41:1697-1699.
12. Perez C, Vives R, Montes M, Ostiz S. Recurrent eosinophilic panniculitis associated with *Fasciola hepatica* infection. *J Am Acad Dermatol* 2000;42:900-902.
13. Gohman-Yahr M. Successful treatment of nodular migratory eosinophilic panniculitis (human gnathostomiasis) with phenylbutazone. *Int J Dermatol* 1991;30:522-523.
14. Ollague W, Ollague J, Guebara de Veliz A, Penaherrera S. Human gnathostomiasis in Ecuador (nodular migratory eosinophilic panniculitis): first finding of the parasite in South America. *Int J Dermatol* 1984;23:647-651.
15. Lee BJ, Ahn SK, Kim SC, Lee SH. Clinical and histopathologic study of sparganosis. *Korean J Dermatol* 1992;30:168-174.