

범발성 특발성 골격과골증에서 발생한 발성 장애 및 연하 곤란 -1례 보고-

안영준 · 한성호 · 양보규 · 이승림 · 유재호 · 윤동진 · 정병준 · 주민홍 · 김성완

국립경찰병원 정형외과

Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis Associated with Dysphonia and Dysphagia -A Case Report-

Young Joon Ahn, M.D., Sung Ho Hahn, M.D., Bo Kyu Yang, M.D.,
Seung Rim Yi, M.D., Jae Ho Yoo, M.D., Dong Jin Yoon, M.D.,
Byung June Chung, M.D., Min Hong Zoo, M.D., Seong Wan Kim, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, National Police Hospital, Seoul, Korea

- Abstract -

We encountered a rare case of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) associated with dysphonia and dysphagia. An 80 year-old man developed progressive dysphonia and dysphagia. The radiology study, esophagogram and nasopharyngoscopic exam revealed the esophagus and the posterior wall of the nasopharynx to be severely compressed by the unfused osteophyte of the 3rd and 4th cervical intervertebral space. It was thought that the osteophyte formation was caused by not merely DISH but degenerative changes due to a concentration of stress around the unfused hyperostosis. A resection of the osteophyte was performed, which resolved the clinical symptoms. The follow-up radiology study, esophagogram and nasopharyngoscopic exam showed that the osteophyte had disappeared.

Key Words: DISH, Cervical spine, Anterior degenerative osteophyte, Dysphonia, Dysphagia

서 론

범발성 특발성 골격과골증(Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, DISH)은 척추 전 종 인대(anterior longitudinal ligament)의 연속적인 골화가 특징적으로 나타나는 질환으로서 방사선학적 소견을 근거로 진단한다¹⁾. 이는 고 연령층의 환자에서 흔히 볼 수 있는 질환으로서 경추부에 발생한 경우 이로 인한 연하 곤란은 드물지 않게 보고

되어 왔으나 발성 장애 혹은 음성 변화는 국내에서 보고된 바 없었다. 저자들은 경추부에 발생한 유합되지 않은 DISH에서 경추 제 3~4번 간의 퇴행성 골극에 의해 발성 장애 및 음성 변화, 연하 곤란이 발생하여 수술적인 치료로 만족할만한 결과를 얻은 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Address reprint requests to

Sung Ho Hahn, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, National Police Hospital,
#58, Karak-dong, Songpa-gu, Seoul 138-708, Korea

Tel: 82-2-3400-1252, Fax: 82-2-449-2120, E-mail: hsh@nph.go.kr

* 본 논문의 요지는 2006년 대한척추외과학회 춘계 학술대회에서 포스터로 발표되었음.

증 례

80세 남자환자가 내원 2~3년 전부터 시작되고 내원 약 2주 전부터 심해진 고형식에 대한 연하 곤란과 내원 1주 전부터 발생한 발성 장애를 주소로 내원하였다. 발성 장애는 서서히 시작되어 점차 진행되는 양상이었으며 내원 당시에는 거의 쉼 목소리를 내고 있었다. 과거력상 당뇨, 고혈압 등의 내과적 문제는 없었고 내원 당시 시행한 이학적 검사상 경부의 굴곡 시 운동범위의 제한이 보였으나 신경학적 이상 소견은 보이지 않았으며 구역반사(gag reflex)는 정상으로 관찰되었다. 일반혈액 검사상 특이 소견은 보이지 않았으며 혈청검사상 류마티스 인자 음성, HLA-B27 검사 음성, 일반화학검사상 혈중 요산 치 6.2 mg/dl로 정상 범위 내로 측정되었다. 폐기능검사에서는 중등도의 제한성 폐질환 양상을 보

였다. 경추부 단순 방사선학적 소견상 추간관 간격은 잘 유지되어 있으나 경추체 전방에 종 방향으로 유합되어 있는 골화 소견이 관찰 되었고, 특히 제 3~4 경추체는 유합되어 있지 않았으며 그 부위에서의 골극은 퇴행성 변화의 특징적인 소견인 전방으로 심하게 돌출된 소견을 보였다(Fig. 1A). 전산화 단층 촬영상 하 인두부 후방의 경추체에서 전 종 인대의 골화 소견, 경추 제 3~4번 부위에서 전방 및 수평 방향으로 돌출된 심한 경추부의 퇴행성 골극 형성을 보였고(Fig. 1B) 자기공명영상 소견상 종 단면에서 좁아진 척수강의 소견 및 후 종 인대의 병변은 보이지 않았다. 식도 조영술상 인두 후벽이 제 3~4 경추체의 전방 골극에 의해 압박되는 소견을 보였으며(Fig. 2A) 검사 중 조영제의 흡인 소견이 관찰되어 검사를 중단해야만 했다. 이비인후과적 진료에서 발성 장애를 초래할 만한 다른 이상 소견 및 신경학적 이상 소견은 보

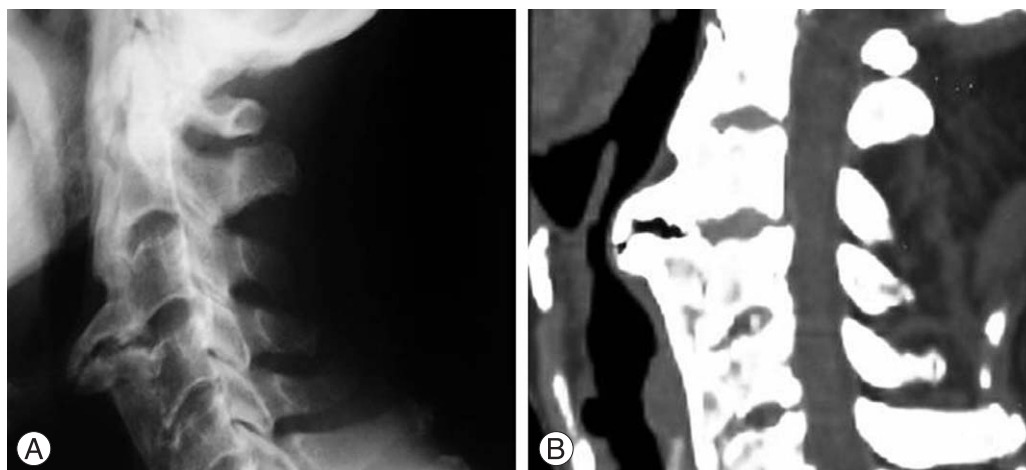


Fig. 1. (A) and (B) Preoperative cervical spine lateral radiograph and sagittal CT scan show contiguous ossification along the anterior aspect of the first (C1) to seventh cervical vertebrae (C7), with a localized osteophyte between C3 and C4.

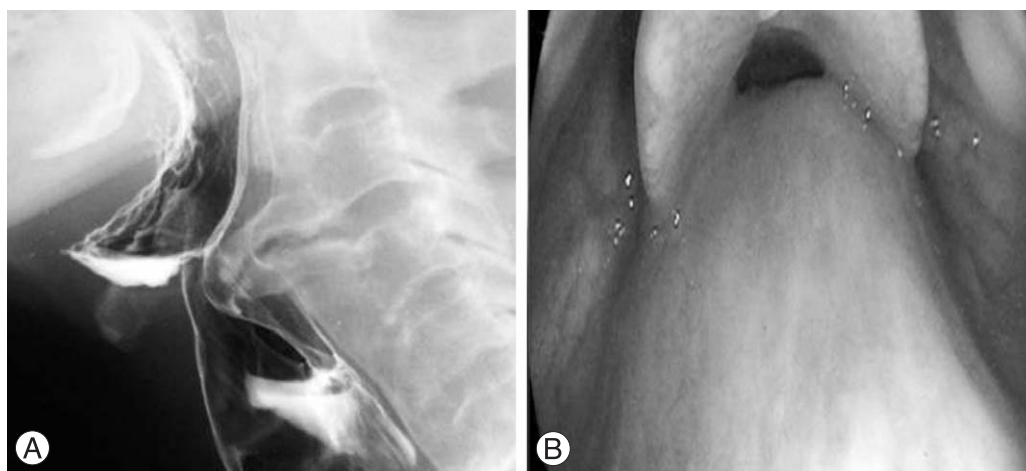


Fig. 2. (A) In barium esophagogram, the posterior wall of the hypopharynx is indented by osteophytes and the esophagus is significantly narrowed from C3 to C4. (B) Nasopharyngoscopic view shows mass projecting from posterior wall of hypopharynx.

이지 않았으나, 비인두경 검사상 후두개의 수준에서 인두 후 벽이 심하게 돌출되어 있어 후두개의 침부를 관찰할 수 있었다. 성대는 관찰할 수 없었으며 내시경 진입을 시도하였으나 불가능하였다(Fig. 2B). 상기 검사들로 환자의 증상이 DISH에 의해 유발되지 않은 경추 제 3~4 번간의 퇴행성 골극에 의한 것임을 확인하였다. 치료는 증상이 경미한 경우 보존적 치료를 시행할 수 있으나 환자의 경우 발성 장애 및 연하 곤란이 심하였고 내원 시점에는 음식물의 기도 유입을 호소하여 전방 골극에 대한 수술적 절제를 계획하였다. 좌측 전방 도달법을 이용하여 단순 절제를 시행하였다. 수술 소견상 제 3~4 경추체 전방에 심한 골극 형성 소견을 보였으나 주위 조직과의 유착 소견은 관찰되지 않았다. 절제된 골극에 대한 병리조직 검사상 섬유 연골 및 골성 조직소견을 보였다. 술 후 단순 방사선(Fig. 3A) 및 전산화 단층 촬영(Fig. 3B) 소견상 제 3~4 경추체 전방의 심한 골극은 잘 제거된 것

을 확인할 수 있었다. 술 후 부종이 감소할 때까지 약 5일간 비위관을 통해 음식물을 섭취하였으며 술 후 약 10일경부터는 가벼운 식사를 시작할 수 있었다. 술 후 약 1개월 후부터 환자는 기존 증상의 뚜렷한 호전을 보였으며 술 후 5개월에 외래 추사에서 환자는 유동식 및 고형식에 특별한 연하 곤란은 보이지 않았고 음성 변화 및 발성 장애 소견도 보이지 않았다. 당시 시행한 경추 굴곡 및 신전 방사선 검사에서 수술 부위의 특이할 만한 불안정 소견은 보이지 않았으며 식도조영술 추시 검사상 골극에 의한 만성적인 인두 후 벽의 압박의 결과로 보여지는 후두개 기능의 저하로 소량의 조영제가 기관으로 흡인되는 소견을 보였으나 식도의 직경이 넓어져 조영제의 유통이 술 전에 비해 훨씬 원활해진 것을 볼 수 있었으며(Fig. 4A) 비인두경 검사상 돌출되었던 인두 후 벽의 모습은 관찰되지 않았다(Fig. 4B).

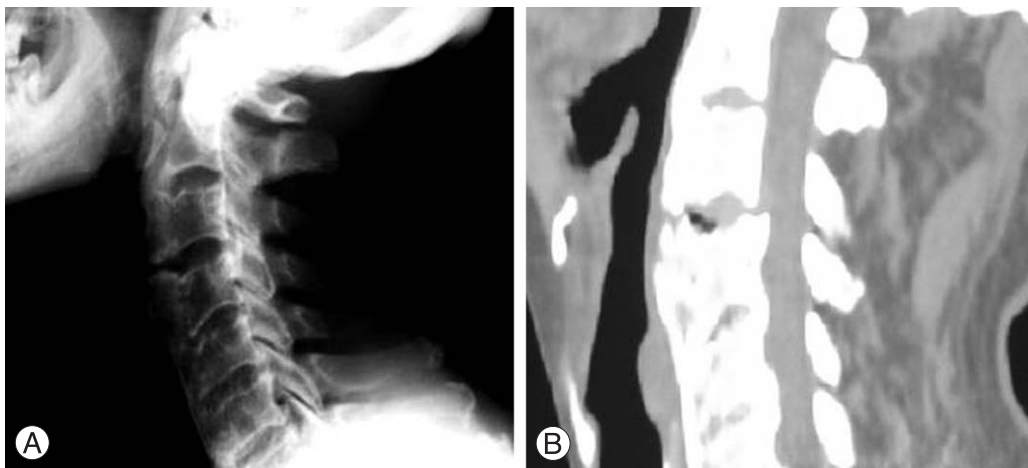


Fig. 3. (A) and (B) Postoperative cervical spine lateral radiograph and sagittal CT scan show no osteophytes between C3 and C4.

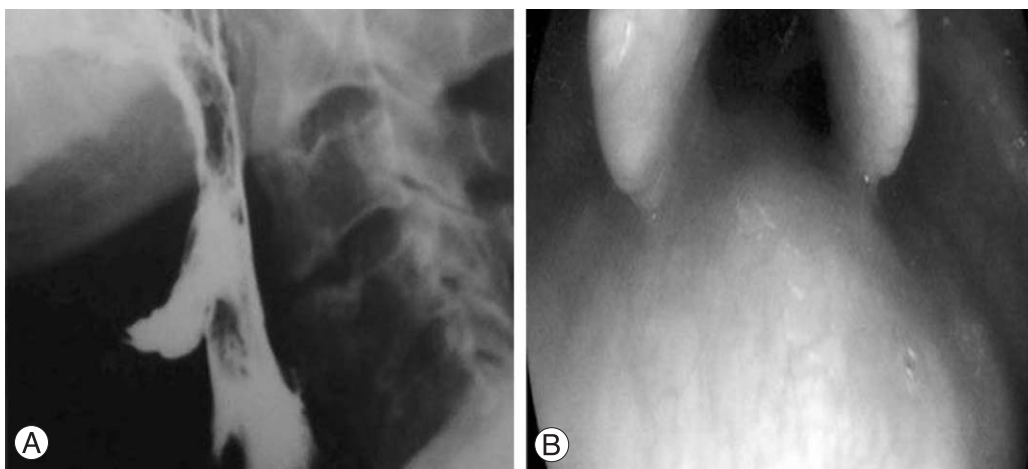


Fig. 4. (A) In barium esophagogram, no osteophytes are seen impinging on the posterior wall of the pharynx and contrast media passes well through the esophagus. (B) Nasopharyngoscopic view shows widened pharynx without mass.

고 찰

역사적으로 1938년 Meyer와 Forestier가 흉추에 발생한 골골증을 소개한 이후, 1950년 Forestier 등²⁾은 골증식증(osteophytosis)을 동반한 척추 전 외측 인대(anterolateral ligament of vertebral body)의 석회화와 골화를 특징으로 하는 노인성 강직성 척추 골격과골증(senile ankylosing hyperostosis of the spine)을 발표하였는데 이로 인해 Forestier's disease라고 불리게 되었다. 이후 Resnick 등³⁾에 의하여 척추 이외의 다른 부위의 골격에도 침범하여 여러 가지 증상을 일으킨다는 사실을 알게 되어 Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH)라고 부르게 되었다. Resnick 등¹⁾의 진단기준에 따르면 방사선 사진상 4개 이상의 연속된 척추골의 전, 측면을 따라 발생한 석회화 소견, 정상적인 추간판의 높이, 척추 후관절의 강직이나 천장골의 침범이 없으면 확진이 가능하다고 하였다. 감별진단을 해야 할 질환에는 강직성 척추염, 퇴행성 추간판 질환, 변형성 척추증 등이 있다⁴⁾. DISH는 한국의 성인 인구의 2.9~4.1%를 차지하고 특히 남성 및 60세 이상의 노인에서 잘 발생하고 연령 증가에 따라 발생 빈도가 증가한다는 보고가 있다⁵⁾. 증상은 척추의 전 종인대 및 외측 인대의 골 부착부 및 척추 외 여러 인대의 골화로 인해 발생하게 되는데 가장 흔히 볼 수 있는 증상은 연하 곤란이며 호흡 곤란, 발성 장애, 흡인성 폐렴, 흉곽출구 증후군, 환축추 아탈구, 경추성 척수증 등이 보고되고 있다^{1,3)}. 그 외 재발성 아킬레스 건염, 재발성 주관절 외상과염, 종골 또는 주두의 골극 형성 등이 발견될 수 있다¹⁾. 척추에서 가장 흔하게 침범 되는 부위는 하위 흉추(T8~T11)이며 다음으로 경추와 요추 순이다. 경추에서는 경추 제 5~6번간이 가장 흔하여 전체 환자의 약 40%에 이르며 경추 제 4~5번간은 약 23%, 경추 제 2~3번간 및 제 3~4번간은 각각 약 14%로 보고되었다⁶⁾.

DISH에 의한 연하 곤란은 국내외에서 여러 차례 보고되어왔다. 국외에서는 경추부 DISH 환자 중 17~28%에서 연하 곤란을 보인다고 하였으며⁷⁾ 국내에서는 연하 곤란에 대하여 수술적 치료를 하여 만족할만한 결과를 얻은 증례가 있었다⁷⁾. 본 증례에서 증상을 유발한 경추 제 3~4번간의 골극에 대하여 저자들은 골극의 형성 원인을 단순한 DISH에 의한 것으로 보지 않았다. 방사선 소견상 상기 부위는 DISH에 의해 유합 되지 않았고 이러한 유합되지 않은 경추 제 3~4번 부위로 응력 집중 현상(stress concentration)과 함께 이에 따른 퇴행성 변화가 함께 발생함으로써 수평 방향으로 심하게 돌출된 전방 골극이 형성된 것으로 생각하였다. 이 부위는 성대의 근위부에 해당하며 이로 인해 골극에 의한 압박 효과로 인두를 좁게 하여 기도로 유입되는 공기의 양을 줄여 발성

장애를 발생시켰으며 식도에 대한 압박 효과로 연하 곤란을 초래한 것으로 생각하였다. 국외에서 Papakostas 등⁸⁾은 경추체 전면의 과도한 골극이 후두부를 지속적으로 자극하여 후두의 부종을 발생시켜 발성 장애 또는 기도 폐색을 일으킬 수 있다고 발표하였으며, Karlins 등⁹⁾은 골극이 경부 인두 또는 반회후두신경을 압박하여 음성 변화가 발생할 수 있다고 보고한 바 있으나 국내 문헌 상 본 증례에서처럼 연하 곤란과 함께 발성 장애 또는 음성 변화 등의 증상이 동반된 경우는 없었다.

DISH 환자의 치료에 있어서 연하 곤란은 증세가 경미한 경우 일차 치료로 식사 습관 및 식사 종류의 조절과 함께 스테로이드 또는 비 스테로이드성 항염증제의 투여가 필요하다. 이는 골극 자체에 대한 치료는 아니며 부종을 감소시키기 위한 방법이다¹⁰⁾. 방사선 치료가 소개된 적도 있으나 이는 현재 대부분의 저자들에 의해 받아들여지지 않고 있다¹⁰⁾. 보존적인 치료에 증세의 호전이 없거나 증상의 악화 시 수술적 치료를 고려할 수 있다. 저자들은 본 증례에서 환자의 주 증상인 발성 장애 및 연하 곤란 등의 증세가 심하였으며 내원 당시 음식물의 기도 유입이 심하여 식사를 제대로 할 수 없어 환자의 나이가 고령임에도 불구하고 수술적 치료를 시행하였으며, 환자나 의료진이 모두 만족할만한 결과를 얻을 수 있었다. 수술 후 재발을 고려하여 병변 부위의 유합술이 필요할 수 있을 것으로 생각하여 이에 관련된 문헌을 검색하였으나 관련된 문헌을 검색할 수 없었다. 저자들은 술 전 방사선 소견에서 유합술이 필요한 방사선학적 증거를 발견할 수가 없었으며 골극이 재발하여 다시 증상을 유발하는데 오랜 기간이 필요할 것을 고려하였으며 이는 환자의 연령이 고령인 바 주 원인인 골극에 대하여 단순 골극 절제술 만을 시행하였다. 이에 저자들은 본 증례와 같이 DISH에 골극이 동반되어 생긴 압박 효과 이외에 다른 합병증이 없는 경우 단순한 골극 절제술 만으로 좋은 결과를 얻을 수 있을 것이라고 생각하여 본 증례를 보고하는 바이다.

참고문헌

- 1) Resnick D, Shapiro RF, Wiesner KB, Niwayama G, Utsinger PD, Shaul SR: Diffuse idiopathic hyperostosis. *Semin Arthritis Rheum* 1978; 7:153-187.
- 2) Forestier J, Rotes-Querol J: Senile ankylosing hyperostosis of the spine. *Ann Rheum Dis* 1950; 9:321-330.
- 3) Resnick D, Shaul SR, Robins JM: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). Forestier's disease with extraspinal manifestations. *Diagnostic Radiology* 1975;

115:513-524.

- 4) **Weinfeld RM, Olson PN, Maki DD, Griffiths HJ:** *The prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) in two large American Midwest metropolitan hospital populations. Skeletal Radiol* 1997; 26:222-225.
- 5) **Kim SK, Choi BR, Kim CG et al:** *The prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in Korea. J Rheumatol* 2004; 31:2032-2035.
- 6) **Gamach FW, Voorhies RM:** *Hypertrophic cervical osteophytes causing dysphagia. A review. J Neurosurgery* 1980; 53:338-343.
- 7) **Kim YW, Jang HG, Jung JC, Lee KB:** *Dysphagia due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis of the cervical spine. J Kor Soc Spine Surg* 2003; 10:335-339.
- 8) **Papakostas K, Thakar A, Nandapalan V, O' Sullivan G:** *An unusual case of stridor due to osteophytes of the cervical spine (Forestier's disease). J Laryngol Otol* 1999; 113:65-67.
- 9) **Karlins NL, Yagan R:** *Dyspnea and hoarseness: A complication of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Spine* 1991;16:235-237.
- 10) **Eviatar E, Harell M:** *Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia (A review). J Laryngol Otol* 1987; 101:627-632.

국문 초록

증례는 80세 남자 환자로 2주 전부터 심해진 연하 곤란과 1주 전부터 발생한 발성 장애를 주소로 내원하였다. 방사선 검사와 식도 조영술 및 비인두경 등의 검사상 제 3~4 경추체의 전방에 유합되지 않은 골극의 돌출로 인한 식도 및 인두 후벽의 심한 압박 소견이 관찰되었다. 이에 저자들은 골극의 발생 원인을 단순한 범발성 특발성 골격과골증(Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, DISH)에 의한 것으로 보지 않고 DISH가 유합되지 않은 상기 부위에 응력 집중 현상에 의한 퇴행성 변화로 생긴 것으로 생각하였으며 수술적으로 골극 제거술을 시행하여 상기 증상의 뚜렷한 호전을 얻을 수 있었다. 본 증례는 단순한 DISH에 의한 과골증과는 다른 양상을 보이며, 발성 장애와 연하 곤란이 함께 동반된 경우로 이에 저자들은 본 증례를 보고하는 바이다.

색인단어: 범발성 특발성 골격과골증, 경추, 전방 퇴행성 골극, 발성 장애, 연하 곤란

※ 통신저자 : 한 성 호

서울특별시 송파구 가락본동 58

국립경찰병원 정형외과

Tel: 82-2-3400-1252 Fax: 82-2-449-2120 E-mail: hsh@nph.go.kr