

급성 인두염후 발생한 레미에르 증후군 1예

고신대학교 의과대학 이비인후과학교실,¹ 김해중앙병원 이비인후과²
한영진¹ · 차용우¹ · 문효성² · 이강대¹

Lemierre Syndrome : A Complication of Acute Pharyngitis

Young Jin Han, MD¹, Yong Woo Cha, MD¹, Hyo Sung Mun, MD² and Kang Dae Lee, MD, PhD¹

¹Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kosin University College of Medicine, Busan,

²Department of Otolaryngology, Kimhae Jungang Hospital, Kimhae, Korea

—ABSTRACT—

Lemierre syndrome, also known as postanginal sepsis or necrobacillosis, is an illness that originates as an acute pharyngitis or tonsillitis which progresses to sepsis, usually fusobacterial, due to suppurative thrombophlebitis of the internal jugular vein. Septic thromboemboli then seed various organs, resulting in multiple organ system pathology, most commonly affecting pulmonary and hepatic systems and joints. This serious complication of oropharyngeal sepsis had a mortality rate in excess of 90 percent in the pre-antibiotic era. Although now rarely seen and often forgotten, it remains a potentially life-threatening condition. Prompt diagnosis based on clinical presentation, radiologic findings, particularly CT scanning with contrast and a high index of suspicion, is necessary in order to institute often life saving therapy. We report on a cases of Lemierre syndrome which showed deep neck infection, internal jugular vein thrombosis and pulmonary septic emboli. (J Clinical Otolaryngol 2007;18:237-240)

KEY WORDS : Pharyngitis · Thrombosis · Internal jugular vein.

서 론

레미에르 증후군은 postanginal sepsis 또는 necrobacillosis라고도 불리며 급성 인두염이나 편도염 등에 병발하여 내경정맥의 혈전증이나 폐 및 기타 다른 부위에 폐혈성 색전증을 일으키는 매우 드문 질환이다. 항생제 사용 이전에는 치사율이 90%에 달하는 치명적인 질환이었으나 최근에는 항생제의 보급으로 치사율이 6.4%로 현저히 줄어든 상태이다. 하지만 여전히 치명적인 상태를

초래할 수 있는 질환이기에 조기 진단과 치료가 중요하다.¹⁻³⁾ 최근 저자들은 급성 인두염에 병발하여 내경정맥 혈전정맥염과 폐혈성 폐색전증이 생긴 1예를 레미에르 증후군으로 진단하고 치료하였기에 문헌적 고찰과 함께 보고한다.

증 례

56세 남자 환자가 내원 2주전부터 인후통, 발열이 있어 개인 의원에서 치료했지만 증상의 호전이 없고 진행성의 우측 경부 종창과 통증이 생겨 내원하였다. 내원 당시 39도의 고열을 보였지만 다른 활력 징후는 정상범위였다. 이학적 소견상 우측 경부에 약 4.0×5.0 cm의 종창과 압통, 구인두의 발적 소견을 보였으며, 우측 상완에도 종창과 압통이 있었다. 개구장애나 편도의 발적, 복시,

논문접수일 : 2007년 8월 20일
심사완료일 : 2007년 10월 19일
교신저자 : 이강대, 602-702 부산광역시 서구 암남동 34
고신대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (051) 990-6284 · 전송 : (051) 245-8539
E-mail : Kdlee@ns.kosinmed.or.kr

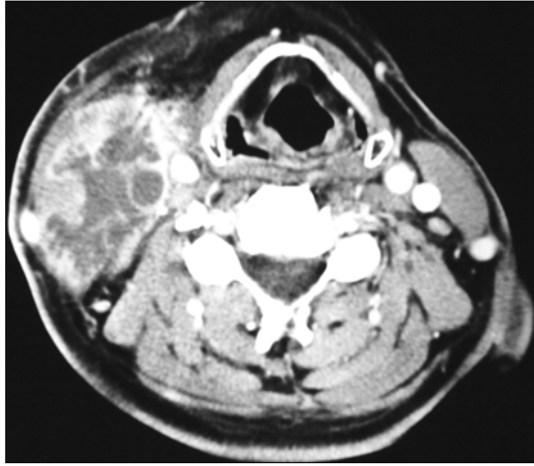


Fig. 1. Computed tomography scans of neck demonstrated a huge abscess in the right lateral neck and thrombosis of the right internal jugular vein.

안검하수의 증상은 없었다. 과거력으로 30년 전부터 당뇨로 약을 복용하고 있었고, 내원당시 혈당은 350 mg/dl 이었다. 외래에서 초음파 유도 하에 우측 경부에 주사기로 농성 물질 5 cc 흡인하여 의뢰한 배양검사서서 그람음성 bacilli가 배양되었다. 일반 혈액 검사상 15,000/ μ l로 백혈구 증가증 외에는 특이 소견이 없었다. 경부 전산화 단층 촬영에서 우측 흉쇄유돌근 내측으로 농양으로 생각되는 광범위한 저밀도 음영을 보였으며, 우측 경정맥내에 혈전으로 보이는 저밀도 음영과 변연부 조영증강이 보였다(Fig. 1). 단순 흉부 방사선 사진에서 우측 폐에 약 3 cm 정도 크기의 공동성 음영이 관찰되었고, 흉부 전산화 단층 촬영에서 색전증이 의심되는 고밀도의 결절성 병변이 우측 폐야에 관찰되었다(Fig. 2). 기관지경 검사에서는 특이 소견이 없었다. 복부 초음파 검사에서 간비대, 간농양, 비장비대 등의 특이 소견은 없었다.

구인두의 발적과 내경정맥의 혈전증, 폐색전증 등의 소견을 토대로 레미에르 증후군이라 진단하고, 수액공급과 항생제 투여를 시작하였고 항응고제는 사용하지 않았다. 우측 상완의 종창은 정형외과에 자문하여 농양으로 진단 받고, 입원 3일째 우측 경부와 상완에 절개 배농을 시행하였다. 흉쇄유돌근과 병변의 유착이 심하여 시야 확보 및 적극적인 병변제거를 위하여 우측 흉쇄유돌근의 일부를 절제했다. 내경정맥도 설골 상방 높이에서 쇄골의 직상방 부위까지 절찰하여 제거했으며 제거된 내경정맥의

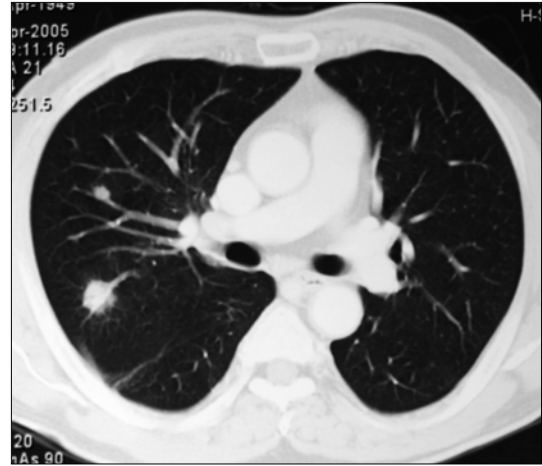


Fig. 2. Contrast enhanced CT scan of the chest shows septic emboli in the right lung.

혈관 내에서 혈전을 확인할 수 있었다. 우측 상완의 병변은 수술 후 괴사성 근막염으로 최종 진단되었다.

입원 22일째 배액관 제거 후 정형외과로 전과되었으며, 입원 29일째 폐렴이 발생하여 호흡기내과로 다시 전과되었다. 입원 61일째 폐 병변 및 우측 상완의 병변이 호전되어 퇴원하였다. 퇴원 이후 외래에서 추적 관찰한 결과 24개월이 지난 현재까지 후유증 및 재발증상은 보이지 않고 있다.

고 찰

레미에르 증후군은 postanginal sepsis 또는 necrobacillosis라고도 불리며 급성 인두염이나 편도염 등에 병발하여 내경정맥의 혈전증이나 폐 및 기타 다른 부위에 패혈성 색전증을 일으키는 매우 드문 질환이다.⁴⁾ 1990년에 Courmant와 Cade가 처음으로 구인두 감염과 패혈증의 관계를 기술하였으며, 1936년에 Lemierre가 post-anginal septicemia라고 알려진 여러 경우를 통합하여 기술한 이후 레미에르 증후군이라고 알려지게 되었다.¹⁾³⁾⁵⁾ 1989년 Sinave 등은 1974년 이후의 레미에르 환자들을 토대로 레미에르 증후군의 4가지 진단 기준을 제시하였다. 1) 구인두의 초발 감염 2) 혈액 배양 검사 결과에서 최소 하나 이상의 균이 증명되는 패혈증 3) 내경정맥의 혈전증 4) 최소 하나 이상의 전이성 감염. 위의 2), 4)의

기준을 충족하지 못하는 경우는 'non-septicemic' 레미에르 증후군이라고 명명했다.⁶⁾

레미에르 증후군은 항생제 사용 이전 시대에는 치사율이 90%에 달하는 질환이었으나, 항생제의 출현으로 발생률 및 사망률이 현격히 감소되었다.²⁾³⁾ 주로 젊고 건강한 성인에서 발생하며 가장 흔한 초발 감염부위는 구인두이다. 감염의 중증도는 경증에서 전격성까지 다양하며, 이로부터 발생한 패혈성 색전이 내경정맥 혈전증을 일으킨다.¹⁾³⁾⁵⁾ 초기 감염으로부터 패혈증으로 발전하는 기간은 1주 정도이며, 이 잠복기후에 국소전파, 패혈증, 색전의 전파가 일어날 수 있다.¹⁾ 본 증례에서는 인후통 후 2주 이내에 농양형성, 패혈증, 색전의 전파 등의 증상이 나타났다. 가장 흔한 합병증은 폐색전증으로 95~100%까지 보고되고 있다.⁷⁾⁸⁾ 환자는 늑막성 흉통, 호흡곤란 등을 호소할 수 있다.⁹⁾ 다른 폐 합병증으로 객혈, 늑막 삼출, 농흉도 생길 수 있다.⁷⁾

해부학적인 관점에서 내경정맥은 부인두공간과 밀접한 관련이 있다. 편도염이나 편도주위 농양 등으로 발생한 패혈성 색전은 편도정맥이나 편도주위 정맥을 통해 내경정맥으로 들어가서 패혈증을 일으킨다.⁷⁾ 내경정맥 혈전증의 특징적인 증상은 경부 통증, 종창 그리고 'cord sign' (흉쇄 유돌근 아래의 내경정맥의 경화)이다.⁶⁾¹⁰⁾ 내경정맥 혈전증의 병인은 정상 혈류 장애, 혈관 내피 세포 손상, 혈액의 과응고력(Virchow's triad) 등과 연관이 있다. 내경정맥이 주위의 감염에 의해 손상받았을 때는 외막이 가장 먼저 침범되고 울혈이 되면서 다형핵백혈구, 대식세포가 침윤된다. 감염이 진행되면 정맥의 모든층을 침범하여 혈전을 형성하게 된다.¹¹⁾

Fusobacterium necrophorum (81.7%)이 가장 흔한 원인균이고 그 외 *Fusobacterium nucleatum*, *Bacteroides* sp., *peptostreptococcus*, Group B & C *Streptococcus*, *Staphylococcus epidermidis*, *Enterococcus* sp., *Proteus mirabilis*, *Eubacterium* sp., *Eikenella corrodens*, lactobacilli, *Candida* sp.의 단독 감염 또는 복합 감염에 의해서도 생길 수 있다.¹⁾²⁾¹²⁾ 하지만 균이 동정되지 않는 경우도 12.8% 정도 된다.²⁾

경부 종창은 입과선염과 혼동하기 쉬우며 혈전 정맥염이 의심되면 방사선 촬영으로 확인하여야 한다. 초음파에서 내경정맥의 혈전증은 확장된 내경정맥내에 고음영

으로 보이거나 고형물질과 낭성물질의 복합체로 보이지만, 저음영으로 보이는 신생 혈전이나 쇄골 아래부위를 관찰하기에는 어려움이 있다.²⁾¹¹⁾ 조영제를 사용한 경부 전산화 단층촬영이 가장 적절한 방법으로서 혈전이 생긴 정맥의 확장, 음영이 증가된 혈관벽, 정맥동내의 충만 결손 등의 특징적 양상이 나타난다.¹³⁾ 초기 혈전은 혈액과 구분이 어려운 고음영이고 시간이 경과함에 따라 저음영으로 나타나게 된다. 그리고 정맥내에서 air-fluid level은 농성 혈전성 정맥염의 유일한 소견이다.¹⁾²⁾ 수술적 배농의 필요성 여부에 대해서도 도움을 준다.⁷⁾ 흉부 X-선 검사나 전산화 단층촬영에서도 다발성의 공동성 병변이나 결절성 음영, 늑막 삼출 소견이 자주 관찰되고, 심한 경우에는 기관지 확장증의 소견도 보인다.⁷⁾ 복부 전산화 단층촬영에서는 간이나 비장 비대, 간농양의 소견도 볼 수 있다.⁷⁾ 자기공명영상촬영은 전산화 단층촬영보다 연조직 증강이 우수하고 정맥내로 조영제를 주입하지 않으며 방사선에 노출되지 않고 혈류속도에 민감도가 높아서 정맥혈전을 진단하는 방법으로서 최근 중요성이 증가하고 있으나 비용이 비싼 단점이 있다.¹¹⁾ 정맥조영술도 이용할 수 있지만 혈전을 유리시킬 수 있는 단점이 있어 잘 사용하지 않는다.¹⁴⁾

인두염이나 편도염 등과 함께 경부의 종창, 통증이 있을 때는 집중적인 치료를 요한다. 먼저 혈액 배양 검사를 시행하고, 그람 양성, 그람 음성, 혐기성균을 방어할 수 있는 광범위 항생제가 필요하다.¹²⁾⁵⁾ 2~6주간의 benzylpenicillin, clindamycin이나 beta-lactam과 metronidazole 또는 chloramphenicol 등을 병합하여 사용하여야 한다.⁵⁾⁷⁾¹⁵⁾ 만일 부인두공간이나 편도주위 농양이 있으면 수술적 배농이 꼭 필요하다.⁷⁾

항응고제 사용의 유용성은 임상적으로 논란의 여지가 많다.¹⁵⁾⁷⁾ 한 연구에서는 항응고제를 사용한 군과 사용하지 않은 군의 결과는 비슷했다.⁵⁾ 일부 저자들은 해면 정맥동 혈전정맥염이 있을 때에만 항응고제를 고려해야 한다고 했으며, 이때 항응고제의 사용법은 1주일간의 정맥내 heparin 투여 후 3달간의 경구 coumadin 투여이다.⁵⁾⁸⁾

내경정맥 혈전증의 치료는 항생제 사용 이전시대에는 내경정맥의 결찰이 색전의 전파를 막는 유일한 방법이었으나, 최근에는 항생제의 투여가 주치료이며 치료에 반응하지 않는 경우를 제외하고는 내경정맥의 결찰은 하지 않

는다.¹⁾²⁾ 수술을 요하는 경우는 심부경부농양과 동반되었을 때, 경부 괴사성 근막염과 연관된 경우, 항생제의 정맥 주사에도 불구하고 혈전성정맥염이 계속 진행될 때, 화농성 혈전정맥염이 원인이거나, 패혈증이나 색전증의 증거가 있을 때 시도되고 있다.¹¹⁾ 본 증례는 내경정맥 혈전증과 함께 측경부 농양이 발생하여 내경정맥을 결찰하여 혈전증은 완전히 제거하였고, 국소적인 폐색전증 또한 정기적인 경과 관찰 외에 항응고제의 추가적인 처치 등은 시행하지 않았다. 레미에르 증후군의 발생빈도는 항생제의 출현이후 현저히 감소하였으나 여전히 치명적인 질환의 하나이므로 빠른 진단과 치료가 필요하다.

중심 단어 : 인두염 · 혈전증 · 내경정맥.

REFERENCES

- 1) Park JH, Sang DM, Lee CH, Sohn JH. *Lemierre's Syndrome Following Acute Tonsillitis. Korean J Otolaryngol* 2001;44 (12):1326-31.
- 2) Chirinos JA, Lichtstein DM, Garcia J, Tamariz LJ. *The evolution of Lemierre syndrome: Report of 2 cases and review of the literature. Medicine* 2002;81 (6):458-65.
- 3) Lemierre A. *On certain septicemias due to anaerobic organisms. Lancet* 1936;28:701-3.
- 4) Waterman JA, Balbi HJ, Vaysman D, Ayres RA, Caronia CG. *Lemierre syndrome: a case report. Pediatr Emerg Care* 2007; 23 (2):103-5.
- 5) McMullan R, McConville C, Clarke JC, Adams DA, Hedderwick S. *Lemierre syndrome: Remember the forgotten disease. Ulster Med J* 2004;73 (2):123-5.
- 6) Sherer Y, Mishal J, Leibovici O. *Early Antibiotic Treatment May Prevent Complete Development of Lemierre's Syndrome: Experience from 2 Cases. Scand J Infect Dis* 2000;32:706-7.
- 7) Williams A, Nagy M, Wingate J, Bailey L, Wax M. *Lemierre syndrome: a complication of acute pharyngitis. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1998;45 (1):51-7.
- 8) Lustig LR, Cusick BC, Cheung SW, Lee KC. *Lemierre's syndrome: Two cases of postanginal sepsis. Otolaryngol Head Neck Surg* 1995;112 (6):767-72.
- 9) Auber AE, Mancuso PA. *Lemierre syndrome: magnetic resonance imaging and computed tomographic appearance. Mil Med* 2000;165 (8):638-40.
- 10) Venkataraman MT, Policar M. *Fever, sore throat, and pulmonary infiltrates in a 20-year-old man. Chest* 1997;112 (1): 268-70.
- 11) Lee JW, Choi IK, Kim DJ, Park JH. *A case of internal jugular vein thrombosis. Korean J Otolaryngol* 1996;39 (11): 1917-21.
- 12) Cheung WY, Bellas J. *Case report: Lemierre syndrome presenting with fever and pharyngitis. Am Fam Physician* 2007; 75 (7):979-80.
- 13) Lai YJ, Lirng JF, Chang FC, Luo CB, Teng MM, Chang CY. *Computed tomographic findings in Lemierre syndrome. J Chin Med Assoc* 2004;67 (8):419-21.
- 14) Tewfik TL, Husein M, Shapiro RS, Oudjhane K. *Lemierre syndrome in an immunocompromised patient. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1999;51 (3):195-9.
- 15) Anton E. *Lemierre syndrome caused by Streptococcus pyogenes in an elderly man. Lancet Infect Dis* 2007;7 (3):233.