

# 뇌낭미충증에 동반한 광범위한 흉요추 경막내 척수낭미충증

정유훈 · 이영상<sup>✉</sup> · 은동찬 · 변찬웅

분당제생병원 정형외과

## Intradural Extramedullary Cysticercosis Involving the Thoracolumbar Spinal Canal in a Patient with Cerebral Cysticercosis

Yu-Hun Jeong, M.D., Young-Sang Lee, M.D.<sup>✉</sup>, Dong-Chan Eun, M.D., and Chan-Woong Byun, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Bundang Jesaeng General Hospital, Seongnam, Korea

Neurocysticercosis (NCC) by *Taenia solium* is the most common parasitic infection of the central nervous system involving the cerebrum. However, spinal involvement of NCC is rare. Spinal NCC can cause radiculopathy, myelopathy, cauda equina syndrome, and even paraparesis, depending on its location and size. Spinal NCC may require surgical treatment as a first-line treatment because medical therapy can further aggravate the inflammation due to dead cysts, resulting in clinical deterioration. The current standard therapy for spinal NCC is surgical decompression followed by medical therapy. We experienced a case of widespread thoracolumbar intradural extramedullary cysticercosis involving the spinal canal with cerebral cysticercosis. We report this rare case with literature review.

**Key words:** spine, cysticercosis, *Taenia solium*

*Taenia solium*에 의한 신경낭미충증은 인간 중추신경계에서 가장 흔한 기생충 감염으로 알려져 있다. 유행 지역(endemic regions)에서 신경낭미충증의 발병률은 지역인구의 4%에 육박한다.<sup>1)</sup> 뇌를 침범하는 경우가 가장 많은 반면에 척수의 침범은 0.7%~5.0%에 불과하다고 보고되어 있다.<sup>2)</sup> 척수 내에서도 침범하는 위치에 따라서 경막외, 경막내 수질외, 경막내로 구분할 수 있다. 앞서 척수 신경낭미충증의 몇 편의 증례가 보고되어 있으나 이는 아직까지 극히 적은 수에 불과하다. 약물 단독치료는 낭종의 괴사에 의한 염증반응을 유발하여 결국은 임상적 경과를 악화시킬 수 있기 때문에 일차적으로 수술적 치료가 필요하며, 현재 척수낭미충증의 표준적인 치료는 수술적 감압과 이후의 약물치료로 알려져 있

다. 저자는 뇌낭미충증을 동반한 광범위한 흉요추 경막내 척수낭미충증을 치료한 증례 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례보고

77세 남자 환자가 2개월 전부터 시작된 요통과 진행성 양하지 위약감 및 감각 소실을 주소로 외래로 내원하였다. 양성 전립선 비대증 외 특이병력이 없던 환자로 시간이 지남에 따라 진행성 보행장애를 호소하였다.

신경학적 검사에서 양측 무지신전근과 우측 무지굴곡근의 근력이 Grade 4로 감소되어 있었고, 제2 요추부 아래로 감각이 저하되어 있었다. 병적반사는 보이지 않았으며, 장관 및 방광 기능은 정상이었다. 항문괄약근의 긴장이 감소되어 있었으나 회음부 감각은 정상이었다. 활력징후는 안정적이었고, 의식수준은 정상이었다.

Received August 31, 2017 Revised September 12, 2017

Accepted October 16, 2017

<sup>✉</sup>Correspondence to: Young-Sang Lee, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Bundang Jesaeng General Hospital, 20 Seohyeon-ro 180beon-gil, Bundang-gu, Seongnam 13590, Korea

TEL: +82-31-779-0175 FAX: +82-31-779-0179 E-mail: ysllee2808@gmail.com

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8520-5149>

뇌의 자기공명영상에서 소뇌 하부(inferior cerebellum)와 좌측 소뇌연수수조(cerebellopontine cistern)에 뇌수종을 동반한 다방성 낭성 병변이 관찰되었다. 흉요추부 척추 자기공명영상에서는 다양한 크기의 낭성 병변이 경막내 공간 및 수질외 공간에서 관찰되었고, 제12 흉추부터 제3 요추부 사이로 지주막의 유착 소견 및 확산 증강(diffuse enhancement)된 격막으로 둘러싸인 큰 낭성 병변을 관찰할 수 있었다. 요추의 횡단면 영상에서는 'Empty sac sign'을 관찰할 수 있었다(Fig. 1).

일반 혈액 검사, 전해질, C-반응성 단백질, 적혈구 침강 속도 등의 진단혈액검사는 정상이었다. 말초혈액 백혈구 수치는  $17,200/\text{mm}^3$ 이었고, 호산구 비율은 1.4%, 혈소판 수치는  $1,584 \times 10^3/\text{mm}^3$  (본태성 혈소판 증가증)였다. 뇌척수액 검사는 이상이 없었으나 혈청 낭미충 특이 항원(cysticercosis specific immunoglobulin G)은 양성 소견을 보였다.

저자는 척수가 심하게 압박되고 있었던 제12 흉추부터 제4 요추 부위로 recapping 후궁판 성형술 및 경막내 탐색술을 시행하였고 척수에 세로방향으로 유착되어 있는 낭벽을 관찰할 수 있었다(Fig. 2). 경막내 수질외 병변을 확인하기 위해 종으로 경막을 절개하였다. 현미경을 이용하여 낭벽에 조심스러운 절개를 하자 맑은(clear) 낭액이 흘러나와 흡입기를 이용하여 흡입하였다. 낭 내부에 다량의 작은 포도 모양(grape-like) 백색 종괴가 발견되어 소

량씩 여러 번에 걸쳐 제거하였다. 수술 중 기생충 감염에 의한 염증 반응을 감소시키기 위해 수술 부위를 고장성 식염수로 충분히 세척하였다.

육안검사상 타원형의 희고 무른(friable) 양상의 낭성 종괴가 관찰되었고, 이들은 지주막으로부터 쉽게 분리되었다(Fig. 3).

낭성 병변에 대한 조직학적 검사상 호산구로 둘러싸인 투명한

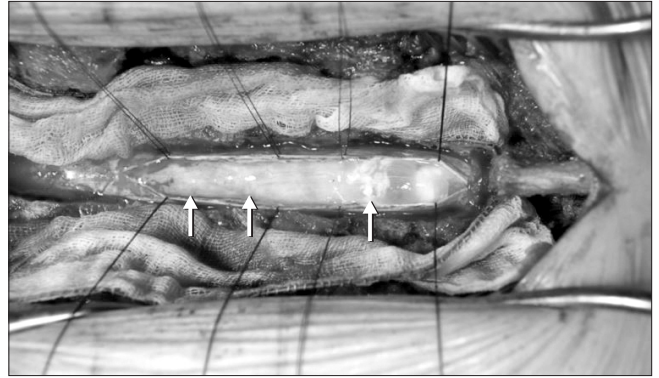


Figure 2. After careful cystic wall incision, clear cystic fluid gushed out, which was sucked using a suction. Multiple small grape-like whitish masses (arrows) within the cyst were found and removed in a piecemeal fashion. Massive irrigation with hypertonic saline was performed.



Figure 1. (A) Magnetic resonance imaging demonstrated variable sized cystic lesions in the intradural, extramedullary space and a huge, septated cystic lesion with diffuse enhancement and adhesion of arachnoid at the T12-L3 level. (B) Diffuse enhancement and adhesion of arachnoid with empty sac sign (arrows) in the lumbar spine.

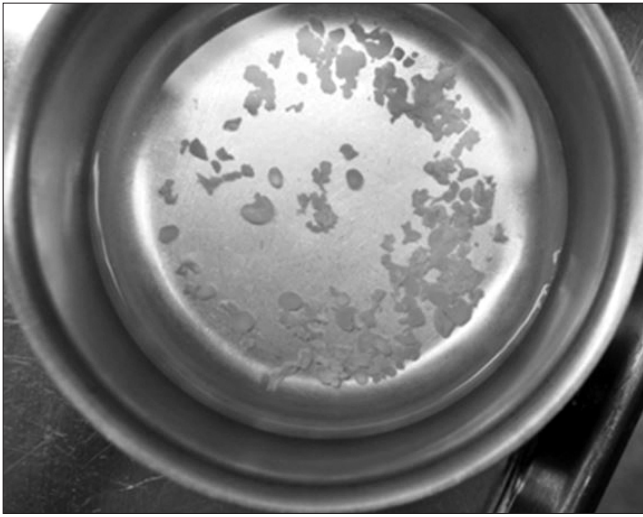


Figure 3. Gross specimen shows oval, white, and friable cystic masses that were easily separated from the surrounding arachnoid adhesions.

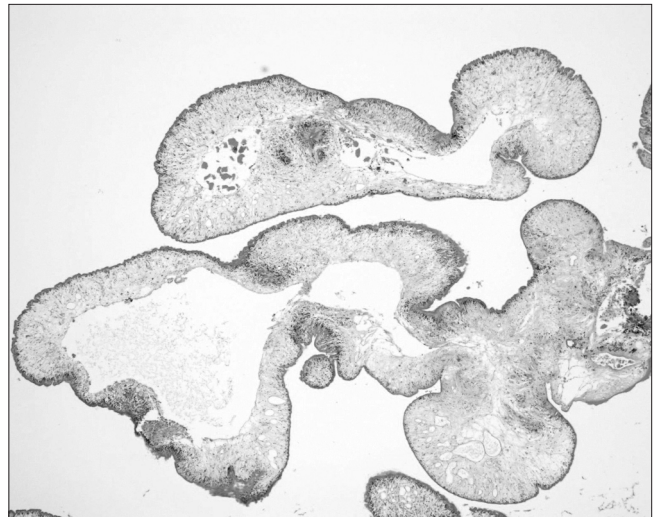


Figure 4. Microscopic view of the specimen taken during the operation (H&E, ×10) showing translucent cyst with eosinophilic lining and clear fluid with chronic inflammatory cells consistent with cysticercosis.

(transparent) 낭과 만성 염증세포들을 포함한 맑은(clear) 액체를 관찰할 수 있었다(Fig. 4).

환자는 수술 직후부터 albendazole을 복용하였고, 근력은 Grade 5까지 빠른 시일 내에 회복되었으며, 감각은 완전히 회복되었다. 그러나 저산소증과 원인 불명의 발열이 지속되었다. 수술 후 14일째 원인 감별을 위해 가슴 컴퓨터 단층촬영을 실시하였고, 검사 도중 갑작스러운 의식 저하, 호흡곤란 및 빈맥 소견이 관찰되어 본원 호흡기 내과 협진하 폐 색전증으로 진단 받고 외과계 중환자실에 입실하였다. 입실 당일 환자의 활력 징후는 점차 불안정하게 변하였다. 결국 환자는 기관 내 삽관 및 심폐소생술에도 불구하고 사망하였다.

## 고찰

유행지역(endemic regions)에서의 높은 발병률에도 불구하고, 척수 신경낭미충증은 뇌 신경낭미충증에 비하여 매우 드물다고 알려져 있다. 현재까지 전 세계적으로 척수 신경낭미충증은 200에 이하로 보고되어 있다.<sup>3)</sup> 뇌에 비해 상대적으로 척수에 대한 침범이 적은 이유는 뇌 혈류가 척수 혈류의 100배 정도 더 많기 때문이라고 알려져 있다.<sup>4)</sup> 경막내 척수낭미충증은 지주막하 낭미충증과 수질내 낭미충증으로 분류할 수 있고, 지주막하 낭미충증이 수질내 낭미충증에 비하여 더 흔하다. 지주막하 낭미충증은 유충이 중력에 의해 뇌실을 통해 지주막하 공간으로 이동한 결과라고 간주되며, 척수 신경낭미충증의 약 80% 정도를 차지한다.<sup>5)</sup> 수질내 낭미충증은 혈행성 전파에 의한 결과라고 생각되지만, Paterakis 등<sup>6)</sup>은 수질외 낭미충증에서도 뇌척수액에 의한 파종(dissemination) 뿐만 아니라 혈행성 이동 또한 그 경로가 될 수 있

다고 하였다. Colli 등<sup>3)</sup>은 척수 신경낭미충증의 부위별 발생 비율을 경추부 34%, 흉추부 44.5%, 요추부 15.5%, 그리고 천추부 6%라고 보고하였다.

신경낭미충증의 임상양상은 그 형태와 크기, 개수, 위치, 낭미충의 발달 단계, 그리고 숙주의 면역반응에 의하여 결정된다. 척수 신경낭미충증의 증상은 주로 척수신경이나 신경근의 물리적 압박에 의해서 발생한다. 수질내 낭미충증의 증례에서 가장 흔한 임상양상은 척수압박에 의한 척수병증과 진행성 마비증상이다. 그러나 지주막하 낭미충증에서는 요통과 방사통이 가장 흔한 증상이다. 특히 요추부에서는 병변이 점차적으로 커지며 증상이 점진적이고 늦게 나타날 수 있어 발견 당시에는 크기가 매우 큰 상태의 병변을 관찰할 수 있다.<sup>7)</sup> 유충이 죽으면 지주막염이 발생할 수 있고, 환자의 증상은 급격히 악화된다. 이것은 척수 신경낭미충증의 예후가 안 좋을 수 있다는 것을 시사한다.

자기공명영상은 척수 신경낭미충증에서 가장 도움이 되는 검사이다. 낭은 T1 강조영상에서 뇌척수액과 주로 동일한 신호강도를 보인다. T2 강조영상에서는, 높은 단백질 함량 때문에 신호강도가 증가한다. Rahalkar 등<sup>8)</sup>은 감염의 단계에 따른 신경낭미충증의 방사선적 특성을 기술하였다. 신경낭미충증은 초기 소포기(vesicular stage) 동안 편심성의 머리마디(scolex)를 가지고 있는 양성 병변으로 나타난다. 두 번째 교질 소포기(colloidal vesicular stage)에서는 병변을 둘러싼 부종을 관찰할 수 있고, 이는 사멸하는 유충에 의한 염증반응 때문이다. 마지막 단계는 석회화 병변이 특징적이다. 일반적으로, 두 번째와 세 번째 단계에서는 병변부 신호강도 증가를 관찰할 수 있다. 병변이 석회화되었다면 퇴행성 신경낭미충의 낭을 관찰하는 데 자기공명영상보다 컴퓨터



단층촬영이 더 유용하다.

혈액과 뇌척수액의 효소결합면역분석(enzyme-linked immunosorbent assay)을 이용한 혈청학적 검사는 비록 높은 위양성과 위음성률을 갖고 있지만, 유행지역에서는 비교적 신뢰할 수 있는 결과를 보여준다. 그러나 요추천자는 척추의 경막하 폐쇄(spinal subdural block)가 있는 환자에서 예상하지 못한 신경학적 악화를 초래할 수 있기 때문에 주의하여야 한다.

신경낭미충증은 조직학적 검사를 통해 확진이 가능하다. 수술 내 낭미충증에서는 낭이 콜라겐 캡슐로 둘러싸여 있는데, 이것이 낭미충이다. 지주막 낭미충증에서는 낭미충이 콜라겐의 증식과 염증반응을 유도한다. 따라서 지주막하 부위에 낭의 군집이 형성되고, 이는 병변이 포도송이 모양(racemose type)으로 관찰되는 것과 연관이 있다.<sup>9)</sup>

치료는 내과적 치료와 외과적 치료로 분류한다. 내과적 치료는 praziquantel과 albendazole이 일차 약제로 사용된다. 부가적으로 낭의 퇴행성 변화와 관련된 지주막염, 뇌염, 혈관염에는 코르티코스테로이드 치료가 효과가 있다. 신경낭미충증에서 수술적 치료의 역할은 질환의 확진과 신경압박증상의 완화이다. 신경낭미충증에 의한 척수나 신경근 압박으로 인한 신경학적 증상은 수술적 치료의 적응증이 된다.

수술 시에 낭을 제거한 후 고장성 식염수 또는 희석된 베타딘 용액으로 수술 부위를 세척하는 것은 낭미충의 사멸에 도움을 준다.<sup>10)</sup>

척수낭미충증 환자의 예후는 낭의 위치, 염증 정도 및 증상 지속기간과 관련성을 가진다. 예를 들어, 척수의 염증이나 지주막염이 동반된 경우에는 적절한 수술적 치료에도 불구하고 예후가 좋지 않을 수 있다. 또 다른 예로 지주막하 신경낭미충증에서는 albendazole을 더 오랜 기간 동안 사용해야 좋은 예후를 보인다고 알려져 있다.

본 증례에서는 적절한 수술적 감압 및 약물치료가 이뤄졌음에도 불구하고 환자가 수술 후 발생한 폐색전증으로 사망하였다. 고령 및 술 후 제한된 동작으로 침상안정가료에 따른 심부정맥혈전증이 원인으로 생각된다. 이를 예방하기 위해 술 후 압박스타킹(compression stocking)을 착용시키고 환자에게 침상에서 꾸준히 움직이도록 교육하면서 심부정맥혈전증 과거력이 있거나 비만, 고령, 가족력등 심부정맥혈전증 위험요소가 있는 환자의 경우 항응고제 투여도 고려해 볼 수 있겠다.

척수낭미충증은 드물지만 척추내 종괴가 의심되는 고 위험군 환자에서 반드시 감별해야 될 질환이다. 척수낭미충증의 최신 치료 지침은 후궁판 절제술과 낭미충 제거를 통한 수술적 감압 및 약물치료가 알려져 있다. 광범위한 척수를 침범하여 낭미충의 완

전한 제거가 불가능한 본 증례와 같은 경우에는 제한적인 낭 절제 및 약물치료가 하나의 선택사항이 될 수 있다.

## CONFLICTS OF INTEREST

The authors have nothing to disclose.

## REFERENCES

1. Martinez HR, Rangel-Guerra R, Arredondo-Estrada JH, Marfil A, Onofre J. Medical and surgical treatment in neurocysticercosis a magnetic resonance study of 161 cases. *J Neurol Sci.* 1995;130:25-34.
2. Kim SW, Lee SM. Sacral intradural cysticercosis misdiagnosed as brain tumor metastasis. *J Korean Neurosurg Soc.* 2005;37:67-9.
3. Chang GY, Keane JR. Visual loss in cysticercosis: analysis of 23 patients. *Neurology.* 2001;57:545-8.
4. Kishore LT, Gayatri K, Naidu MR, Mateen MA, Dinakar I, Ratnakar KS. Intermedullary spinal cord cysticercosis: a case report and literature review. *Indian J Pathol Microbiol.* 1991;34:219-21.
5. Colli BO, Assirati Júnior JA, Machado HR, dos Santos F, Takayanagui OM. Cysticercosis of the central nervous system. II. Spinal cysticercosis. *Arq Neuropsiquiatr.* 1994;52:187-99.
6. Paterakis KN, Kapsalaki E, Hadjigeorgiou GM, Barbanis S, Fezoulidis I, Kourtopoulos H. Primary spinal intradural extramedullary cysticercosis. *Surg Neurol.* 2007;68:309-11; discussion 312.
7. Alsina GA, Johnson JB, McBride DQ, Rhoten PR, Mehringer CM, Stokes JK. Spinal neurocysticercosis. *Neurosurg Focus.* 2002;12:e8.
8. Rahalkar MD, Shetty DD, Kelkar AB, Kelkar AA, Kinare AS, Ambardekar ST. The many faces of cysticercosis. *Clin Radiol.* 2000;55:668-74.
9. Holtzman RN, Hughes JE, Sachdev RK, Jarenwattananon A. Intramedullary cysticercosis. *Surg Neurol.* 1986;26:187-91.
10. Schnepfer GD, Johnson WD. Recurrent spinal hydatidosis in North America. Case report and review of the literature. *Neurosurg Focus.* 2004;17:E8.

# 뇌낭미충증에 동반한 광범위한 흉요추 경막내 척수낭미충증

정유훈 · 이영상<sup>✉</sup> · 은동찬 · 변찬웅

분당제생병원 정형외과

*Taenia solium*에 의한 신경낭미충증은 뇌를 침범하는 가장 흔한 중추신경계 기생충 감염 질환이다. 그러나 척수를 침범하는 신경낭미충증은 드물다고 알려져 있다. 척수낭미충증은 병변의 위치와 크기에 따라 상하지 방사통, 척수증, 말초증후군, 또는 상하지 마비 등의 증상을 일으킬 수 있다. 약물 단독치료는 낭종의 괴사에 의한 염증반응을 유발하여 결국은 임상적 경과를 악화시킬 수 있기 때문에 일차적으로 수술적 치료가 필요하다. 현재 척수낭미충증의 표준적인 치료는 수술적 압박과 이후의 약물치료로 알려져 있다. 저자는 뇌낭미충증을 동반한 광범위한 흉요추 경막내 척수낭미충증을 치료한 증례 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

**색인단어:** 척추, 낭미충증, *Taenia solium*

접수일 2017년 8월 31일 수정일 2017년 9월 12일 게재확정일 2017년 10월 16일

<sup>✉</sup>책임저자 이영상

13590, 성남시 분당구 서현로180번길 20, 분당제생병원 정형외과

TEL 031-779-0175, FAX 031-779-0179, E-mail [yslee2808@gmail.com](mailto:yslee2808@gmail.com), ORCID <https://orcid.org/0000-0002-8520-5149>