

양측성 거대 이소성 골화증과 공존된 양측성 천추신경총병증

원광대학교 의과대학 재활의학교실, 원광의과학연구소, 한의과대학 재활의학과*

신용일 · 양충용 · 김헌수 · 김태진 · 노세응 · 주민철 · 길은영*

- Abstract -

Bilateral Sacral Plexopathy Concomitant with Bilateral Huge Heterotopic Ossifications

Yong-Il Shin, M.D., Chung-Yong Yang, M.D., Heon-Soo Kim, M.D., Tai-Jin Kim, M.D., Se-Eung No, M.D., Min-Cheol Joo, M.D. and Eun Young Kil, M.D.*

Department of Rehabilitation Medicine, Wonkwang Medical Science Research Center, Wonkwang University School of Medicine, Wonkwang University School of Oriental Medicine*

Heterotopic ossification (HO), which 11 to 75 % of traumatic brain injury patients inevitably suffer from, makes it possible to form mature lamellar bone in abnormal locations, usually soft tissue and periarticular area. We report a 36-year-old female patient with bilateral sacral plexopathy after traumatic brain injury, who had huge bilateral HO as well as stuporous mental state and blunt legs by in-car traffic accident. Sacral plexopathy and entrapment polyneuropathy caused by HO were tentatively diagnosed in this patient. We were able to rule out entrapment polyneuropathy by simple x-ray, electromyography, and magnetic resonance imaging. So authors report a rare case with bilateral idiopathic sacral plexopathy concomitant with bilateral huge HO. Based upon the case of the patient, scrupulous attention is, we think, needed to differentiate bilateral sacral plexopathy and entrapment polyneuropathy concurrent with HO in a traumatic brain injury patient.

Key Words: Plexopathy, Heterotopic Ossification, Traumatic brain injury

서 론

이소성 골화증은 외상성 뇌손상 환자에 수반하는 여러 가지 합병증 중의 하나로써 정상적으로 골을 형성하지 않는 부위에 골형성이 발생하는 질환으로 외상성 뇌손상 환자의 11~75%에서 발생한다.¹ 외상성 뇌손상의 초기에는 의사소통 제한이 자주 발생하여 수상 시 동반된 말초신경계 질환이나 근골격계 질환의 조기 발견이 어렵고, 이소성 골화증 같이 서서히 진행되는 질환은

임상증상이 발현한 이후에 진단되거나, 단순 방사선 촬영으로 우연히 발견된다.² 따라서, 초기 의식혼탁이 동반된 외상성 뇌손상에서 이중손상(double injury)이나 말초신경의 손상 등에 대해 간과하기 쉽다. 천추신경총은 요추 하부에서 천추 하부까지 걸쳐 있으며, 그 주행과정상 하복부와 골반부의 여러 구조물을 지나게 됨으로서 외상이나 여러 질환에 의해 쉽게 영향을 받게 된다.^{3,4}

외상성 뇌손상 환자에서 이소성 골화증은 흔한 합병

Address reprint requests to **Heon-Soo Kim, M.D.**

Department of Rehabilitation Medicine, Wonkwang University School of Medicine,
#344-2 Shinyong-dong, Iksan-si, Jeonbuk-do, 570-180, Korea

TEL : 82-63-850-1560, FAX : 82-63-843-1385, E-mail : rehab@wonkwang.ac.kr

* 이 논문은 2004년도 원광대학교 교내연구비 지원에 의해서 이루어진 것임.

증이나 골반 전체에 양측성으로 거대하게 발생하는 경우는 매우 드물다. 또한 Isla A 등⁵은 이소성 골화증에 의한 좌골신경압박 소견을 보고한 바 있으나, 요천추신경총병증과 동반하여 보고 된 경우는 없었다. 이에 저자들은 외상성 뇌손상 환자에서 골반부에 광범위하게 양측성으로 발생한 거대 이소성 골화증과 이 병변의 압박에 의한 포착성 신경병증과 감별을 요한 양측성 특발성 천추신경총병증을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

본 증례는 36세 여자로 교통사고 후 의식 혼탁과 사지마비를 주소로 내원하여 외상성 거미막하 출혈과 미만성 축삭 손상으로 진단되어 2개월의 보존적 치료를 시행 받고 재활의학과에 전과된 환자였다. 개인력상 환자는 수상전 건강하였으며, 알고 있던 내분비질환, 심장질환, 간질환, 신질환, 신경병증, 외상성 손상, 유전질환 등의 기저질환은 없었다. 전과 당시 실시한 신경학적 검사상 의식수준이 혼미하였고, 자발적 운동이 거의 없는 상태로 강직성 사지마비를 보였다. 이학적 검사상 양측 고관절 및 대퇴부의 미만성 부종, 동통성 반응, 양측 고관절의 굴곡, 신전, 외전, 외회전에서 관절운동 제한과 구축이 관찰되었으며 양측 하지에서 국소적 근위축과 병적반사가 항진된 소견이 관찰되었다.

생화학 검사상 혈청 알칼리성 포스파타제 수치가 936 IU/L(정상 66-220 IU/L)로 증가되었으며, 혈당, 결체조직검사, 간기능검사, 소변검사, 갑상선검사서 정상 범위였으며, 뇌척수액 검사에서 특별한 이상소견은 없

었다. 단순 방사선 촬영에서 특이소견은 관찰되지 않았으나, 골주사 검사상 양측 고관절과 둔부에서 방사선 동위원소의 섭취가 증가되었다(Fig. 1-A). 전산화단층 촬영상 거대 이소골이 우측 둔부, 고관절 및 대퇴의 근위 후내측부에서 관찰되었고, 좌측 대퇴골의 근위 골두 및 경부의 전측방에서 관찰되었다. 골반부 골절, 심부 정맥혈전증, 요천추신경총 주위 연부조직의 부종, 혈종, 종양 등 신경압박을 유발할 만한 특별한 소견은 없었다(Fig. 2-A).

임상검사서 양측 족관절 및 족지신전근의 국소적 근위축, 하지직거상검사서 동통성 반응 등의 소견을 보여 거대 이소골에 의한 신경압박 유무와 이중손상 여부를 확인하기 위해 전기진단검사를 시행하였다. 양측 상지의 운동 및 감각신경 전도검사와 침근전도검사서 특이 소견은 없었다. 양측 하지중 우측 심비골신경의 운동신경전도검사서 복합근활동전위의 진폭이 감소되었고(Table 1), 침근전도검사 소견상 양측 대둔근, 중둔근, 대퇴근막장근, 반막모양근, 전경골근, 장비골근, 비복근, 무지외전근, 단지신근에서 고도의 비정상 자발전위가 관찰되었다(Table 2). 정중신경과 경골신경에서 검사한 체성감각 유발전위는 양측에서 모두 관찰되지 않았다. 이에 본 환자는 양측성 거대 이소성 골화증과 이와 동반된 양측성 천추신경총병증으로 진단되었다. 진단 당시 이소골이 미성숙 상태였으며, 이소골에 의한 신경압박 소견이 저명하지 않아 이소성 골화증에 대해 보존적 치료를 시행하였다.

이소성 골화증 진단 6개월 후 실시한 혈청 알칼리성 포스파타제 수치는 400 IU/L으로 이전에 비해 감소되었다. 추적 전기진단검사서 우측 심비골신경 복합근활동전위의 진폭이 초기검사에 비해 증가되었고(Table

Table 1. The Results of Nerve Conduction Studies

Nerve	Initial study			Follow up study		
	Lat1/Lat2 ¹ (msec)	Amp1/Amp2 ²	Verocity (m/s)	Lat1/Lat2 ¹ (msec)	Amp1/Amp2 ²	Velocity (m/s)
Motor						
Rt. ³ tibial	3.6/11.5	12.9/10.9 mV	46.8	4.1/12.1	14.6/16.3 mV	43.7
Lt. ⁴ tibial	3.5/11.6	12.1/9.8 mV	40.9	5.1/13.6	19.6/18.1 mV	44.7
Rt. ³ deep peroneal	5.2/12.4	0.6/0.5 mV	48.6	4.8/12.9	1.6/1.6 mV	43.2
Lt. ⁴ deep peroneal	3.3/11.2	4.4/3.6 mV	43.6	4.7/13.0	5.2/4.7 mV	42.1
Sensory						
Rt. ³ sural	2.5/-	24 μ V	46.3	2.8/-	17 μ V	48.5
Lt. ⁴ sural	2.6/-	22 μ V	44.0	3.3/-	24 μ V	47.8
Rt. ³ sup. peroneal	2.5/-	13 μ V	44.6	3.0/-	10 μ V	51.8
Lt. ⁴ sup. peroneal	2.4/-	11 μ V	43.4	2.7/-	24 μ V	50.0

1. Lat1/Lat2: Distal & Proximal latencies of compound muscle action potential or sensory nerve action potential, 2. Amp1/Amp2: Distal & Proximal amplitudes of compound muscle action potential or sensory nerve action potential, 3. Rt: Right, 4. Lt: Left

1). 침근전도검사 소견상 비정상 자발전위의 정도가 감소되었으며, 다상성 운동단위활동전위가 관찰되었다

(Table 2). 정확한 신경 압박 유무를 관찰하기 위해 양측 요천추신경총과 좌골신경 주행을 따라 촬영한 골반부

Table 2. The Results of Needle Electromyographic Study

Muscles	Initial study				Follow up study			
	Fibs ¹	PSW ²	Fasci ³	MUAP ⁴ phasicity	Fibs ¹	PSW ²	Fasci ³	MUAP ⁴ phasicity
B ⁵ . low-lumbar	None	None	None	normal	None	None	None	normal
B ⁵ . sacral	None	None	None	normal	None	None	None	normal
B ⁵ . mid-cervical	None	None	None	normal	None	None	None	normal
B ⁵ . low-cervical	None	None	None	normal	None	None	None	normal
Rt. ⁶ gluteus maximus	1+	3+	None	normal	None	1+	None	normal
Lt. ⁷ gluteus maximus	1+	2+	None	normal	None	1+	None	normal
B ⁵ . gluteus medius	1+	2+	None	normal	None	1+	None	normal
B ⁵ . rectus femoris	None	None	None	normal	None	None	None	normal
Rt. ⁶ T.F.L ⁸	2+	3+	None	normal	1+	1+	None	Polyphasic
Lt. ⁷ T.F.L ⁸	2+	2+	None	normal	1+	1+	None	Polyphasic
B ⁵ . semimembranosus	1+	3+	None	normal	1+	2+	None	normal
B ⁵ . tibialis anterior	2+	3+	None	normal	1+	2+	None	Polyphasic
Rt. ⁶ peroneus longus	2+	3+	None	normal	1+	2+	None	Polyphasic
Lt. ⁷ peroneus longus	1+	2+	None	normal	1+	1+	None	normal
Rt. ⁶ gastrocnemius	2+	4+	None	normal	1+	2+	None	Polyphasic
Lt. ⁷ gastrocnemius	2+	3+	None	normal	1+	2+	None	Polyphasic
B ⁵ . abductor halucis	2+	3+	None	normal	1+	2+	None	normal
Rt. ⁶ EDB ⁹	2+	3+	None	normal	1+	2+	None	Polyphasic
Lt. ⁷ EDB ⁹	1+	2+	None	normal	1+	1+	None	normal
B ⁵ . biceps brachii	None	None	None	normal	None	None	None	normal
B ⁵ . FCR ¹⁰	None	None	None	normal	None	None	None	normal
B ⁵ . FCU ¹¹	None	None	None	normal	None	None	None	normal

1. Fibs: Fibrillation potential, 2. PSW: Positive sharp wave, 3. Fasci: Fasciculation potentials, 4. MUAP: Motor unit action potential, 5. B: Bilateral, 6. Rt: Right, 7. Lt: Left, 8. T.F.L: Tensor fascia lata, 9. EDB: Extensor digit brevis, 10. FCR: Flexor carpi radialis, 11. FCU: Flexor carpi ulnaris

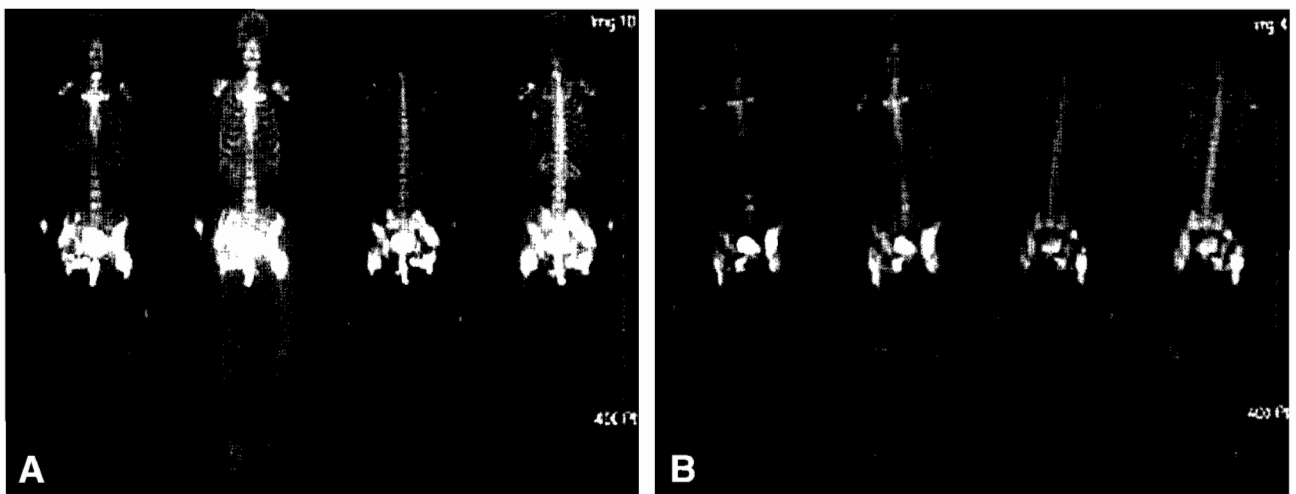


Fig. 1. Whole body bone scan showing hot uptakes on bilateral pelvic areas (A) and decrease in hot uptakes 6 months later (B).

의 자기공명영상에서 마미충, 신경총 및 주위 연부조직의 구조는 정상으로 유지되었다(Fig. 2-B). 추적 골주사 검사에서 양측 골반 이소골 부위의 방사선 동위원소의 섭취는 감소되었다(Fig. 1-B). 비수술적 치료 후 전기생리적 호전 양상을 보이며, 양측 고관절의 신전 구축이 침상 자세 유지를 방해하지 않았고, 하지의 기능적 이용이 어려운 상태로 평가되어 보존적 치료를 계속하였다. 이와 같은 검사 결과를 토대로 양측성 천추신경총병증의 원인에 대해서는 이소골에 의한 포착성 신경총병증보다는 특발성 신경총병증으로 최종 결론지었다.

고 찰

요천추신경총은 요추신경총과 천추신경총으로 나눌 수 있으며, 요추신경총은 제 1-4번 요추신경근의 복측 분지로 구성되어 두가지 큰 줄기인 대퇴신경과 폐쇄신경으로 이어진다. 천추신경총은 제 5번 요추신경근 및 제 1-3번 천추신경근의 복측 분지와 제 4요추 및 제 4 천추신경근에서 기시한 교통지로 구성되며, 양측 둔부로의 작은 신경분지와 인체에서 가장 큰 신경인 좌골신경으로 이어진다.^{3,6}

요천추신경총병증의 초기 임상증상은 통증과 함께 근력약화 또는 감각이상, 심부반사 저하, 하지직거상검사상 거상의 제한 등이 있다. 요천추신경총병변의 진단은 임상소견과 함께 전기진단검사, 자기공명영상, 척수강 조영술 등이 이용되며 전기진단검사가 가장 도움이 되고, 이중 감각 및 운동신경 전도검사와 침근전도검사가 필수적이다.⁶ 부분적 축삭손상의 경우 신경전도검사에서

진폭의 변화가 나타나지 않거나, 신경근병증의 일부에서는 척추주위근의 비정상 자발전위가 나타나지 않을 수 있어 신경근병증과 신경총병증의 감별이 어려울 수도 있다. 신경총병증과 감별해야 할 질환으로는 신경근병변, 마미충증후군, 대퇴신경병변, 좌골신경병변 등이 있다.⁶ 본 증례는 감각신경전도검사서 정상 소견, 그리고 대둔근, 대퇴근막장근의 비정상 자발전위 정도가 좌골신경 지배 근육과 비슷한 수준의 축삭손상 소견 및 추적 검사에서도 모두 일정한 정도의 신경회복 소견을 보여 다발성 근육 손상과 동반된 양측성 좌골신경병변의 가능성은 낮아지며, 요로역동검사상 과반사성 방광, 심부건반사가 항진등의 임상양상과 마미충 부위에서 정상 해부학 구조의 방사선검사 소견, 하지근육의 심한 비정상 자발전위에 비해 정상적인 척추주위근의 침근전도 소견 등을 보여 마미충증후군에 대해 감별하였고, 대퇴신경병변과 요추신경총병증은 대퇴사두근 등에서 비정상 전위를 보이지 않아 감별하였다.

천추신경총병증의 원인에는 특발성, 유전성, 혈관성, 감염성, 공간점유병소, 외상성 질환 등이 있다.⁶ 본 증례는 일반 방사선검사서 요천추와 골반부의 골절소견이나 전산화단층촬영과 자기공명영상 소견상 요천추신경총 부위에서 공간점유병소, 연부조직 손상 및 신경압박 소견이 없고, 검사실 결과와 가족력상 신경총병증을 유발할 특이소견이 없었다. 따라서 양측성 천추신경총병증을 유발할만한 원인을 발견할 수 없었으며, 이소골 제거 없이 시행된 추적 전기진단검사서 천추신경총병증의 호전이 관찰되고, 이학적 검사 등을 고려하여 병발원인을 특발성 천추신경총병증으로 결론지었다. 특발성 요천추신경총병증은 갑자기 발생하는 신경성 동통과 근위축

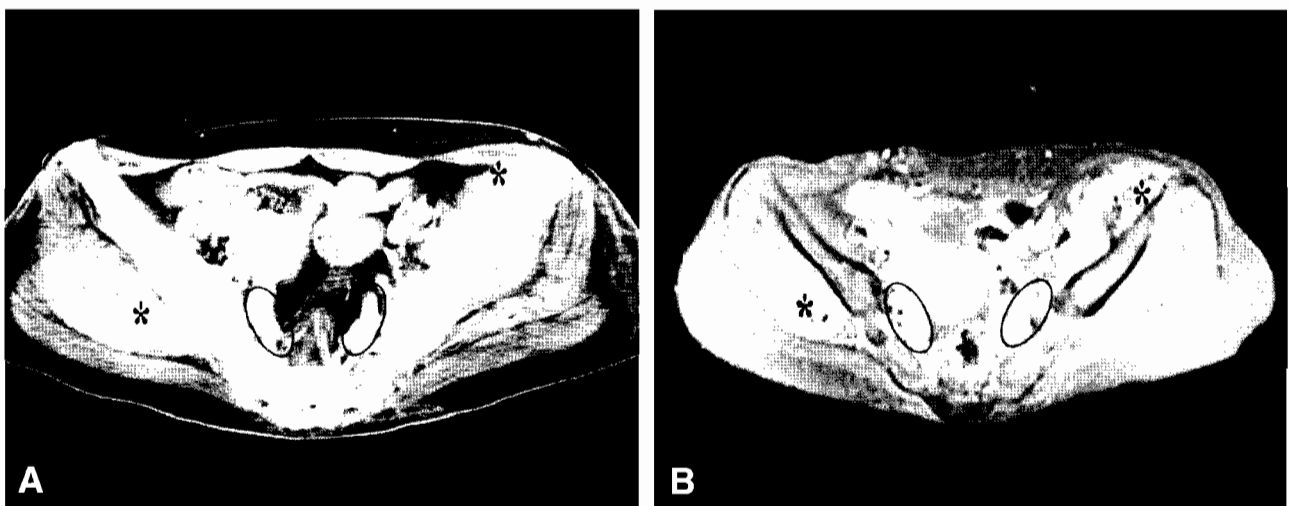


Fig. 2. Pelvic CT showing bilateral huge heterotopic ossifications (*). No evidence of fracture, deep vein thrombosis, or soft tissue swelling (circle) was observed at the time of diagnosis of heterotopic ossification (A). MRI of pelvis and sciatic nerve reveals bilateral huge heterotopic ossifications (*), but soft tissue contour of lumbosacral plexus (circle) was maintained 6 months later (B).

을 동반하여 신경통성 근위축증(neuralgic amyotrophy)이라고도 불리우며, 일반적으로 좋은 경과를 보인다. 병인은 분만, 외상, 수술, 감염 등과 관련이 있고 상완신경총의 경우 34%에서 양측성으로 발생한다.^{6,7}

이소성 골화증에서 압박성 신경손상, 일상생활동작 제한 및 자세유지에 방해를 주는 경우 수술적 처치를 시행하게 되며, Brooke 등⁸은 이소성 골화증에 의한 말초 신경 압박이 있을 경우 수 일내에 심각한 신경손상이 진행하므로 조기에 화골제거술로 좋은 결과를 얻을 수 있다고 하여 압박이 진행되는 이소성 골화증에서 수술의 중요성을 강조하였다.

외상성 뇌손상 환자에서 이소성 골화증은 흔한 합병증이나, 본 증례에서와 같이 양측성으로 거대하게 발생하는 경우는 드물며, 동일 부위에 신경총병증이 병발된 경우 수술을 요하는 포착성 신경총병증과의 감별을 요하므로 이에 대한 세심한 고려가 필요할 것으로 생각된다.

참고문헌

1. Boake C, Francisco GE, Ivanhoe CB, Kothari S: Brain injury rehabilitation. In: BraddomRL, Buschbacher RM, Dumitru D, Johnson EW, Matthews DJ, Sinaki M, editors. Physical medicine and rehabilitation, 2nd ed, Philadelphia: W.B. Saunders, 2000, p 1104
2. Garland DE: Clinical observations on fractures and heterotopic ossification in the spinal cord and traumatic brain injured populations. Clin Orthop 1988; 233: 86-101
3. Adams R, Victor M: Principles of neurology, 5th ed, New York: McGraw-Hill Inc, 1993, pp1161-1163
4. Kemp K, Elfenbaum M: Lumbosacral plexopathy in gunshot wounds and motor vehicle accidents. Am J Phys Med Rehabil 2001; 80: 280-285
5. Isla A, Perez-Lopez C, De Agustin D: Neuritis ossificans of the sciatic nerve. J Neurosurg. 2004; 101 : 545-547
6. Dumitru D: Electrodiagnostic medicine, 2nd ed, Philadelphia: Hanley & Belfus, 2002, pp837-883
7. Van Alfen N, Van Engelen BG: Lumbosacral plexus neuropathy: a case report and review of the literature. Clin Neurol Neurosurg 1997; 99: 138-141
8. Brooke MM, Heard DL, de Lateur BJ, Moeller DA, Alquist AD: Heterotopic ossification and peripheral nerve entrapment: early diagnosis and excision. Arch Phys Med Rehabil 1991; 72: 425-429