



비복신경에 발생한 결핵종: 증례 보고

이정민, 서진수, 김한성*, 최준영

인제대학교 일산백병원 정형외과, *병리과

Sural Nerve Tuberculoma: A Case Report

Jung Min Lee, Jin Soo Suh, Han Sung Kim*, Jun Young Choi

Departments of Orthopedic Surgery and *Pathology, Inje University Ilsan Paik Hospital, Goyang, Korea

Nearly one third of the world's population have active or latent tuberculosis, resulting in 1.5 million deaths annually. Tuberculosis involving the peripheral nerve is difficult to detect. Sural nerve tuberculoma is an extremely rare case of tuberculous involvement of the peripheral nerve that has attracted the attention of physicians. This paper reports a patient with sural nerve tuberculoma. A 58-year-old female patient presented with a palpable mass on the posterolateral calf with progressive tingling sensation on the distal area. The patient had no history of trauma and it was unclear whether the patient had any contact with individuals with active tuberculosis. The histopathologic findings revealed a granuloma-like lesion with caseous necrosis that was compatible with tuberculoma.

Key Words: Tuberculoma, Sural nerve, Peripheral nerve granuloma

결핵성 신경병증은 면역 매개, 신경 직접 침범, 맥관염 신경병증, 압박신경병증, 수막염증, 항결핵 화학요법의 부작용 등 다양한 원인에 의해 나타날 수 있다.¹⁾ 그 중 중추신경계의 결핵은 전체 결핵의 1%를 차지할 정도로 드물지 않게 발생하며 흔히 수막염의 형태로 발현된다. 이에 비해 말초신경계의 결핵은 굉장히 드물고 발견하기 어려우며 결핵종의 형태로 몇몇 보고된 바가 있다. 현재까지는 척골신경에 발생한 결핵종이 가장 많이 보고되었으며,²⁻⁸⁾ 1건의 비복신경 결핵종이 함께 보고된 바 있으나³⁾ 국내에서 비복신경에 발생한 결핵종이 보고된 바는 없다. 이에 저자들은 결핵을 앓았던 과거력이 없는 환자에서 발생한 비복신경의 결핵종에 대하여 수술적으로 치험한 예를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다. 본 증례 보고는 인제대학교 일산백병원 윤리위원회의 심의를 통과하였다.

증례 보고

과거력상 특이사항이 없던 58세 여자 환자로 1년 전부터 인지한 우측 원위 하퇴부의 종괴를 주소로 내원하였다. 종괴는 1년 사이에 점점 커지는 양상이었고, 통증 및 압통은 없었으나 걸을 때 찢어질 양상의 통증이 하퇴부 전체에 발생해 점차 심해지는 것 같다고 호소하였다. 내원 당시에 시행한 이학적 검사상 우측 원위 하퇴부 외측에 부드럽고 움직이며 경계가 비교적 명확한 2×4 cm² 가량의 종괴가 촉진되었으며(Fig. 1), 티넬징후(Tinel sign) 양성 소견을 보였다. 피부 발적 및 국소 열감 등 감염을 시사하는 증후는 없었다.

단순 방사선 사진에서는 특이한 이상 소견이 관찰되지 않았으며 연부조직 종양을 감별하기 위해 자기공명영상 촬영(magnetic resonance imaging, MRI)을 실시하였다. MRI상에서 비복신경은 T1 강조영상에서 저신호 강도, T2 강조영상에서 고신호 강도를 보이는 방추 모양으로 확장되어 있었다. 그 내부의 T1, T2 강조영상 모두에서 비균질 저신호 강도를 보이는 병변이 관찰되었다. 또한 주변부가 T2 강조영상에서 고신호 강도로 관찰되어 연부조직의 부종 및 염증 소견이 의심되었다(Fig. 2). 흉부 단순 방사선 사진에서 특이 이상 소견은 관찰되지 않았으며 술 전 실시한 적혈구 침강속

Received January 21, 2019 Revised March 4, 2019 Accepted March 19, 2019

Corresponding Author: Jun Young Choi

Department of Orthopedic Surgery, Inje University Ilsan Paik Hospital, 170 Juhwa-ro, Ilsanseo-gu, Goyang 10380, Korea

Tel: 82-31-910-7968, Fax: 82-31-910-7967, E-mail: osddr8151@paik.ac.kr

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3864-9521>

Financial support: None.

Conflict of interest: None.

Copyright ©2019 Korean Foot and Ankle Society. All rights reserved.

©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.

도는 41 mm/hr로 약간 상승되어 있었고 C 반응성 단백은 정상 수치를 나타내었다.

해당 종괴에 대해 절제 수술을 시행하였다. 수술 시 관찰된 종괴는 명확한 신경종의 형태를 나타내기보다는 비복신경의 주행을 따라 6 cm 정도 신경이 매우 두꺼워진 형태를 보였으며 MRI상 의심되었던 주변부의 염증은 명확하게 관찰되지 않았다. 종괴의 근위부 및 원위부의 경계가 명확하게 구분되지 않은 관계로 육안상 정상적인 신경 부분으로 보이는 곳이 나타날 때까지 충분히 비복신경을 제거하였다(Fig. 3).

수술 후 실시한 조직병리 검사상 건락괴사(caseous necrosis)를 중심으로 주변부를 대식세포, 유상피세포 등 다수의 염증세포가 둘러싸고 있는 육아종성 염증의 전형적인 소견이 관찰되었으며, 말발굽 모양의 Langhans 거대세포가 존재하여 결핵성 염증을 진단할 수 있었다(Fig. 4).

수술 후부터 외측 발꿈치의 감각저하가 발생하였으나 상처 부위의 감염 없이 잘 회복하였다. 상처 부위의 회복이 끝난 이후부터 감염내과에서 항결핵제 사용을 권고하였으나 환자의 강력한 거부로

시행하지 않고 2개월에 1번씩 추적관찰을 하고 있다. 현재 수술 후 6개월까지 추적관찰하였으며 발꿈치 외측의 감각저하가 지속되고 있으나 종괴의 재발 및 심부 감염 징후는 보이지 않는 상태이다.



Figure 1. A 2×4 cm² sized, fixed, tender mass on the posterolateral aspect of right calf was noted.

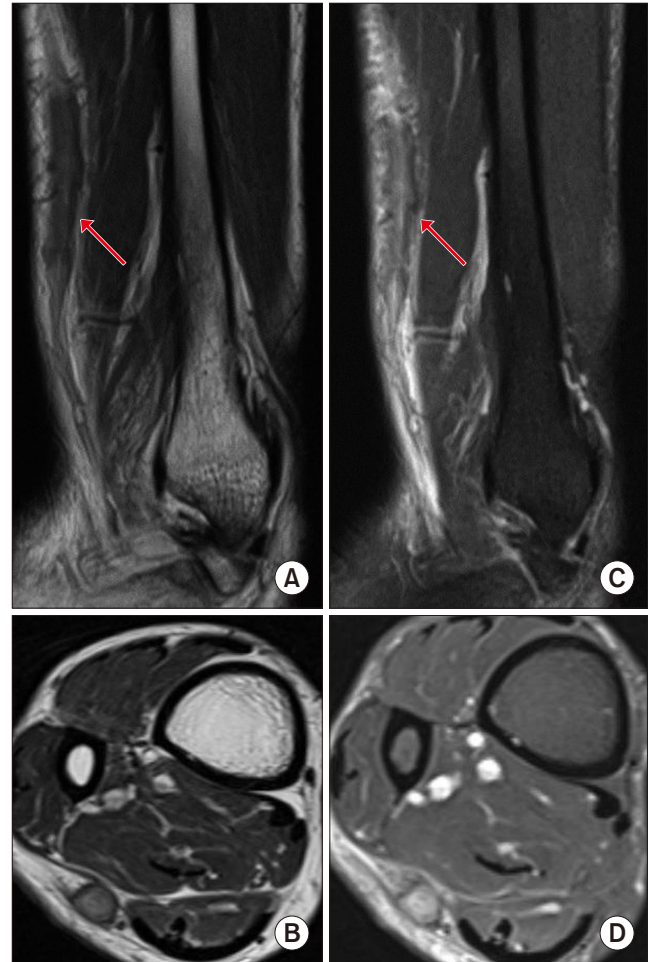


Figure 2. Fusiform dilatation of the sural nerve was seen. Low signal intensity on T1-weighted sagittal (arrow; A) and axial (B) images and intermediate to high signal intensity on T2-weighted sagittal (arrow; C) and axial (D) images were shown on magnetic resonance imaging.

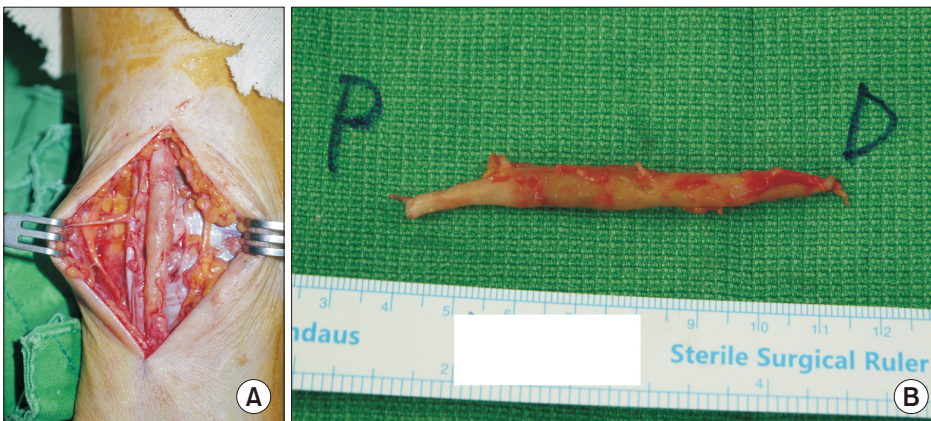


Figure 3. (A) During the operation, an enlarged and hardened sural nerve was noted. (B) Since the proximal and distal borders of the mass were not clearly distinguished, the mass was removed sufficiently include the normal nerve fiber (1.0 × 7.5 × 0.5 cm³). P: proximal, D: distal.

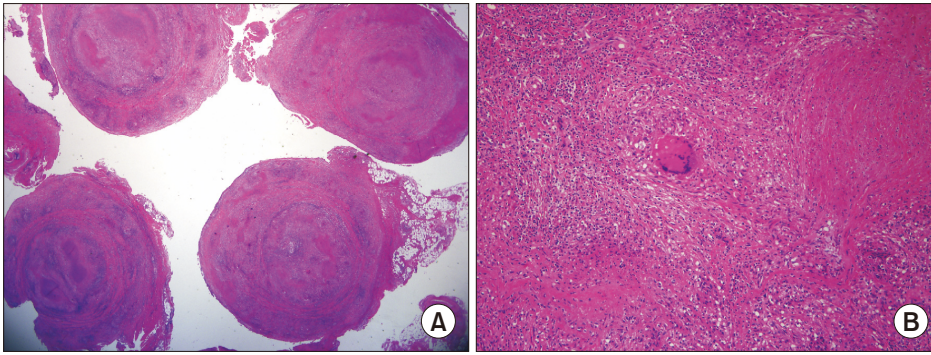


Figure 4. (A) On histopathological examination, granulomatous inflammation which peripheral inflammation cells (i.e., macrophages and epithelioid cells) surrounded the caseous necrosis was seen (H&E stain, $\times 40$). (B) Horseshoe-shaped Langhans giant was also detected among granulomas (H&E stain, $\times 200$).

고 찰

결핵은 전 세계적으로 가장 치명적인 전염병 중 하나다. 매년 약 900만 명의 사람들이 결핵에 감염되며 150만 명이 결핵 및 결핵의 합병증으로 사망하는 것으로 보고되고 있다. 그 중 중추신경계의 결핵은 호흡기 감염 이외의 결핵 감염 중 5%에서 15%에 달한다고 보고되어 있다. 이와는 다르게 말초신경계의 결핵은 매우 드물게 보고되어 있으며 수막염이 중추신경계 결핵 감염의 주요 증상인데 비해, 말초 신경계의 결핵 감염은 국소적인 결핵종 발생 및 그로 인한 국소 신경증상이 주된 증상이다. 흔히 말초신경에 발생한 결핵종은 신체 검진만으로는 신경초종양, 신경종양 등과 같은 다른 말초신경 병변과의 감별진단이 매우 어려운 것으로 알려져 있다.⁸⁾

일반적으로 결핵종은 폐와 같은 일차 병소에서 파급된 이차적인 병변이거나 결핵성 농양이 있는 림프절, 뼈, 연조직 주변에서 발생할 수 있다고 여겨진다. 하지만 현재까지 말초신경 결핵종에 대해서 보고한 예들 중 상당수에서 일차 병소가 발견되지 않았으며 앞서 발표된 총 7건의 말초신경 결핵종 증례에서도 2건에서만 폐의 병변이 발견되었다.^{3,6)} 결핵에서 나타날 수 있는 전형적인 호흡기 증상들이 나타나지 않은 경우가 많았으며 본 증례에서도 명확한 발병기전은 밝혀지지 않았다. 결핵 환자가 많은 우리나라의 사정을 고려해 봤을 때 혈행 감염을 의심할 수도 있다.

이전 Mauss의 연구⁹⁾에서 실험용 쥐에 결핵균을 정맥주사한 경우에 말초신경 육아종이 발생된 사례가 있었으나 이 경우에는 폐결핵이 동반되었고 조직 병리상 유상피세포나 괴사가 없는 대식세포만 관찰되어 유상피세포 및 건락괴사가 관찰된 본 증례와 연관 지을 수 없었다. 흥미롭게도 앞선 증례들을 살펴 보았을 때 척골신경 결핵종이 발견된 6예 중 3예에서 국소 외상의 병력이 있었다.^{5,7)} 비록 본 증례와 연관 지을 수는 없으나 추후 비슷한 사례가 보고되는 경우에 발병기전에 대해서 고려해 볼만한 사항이라 판단된다.

수술적인 제거 방법으로는 병변의 위치에 따라 신경외막 개구절제(complete intracapsular excision), 신경막 포함 절제(epineurium resection), 아전절제(subtotal resection of the mass) 등을 시행할 수 있다.²⁾ 본 증례에서는 아전절제를 시행하였으며 수술 후 항결

핵제 치료를 받지 않았다. 술 후 항결핵제 치료의 필요성은 현재로서는 불확실한 상태이나 항결핵제 투약 후 신경 증상이 호전된 증례 보고가 있었다. 앞서 발표된 증례 중 1예를 제외한 6예에서 항결핵제를 사용하였으며 짧게는 2개월에서 길게는 18개월까지 사용하였고, 12개월 동안 사용한 경우가 3예로 가장 많았다.³⁻⁸⁾

현재까지 말초신경의 결핵종 발생은 매우 드물게 보고되어 있어 발병기전 및 치료 결과를 파악하는 데 제한적인 상황이다. 일반적으로 말초신경에 신경병증이 있거나 종괴가 촉진되는 환자에게서 결핵종 발생의 가능성을 일차적으로 고려하는 경우는 흔하지 않다. 하지만 신경에 발생한 종양을 제거할 시에 비록 가능성이 크진 않지만 결핵종 역시 원발 병소로서 발생할 수 있다는 사실을 염두에 두는 것이 무엇보다도 중요할 것으로 생각되어 본 증례를 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Stoeckli TC, Mackin GA, De Groote MA. Lumbosacral plexopathy in a patient with pulmonary tuberculosis. *Clin Infect Dis*. 2000;30:226-7. doi: 10.1086/313622.
2. Song M, Sun X, Sun R, Liu T, Li G, Liu S, et al. Ulnar nerve tuberculoma: a case report and literature review. *J Clin Neurosci*. 2016;32:130-3. doi: 10.1016/j.jocn.2015.12.047.
3. Orrell RW, King RH, Bowler JV, Ginsberg L. Peripheral nerve granuloma in a patient with tuberculosis. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2002;73:769-71. doi: 10.1136/jnnp.73.6.769.
4. Sinha GP. Tuberculoma of the ulnar nerve. *J Bone Joint Surg Am*. 1975;57:131.
5. Nucci F, Mastronardi L, Artico M, Ferrante L, Acqui M. Tuberculoma of the ulnar nerve: case report. *Neurosurgery*. 1988;22:906-7.
6. Hasa, Prakashv SA. Tuberculoma of the ulnar nerve. A new clinical entity. *J Int Coll Surg*. 1964;42:30-4.
7. Ramesh Chandra VV, Prasad BC, Varaprasad G. Ulnar nerve tuberculoma. *J Neurosurg Pediatr*. 2013;11:100-2. doi: 10.3171/2012.9.PEDS12172.
8. Chatterjee D, Lath K, Sharma RK, Das A. Ulnar nerve tuberculoma masquerading as a neurofibroma. *Neurol India*. 2015;63:268-70. doi: 10.4103/0028-3886.156305.
9. Mauss H. Peripheral nervous system involvement in experimental tuberculosis. *Pathol Microbiol (Basel)*. 1975;42:103-9.