

견관절에 발생한 만성 재발성 다발성 골수염 - 1예 보고 -

울산대학교 강릉아산병원 정형외과학교실

이기원 · 최영준 · 안형선 · 김정환 · 황재광 · 강정호 · 이선우 · 조완중 · 박준석

Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis of The Shoulder - A Case Report -

Ki-Won Lee, M.D., Young-Joon Choi, M.D., Hyung-Sun Ahn, M.D.,
Chung-Hwan Kim, M.D., Jae-Kwang Hwang, M.D., Jeong-Ho Kang, M.D.,
Seon-Woo Lee, M.D., Wan-Jong Cho, M.D., Jun-Seok Park, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Gangneung Asan hospital,
University of Ulsan College of Medicine, Gangneung, Korea

Purpose: We report a case of chronic recurrent multifocal osteomyelitis of the shoulder.

Materials and Methods: A 16 year-old male who had suffered from chronic recurrent multifocal osteomyelitis of the shoulder was diagnosed by clinical features and biopsy and was treated with arthroscopic debridement and Naproxen.

Results: Symptoms was subsided without relapse during 16 months follow up.

Conclusion: Chronic recurrent multifocal osteomyelitis is rare disease and it can be misdiagnosis because of its rarity and non-specific clinical presentation. This is a report of a case of chronic recurrent multifocal osteomyelitis of the shoulder in 16 years man.

Key Words: Shoulder, Chronic recurrent multifocal osteomyelitis

서 론

만성 재발성 다발성 골수염 (Chronic recurrent multifocal osteomyelitis, CRMO)은 1972년 처음 보고된¹⁾ 이래 국내 정형외과 학회에는 현재까지 2예^{2,3)}

가 보고되었으며 질환의 비특이적인 임상양상 및 진행으로 인해 감염성 골수염 및 폐혈성 관절염으로 오인되기 쉬운 질환이다. 저자들은 견관절에 발생한 만성 재발성 다발성 골수염 한 1예를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

※통신저자: 안 형 선

강원도 강릉시 사천면 방동리 415번지

강릉아산병원 정형외과

Tel: 033) 610-3240, Fax: 033) 641-8050, E-mail: hsahn@gnah.co.kr

접수일: 2011년 7월 26일, 1차 심사완료일: 2011년 9월 29일, 2차 심사완료일: 2011년 11월 3일, 게재 확정일: 2011년 11월 21일

증 례

병력: 16세 남자환자로 2주전부터 발생한 좌측 견관절의 동통, 부종, 발열, 운동장애를 주소로 내원하였다. 1차 의료기관에서 진통 소염제를 복용하였지만 증세 악화되어 본원으로 전원 되었다.

이학적 검사 소견: 체온 37.5℃ 이었으며 좌측 상완골 대결절 부위의 압통, 국소열감 및 견관절 종창 소견 보였고 심한 통증을 동반한 관절운동 장애를 보였다.

혈액검사 소견: 백혈구 치 7,600 / μ l (다핵구 69%), 적혈구 침강속도 60 mm/hr, C-반응단백은 2.77 mg/dL이었으며 류마티드 인자 및 항핵항체는 음성이었다. 관절 흡인을 시행하였으나 관절액은 흡인되지 않았다. 혈액배양검사는 음성이었다.

영상검사 소견: 단순 방사선검사상 (Fig. 1) 상완골 대결절 부위의 골 용해 병변이 관찰되었으며 자기공명영상 검사상 견관절 활액막의 비후와 이와 동반된 관절액의 증가 및 상완골 근위부의 신호증가 소견 보였다 (Fig. 2).

임상 경과 (좌측 견관절): 감염성 골수염 또는 관절염으로 추정 진단 하에 입원하여 경험적 항생제 정맥 투여 및 비스테로이드성 소염진통제를 투여하며 1주일간 경과 관찰 하였지만 임상 양상은 악화되었으며 방사선

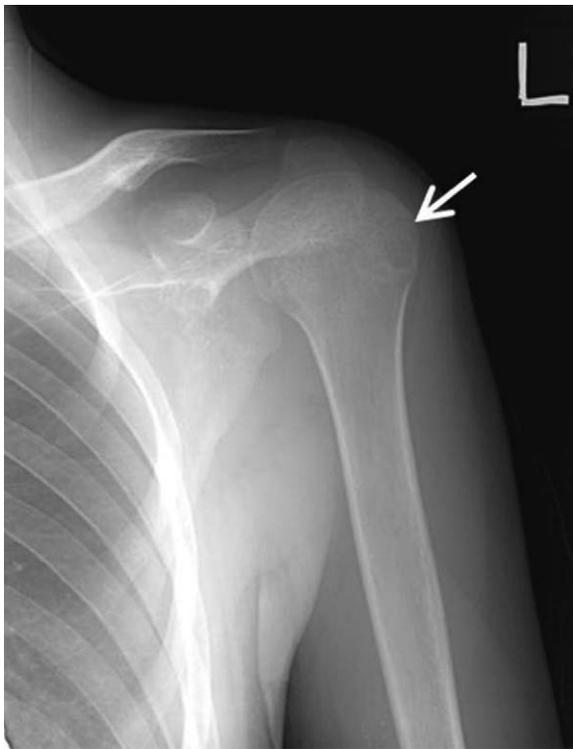


Fig. 1. Anterior-posterior plain radiography of left shoulder shows osteolytic lesion on epiphysis of proximal humerus.

추시 검사상 상완골 대결절 부위의 골 용해 병변이 진행하여 수술적 치료를 시행하였다. 수술은 상완와 관절 (glenohumeral joint)에 관절경하 조직검사 및 활액막 제거술, 상완와 관절내 근위 상완골 (intracapsular proximal humerus) 부위에 조직검사, 골소파술 및 세척술을 시행하였다. 관절경 소견상 관절액은 육안상 삼출액 양상을 보였으며 활액막은 비후되어 있었고 상완골 근위부 관절내 부위에 골용해 병변을 형성하고 있었다. 관절액 및 상완골 채취물에서 시행한 세균배양 검사에서 배양된 균은 없었으며 골조직 검사상 림파구와 형질세포, 중성구가 혼재된 양상의 비화농성 골수염에 가까운 소견을 보였다 (Fig. 3). 수술 후 임상양상



Fig. 2. Enhanced Coronal T1-weighted MR image of the left shoulder shows marked increased signal intensity around greater tuberosity.

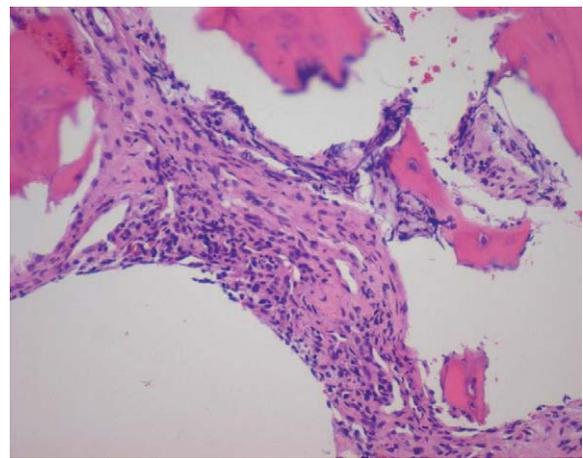


Fig. 3. Microscopic finding shows mixed inflammatory infiltrate including plasma cells, lymphocytes and polymorphonuclear-leucocyte.

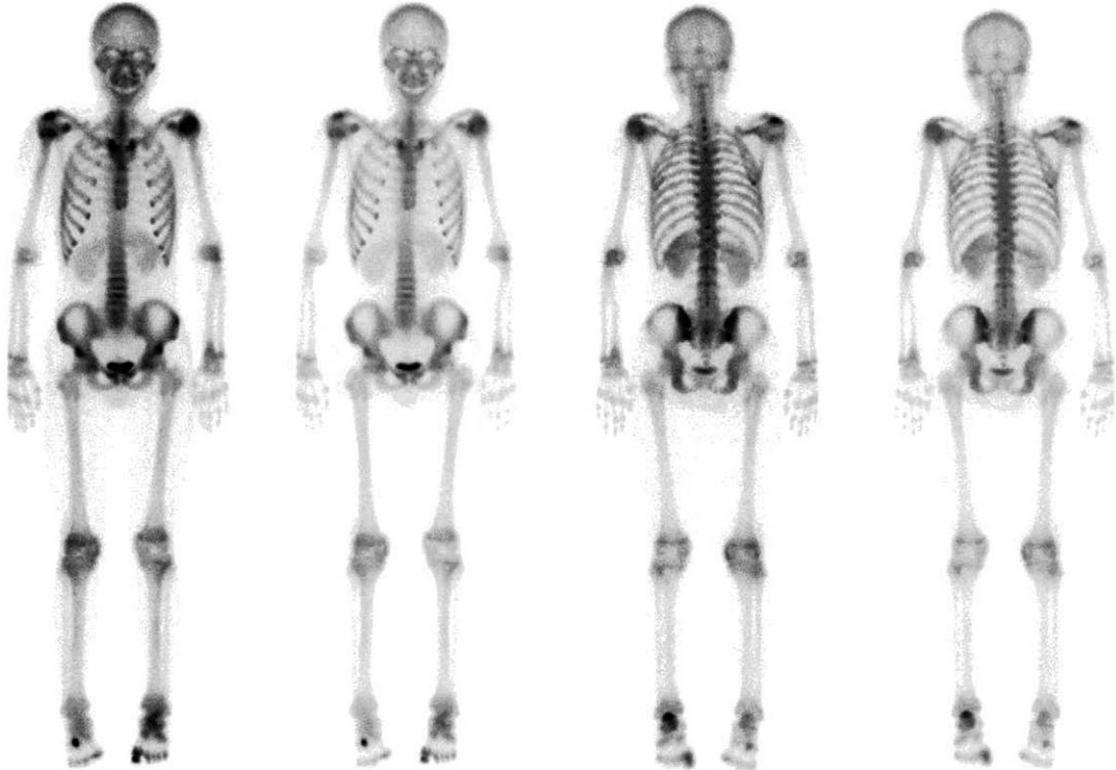


Fig. 4. Bone scan shows multifocal hot uptakes in right acromion & left proximal humerus, left hind foot, both forefoot, right distal femur.

이 호전되기 시작하였으며 4주간 정맥항생제 투여하였고 경구항생제로 전환 후 외래 추시를 하였다.

임상 경과 (우측 견관절): 외래 추시 12주째 37.6 °C의 발열과 동반된 우측 견관절 통증 및 경미한 양측 족부, 천장관절 통증을 호소하였다. 혈액검사상 백혈구치 8,000 / μ l (다핵구 68%), 적혈구 침강속도 62 mm/hr, C-반응단백 4.77 mg/dL 였으며 면역학적 검사상 류마티드 인자 및 항핵항체는 음성이었으나 HLA-B27 양성 소견 보였다. 골 스캔 검사상 우측 견봉 말단부, 좌측 원위 상완골, 좌측 종골 및 좌측 무릎지, 우측 중족부, 우측 원위 대퇴골에 다발성으로 양성 반응을 보였다 (Fig. 4). 견봉하 공간에 대한 천자 소견상 백혈구 17000 /ul, 다핵구 22%, 림파구 5%, 조직구 77%의 소견을 보였으며 세균 배양검사는 음성이었다. 우측 견관절에 대한 자기공명 영상 검사상 견봉 말단부의 고신호 강도를 보이며 골수염 소견을 보였고 관절의 침범은 없었다 (Fig. 5).

비감염성 골수염 및 주변 부위 관절염으로 추정 진단하고 보존적 요법으로 비스테로이드성 소염 진통제를 투여하며 치료하였으나 3주 후 38°C 이상의 고열 및 우측 견관절부 통증 악화, 혈액검사상 C-반응단백 10.53 mg/dL의 소견을 보여 추가적인 치료로 관절경하 견봉 말단부에 조직검사 및 골소파술, 견봉하 공간 변연절제

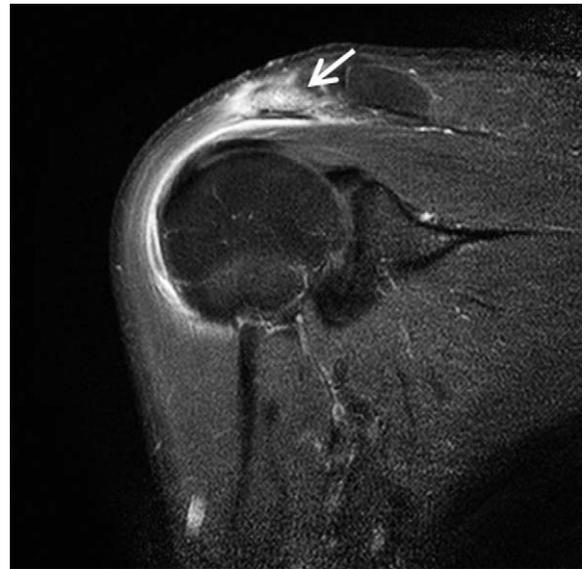


Fig. 5. Enhanced Coronal T1-weighted MR image of the Rt shoulder shows marked increased signal intensity around acromion & subacromial space.

및 세척술을 시행하였고 소견상 농양형성은 관찰되지 않았으며 조직검사상 좌측과 마찬가지로 비화농성 골수염 소견을 보였으며 세균 배양은 음성이었다. Naproxen 및 단기 스테로이드로 투약을 변경하였으며 증세 호

전을 보였다. 외래 추시 시 Naproxen만을 사용하였으며 투약 4개월 후 전체 증상이 소실되었고 단순 방사선 검사상 골융해 병변은 진행하지 않았고 재발 및 타 부위 증상 없이 16개월간 외래 추시 중이다.

고 찰

만성 재발성 다발성 골수염은 비세균성 골염 (non bacterial osteitis)의 한 종류로 여러 부위에 다발성으로 나타나며 임상적, 방사선학적 및 병리학적으로 골수염 소견을 보이거나 병변 부위의 배양검사상 균이 자라지 않고 항생제 치료에 잘 반응하지 않으면서 수개월 혹은 수년간 주기적인 악화와 호전을 반복하는 질환으로 자연 치유되는 경향을 보이기도 한다.¹⁾ 인구 100만명당 1~2명 발병하는 드문 질환으로 발병연령은 소아, 청소년기에 발병하며 장관골의 어느 부위나 발생할 수 있다.

임상증상은 비특이적으로 발열, 동통, 압통, 부종 등이 다발성으로 악화와 완화를 반복하며 나타나며¹⁾ 임상 검사 소견도 C-반응성 단백, 백혈구 수치의 증가를 보일 수 있으나 비특이적이다. 항핵항체는 주로 음성 소견을 보이며 HLA-B27의 발현 빈도는 21%를 보인다고 한다. 각종 균배양 검사 (골, 혈액, 관절액)는 음성이며 병리학적 검사는 비특이적 만성 염증 소견을 보인다.^{4,5)}

영상검사상 세균성 골수염과 감별되는 특이적인 소견을 보이지는 않는다. 골 주사 검사상 다발성 병변이 보이며, 자기공명영상은 골수, 연부조직, 관절을 평가하는데 유용하기 때문에 근골격계의 감염을 감별하는 데 도움이 되며 직접적으로 병변부를 확인하며 골 조직검사를 시행할 수 있어 좋은 방법으로 제시되고 있다.⁶⁾

진단을 위해 임상양상, 영상의학적 소견 및 병리학적 소견이 필요하며 병리학적, 세균학적 검체를 얻어 감염성 골수염, 골 종양, 랑게르한스 조직구증 등 연소기 골단부 및 골간단부를 침범할 수 있는 질환을 배제하여야 한다.

Jansson 등⁷⁾은 89명의 비세균성 골염 (non-bacterial osteitis)환자를 연구하여 진단기준을 제시하고 증상 호소기간 6개월 이상을 만성으로, 이중 2군데 이상 골병변이 있을 시 만성 재발성 다발성 골수염으로 정의하였고 증상 관해의 기준을 통증의 소실, 상승되었던 염증 인자 (inflammation marker)의 감소, 병변의 방사선학적 진행의 소실로 정의하였다. 본 증례의 경우 좌측 상완골 근위부에 골수염으로 인한 첫 증상 발생 이후 우측 견봉 말단부위에 발생한 골수염 및 골스캔상 나타난 여러 부위의 증상이 악화와 완화를 반복하며 소실되기까지 치료기간이 9개월 이상 소요되었으며 좌측 상완골 근위부 및 우측 견봉 말단부에서 시행한 조직

검사 및 세균학적 검사상 비세균성 골염 소견을 보이고 있어 비세균성 골염 중 만성 재발성 다발성 골수염으로 진단하였다.

드문 질환이며 정확한 진단 및 감별진단이 단기간에 이루어지지 않고 어려워 진단 과정 중 특히 감염성 골수염으로 오인되기 쉬워 정확한 진단 및 치료가 늦어지는 경우가 많다. 본 증례도 처음에는 감염성 골수염으로 오인하여 불필요한 치료인 장기간의 항생제 투여를 시행하였고 이 후 좌측 건관절의 임상 및 수술, 검사 소견과 다시 발병한 우측 건관절의 소견을 종합하여 문헌 고찰한 결과 다른 질환을 배제하고 만성 재발성 다발성 골수염으로 진단 후 증상 소실 및 관해 유지를 위한 투약으로 Naproxen을 선택하여 치료한 경우이다.

과거 국내에 보고된 2예^{2,3)}의 경우 본 증례보다 긴 각각 7년, 27년의 추시 기간을 보고하였으며 증상 발현 시 마다 주로 항생제 치료를 시행하였다는 점 등이 본 증례와 차이점을 보인다. 이전 보고들에 비해 추시 기간이 짧고 증상이 비교적 경미하나 관해의 기준⁷⁾을 통증의 소실, 상승되었던 염증 인자 (inflammation marker)의 감소, 병변의 방사선학적 진행의 소실로 보았을 때 본 증례의 경우도 9개월 이상의 임상 양상을 보이며 문헌 고찰을 통하여 선택된 Naproxen등의 약물을 장기간 투여하여 비교적 빠른 증상의 소실과 관해를 보인 만성 다발성 골수염의 한 증례로 판단 된다.

만성 재발성 골수염의 치료는 비스테로이드성 소염진통제와 단기 스테로이드 보존적 요법이 치료 및 관해 유지를 1차적 선택약물로 받아들여지고 있으며 항생제 치료는 도움이 되지 않아 정확한 진단을 통해 불필요한 항생제 사용을 줄이는 것이 중요하다고 보고되고 있다.⁷⁾ Beck 등⁸⁾은 Naproxen을 일차약제로 사용하여 상당수의 환자에서 관해를 유지하는 것으로 보고하였고 일부 환자에서 비스테로이드성 소염진통제에 대하여 비반응성을 보이거나 재발을 보이는 경우 corticosteroid, TNF-a blocker, bisphosphonate, Methotrexate, sulfasalazine 등을 추가적으로 사용할 수 있다고 하였다.^{5,8)} 외과적 수술은 치료에 일차적인 선택이 되지 않으나 본 증례의 경우처럼 약물에 반응하지 않거나 주변부위 관절염이 동반된 경우 수술이 도움이 된다는 보고가 있다.⁶⁾

만성 재발성 다발성 골수염의 예후는 장기적인 장애나 변형을 유발하지 않는 비교적 양성 질환으로 알려져 있으나 Manson 등⁹⁾은 만성 재발성 다발성 골수염 환자를 방사선학적으로 추시 관찰하여 성장판 조기유합과 이와 동반된 외반 변형, 하지 부동 등을 보고하였다. 본 증례의 경우는 수술 전후나 추시 시 성장판의 손상은 보이지 않았으며 좌측 건관절에 경미한 관절 강직이 잔존하였다.

결 론

저자들은 정형외과 영역에서 감염성 골수염과 감별이 힘든 드문 질환인 만성 재발성 다발성 골수염 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하여 이 질환을 숙지하여 감별 진단 및 치료 계획을 세우는데 도움이 되자 한다.

REFERENCES

- 1) Giedion A, Holthusen W, Masel LF, Vischer D. Subacute and chronic "symmetrical" osteomyelitis. *Ann Radiol (Paris)*. 1972;15:329-42.
- 2) Chung YK, Song BT, Chung BE. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis. *J Korean Orthop Assoc*. 1990;25:1576-9.
- 3) Cho DY, Haham YG, Kim JW. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis. *J Korean Orthop Assoc*. 1996; 31:920-7.
- 4) Catalano-Pons C, Comte A, Wipff J, et al. Clinical outcome in children with chronic recurrent multifocal osteomyelitis. *Rheumatology (Oxford)*. 2008;47:1397-9.
- 5) Girschick HJ, Raab P, Surbaum S, et al. Chronic non-bacterial osteomyelitis in children. *Ann Rheum Dis*. 2005;64:279-85.
- 6) Gikas PD, Islam L, Aston W, Tirabosco R, Saifuddin A, Briggs TW, Cannon SR, O'Donnell P, Jacobs B, Flanagan AM. Nonbacterial osteitis: a clinical, histopathological, and imaging study with a proposal for protocol-based management of patients with this diagnosis. *J Orthop Sci*. 2009;14:505-16.
- 7) Jansson A, Renner ED, Ramser J, et al. Classification of non-bacterial osteitis: retrospective study of clinical, immunological and genetic aspects in 89 patients. *Rheumatology (Oxford)*. 2007;46:154-60.
- 8) Beck C, Morbach H, Beer M, et al. Chronic nonbacterial osteomyelitis in childhood: prospective follow-up during the first year of anti-inflammatory treatment. *Arthritis Res Ther*. 2010;12:R74.
- 9) Manson D, Wilmot DM, King S, Laxer RM. Physal involvement in chronic recurrent multifocal osteomyelitis. *Pediatr Radiol*. 1989;20:76-9.

초 록

목적: 건관절에 발생한 만성 재발성 다발성 골수염의 진단 및 치료 경험을 보고하고자 한다.

대상 및 방법: 건관절에 발생한 만성 재발성 다발성 골수염을 가진 16세 남자 환자에 대해 관절 경하 변연 절제술 및 Naproxen을 이용한 치료를 시행하였다.

결과: 치료 후 16개월 동안 추시상 재발 없이 증상이 소실되었다.

결론: 만성 재발성 다발성 골수염은 비특이적 임상 양상과 드문 발병률 때문에 진단에 어려움이 있는 질환이다. 저자들은 16세 남자 환자에서 건관절에 발생한 만성 재발성 다발성 골수염 1례를 경험 하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

색인 단어: 건관절, 만성 재발성 다발성 골수염