

유아의 급성 상악골 골수염 2례

전주 예수병원 이비인후과

김진용 · 김준기 · 김광태 · 박상영 · 이시영

Two cases of Acute Maxillary Osteomyelitis in Infants.

Jin-Yong Kim, MD, Joon-Ki Kim, MD,
Kwang-Tae Kim, MD, Sang-Young Park, MD,
Si-Young Lee, MD

Department of Otolaryngology, Presbyterian Medical Center. Chonju, Korea.

= Abstract =

Acute maxillary osteomyelitis in infants which was first described by Rees(1847), is a rare condition in which the patient develops a massive osseus infection of the midface during the first 3 weeks after birth. A causative agent (esp. Staphylococci, Streptococci, Pneumococci) may become pathogenic and widespread after break of the mucosal barrier due to trauma or infection. The clinical picture is that of an acutely ill appearance with a unilateral swelling of the face and eye, a swollen gum and a purulent nasal discharge all on the same side.

We experienced 2 cases of acute maxillary osteomyelitis on Feb. and Apr. 1995. They were admitted to the department of Pediatrics due to fever, feeding difficulty, cheek swelling with redness, unilateral nasal discharge under the impression of dacryocystitis and maxillary sinusitis. They took antibiotics therapy but symptom did not improved. So they were transferred to our department. Physical examination revealed purulent unilateral nasal discharge and granulation tissue. In another case, fistula at medial canthus area and alveolar arch were noted.

After they underwent sequestrectomy and endoscopic sinus surgery with 0°, 2.7mm endoscopy, under general anesthesia, with adequate antibiotics therapy, their physical status were improved.

KEY WORD : *Acute maxillary osteomyelitis . Sequestrectomy . Endoscopic sinus surgery*

서 론

신생아 상악골 골수염은 생후 3주내에 상악골의 심한 염증과 상악동의 변화를 초래하는 매우 드문 질환이라고 1847년 Rees에 의해 처음 보고되었으며 염증

의 치료에 항생제가 도입된 후로는 더욱 감소 추세에 있는 질환이다.⁸⁾⁹⁾¹⁰⁾ 이 질환의 정도는 다양하며, 심한 경우엔 뇌 농양을 형성하며,⁸⁾⁹⁾ 합병증으로 안면 변형, 치아 이상, 시력 손상, 실명에까지 이르기기도 한다.¹¹⁾⁹⁾¹⁰⁾ 신생아의 경우 상악동의 발육이 미숙하며

상악동 자연구가 쉽게 폐쇄되어, 상악동내에 심한 화농성 병변이 일어나면 상악동 점막의 결체조직은 동주위 골벽의 골수강과도 밀접한 관계가 있음으로 점막의 화농은 쉽게 상악골수염을 일으키게 된다.¹⁾

저자들이 경험한 2례의 신생아 급성 상악골 골수염에 수반하여 발생한 누공, 상악동염, 상악골 부골에 대하여 내시경적 수술과 항생제 치료를 통하여 좋은 결과를 얻었기에 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1

환자 : 정 ○빈, 7일, 남자

주소 : 발열, 좌측 안면부 종창, 수유장애.

초진 일자 : 1995년 2월 24일

가족력 및 과거력 : 특이 사항 없음.

현병력 : 생후 5일째부터 발열 및 좌측 안면부 종창, 수유장애를 주소로 좌측 급성 농성 누농염, 구내염 진단하에 소아과에 입원하여 항생제 및 보존적 치료를 시행하였다.

임상검사 소견 : 입원 당시 시행한 일반 혈액 검사상 백혈구 수는 29,100/mm³ (N.band:16%, N.segment:47%, Lymphocyte:30%)이었으며 CRP : +, 적혈구 침강속도 : 46mm/hr로 증가되어 있었다. 기타 혈액검사 및 단순 흉부 X-선 검사는 정상이었다.

임상 경과 : 입원 2일째에 점점 심해지는 비루와 안면부 종창으로 본과에서 비점막 수축제와 항생제 사용을 권유하였으며, 입원 1일 전부터 발생한 좌측 상치조 부위에 발생한 혈성 낭종 및 경구개부의 종창 발적으로 치료와 치료를 시행받았다. 입원 3일째에 안과에서 좌측 급성 누농염 진단하에 절개 배농을 시행받았다. 입원 7일째에 좌측 상치조 부위의 낭종 부위로 농성 분비물이 터져나왔으며 비강내로 농성 분비물이 증가되어 비강 세척을 시행하였으며 좌측 협부 압박시 구강 및 비강을 통해 농성 분비물이 흘러나왔으나 누농 부위 자극시 유루는 보이지 않았다. 입원 13일째에 누농 압박시 분비물은 없었으나 누농 하부, 하안검의 내측에서 농성 분비물은 계속되었다. 입원

26일째 전신상태 호전되고 잘 먹고 열이 없어 퇴원하여 외래 통원 치료중 퇴원 14일째 (95.4.4) 재입원하였다.



Fig. 1. Axial PNS CT scan : Maxillary sinus floor and alveolar arch bone destruction

재입원 당일 이학적 검사상 누농의 분비물은 없었으며 구강내로의 누공은 치유된 상태였다. 하지만 협부 압박시 비강내로 많은 농성 분비물이 배출되었고 비강내에는 많은 육아종과 농성 분비물 배출을 내시경으로 확인할 수 있었다. 재입원시 임상검사 소견은 일반 혈액 검사상 백혈구 수는 14,400/mm³이었으며, 임파구가 76%였다. 간기능 검사상 AST/ALT가 106/136 (IU/L)였으며, 비강으로 배출된 농성 분비물의 균주검사상 S. aureus가 검출되었다. 기타 혈액검사, 소변검사 및 단순 흉부 X-선 검사는 정상이었다. 재입원 직전에 외래에서 시행한 부비동 CT 소견상 좌측 상악동과 비강을 채우는 연조직 소견과 좌측 상악동 외벽 및 상아골 기저부의 골파괴 소견을 보였다(Fig. 1). 재입원 11일째 전신마취 하에 비내시경(0°, 2.7mm)을 이용하여 비내 및 누공 부위를 통해 부골 및 육아종 제거 수술을 시행하였으며(Fig. 2), 수술소견상 누공은 좌측 상악동과 비강을 통하여 좌측 내안검 직하방으로 통해 있었고, 비강내

특히 중비도에 큰 용종같은 육아종이 있었으며, 누공을 따라 다량의 농, 육아종 및 부골 골편들이 관찰되었다. 수술 도중 제거하였던 골편 및 조직들의 병리 조직 소견상 골조직의 재흡수 및 염증 세포들이 모여 있는 것을 관찰할 수 있었다. 술후 원활한 배농과 상악동 세척을 위해 안면부 외누공을 통해 siliastic tube를 상악동을 거쳐 비강으로 설치하였으며, 술후 이틀째 제거하였고 술후 10일째 소아과로 전과되어 6주간의 항생제 (vancomycin 45mg/kg/day, amikacin 20mg/kg/day) 투여후 재발없이 추적관찰 중이다.



Fig. 2. Preoperative gross appearance : Fistula and soft tissue swelling at left medial canthus.

증 례 2

환자 : 채 ○ 경, 19 일, 여자

주소 : 발열, 우측 협부 종창, 우측 일측성 농성 비루.

초진 일자 : 1995년 3월 20일

가족력 및 과거력 : 특이 사항 없음.

현병력 : 환자는 내원 6일 전부터 발생한 상기 주 소로 소아과에 급성 누낭염, 급성 상악동염 진단하에 입원하였다.

이학적 소견 : 입원 당시 우측 협부 특히 내안검 하부와 비루 종창 및 우측 일측성 농성 비루와 비내 용

종이 비 저부와 외측벽에서 관찰되었으며 비점막의 발적, 종창 소견을 보였다.

임상 검사 소견 : 입원 당일 시행하였던 일반 혈액 검사상 백혈구 수는 19,900/mm³ (N.band:2%, N.segment:32%, Lymphocyte:47%) 로 약간 증가되어 있었으며 적혈구 침강속도는 70mm/hr로 증가되어 있었고, CRP : + 소견을 보였다. 그 외의 혈액 검사, 소변검사 및 단순 흉부 X-선 검사는 정상이었다.

임상 경과 : 환아는 입원 3일전부터 우측 상치조 및 경구개부의 발적이 있었으며 평상시 보다 수유양이 줄었다. 입원 당일 안과 검사에서 누낭은 정상 소견을 보였으며, 본과 진찰시 이학적 검사상 우측 협부 특히 내안검, 누낭 하부와 비루 종창 및 비내 용종이 비 저부와 외측벽 비점막의 종창 소견을 보였다. 입원 3일째에 우측 협부의 종창 및 농성 비루가 심해져 비루에서 시행한 균주 검사에서 S. aureus가 검출되었다. 2주간의 보존적 치료로 농성 비루 및 비폐쇄 증상이 호전되었고 백혈구 및 적혈구 침강 속도도 정상 소견을 보였다. 입원 20일째에 다시 잘 먹지 않고, 수면 장애, 협부 압통이 증가되었고 백혈구 수도 14,600/mm³ 로 약간 증가되었다. 이때 시행한 단순 부비동 X-선 소견상 우측 상악동의 연부조직소견 및 상악골의 불규칙한 양상을 관찰할 수 있었으며 입원 3일째 시행한 부비동 CT소견상 우측 하안검 부위 및 비강을 채우는 연조직 소견이 사골동과 상악동까지 확대된 소견을 보였으며, 상악골 저부의 골파괴 소견을 관찰할 수 있었다(Fig. 3). 입원 20일째 부터 보존적 치료에도 불구하고 증상이 다시 악화되고, X-선 소견상 부골 형성이 강하게 의심되어 입원 30일째 본과에서 전신마취하에 비 내시경(0°, 2.7mm)을 이용하여 부골 및 육아종 제거 수술을 시행하였다. 수술 소견상 우측 비강과 사골동에 육아종 및 부골 골편들이 있었고 상악동 역시 농과 육아종, 부골들로 채워져 있었다. 수술중 제거하였던 부골 및 연조직의 조직검사상 역시 골 흡수 소견 및 염증 세포들이 모여있는 소견을 보였다(Fig. 4). 수술 후 9일째 소아과로 전과되었고 술후 약 6주간의 항생제 (vancomycin 45mg/kg/day, amikacin 20mg/kg/day)치료후 재발없이 경과 관찰 중이다.



Fig. 3. Axial PNS CT scan : Maxillary alveolar arch bone destruction.

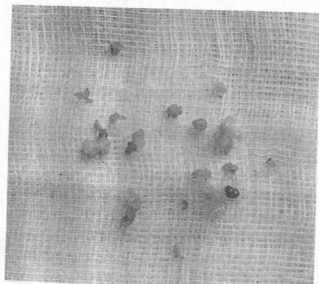


Fig. 4. Postoperative specimen : Removed necrotic bone and soft tissue from maxillary sinus and maxilla.

고 안

1847년 Rees에 의해 처음 보고된 신생아 급성 상악골 골수염은 1960년까지 Cavanagh¹¹⁾에 의해 152례가 보고되었으며, 국내에서는 박 등에 의해 1례가

보고된 바 있다.¹⁾

Ballenger²⁾에 의하면 신생아 및 유아에 있어서 급성 상악골 골수염의 호발시기는 생후 첫주부터 9개월 사이가 많으며, 특히 생후 3주간이 가장 호발하는 시기라고 하였으나 McCash⁸⁾, Florence Cavanagh¹¹⁾ 등은 생후 3개월 이내에 가장 호발한다고 하였다.

이 질환의 원인으로는 확실하지 않으며 여러 가설들이 있으나 유소아의 피부감염, 종기 등으로 인한 혈행성 파급, 감염된 누낭, 또는 치낭으로부터 감염으로 생각되며 드물게는 어머니의 감염된 유두나 유방 농양 혹은 피부감염 등에 의해 유소아에 혈행성으로 감염되는 경우도 있다고 한다.¹⁾ 그 외에도 출생시 산도를 통한 감염, 상기도 감염, 비내이물에 의한 경우도 보고되고 있다.³⁾⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾

급성 상악골 골수염을 일으키는 기전을 살펴보면, 출생 직후 신생아의 상악동은 흔적기관처럼 보이며, 상악골의 아주 적은 부분을 차지하고 있다. 뿐만 아니라 안와 저부와 치조돌기는 아주 가깝게 인접해 있으며 어느 의미에서는 바로 연장선상에 있는 것처럼 보인다. 따라서 해부학적으로 상악동 및 상악골의 발육 미숙으로 감염에 의해 쉽게 자연구의 폐쇄를 초래한다. 일단 폐쇄된 상악동은 심한 화농성 병변을 초래하며 상악골의 급성 염증과 혈관내 혈전을 형성하게 되고 쉽게 상악골의 괴사 및 부골화를 초래하게 된다. 경증의 경우는 항생제 치료로 대부분 특별한 합병증 없이 치료되지만, 중증의 경우는 패혈증 및 사망에 이르기기도 한다.⁸⁾⁹⁾

원인균에 대해서는 초기문헌에서는 streptococci나 pneumococci라 하였으나 Willensky,⁶⁾ White⁷⁾ 및 Lieberman⁵⁾ 등에 의하면 S. aureus가 가장 많다고 하였으며⁸⁾⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾ 본 증례에서도 배양검사 결과 2례 모두 농성 비루에서 methicillin-resistant S. aureus(MRSA)가 검출되었다. 그러나 Schramm¹²⁾ 등은 H. influenza가 가장 많다고 보고하였다.

임상 양상을 살펴보면 Round⁴⁾는 구개 점막의 부종이 안와 부종보다 선행된다고 하였으며 Hitchen과 Naylor⁴⁾는 침범된 상악골쪽에 급성 구내염이 생기는 것이 특징적이며 정중선에 의해 경계지어지는 것이 이 질환의 특징이라 하였다. McCash와 Rowe⁸⁾는 대부분의 경우는 비교적 만성 경과를 취하는데, 특징

적으로 몇일간의 짧은 급성기와 계속되는 농성 분비와 부골을 형성하는 만성화 시기로 이어진다고 하였으며 임상기를 크게 2기로 구분하였는데, 첫 시기는 누낭근처의 내안검의 부종과 종창을 보이는 시기로 상악골 부위의 부종과 염증 반응이 초기에 출현하는 급성 골수염의 특징적 양상을 보이며, 이 시기에는 누낭염, 안와 봉와직염과 감염하여야 하며 질환이 좀더 진행되면 치조 용기 및 견치에 부종이 시일이 경과함에 따라 부비동염으로 인한 일측성 농성 비루와 구강내로 누관을 형성하게 된다. 이 시기에서는 농성 비루에서 순수하게 포도상구균을 배양할 수 있다. 본 증례중 처음의 경우는 구강내로 누관형성을 볼 수 있었으나 두번째 경우는 구강내 누공은 없었으나 측상면 CT 소견에서 2례 모두 상악골 저부의 골파괴를 관찰할 수 있었다.

이 시기의 진단으로 단순 X-선은 큰 의미가 없으며 골의 병적 변화를 관찰하기 위해서는 약 3주후부터 단순 X-선에 골 변화를 관찰할 수 있다.¹⁹⁾¹¹⁾ 따라서 이 시기는 임상적 진단이 중요한 것으로 되어있으며 골스캔은 급성골수염의 조기진단에 유용한 검사법으로 알려져 있다.

두번째 시기는 배농이 이루어지며 만성화로 가는 시기로, 특징적으로 부비동으로부터 배농과 구강내 및 내안검 아래 부위로의 누공 및 상악골의 부골화가 이루어지는 시기로 평균 기간은 약 두달에서 석달 정도이며 형성된 부골이 자연적으로 혹은 수술적으로 제거되지 않는 한 계속된다. 이 시기의 합병증으로는 만성화농화로 하안검의 섬유 조직화 및 상악골의 비대칭으로 인한 얼굴의 변형, 치아소실, 안와 침범시 골막 부종과 심한 경우 실명까지도 초래할 수 있다. 본 증례에서도 이학적 검사상 안와 부종 및 상치조부 부종 및 경구개부 발적을 관찰할 수 있었으며 비폐색 및 일측성 농성 비루와 1례에서는 구강내 누공과 내안검 직하방의 누공을 관찰할 수 있었다. 안과적인 문제는 2례에서 모두 발생하지 않았으며 얼굴 기형 및 치과적인 문제는 추적 관찰중에는 발생하지 않았다.

감별해야 할 질환으로는 안와 봉와직염, 급성 누낭염, 신생아 결막염이 있다. 연령별로 볼때 상악골 골수염은 출생후 3개월 이내에 가장 호발하며 안와 봉와직염은 어느 나이에도 발생할 수 있으나 생후 6개

월 이내에 호발한다. 원인균은 상악골 골수염은 *S. aureus*가 가장 많으며 안와 봉와직염과 급성 누낭염은 연쇄상구균이 가장 많고 신생아 결막염은 임균이 가장 많은 비중을 차지한다. 상악골 골수염, 안와 봉와직염, 급성 누낭염은 일측성 병변을 보이지만 초기의 출현 부위에서 약간 차이를 보인다. 상악골 골수염은 안와 저부의 내측에서, 안와 봉와직염은 중간부위에서, 급성 누낭염은 누낭에 국한된 병변을 보이며 신생아 결막염은 양측성을 보인다. 비루에 출현하는 양상을 살펴보면 급성 상악골 골수염은 일측성 비루와 분비물에서 *S. aureus*가 배양되며 급성 안와 봉와직염은 양측성 비루 양상을 보이며 *streptococcus*가 배양된다. 급성 누낭염은 단순 감기 형태의 염증 소견을 보이며 균 배양시 여러 종류의 혼합된 균이 나온다. 얼굴에 나타나는 양상은 급성 상악동염의 경우엔 구강 및 협부에 거의 동시에 염증 소견이 출현하지만 급성 누낭염의 경우엔 누낭 근처의 염증이 지속되다 나중에 협부를 침범할 수 있다.

진단은 단순 X-선 검사, 부비동 CT, 골스캔 및 내시경 검사를 시행해 볼 수 있으며, 단순 X-선 검사는 초기엔 별 가치가 없고 임상적 소견이 중요하다.¹⁹⁾¹¹⁾ 따라서 발열, 수유장애 및 안검 부종을 주스로 유아가 내원시 반드시 비내 검사를 시행해야 하며 이때 농성 비루를 보이는 경우엔 구강 및 치조 검사를 통해 누공의 여부를 철저히 검사해야 한다. CT검사는 각 부비동과 비강내의 관계 및 상악골의 골파괴 정도를 정확히 측정할 수 있어 유용한 정보를 제공한다. 본과에서 실시한 부비동 CT를 보면 비강 및 상악동 사골동의 연조직 음영과 상악골의 골파괴 소견을 잘 볼 수 있다. 내시경 검사는 직접 비강내를 관찰하므로 농성 비루, 육아종 등의 소견을 볼 수 있다. 골스캔은 급성골수염의 조기발견에 유용한 검사법으로 임상상증이 발현한 후 수시간에서 수일 이내에(대개 24시간) 골스캔체계의 뼈섭취가 증가되어 나타난다. 골스캔의 시행에 특별한 주의의 기울이면 높은 예민도와 특이도를 얻을 수 있다. 근래에는 방사성동위원소 혈관촬영, 혈액풀(blood pool)영상, 2-3시간 지연영상을 함께 사용하여 진단의 특이도를 높은 3상(three-phase) 골스캔이 많이 사용되고 있다.

치료는 균배양 및 감수성 검사를 시행한 후 적절한

항생제를 사용하여야 하며, 적어도 3주 이상 항생제를 정주하여야 한다.¹⁰⁾ Liberman과 Brem⁵⁾에 의하면 원인균이 완전히 제거될 때까지 사용하여야 하며, 일단 골수염이 발생하면 증상이 소실되어도 최소한 6주 이상의 항생제 투여가 필요한 것으로 되어있다. 점막 수축제의 사용은 치료 자체에는 중대한 영향을 주지는 못하지만 배농에는 어느 정도 도움을 주는 것으로 되어 있으며, 치료는 대증요법 및 항생제 투여가 원칙이나 누공형성이 심하고 일단 부골이 형성되면 외과적 수술을 시행하여야 한다. 수술 시에는 가능한 한 치아는 보존하고 수술 범위를 좁힘으로서 유소아의 발육중에 올 수 있는 협부의 비대칭성이나 유치, 영구치의 결손을 방지하여야 한다.

합병증으로는 골수염으로 인해 형성된 범랑질과 영구치의 거친 마멸이 있을 수 있으며 만성 염증으로 인한 하안검의 반흔 구축, 영구적인 상악골의 비대칭으로 인한 안면 변형 및 치아 소실을 초래하여 궁극적으로 안과적, 치과적, 성형외과적인 치료를 필요로 할 수 있다.

또한 안와 침범시 골막 부종과 심한 경우엔 실명을 초래할 수 있으며, 중증의 경우엔 패혈증과 사망에 이르기에도 한다. 본 증례에서는 배양검사에서 methicillin-resistant *S. aureus*(MRSA)가 검출되어 감수성 검사를 거쳐 vancomycin과 amikacin을 4주 투여하였으나 증상의 호전이 없고, 부비동 CT 소견상 부골 형성이 의심되어 내시경적 수술을 시행하였다.

요 약

1) 유아의 급성 상악골 골수염은 생후 3개월 이내에 호발한다.

2) 초기의 진단은 임상적 진단이 중요하다. 양상은 수유 장애, 발열, 안검 부종을 보이며 진행하면 협부 부종과 안면부 및 구강내 누공을 형성하고, 일측성 농성 비루의 형태를 보인다

3) 이 시기에 감별해야 할 질환은 급성 안와 봉와직염, 급성 누낭염, 신생아 결막염이다.

4) 초기에 적절한 항생제 및 보존적 치료가 필요하다.

5) 일단 부골이 형성 되고 누공이 큰 경우엔 배농

만으로는 치료가 어려워 반드시 수술적 치료가 필요하다.

6) 수술적 치료를 시행하는 경우엔 슬루 합병증-치아소실, 상악골 비대칭으로 인한 안면 변형- 등을 고려해 수술범위를 최소화 해야한다.

저자들은 2례의 소아 급성 상악골 골수염을 비내시경적 수술과 항생제 사용으로 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) 박인용, 이춘근, 심상열, 초생아 급성 상악골 골수염의 1례. 한이인지 1978;21:93-95.
- 2) Ballenger JJ. Diseases of the Nose Throat and Ear. Philadelphia Lca & Febiger 1969;175
- 3) Cohen MM. Osteomyelitis of Maxilla in Newborn Infant: Report of case treated with penicillin. Oral Surg 1949;2:50-53
- 4) Hitchin AD and Naylor MN. Acute Maxillitis of Infancy. Oral Surg. 1957;10:715-24
- 5) Lieberman H and Brem J. Syndrome of Acute Osteomyelitis of the Superior Maxilla in Early Infancy. NEJM 1959;260:318-22
- 6) Round H. Inflammation of the Laws & Surrounding Parts. Treartment of International Dental Congress 1936;131-86
- 7) Wilensky AO. Osteomyelitis of the Jaws in Nurslings & Infants. Ann Surg 1932;25:33-45
- 8) White HD. Osteomyelitis of the Maxilla of the Newly Born. Arch Dis Child 1935;10:85-92
- 9) McCash CR and Rowe NL. Acute Osteomyelitis of the Maxilla Infants. J Bone Joint Surg 1953;35B:22-31.
- 10) Stephen K Wong and Kirk R Wiheismus. Infantile Maxillary Osteomyelitis with Cerebral Abscess. J Pediatr Ophthalmol Strabismus 1986;23:153-154.
- 11) Florence Cavanagh MB. Osteomyelitis of the Superior Maxilla in Infants. BMJ 1960;13:468-

472.

- 12) Schramm VL, Curtin HD, Kennerdell JS.
Evaluation of Orbital Cellulitis and Result of
Treatment. Laryngoscope 1982;92:732-38