

양 하퇴에 재발한 초점성 근염 1례

경희대학교 의과대학 재활의학교실

윤동환 · 유승돈 · 김희상 · 안경희

A Case Report of Recurrent Focal Myositis Confined to Both Calves

Dong-hwan Yun, M.D., Seung Dohn Yoo, M.D.,
Hee-Sang Kim, M.D. and Kyung Hoi Ahn, M.D.

Department of Rehabilitation Medicine, Kyung Hee University College of Medicine

- Abstract -

Focal myositis is a pseudotumor of soft tissue characterized by the selective involvement of a single muscle by the inflammatory process, and is a rare clinical entity. We report a patient who had developed pain at both calves fourteen months earlier and had completely spontaneous resolution within several weeks and recurrently developed similar pain on both calves and was revealed as findings consistent with focal myositis in MRI and biopsy, but not in serologic and EMG study. Because of its severe nature of pain and extensive time required for spontaneous resolution, the patient was treated with high dose steroid therapy, which led to an almost immediate improvement of symptoms.

Key Words : Focal myositis, MRI, EMG, Steroid therapy

서 론

초점성 근염은 연부조직의 가성종괴로 1977년 Heffner 등이 최초로 보고하였다¹. 이러한 병변은 주로 하지의 연부조직에 발생하는 매우 드문 질환으로 국내에는 외안근에 발생한 증례보고만이 되어 있다². 저자들은 양 하퇴의 동통을 주소로 내원하여 혈청학적 검사와 근전도 검사에서 근병증의 소견을 보이지 않았으나 자기공명영상과 근생검을 통해 초점성 근염이 확인된 환자의 치료경과와 치료 전후의 근전도 검사소견을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 김 O O, 남자, 33세
주소 및 현 병력 : 백화점 의류매장을 경영하며 활동적으로 지내던 환자로 97년 10월부터 전신증상을 동반하지 않는 양 하퇴의 동통과 경도의 부종 및 이로 인한 보행장애가 발생했으나 4주만에 자발적으로 호전되어 평소 활동을 하던 중, 98년 12월 15일부터 증상이 재발되어 타 병원에서 다발성 근염 의증으로 진단 받고 별다른 치료 없이 지내다 지속되는 증세로 98년 2월 8일 본원 재활의학과 외래를 통하여 입원하였다.
기왕력 및 가족력 : 당뇨병 등 만성질환력은 없었고 10년간 하루 한 갑의 흡연력이 있었으며 일주일에 소주 2병정도

경희대학교 의과대학 재활의학과

Address reprint requests to Dong-hwan Yun, M.D.

Department of Rehabilitation Medicine, Kyung Hee University College of Medicine, #1 Hoegi-dong, Tongdaemun-gu, Seoul, 130-702, Korea

Tel : 82-2-958-8565, Fax : 82-2-958-8560, e-mail : Krusen@unitel.co.kr

의 음주력이 있었다. 특별한 가족력은 없었다.

이학적 검사 소견 : 전신상태는 양호하였으며 양측 하퇴의 비복근 부위에 경도의 종창과 심한 압통을 호소하였다. 피부의 염증소견은 없었으며 근 위축 소견이나 가성비대 양상은 보이지 않았다. 양측발목관절의 굴곡구축이 있었다.

신경학적 검사 소견 : 정신상태는 명료하였으며 뇌신경검사에도 정상소견을 보였다. 도수근력 검사에서 양측 하지의 고관절 굴곡력, 슬관절 신전력, 족관절 배측굴곡력 등 모두 정상소견을 보였으며 족관절 족저굴곡 시 동통을 호소하였으나 위약은 없었다. 감각기능 검사에서 촉각, 온도 감각, 동통 감각, 위치 및 진동 감각 모두 정상이었다. 심부건 반사는 사지에서 모두 정상이었다. 병적 반사, 소뇌반응 등은 유발되지 않았다.

임상 검사 소견 : 일반혈액 검사, 간 기능 검사와 전해질 검사는 정상이었다. 적혈구침강속도는 42mm/sec로 증가되어 있었으며 99년 1월에 시행한 CK/LDH는 320/724 IU/L로 증가소견을 보였으나 이후 곧 감소하여 정상소견을 보였다. 이외에 Antinuclear antibody, Rheumatoid factor, Antinuclear cytoplasmic antibody 등 검사소견에서 모두 정상소견을 보였다.

방사선학적 검사 소견 : 단순 하퇴부 방사선 검사에서 정상소견을 보였으며 하퇴부 자기공명영상검사서 내외측 비복근에 T1W1 영상에서 정상신호강도, T2W1영상에서 균일하지 않은 신호강도의 증가를 보였으며, 또한 조영증강을 보이는 근염의 소견을 나타내었다(Fig. 1).

근생검 소견 : 좌측하퇴부 내측 비복근(medial gastrocnemius)에서 채취한 표본에서 부분적인 근섬유의 괴사와 만성 염증 소견을 관찰할 수 있어 근염에 합당한 소견을 보였다(Fig. 2).

내원 당시의 전기진단 소견 : 운동신경, 체성 감각신경 유발전위검사서 정상소견을 보였다. 입원 당시 침근전도검사서 양측 내외측 비복근과 전경골근, 대퇴이두근에서 비정상 자발전위를 보이고 운동단위 활동전위의 기간과 진폭이 정상이거나 증가하고 동원양식이 감소된 소견을 보였다(Table 1). 운동신경전도 검사에서 양측 후경골 신경에서 진폭의 감소를 보였다. 감각신경전도 검사서 정상소견을 보였다(Table 2). 어에 검사 당시 저자들은 근병증의 소견은 아닌 것으로 생각했다.

치료 및 치료 후 경과 : 족관절의 굴곡구축에 대한 물리치료, 지속적인 신장운동, 동통에 대한 보존적 치료에도 불구하고 환자는 상당기간(8주) 지속되는 심한 동통을 호소하였다. 이에 스테로이드(methylprednisolone 500mg/day)를 매일 5일간 생리식염수 500ml에 희석, 정맥주사 하였다. 치료 중 발적, 부종, 심계항진, 사고이상 등의 이상 징후는 없었다. 스테로이드 투여시작 후 2일째 동통의 시각적 상사척도가 입원시 8에서 0으로 감소하였고 5일째 족관절의 가동력은 정상소견을 보이고 보행장해도 호전되었다. 고용량의 스테로이드 치료 후 감량 중 잠시 동통을 재 호소하였으나 전신적 진행이

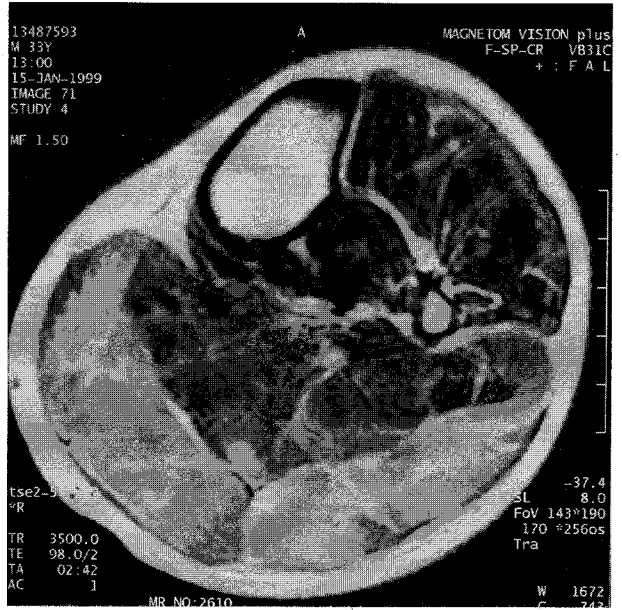


Fig. 1. T2-weighted MR images of left calf shows a signal increase in gastrocnemius. This finding is suggestive for an inflammatory process confined to gastrocnemius muscle.

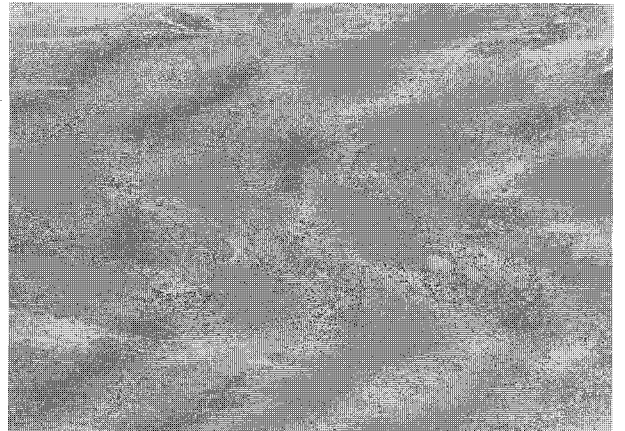


Fig. 2. Photomicrograph(Hematoxylin eosin) showing focal muscle bundle necrosis and scattered chronic inflammatory cells between muscle fibers.

나 혈청학적 변화는 보이지 않았다.

스테로이드 치료 10일 후 전기진단 소견 : 침근전도 검사서 비정상자발전위의 소실 및 운동단위 활동전위 동원양식이 증가를 보였다(Table 3). 신경전도 검사서 유의한 변화는 없었다.

고 찰

초점성 근염은 소아와 성인 모두에서 발병할 수 있으며 수주에 걸쳐 빠르게 악화되는 양상의 국한된 근육 내 연부조직 병변으로서 여러 근육에 발생하기도 하지만 특징적으로 한

Table 1. Findings of Needle Electromyography at Admission

Muscles	Insertional Activity	Spontaneous Activity			Motor unit Potentials	
		Fibrillation Potentials	Positive Sharp Waves	Fasciculation Potentials	Recruitment	Duration/Amplitude
Gastrocnemius	Increased	++	+++	O	-	-
Tibialis anterior	Increased	+	+	O	Decreased	Increased
Rectus femoris	Normal	O	O	O	Decreased	Normal
Extl. digitorum brevis	Normal	O	O	O	Decreased	Normal
Abductor hallucis	Normal	O	O	O	Normal	Increased
Gluteus maximus	Normal	O	O	O	Normal	Normal
Biceps femoris	Increased	O	O	O	Decreased	Normal

1: Extensor

Table 2. Findings of Nerve Conduction Study

Nerve Stimulation	Amplitude (μV)	Conduction Velocity (m/s)	Latencies (ms)	
			Distal	F-Wave
Motor				
CPN ¹ , Left	5300	54.1	3.57	44.6
PTN ² , Left	2420	47.4	3.92	47.3
CPN, Right	4050	56.4	3.96	45.2
PTN, Right	3500	46.1	4.26	48.5
Sensory				
SPN ³	14.2	41.1	3.41	
Sural Nerve	3.3	42.3	3.31	

1: Common Peroneal Nerve

2: Posterior Tibial Nerve

3: Superficial Peroneal Nerve

개의 근육을 침범하는 양상을 나타낸다.^{1,3} 성별간의 차이는 없는 것으로 알려져 있으며^{1,4,5} 하지에 가장 잘 발생해 50% 가량이 대퇴부에 25%정도가 하퇴에 발생하며^{1,5} 목 주위와 허, 안구주위, 전완부, 손, 복부, 안검과 척추주위근육에 발생한 예도 보고되어 있다.^{4,6-9} 원인은 알려져 있지 않지만 과거에는 무증상의 손상을 우선적으로 의심하였다고 한다.

동통이 임상적으로 가장 흔하게 나타나는 주 증상이며 임상경과는 자발적으로 사라지거나 절제 후 재발하지 않는 등 양호하다.^{4,5} 자발호전에 걸리는 시간이 오래 걸리거나 동통이 심할 경우 외과적 절제가 필요하기도 하며 스테로이드와 면역억제 치료제가 사용되기도 한다.^{4,10} 본 증례에서는 8주 이상 지속되는 심한 동통으로 인해 스테로이드 치료를 하여 빠른 호전을 얻었다.

조직학적으로는 근주위막(perimysium)과 근내막(endomysium) 공간에 임파구의 침윤, 산재성 근섬유 괴사와 재생, 세포간질의 섬유화를 보이나 출혈, 괴사 또는 석회화가 특징적으로 나타나는 않는다.¹⁵ 본 증례에서는 근섬유의 부분적 괴사와 만성적인 염증 소견을 나타내었다.

한편, Cumming 등⁶은 3명의 유사한 환자를 보고하였는데 그 중 2명은 다발성 근염에 일치되는 미만성 근병증으로 계속 진행했다고 하였으며 1993년 Flaisler 등³은 하지에 발생된 국한성 근염을 증례보고 하면서 이전에 보고된 39례를 검토한 결과 이 중 1/3의 예가 전신약화, 발열, 근육통, 몸무게 감소, creatine phosphokinase의 증가를 포함하는 다발성 근염으로 점차 발전된 국한성 근염이었음을 밝혔다. 적혈구 침강속도가 높거나 근육효소치가 높은 환자에서 다발성 근염으로 발전하는 경향을 보였으며 저자들은 국한성 근염을 다발성 근염의 일종의 국소 형태라고 생각하는데 이는 조직학적으로 같아서이고 따라서 추적관찰이 이들의 구별을 위해서 반드시 필요하다고 하였다. 본 증례처럼 다발성 근염으로 발전하지 않은 반복성 국한성 근염환자도 보고되었는데^{11,12} 이들은 이시성의(metachronous) 양측성 침범을 보였다. 이러한 양측성 근육 침범은(다발성 근염으로 발전되는 것을 포함하여) 국소적 단일 병변에서 다발성 근염의 초기 국소 병변에 이르는 국한성 근염의 넓은 범위를 시사해준다. 본 증례에서는 대칭성의 병변을 나타냈으나 다발성 근염에서와 같이 근위부를 침범하거나 전신적으로 이환되는 양상은 없었고 열, 위약감, 관절통 등의 전신증상도 없었으나 적혈구침강속도가 높고 증세발현 초기에 근육효소치가 높아 다발성 근염으로 진행할 가능성이 높을 것으로 생각되며 향후 이를 확인하기 위한 장기간의 추적검사가 반드시 필요하리라 생각된다.

영상 검사에 관한 문헌들을 살펴보면, 전산화단층촬영에서는 특징적인 소견은 아니나 근육간의 경계가 불분명해지고 영상강도의 감소, 병변근육의 비대등을 보인다고 한다.¹³ 자기공명영상검사에서는 T1W1영상에서 동신호, T2W1영상에서 한 개의 근육에 국한된 고신호강도를 나타내고 조영증강이 되는 소견을 보인다고 한다.^{3,12,14} 이는 병변부 근육에 액체가 침적되기 때문이라 한다.¹⁶ Marie 등¹⁴은 이러한 자기공명영상검사가 자세한 근육의 해부학적인 침범정도를 보여 주어 진단에 유용하며 민감도가 높고, 근생검의 위치선정에 도움을 줄 수 있다고 하였고 자기공명영상소견이 임상적, 조직학적 정도와 잘 일치하면서도 비침습적이므로 추적검사로 유

Table 3. Findings of Eletromyography after Steroid Therapy

Muscles	Insertional Activity	Spontaneous Activity			Motor unit Potentials	
		Fibrillation Potentials	Positive Sharp Wave	Fasciculation Potentials	Recruitment	Duration/Amplitude
Gastrcnemius	Normal	O	O	O	Decreased	Increased
Tibialis anterior	Normal	O	O	O	Decreased	Normal
Rectus femoris	Normal	O	O	O	Normal	Normal
Ext. digitorum brevis	Normal	O	O	O	Normal	Normal
Abductor hallucis	Normal	O	O	O	Normal	Increased
Gluteus maximus	Normal	O	O	O	Normal	Normal
Biceps femoris	Normal	O	O	O	Normal	Normal

용할 것이라 하였다.

급성 근염에서 근전도검사는 비정상자발전위와 짧은 기간의 다상성 운동단위활동전위가 특징적으로 나타나 진단의 한 방법으로 사용되고 특히 이환된 환자의 추적관찰에 유용한 것으로 알려져 있으며 이를 통한 분류와 진단의 기준도 제시되어 왔다. 그러나, Kalden등의 예에서처럼 초점성 근염에서 근전도검사는 근병증을 의심케 하는 소견이 나타나지 않을 수도 있다.^{10,15} 본 증례에서는 비복근에서 시행한 침근전도검사서 비정상자발전위를 보였으나 짧은 기간의 다상성 운동단위활동전위는 물론 운동전위활동전위가 유발되지 않아 근병증에 합당한 소견은 발견하지 못했는데 이는 족관절의 굴곡구축과 동통에 의한 것이라 생각되며 따라서 근병증의 진단 시 주의를 기울여야 할 것으로 생각된다. 또한 본 증례에서는 스테로이드 치료에 의해 임상적 호전이 된 후의 근전도검사서 비정상자발전위가 소실된 소견을 보였는데 이는 근전도검사가 다발성근염에서처럼 초점성 근염에서도 추적검사에 유용할 것이라는 것을 뒷받침하는 소견이라 생각된다.

REFERENCES

1. Heffner RR, Armbrustmacher VW, Earle KM: Focal myositis, *Cancer*, 1977; 40: 301-306
2. 이종원, 김원천, 최일생, 유호민, 지계근: 특발성 안와 근염 1례, *대한신경과학회지*, 1988; 6: 71-77
3. Flaiscer F, Blin D, Asencio G: Focal myositis: a localized form of polymyositis?, *J Rhematol*, 1993; 20: 1414-1416
4. Manguire JK, Milford LW, Pitcock JA: Focal myositis in the hand, *J Hand Surg*, 1998; 13: 140-142
5. Liefeld PA, Ferguson AB, Fu FH: Focal myositis: a benign lesion that mimics malignant disease, *J Bone Joint Surg Am*, 1982; 64: 1371-1373
6. Cumming WJK, Weiser R, Teoh R, Hudgson P, Wal-

ton JN: Localized nodular myositis, a clinical pathological variant of polymyositis, *Q J Med*, 1977; 46: 531-546

7. Toti P, Catella AM, Benvenuti A: Focal myositis - a psedotumoral lesion, *Histopathology*, 1994; 24: 171-173
8. Shapiro MJ, Applebaum H, Besser AS: Cervical focal myositis in a child, *J Pediatr Surg*, 1986; 21: 375-376
9. Azuma T, Komori A, Nagayama M: Focal myositis of the tongue, *J Oral Maxillofac Surg*, 1987; 45: 953-955
10. Kalden P, Krayse T, Volk B, Peter HH, von Kempis J: Myositis of small foot muscles, *Rheumtol Int*, 1998; 18: 79-82
11. Garcia-Consuegre J, Morales C, Gonzalez J, Merino R: Relapsing focal myositis: a case report, *Clin Exper Rheumatol*, 1995; 13: 395-397
12. Sieb JP, Ries F, Traber F, Keller E, Block W, Kaminski M: Recurrent focal myositis, *Muscle Nerve*, 1997; 20: 1205-1206
13. Caldwell CJ, Swash M, van der Walt JD, Geddes JF: Focal myositis: a clinicopathological study, *Neuromuscular Disord*, 1995; 5: 317-321
14. Marie I, Cardon T, Hachulla E, Cotton A, Michon-Pastural U, Hatron PY, Devulder B: Magnetic resonance imaging in focal myositis, *J Rheumatol*, 1998; 25: 378-382
15. Shibuya S, Wakayama Y, Murahashi M: Benign adult onset focal myositis confined to calf muscles, *Muscle Nerve*, 1998; 21: 260
16. Reimers CD, Schedel H, Fleckenstein JL, Nagele M, Witt TN, Pongratz DE, et al: Magnetic resonance imaging of skeletal muscles in idiopathic inflammatory myopathies of adults, *J Neurol*, 1994; 241: 306-314