

흉추의 병적골절을 보인 심한 신성 골이영양증 1례 -증례 보고-

이송주¹, 이은미¹, 임학¹, 정연순¹, 장재호²

고신대학교 의과대학 복음병원 내과학 교실¹, 정형외과학 교실²

A Case of Severe Renal Osteodystrophy with Pathologic Fractures of Vertebra

Songju Lee¹, Eunmi Lee¹, Hark Rim¹, Yeonsoon Jung, Jaeho Jang

Department of Internal Medicine¹, Department of Orthopaedic Surgery²,
Kosin University College of Medicine, Busan, Korea

Abstract

A 33-year-old woman presented with tingling sensation and weakness in the both hands and feet. She had a diagnosis of secondary hyperparathyroidism caused by renal failure. Her height was shortened due to severe kyphosis. On plain radiograph, there were fractures on both femoral necks and pathologic fracture on thoracic vertebra. An MRI scan of the spine demonstrated a expansile, heterogeneous hypointense lesion of the 2nd thoracic spine, which remained hypointense on T2 images. Following total parathyroidectomy the patient underwent a thoracic decompression and spinal stabilization from the back.

Hyperparathyroidism may cause brown tumor and tumor associated pathologic fracture in the spine. Involvement of the spine with neural compression is extremely rare. An early spinal decompression with parathyroidectomy leads to remission of symptoms.

Key words : renal osteodystrophy, brown tumor, fracture, hemodialysis

서 론

이차적 부갑상선기능항진증은 말기 신부전 환자의 흔한 합병증이며, 근골격계 변형을 초래할 수 있으며 연부 조직 및 심혈관계의 석회화를 유발한다.¹⁾ 이러한 환자에서 혈청 칼슘, 인과 부갑상선 호르몬의 농도는 심혈관질환에 의한 입원율과 사망률의 증가와 연관이 있을 것으로 알려져 있으며²⁾, 골절의 위험률을 올려 이에 따른 사망률 및 의료비 증가에 기여할 것으로 생각되고 있다.^{3,4)} 하지만 이러한 환자에서의 골절의 위험요소 및 예견인자에 대해서는 아직 명백하게 밝혀지지 않은 상태다.

부갑상선기능항진증이 있는 신부전 환자에서 척추종양이 발견된다면 갈색종양의 가능성을 떠올려야 한다. 비

록 갈색종양의 호발 부위가 안면골, 턱, 골반, 흉골, 갈비뼈와 대퇴골이지만 척추에도 매우 드물게 발생할 수 있는 것으로 보고되고 있다.^{5,6)}

저자들은 만성 신부전으로 진단 받고 13년간 장기 혈액 투석 중인 환자에서 이차성 부갑상선기능항진증이 적절히 조절되지 않아 심한 골격계 변화를 보인 신성 골이영양증 환자에서 갈색종양으로 추측되는 척추종양에 의한 병적골절 및 양측성 대퇴경부 골절을 보인 예를 보고하고자 한다.

증 례

환 자 : 김○○, 33세, 여자

주 소 : 손발저림과 몸높이의 감소

현병력 : 13년 전부터 개인의원에서 혈액투석치료를 받아오고 있는 환자로 본원 방문하기 4년 전부터 척추 후

교신저자 : 임 학

주소 : 602-702 부산광역시 서구 암남동 34번지
고신대학교 의과대학 복음병원 내과학교실
TEL : 051-990-6208, FAX : 051-990-3048
E-mail : rimhark@hanmail.net

만증 진행되었으며 몸높이가 투석시작하기 전 163 cm에서 내원 당시 145.5 cm였다. 흉부 불편감과 호흡곤란이 동반되었다. 최근 1년 전부터 심해지는 손발저림 증상을 호소하였으며 양측 골반부의 통증도 호소하였다.

과거력 : 내원 13년 전 말기신부전으로 진단받고 혈액투석치료를 시작하였으며 당시 원인신질환은 만성사구체신염으로 추정되었다. 14년 전부터 고혈압으로 혈압약을 복용하고 있었다.

가족력 : 어머니가 자궁암이었으며, 그 외 특이 소견 없었다.

신체검사 소견 : 소뇌 검사, 감각 검사상 특이 소견 없었으나 상지 근력은 (우측 Gr 5/좌측 Gr 5), 하지 근력은 (Gr 4/Gr 4)로 다소 감소되어 있었다. 심부건 반사는 이두근 (+++/+++), 삼두근 (+++/+++), 상완요골근 (++/++)이었고, 무릎 반사 (+++/+++), 발목 반사 (+++/+++ 등)로 항진되어 있었다.

검사 소견 : 말초혈액 검사상 혈색소 8.0 g/dl, 헤마토크리트 23.3 %, 백혈구 수 9,300/mm³, 혈소판 수 347,000/mm³이었고, 적혈구 침강속도는 86 mm/hr이었다. 혈청 생화학 검사에서 크레아티닌 6.8 mg/dl, 나트륨 140 mEq/L, 칼륨 5.4 mEq/L, 염소 99 mEq/L, 칼슘 9.5 mg/dl, 인 3.6 mg/dl, 마그네슘 2.6 mg/dl, 총단백질 6.5 g/dl, 알부민 2.9 g/dl, alkaline phosphatase 1,180 IU/L였으며, 면역계수 측정법에 의한 부갑상선 호르몬 (intact PTH) 1,900 pg/ml 이상 (정상치 14~72 pg/ml)이었다.

방사선학적 검사 : 경부초음파검사서 0.89x0.72x0.79 cm 크기의 우하부 부갑상선(약 0.3 ml), 0.76x0.54x1.209 cm 크기의 우상부 부갑상선(약 0.3 ml), 1.19x0.82x1.06 cm 크기의 좌하부 부갑상선(약 0.5 ml), 0.48x0.82x1.38 cm 크기의 좌상부 부갑상선(약 0.3 ml)이 확인되었다. 좌하부 부갑상선은 컬러 도플러 검사에서 다소의 혈관 발달이 보였다. ⁹⁹Tc-sestamibi 스캔 검사에서 좌측 경부의 섭취증가 외 타부위의 증가는 관찰되지 않았다. 뼈스캔 검사에서 전체 골에서 동위원소섭취가 증가되어 있었으며 하악골, 상악골 및 엉치뼈의 골섭취가 증가되어 있었다(Fig 1). 골밀도검사서 요추의 T-score는 -5점이었고 대퇴경부는 -3.2점이었다. 단순홍추방사선 사진에서 두 번째 홍추의 압박골절이 관찰되었으며 단순골반방사선 사진에서 양측대퇴경부의 압박골절이 관찰되었다. 상하지근력감소 평가를 위해 뇌와 경추의 자기공명영상을 얻었다. 머리덮개뼈의 diploic space의 확장과 함께 T2W 영상에서 골수의 영상의 감소되어 있었고(Fig 2), 두 번째

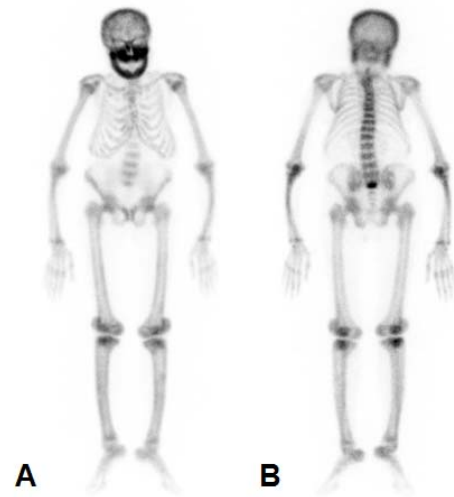


Fig. 1. Bone scan shows increased uptake of entire skeleton, especially at mandible and maxilla (A), Focal uptake at sacrum (B).

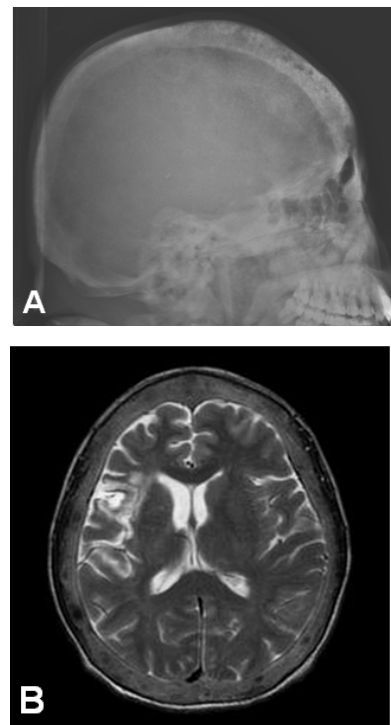


Fig. 2. Plain radiograph shows salt and pepper appearance (A). T2-weighted MRI shows enlargement of diploic space in calvarium and multiple hypointense signals in bone marrow (B).

홍추의 팽창성 종양 및 병적골절, 이로 인한 척수압박 소견이 관찰되었다(Fig 3).

치료경과 : 부갑상선전절제술 및 우 부갑상선 자가 이식 수술을 시행하였으며 수술 2개월 후에도 신경학적 증상

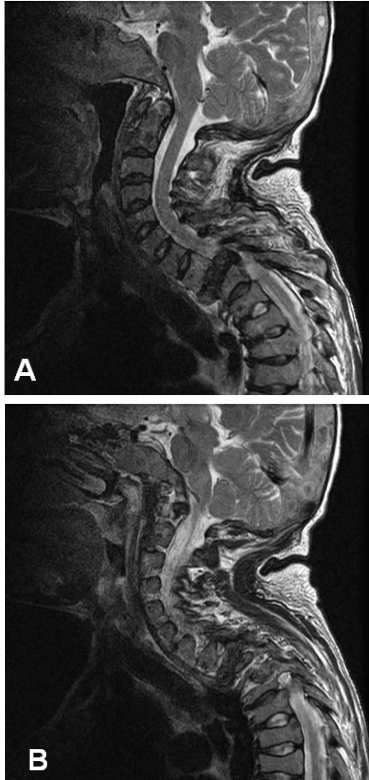


Fig. 3. T2-weighted sagittal MRI shows a large hypointense expansile mass lesion at 2nd thoracic vertebra.

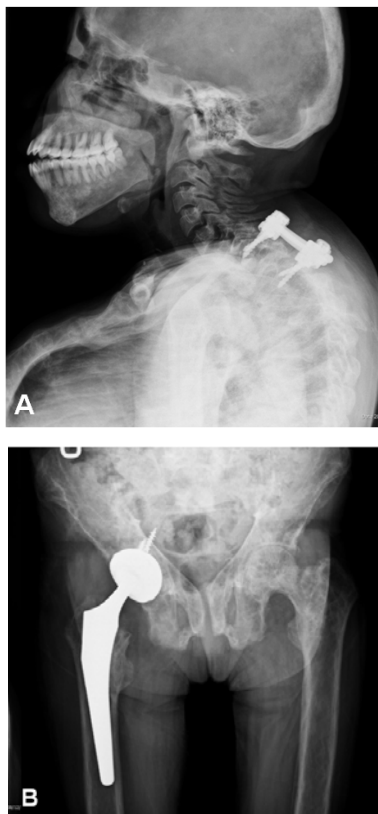


Fig 4. Plain radiographs of after surgery with implants *in situ*.

의 호전이 없어 흉추에 후방감압술 및 후방고정술을 시행하였다(Fig 4-A). 척추수술 1개월 후 우측 대퇴경부의 통증의 호전이 없어 우측 대퇴골두전치환술을 시행하였다(Fig 4-B).

고 찰

미국 Renal Data System의 자료에 따르면 만성신질환 5기의 환자들이 일반인에 비해 고관절골절의 위험률이 4배가 높다고 한다.⁷⁾ 또한 이러한 골절은 말기신부전으로 투석중인 환자의 사망률과 의료비 소모를 증가시키는 주요 원인이 되고 있다.^{3,4)} 골절의 위험인자로서 부갑상선 호르몬 농도와 골밀도 검사 등이 제기되고 있으나 명백한 원인에 대한 연구가 필요한 상태이다.^{4,8)}

Atsumi 등⁹⁾은 일본 투석환자를 대상으로 한 연구에서 낮은 부갑상선 호르몬 농도(5~61 pg/mL)가 높은 호르몬 농도의 환자보다 골절률이 2.4~1.6배 높은 것으로 보고하였으며 Danese 등⁴⁾도 300 pg/mL 정도의 농도에서 골절의 위험이 낮은 것으로 보고하였다. 하지만 NKF-KDOQI 가이드라인에서¹⁰⁾ 제시하는 바와 같이 부갑상선 호르몬이 너무 낮거나 너무 높은 경우 신성골이영양증의 위험률이 높으므로 만성신질환 5기의 환자에서는 150~300 pg/mL를 유지하는 것이 바람직하다. 본 증례의 환자에서도 부갑상선호르몬의 농도가 1900 pg/mL 이상으로 골조직검사를 시행하지는 않았으나 고골절환 골절환 (high turnover bone disease)의 가능성이 높은 상태에서 척추 및 고관절골절이 동반된 것으로 사료된다. 본 증례의 환자에서와 같이 부갑상선기능항진증이 있는 환자에서 다발성의 골절이 병발할 수 있으며 특히 척추골절은 척추압박으로 인한 비가역적인 신경손상까지 유발할 위험이 있으므로 말기신부전 환자에서 부갑상선기능항진증의 적절한 관리 및 골절에 대한 정기적인 추적관찰이 중요하겠다. Jamal 등⁸⁾은 골절이 있는 만성신질환 환자에서의 메타분석에서 dual-energy X-ray absorptiometry (DXA)로 측정한 골밀도 검사가 낮았다고 보고하였다. 골조직소견과 골밀도검사의 일치율은 낮은 것으로 알려져 있고 만성신질환에서 골절위험이 높지만 골밀도 검사와 골절 위험률과는 연관이 없다는 주장도 있으나⁹⁾ 혈액투석 환자에서의 척추골절과 요추 골밀도와 연관성에 대한 보고들도 있다.^{12,13)} 본 증례의 환자에서는 요추의 T-score가 -5로 낮았다.

NKF-KDOQI 가이드라인에서는¹⁰⁾ 만성신질환 5기의 환자에서 부갑상선호르몬 농도를 3개월마다 측정하여 내과적 치료에 불응하며 고칼슘혈증 및 고인산혈증을 동반하는 경우에 부갑상선 호르몬의 농도가 800 pg/mL 이상일 경우, 또는 500 pg/mL 이상이면서 calciphylaxis가 동반된 경우는 부갑상선절제술을 시행할 것을 권하고 있다. 부갑상선 절제술은 수술적인 치료와 증재적 시술이 있는데 이러한 부갑상선절제술은 골격계 변형을 악화시키거나 중지시키는 것으로 알려져 있다.¹⁴⁾ 본 증례와 같이 골격의 변화가 심하고 부갑상선호르몬 농도가 높은 경우는 부갑상선전절제술 및 자가이식수술을 시행하는 것이 바람직하므로 수술을 시행하였다.

갈색종양은 부갑상선기능항진증에서 파골성 증식과 섬유모세포성 증식이 증가되면서 생기는 양성종양으로 안면골, 턱, 골반, 흉골, 갈비뼈와 대퇴골이지만 척추에도 드물게 발생할 수 있는 것으로 보고되고 있다.^{5,6)} 갈색종양은 컴퓨터단층촬영에서 단일화된 조직밀도의 골용해성종양으로 나타나며 자기공명영상에서 T1과 T2 영상에서 hypointense 한 팽창성의 종양으로 나타난다.¹⁵⁾ 본 증례의 환자에서 영상으로 갈색종양에 적합한 소견을 보였으나 술 중 일부 얻어진 조직에서는 갈색종양의 특징인 거대세포 등의 소견은 볼 수 없었고 osteoid matrix가 증가되어 병적골절 이후에 보이는 신생골 형성만 관찰할 수 있었다.

흉추의 골절에 대하여는 척수압박으로 인한 신경학적 퇴행이 나타났으므로 척수감압 및 재건수술을 시행하였다. 이러한 수술은 환자의 심한 골다공증 및 비정상적인 골치유, 감염 가능성 등으로 인해 어려운 수술로 알려져 있으나¹⁶⁾ 신경을 보존하기 위해 선택해야 한다. 환자의 흉곽이 척추후만증이 심한 상태로 수술적으로 전방감압술이 어려워 후방감압술 및 후방고정술을 시행하였으며 술 후 합병증은 없었다. 척추수술 1개월 후 우측 대퇴골 두전치환술을 시행하였고 좌측의 선상골절은 현재 부갑상선절제술 후 경과를 관찰하고 있다. 수술 후 6개월이 지났으나 현재까지 신경학적 이상소견 및 통증악화 소견은 보이지 않고 있으며 혈청 칼슘 8.5 mg/dL, 인 2.5 mg/dL, 부갑상선호르몬 2.1 pg/mL 로 환자의 대사상태는 안정화되어 있다.

상기 증례의 환자는 장기투석치료 중인 환자로 이차성 부갑상선 기능항진증의 적절한 치료가 늦어져 진행된 심한 골격변화로 심한 척추후만증 및 몸높이의 감소가 있었고, 머리뿔개뼈의 두께증가 및 salt and pepper 양상이

관찰되었다. 척추 및 대퇴골두의 골절로 수술적 치료가 필요한 상태였다. 상기 환자는 투석환자에서 정기적인 부갑상선 기능항진증에 대한 감시 및 적절한 치료의 중요성을 다시금 일깨워주는 환자로 생각된다.

참고문헌

- 1) Martin KJ, Gonzalez EA : Metabolic bone disease in chronic kidney disease. *J Am Soc Nephrol* 18:875-885, 2007
- 2) Marco MP, Martínez I, Amoedo ML, Borrás M, Saracho R, Almirall J, Fibla J, Fernández E : Higher impact of mineral metabolism on cardiovascular mortality in a European hemodialysis population. *Kidney Int Suppl* 85:S111-S114, 2003
- 3) Schumock GT, Sprague SM : Clinical and economic burden of fractures in patients with renal osteodystrophy. *Clin Nephrol* 67:201-208, 2007
- 4) Danese MD, Kim J, Doan QV, Dylan M, Griffiths R, Chertow GM: PTH and the risks for hip, vertebral, and pelvic fractures among patients on dialysis. *Am J Kidney Dis* 47:149-156, 2006
- 5) Bullough PG. Neoplastic diseases of bone. In: Mills SE, editor, Sternberg' 's diagnostic surgical pathology, ed 4. Vol 1. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins, 2004:245-264
- 6) Kaya RA, Cavuşoğlu H, Tanik C, Kahyaoglu O, Dilbaz S, Tuncer C, Aydın Y : Spinal cord compression caused by a brown tumor at the cervicothoracic junction. *Spine J.* 7:728-732, 2007
- 7) Alem AM, Sherrard DJ, Gillen DL, Weiss NS, Beresford SA, Heckbert SR, Wong C, Stehman-Breen C : Increased risk of hip fracture among patients with end-stage renal disease. *Kidney Int* 58:396-399, 2000
- 8) Jamal SA, Hayden JA, Beyene J : Low Bone Mineral Density and Fractures in Long-Term Hemodialysis Patients: A Meta-Analysis. *Am J Kidney Dis* 49:674-681, 2007
- 9) Atsumi K, Kushida K, Yamazaki K, Shimizu S, Ohmura A, Inoue T : Risk factors for vertebral fractures in renal osteodystrophy. *Am J Kidney Dis* 33:287-293, 1999
- 10) National Kidney Foundation: K/DOQI Clinical Practice Guidelines for Bone Metabolism and Disease in Chronic Kidney Disease. *Am J Kidney Dis* 42:S1-S201, 2003
- 11) Cunningham J, Sprague SM, Cannata-Andia J, Coco M, Cohen-Solal M, Fitzpatrick L, Goltzmann D, Lafage-Proust MH, Leonard M, Ott S, Rodriguez M, Stehman-Breen C, Stern P, Weisinger J : Osteoporosis Work Group.: Osteoporosis in chronic kidney disease. *Am J Kidney Dis* 43:566-571, 2004
- 12) Stehman-Breen C : Risk of hip fracture among dialysis and renal transplant recipients. *JAMA* 288:3014-3018, 2002
- 13) Yamaguchi T, Kanno E, Tsubota J, Shiomi T, Nakai M, Hattori S : Retrospective study on the usefulness of radius and lumbar bone density in the separation of hemodialysis patients with fractures from those without fractures. *Bone* 19:549-555, 1996

- 14) Komaba H, Tanaka M, Fukagawa M : Treatment of chronic kidney disease-mineral and bone disorder (CKD-MBD). Intern Med. 2008;47(11):989-994.
- 15) Joyce J, Idea RJ, Grossman SJ, Liss RG, Lyons JB : Multiple brown tumors in unsuspected primary hyperparathyroidism mimicking metastatic disease on radiograph and bone scan. Clin Nucl Med 19:630-635, 1994
- 16) Fineman I, Johnson PJ, Di-Patre PL, Sandhu H : Chronic renal failure causing brown tumors and myelopathy. J Neurosurg 90:242-246, 1999