Journal of Korean Society of
Spine Surgery

Epidural Lymphoma Mimicking Hematoma
- A Case Report -

Dong-Yeong Lee, M.D., Soon-Taek Jeong, M.D., Kun-Tae Kim, M.D., Jung-Wook Yang, M.D., Dong-Hee Kim, M.D.

J Korean Soc Spine Surg 2017 Mar;24(1):49-54.
Originally published online March 31, 2017;
https://doi.org/10.4184/jkss.2017.24.1.49

Korean Society of Spine Surgery
Department of Orthopedic Surgery, Gangnam Severance Spine Hospital, Yonsei University College of Medicine,
211 Eunju-ro, Gangnam-gu, Seoul, 06273, Korea Tel: 82-2-2019-5410 Fax: 82-2-573-5393
©Copyright 2017 Korean Society of Spine Surgery
pISSN 2093-4378 eISSN 2093-4386

The online version of this article, along with updated information and services, is located on the World Wide Web at:
http://www.krspine.org/DOIx.php?id=10.4184/jkss.2017.24.1.49

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

J Korean Soc Spine Surg. 2017 Mar;24(1):49-54. https://doi.org/10.4184/jkss.2017.24.1.49

Epidural Lymphoma Mimicking Hematoma - A Case Report -

Dong-Yeong Lee, M.D., Soon-Taek Jeong, M.D., Kun-Tae Kim, M.D., Jung-Wook Yang, M.D.*, Dong-Hee Kim, M.D.
Department of Orthopedic Surgery, Gyeongsang National University School of Medicine and Gyeongsang National University Hospital, Jinju, Republic of Korea
*Department of Pathology, Gyeongsang National University School of Medicine and Gyeongsang National University Hospital, Jinju, Republic of Korea**

Study Design: Case report.
Objectives: To present a rare case of a spinal epidural lymphoma mimicking a hematoma.
Summary of Literature Review: The incidence of extranodal invasion of lymphoma is very low, and spinal compression as a clinical symptom rarely occurs in extranodal lymphoma.
Materials and Methods: A 37-year-old woman who complained of neck pain that had lasted for the past 3 months with no underlying disease visited the hospital and was treated conservatively with medication and physical therapy. Even though the patient was given an epidural injection 1 month prior to visiting our hospital, the pain lingered and the cervical myelopathy became aggravated, so the patient was initially diagnosed with epidural hematoma. This predisposed the patient to treatment strategies such as laminectomy and fusion, but the patient was ultimately diagnosed with non-Hodgkin lymphoma.
Results: The patient underwent a laminectomy with excision of the lesion and fusion. The patient was diagnosed with non-Hodgkin lymphoma as a result of this, and the patient's radicular pain and numbness improved immediately following surgery, except for mild weakness in both hands.
Conclusions: Although spinal epidural lymphoma is similar to hematoma, and is a very rare disease, surgeons should take it into consideration in the differential diagnosis of patients with a spinal epidural lesion.

Key words: Myelopathy, Epidural, Lymphoma, Non-Hodgkin lymphoma, Hematoma

서론

비호지킨 림프종(Non-Hodgkin's lymphoma)이 임파선 외에서 발생하는 경우는 10~20%로 보고되어 있으며, 척수 압박의 형태로 나타나는 경우는 0.1~10.2%로 매우 드물며, 압박이 발생한 경우 그 진행이 빠른 것으로 알려져 있다.[1,2] 림프종의 치료로는 내과적 치료로 방사선 치료 및 항암 요법이 효과적인 것으로 알려져 있으며,[3] 림프종의 척수 압박으로 인한 신경학적 증상이 있는 환자에서 후궁 절제술을 통한 감압술 시행 후 좋은 임상 경과를 나타낸 증례가 보고되고 있으며, 림프종의 척수 압박이 있는 경우 후궁절제술은 외과적 치료 방법 중 하나로 고려되고 있다.[4]

본 연구에서는 특이 기저질환이 없으며 경추 척수증(cervical myelopathy)의 임상 증상을 나타내는 37세 여자 환자에서, 이학적 검사 및 방사선학적 검사 결과에 근거하여 혈종(hematoma)에 의한 경추 척수증 의증 진단 하 경추 후방 감압술 후 후방 감압술 후 유합술 (laminectomy and fusion) 시행 후 신경학적 증상이 회복되었으며, 조직 검사상 비호지킨 림프종으로 진단받은 증례를 경험하여 문헌 고찰과 함께 이를 보고하고자 한다.

증례 보고

평소 특이 기저질환 없는 37세 여자 환자로 3개월 전부터 지

Received: November 28, 2016
Revised: November 30, 2016
Accepted: January 5, 2017
Published Online: March 31, 2017
Corresponding author: Dong-Hee Kim, M.D.
Department of Orthopedic Surgery, Gyeongsang National University School of Medicine, Gyeongsang National University Hospital, 15, Jinju-daero 816beon-gil, Jinju-si, Gyeongsangnam-do, Republic of Korea, 52727
TEL: +82-55-750-8669, **FAX:** +82-55-761-9477
E-mail: dhkim8311@gnu.ac.kr

© Copyright 2017 Korean Society of Spine Surgery

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

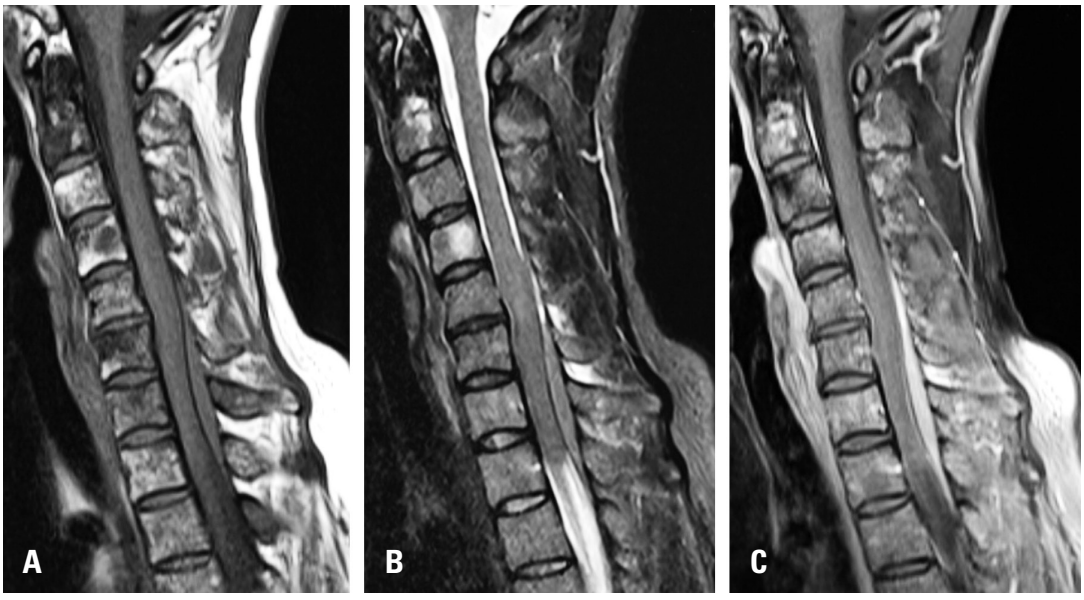


Fig. 1. Sagittal images of **(A)** T1-weighted, **(B)** T2-weighted, and **(C)** contrast-enhanced magnetic resonance imaging showed intermediate signal intensity on T1- and T2-weighted images, and homogeneous high signal intensity on contrast-enhanced images. An epidural spinal tumor was located at the C5-T1 level.

속되는 경부 통증과 간헐적으로 나타나는 양상지 방사통 증상으로 지속적인 약물 치료 및 물리 치료의 보존적 치료 시행하였으며, 내원 1개월 전 경추 경막외 주사 요법(epidural injection) 시행 후에도 호전 없이 증상 지속되어 내원하였다. 최근 발생한 체중 감소나 야간에 땀이 나는 증상, 발열과 같은 증상은 관찰되지 않았으며, 내원 4일전부터 양상지 위약감 및 감각 이상 소견이 악화되었다고 호소하였다. 이학적 검사상 우측 어깨 외전(abduction), 팔꿈치 굴곡(flexion), 손목 신전(extension) 근력은 grade 3으로 감소되어 있었으며, 양측 손가락의 굴곡(flexion) 및 외전(abduction) 근력이 grade 3(우측)/4(좌측)으로 약화되어 있었으며, C7 피부 분절을 따라 정상분절과 비교하여 감각이 양측으로 50%로 감소 되어 있었으며, C8 피부 분절을 따라 양측으로 30%로 감소된 소견 관찰되었다. 심부건반사(deep tendon reflex, DTR)는 이두근(biceps jerk), 삼두근(triceps jerk), 슬개건(knee jerk), 아킬레스건 반사(ankle jerk)가 양측 모두 3+로 항진된 소견 관찰되었다. 혈액학적 검사상 혈구 세포 분화(cell differentiation) 이상이나 혈액 응고 장애와 같은 이상 소견은 관찰되지 않았다.

경추부 단순 방사선 사진에서는 특이 소견 관찰되지 않았으며, 신경학적 이상 소견에 근거하여 척추관내 병변을 확인하기 위하여 자기공명영상(MRI) 검사를 시행하였다. 자기공명영상 결과 C5에서 T1의 척수 뒤 추궁판(lamina) 앞에 걸쳐 있는 척추관내 수질 외(intraspinal extramedullary) 경막외 공간(epidural space)에 종양성 병변(mass-like lesion)이 관찰되었으며, T1, T2 시상면(sagittal plane) 모두에서 저신호(low) 강도를 나타내었으며, 조영 증강영상에서 조영 증강되어 척수보다 고신호(high) 강도로 나타났으며, 모두 균질한(homogeneous) 신호를 나타내었다(Fig. 1). 따라서 이학적 검사 및 영상의학적 검사 결과에 근거하여 주사침에 의한 외상성(traumatic) 혈종 또는 자발성(spontaneous) 혈종에 의해 생긴 경추 척수증 진단 하에 C5-T1까지 후궁절제술 및 유합술을 고려하였다. 수술 방법은 이전에

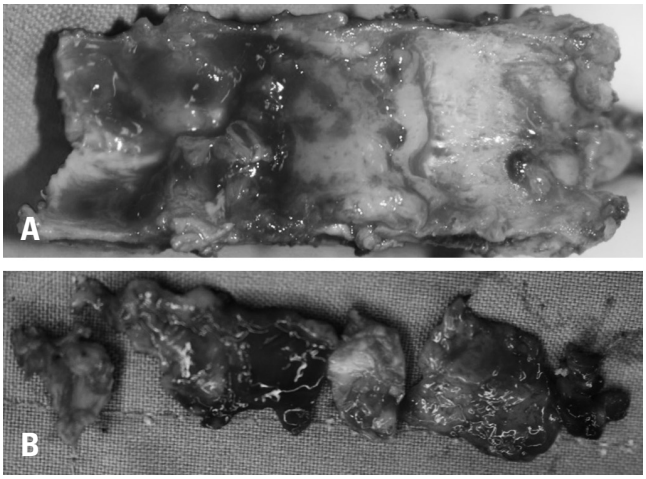


Fig. 2. Gross picture of the epidural mass. Soft, red-colored, gel-like materials were obtained from the epidural space. **(A)** Anterior to the C5-C7 lamina, adhesion of the soft mass was observed, and **(B)** marginal excision of the mass surrounding the dura was performed.

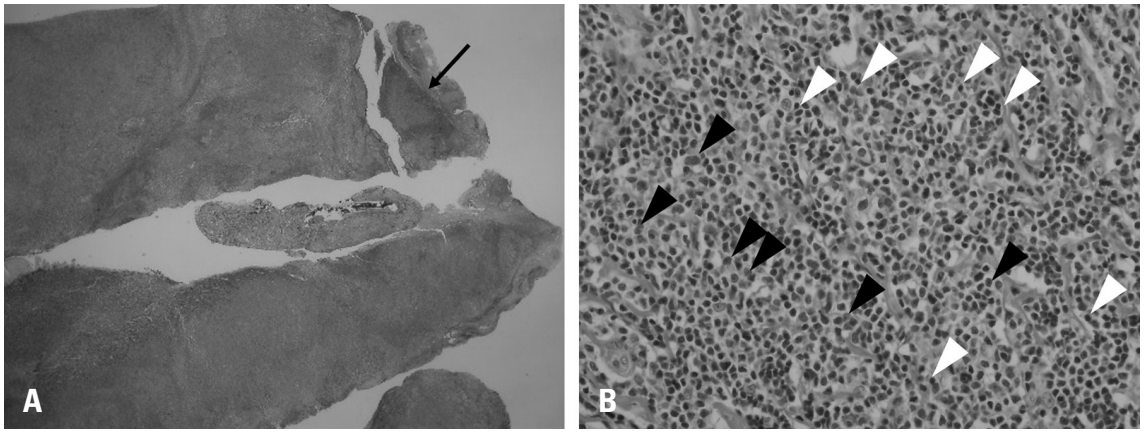


Fig. 3. Histology and immunohistochemistry. **(A)** Tumor cells infiltrated diffusely except for a very focal area (arrow), which showed a follicular structure (×12.5). **(B)** On a high-power view (×400), the tumor cells consisted of centrocytes (white arrow head) and centroblasts (black arrow head). There were more than 15 centroblasts per high-power field.

잘 알려진 후방 접근법을 통하여 C5에서 C7까지 추궁판 절제술을 시행하였으며, 추궁판 앞쪽으로 자기공명영상에서 혈종으로 의심되던 부분이 혈종의 양상과는 다르게 육아조직 양상의 연조직의 종양이 척수를 덮고 있는 것을 관찰할 수 있었다 (Fig. 2). 자기공명영상에서 관찰되던 종양을 조심스럽게 모두 제거 후 C5-C7은 후방감압술 후 유합술을 시행하였고, 제 1흉추(T1) 부분은 어깨에 의하여 fluoroscopy를 이용하여 나사못의 삽입 위치를 확인할 수 없어 추궁판 성형술(laminoplasty)을 시행하였으며, 수술 후 2주째 양측 수지의 경도의 위약감(G4/G4) 외에는 모두 정상으로 회복되었다. 병리학적 검사상 림프양 낭종(lymphoid follicle)과 림프 세포(lymphoid cells)들이 경막외 지방에 침윤되어 있는 것을 관찰할 수 있었으며(Fig. 3), 면역조직화학(immunochemistry) 검사에서 B 세포의 표지자인 CD20 이 양성으로 나타났으며, bcl-2, CD 10 또한 양성으로 나타나 최종적으로 diffuse large B-cell lymphoma with follicular lymphoma 진단 하에 방사선 치료 및 항암 화학 요법 시행하기 위하여 혈액종양내과로 전과되어 지속적인 치료를 시행하였다. 비호지킨 림프종에서 최선의 치료(gold standard of treatment)로 여겨지는 항암화학 요법인 r-CHOP (rituximab, cyclophosphamide, doxorubicin, vincristine and prednisolone) regimen 6회 시행을 계획하였으며, 현재 4개월째 추시 관찰 중에 있다. 지금까지 5회의 항암화학요법 시행 후 특이 합병증이나 신경학적 증상의 악화는 없으며, 나머지 1회 항암화학요법 시행 후 방사선 치료 요법을 고려 중이다. 비호지킨 림프종은 재발의 가능성이 높아 임상 증상의 악화나 신경학적 증상의 재발을 주의 깊게 장기 추시 관찰할 필요가 있다.

고찰

비호지킨 림프종이 척추관내 경막외 공간을 침범하는 경우는 드물며, 경막외 척추 종양의 9%가 림프종에 의해 발생하는 것으로 알려져 있다. 척수 압박 증상은 비호지킨 림프종 환자의 0.1-10.2%로 매우 드물게 보고되며, 일반적으로 진행이 빠른 것으로 알려져 있다. 호발 부위는 흉추부(69%)에서 가장 흔하며 다음으로 요추(27%)에 발생하며, 경추(4%)와 요천추부(4%)에는 매우 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다. 호발 연령은 주로 40~50대에서 흔히 발병하며, 남자에서 1.6:1의 빈도로 약간 약간 더 높은 것으로 되어 있다. 가장 흔한 임상 증상의 삼주징(triad)은 하지 위약감, 국소 요통, 방광 기능 장애로 알려져 있으며, 림프종의 특징적인 증상으로 B 증상(B symptom)인 체중 감소(weight loss), 야간에 땀이 나는 증상(night sweating) 및 발열(fever) 증상이 동반 될 수 있다.[3,5,6] 예후는 50세 이상의 진행된 조직형이거나 하지 마비, 방광 및 장 마비가 동반된 경우 나쁜 것으로 알려져 있으며, 조기 진단 후 수술적 감압과 함께 방사선 치료 및 항암 화학 요법이 시행된 젊은 환자에 있어서는 좋은 것으로 보고되어 있다.[6] 본 증례의 환자는 림프종의 호발 빈도가 낮은 경추 부위에서 발생했으며, 젊은 여자, 임상 증상이 경부통 및 경도의 방사통만 있고 B 증상이 없어 림프종을 의심하기는 어려웠으며, 최근 주사 요법의 시행 병력이 있어 종양보다는 경막외 혈종으로 진단하여 수술적 치료가 시행된 증례이다. 환자의 나이가 젊으며 비교적 조기에 진단이 이뤄져 수술적 감압 후 신경학적 증상이 정상에 가깝게 회복된 점, 수술 이후 즉시 방사선 치료 및 항암 화학 요법이 이뤄진 점 등을 고려했을때 좋은 예후를 기대할 수 있을 것으로 생각된다.

척추 경막외 림프종의 방사선학적 진단 도구로는 X ray, CT,

myelography, 자기공명영상 검사와 같은 것들이 사용 될 수 있으며, 림프종에 의해 X-ray에서 골 미란(bone erosion), 추경(pedicle) 침범, 압박 골절(compression fracture)과 같은 이상 소견은 15~42%에서 관찰될 수 있는 것으로 알려져 있다.[7] 여러 가지 영상학적 진단 방법 중 자기공명영상 검사가 해부학적 구조를 가장 잘 파악할 수 있으며, 뼈 및 연부조직에 대한 정보를 가장 잘 제공할 수 있어 다른 진단 방법보다 좋은 것으로 알려져 있다. 림프종의 자기공명영상 소견은 T1과 T2에서 중등도(intermediate)/저신호(low)의 강도를 나타내며, 조영증강 영상에서 고신호(high) 강도의 균질화(homogeneous)된 종양 형태를 나타낸다.[8] 이는 시기에 따라 비록 다른 신호 강도를 나타내나 만성 혈종의 경우 T1과 T2에서 중등도(intermediate)/저신호(low) 강도를 나타내며, 조영 증강에서 고신호(high) 강도를 나타내어, 혈종의 경우 출혈 시기의 차이로 인하여 비균질성(heterogeneous)을 나타내기도 하지만 림프종과 쉽게 감별이 어려움 수 있으며, 그 발생 빈도를 고려하였을 때 림프종 보다는 혈종으로 오인 하기 쉽다. 본 증례 역시 기저 질환이 없었으며, 젊은 여자, 최근 경추부 주사 요법을 시행한 병력에 근거하여 외상으로 인한 혈종으로 오인하여 신경학적 증상의 호전을 위한 감압을 위해 수술적 치료를 시행하였으며, 육안 소견상 혈종과는 다른 양상이 관찰되어 조직 검사를 시행한 결과 림프종으로 진단된 증례이다. 따라서 비록 그 빈도는 매우 드물지만 척추관내 경막외 혈종으로 의심되는 경우 반드시 감별질환에 림프종도 고려되어야 할 것으로 생각된다.

경막외 림프종의 치료에 관해서는 아직까지 논란의 여지가 있다. Aabo와 Walbom-Jorgensen[2]은 추궁판 절제술과 방사선 치료를 병행한 군과 방사선 치료만 받은 군을 비교하였을 때 임상적 결과의 유의한 차이가 없다고 보고하였으며, Cho 등[4]은 수술적 치료만으로는 생존률에 변화는 없으며, 방사선 치료와 항암 화학 요법이 병행되어야 한다고 주장하였다. 하지만 경막외 림프종으로 인해 발생한 하지 마비 환자에서 추궁판 절제술을 시행하고 뚜렷한 신경학적 호전을 나타낸 증례가 보고되어 있으며, 본 증례에서도 악화되는 신경학적 증상의 회복을 위하여 고식적 치료(palliative treatment)로 추궁판 절제술 및 유합술을 통한 감압술을 시행한 결과 신경학적 증상의 뚜렷한 회복을 관찰할 수 있었다. 이처럼 본 연구의 결과를 통해 비록 수술적 치료가 림프종으로 인한 생존률에 미친 영향을 알 수는 없으나, 신경학적 증상의 악화와 같은 임상 증상의 호전을 위한 치료 방법(palliative treatment) 중 하나로 수술적 치료가 고려될 수 있을 것으로 생각된다.

조직학적 소견에서 비정형적인 림프 세포의 증식(atypical lymphoid cell proliferation)이 관찰되었으며, 면역조직화학 검사에서 CD3, CD10, CD20, bcl-2가 양성으로 나타났으며, CD5, CD21, Cyclin D1은 음성으로 나타났으며, 최종적으로 diffuse large B-cell lymphoma with follicular lymphoma로 진단되었다. Follicular 림프종은 미국이나 유럽에서는 여러 림프종의 형태 중 두 번째로 가장 흔하게 발생하는 것으로 보고 되나 한국에서는 드문 형으로 알려져 있다.[9] 주로 임파선 외의 부분으로 퍼져나가는 경우가 흔하며, 임파선 외에서 원발암으로 발생하는 경우는 매우 드물다. 그리고 악성 림프종 중 0.8~2.8%의 빈도만이 경막외 종양의 형태로 나타난다. 따라서 상기 증례와 같은 경우 림프종을 의심하지 않아 수술 중 조직 검사를 시행하지 않는 경우 진단이 늦어지고 치료 시기를 놓치는 결과를 결과를 야기할 수 있어 주의가 필요하다.

척추관내 경막외 림프종은 매우 드문 증례이며 영상학적 소견도 혈종과 비슷하여, 상대적으로 흔한 혈종과는 감별이 쉽지 않다. 따라서 림프종의 특징적인 임상 증상이 있거나, 신경학적 증상의 악화를 동반하며 방사선학적으로 혈종과 유사한 소견이 관찰된다면, 림프종 또한 반드시 감별에 고려되어야 할 질환으로 생각된다. 신속한 진단을 통해 수술적 감압술 및 조기에 방사선 치료 및 항암 화학 치료가 시행된다면 유의한 임상 결과의 호전을 기대할 수 있을 것으로 생각된다.

REFERENCES

1. Freeman C, Berg JW, Cutler SJ. Occurrence and prognosis of extranodal lymphomas. Cancer. 1972;29:252-60.
2. Aabo K, Walbom-Jorgensen S. Central nervous system complications by malignant lymphomas: radiation schedule and treatment results. Int J Radiat Oncol Biol Phys. 1986;12:197-202.
3. Lim CC, Chong BK. Spinal epidural non-Hodgkin's lymphoma: case reports of three patients presenting with spinal cord compression. Singapore Med J. 1996;37:497-500.
4. Cho JH, Cho DC, Sung JK, et al. Primary malignant lymphoma in a spinal cord presenting as an epidural mass with myelopathy: a case report. Korean J Spine. 2012;9:265-8.
5. Mally R, Sharma M, Khan S, et al. Primary Lumbo-sacral Spinal Epidural Non-Hodgkin's Lymphoma: A Case Report and Review of Literature. Asian Spine J. 2011;5:192-5.
6. Kapoor R, Kumar V, Sharma SC. Primary extradural non-Hodgkin's lymphoma. JK Science. 2006;8:45-8.
7. Braunistein EM, White SJ. Non-hodgkin's lymphoma of bone. Radiology. 1980;59-63.

8. Mascalchi M, Torselli P, Falaschi F, et al. MRI of spinal epidural lymphoma. Neuroradiology. 1995;37:303-7.
9. Kim JM, Ko YH, Lee SS, et al. WHO Classification of Malignant Lymphomas in Korea: Report of the Third Nationwide Study. Korean J Pathol. 2011;45:254-60.

J Korean Soc Spine Surg. 2017 Mar;24(1):49-54. https://doi.org/10.4184/jkss.2017.24.1.54

혈종으로 오인된 경막외 림프종 - 증례 보고 -

이동영 • 정순택 • 김근태 • 양정욱* • 김동희
경상대학교 의학전문대학원 정형외과학교실, 경상대학교 의과대학 경주대학교병원 병리과교실*

연구 계획: 증례 보고
목적: 혈종과 유사한 경막외 림프종으로 진단된 드문 증례를 보고하고자 한다.
선행문헌의 요약: 림프종이 임파선 외에서 발생하는 빈도는 매우 낮으며, 척수 압박으로 인한 임상 양상이 나타나는 경우도 매우 드물다.
대상 및 방법: 특이 기저질환이 없던 37세 여자 환자에서 3개월 전부터 지속되는 목 통증으로 약물 치료 및 물리 치료의 보존적 치료 시행하였으며, 내원 1개월 전 경추 경막외 주사 요법 시행 후에도 지속되는 목 통증 및 진행하는 경추 척수증 증상으로 내원한 환자에서 경막외 혈종으로 의증하여 후궁 절제술 및 유합술 시행 후 비호지킨 림프종으로 진단된 증례이다.
결과: 후궁절제술 및 병변 절제술 후 유합술을 시행하였으며, 최종적으로 비호지킨 림프종으로 진단되었다. 수술 후 방사통과 무딘감은 즉시 호전되었으며, 경도의 양손 위약감은 수술 후 3개월까지도 지속되었다.
결론: 비록 척추 경막외 림프종은 혈종과 유사하며 매우 드문 질환이나, 척추 경막외 종양 수술시 반드시 감별 질환으로 고려되어야 한다.

색인 단어: 척수증, 경막외, 림프종, 비호지킨 림프종, 혈종
약칭 제목: 혈종으로 오인된 경막외 림프종

접수일: 2016년 11월 28일 **수정일:** 2016년 11월 30일 **게재확정일:** 2017년 1월 5일

교신저자: 김동희
경상남도 진주시 진주대로 816번길 15 경상대학교 의학전문대학원 정형외과학교실
TEL: 055-750-8669 **FAX:** 055-761-9477 **E-mail:** dhkim8311@gnu.ac.kr

© Copyright 2017 Korean Society of Spine Surgery
Journal of Korean Society of Spine Surgery. www.krspine.org. pISSN 2093-4378 eISSN 2093-4386
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.