

강직척추염에 동반된 반지모뿔관절염 1예

왈레스 기념 침례병원 내과

임주건 · 곽성동 · 박재영 · 천재홍 · 최성열 · 이충원

= Abstract =

A Case of Ankylosing Spondylitis with Cricoarytenoid Arthritis

Ju Kyeon Yim, Sung Dong Kwak, Jae Young Park, Jae Hong Cheon,
Sung Yeol Choi, Choong Won Lee

Department of Internal Medicine, Wallace Memorial Baptist Hospital, Busan, Korea

The cricoarytenoid joint is a diarthrodial synovial joint and it can be affected by various diseases. The etiology includes infectious, rheumatic and degenerative diseases. Cricoarytenoid arthritis that's caused by rheumatoid arthritis is the most well known, yet cricoarytenoid arthritis that's caused by ankylosing spondylitis is very rare. Hoarseness, dysphagia, throat discomfort, dyspnea and dyspnea on exertion are the major symptoms. If there was no severe airway obstruction, this condition can be managed by systemic steroid or intraarticular steroid injection. We experienced a case of a 47 years old man with ankylosing spondylitis and he presented with hoarseness, dyspnea on exertion and dysphagia. He was finally diagnosed with cricoarytenoid arthritis and he improved after etanercept administration. So we report here on this case along with a review of relevant literature.

Key Words: Spondylitis, Ankylosing, Arthritis, Cricoarytenoid, Etanercept

서론

반지모뿔관절(Cricoarytenoid joint)은 가동 윤활관절

(diarthrodial synovial joint)로 외상, 류마티스 질환, 감염 등 다양한 질환에 의해 이환될 수 있다 (1). 그 중 류마티스관절염으로 인한 반지모뿔관절염이 가장 잘 알려져 있다. 그러나 강직척추염으로 인한 반지

<접수일 : 2009년 3월 18일, 수정일 : 2009년 4월 13일, 심사통과일 : 2009년 4월 13일>

※통신저자 : 이 충 원

부산시 금정구 남산동 374-75

왈레스 기념 침례병원 내과

Tel : 051) 580-1257, Fax : 051) 580-1048, E-mail : choong@wmbh.co.kr

모뿔관절염은 매우 드물다 (2-7). 증상은 쉼 목소리, 호흡곤란, 호흡 시 잡음, 연하곤란 등이 나타나며 인후부의 발적, 부종, 변형, 성대의 운동장애 등이 있고, 치료는 응급상황이 아닌 경우 전신적 스테로이드, 관절강 내 스테로이드 주사 등으로 치료 하고 기도 폐쇄의 응급상황에서는 기관창삽술, 모뿔관절 절제술(arytenoidectomy) 등으로 치료하였다. 저자들은 강직척추염으로 진단 된 49세 남자 환자에서 쉼 목소리, 운동 시 호흡곤란, 연하곤란 등의 증상이 동반되어 후두의 부종, 발적, 성대의 경도의 운동장애와 골 스캔 상 우측 후두의 섭취 증가로 반지모뿔관절염으로 진단 후 etanercept로 치료하여 경도의 호전을 보인 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

환 자: 49세 남자

주 소: 하부 요통

현병력: 2년 전부터 하부 요통 및 1시간 30분 정도의 조조강직이 시작되었고 요통이 점차 악화되고 1년 전부터 쉼 목소리, 운동 시 호흡곤란 및 호흡 잡음, 연하곤란이 서서히 진행되었으며 타 병원에서 2개월전 강직척추염으로 진단하여 sulfasalazine, triamcinolone, Ultracet[®]으로 치료 하다가 요통의 호전 없어 본원 내원함.

과거력: 8년 전 눈대상포진으로 좌안의 시력장애가 있었다.

사회력: 10갑년의 흡연력 있었으나 20년 전부터 금연 중이다.

가족력: 특이소견 없었다.

진찰 소견: 내원 당시 혈압은 140/90 mmHg, 맥박 84회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.8°C였다. 흉부 및 복부의 진찰에서는 특별한 소견 없었다. 후두 부위의 압통은 없었고 갑상선은 커져 있지 않았으며 경부의 종물은 만져지지 않았다. 쇼버(Schober) 검사는 2.5 cm (신전시 15 cm → 굴곡시 17.5 cm), 흉곽확장은 2 cm (호기시 88 cm → 흡기시 90 cm), 패트릭(Patrick) 검사는 양성이었다.

검사 소견: 말초혈액 검사는 백혈구 6,500/mm³, 혈색소 13.2 g/dL, 혈소판 375,000/mm³, 적혈구침강속도

는 92 mm/hr였다. 혈청 생화학 검사에서 CRP 2.94 mg/dL, AST 17 IU/L, ALT 12 IU/L, alkaline phosphatase 384 IU/L, 총 단백질 8.1 g/dL, 알부민 4.5 g/dL, BUN 10.8 mg/dL, creatinine 0.8 mg/dL, TSH 1.31 IU/mL였고 소변 검사에서 특별한 소견은 없었다. 면역학적 검사에서 류마티스인자 0.9 IU/mL, ANA는 음성이었고 유전자 검사에서 HLA-B27 음성이었다.

방사선학적 소견: 흉부 단순 방사선 검사는 정상이었다. 경부 단순 촬영은 후두개의 아래쪽으로 처지는 변형을 보였다(그림 1). 골반 단순 방사선검사에서 grade 2의 엉치엉덩관절염이 양측에 있었다(그림 2A). 골반 전산화 단층촬영 소견은 grade 2의 엉치엉덩관절염을 보였다. 척추의 자기공명영상검사는 흉추의 다발성의 Schmor 결절, 추간관의 변형과 일부의 돌출이 있었으며 척추 몸체부 종말판에 조영증강이 보여 강직척추염이 의심되는 소견을 보였다(그림 2B).

골 스캔 소견: 양측 엉치엉덩관절과 경추, 흉추, 흉골에 다발성의 섭취가 있었다. 우측 후두부에 섭취 증가가 관찰되었다(그림 3).

폐활량 검사: FVC 2.82 L (예상치의 68%), FEV1 0.84 L (예상치의 26%), FEV1/FVC 30%로 심한 기도 폐쇄 소견을 보였다.



Fig. 1. Lateral neck X-ray showed downward displacement of the epiglottis (circle).

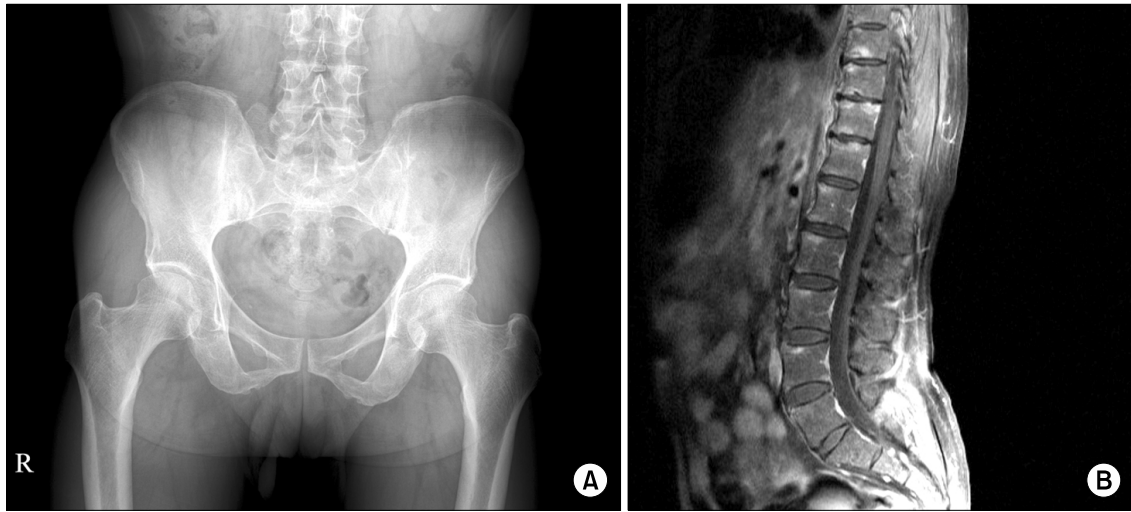


Fig. 2. (A) Normal position pelvis X-ray showed bilateral sacroiliitis (grade 2). (B) Multiple post-contrast enhancements along the endplate of the vertebral bodies are shown on TL-spine MRI.

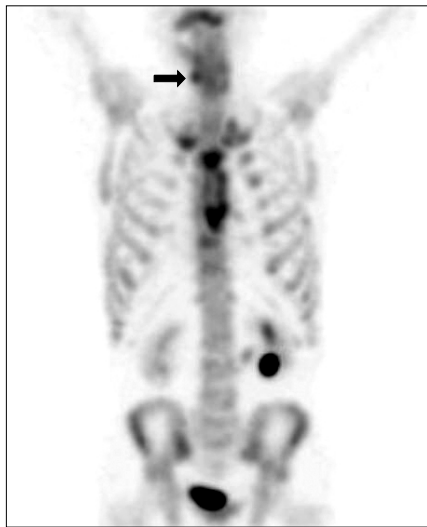


Fig. 3. There was increased uptake at the anterior neck (arrow), C and T-spines, sternum, and both SI joints on bone spect scan.

내시경 소견: 후두개의 부종과 후두의 발적이 있었고 성대는 정도의 운동제한을 보였다(그림 4).

치료 및 경과: 쉼 목소리, 운동 시 호흡곤란, 후두 부위의 부종과 발적, 성대의 운동장애, 단순촬영 상 후두의 변형, 골스캔 상의 후두 부위의 섭취증가, 폐

활량 검사상 기도 폐쇄 소견으로 반지모뿔관절염으로 진단하였다. 진단시 BASDAI 점수는 4.8이었고 sulfasalazine, aceclofenac, methylprednisolone (4 mg/일)로 치료 시작하였다. 반지모뿔관절염은 응급 치료를 필요로 하는 기도 폐쇄의 소견이 없어 강직척추염에 대한 약제를 투여하며 경과 관찰하기로 하였다. 약물 치료에도 불구하고 요통이 지속되고 쉼 목소리와 운동시 호흡곤란이 호전 되지 않았고 5개월 후 ESR 76 mm/hr, CRP 2.51 mg/dL, FEV1은 0.66 L (예상치의 22.17%), BASDAI 점수가 9로 악화되어 methylprednisolone은 그대로 투여하고 sulfasalazine과 aceclofenac은 중단 후 결핵 피부단자 시험상 음성 보여 etanercept 25 mg을 주 2회 피하주사 하였다. 이후 척추 증상은 점차 호전 보여 3개월 후에는 BASDAI 점수가 7.3점, ESR 72 mm/hr, CRP 0.43 mg/dL로 호전되었다. 쉼 목소리 및 운동 호흡곤란은 변화가 없었다. Etanercept로 강직척추염이 호전되는 것으로 판단하고 계속 투여하였고 투여 8개월 후 FEV1이 0.58 L (예상치의 19.48%)로 악화되었으나 반지모뿔관절염은 치료가 필요할 정도의 기도 폐쇄 증상이 없어 계속 경과 관찰하기로 하였다. BASDAI 점수는 점차 호전 되었으며 14개월 후 마지막 평가에서 3.8을 보였다. 쉼 목소리와 운동 시 호흡곤란도 15개월 후부터는 호전되었고 이때 검사한 폐활량 검사는

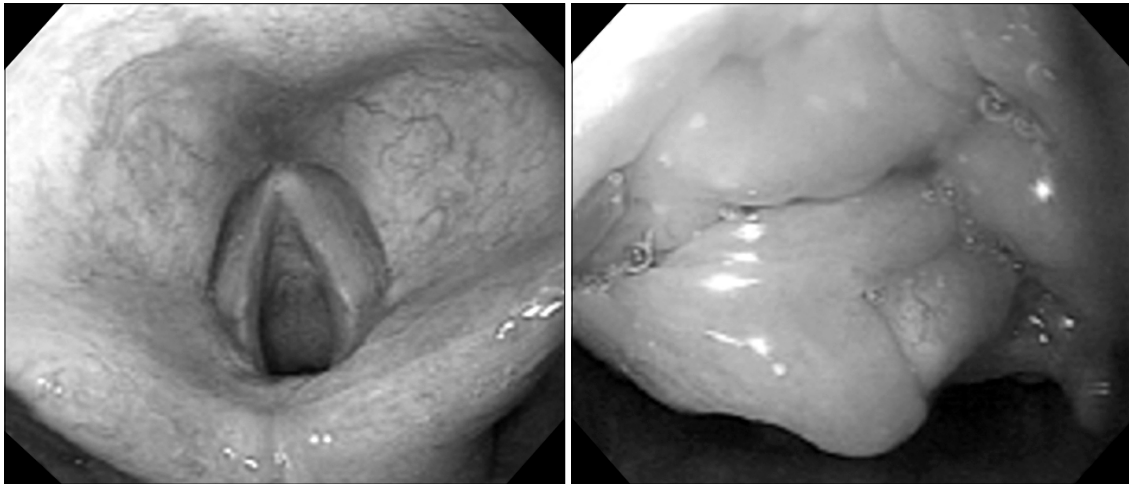


Fig. 4. Epiglottitis and larynx were swollen and erythematous. Movement of the vocal cords was decreased.

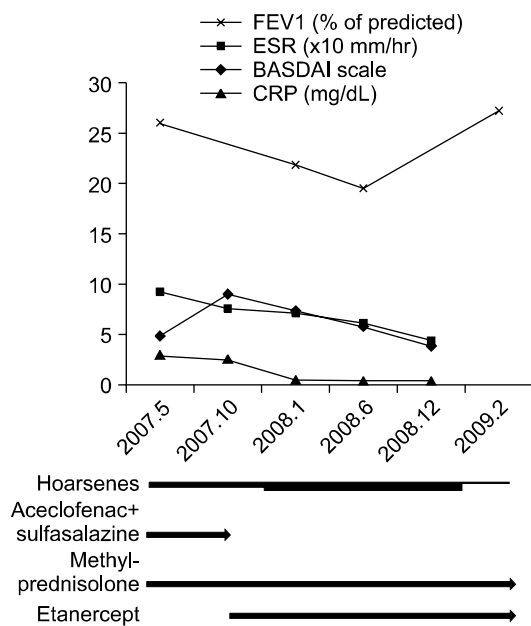


Fig. 5. The clinical parameters and therapeutic modalities are summarized.

FEV1 0.81 L (예상치의 27.3%)로 정도의 호전을 보 였다(그림 5). Etanercept와 methylprednisolone 4 mg/일 로 계속 치료 하며 외래 경과 추적 중에 있다.

고 찰

반지모뿔관절염은 가동 윤활관절로 침범하는 질환들 은 외상, gonococcus, diphtheria, 결핵과 같은 감염성 질환, 류마티스관절염, Reiter 증후군, 전신홍반루푸 스, 통풍, 강직척추염, Tietz 증후군과 같은 류마티스 질환, 골관절염 등이 있다 (1). 특히 류마티스관절염 에 의한 반지모뿔관절염은 잘 알려져 있는데 류마티 스관절염 환자의 32~75% 정도에서 후두경 검사로 진단이 되며 부검을 통한 연구에서는 45~86%의 환 자에서 발견이 되었다 (8-12). 높은 유병률에도 불구 하고 임상적 의미가 있는 반지모뿔관절염은 드문 편 이다.

강직척추염에 의한 반지모뿔관절염은 매우 드물게 발생하는 것으로 추측되어지고 전 세계적으로 단 7 예만이 보고되어 있어 정확한 양상에 대해서는 알려 진 바가 없다 (2-7). 류마티스 질환에 의해 나타나는 반지모뿔관절염들이 유사한 양상을 보여 강직척추염 에 의한 경우도 유사할 것으로 추측해 볼 뿐이다.

반지모뿔관절염이 강직척추염의 첫 증상으로 발현 한 1예를 제외하고는 평균 26.5년(11~54년)의 강직 척추염의 유병기간 후 증상이 발생하여 장기간의 심 한 질환을 가진 환자에서 발생하였다. 보고된 증례 들에서의 증상은 다른 질환에서 발생한 반지모뿔관 절염과 유사하여 호흡곤란 및 운동시 호흡곤란, 선

목소리, 호흡 시 잡음, 연하곤란, 기침, 목이 막히는 듯한 느낌, 목의 통증이나 불편감 등이 있었다. 검사 소견으로는 갑상연골 주변의 압통, 반지모뿔관절 주변의 부종과 발적, 성대의 편측 혹은 양측의 운동 장애나 고정을 보였으며 심한 임상경과를 보였던 한 증례에서는 모뿔연골(arytenoid cartilage) 주변으로 점막 궤양을 보이기도 했다 (6).

반지모뿔관절염의 만성기에는 후두경 검사에서 정상일 수 있기 때문에 주의 깊은 검사가 필요하며 폐기능 검사가 기능적인 장애와 진행을 추적하는데 도움을 줄 수 있다 (1,13). 일반적으로 고정 혹은 가변성 흉곽 외 상기도의 폐쇄 소견을 보인다 (13). 보고된 증례 중 1예에서는 모뿔연골절제술 후 폐활량 검사를 하였고 상기도의 폐쇄 소견이 있음을 보여 주었다 (5). 본 증례에서는 장기간의 쉼 목소리, 운동 시 호흡곤란과 연하곤란을 보여 반지모뿔관절염의 가능성을 의심하여 내시경을 통해 후두와 후두개 전반의 발적 및 부종, 성대의 움직임이 정도로 감소되어 있는 것을 확인하였다. 좀 더 명확한 진단을 위해 경부 측면 단층촬영에서 후두의 변화, 골스캔에서 우측 후두 주변의 섭취 증가, 폐활량 검사에서 기도폐쇄 소견을 참고 하였으며 만성기로 생각하여 폐활량 검사를 경과 추적에 이용하였다.

류마티스관절염에서 반지모뿔관절염의 치료는 정도의 질환에서는 고용량의 스테로이드를 전신적으로 투여하거나 국소적으로 관절강내로 주사하여 치료하고 심한 경우에는 기관창냄술이나 모뿔연골절제술과 같은 수술적 치료를 한다 (1). 강직척추염에서는 스테로이드 치료가 효과는 확실하지 않으나 반지모뿔관절염의 경우에는 류마티스관절염에서 유사한 방법을 사용할 수 있을 것으로 생각된다. 보고된 증례 중 2예에서는 전신적으로 (4,6) 다른 2예에서는 관절강내로 (2,7) 스테로이드를 투여하여 임상적 호전을 보였고 3증례에서는 심한 증상으로 수술적 치료를 하였다 (2,3,5). 스테로이드를 투여한 경우 재발이 잦았으며 한 증례에서는 폐렴으로 사망하였다 (6).

TNF- α (Tumor necrosis factor- α) 억제제는 강직척추염의 치료에서 이미 효과가 입증되었고 척추뿐 아니라 기타 관절에서도 증상의 호전을 보였다 (14). 본 증례에서 스테로이드, 비스테로이드성 항염제와 sulfasalazine으로 치료한 6개월 동안에는 강직척추염

의 증상, FEV1과 쉼 목소리의 호전이 없었으나 etanercept 투여 후 약 3개월부터 강직척추염의 증상이 좋아지고 15개월 정도 지나면서 FEV1과 쉼 목소리의 호전을 보였다. Etanercept에 의해서 강직척추염의 경과가 호전 되면서 반지모뿔관절염이 같이 좋아진 것으로 추측해 볼 수 있으나 이에 대한 연구가 없어 자연경과에 의한 것인지 약제에 의한 것인지는 명확하지 않다.

반지모뿔관절염은 후두 증상이 없는 류마티스관절염 환자에서도 주의 깊은 검사로 발견이 되는 경우가 많은 것처럼 강직척추염에서도 추측하는 것 보다 많은 환자에서 이환되어 있을 가능성이 있어 보인다. 따라서 쉼 목소리, 후두부 불편감 등 경미한 후두 증상을 보이는 환자들에게서 반지모뿔관절염을 염두해 두고 접근해야 할 것으로 생각된다.

요 약

반지모뿔관절염은 다양한 질환에 의해 발생할 수 있으며 쉼 목소리, 호흡곤란, 연하곤란, 호흡시 잡음, 목의 불편감 등의 증상이 나타나고 후두부의 발적, 부종, 변형, 성대의 운동제한 혹은 마비 등으로 진단할 수 있다. 강직척추염에 의한 반지모뿔관절염은 매우 드물게 보고되어 있고 임상양상과 치료는 보고에 따라 다양하였다. 저자들은 49세 남자 강직척추염 환자에서 쉼 목소리, 운동시 호흡곤란, 연하곤란 등을 호소하여 반지모뿔관절염으로 진단하여 etanercept로 치료 후 정도의 호전을 보인 증례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

- 1) Leicht MJ, Harrington TM, Davis DE. Cricoarytenoid arthritis: a cause of laryngeal obstruction. Ann Emerg Med 1987;16:885-8.
- 2) Berendes J, Miehke A. A rare ankylosis of the cricoarytenoid joints. Arch Otolaryngol 1973;98:63-5.
- 3) Wojtulewski JA, Sturrock RD, Branfoot AC, Hart FD. Cricoarytenoid arthritis in ankylosing spondylitis. Br Med J 1973;3:145-6.
- 4) Bienenstock H, Lanyi VF. Cricoarytenoid arthritis in a patient with ankylosing spondylitis. Arch Otolary

- ngo 1977;103:738-9.
- 5) Libby DM, Schley WS, Smith JP. Cricoarytenoid arthritis in ankylosing spondylitis. A cause of acute respiratory failure and cor pulmonale. *Chest* 1981;80: 641-2.
 - 6) Helfgott SM, Treseler PA. Cricoarytenoid synovitis in ankylosing spondylitis. *Arthritis Rheum* 1990;33:604-5.
 - 7) Miller FR, Wanamaker JR, Hicks DM, Tucker HM. Cricoarytenoid arthritis and ankylosing spondylitis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;120:214-6.
 - 8) Lawry GV, Finerman ML, Hanafee WN, Mancuso AA, Fan PT, Bluestone R. Laryngeal involvement in rheumatoid arthritis. A clinical, laryngoscopic, and computerized tomographic study. *Arthritis Rheum* 1984;27:873-82.
 - 9) Brazeau-Lamontagne L, Charlin B, Levesque RY, Lusier A. Cricoarytenoiditis: CT assessment in rheumatoid arthritis. *Radiology* 1986;158:463-6.
 - 10) Bienestock H, Ehrlich GE, Freyberg RH. Rheumatoid arthritis of the cricoarytenoid joint: a clinicopathologic study. *Arthritis Rheum* 1963;6:48-63.
 - 11) Grossman A, Martin JR, Root HS. Rheumatoid arthritis of the cricoarytenoid joint. *Laryngoscope* 1961; 71:530-44.
 - 12) Lofgren RH, Montgomery WW. Incidence of laryngeal involvement in rheumatoid arthritis. *N Engl J Med* 1962;267:193-5.
 - 13) Lynch JP III, Quint LE. Tracheobronchial and esophageal manifestation of systemic disease. In: Cummings CW, Fredrickson JM, Harker LA, Kraus CJ, Richardson MA, Schuller DE, eds. *Otolaryngology head and neck surgery*. 3rd ed. p. 2343-5, Missouri, Mosby, 1998.
 - 14) Choi CB, Kim TJ, Park HJ, Uhm WS, Jun JB, Bae SC, et al. Safety and clinical responses in ankylosing spondylitis after three months of etanercept therapy. *J Korean Med Sci* 2008;23:852-6.
-