

폐동정맥기형의 우좌선트와 연관된 뇌농양

한정완 이성현

충북대학교 의과대학 신경과학교실

Brain Abscess Associated with Right to Left Shunt of Pulmonary Arteriovenous Malformation

Jeungwan Han, MD, Sung-Hyun Lee, MD

Department of Neurology, College of Medicine, Chungbuk National University, Cheongju, Korea

J Korean Neurol Assoc 40(4):355-358, 2022

Key Words: Brain abscess, Pulmonary arteriovenous malformation

뇌농양에서 선행 요인(predisposing condition)을 규명하는 것은 매우 중요한데 원인균을 추정할 수 있고 선행 요인을 제거하여 뇌농양의 재발을 막을 수 있기 때문이다. 면역기능이 정상인 경우 뇌농양의 약 50%는 외상, 신경외과 수술, 중이염, 부비동염 등 중추신경계 주위의 감염에서 직접적으로 전파되고, 약 30%는 심내막염, 선천심질환, 폐의 감염, 치아감염 등에서 혈행으로 전파되며, 약 20%에서는 선행 요인을 알 수 없다.¹ 폐동정맥기형은 드문 질환으로 저산소혈증, 폐출혈, 및 모순색전증(paradoxical embolization)에 의한 뇌농양이나 뇌경색을 발생시킬 수 있는데 진단이 안 되는 경우가 많다.² 폐동정맥기형이 동반된 뇌농양은 국내에도 몇 예가 보고되어 있으나,³ 대규모 연구에서도 선행 요인으로 규명되지 않을 정도로 드문데^{4,5} 적극적으로 찾지 않으면 놓치기 쉬우므로 발견되지 않았을 가능성이 있다. 저자들은 뇌농양 환자에서 폐 CT에서 보이는 미세한 이상 소견을 단서로 폐동정맥기형을 진단하고 치료하였는데 선행 요인이 분명하지 않은 뇌농양에서 폐동정맥기형을 생각하고 적극적으로 찾아보아야 함을 시사하는 중요한 증례라고 판단되어 보고하고자 한다.

증 례

38세 여자가 2일 전에 발생하여 점차 심해지는 두통과 고열로 응급실로 왔다. 내원 전일에는 두통과 오한이 더 심해졌고 구역질과 구토가 동반되었으며 두통으로 잠에서 깨곤 하였다. 내원할 때 두통은 머리 전체가 깨지는 듯 하였고 시각통증등급은 9였다. 과거력, 가족력에 특이 사항은 없었고 중이염, 축농증, 치아질환을 앓은 적도 없었다. 순환기, 호흡기, 소화기, 비뇨생식기에 이상 증상도 없었다.

체온은 38.5℃였고, 혈압 138/83 mmHg, 맥박수 분당 66회, 호흡수 분당 20회였다. 신체검사와 신경계진찰은 정상이었고 뇌막 자극후도 없었다. 혈액검사에서 백혈구 14,020/μL였고, C-반응단백질 4.73 mg/dL였으며 화학검사, 소변검사, 흉부X선사진은 모두 정상이었다. 뇌 CT에서 좌측 측두엽에 경계가 불분명한 저음영병변이 관찰되었고 뇌척수액검사에서 압력 19 cmH₂O, 단백질 203 mg/dL, 포도당 44 mg/dL (혈당 101 mg/dL), 적혈구 63/μL, 백혈구 2,804/μL (다핵세포 78.1%)였다. 뇌척수액의 세균배양검사, 결핵균중합효소사슬반응, 크립토코쿠스항원검사는 음성이었다. 여러 번 시행한 혈액배양검사에서 균은 자라지 않았다. 뇌 MRI에서 좌측 측두엽에 1.8 cm 크기의 등근 종괴와 주위의 부종이 관찰되었다. T1강조영상에서 종괴는 백질과 신호강도가 비슷하고 약간 조영증강이 되는 등근 테와 내부의 균일한 저신호강도로 구성되어 있었는데 내부의 겔보기확산계수는 균일하게 감소되었고 확산강조영상에서 고신호강도로 보여 뇌농양에 해당하였다(Fig. A). 환자의 증상, 뇌 자기공명영상 소견, 뇌척수액검사 소견을 고려하여 세균

Received May 15, 2022 Revised August 1, 2022

Accepted August 1, 2022

Address for correspondence: Sung-Hyun Lee, MD

Department of Neurology, College of Medicine, Chungbuk National University, 776 1sunhwan-ro, Seowon-gu, Cheongju-do 28644, Korea
Tel: +82-43-269-6195 Fax: +82-43-275-7591

E-mail: sunghlee@chungbuk.ac.kr

성 뇌농양으로 진단하고 항생제를 투여하기 시작하였고 선행 요인을 찾기 위해 심초음파와 흉부, 복부 CT를 시행하였다. 심초음파

와 복부 CT는 정상이었으나 흉부 CT에서 다발성 동정맥기형이 의심되었다(Fig. B). Agitated saline을 정맥주사를 통해 주입하고 시

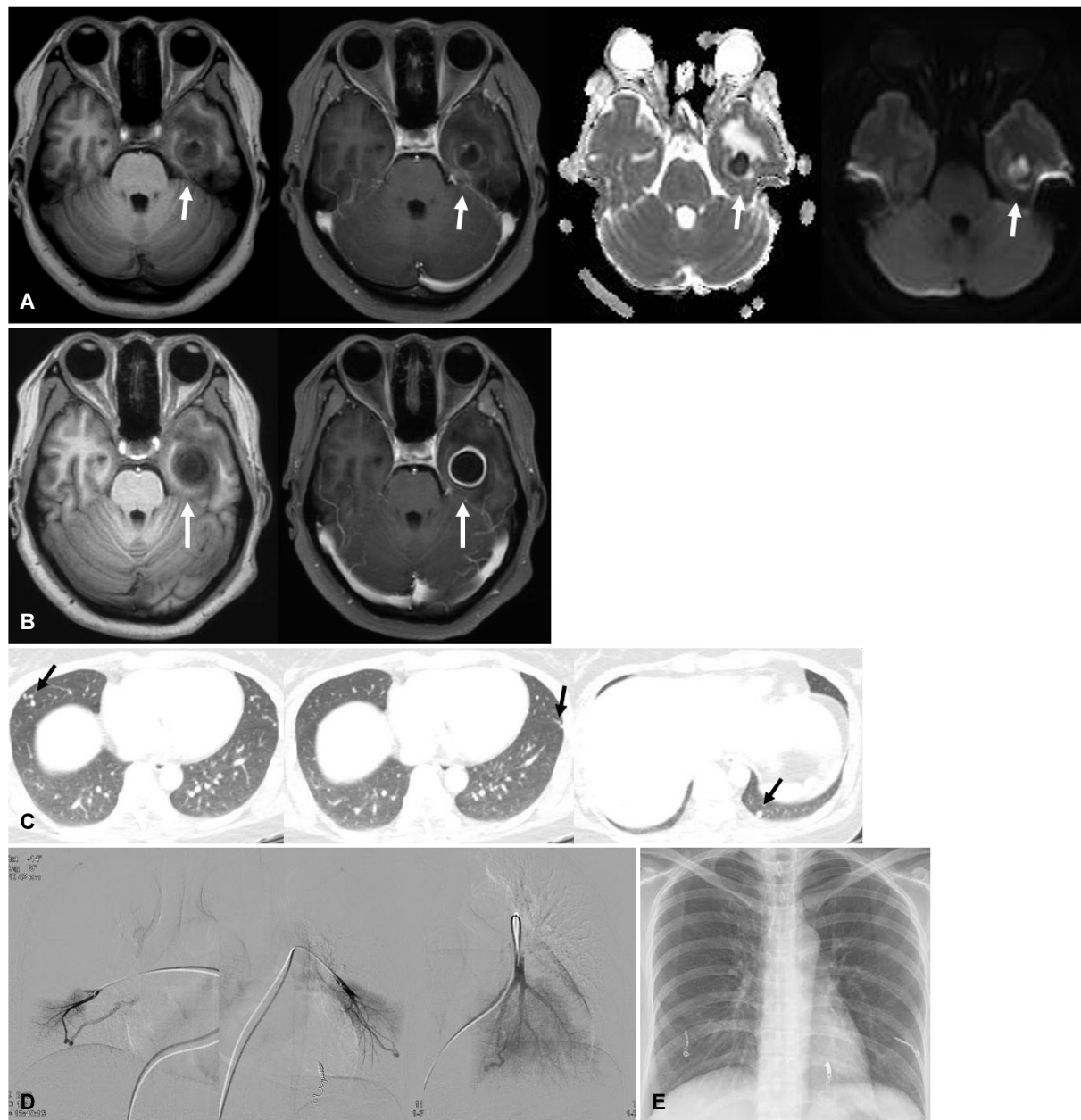


Figure. (A) Initial T1-weighted axial and contrast-enhanced T1-weighted axial MRI show a 1.8 cm-sized slightly-enhanced round mass with surrounding irregular low intensity in the left temporal lobe. The ADC inside the mass is decreased and the ADC in the surrounding area is increased. A diffusion-weighted MRI shows high signal intensity inside the mass (arrows). (B) A chest computed tomography shows suspicious arteriovenous malformations in the right middle lung, the lingular division of left upper lung, and the left low lung (arrows). (C) a pulmonary arterial angiography shows arteriovenous malformations respectively (arrows). (D) Coil emboli are observed in a chest X-ray after coil embolization. (E) Follow-up T1-weighted axial and contrast-enhanced T1-weighted axial MRI 2 weeks later show a well-enhanced round mass with increased size in the left temporal area.

행한 심초음파에서 3회 심박동만에 좌우 폐정맥에서 기포가 다수 관찰되어 동정맥기형을 통해 다량의 우좌선트(right-to-left shunt)가 이루어지고 있음을 확인하였다. 폐동맥혈관조영술에서 동정맥기형을 확인하고(Fig. C) 입원 6주차에 코일색전술을 시행하였다(Fig. D).

항생제 치료 시작 후 열이 내리고 두통도 호전되었으나 2주 후에 시행한 뇌 MRI에서 종괴의 크기가 증가하여(Fig. E) 정위흡인으로 다량의 고름을 제거하였다. 고름도말검사와 배양검사에서 원인균은 검출되지 않았다. 항생제는 총 7주 사용하였고 후유증 없이 퇴원하였다.

고 찰

선행요인이 분명하지 않은 뇌농양 환자에서 선행 요인을 찾기 위한 적극적인 검사를 통해 폐동정맥기형을 진단하고 치료한 증례이다.

뇌농양의 주요한 증상은 두통, 고열, 국소신경계증상, 발작, 의식장애이고 면역기능이 정상인 경우 95% 이상에서 세균이 원인이다.¹ 뇌농양의 진단에서 확산강조영상을 포함하는 조영증강 뇌 MRI를 시행하여 종괴내부에서 결보기확산계수가 감소되어 있고 확산강조영상에서 고신호강도를 보이는 고름을 확인하면 진단의 정확성을 높일 수 있다.¹ 적절한 항생제를 충분한 기간 사용함과 동시에 뇌농양이 2.5 cm 이상으로 크거나 뇌실에 인접해 있어 뇌실로 파열될 위험이 있는 경우 정위흡인을 시행할 수 있다. 뇌농양 치료에서 선행 요인을 찾으면 적절한 항생제를 선택할 수 있고 재발을 막을 수 있으므로 매우 중요한데 20% 정도에서는 선행 요인이 규명되지 않는다.¹

폐동정맥기형은 폐동맥과 폐정맥 사이에 정상적인 모세혈관계를 형성하지 않는 비정상적인 혈관구조물로 이를 통하여 우좌선트가 발생하여 저산소혈증과 모순색전증에 의한 뇌농양이나 뇌경색이 발생할 수 있다. 혈류에 진입한 세균이나 색전은 7-10 μm 크기의 정상적인 폐모세혈관을 통과할 수 없으나 비정상적인 동맥과 정맥의 연결인 폐동정맥기형은 통과하므로 문제가 발생한다.⁶ 445명의 폐동정맥기형 환자를 대상으로 한 연구에서 37명(8.3%)이 뇌농양이 발생하였는데 이 중 29명(78.4%)은 뇌농양 발병 이전에 동정맥기형을 진단받은 적이 없었고 뇌농양 발생 다음 오랜 시간이 경과한 후(평균 2년)에야 폐동정맥기형이 진단되었다.²

폐동정맥기형은 10만 명당 2-3명의 빈도로 발생하는 드문 질환이며 약 90%는 유전출혈모세혈관확장(hereditary hemorrhagic telangiectasia) 환자에서 발견된다.⁶ 주요한 증상은 호흡곤란, 청색증, 곤봉형 손가락이며 무증상인 경우도 많다. 유전출혈모세혈관확

장은 보통염색체우성질환으로 5,000명에서 8,000명 중 1명 꼴로 발생하며 진단기준은 (1) 비출혈, (2) 입술, 구강, 코, 손가락의 모세혈관확장, (3) 소화기계의 모세혈관확장 및 폐, 간, 뇌, 혹은 척수의 동정맥기형, (4) 직계가족의 유전출혈모세혈관확장 가족력으로 4가지 중 3가지를 충족하면 진단할 수 있다. 유전출혈모세혈관확장 환자의 약 30%에서 폐동정맥기형이 발생한다. 본 증례의 경우 가족력이 없었고 비출혈, 호흡곤란의 병력도 없었으며 신체의 특징적인 부위나 다른 장기에 모세혈관확장이나 동정맥기형은 발견되지 않았다. 큰 폐동정맥기형은 흉부X선사진에서 원형이나 타원형의 결절로 보이지만 크지 않은 경우에는 본 증례처럼 보이지 않는다.⁶ 기존에 국내에서 보고된 증례들은 흉부X선사진에서 폐동정맥기형을 의심할 수 있는 소견이 명확하여 진단이 용이하였으나 본 증례는 상당한 우좌선트가 있었음에도 3개의 폐동정맥기형에 분산되어 흉부X선사진에서는 전혀 이상을 찾을 수 없었고 흉부 CT에서도 흉부영상의학과외사의 자문을 받은 후에야 의심할 수 있었다. 전형적인 폐동정맥기형은 조영증강하지 않은 흉부 CT에서 경계가 분명한 균일한 결절이나 혈관과 연결된 꾸불꾸불한 덩이(serpiginous mass)로 보인다. 조영증강 흉부 CT에서는 초기에 영양동맥, 핵(nidus)과 유출정맥이 관찰되나,⁶ 본 증례처럼 다양한 형태로 나타날 수 있으므로 흉부영상의학과외사의 자문이 필요하다. 폐동맥혈관조영술은 진단이 불분명한 경우나 치료목적으로 시행된다. 폐동정맥기형을 통한 선트가 있는 경우 Agitated saline심초음파검사에서 3-4심박동 후에 좌심에서 기포를 감지할 수 있다. Agitated saline심초음파는 폐동정맥기형 진단에서 민감도가 가장 높고 비침습적이므로 선행 요인이 분명하지 않은 뇌농양 환자에서 최초검사로 추천된다.⁷ 본 증례에서는 흉부 CT에서 폐동정맥기형이 의심되긴 하였지만 분명하지 않아 Agitated saline심초음파로 양측 폐정맥에서 우좌선트를 확인한 후에 폐동맥혈관조영술로 다발성 폐동정맥기형을 진단하고 코일색전술을 시행하였다.

결론적으로 뇌농양을 진료할 때 폐동정맥기형이 선행 요인이 될 수 있음을 생각하고 적극적으로 찾아 치료하면 뇌농양의 재발이나 뇌경색을 예방할 수 있다. 폐동정맥기형의 증상인 호흡곤란, 청색증, 곤봉형 손가락이 있는 지와 유전출혈모세혈관확장의 증상인 비출혈, 특징적인 부위의 모세혈관확장, 유전출혈모세혈관확장의 가족력을 확인해야 한다. 선행 요인이 분명하지 않은 경우 흉부 CT나 Agitated saline심초음파를 고려해야 한다.

REFERENCES

1. Brouwer MC, van de Beek D. Epidemiology, diagnosis, and treatment of brain abscesses. *Curr Opin Infect Dis* 2017;30:129-134.
2. Boother EJ, Brownlow S, Tighe HC, Bamford KB, Jackson JE, Shovlin CL. Cerebral abscess associated with odontogenic bacteremias, hypoxemia, and iron loading in immunocompetent patients with right-to-left shunting through pulmonary arteriovenous malformations. *Clin Infect Dis* 2017;65:595-603.
3. Nam TK, Park YS, Kwon JT. Brain abscesses associated with asymptomatic pulmonary arteriovenous fistulas. *J Korean Neurosurg Soc* 2017; 60:118-124.
4. Choi HS, Kim YK, Lee JH, Jung JY, Choi SH, Park YS, et al. Clinical features and prognostic factors of brain Abscess. *Infect Chemother* 2003;35:235-240.
5. Corsini Campioli C, Castillo Almeida NE, O'Horo JC, Esquer Garrigos Z, Wilson WR, Cano E, et al. Bacterial brain abscess: an outline for diagnosis and management. *Am J Med* 2021;134:1210-1217.
6. Cartin-Ceba R, Swanson KL, Krowka MJ. Pulmonary arteriovenous malformations. *Chest* 2013;144:1033-1044.
7. Gossage JR. Pulmonary arteriovenous malformations: clinical features and diagnostic evaluation in adults. [online]. [cited 2022 May 9]. Available from:URL: <https://medilib.ir/uptodate/show/8268>.