

양측 천장골염을 동반한 전신성 홍반성 루푸스 1예

연세대학교 의과대학 내과학교실

정옥진 · 최승원 · 이승근 · 이상길 · 권진욱 · 최승혁
송정식 · 이찬희 · 송창호 · 이지수 · 이수곤

— Abstract —

A Case of Bilateral Sacroiliitis in Systemic Lupus Erythematosus

Wook Jin Chung, M.D., Seung Won Choi, M.D., Seung Keun Lee, M.D.,
Sang Gil Lee, M.D., Jin Wuk Kwon, M.D., Seung Hyuk Choi, M.D.,
Jungsik Song, M.D., Chan Hee Lee, M.D., Chang Ho Song, M.D.,
Jisoo Lee, M.D., Soo Kon Lee, M.D.

*Division of Rheumatology, Department of Internal Medicine, College of Medicine,
Yonsei University, Seoul, Korea*

Sacroiliitis is a prototypical feature of the seronegative spondyloarthropathies. It has been reported rarely in patients with systemic lupus erythematosus. We report a case of bilateral sacroiliitis in a 26 year-old female who presented 5 out of 11 ARA criteria for systemic lupus erythematosus. She complained of right low back pain since 1 week after delivery. Plain roentgenogram, computed tomogram and magnetic resonance imaging revealed no evidence of subluxation or pyogenic infection that may be possibly related to delivery, but bilateral sacroiliitis especially more severe in the right side that showed concordantly increased uptake on bone scan. Also she had neither HLA DR-3 nor B-27 antigens and had no other clinical findings of limitation of motion of spine and chest expansion, which suggest that there is a less likelihood of coexistent ankylosing spondylitis. In this case, we suggested that sacroiliitis may be a infrequent manifestation of systemic lupus erythematosus.

Key Words : Systemic lupus erythematosus, Bilateral sacroiliitis

서 론

전신성 홍반성 루푸스(SLE)는 전신적인 자가면역 질환으로 여러 장기를 침범한다. 이 질환에서 다발성 관절염은 혼한 임상양상이나, 척추관절병증을 나타내는 경우는 극히 드물게 보고되었고^{3-5,7,10}, 국내에서는 아직 보고된 바가 없었다. 저자들은 전신성 홍반성 루푸스의 임상양상을 보이면서, 우측 하부 요통을 주소로 내원한 26세 여자환자에서 HLA-B27 음성을 나타내면서 양측 천장골염이 발생한 증례를 경험하였기에, 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자 : 박○○, 여자, 26세

주소 : 우측 하부 요통

현병력 : 내원 44일 전 발생한 우측 하부 요통을 주소로 내원하였다. 환자는 어렸을 때부터 협비부를 제외한 안면에 나비모양의 홍반을 보였고, 3년 전부터는 양측 근위 수지간 관절과 손목 관절부위의 통증을 느껴왔다고 하며, 첫번째 출산 1주일 후인 내원 44일 전 우측 하요통이 발생하여 개인 정형외과

의원에서 요추 추간판 탈출증 의심하에 치료중 중세의 호전이 없었고, 내원 8일 전부터 발열이 있어 외부 종합병원에서 우측 천장골 관절의 화농성 관절염 의심하에 치료를 받던중 전신성 홍반성 루푸스가 의심되어 본원에 전원되었다.

과거력 : 특이사항은 없었다.

이학적 소견 : 내원당시 체온 섭씨 37.3도, 맥박수 분당 72회, 호흡수 분당 20회, 혈압 120/80mmHg이었다. 만성 병색을 띠었고, 결막은 약간 창백하였으며, 협비부를 제외한 안면에 홍반이 관찰되었다. 흉부 진찰시 호흡음은 깨끗하였고, 심장음은 없었다. 복부 검진상 종괴는 만져지지 않았고, 부드러웠으며, 장음은 정상소견이었다. 양측 하요부에 압통이 있었으나, 우측에서 더 심하였으며, 우측 장골 압박검사시 통증을 호소하였고, 우측하자를 굴곡, 외전후 외회전시(Patrick 검사) 통증을 호소하였다. 호기 및 흡기시 흉위의 차이 측정에서는 5cm 이상의 정상 소견을 보였고, Schober 검사에는 음성을 나타내었다. 독립적인 직립자세를 유지할 수 없었고, 우측하자로 체중견인도 할 수 없었다.

검사실 소견 : 내원당시 백혈구 2,600/mm³, 림파구 1165/mm³, 혈색소 8.2g/dl, 적혈구 용적 26.3%, 혈

Fig. 1. Sacroiliac joint radiography showed marginal sclerosis on both sacroiliac joints. Sclerosis and obliterated joint space on upper two thirds of joints, especially right side(arrow), were seen.

Fig. 2. Computed tomogram on sacroiliac joint showed bilateral sclerosis on mid portion of joint and blurring of cortical margin (arrows). Neither definite bony erosion and destruction nor fluid collection and enhanced lesion in the joint space was observed.

소판수 95,000/*l*, 혈청 합토글로빈 29mg/dl, 망상 적혈구 1.3%, 교정 적혈구 침강속도 48 mm/hr이었다. 소변 검사상 비중 1.010, 알부민(-), 백혈구(-), 적혈구(-)이었다. 혈청생화학검사상 총단백 6.2g/dl, 알부민 3.1g/dl, ALT 57 IU/L, AST 80 IU/L, BUN/Cr 3.2/0.6mg/dl이었다. 면역학적 검사 결과

CRP 0.29mg/dl, RF 36.4 IU/ml, C3 33mg/dl, C4 10mg/dl 이하, CIC 300g/ml (control<25g/ml), VDRL(-), anti-DNA(+) (1:40), anti-Sm(-), anti-nRNP(-), anti-SSA(-), anti-SSB(-), FANA(+) (1:160 peripheral), LE cells(-), Lupus anticoagulant(-), anti-phospholipid Ab(-), HLA B27(-), HLA A2, A24, B39, B46, Cw1, Cw7, DR16, DR8이었다.

방사선 소견 : 골반 X선 단순 촬영상 양측 천장골 관절 연변에 경화성 변화가 관찰되고, 상부 2/3부위에 경화와 관절강 폐쇄 소견이 있었으며, 우측이 더 심하였다(Fig. 1). 천장골 부위의 전산화 단층 촬영 소견상 양측 천장골의 중간 부위에 경화가 보이고, 피질골 변연부가 흐려지는 소견이 있었고, 우측에 더 심하였으나, 골성 미란 및 파괴나 관절강내 관절액이 고이는 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 천장골 부위의 자기공명영상에서도 우측이 좀더 심한 양측 천장골염 소견이 보였다(Fig. 3). 전신 골주사 소견상 양측 천장골 관절의 중간과 하부에 침착이 증가되었는데, 우측에서 좀더 증가된 소견이었다(Fig. 4).

치료 및 경과 : 입원당시 우측 천장골 부위의 통증이 심하여 보행이 불가능한 상태였고, 그 부위의 압통이 심하여 visual analogue of pain scale(이하 VAPS) 8.6cm(최대 10cm)이었으나, NSAIDs, prednisolone 20mg 및 hydroxychloroquine 400mg 투여후, 입원 15일째 VAPS는 2.2cm으로 감소하였고, 물리치료를 병행하

Fig. 3. Magnetic resonance imaging on sacroiliac joint. A. Gadoliniumenhanced, fat-suppressed, T1-weighted, oblique coronal image showed contrast enhancement along the sacroiliac joint, especially right side(arrow). B. T2-weighted axial image showed high signal intensity within the sacroiliac joint space, peculiarly right side(arrow).

파구 감소증, 혈소판 감소증등 혈액학적 이상등을 포함하여 ARA기준 11가지중⁹ 5가지를 만족하여 전신성 홍반성 루푸스로 진단되었다.

Nashel 등⁶은 강직성 척추염과 전신성 홍반성 루푸스의 진단기준들을 만족하면서, HLA B-27과 HLA A-1, DR2, DR3에서 양성을 보이는 환자에서 이 두질환의 혼치 않은 병발을 보고한 바 있으며, Olivieri 등⁸도 이 두질환의 HLA typing, 특히 HLA B-27과 DR3의 드문 유전적 조합을 통해서 진단될 수 있다는 가설을 주장하였다. 그러나 본 예에서는 천장골염외에는 척추와 흉부 팽대의 운동제한을 시사하는 임상적 및 방사선학적 이상 소견을 발견할 수 없었고, HLA B-27과 HLA A-1, DR2, DR3 음성을 보여 강직성 척추염과 병발되었을 가능성은 낮을 것으로 사료된다. 또한 출산직후의 외상에 의해 천장골 관절의 아탈구나, 화농성 감염 등이 발생했을 가능성에 대해^{1,11)}, 전산화 단층촬영과 자기공명영상 등을 시행하였으나, 특별히 의심할 만한 소견이 없어서, 전신성 홍반성 루푸스에서 병발된 천장골염이라고 할 수 있을 것으로 사료된다.

De Smet 등²은 활동성 전신성 홍반성 루푸스 환자에서 천장골 관절의 방사성 동위원소 수치가 증가된 14환자의 경우를 보고하면서, 방사성 동위원소의 정량화된 수치의 증가가 전신성 홍반성 루푸스의 활동도를 나타내는, 한 임상양상이 될 수 있음을 보고하였다. 또한 이들은 루푸스의 임상적 활동도가 감소하면서 방사성 동위원소의 정량화된 수치도 정상화됨을 관찰하여, 루푸스의 임상적 활동도에 따라 천장골염의 정도도 변화됨을 밝혔다. 본 예에서도 전신 골주사 사진상 양측성의 흡착이 있었으며, 증상이 더 심했던 우측에서 보다 증가된 소견을 관찰할 수 있었으나, 임상양상의 호전후 전신 골주사를 추적 관찰하지는 않았다.

결론적으로 전신성 홍반성 루푸스 환자에서 천장골염이 드문 임상양상으로 나타날 수 있으므로, 전신성 홍반성 루푸스 환자에서 하요통등의 증상이 발생하였을 때, 전신 골주사 사진등의 영상적 진단을 시도하고, HLA typing을 통해 강직성 척추염과의 병발여부를 감별진단하여 천장골염의 동반을 진단할 수 있을 것으로 사료된다.

Fig. 4. Posterior bone scintigram of pelvis showed increased uptake in mid and lower portion of both sacroiliac joint, more prominent in right side(arrow head).

여, crutch walking¹⁰ 가능해져 입원 19일째 퇴원하였고, 퇴원 1주 후 자가보행이 가능해졌다. Prednisolone 감량하면서 hydroxychloroquine 400mg과 NSAIDs로 치료하면서, 현재까지 20개월간 외래로 추적 관찰중으로 증상 호소는 없는 상태이다.

고 찰

전신성 홍반성 루푸스는 전신적인 자가면역질환으로 여러 장기를 침범하며 다발성 관절염은 혼한 임상 양상이나, 척추관절의 염증을 나타내는 증례가 매우 드물게 보고되어 왔다^{3-5,7,10}. Kohli와 Bennet⁴과 Lee⁵는 각각 19세의 백인 여자환자와 28세의 중국 여자환자에서, 전신성 홍반성 루푸스로 추적관찰중 천장골염이 나타난 경우를 보고하면서, 이 질환의 혼치 않은 임상양상으로 보고한 바 있다. Gosset 등³은 천장골염의 증상이 없던 전신성 홍반성 루푸스 환자에서 전신성 골주사 소견상 천장골염이 발견된 경우를 발표했고, Vivas와 Tiliakos¹⁰와 Nassonova⁷은 다수의 남자 전신성 홍반성 루푸스 환자들에서 증상의 유무에 관계없이 천장골염이 병발된 증례들을 보고한 바 있다.

본 증례는 얼굴에 나비모양의 홍반이 있었고, 3년 전부터 다발성 관절염 소견이 있었으나 그 증상이 경미하다가 출산직후 양측 천장골염이 발생하였으며, ANA(+), anti-DNA(+)와, 백혈구 감소증, 림

요 약

저자 등은 우측 하요통을 주소로 내원한 26세 여자에서 11가지 ARA기준중 5가지를 만족하여 전신성 홍반성 루푸스로 진단되고, HLA B-27 음성을 보이면서 X선 단순 촬영, 전산화 단층촬영, 자기공명영상 및 전신 골주사 소견상 양측성 천장골염이 진단된 1예를 경험하였기에, 전신성 홍반성 루푸스 환자에서 천장골염이 드문 임상양상으로 나타날 수 있음을 알리고자 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Daly JM, Frame PS, Rapoza PA : Sacroiliac subluxation: a common, treatable cause of low-back pain in pregnancy. Family Practice Research J 11:149-159, 1991
- 2) De Smet AA, Mahmood T, Robinson RG, Lindsley HB : Elevated sacroiliac joint uptake ratios in systemic lupus erythematosus. American J Roentgenology 143:351-4, 1984
- 3) Gosset D, Foucher C, Lecouffe P, Savinel P : Asymptomatic sacroiliitis in systemic lupus erythematosus. J Rheumatol 15:152-153, 1988
- 4) Kohli M, Bennet RM : Sacroilitis in Systemic Lupus Erythematosus. J Rheumatol 21:170-171, 1994
- 5) Lee SS : Symptomatic unilateral sacroiliitis in systemic lupus erythematosus. Lupus 4:328-329, 1995
- 6) Nashel DJ, Leonard A, Mann DL, Guccion JG, Katz AL, Sliwinski AJ : Ankylosing spondylitis and systemic lupus erythematosus: A rare HLA combination. Arch Intern Med 142:1227-1228, 1982
- 7) Nassonova VA : Sacroiliitis in male systemic lupus erythematosus. Scandinavian J Rheumatol Suppl. 52:23-29, 1984
- 8) Olivieri I, Gemignani G, Balagi M, Pasquariello A, Gremignai G, Pasero G : Concomitant systemic lupus erythematosus and ankylosing spondylitis. Ann Rheum Dis 49:323-324, 1990
- 9) Tan EM : The 1982 revised criteria for the classification of systemic lupus erythematosus. Arthritis Rheum 25:1271-1277, 1982
- 10) Vivas J, Tiliakos NA : Sacroiliitis in male systemic lupus erythematosus. Scandinavian J Rheumatol 14:441, 1985
- 11) Vyskocil JJ, McIlroy MA, Brennan TA, Wilson FM : Pyogenic infection of the sacroiliac joint. Case reports and review of the literature. Medicine 70:188-97, 1991