

원인 미상의 요추의 유착성 지주막염에 의해 발생한 마미 증후군

전호승[✉] • 황석하 • 서승표 • 김재남

성애병원 정형외과

Cauda Equina Syndrome Occurred by Adhesive Arachnoiditis of the Lumbar Spine with an Unknown Cause

Ho-Seung Jeon, M.D.[✉], Seok-Ha Hwang, M.D., Seung-Pyo Suh, M.D., and Jae-Nam Kim, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Sung-Ae Hospital, Seoul, Korea

Spinal adhesive arachnoiditis is an inflammation and fibrosis of the subarachnoid space and pia mater caused by infection, trauma, spinal vascular anomalies, and iatrogenic (surgery and/or puncture). Adhesive arachnoiditis develops various symptoms and signs (gait disturbances, radiating pain, paralysis, and incontinence). On the other hand, adhesive arachnoiditis associated with cauda equina syndrome has not been reported in Korea until now. The authors experienced cauda equina syndrome caused by adhesive arachnoiditis of the lumbar spine with satisfactory results following decompression. We report this case with a review of the relevant literature.

Key words: lumbar spine, arachnoiditis, cauda equina syndrome, decompression

척추의 지주막염은 지주막하 공간과 연수막의 염증과 섬유화를 일컫고, 이는 중추신경계의 감염, 척추의 외상, 비정상적인 척추의 혈관, 그리고 이전 수술 과거력과 척추로 마취제나 조영제의 주입 등 의인성 요인으로 인해 발생한다.¹⁾ 유착성 지주막염의 증상으로는 척수와 신경근이 압박되어 하지의 통증, 마비, 대소변의 실금 등과 같은 신경학적 증상이 나타날 수 있다.²⁾ 그러나 국내에서는 마미 증후군과 연관된 보고는 아직까지 없다. 저자들은 요추의 유착성 지주막염으로 인해 발생한 마미 증후군에 대하여 수술적 치료를 시행하였으며, 만족스러운 결과를 얻었다. 이에 저자들은 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

62세 남자 환자가 응급실 내원 1일 전 발생한 양 하지의 근력 및 감각 저하가 지속되어 24시간 집에서 경과 관찰하다가 호전이 없고 신경 마비가 점점 악화되어 응급실로 내원하였다. 평소에 허리 통증은 없었고, 과거력상 척추 수술이나 척추에 대한 외상이 없었으며, 기저 질환이 없었고 특별한 약물을 복용한 적도 없었다. 응급실로 내원 당시 양 하지의 족관절 신전력 3등급, 족무지 신전력 및 족관절 굴곡력은 0등급으로 측정되었고, 양 하지의 제5 요추 및 제1 천추의 감각 지배 영역에 감각 저하가 관찰되었으며, 슬개건 반사 및 족관절 반사는 저하되어 있었다. 또한 항문 주위 감각과 구해면체 반사는 감소되어 대변 및 소변 조절이 되지 않고 있었다.

입원 시 시행한 혈액학적 검사상 백혈구 11,400/ μ l (정상치, 4,000–10,000/ μ l)로 정상보다 약간 상승해 있었고, 적혈구 침강 속도는 9 mm/h (정상치, 0–10 mm/h), C-반응성 단백질은 0.488 mg/dl (정상치, 0.5–1.0 mg/dl)로 정상 수치였다. 열이나 호흡기 증상,

Received June 27, 2018 Revised August 13, 2018 Accepted August 31, 2018

[✉]Correspondence to: Ho-Seung Jeon, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Sung-Ae Hospital, 22 Yeouidaebang-ro 53-gil, Yeongdeungpo-gu, Seoul 07354, Korea

TEL: +82-2-840-7231 FAX: +82-2-840-7755 E-mail: j9422hs@hanmail.net

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0172-9923>

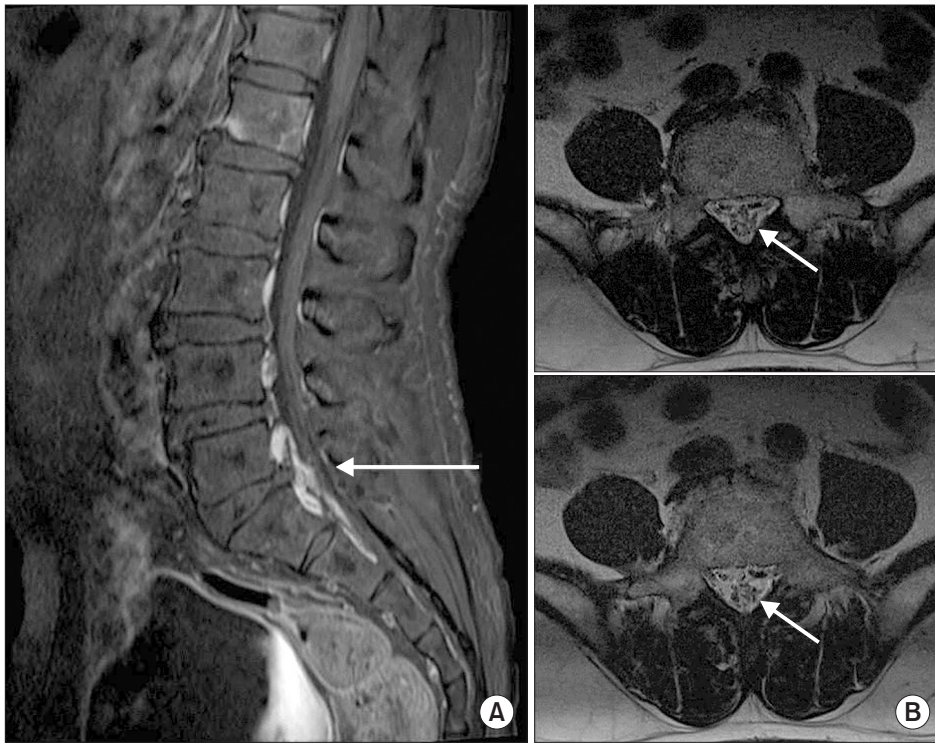


Figure 1. Preoperative magnetic resonance imagings (MRIs) show adhesive arachnoiditis. (A) Gadolinium-enhanced T1-weighted sagittal MRI shows dural enhancement from the L4-5 disc space level to the S2 level (arrow). (B) T2-weighted axial MRIs show clumping of the nerve roots (arrows).

감염 증상은 없었고, 단순 방사선 촬영에서 특별한 소견은 없었다. 마미 증후군을 의심하여 시행한 자기공명영상에서 제5 요추에서 제2 천추까지 지주막에 신경근이 군집되어 있고, 경막이 두꺼워진 소견이 관찰되어 유착성 지주막염으로 진단하였으며(Fig. 1), 급성 마미 증후군 소견을 보여 응급수술을 시행하였다. 수술 소견에서 경막은 창백하였으며, 맥박이 없었고, 주변으로 연부조직의 심한 유착 및 이로 인하여 마미 신경근들이 압박되어 있었다. 신경근에 유착된 조직을 모두 박리하였으며(Fig. 2A), 유착 박리술을 시행한 직후 경막의 색깔이 정상적으로 돌아왔고, 경막의 맥박도 호전되었다(Fig. 2B). 감염의 소견은 관찰되지 않았고, 결핵 및 세균 배양 검사에서도 음성이었다. 수술 시 제거한 조직검사에서 석회화가 동반된 만성 염증 소견이 섬유 조직에서 발견되었고(Fig. 3), 수술 직후 양 하지의 족관절 신전력 3등급, 족무지 신전력 1등급, 족관절 굴곡력 2등급이었다. 양 하지 제5 요추와 제1 천추의 피부 분절로 감각 저하는 약간 회복되었고, 심부 슬개건 반사 및 아킬레스 건 반사는 +1, 항문 주위 감각과 구해면체 반사는 아직 감소되어 있었다. 수술 후에는 3세대 세팔로스포린과 반코마이신을 투여하였다. 수술 5일 후 자기공명영상을 시행하였고, 신경 압박은 잘 되었으나 부종 소견이 아직 관찰되었으며, C-반응성 단백질은 5.021 mg/dl (정상치, 0.5-1.0 mg/dl)까지 상승하였지만, 수술 14일 후에는 점차 정상 수치로 회복되었다. 진찰 소견에서 족관절 신전력 4등급으로, 족무지 신전력 2등급, 족관절 굴곡력 4등급으로 호전되었고, 양 하지의 제5 요추와 제1 천추의 신경근 지배 영역의 감각은 정상으로 회복되었으며, 항문 주위

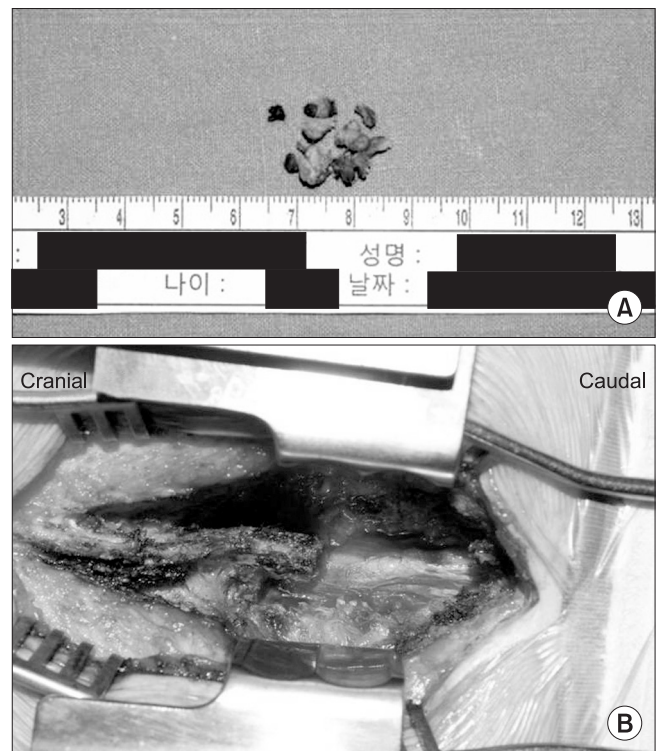


Figure 2. Intraoperative photographs. (A) Fibrous tissue fragments removed from adhesive arachnoiditis. (B) Severe adhesion of the soft tissue and pale dura were resolved after decompression and laminectomy at the L5/S1/2 level.

감각과 구해면체 반사도 회복되었다. 수술 1달 후에 시행한 자기 공명영상에서 마미 증후군을 일으켰던 유착성 지주막염의 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 4). 환자는 증상이 호전되어 퇴원하여 적극적인 재활 치료를 시행하였다. 수술 후 6개월간의 추적 관찰 결과 환자는 양측 족관절 신전력, 굴곡력 및 족무지 신전력이 모두

4등급으로 보행에 약간의 불편을 호소하지만 보행 보조기의 도움 없이도 보행할 수 있었다.

고 찰

지주막염은 지주막하 공간과 연수막의 섬유모 세포의 증식과 콜라겐의 침착으로 염증 반응 및 신경근을 눌러 증상을 발현시킨다고 알려져 있다.¹⁾ Augustijn 등²⁾은 지주막염의 증상이 나타나는 기전을 주로 신경근의 포착이나 척수로 가는 혈류의 장애로 인한 척수의 위축 등으로 설명하였고, 이로 인해 발생하는 하지의 통증, 마비, 대소변의 실금 등과 같은 신경학적 증상을 보고하였다. 지주막염으로 인해 발생한 마미 증후군의 원인은 감염, 외상, 혈관의 이상, 지주막하 출혈, 반복적인 척추 시술, 그리고 척추 지주막염의 가족력 등이 있지만³⁾ 본 증례에서는 이러한 선행 질환이나 기왕력 없이 발생하였다. Quiles 등⁴⁾에 따르면 지주막염은 장액성 막 표면, 복막, 심낭 및 늑막과 유사하여 손상으로부터 회복되는 형태로는 혈관이 많지 않으며, 백혈구가 아닌 대식 세포, 섬유 용해성 효소들로 면역활동을 하여 지주막과 신경근을 섬유소가 에워싸고, 치유 과정에서 이들이 군집되고 유착되어 유착성 지주막염이 발생한다고 주장하였다. 하지만 Bourne⁵⁾는 마미 증후군이 발생한 130예 중에 2예에서 어떠한 기저 질환도 없는 사람에게 발생한 지주막염에 대한 통계를 발표하였다. 본 증례에서도

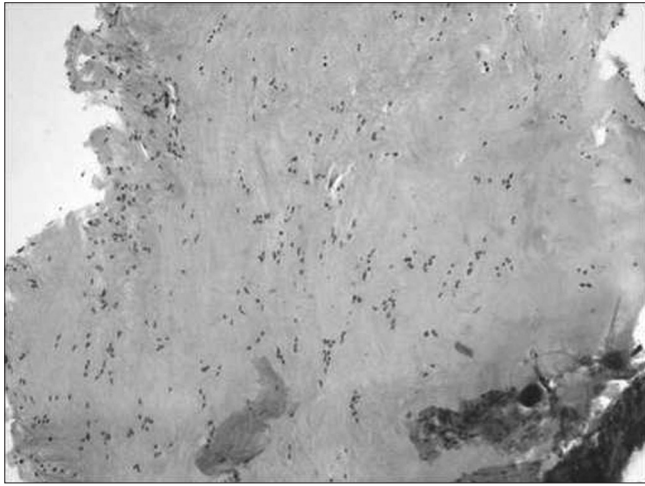


Figure 3. Microscopic examination of dense fibrous tissue from adhesive arachnoiditis shows mild chronic inflammation with calcification (H&E, ×40).

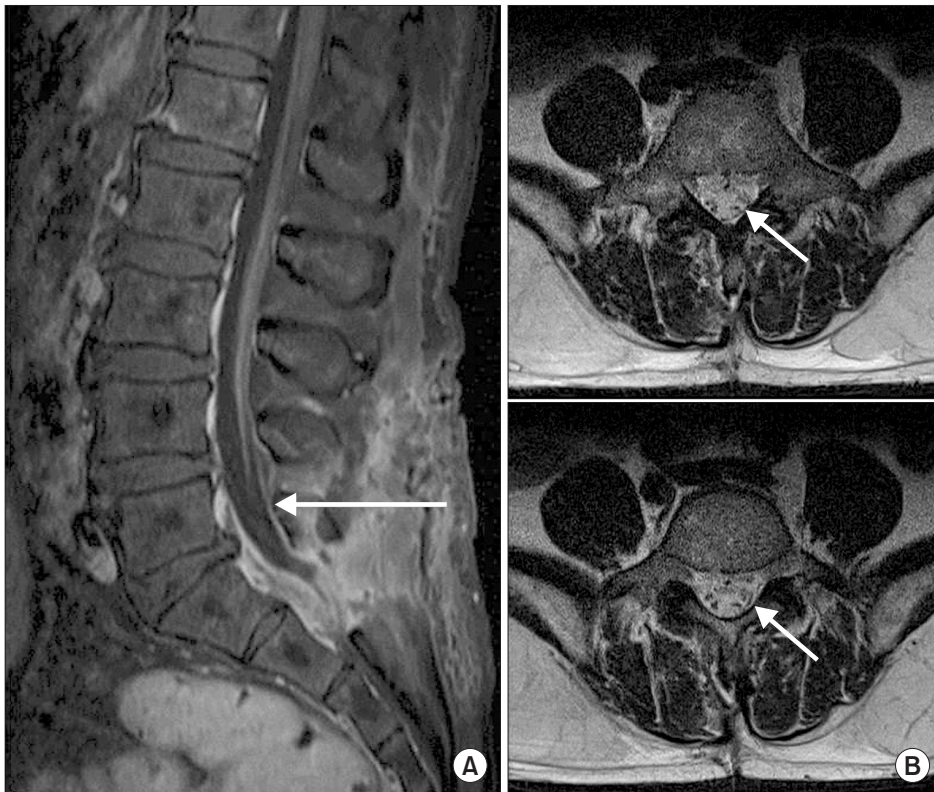


Figure 4. One month later, follow-up magnetic resonance imaging (MRIs). (A) Gadolinium-enhanced T1-weighted sagittal MRI shows no more dural enhancement (arrows). (B) T2-weighted axial MRIs show resolved clumping nerve roots (arrows).

특별한 과거력 없이 유착성 지주막염이 발생하였으며, 전술한 기전으로 인해 경막 내 압력이 증가하였고 신경근의 포착과 척수로 가는 혈류의 장애가 발생하여 마미 증후군이 발생하였다고 생각되었으며, 유착 박리 등 감압술을 시행한 후에 증상이 호전되었다고 생각된다. Bilgen 등⁶⁾은 자기공명영상이나 컴퓨터 단층촬영 검사가 지주막염 및 마미 증후군의 원인을 감별하는 데 신뢰할 만한 검사라고 하였으며, 공간 점유 병소가 없고, 신경근이 군집되어 있는 소견 등이 지주막낭에 발생한 유착성 지주막염 환자의 전형적인 자기공명영상이라고 주장하였다. Delamarter 등⁷⁾은 3군의 지주막염 환자군 중 자기공명영상에서 건초낭 내 중심부에 신경근이 모이게 되어 커다란 종괴 모양을 형성하고, 경막이 두껍지 않으며, T1 강조 영상에서 신경근은 연부조직의 신호 강도와 비슷하게 관찰되었고, T2 강조 영상에서는 척수액의 신호 강도와 같이 군집된 신경근이 관찰된다고 하였다. 이러한 영상 소견은 본 증례에서도 관찰되었기에 유착성 지주막염으로 저자들은 진단할 수 있었다. Petty 등⁸⁾에 따르면 지주막염이 영상의학적으로나 병리학적으로 진단이 가능한 질환이지만 특정한 증상만을 가지고 진단 내릴 수는 없으며, 영상에서는 관찰되지만 증상이 없을 수 있다고 하였다. 이러한 유착성 지주막염의 치료에 대하여 Faure 등³⁾은 수술적 치료로 인해 지주막염이 재발할 수 있어 우선적으로 보존적 치료를 권장하지만 마미 증후군이 동반된 지주막염은 뇌 척수액의 흐름을 좋게 하기 위해 척추 후궁 절제술과 연부 지주막염의 제거술을 권장하였다. 본 증례에서도 특별한 외상력, 가족력 및 척추에 대한 수술력 등이 없이 유착성 지주막염으로 인해 마미 증후군이 발생하였으며, 심각한 하지의 근력 저하와 감각 저하, 그리고 항문 주위 감각과 구해면체 반사가 소실되고, 자기공명영상에서 군집되어 있는 신경근 조직들이 관찰되어 자발성 지주막염으로 인한 마미 증후군으로 진단하였으며, 응급 수술을 시행하여 신경학적 증상이 극적으로 회복되었다. 저자들은 이 증례를 통하여 급성 마미 증후군의 다양한 원인 중의 하나로 공간 점유 병소나 급성 감염성 질환뿐만 아니라 유착성 지주막염으로도 발생이 가능하다는 것을 경험하였으며, 수술적 치료를 시행하여 만족스러운 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

CONFLICTS OF INTEREST

The authors have nothing to disclose.

REFERENCES

1. Whetstone KE, Crane DA. Cauda equina syndrome resulting from lumbar arachnoiditis after intracranial subarachnoid hemorrhage: a case report. *PM R*. 2013;5:539-41.
2. Augustijn P, Vanneste J, Davies G. Chronic spinal arachnoiditis following intracranial subarachnoid haemorrhage. *Clin Neurol Neurosurg*. 1989;91:347-50.
3. Faure A, Khalfallah M, Perrouin-Verbe B, et al. Arachnoiditis ossificans of the cauda equina. Case report and review of the literature. *J Neurosurg*. 2002;97:239-43.
4. Quiles M, Marchisello PJ, Tsairis P. Lumbar adhesive arachnoiditis. Etiologic and pathologic aspects. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1978;3:45-50.
5. Bourne IH. Lumbo-sacral adhesive arachnoiditis: a review. *J R Soc Med*. 1990;83:262-5.
6. Bilgen IG, Yuntun N, Ustun EE, Oksel F, Gumusdis G. Adhesive arachnoiditis causing cauda equina syndrome in ankylosing spondylitis: CT and MRI demonstration of dural calcification and a dorsal dural diverticulum. *Neuroradiology*. 1999;41:508-11.
7. Delamarter RB, Ross JS, Masaryk TJ, Modic MT, Bohlman HH. Diagnosis of lumbar arachnoiditis by magnetic resonance imaging. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1990;15:304-10.
8. Petty PG, Hudgson P, Hare WS. Symptomatic lumbar spinal arachnoiditis: fact or fallacy? *J Clin Neurosci*. 2000;7:395-9.

원인 미상의 요추의 유착성 지주막염에 의해 발생한 마미 증후군

전호승[✉] • 황석하 • 서승표 • 김재남

성애병원 정형외과

유착성 지주막염은 지주막하 공간과 연수막의 염증과 섬유화를 의미하며, 이는 심한 진행성 병변으로 대부분의 경우 중추신경계의 감염, 척추의 외상, 척추 혈관의 비정상, 이전 수술 과거력과 척추로 마취제나 조영제의 주입 등 대부분 척추에 대한 손상에 의하여 발생한다. 척수와 신경근이 압박되어 보행장애, 하지의 방사통증, 마비, 대소변의 실금 등과 같은 신경학적 증상이 나타날 수 있다. 그러나 유착성 지주막염으로 인하여 발생한 마미 증후군에 대한 보고는 아직까지 국내에서는 없었다. 저자들은 명확한 원인을 찾을 수 없었던 요추의 유착성 지주막염으로 인하여 발생한 마미 증후군 1예의 환자에 대하여 감압술을 시행하였으며 만족스러운 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

색인단어: 요추, 지주막염, 마미 증후군, 감압술

접수일 2018년 6월 27일 수정일 2018년 8월 13일 게재확정일 2018년 8월 31일

[✉]책임저자 전호승

07354, 서울시 영등포구 여의대방로53길 22, 성애병원 정형외과

TEL 02-840-7231, FAX 02-840-7755, E-mail j9422hs@hanmail.net, ORCID <https://orcid.org/0000-0002-0172-9923>