

원발성 담관암의 척추전이를 동반한 강직성척추염 환자 1예

한양대학교 의과대학 내과학교실, 류마티스병원 류마티스내과

손일웅 · 방소영 · 김 담 · 김태환

= Abstract =

A Case of Ankylosing Spondylitis with Spinal Metastasis of Cholangiocarcinoma

Il Woong Sohn, So Young Bang, Dam Kim, Tae Hwan Kim

Division of Rheumatology, Department of Internal Medicine, The Hospital for Rheumatic Disease, Hanyang University College of Medicine, Seoul, Korea

Back pain is the most common symptom of ankylosing spondylitis (AS). The aggravation of back pain in AS patients is usually thought to be a flare-up of the disease activity. We report here on the case of a 31-year-old AS patient with low back pain. The lesions of this patient were unexpectedly diagnosed as metastatic spinal tumor due to cholangiocarcinoma. In a patient with AS, an acute aggravation of low back pain may be due to other pathologic conditions such as osteoporotic vertebral fracture, vertebral discitis and metastatic bone disease. Therefore, when a patient with AS presents with nonspecific low back pain, a physician should consider the above mentioned conditions.

Key Words: Ankylosing spondylitis, Cholangiocarcinoma, Back pain

서론

강직성척추염(Ankylosing spondylitis)은 젊은 성인에서 호소하는 요통의 원인 질환 중에 하나로 악성

종양과 병인론적 연관 관계는 알려진 바가 없다 (1). 현재 국내에서는 강직성척추염과 병발된 악성 종양 환자가 3예 보고되었지만 (2-4), 만성 요통 악화의 원인이 악성 종양의 골전이인 사례는 없었다. 강직성척추염 환자에서 만성 요통 악화의 흔한 원인은

<접수일 : 2009년 9월 25일, 수정일 (1차 : 2009년 10월 19일, 2차 : 2009년 10월 29일), 심사통과일 : 2009년 10월 30일>

※통신저자 : 김 태 환

서울시 성동구 행당동

한양대학교 의과대학 류마티스병원

Tel : 02) 2290-9245, Fax : 02) 2298-8231, E-mail : thkim@hanyang.ac.kr

강직성척추염 자체 활성화(flare-up)의 임상증상이 있지만, 그 외 골다공증성 척추 골절과 척추 원반염 또는 경직된 척추의 피로골절이 있을 수 있다 (5,6). 골은 악성 종양이 전이되는 부위 중에 하나로 원발 종양으로 전립선암, 유방암, 폐암이 80%를 차지하며 (7), 담관암이 골로 원격전이 하는 경우는 매우 드물다. 최근 저자들은 강직성척추염 환자에서 만성 요통 악화 원인이 원발성 담관암의 척추전이였던 환자 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 31세 남자

주 소: 요통

현병력: 2년 전 아침에 주로 발생하는 간헐적인 염증성 요통과 양측성 둔통이 발생 후 강직성척추염을 진단 받았다. 최근 6개월 동안 약 4 kg 체중감소가 있었으며 내원 2주 전 목장에서 무거운 짐을 나르며 일하다가 갑자기 목직한 양상의 요통이 발생한 후 자세 변화나 휴식을 취해도 호전 없이 통증이 지속되었다. 그 외 다른 동반증상은 없었다.

과거력: 2년 전에 강직성척추염으로 진단 받은 후 요통과 둔통의 증상과 질병의 활성도가 호전을 보여 현재까지 비스테로이드 소염제만으로 치료 중이었다.

가족력: 특이사항 없었다.

사회력: 음주력은 없고 흡연력은 10갑년이며, 직업으로는 목장을 운영하고 있었다.

이학적 소견: 내원 당시 체온 36.3°C, 맥박은 분당 90회, 호흡수는 분당 20회, 혈압은 110/80 mmHg이고 급성 병색이었다. 신체검진에서 요추부위와 복부에 압통은 없었고 하지 거상 검사(SLR test)는 특이소견 없었다. 쇼버 검사(Schober's test)에서 3.6 cm로 이전과 차이가 없었으며, 패트릭 검사(Patrick test)는 음성이었다. 이외 하지에 신경학적 검진에서 특이소견은 없었다.

검사실 소견: 말초 혈액검사에서 백혈구 13,100/mm³ (중성구 73.2% 림프구 20.9%, 호산구 1.2%), 혈색소 12.8 g/dL, 혈소판 285,000/mm³이었고, 생화학 검사에서 총 콜레스테롤 176 mg/dL, 총 단백 7.6 g/dL, 알부민 4.3 g/dL, 총 빌리루빈 0.7 mg/dL, alkaline phosphatase (ALP) 261 IU/L, aspartate aminotransferase

(AST) 46 IU/L, alanine aminotransferase (ALT) 30 IU/L였다. 바이러스 혈청검사에서 B형 간염 바이러스 표면 항원 및 C형 간염 바이러스 항체는 음성이었다. 급성기 반응물질인 적혈구침강속도는 30 mm/hr, C-반응성 단백질은 1.3 mg/dL로 상승되어 있었고 혈청 종양표지자 검사에서 알파태아단백 1.4, CEA 2.9, CA19-9 16.9는 모두 정상 범위였다.

방사선 소견: 요추 및 골반 단순촬영에서는 이전에 관찰되던 3형의 천장관절염(grade III sacroiliitis) 이외에는 특이소견 없었다(그림 1). 지방억제 T2 자기공명영상에서는 흉요추, 천골, 장골에 불균질의 다발성 고신호 강도가 보이고 T1 강조 자기공명 영상에도 동일 부위에 조영이 증가된 악성종양의 다발성 전이가 확인되었다(그림 2). 원발종양을 알아보기 위해 시행한 복부 나선형 CT에서 변연부에 조영이 잘 되는 간종괴가 간분엽 VI에 9.2×7.4×7.4 cm 크기의 악성종양으로 확인되었고(그림 3) 대부분의 흉요추 부위에 골융해성 병변이 있었다.

병리학적 소견: 간종괴에 대한 초음파유도 세침흡입 검사 결과 결합조직형성을 현저하게 수반하면서 침윤성 성장을 보이는 악성 세포들이 관찰되었다. 침윤하는 세포들은 관구조를 형성하면서 중등도의 분화도를 보이고 있었다(그림 4A, B). 이상의 소견에서 환자의 간종괴는 담관암으로 진단되었다.

치료 및 경과: 환자는 간종괴에 대해 조직검사 후



Fig. 1. Pelvis AP shows the erosive change and sclerosis of the bilateral sacroiliac joints.

담관암을 진단받고 항암치료를 유지 중이다.

고 찰

강직성척추염은 염증성 요통으로서 특징적인 증상이 있지만 활성기의 임상증상 양상은 환자마다 다양하게 나타나므로 다른 류마티스 질환과는 달리 활성기를 정의하는 기준이 없고 또한 객관적인 검사 지표 역시 없는 상태이다 (8,9). 따라서 환자 개인별로

활성기의 임상양상을 평가하고 예측하는 것도 중요하고 통증양상이 비전형적이거나 중증도가 높을 때는 단순히 기저질환의 악화 뿐만 아니라 일반적인 요통 환자를 대할 때 감별하는 골절, 악성 종양, 감염, 변형, 내장장기 질환 같은 심각한 질환이 동반되었을 가능성을 생각해 보아야 한다 (10).

특히 병력에서 발열, 체중감소가 있거나 기존에 만성감염, 악성 종양 치료력이 있으면 요통의 원인이 심각한 기저질환일 가능성을 대변하는 위험인자

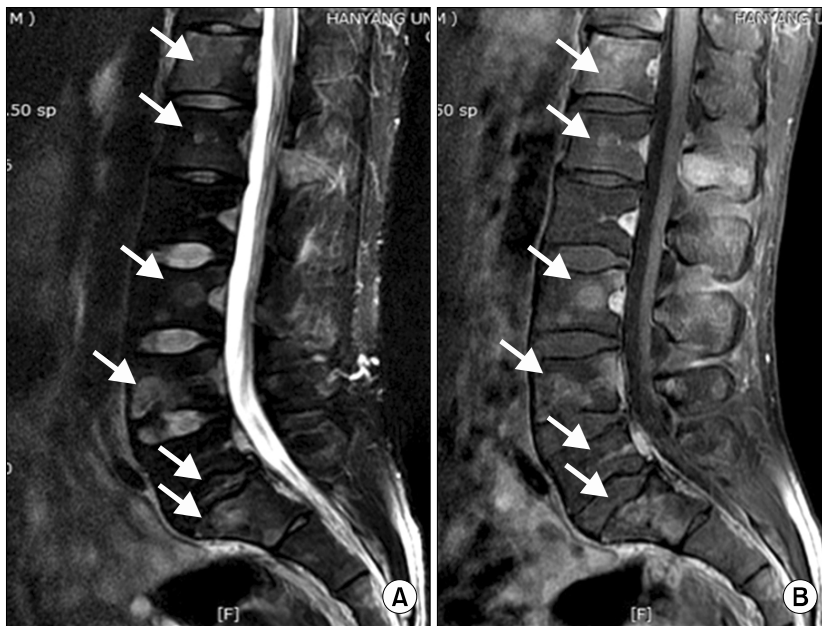


Fig. 2. MRI of the lower spine shows multiple signal changes with heterogeneous enhancement in the bone marrow of the thoracolumbar spine and sacrum (A) T2W fat suppressed image (B) T1W image with enhancement.

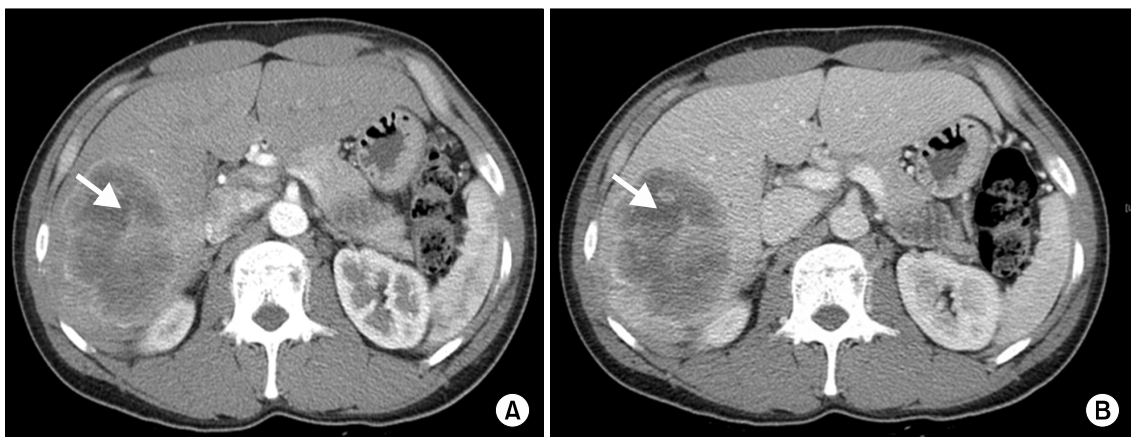


Fig. 3. Spiral computed tomography (CT) revealed a huge liver mass (A) Arterial phase (B) Portal phase.

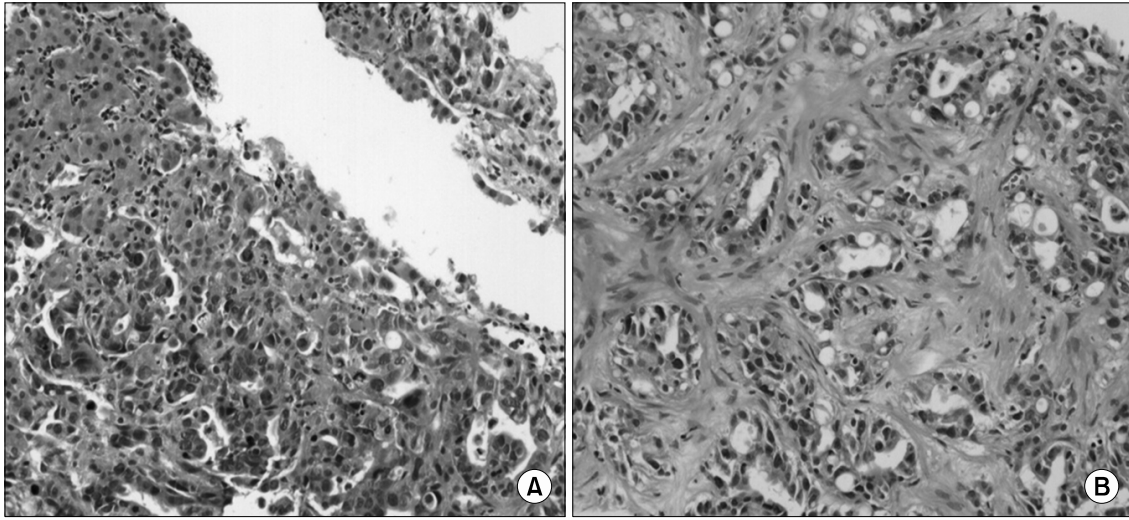


Fig. 4. (A) Liver biopsy shows cholangiocarcinoma glands invading into the liver parenchyma (H&E stain, $\times 400$) (B) The infiltrating tumor cells contained in the ductal lumen and the accompanying desmoplastic change of the stroma (H&E stain, $\times 400$)

로서 이학적 검사로 복부나 척추부위에 압통 유무와 하지에 신경학적 이상이 있는지 확인하고 컴퓨터단층촬영 또는 자기공명영상 검사를 통해 정확한 평가가 필요하다 (11).

본 증례의 경우 비교적 건강했던 젊은 연령의 환자에서 무리한 육체활동을 하고 난 후 동반된 증상 없이 요통만을 호소했고 통증양상이 기존에 호소하던 염증성 요통과는 다르게 움직이면 오히려 악화되는 지속적인 중증의 통증이었다. 따라서 기존의 강직성척추염 악화보다는 다른 원인일 가능성이 있었고 또한 설명되지 않는 체중감소라는 위험인자가 있어 중증의 질환이 동반되었을 가능성도 배제하지 못하는 상황이었다. 이학적 검사인 하지 거상 검사, 패트릭 검사, 쇼버 검사에서 특이사항이 없었고 혈액 검사에서는 급성기 반응물질이 상승되어 있었다. 요추 및 골반 단순촬영에서도 특이사항이 없었지만 진통제에 반응이 없고 조조강직 없이 점점 악화되는 중증의 통증으로 보아 중요한 구조적 문제 가능성이 높을 것으로 판단되어 자기공명영상 검사를 통해서 악성 종양의 다발성 척추전이를 확인할 수 있었다.

자기공명영상은 척추의 피로골절, 악성종양, 감염 뿐만 아니라 강직성척추염의 급성 및 만성 병변을 감별하는데 다른 영상의학적 검사와 비교해서 가장

정확한 평가가 가능하다 (12). 요통을 호소하는 환자에서 고령이거나 병력청취에서 발열, 체중감소, 만성 감염, 면역저하 상태, 악성 종양 치료력 등의 위험인자가 있을 경우에는 정확한 평가를 위해서 추가로 영상 의학적 검사가 필요하고 가능하면 민감도가 높은 자기공명영상 검사를 시행하여야 한다.

악성 종양의 골 전이는 중추골격이 흔하고 주로 비특이적이고 국소화 되지 않는 지속적인 통증을 특징으로 한다 (13). 강직성척추염과 악성 종양의 골전이 모두 주로 중추골격을 침범하는 것이 흔하며, 간내 담관암의 경우에는 대부분 병기가 상당히 진행되기 이전에는 증상이 없거나 비특이적인 증상을 나타내기 때문에 본 증례의 환자의 경우처럼 담관암 말기에서야 진단이 이루어진다.

저자들은 약물치료로 조절이 잘 되어왔던 강직성 척추염 환자에서 만성 요통의 악화 원인이 원발성 담관암의 척추 전이에 의한 사례를 경험하였다. 본 증례를 통해서 강직성척추염 치료 중에 요통 악화가 비전형적일 때는 강직성척추염 활성화기 이외에 악성 종양의 골전이와 같은 중증 질환의 감별도 반드시 필요함을 알 수 있었다.

요 약

강직성척추염 환자에서 요통을 호소하는 경우에 강직성척추염의 활성기로 우선 생각하는 것이 일반적이다. 강직성척추염 활성기의 임상양상은 환자마다 다양하게 나타나므로 다른 원인에 의한 요통이 겹칠 경우에 감별하기가 어렵기 때문에 강직성척추염 환자에서 비전형적인 요통을 지속적으로 호소할 경우에는 강직성척추염의 악화 뿐만 아니라 골다골성 척추골절, 척추원반염, 드물게 전이성 암 가능성도 고려해야 한다.

참고문헌

- 1) Hur JW, Kim TH. Pathogenesis of ankylosing spondylitis. J Korean Rheum Assoc 2005;12:163-72.
- 2) Yang CH, Jeong MK, Lee HJ, Lee YH, Yoon KY, Kim JS, et al. Multiple myeloma combined with ankylosing spondylitis. Korean J Med 1985;28:560-6.
- 3) Choi BY, Park YB, Lee JH, Ryu HJ, Lee EY, Lee YJ, et al. A case of ankylosing spondylitis accompanying sarcoidosis. J Korean Rheum Assoc 2007;14:251-5.
- 4) Kim YN, Lee HE, Lee SH, Lee YA, Woo DH, Hwangbo Y, et al. Ankylosing spondylitis Associated with plasmacytoma. J Korean Rheum Assoc 2005;12:240-4.
- 5) Stone MA, Pomeroy E, Keat A, Sengupta R, Hickey S, Dieppe P, et al. Assessment of flares in ankylosing spondylitis disease activity using the flare illustration. Rheumatology 2008;47:1213-8.
- 6) Geusens P, Vosse D, Linden S. Osteoporosis and vertebral fractures in ankylosing spondylitis. Curr Opin Rheumatol 2008;19:335-9.
- 7) Roodman GD. Mechanism of bone metastasis. N Engl J MED 2004;350:1655-64.
- 8) Brophy S, Calin A. Definition of disease flare in ankylosing spondylitis; the patients' perspective. J Rheumatol 2002;29:954-8.
- 9) Ozgocmen S, Godekmerdan A, Ozkurt-Zengin F. Acute phase response, clinical measures and disease activity in ankylosing spondylitis. Joint Bone Spine 2007;74:249-53.
- 10) Deyo RA, Weinstein JN. Low back pain. N Engl J Med 2001;344:363-70.
- 11) Atlas SJ, Nardin RA. Evaluation and treatment of low back pain: an evidence based approach to clinical care. Muscle Nerve 2003;27:265-84.
- 12) Goh L, Suresh P, Gafoor A, Hughes P, Hickling P. Disease activity in longstanding ankylosing spondylitis- a correlation of clinical and magnetic resonance imaging findings. Clin Rheumatol 2008;27:449-55.
- 13) Coleman RE. Metastatic bone disease: clinical features, pathophysiology and treatment strategies. Cancer Treat Rev 2001;27:165-76.