A Case of *Paenibacillus*-induced Sepsis Complicated with Pneumatocele in a Very Low Birth Weight Infant

Seo Kyung Choi, M.D., Myung Hee Han, M.D., Chong-Woo Bae, M.D., Ph.D., Yong-Sung Choi, M.D., Ph.D.
Department of Pediatrics, Kyung Hee University School of Medicine, Seoul, Korea

ABSTRACT

Paenibacillus spp. are gram-positive, rod-shaped, facultative anaerobic bacteria found in nature and rarely cause diseases in humans. We report our experience with *Paenibacillus*-induced sepsis complicated with pneumatocele in a very low birth weight male infant with a gestational age of 29 weeks and 5 days and a birth weight of 1,380 g, who was born by cesarean section with because of preterm labor and premature rupture of membrane. On day 12 after admission, the patient presented oxygen desaturation without apnea and fever. We identified pleural effusion on chest radiography and diagnosed pneumatocele on low-dose chest computed tomography. An empirical antibiotic was administered to treat the infection. The patient's blood culture revealed gram-positive rods, and *Paenibacillus* spp. was identified using 16S rRNA sequencing.

Key Words: Infant, Premature, *Paenibacillus* spp., Sepsis, Cysts

Received: 6 September 2013

Revised: 25 September 2013

Accepted: 2 October 2013

Correspondence to:

Yong Sung Choi, M.D., Ph.D.

Department of Pediatrics, Kyung Hee University Hospital, 23
Kyunghedae-ro, Dongdaemun-gu, Seoul 130-872, Korea

Tel: +82-2-958-2921

Fax: +82-2-958-8304

E-mail: feelhope@gmail.com

서론

Paenibacillus spp.는 주로 환경에 분포하는 균주로 병원성 세균으로서의 보고는 많지 않으며, 특히, 신생아 및 소아에서 감염된 사례에 대한 보고는 확인되지 않았다. 본 증례에서는 미숙아, 극소저체중출생아로 태어난 남아에서 흉수를 동반한 폐렴 발생 이후 합병증으로 폐 공기낭종이 발생하였으며, 이 환자의 말초혈액배양검사서 *Paenibacillus* spp.가 동정되었으므로 *Paenibacillus* spp. 폐렴증에 합병된 공기낭종 1례에 대한 경험을 보고하는 바이다.

증례

환아는 임신기간 29주 5일, 출생체중 1,380 g (50-75%)로 이란성 쌍둥이 중 남자 선둥이로 환아는 임신기간 29주 5일, 출생체중 1,380 g의 이란성 쌍둥이 중 남자 선둥이로 한국인 아버지와 필리핀 어머니 사이의 환아이다. 산전초음파에서 이상 소견은 없었다. 산모는 6시간 조기양막파수와 진통 발생으로 응급 제왕절개를 시행하여 출생하였다. 환아의 아프가 점수는 1분, 5분 각각 6점, 8점이었으며, 출생 당시 호흡곤란 증세가 있어 시행한 흉부방사선 사

Copyright(c)

By Korean Society of Neonatology.

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.

진에서 호흡곤란증후군을 보여 인공 폐표면활성제를 1회 투여하였다. 5일간 인공호흡기 치료로 호흡곤란증후군은 호전되었다. 후둥이는 여아로 출생체중은 1,460 g (50-75%), 아프가 점수 1분, 5분 각각 2점, 5점이었으며, 선둥이와 동일하게 호흡곤란증후군 진단으로 인공 폐표면활성제를 1회 투여하였고, 특이 질환은 없었다. 환아에서 출생 3일째 시행한 심장초음파검사서 동맥관 개존을 보여 이부프로펜 1주기 3회를 투여하였다. 이후 환자 특이 증상이 보이지 않아 총 정맥 영양법 및 조기 장관영양을 시행하였다.

출생 11일째, 말초정맥을 통한 중심정맥관 삽입(percutaneous central venous catheterization, PCVC)을 하였고, 출생 12일째, 교정 주수 31주 3일의 환아는 무호흡을 동반하지 않은 산소포화도 저하를 보여 기관삽관을 시행하고 인공호흡기 치료를 하였다. 발열은 없었으나 빈맥이 관찰되어 촬영한 흉부방사선 소견에서는 폐렴을 동반한 우측 폐의 흉수 소견(Figure 1)을 보여 흉강 천자술을 통해 흉수 10 mL를 배액하였다. 흉수는 탁하고 경한 혈성 색이었고, 검사 결과 pH 7.3, WBC 140/mm³, protein 1.3 g/dL, lactic dehydrogenase 215.4 IU/L로 삼출액 혹은 누출액의 판단은 애매하였지만, PCVC 삽입술의 합병증으로 발생한 흉수로 판단하였다. 그러나 당시에 시행한 혈액 검사 결과 호중구 증가소견(WBC 14,910/ μ L, neutrophil 63.6%)과 C-반응단백(CRP, 2.59 mg/dL), 프로칼시토닌의 상승(8.84 ng/mL)을 보여 지발형 패혈증 의심 하에 경험적 항생제로 반코마이신(10 mg/kg/dose q 18 hours)과 아미카신(18 mg/kg q 48 hours) 항생제를 병용하였다.

출생 13일, 교정주수 31주 4일에 시행한 혈액검사에서 호중구 증가증은 보이지 않았으나(WBC 11,100/ μ L, neutrophil 50.8%), CRP가 전일에 비하여 더 상승(6.87 mg/dL)하여 수막뇌염을 감별하기 위해 요추천자검사를 시행하였고, 검사결과는 정상이었다. 증상 발생 당시 시행한 말초혈액배양검사에서 *Bacillus* spp. 중간 보고가 확인되어, 16s rRNA 염기서열 분석법을 의뢰 하였으며, 최

종결과 *Paenibacillus* spp.가 동정되었다. 흉수액과 기관지 폐포 세척액으로 배양검사를 시행하였으나 모두에서 균주는 동정되지 않았다.

증상 발생 3일 경과 후 시행한 흉부방사선 소견에서 흉수는 호전되었으나 우측 상부 폐야에 기종이 의심되는 병변이 지속적으로 12일 이상 관찰되어(Figure 2), 저선량 흉부전산화단층촬영을 실시하였는데, 1.3×1.0 cm의 경계가 명확하고 공기음영이 차 있는 낭종 모양의 폐 공기낭종(pneumatocele)으로 확진하였다(Figure 3). 인공호흡기 치료는 총 5일간 시행하였으며, 재 시행한 혈액배양검사에서 균주는 동정되지 않았고 혈액검사에서 백혈구 수치 및 CRP 수치는 정상으로 확인되어 반코마이신과 아미카신 병용 요법을 총 10일 시행 후 중단하였다.

Figure 2. Chest radiography showing pneumatocele in right upper lobe.

Figure 1. Chest radiography showing right lung pleural effusion. (A) AP view, (B) Right decubitus view.

Figure 3. Low dose chest CT with pneumatocele (1.3 × 1.0 cm) in right upper lobe. (A) Coronal view, (B) Axial view.

고찰

신생아에서 폐 공기낭종은 인공 폐표면활성제를 사용하지 않은 호흡곤란증후군의 합병증, 감염에 의한 폐렴의 합병증, 지속 양압환기를 포함한 인공호흡기 치료 중에 발생하는 합병증에 의한 것으로 알려져 있다¹⁻³. 폐 공기낭종을 유발하는 균주로는 *Streptococcus pneumoniae*, *Staphylococcus aureus*, *Enterobacter cloacae*, *Escherichia coli*, *Klebsiella pneumoniae*, *Serratia marcescens*가 있다^{4,5}. 폐 공기낭종과 감별해야 하는 질환으로 기관지낭, 선천성낭성유선종, 폐기형, 폐분리증, 선천성 대엽폐기종 등이 있으며, 이들 질환은 흉부전산화단층촬영을 통하여 감별이 가능하다.

본 증례에서는 출생 당시 호흡곤란증후군으로 인공 폐표면활성제 투여 후 인공호흡기 치료를 총 5일간 시행하였으나 이후 호전되어 호흡기 증상을 포함한 특이 소견은 관찰 되지 않았다. 그러나 패혈증 증상과 함께 흉수가 갑작스럽게 발생하였고, 항생제 감수성을 알 수는 없었으나 반코마이신과 아미카신 치료로 호전되었다. 이 때 동반되었던 폐 공기낭종은 이전에는 관찰되지 않았으나 흉수가 합병된 이후에 지속적으로 보였던 점, 그 당시 패혈증의 증상이 있었고 혈액 배양검사서 *Paenibacillus* spp.가 동정된 점, 경험적 광범위 항생제에 반응을 보인 점, 그리고 흉수검사 결과와 혈액검사 결과를 바탕으로 폐 공기낭종의 원인은 폐렴의 합병증에 의한 것으로 볼 수 있었다. 국내에서도 미숙아, 저체중 출생아에서 폐렴의 합병증으로 폐 공기낭종이 발생한 증례보고⁶가 있었으며, 본 증례와 마찬가지로 폐렴 발견 당시에는 관찰되지 않았던 폐 공기낭종이 임상 증상이 호전되고 있는 과정 중에 관찰됨을 알 수 있었다.

이 환자는 출생 후 폐표면활성제를 투여하고 나서 INSURE (intubation, surfactant replacement and early extubation, INSURE) 요법을 통해 인공호흡기를 사용하지 않고 비강 지속적 양압환기를 적용하였으므로 인공호흡기로 인한 압력손상 및 용

적손상이 없었던 환자이고, 패혈증 증세를 심하게 보일 때 사용하였던 인공호흡기의 적용은 5일 동안 비교적 짧은 시간이었고, 최대 흡기압은 20 cm H₂O를 넘지 않았기 때문에 폐 공기낭종이 압력손상으로 인한 것이 아니라 패혈증에 합병된 것으로 파악되었다.

본 증례에서 환자의 말초혈액배양검사서 *Paenibacillus* spp.가 동정된 것을 확인하였다. *Paenibacillus* spp.는 Bacillus 속에 속하는 그람 양성 조건부 혐기성 간균으로 토양, 수질, 음식 등 자연계에서 흔하게 관찰되는 균주이나 병원성 세균으로서의 보고는 적다. 성인에서 현재까지 보고된 *Paenibacillus* 감염으로 폐질환, 수막염, 뇌농양, 인공 고관절 감염, 외상에 의한 감염, 카테터 관련 감염이 있고, 성인 기관지낭 환자의 가래 배양검사서 *Paenibacillus cineris* 감염에 대한 증례 보고가 있다⁷⁻¹⁰.

그러나 신생아 및 소아에서의 *Paenibacillus* spp. 관련 논문으로는 허위 균혈증에 대한 보고 정도가 있는데, Teng 등¹¹의 증례 보고에 따르면 항암치료를 받고 있는 속질모세포종 환자에서 호중구감소성 발열이 발생하여 시행한 혈액배양검사 총 4쌍 중 1쌍에서만 *Paenibacillus macerans* 균주가 동정되어 허위 균혈증으로 보았으며, Noskin 등¹²의 보고에서도 신생아중환자실에서 미숙아를 대상으로 각기 다른 부위에서의 혈액배양검사 결과, *Paenibacillus macerans*는 허위 균혈증의 가능성이 높고 임상적 증상을 고려하여 치료 할 것을 강조하였다. 이러한 허위 균혈증의 경우는 치료환경에 *Paenibacillus* spp.가 집락화된 것으로서 혈액 배양검사시 기구 등의 오염으로 배양되는 경우이다. 즉, 환자의 증상과 배양 결과 사이의 의미있는 연관성이 없을 때를 의미한다. 그러나 아직까지 의미있는 균혈증으로서 *Paenibacillus* spp.의 소아 및 신생아 감염에 대해서는 보고된 바가 없다 하더라도, 면역기능이 낮은 환자군에서는 감염의 위험성이 높은 것으로 남아 있다.⁸⁾

본 증례에서 나타난 환자의 급작스러운 임상증상의 발현, 흉부 방사선소견, 혈액검사 결과와 흉수검사 결과를 종합해 볼 때, 혈

액배양에서 검출된 *Paenibacillus* 균혈증을 완전히 배제하기 어려우며, 무엇보다 이러한 결과가 면역기능이 저하되어 있는 극소저체중출생아에서 발생하였던 점, 그리고 경험적 광범위 항생제에 빠르게 반응한 것으로 보아, 충분히 *Paenibacillus* 균혈증의 가능성이 높다고 볼 수 있다. 그러나 본 보고에서 항생제 감수성 검사를 완료하지 못한 것은 한계로 남아 있는데, 일반적인 배양검사에서는 동정이 어려워 16s rRNA 염기서열 분석을 사용했기 때문이다. 폐 공기낭종의 치료는 대중치료이나 생명의 위협이 되는 경우에는 카테터를 이용한 감압술^{2,13)}을 시행하고 예후는 대개 양호한 것으로 알려져 있다¹⁴⁾. 현재까지 신생아, 특히 극소저체중출생아에서 *Paenibacillus* spp.의 감염 및 그로 인한 폐 공기낭종 합병증이 알려진 바는 없기에 이와 같이 증례를 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) de Bie HM, van Toledo-Eppinga L, Verbeke JJ, van Elburg RM. Neonatal pneumatocele as a complication of nasal continuous positive airway pressure. Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed. 2002;86:F202-3.
- 2) Fujii AM, Moulton S. Percutaneous catheter evacuation of a pneumatocele in an extremely premature infant with respiratory failure. J Perinatol 2003;23:516-8.
- 3) Hussain N, Noce T, Sharma P, Jagjivan B, Hegde P, Pappagallo M, et al. Pneumatocèles in preterm infants—incidence and outcome in the post-surfactant era. J Perinatol 2010;30:330-6.
- 4) Kunyoshi V, Cataneo DC, Cataneo AJ. Complicated pneumonias with empyema and/or pneumatocele in children. Pediatr Surg Int 2006;22:186-90.
- 5) Papageorgiou A, Bauer CR, Fletcher BD, Stern L. Klebsiella pneumonia with pneumatocele formation in newborn infant. Can Med Assoc J 1973;109:1217-9.
- 6) Sung MH, Choi JM, Byun SY, Jung JA, Lee YA. Pneumatocele caused by *Enterobacter cloacae* in the preterm neonates. J Korean Soc Neonatol 2004;11:241-6.
- 7) Kim KK, Lee KC, Yu H, Ryoo S, Park Y, Lee JS. *Paenibacillus sputi* sp. nov., isolated from the sputum of a patient with pulmonary disease. Int J Syst Evol Microbiol 2010;60:2371-6.
- 8) Rebol AC, Bryan CS, Farrar WE. Bacteremia and infection of a hip prosthesis caused by *Bacillus alvei*. J Clin Microbiol 1989;27:1395-6.
- 9) Bert F, Ouahes O, Lambert-Zechovsky N. Brain abscess due to *Bacillus macerans* following a penetrating periorbital injury. J Clin Microbiol 1995;33:1950-3.
- 10) Leão RS, Pereira RH, Ferreira AG, Lima AN, Albano RM, Marques EA. First report of *Paenibacillus cineris* from a patient with cystic fibrosis. Diagn Microbiol Infect Dis 2010;66:101-3.
- 11) Teng JL, Woo PC, Leung KW, Lau SK, Wong MK, Yuen KY. Pseudobacteraemia in a patient with neutropenic fever caused by a novel *paenibacillus* species: *Paenibacillus hongkongensis* sp. nov. Mol Pathol 2003;56:29-35.
- 12) Noskin GA, Suriano T, Collins S, Sesler S, Peterson LR. *Paenibacillus macerans* pseudobacteremia resulting from contaminated blood culture bottles in a neonatal intensive care unit. Am J Infect Control 2001;29:126-9.
- 13) Arora P, Kalra VK, Natarajan G. Pneumatocèles in infants in the neonatal intensive care unit: clinical characteristics and outcomes. Am J Perinatol 2013;30:689-94.
- 14) Cicak B, Verona E, Mihatov-Stefanović I. Necrotizing pneumonia in infants. Acta Clin Croat 2010;49:321-6.

극소저체중출생아에서 폐 공기낭종이 합병된 *Paenibacillus* 패혈증 1례

경희대학교 의과전문대학원 소아청소년과학교실

최서경 · 한명희 · 배종우 · 최용성

*Paenibacillus*는 그람 양성 간균으로서 자연에 존재하지만 사람에서의 감염은 드물다. 저자들은 재태주수 29주 5일, 출생체중 1,380 g의 극소저체중출생아에서 *Paenibacillus*에 의한 패혈증 및 폐 공기낭종을 경험하여 보고하는 바이다. 인공호흡기를 조기 발관하고 경장관 수유 및 총정맥영양을 병행하던 생후 13일의 환아가 갑작스러운 청색증 증상을 보였고 흉부방사선사진에서 늑막 흉수가 관찰되었으며 동시에 패혈증 증세를 동반하였다. 미생물검사에서 *Paenibacillus*가 동정되었으며 정맥 항생제 투여로 증세는 호전되었다. 이후 흉부방사선사진에서 폐 공기낭종 의심 병변이 지속적으로 관찰되어 시행한 흉부전산화단층촬영에서 공기낭종을 확진하였다.