

후종인대 골화증과 동반된 미만성 특발성 골격성 과골증 (DISH) 1예

연세대학교 의과대학 내과학교실, 진단방사선과학교실*

이상길 · 이지수 · 박용범 · 이원기 · 백용한 · 송정식
최윤종 · 이찬희 · 송창호 · 이수곤 · 서진석*

— Abstract —

A Case of Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis(DISH) Associated with Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament(OPLL)

Sang Gil Lee, M.D., Jisoo Lee, M.D., Yong Beom Park, M.D.,
Won Ki Lee, M.D., Yong Han Paik, M.D., Jung Sik Song M.D.,
Yun Jong Chae, M.D., Chan Hee Lee, M.D., Chang Ho Song, M.D.,
Soo Kon Lee, M.D., Jin Suck Suh, M.D.*

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

We experienced a case of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis(DISH) associated with ossification of the posterior longitudinal ligament.

A 58-year old man presented with clumsiness and hypoesthesia of both hands. He showed weakness of sensory deficit and weakness of motor function of hands. The lateral radiograph of cervical spine showed anterior hyperostosis and ossification of the posterior longitudinal ligament. A magnetic resonance image of cervical spine revealed a low-density defect posterior to cervical spine with evidence of spinal stenosis. Ossification of the posterior longitudinal ligament is a rare manifestation associated with DISH, and we report this case with a review of the literature.

Key Words : DISH, Ossification of posterior longitudinal ligament

서 론

미만성 특발성 골격성 과골증(DISH: Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis)은 척추와 척추의 관절의 골화와 인대의 석회화를 특징으로 하는 질환이다. 현재까지 이 질환의 가장 특징적인 방사선학적 소견은 골증식증(osteophytosis)을 동반한 척추 전외부 인대(anterolateral ligament of vertebral body)의 석회화와 골화이고 척추의 후면부에 생기는 변화는 드물다고 알려져 왔다^{5,14,15)}.

최근에 미만성 특발성 골격성 과골증이 다른 류마티스 질환과 연관되어 있고 특히 후종인대 골화증(ossification of the posterior longitudinal ligament)과 동반됨이 보고되었다. 그러나 국내에서는 미만성 특발성 골격성 과골증의 발생빈도가 외국에 비해 낮을 뿐더러, 후종인대 골화증과 연관되어 보고된 예는 없다. 연자 등은 미만성 특발성 골격성 과골증으로 진단받은 환자에서 경추 척수증(cervical myelopathy)과 연관된 후종인대 골화증이 동반된 것으로 진단된 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자 : 58세, 남자.

주소 : 양측 상지의 운동장애와 이상감각증

현병력 : 1992년부터 상지의 운동장애와 통통이 있어 다른 병원에서 미만성 특발성 골격성 과골증으로 진단 받고 소염진통제로 보존적 치료를 받아왔으나 4개월 전부터 물건을 자주 떨어뜨리고 손의 미세한 동작 장애가 있고 상지의 이상감각증과 작열감(tingling sensation)이 발생하여 본원에 내원하였다.

과거력 : 92년 고혈압 진단받고 약물 치료하였다.

기족력 : 특이사항 없었다.

문진 소견 : 목 운동 장애와 통통, 양측 상지의 이상감각증과 작열감, 수작업의 불편함을 호소하였다.

이학적 소견 : 이두박근과 삼두박근의 건반사는 정상이었으며, 경추의 전방 굴곡이 협격하였고, 경부의 전후 좌우로의 운동 제한이 관찰되었다. 양측

수지 말단과 손바닥에서 감각 저하가 관찰되었으나 진동 감각 이상은 뚜렷하지 않았고, 운동 기능은 정상이었다.

검사 소견 : 말초 혈액 검사상 혈색소치는 14.5 g/dl, 헤마토크리트 44.9%, 백혈구수 7,860/ml, 혈소판수는 231,000/ml였고, 혈청학적 검사상 혈당 104 mg/dl, 혈청요소단백 13.0 mg/dl, 크레아티닌 1.1 mg/dl, 총단백 6.7 g/dl, 알부민 4.3 g/dl, AST 12 IU/l, ALT 14 IU/l, 총빌리루빈 0.8 mg/dl, alkaline phosphatase 83 IU/l였다.

영상진단 소견 : 단순 흥부 X선 촬영상 중등도의 심장 비대와 만성폐색성 폐질환소견을 보였다. 경부 X선 촬영상 인대결합체(syndesmophytes)가 경추 2번과 3번, 4번과 5번 그리고 5번과 6번 사이에서 관찰되고 경추체 후방에 연속형의 골화 종괴가 보였다. 특히 측면 경부 X선 촬영상에서는 추체와 골화된 후종인대 사이에 방사선학적 투과성(radiolucency)을 보이는 부위가 관찰되었다(Fig. 1). 자기공명영상 촬영상 T1, T2-weighted 종단면에서 좁아진 척수강 소견과 골화된 후종인대가 함께 보고하는 바이다.

Fig. 1. Lateral radiographic view of the cervical spine shows marginal syndesmophytes and ossification of the posterior longitudinal ligament(OPLL, arrows).

조직과 섬유류의 석회화 및 골화 양상과 척추체 전면(anterior aspect of vertebral body)의 섬유 조직 및 혈관의 증식과 골막 위의 새로운 골 형성을 보인다¹⁴. 미만성 특발성 골격성 과골증의 원인에 대해서는 많은 보고가 나오고 있지만 정설은 없는 실정이다. Gerber 등⁶은 만성 비타민 A 중독증 환자에서 미만성 특발성 골격성 과골증이 병발한 증례를 들어 비타민 A의 중요성을 주장하였고, Bandt 등³은 미만성 특발성 골격성 과골증과 후종인대 골화증이 동반된 1예에서 비타민 A와 retinol binding protein이 비정상적으로 높고, 이런 생화학적 이상은 가족력이 있음을 보고하였다. 이러한 이유로 미만성 특발성 골격성 과골증과 후종인대의 연관성은 이 질환들의 원인을 연구하는 면에서 최근에 다시 중요시 인식되고 있다.

또한 Vezyrogloou 등²²은 미만성 특발성 골격성 과골증과 연관된 대사성 질환으로 이미 발표된 당뇨이외에 이상지혈증과 고요산혈증을 기술하였다.

후종인대 골화증은 척추강내 후종인대에 발생한 신생골이 척수(spinal cord)나 신경근(nerve root)을 압박하는 질환으로 특히 경추에 잘 생기는 질환이다. 1838년 Key⁸ 등에 의해 처음 기술되었으나 1960년 Tsukimoto²⁰가 부검에 의한 병리소견을, 1964년 Terayama 등¹⁸이 임상례를 보고한 후 일본에서 그 수가 급격히 많이 보고되어 관심이 증가되어 왔으며^{10, 16, 17, 20} 근래에는 일본 이외의 나라에서도 그 보고례가 점차 증가하는 추세이다^{7, 12}. 이 질환의 원인은 현재까지 불명이며 후종인대에 발생한 신생물이 척수나 신경근을 압박하여 상하지의 운동장애, 배뇨곤란 등이 나타날 수 있지만 대부분의 경우 그 증상이 경미하여 일상생활에는 지장이 없는 것이 보통이다⁹. 후종인대 골화증은 남자가 두배정도 많으며 연령분포는 50-60대에 호발한다^{21, 22}. 이

Fig. 2. Magnetic resonance of the cervical spine. Sagittal T1-weighted(A) and T2-weighted(B) images show OPLL(arrows) as a band of low signal intensity narrowing the spinal canal.

관찰되고(Fig. 2) T2 weighted 횡단면에서 골화된 후종인대가 척수강과 척수를 압박하는 소견이 관찰되었다(Fig. 3).

전기생리학적 검사 소견 : 이상 소견 없었다.

치료 및 경과 : 자기 공명 영상을 이용해 후종인대 골화증과 동반된 미만성 특발성 골격성 과골증으로 진단한 후 보존적 치료 시작하였으나, 외래 추적 중 환자는 계속적으로 신경학적 증세 호소하여 수술적 치치를 고려하고 있다.

고 찰

미만성 특발성 골격성 과골증은 주로 60세 이상 고령에서 발생하고 40세 이상의 미국인 남자에서는 3.8%, 여자에서는 2.6%정도로 보고되었다¹⁹. 이 질환은 척추의 전외면에 선상의 골 형성이 생겨 방사선학적으로 울퉁불퉁한 형태(bumpy contour)를 취하게 되고 병리학적으로는 전종인대, 주변의 결체

Fig. 3. Axial T2-weighted image shows the relationships between OPLL(arrows) and the spinal canal and cord. The spinal cord is compressed and displaced.

질환은 일본인 전체 인구중 2-3%에서 발견된다고 보고되고 있으며 우리나라에서는 강¹⁾등이 1200명의 외래신환중 20명에서 후종인대 골화증을 관찰하여 약 1.7%의 발생빈도를 보고하였다. 후종인대의 골화는 후종인대 표면층(superficial layer)에서의 경막(dura)쪽으로의 골화로 시작되고¹¹⁾ 충분히 골화된 인대는 척수 협착증(spinal stenosis)을 초래 하며⁴⁾, 이런 경우에 전산화단층촬영이나 자기공명영상이 경추 척수증의 정도를 파악하는데 도움이 될 수 있다.

Arlet 등²⁾은 경추 척수증이 있는 환자 40명을 분석하여 17명(43%)에서 경추 후면의 골증식과 관련된 이차적 경부 척추관 협착증이 원인이었음을 보고하였다. Ono 등¹¹⁾은 후종인대의 골화가 척추관 직경의 60%를 점유할 때 신경병으로 인한 증세가 나타난다고 보고하였다. 또한 후종인대의 골화와 동반된 미만성 특발성 골격성 골화과잉증 환자 2예의 사후 부검에서 후종인대의 심층(deep

layer)은 골화되지 않고 두꺼워 지지만 한데 반해 표면층이 골화된 것을 관찰하였는데, 이로인해 골화된 후종인대의 표면층과 척추 사이의 방사선투과성이 있는 부위가 나타난다고 보고하였다. Resnick 등¹³⁾은 74명의 미만성 특발성 골격성 과골증 환자의 경추 방사선 소견을 후향적으로 재고하여 그 중 55명(74%)에서 척추 후방의 현저한 이상을 확인하였으며, 방사선학적 소견에 따라 세가지 유형으로 분류하였다. 첫 번째 유형은 과골증(bony hyperostosis)으로 척추 후방의 상아질화(bony eburnation)와 경화(sclerosis)로 나타났으며 30명(41%)에서 관찰되었고, 두 번째 유형은 골증식증(osteophytosis)으로 척추 후면으로부터 시작된 골증식체(osteophytes)로 나타났으며 25명(34%)에서 관찰되었고, 마지막

유형은 후종인대의 골화로 37명(50%)에서 관찰되었다. 그러나 상대적으로 미만성 특발성 골격성 과골증에 비해 후종인대의 골화는 단순 방사선 촬영상 진단이 쉽지 않아 과소평가되어 실제로 보고된 예가 적을 것이라 추정하였다.

본 예는 미만성 특발성 골격성 과골증으로 진단된 후 경추 척수증의 임상양상이 나타나 후종인대 골화증이 진단된 1예로, 외국 문헌에 발표된 바와 같이 이 두 질병의 연관성을 확인시켜 주었다. 또한 노령 환자중 경추 척수증이 있는 경우에 우리나라에서도 미만성 특발성 골격성 과골증이나 후종인대 골화증의 유무를 반드시 감별하여야 하고, 원인에 대한 연구도 진행되어야 할 것이다.

요 약

저자들은 경추 척수증으로 내원하여 후종인대 골화증과 동반된 미만성 특발성 골격성 과골증으로 진

단된 환자 1예를 확인하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) 강용구, 정인설, 임성원, 유기원 : 한국인의 경추 후종인대 골화증에 대한 고찰. 대한정형외과학회지 26:1508-1513, 1991
- 2) Arlet J, Pujol M, Buc A, Geraud G, Gayrard M, Latorzeff S : Role de l'hyperostose vertébrale dans les myelopathies cervicale. Rev Rheum Mal Osteoartic 43:167-175, 1976
- 3) Bandt MD, Meyer O, Fuster JM, Kahn MF : Ossification of the posterior longitudinal ligament, Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis, abnormal retinol and retinol binding protein. J Rheumatol 22:1395-1398, 1995
- 4) Bastin JM, Claisse RH, Tellier E : L'ossification du ligament longitudinal postérieur: a clinicopathologic study. Spine 2:126-138, 1977
- 5) Forestier J, Rotes-Querol J : Senile ankylosing hyperostosis of the spine. Ann Rheum Dis 9:321-330, 1950
- 6) Gerber A, Raab A, Sobel A : Vitamine A poisoning in adults. Am J Med 30:729-745, 1954
- 7) Izawa K : Comparative roentgenographic study on the incidence of ossification of the posterior longitudinal ligament and other degenerative changes of the cervical spine among Japanese, Koreans, Americans and Germans. Nippon Seikeigeka Zassi 54:461-467, 1980
- 8) Key CA : On paraplegia depending on disease of the ligaments of the spine. Guys Hosp Rep(series 1) 3:17-34, 1838
- 9) Nakanishi T, Mannen T, Tokoyura Y : Asymptomatic ossification of the longitudinal ligament of the cervical spine; incidence and roentgenographic finding. J Neurol Sci. 19: 375-381, 1973
- 10) Onji Y, Akiyama H, Shimomura Y, Ono K, Hukuda S, Mizuno S : Posterior paravertebral ossification causing cervical myelopathy; a report of eighteen cases. J Bone Joint Surg(Am) 49:1314-1328, 1967
- 11) Ono K, Ota H, Tada K, Hamada H, Takaoka K : Ossified posterior longitudinal ligament. A clinicopathologic study. Spine 2:126-138, 1977
- 12) Paul C.M, John J.R, Herry H.B : Cervical cord compression from ossification of the posterior longitudinal ligament in non-orientals. J Bone and Joint Surg. 69-B:569-575, 1987
- 13) Resnick D, Guerra J : Association of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) and calcification of the posterior longitudinal ligament. Am J Roentgen 131:1049-1053, 1978
- 14) Resnick D, Niwayama G : Radiographic and pathologic features of the spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Radiology 119:559-568, 1976
- 15) Resnick D, Shaul SR, Robins JM : Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extraspinal manifestation. Radiology 115:513-524, 1975
- 16) Suzuki K, Udagawa E, Nagano M, Takada S : Clinical significance in the cervical epidural space. J Jpn Orthop Assoc 36:256-261, 1962
- 17) Terayama K, Mamuyama S, Miyashita R, Kinoshita M : On the calcification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine. J Jpn Orthop Assoc 36:1004, 1962
- 18) Terayama K, Mamuyama S, Miyashita R : Ossification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine. Ortho Surg 15:1083-1095, 1964
- 19) Trojan D, Pouchot J, Pokrupa R : Diagnosis and treatment of ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine; report of eight cases and literature review. Am J Med 92: 296-306, 1992
- 20) Tsukimo H : On an autopsied case of compression myelopathy with a callus formation in the cervical spinal canal. Nihon-geka-hokam 29:1003-1007, 1960
- 21) Tsuyama N : Occification of the posterior longitudinal ligament of the spine. Clin Orthop 184:71-84, 1984
- 22) Tsuyama N, Terayama k, Ohtani K : The ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine (OPLL). J Jpn Orthop Assoc 55:425-440, 1981
- 23) Vezyroglou G, Mitropoulos A, Kyriazis N, Antoniadis C : A metabolic syndrome in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. A controlled study. J Rheumatol 23:672-676, 1996