

정상 면역을 가진 환자에서 발생한 안면부와 두피의 프로토테카증 1예

중앙대학교 의과대학 피부과학교실¹, 중앙대학교 의과대학 안과학교실²
홍지연¹ · 석 준¹ · 오원종¹ · 문남주² · 이갑석¹ · 서성준^{1†}

= Abstract =

A Case of Protothecosis on Scalp and Face in the Immunocompetent Patient

Ji Yeon Hong¹, Joon Seok¹, Won Jong Oh¹, Nam Ju Moon²,
Kapsok Li¹ and Seong Jun Seo^{1†}

Department of Dermatology, Chung-Ang University College of Medicine, Seoul, Korea¹
Department of Ophthalmology, Chung-Ang University College of Medicine, Seoul, Korea²

Protothecosis is an unusual human infection, caused by the genus prototheca, especially *Prototheca wickerhamii*. A 80-year-old immunocompetent man presented with a 1-month history of multiple reddish brown lobulated plaques on the scalp and face. He denied any history of trauma and had no evidence of underlying diseases such as diabetes mellitus or malignancy. On histopathological examination, characteristic morula-like sporangia in the dermis was revealed. After treatment with oral itraconazole for 8 weeks, the patient's skin lesions are almost healed. [*Korean J Med Mycol* 2016; 21(2): 34-38]

Key Words: Cutaneous protothecosis, Prototheca

서 론

프로토테카증은 단세포의 호기성, 비엽록소성 조류인 *Prototheca* 균에 의해 유발되는 드문 기회 감염증으로, 인체에 발생하는 경우 주로 *Prototheca wickerhamii*가 원인이 된다¹. 피부 프로토테카증의 경우 인체 면역결핍바이러스 감염, 후천성 면역결핍증, 당뇨, 진신 스테로이드 장기 복용 등

의 위험 요인을 가진 면역저하자에서 발생하는 경우가 많으나 정상 면역자에서도 드물게 발생할 수 있다². 정상 면역 환자에서 발생하는 경우 주로 국한된 병변의 구진과 농포 형태를 보인다³. 호발 부위는 얼굴과 사지의 노출부로, 외상이 선행된 부위에 기회 감염되는 것이 주된 감염 경로이다⁴.

저자들은 정상 면역을 가진 80세 남자 환자에서 외상력 등 특이 병력 없이 발생한 두피와 안

Received: March 6, 2016, Revised: March 7, 2016, Accepted: June 21, 2016

†Corresponding author: Seong Jun Seo, Department of Dermatology, Chung-Ang University Hospital, 224-1, Heukseok-Dong, Dongjak-Gu, Seoul, 06973, Korea.

Tel: +82-2-6299-1525, Fax: +82-2-823-1049, e-mail: drseo@cau.ac.kr

Copyright©2016 by The Korean Society for Medical Mycology (pISSN:1226-4709, eISSN:2465-8278). All right reserved.

©This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License(<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>), which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited. <http://www.ksmm.org>



Fig. 1. (A) Multiple reddish brown lobulated plaques on the scalp and face **(B)** Marked improvement of skin lesions 8 weeks after the treatment

면부의 다발성 홍반성 판의 임상 양상을 보인 피부 프로토테카증 1예를 경험하고 문헌 고찰과 함께 보고한다.

증 례

환 자: 이OO, 80세, 남자

주 소: 두피와 미간 상안검, 입 주위에 발생한 다양한 크기와 모양의 다발성 홍반성 판

현병력: 내원 1개월 전 두피에 작은 홍반성 판이 처음 발생하였으며 소양감 동반되어 타 병원에서 타크로리무스 0.03% 연고만 처방 받아 도포하였으나 점차 얼굴로 번지면서 안면부 전반에 걸쳐 다양한 크기의 다발성 홍반성 판으로 진행되어 내원함.

과거력 및 가족력: 수년 전부터 고혈압 진단받아 치료 중이며 집 앞 마당을 가꾸는 일을 종종 하였으며 외상력 없고 그 외 특이 과거력 및 가족

력 없음.

피부 소견: 두피와 미간, 상안검, 입 주위에 발생한 다양한 크기와 모양의 다발성 홍반성 판 (Fig. 1A).

이학적 소견: 피부 소견 외에 특이 사항 없음.

검사 소견: 일반혈액 검사상 WBC 12,770/ μ l로 증가되었으며 BUN/Cr이 23/1.27로 약간 상승한 소견 이외 간기능 검사를 포함한 다른 혈액 검사, 소변 검사 상 특이 소견은 없었다.

진균학적 소견: 편치로 절제한 조직을 Sabouraud dextrose agar 사면 배지에 심어 실온에서 2주간 배양 후 백색 크림 형태의 집락이 형성되었다 (Fig. 2).

병리 조직학적 소견: 판의 중심부에서 시행한 조직 검사 상, H&E 염색에서 표피의 과각화증, 가시세포증이 관찰되었고, 진피 전반에 걸쳐 거대 세포들과 함께 다수의 림프구, 형질세포와 일부 호산구가 혼재된 소견을 보였으며 둥근 포자들이

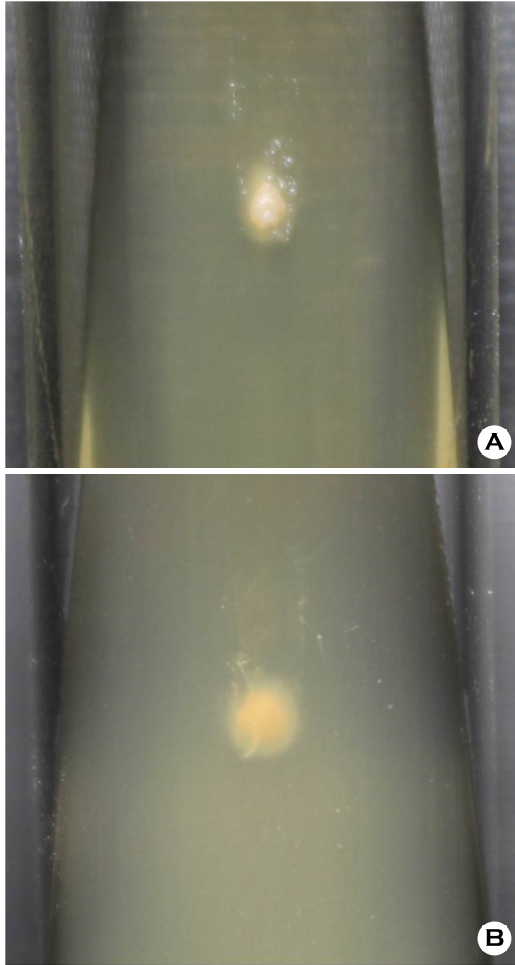


Fig. 2. (A) Whitish, creamy colony on Sabouraud dextrose agar media at room temperature, 2 weeks after culture (B) Rear side of the colony

관찰되었다 (Fig. 3). 특히 Gomori methenamine-silver (GMS) 염색 (Fig. 4A)과 Congo red 염색 (Fig. 4B)에서 포자들이 더욱 뚜렷하게 관찰되었으며 내생포자 (endospore) 내의 격벽에 의해 나타나는 수레바퀴 형상 (cartwheel appearance)를 볼 수 있었다.

치료 및 경과: 환자는 itraconazole 100 mg을 하루 2회씩 8주간 경구 투여 후 두피와 안면부의 병변은 모두 치유되었다 (Fig. 1B).

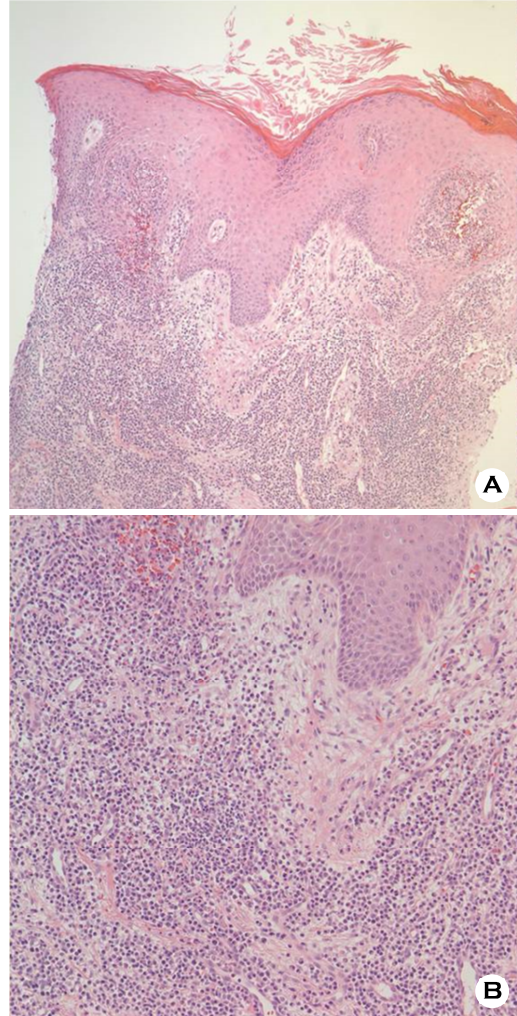


Fig. 3. (A) Epidermal hyperkeratosis and acanthosis. Dense plasmolymphocytic infiltration in the dermis (H&E stain, ×100) (B). Dense infiltration of multiple plasma cells, lymphocytes and scanty eosinophils (H&E stain, ×200)

고 찰

프로토테카증은 주로 면역저하자에서 발생하는 드문 만성 질환으로 1964년 Davies 등에 의해 처음 기술된 질환이다⁵. *Prototheca* 균종은 세포벽에 glucosamine과 muramic acid 성분이 없어 진균과는 차이가 있으나¹, 진균 배양 배지에서 비교적 잘

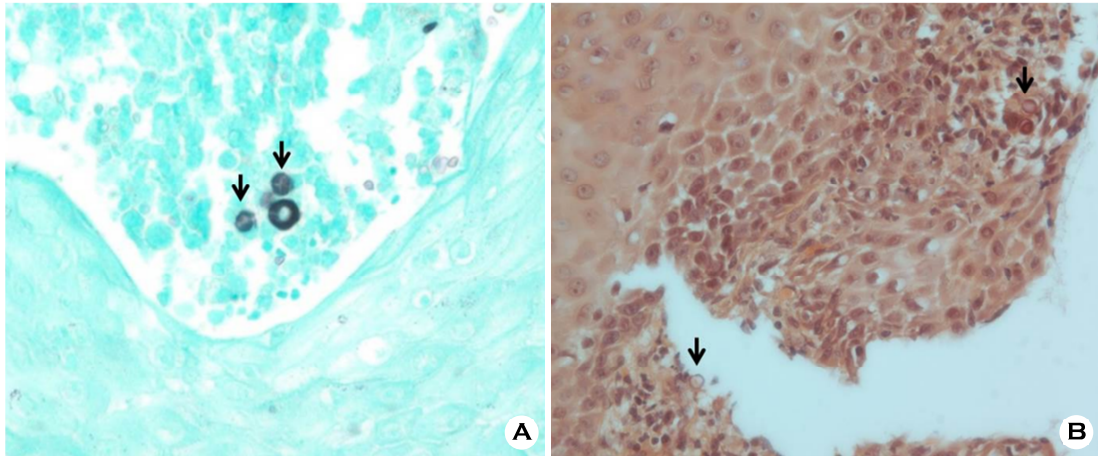


Fig. 4. (A) The characteristic morula-like sporangia containing endospores with internal septations, resembling cartwheel appearance (arrows) (GMS stain, $\times 1,000$) (B) Small ring-like dots observed by Congo-red staining in the epidermis and dermis (Congo-red stain, $\times 400$)

Table 1. Summary of reported cases of cutaneous protothecosis in Korean dermatologic literatures

	Yang JK, et al. ¹	Kim JA, et al. ¹² (1)	Kim JA, et al. ¹² (2)	Lee WS, et al. ³	Choi JH, et al. ⁷	Seok JY, et al. ¹⁰	Moon HS, et al. ¹¹	Choi SY, et al. ⁹	Jun JH, et al. ¹³	Lee E, et al. ¹⁴	Yang JK, et al. ¹⁵	Present case
Age/sex	80/F	62/F	45/F	65/M	66/F	68/M	73/F	79/F	64/M	88/F	80/F	80/M
Site	Forearm	Forearm	Cheek	Forearm	Forearm	Wrist	Wrist	Forearm	Upper arm	Forearm	Forearm	Scalp, face
Predisposing factors	None	Steroid therapy for 10 years (bronchial asthma)	None	Long-term steroid (arthritis), DM	None	Poor oral intake	Steroid therapy for several years (rheumatoid arthritis)	Prior trauma	DM	None	None	None
Treatment	Itraconazole 200 mg/day, 4 wks	Itraconazole 200 mg/day, 6 wks	Itraconazole 200 mg/day, 4 wks, Amorolfine cream 0.25%	Fluconazole 150 mg/wk, 10 wks	Itraconazole 200 mg/day, 8 wks, Wax and wane	Itraconazole	Itraconazole 200 mg/day, 8 wks Recur: fluconazole 150 mg/wk, 4 wks	Itraconazole 200 mg/day, 7 wks	Terbinafine 250 mg/day, 2 wks Itraconazole 200 mg/day, 8 wks	Itraconazole 200 mg/day, 1 wk Fluconazole 400 mg/day, 3 wks Surgical excision	Itraconazole 200 mg/day, 4 wks	Itraconazole 200 mg/day, 8 wks

자라고 항진균제에 치료 반응이 좋기 때문에 일부 저자는 진균류에 분류하여 기술하기도 한다⁶. 임상적으로 피부 감염, 팔꿈치활액낭염, 전신 감염 등의 형태로 나타날 수 있다⁷. 이 중 피부 감염증의 경우 구진, 판 궤양 등 다양한 양상을 보일 수 있기 때문에 육안적 소견만으로 진단을 내리는 데는 어려움이 있어 반드시 조직 검사와

배양 검사를 시행해야 한다⁸. 피부 감염은 대부분 피부 결손이나 외상이 동반된 부위에 직접 접촉으로 발생하며, 노출 부위인 사지 혹은 안면부에 호발하고, 면역이 저하된 경우 전신적으로 쉽게 퍼질 수 있다⁹.

조직 검사 상 H&E 염색에서 염증세포들이 혼재되어 나타나고 거대세포들이 동반되는 양상을

보인다. PAS나 GMS 염색에서 포자들이 잘 염색되어 보이며 거대세포 내부 및 조직 내부에서 자유형으로 분포할 수 있다. 본 증례의 조직 검사 소견에서 보는 바와 같이 포자는 원형으로 보이며 대략적으로 지름이 6~10 μm 정도로 측정되며, 포자 내부에는 특징적인 내부 중격을 지니는 내생포자의 sporangia가 관찰되어 프로토테카증에 진단적이다.

본 질환에 대한 표준 치료는 정해진 바가 없으나, ketoconazole의 경구 투여, amphotericin B 정맥 주사 혹은 tetracycline 경구 투여 등이 효과적이었 다는 보고가 있으며, 국소적 병변의 경우 외과적 절제술이 도움이 된다고 알려져 있다⁸. 최근 Yun 등은 당뇨가 동반된 피부 프로토테카증 환자에서 voriconazole 200 mg을 매일 6주간 투여하여 치료 한 증례를 보고한 바 있다⁷.

피부 프로토테카증은 드문 감염증으로 국내 문헌상 총 11례가 보고되고 있으며, 여성 환자에서 의 감염이 대부분이었으며, 뺨에 발생한 1례를 제외하고는 전완부 등 사지 노출 부위에 발생하였고, 당뇨나 장기간에 걸친 스테로이드 투여 등이 선행된 경우가 많았다 (Table 1). 본 증례의 경우 정상 면역을 가진 건강한 남성 환자에서 특별한 외상력 혹은 과거력 등 선행 유발원인 없이 안면부와 두피에 다발성의 관상 병변 형태로 발생하여 itraconazole 투여 이후 완전 관해에 도달한 증례로, 특히 두피를 포함하여 안면부에 발생한 프로토테카증은 이전 국내 보고 예가 없어 드문 증례로 생각되어 보고하는 바이다.

Conflict of interest

The authors declare that there are no conflicts of interest.

REFERENCES

1. Yang JK, Jang IG, Park TM, Kim TY, Kim HO, Kim CW. A case of cutaneous protothecosis. *Ann Dermatol* 1996;8:206-210

2. Hillesheim PB, Bahrami S. Cutaneous protothecosis. *Arch Pathol Lab Med* 2011;135:941-944
3. Lee WS, Kim YJ, Kim S, Kim KM. A case of cutaneous protothecosis. *Korean J Dermatol* 2006;44: 648-651
4. Kantrow SM, Boyd AS. Protothecosis. *Dermatol Clin* 2003;21:249-255
5. Chao SC, Hsu MM, Lee JY. Cutaneous protothecosis: report of five cases. *Br J Dermatol* 2002;146:688-693
6. Davies RR, Spencer H, Wakelin PO. A case of human protothecosis. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 1964;58: 448-451
7. Yun CH, Jeong JH, Ryu HR, Kim JH, Baek JO, Lee JR, et al. Cutaneous protothecosis responds rapidly to voriconazole. *Int J Dermatol* 2015 Dec 23. doi: 10.1111/ijd.13160. (Epub)
8. Choi JH, Suh MK, Shin DJ, Suh JC, Yeum JS, Lee HC, et al. A case of cutaneous protothecosis. *Korean J Dermatol* 2002;40:1116-1120
9. Chae SY, Lee KC, Lee HS, Jang YH, Lee S, Kim DW, et al. A case of cutaneous protothecosis. *Korean J Med Mycol* 2015;20:13-18
10. Seok JY, Lee Y, Lee H, Yi SY, Oh HE, Song JS. Human cutaneous protothecosis: report of a case and literature review. *Korean J Pathol* 2013;47:575-578
11. Moon HS, Lee HK, Park K, Chae JD, Son SJ. A case of cutaneous protothecosis. *Korean J Med Mycol* 2007;12:70-74
12. Kim JA, Moon SE, Song KY. Two cases of cutaneous protothecosis: unique histopathological findings with crystal violet staining and the therapeutic effect of itraconazole. *Ann Dermatol* 1997;9:201-207
13. Jun JH, Lee JB, Kim SJ, Lee SC, Won YH. A case of cutaneous protothecosis. *Korean J Med Mycol* 2003; 8:30-34
14. Lee E, Kim JH, Lee S. A case report of cutaneous protothecosis with severe pustules and ulceration. *Korean J Med Mycol* 1999;4:131-136
15. Yang JK, Jang IG, Park YM. A case of cutaneous protothecosis. *Ann Dermatol* 1996;8:206-210