

경추 황색 인대에 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병 - 증례 보고 -

이재철 · 황석하 · 김연일 · 신병준

순천향대학교 의과대학 정형외과학교실, 척추센터

Calcium Pyrophosphate Dihydrate Crystal Deposition Disease in the Cervical Ligamentum Flavum - A Case Report -

Jae Chul Lee, M.D., Seok-Ha Hwang, M.D., Yon-Il Kim, M.D., Byung-Joon Shin, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Spine Center, Soonchunhyang University College of Medicine, Seoul, Korea

- Abstract -

Calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease (CPPD) is an inflammatory arthropathy that is defined by the deposition of CPPD crystals in articular and periarticular structures. The cervical ligamentum flavum is a rare location of CPPD deposition. A 65-year-old woman was admitted with complaints of neck pain and a tingling sensation and numbness below the xiphoid process for 2 months. Magnetic resonance (MR) imaging and computed tomography (CT) revealed compression of the spinal cord due to a nodular calcified mass in or attached to the ligamentum flavum at the C4-5, C5-6, or C6-7 level. The patient underwent a laminectomy at C4-5, C5-6, and C6-7, and resectioning of calcified extradural nodules that impinged on the cervical cord. The operation resulted in a resolution of neck pain and hypoesthesia, except in the feet. Histopathological examination of the excised specimen revealed rectangular CPPD crystals. Here, we report a case of compressive cervical spine due to CPPD deposition disease of the cervical spine and describe the literature relevant to CPPD deposition disease of the cervical spine.

Key-Words: Calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition disease, Ligamentum flavum, Cervical spine

서 론

칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병(Calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition disease)은 관절과 관절 주변에 칼슘 피로인산염 이수산기화합물

결정이 축적되는 염증성 관절병증으로 경추에 있는 황색 인대에서도 드물게 발생하며, 1978년 Ellman et al.¹⁾가 처음 보고하였다.

경추 황색 인대에 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병은 황색 인대의 비후와 석회화를 일으켜 척수의 단순한 압박에서부터 진행성의 신경 증상

Address reprint requests to

Byung-Joon Shin, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Soonchunhyang University

657 Hannam-dong, Youngsan-gu, Seoul, 140-743, Korea

Tel: 82-2-709-9056, Fax: 82-2-796-3682, E-mail: schsbj@hosp.sch.ac.kr

* 본 논문의 요지는 2006년도 대한정형외과학회에 추계학술대회에서 포스터로 발표되었음.

까지 다양한 임상 증상을 나타낼 수 있으나, 국내에는 아직 보고가 없었다. 저자들은 경추 황색 인대에 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착으로 인한 척수 압박을 보이는 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례 보고

65세 여자로 내원 2개월 전부터 발생한 경부 통증과 검상돌기 이하의 저린감과 감각 저하를 주소로 내원하였다. 과거력 상 특이 소견은 없었으며, 경추부의 수술을 받은 일도 없었다. 내원 당시 신경학적 검사 상 제 7 흉추근 지배 부위의 감각 저하가 있었으나, 운동 신경은 정상이었고 병적 반사나 심부건 반사상 이상 소견은 관찰되지 않았다. 경추 단순 방사선 소견에서 제 6-7 경추 황색 인대에 결절모양의 석회화 음영이 관찰되고 있었으며(Fig. 1), 경추 전산화 단층 검사에서 제 4-5, 5-6, 6-7 경추간 황색 인대에 후방으로 비후된 석회화 결절이 보이면서 제 6-7 경추에 비후된 석회화 결절에 의해 경막이 압박되는 소견이 관찰되었다(Fig. 2). 경추 자기 공명 영상 검사 상에서도 제 4-5, 5-6, 6-7 경추간 황색 인대 후

방에 저신호 강도의 결절이 관찰되었다(Fig. 3). 신경학적 이상 부위가 제 7 흉추부 이하여서 흉추 자기 공명 영상 검사를 시행하였으나 특이 소견은 없었다.

제 4-5, 5-6, 6-7 경추간 황색 인대 비후증으로 제 5, 7 경추의 추궁관 부분 절제술 및 제 6 경추의 추궁관 전절제술을 통한 후방감압술을 시행하였다. 수술 소견에서 제 6 경추 추궁관을 제거하고 살펴보니 백색의 분비물이 배액되면서 석회화된 결절과 혼재되어 있는 소견이 관찰되고 있었으며, 경막과의 유착 소견은 보이지 않았다. 병리학적 소견에서 육아종을 동반한 전형적인 방사형의 CPPD 결정과 섬유연골성의 기질(fibrocartilaginous stroma)이 확인되었다(Fig. 4). 수술 후 1년 추시 결과 양측 족부의 감각만 다소 떨어져 있을 뿐, 그 이외 부위의 감각 저하와 통증은 소실되었다.

고 찰

칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병은 관절이나 관절 주변부의 유리질 연골(hyaline cartilage)과 섬유연골(fibrocartilage)에 칼슘 피로인산염 이수산기화합물이 침착되어 연골 석회증(chondrocalcinosis)이 발생

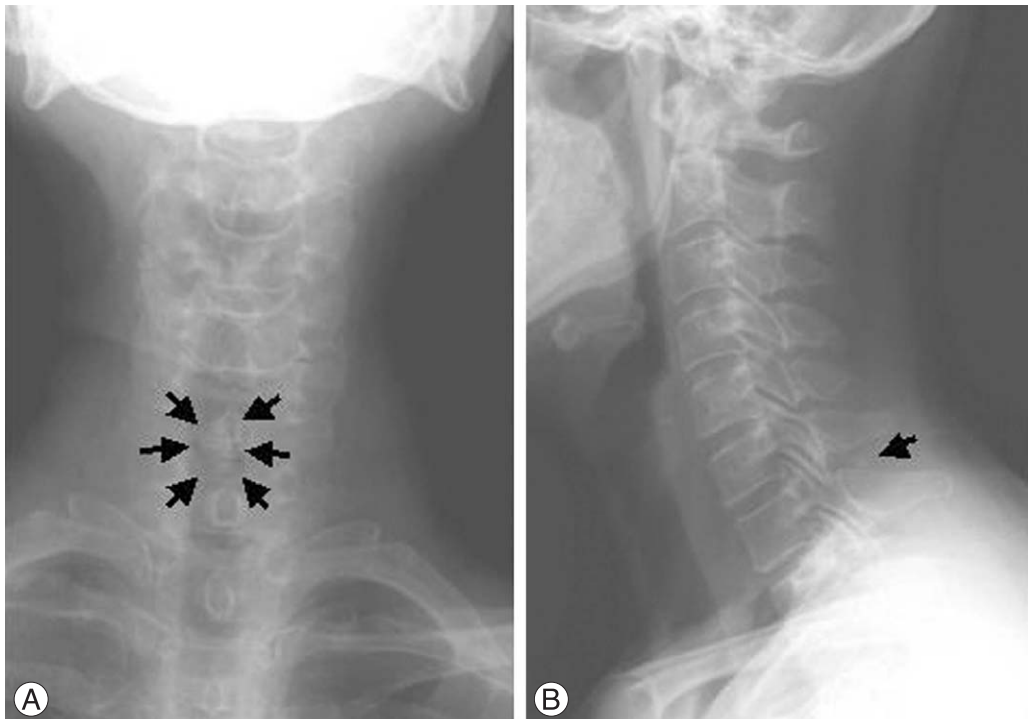


Fig. 1. Calcium pyrophosphate dihydrate (CPPD) crystal deposition disease in a 65-year-old woman with a history of neck pain and numbness below xiphoid process. Plain radiographs show dense and homogenous radiopaque deposits (arrows indicated) at C6-7 level in AP view (A) and lateral view (B).

하는 염증성 관절병증이다. 칼슘 피로인산염 이수산기 화합물은 대개 무증상인 경우가 많으나, 일부에서 통풍, 류마티드 관절염과 유사한 염증 반응을 나타내어 가성통풍(pseudogout)이라 불리기도 한다. 칼슘 피로인산염 이수산기 화합물 침착이 발생하는 정확한 생화학적



Fig. 2. Computed tomographic scan showing nodular calcified deposits in the ligamentum flavum at C6-7.



Fig. 3. T2-weighted sagittal MR images showing a hypointense mass compressing the cervical cord at C6-7, C5-6, C4-5 levels.

기전은 알려져 있지 않으나, 유발 인자로 혈색소침착증, 갑상선 저하증, 부갑상선 항진증, 윌슨씨 병, 통풍, 류마티드 관절염과 같은 내분비 혹은 대사성 질환 등이 있다²⁾. 또한 외상이나 수술, 허혈성 심질환, 임신, 유전에 의해 발생한다는 보고가 있다^{3,4)}. 본 증례의 환자는 내분비 질병이나 대사성 질병은 없었고, 경추부의 수술을 받은 일도 없었다.

칼슘 피로인산염 이수산기 화합물 결정 침착병은 1962년에 처음 보고되었다⁵⁾. 이 질병은 임상적으로는 가성통풍으로 인한 관절염을 보이며, 방사선 소견과 함께, 활액이나 조직검사에서 칼슘 피로인산염 이수산기 화합물 결정을 발견할 수 있다. 칼슘 피로인산염 이수산기 화합물 결정 침착병은 흔히 슬관절, 완관절, 견관절, 족관절이나 그 주변조직에 호발하며^{6,7)}, 척추에 발생은 드문 경우로, 발생 위치에 따라 임상 증상이 다양하다⁴⁾. 경추에 발생하는 경우에는 척수증이 발생할 수 있고, 요추에 발생하는 경우에는 요추의 척추관 협착증이나, 급성 추간판 탈출증 증상을 보일 수도 있으며, 추간관염이나 가성 척추 전방 전위증과 유사한 증상을 보이기도 한다. 칼슘 피로인산염 이수산기 화합물 결정 침착병이 경추에 발생하는 경우는 대부분 제 2 경추의 치아돌기 주변에 발생하는 것으로 보고되고 있다²⁾. 본 증례의 경우 척추의 호발부인 경추 부위에 발생했으나 제 2 경추가 아닌 제 5, 6, 7 경추에 발생했고, 척수 압박이 있고 통증과

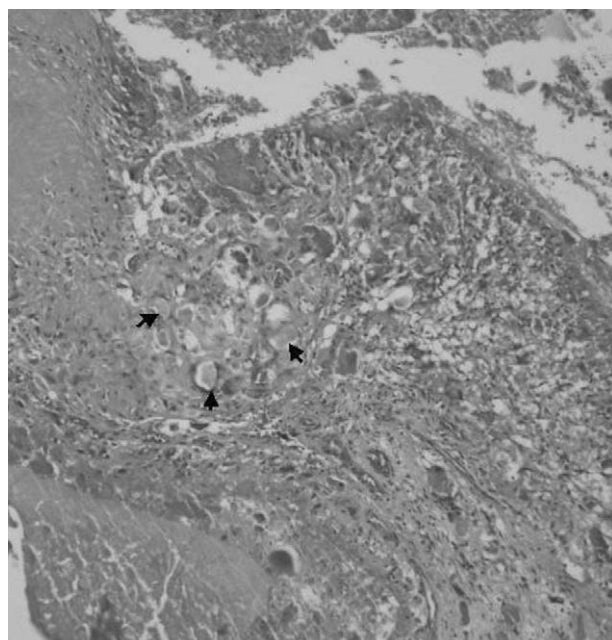


Fig. 4. Photomicrography showing multiple CPPD crystals (arrow indicated) in fibrocollagenous stroma with numerous giant cells. (H & E stain; $\times 100$)

저린감이 있었으나 전형적인 척수증의 증상은 나타나지 않았다.

척추에서 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병의 방사선학적 소견은 황색 인대에 인접한 척추관 뒷면에 타원형의 석회화된 결절이 보이거나, 황색 인대 자체가 비후된 소견을 보이기도 한다⁹⁾. 자기 공명 영상에서는 황색 인대 인접 부위에서 T1과 T2 강조영상에서 모두 저신호 강도를 보이는 타원형 모양의 종괴를 보인다¹⁰⁾. 본 증례의 경우 경추 단순 방사선 소견에서 제 6-7 경추 황색 인대에 결절모양으로 석회화 음영이 관찰되고, 경추 자기 공명 영상 검사 상에서도 T1과 T2 강조영상에서 모두 제 4-5, 5-6, 6-7 경추간 황색 인대 후방에 저신호 강도의 결절이 관찰되어, 전형적 방사선 소견을 보였다.

조직 병리 소견에서 섬유연골 기질(fibrocartilaginous stroma) 내의 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정이 관찰되며, 편광 현미경 소견 상 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정은 복굴절된 장사방형(rhomboid) 모양의 결정으로 나타나는 것으로 알려져 있다^{1,3,6,7)}. 본 증례 표본의 일반 염색에서 특징적인 장사방형 결정의 모양을 보여서 바늘모양의 통풍 결정과 병리학적 감별 진단에는 어려움이 없었으나, 편광 현미경 상에서 전형적이라 알려진 약한 복굴절(weak birefringence) 관찰되지는 않았다. Ivorra 등¹¹⁾도 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병에서 일반적으로 알려진 바와 달리 복굴절이 관찰되지 않는 결정체가 대부분임을 보고하였다.

경추 황색 인대에 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병의 치료는 감압술 및 석회화된 황색 인대를 모두 제거하는 것이다¹²⁾. 본 증례에서는 추궁관절절제술로 충분한 감압 및 결정 종괴 제거가 가능하였으며, 감압 과정에서 후관절의 손상은 없었기에 추가적인 유합술이나 고정술은 하지 않았다. 비스테로이드성 진통 소염제 계열의 약물이 급성 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 침착 관절병증에서 사용되기는 하나, 아직까지 결정 침착을 방지하거나 결정을 용해시키는데 유용한 약물은 보고되어 있지 않다.

저자들은 척수 압박의 한 원인으로 흔하지 않은 경추 황색 인대에 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

참고문헌

- 1) **Ellman MH, Vazquez T, Ferguson L:** Calcium pyrophosphate deposition in ligamentum flavum. *Arthritis Rheum* 1978; 21: 611-613.
- 2) **Fye KH, Weinstein PR, Donald F:** Compressive cervical myelopathy calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease: Report of a case and review of the literature. *Arch Intern Med* 1999; 159: 189-193.
- 3) **Joseph J, McGrath H:** How to differentiate crystal-induced arthropathies. *Geriatrics* 1995; 50: 33-39.
- 4) **Muthukumar N, Karuppaswamy U, Sankarasubbu B:** Calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease causing thoracic cord compression. *Neurosurg* 2000; 46: 222-225.
- 5) **Kohn NN, Hughes RE, McCarty DJ, Faires JS:** The significance of calcium pyrophosphate crystals in the synovial fluid of arthritic patients, The "pseudogout syndrome". *Ann Intern Med* 1962; 56: 738-745.
- 6) **Fam AG:** Calcium pyrophosphate crystal deposition disease and other crystal deposition disease. *Curr Opin Rheumatol* 1995; 7: 364-368.
- 7) **Halverson PB:** Calcium crystal-associated diseases. *Curr Opin Rheumatol* 1996; 8: 259-261.
- 8) **Maigne JY, Ayral X, Guerin-Surville H:** Frequency and size of ossifications in the caudal attachments of the ligamentum flavum of the thoracic spine. *Surg Radiol Anat* 1992; 14: 119-124.
- 9) **Sato R, Takahashi M, Yamashita Y, et al.:** Calcium crystal deposition disease in cervical ligamentum flavum, CT and MRI findings. *J Comput Assist Tomogr* 1992; 16: 352-355.
- 10) **Sugimura H, Kakitsubata Y:** MRI of ossification of the ligamentum flavum. *J Comput Assist Tomogr* 1992; 16: 73-76.
- 11) **Ivorra J, Rosas J, Pascual E:** Most calcium pyrophosphate crystals appear as non-birefringent. *Ann Rheum Dis* 1999; 58: 582-584.
- 12) **Pakasa NM, Kalengayi RM:** Tumoral calcinosis: A clinicopathological study of 111 cases with emphasis on the earliest changes. *Histopathol* 1997; 31: 18-24.

국문초록

칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병(Calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition disease)은 관절과 관절 주변에 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정이 축적되는 염증성 관절병증으로 경추에 있는 황색 인대에서는 드물게 발생한다. 65세 여자가 2개월 전부터 시작된 경부에 통증과 검상돌기 이하에 저린감과 감각 저하를 주소로 내원하였다. 자기 공명 영상과 전산화 단층 촬영에서 제 4-5, 5-6, 6-7 경추간 황색 인대에 후방에 발생한 석회화 결절로 척수가 압박되는 소견을 보이고 있었다. 제 5, 6, 7 경추의 추궁관 절제술을 하여 후방감압술을 시행하고 수술 후 감각 저하와 통증은 양측 족부를 제외하고 호전되었고 병리학적 소견 상 황색 인대의 CPPD 결정의 침착을 보였다. 경추 황색 인대에 발생한 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병은 드물지만 척수 압박의 한 원인이 되는 질환으로 척수신경증을 유발할 수 있다. 저자들은 이런 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병을 경험했기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

색인단어: 칼슘 피로인산염 이수산기화합물 결정 침착병, 황색 인대, 경추

※ 통신저자 : 신 병 준

서울특별시 용산구 한남동 657번지

순천향대학교 의과대학 서울병원 정형외과학교실, 척추센터

Tel: 82-2-709-9056 Fax: 82-2-796-3682 E-mail: schsbj@hosp.sch.ac.kr