

반복성 국소성 근염(Recurrent Localized Myositis) 1예

연세대학교 의과대학 신경과학교실, 병리학교실*

조선대학교 의과대학 신경과학교실**

김옥준 · 문준식 · 선우일남 · 김태승* · 손건창* · 전원영**

— Abstract —

A Case of Recurrent Localized Myositis

Ok Jun Kim, M.D., Joon Shik Moon, M.D., Il Nam Sunwoo, M.D.

Tae Seung Kim, M.D.*, Kun Chang Song, M.D.*, Won Young Jung, M.D.**

Department of Neurology, Pathology*, Yonsei University College of Medicine

Department of Neurology, Chosun University College of Medicine**

We experienced a 41-year-old male patient with the recurrent painful nodular swelling of muscles in both lower limbs for 4 years. The mass did not accompanied other general symptoms of muscle weakness and spontaneously regressed. On pathologic finding, there is marked inflammatory cell infiltration with muscle fiber destruction and regeneration. Analyzing the literature, we proposed the diagnosis of recurrent localized myositis.

서 론

근염증에서 가장 대표적인 질환은 대칭적이고 만성적인 근력약화를 특징으로 하는 다발성근염이다. 그러나 국소적으로 발생하는 근염은 그 빈도가 드물 뿐 아니라 병인 및 경과가 다양하기 때문에 질병의 성격에 대하여 이견이 많은데 아직 우리나라에서는 이 방면에 대한 증례보고가 거의 없다. 저자들은 약 4년이상 수주간씩 통증을 동반하는 결절성 근종괴가 재발되는 41세의 남자 환자에게서 전기생리학적 검사

및 근생검등을 시행하고 그후 약 2년간 임상 경과를 추적관찰한 다음 반복성 국소성 근염으로 진단한 증례를 관찰하였기에 이를 보고하고자 한다.

증 례 보 고

환 자: 김 ○ 석, 남자, 41세

주 소: 양하지의 동통성 종괴

현병력: 약 4년전부터 양측 장딴지 부위에 여러개의 결절성 근종괴가 나타나기 시작하였는데, 주로 좌측에 많이 나타났으며, 단독으로 나타나기도하나

동시에 혹은 수일 간격으로 양측에서 여러개 나타나기도 하였다. 항상 동통이 수반되었고, 피곤하거나 저녁때 통증이 심해진다고 하며, 통증으로 인해 보행에 장애를 느끼기는 해도 실질적인 근력 약화는 없었다. 동통은 소염제를 복용하면 2-3일만에 호전이 되고 절절성 종괴는 1-2주 후에 자연 소멸되곤 하였다고 한다. 또 3년전부터는 좌측 골반부위에 통증이 발생하였으나 특별한 검사를 시행하지 않았다. 작년 5월경에 절절성 종괴때문에 다른 병원을 방문하여 근전도검사와 근경검 시행후 근염으로 진단받고, 6개월간 prednisolone 부여(3개월간 60 mg, 그 후 감량) 후 증상의 호전이 있어 중단하였다. 내원 2개월전부터 다시 증상이 재발되어 본원에 내원하였다.

과거병력 및 가족력: 특기할 만한 사항 없음.

이학적 소견: 입원당시 혈압은 130/70 mmHg, 맥박 84/분, 호흡 22/분으로 진신상태는 양호하였다. 경부 입파절은 만지지 않았으며, 두부, 경부, 흉복부 및 피부에는 이상소견이 없었으나, 좌측 골반부위 타진시 압통을 느꼈으며, 양측 장만지 부위에서 근육내 절절성 종괴가 1개씩 만져졌다. 근육종괴의 크기는 좌측 7×8 cm, 우측 3×4 cm로서 촉진시 압통을 느꼈으며, 종괴위의 피부변색은 없었고 피부부는 부각되어 있지 않았다. 신경학적 검사상 의식은 명료하였고 뇌신경, 감각, 소뇌 기능은 정상이었다. 근력검사상 근력약화의 소견은 없었고, 근위축이나 섬유속성연축(fasciculation)은 관찰되지 않았다. 감각 및 반사운동도 정상이었다.

일반검사소견: 입원당시 혈액소는 14.1 g/dl, 백혈구 5,900/mm³, 혈소판 544,000/mm³으로 정상이었다. 소변검사, 혈청전해질, 혈액화학 검사들의 결과는 모두 정상 범위였고, 혈청 CK 및 LDH는 각각 78 IU/l, 53 IU/l로 정상이었으나 ESR이 55 mm/시간으로 증가되었다. 갑상선검사항 T3 128 ng/dl, fT4 1.57 ng/dl로 정상이었고, RF, ANA, 혈청면독반응은 모두 음성이었다.

X-선 소견: 전신골주사(whole body bone scan)상 좌측 천장관절에서 광전자활동이 증가되었고, 골반골 전산화단층촬영상 좌측 천골부위에서 골용해성 병변, 장골 부위에서는 골경화성 병변이 관찰되었다.

전기생리학적 검사: 신경전도속도검사를 양측 상

하지의 정중, 척골 및 비골신경의 운동 및 감각신경과 경골운동신경, 비골감각신경에서 시행하였는데 모두 정상범위였다. 근전도검사상 근종괴부위에서는 안정기에 근섬유세동, 양성예파동이 관찰되지 않았으나, 자발적 근수축시 작고 짧은 다상운동단위전위가 증가하였고, 최대수축시 완전감설현상을 보였다. 종괴 이외 부위의 근전도검사는 모두 정상이었다.

근육생검소견: 좌측 비복근 종괴부위에서 근육생검을 시행하였다. 액체질소로 급속 냉각 절편후 H&E, PAS, modified Gomori trichrome 염색을 하였고 조직화학적 염색으로는 NADH, SDH 및 ATPase 염색을 시행하여 현미경으로 관찰하였다. 광학현미경상 H&E 염색에서 만성염증 세포들이 근내막(endomysium), 근주위막(perimysium)에 미만성으로 침윤하여 있었고, 그 정도는 피사된 부위의 주위에서 더욱 심하였다(Fig. 1). 근섬유의

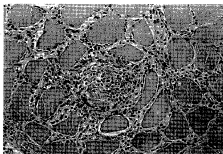


Fig. 1. The skeletal muscle depicts aggregated lymphocytic inflammatory infiltrates and necrosis of individual muscle fibers. (H&E×200)

크기는 불규칙하여 작은 근섬유가 관찰되었으나 조직화학적색상 신경병증의 소견은 없었고, 근섬유의 퇴행성 변화 및 탐식과 근주위막 조직내에 교원질침윤의 양이 증가되어있는 근병증 소견을 보였다. 혈관염의 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2).

임상결과: 천장 관절부위 병소에 대한 조직검사를 시행하려고 하였지만 환자는 이를 거부하고 퇴원하였다. 1달뒤 외래에 왔을때 특별한 치료없이 병변은 사라진 상태였으며, 다른 병원에서 시행한 천장관절 부위 조직검사항 비특이적인 만성 염증 소견이 관찰되었다고 한다.

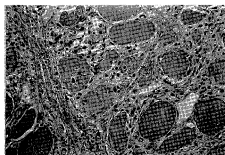


Fig. 2. Here are shown fine fibrous bands through the endomysium with lymphocytic inflammatory infiltrates, as well as necrosis and variation in size of skeletal muscle fibers. (H&E×200)

고 안

근육의 결절성 종괴는 종양은 물론 감염성 질환, sarcoid 결절성 근염, 증식성 근염(proliferative myositis), 화골성 근염(myositis ossificans), 결절성 근막염(nodular fasciitis) 등에서 나타나지만, 본 증례는 임상경과는 물론 근생검 조직 검사상 상기 질환의 가능성을 배제할 수 있다. 농양이나 기생충 등에 의한 감염성 질환은 전신증상과 호산구 증가를 비롯한 감염에 따른 혈액학적 변화를 동반하고(Jacob 및 Mathew, 1968; Tucker 등, 1978), sarcoid 결절성 근염은 전신증상과 함께 근육이외 다른 장기를 침범한 소견을 흔히 동반하는데(Powell, 1953; Ozer 등, 1961; Silverstein 및 Silzbach, 1969; Kurashima 등, 1991), 본 증례에서는 이런 소견이 전혀 없었다. 증식성 근염은 45세 이상에서 동통없이 발현하고 외상병력이 있고, (Kern, 1969; Enzinger 및 Dulcey, 1967), 화골성 근염은 석회화된 결절로서 자연적인 결절의 소실은 기대하기 어렵고(Ackerman 및 Missouri, 1958; Lagier 및 Cox, 1975), 결절성 근막염은 젊은 사람의 상지 및 체간부의 결절을 특징(Price 등, 1961; Hutter 등, 1962)으로 하는데 무엇보다도 이 세가지 질환은 본 증례와 같이 재발하지 않는다는 점에서 현저한 차이가 있다. 가장 흔히 오진되는 질환은 농양이나 근생검만으로도 감별하는데 문제가 없다.

본 증례의 임상적 특징은 동통을 동반하는 하지 근육의 결절성 종괴가 수주간 있다가 별다른 치료를 하지 않아도 저절로 회복되는 경과를 최소한 4-6년간 반복하였다는 점인데, 전기전단검사 및 근생검상이 종괴는 국소적인 비특이성 근염으로서 감염이나 sarcoidosis의 증거도 없었다. 문헌조사에서 이 환자와 같이 국소적인 비특이성 근염을 보일 수 있는 질환으로는 국소성 근염(focal myositis), 국소성 염증성 근병증(focal inflammatory myopathy) 및 국소성 결절성 근염(localized nodular myositis) 등을 찾을 수 있다. 국소성 근염은 1977년 Heffner 등에 의하여 처음 명명된 질환으로서 동통을 동반하는 골격근의 양성 염증성 가성종양이 주로 사지 근육에서 나타나지만(Liefeld 등, 1982; Colding-Jorgensen 등, 1993), 세간(Heffner 등, 1977; Heffner 및 Barron, 1980; Hansen 등, 1985), 두부(Naumann 등, 1993), 경부(Ho 등, 1979; Shapiro 등, 1986; Isaacson 등, 1991), 혀(Azuma 등, 1987), 입주위(Ellis 및 Brannon, 1979)에서도 관찰된다고 한다. 국소성 근염과 다발성 근염의 관계에 대하여 처음 Heffner가 16예를 보고할 때(1977)는 2-6년간 추적 관찰상 재발이 없고 다발성 근염으로 진행된 예가 없다고 하였지만, 그후 다른 보고자는 물론 Heffner 자신(1981)도 다발성 근염으로 진행된 6예를 보고하여 이 질환의 성격이 그리 단순하지 않음을 보여주었다. 그러나 이 질환은 가성종양이 한 근육에서 단독으로 나타나며 다발성 근염으로 진행하는 예를 제외하면 재발이 없는 일과성 질환이라는 점에서 본 증례와 차이가 있다. 국소성 결절성 근염은 1977년 Cumming 등에 의하여 처음 보고된 질환인데, 그는 이 질환이 다발성 근염의 초기 증상이라는 점을 강조하였으나, 보고된 3예 중 1예는 임상특징상 Heffner 및 Barron(1981)의 다발성 근염으로 진행된 국소성 근염과 유사하고 1예는 저자 등의 증례와 아주 흡사한 병력을 보이면서 다발성 근염으로 진행하지 않는 양성질환이었다. 그후에도 이 두가지 질환의 감별 및 다발성 근염과의 관계에 대한 여러 연구보고가 있지만 다발성 근염으로 진행되는 환자에서 ESR과 혈청 CK치가 높다는 사실 이외에는 아직 명확한 결론에는 도달하지 못한 것으로 생각된다(Smith 및 Pinals, 1981; Peiffer, 1987; Brown 등, 1989). 그러나 최근 국소성

결절이 반복하여서 나타나면서 다발성 근염 등 전신적으로 이행되지 않는 양성결핵을 반복성 국소성 근염(recurrent localized myositis)이라고 하여 국소성 결절성 근염과 구분하고 있는데(Wilson 및 Hawkins, 1989), 저자들의 증례는 현재까지의 경과로 보아 이에 속할 것으로 생각된다. 본 증례에서 혈청 CK치는 정상이었으나 ESR이 상승되어 있었는데 4-6년간의 긴 질병경과중 6개월간의 스테로이드 치료가 다발성 근염으로의 진행을 막았다고 볼 수는 없고, 결국 이 환자는 다발성 근염과는 다른 성격의 질환으로 보아야 할 것이다. ESR의 상승은 전장 관절부위의 이상과 관련된 비특이성 변화라고 추정할 수 있다. 국소성 염증성 근병증은 Lederman등(1984)이 보고한 다발성 근염의 한 변형으로서 한쪽 팔이나 다리의 근력약화 및 근위축이 먼저 나타난 다음 전신적으로 서서히 진행되는 질환으로서 본 증례와는 아주 다르다.

결국 반복성 국소성 근염은 한가지의 질환이 아니라 다발성 근염의 초기증상으로는 물론 본 증례처럼 양성 경과를 취하는 질환도 있음으로 이를 감별하기 위한 추사가 중요하다고 생각된다.

결 론

저자들은 최근 양하지에 동통성 결절성 종괴를 보인 반복성 국소성 근염 환자 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- Ackerman LV, Missouri L: *Extra-osseous localized non-neoplastic bone and cartilage formation(socalled myositis ossificans)*. *J Bone Joint Surg* 40: 279-298, 1958
- Azuma T, Komori A, Nagayama M: *Focal myositis of the tongue*. *J Oral Maxillofac Surg* 45: 953-955, 1987
- Brown P, Doyle DV, Evans E: *Localized nodular myositis as the first manifestation of polymyositis(letter)*. *Br J Rheumatol* 28: 84, 1989
- Colding-Jorgensen E, Laursen H, Lauvitzen M: *Focal myositis of the thigh: report of two cases* *Acta Neurol Scand* 88: 289-292, 1993
- Cumming WJK, Weiser R, Teoh R, et al.: *Localized nodular myositis: a clinical and pathological variant of polymyositis* *Q J Med* 46: 531-546, 1977
- Ellis GL, Brannon RB: *Focal myositis of the perioral musculature*. *Oral Surg* 48: 337-341, 1979
- Enzinger FM, Ducloux F: *Proiferative myositis*. *Cancer* 20: 2213-2223, 1967
- Hansen LB, Baekgaare N, Reske-Nielsen E: *Focal myositis of the rectus abdominal muscles*. *Acta Chir Scan* 151: 77-80, 1985
- Heffner RR, Armbrustmacher VW, Earle KM: *Focal myositis*. *Cancer* 40: 301-306, 1977
- Heffner RR, Barron SA: *Denervating changes in focal myositis, a benign inflammatory pseudotumor*. *Arch Pathol Lab Med* 104: 261-264, 1980
- Heffner RR, Barron SA: *Polymyositis beginning as a focal process*. *Arch Neurol* 38: 439-442, 1981
- Ho K, Konno ET, Chason TL: *Focal myositis of the neck*. *Hum Pathol* 10: 353-356, 1979
- Hutter RVP, Stewart FW, Foote FW Jr.: *Fasciitis*. *Cancer* 15: 992-1003, 1962
- Isaacson G, Chan KH, Heffner RR: *Focal myositis: a new cause for the pediatric neck mass*. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 117: 103-105, 1991
- Jacob JC, Mathew NT: *Pseudohypertrophic myopathy in cysticercosis*. *Neurology* 18: 767-771, 1968
- Kern WH: *Proliferative myositis: a pseudosarcomatous reaction to injury*. *Arch Pathol* 69: 209-216, 1960
- Kurashima K, Shimizu H, Ogawa H, Onaka T, Nobata K, Ueno K, Rikimaru S, Fujimura M, Matsuda T: *MR and CT in the evaluation of sarcoid myopathy*. *J Comp Assit* Tomo 15: 1004-1007, 1991
- Lagier R, Cox JN: *Pseudomalignant myositis ossificans*. *Hum Pathol* 6: 653-665, 1975
- Lederman RJ, Salanga VD, Wilbourn AJ, Hanson MR, Dudley AW: *Focal inflammatory myopathy*. *Muscle & Nerve* 7: 142-156, 1984
- Liefeld PA, Ferguson AB Jr, Fu FH: *Focal myositis: a benign lesion that mimics malignant disease*. *J Bone Joint Surg* 64: 1371-1373, 1982
- Naumann M, Tayka KV, Goebel HN, Hofmann E, Reichmann H: *Focal myositis of the temporal muscle*. *Muscle & Nerve* 16: 1374-1376, 1993

- Ozer FL, Johnson WA, Waggener JD : *Muscular sarcoidosis : a case with "Tumour" formation. The Lancet* 7 : 22-23, 1961
- Peiffner J : *Classification of myositis. Pathol Res Pract* 182 : 141-156, 1987
- Powell LW : *Sarcoidosis of skeletal muscle. Am J Clin Path* 23 : 881-884, 1953
- Price EB, Silliphant WM, Shuman R : *Nodular fasciitis : a clinicopathologic analysis of 65 cases. Am J Clin Pathol* 35 : 122-136, 1961
- Shapiro MJ, Applebaum H, Besser AS : *Cervical focal myositis in a child. J Ped Surg* 21 : 375-376, 1986
- Smith CA, Finals RS : *Localized nodular myositis. J Rheum* 8 : 5, 1981
- Sylverstein A, Silzbach LE : *Muscle involvement in sarcoidosis. Arch Neurol* 21 : 235-240, 1969
- Tucker RE, Winter WG Jr., Valle CD, Uematsu A, Libke R : *Pyomyositis mimicking malignant tumor. J Bone Joint Surg* 5 : 701-703, 1978
- Wilson DC, Hawkins SA : *Recurrent localized myositis. J Neurol Neurosurg Psychiatry* 52 : 411-412, 1989