

강직성 척추염에 수반된 양측성 측두하악관절 강직

전북대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실

송 주 섭 · 고 광 준

Ankylosing Spondylitis Associated with Bilateral TMJ Ankylosis

Ju-Seop Song, Kwang-Joon Koh

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Chonbuk National University

ABSTRACT

A 31-year-old male with the complaint of severe limitation of mouth opening was referred to our department of Chonbuk National University Hospital. The physical status of the patient was hyposthenic. Extraoral examination showed no condylar movement of the both temporomandibular joints, no pain, no facial swelling or paresthesia. Intraoral examination showed several cervical caries on the upper anterior teeth, and gingival swelling on the whole dentition. Transcranial view showed no condylar movement, and narrowing of joint spaces. Chest P-A view showed straightening of thoracic, lumbar spine, and squaring of vertebrae of the same spines. Conventional lateral radiograph of cervical spine showed calcification of the intervertebral ligament. Computed tomograph showed extensive bone formation between temporal bone and the condylar head at both sides. Laboratory findings showed positive reaction on HLA-B27 histocompatibility antigen and increased level of IgA, IgG, ESR. Based on the clinical, radiographic, and the laboratory findings, final diagnosis was made as bony ankylosis of the both temporomandibular joints secondary to ankylosing spondylitis. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2000 ; 30 : 217-222)

KEY WORDS : bony ankylosis, temporomandibular joint, ankylosing spondylitis

서 론

강직성 척추염은 만성 염증성 관절질환으로 40세 이하에서 많이 발생되며^{1,4} 0.19-1%의 발생빈도를 보인다.² 또한 이 질환은 척추와 천장골부 관절을 침범하고 관절운동을 제한시켜 골성 강직을 유발하거나 척추의 만곡을 야기하는 질환으로 말초관절에 이환될 수 있으며 이환된 관절에서 동통이나 관절운동의 감소가 나타날 수 있고, 강직성 척추염이 심하게 진행된 증례에서는 폐와 심혈관계에 합병증이 유발될 수 있다.

방사선학적 소견으로는 초기에는 방사선사진상의 변화를 보이지 않으나 질환이 진행됨에 따라 관절부 골변연이 불분명해지며 불규칙한 연골하 침식상을 보이고 반점상의 골경화상을 보이게 된다. 이 질환의 후기에는 관절부 골의 경화상이 더욱 뚜렷해지며 골의 형성으로 인해 관절강의

소실을 보이고 경우에 따라서는 골다공증을 나타낼 수도 있다.^{2,3,5,6} 척추는 경추의 융합, 요추의 직방형화(straightening & squaring)를 보이고 인대결합이 석회화되어 특징적인 대나무모양의 척추(bamboo spine)를 보일 수 있다.^{7,8}

조직병리학적으로 초기의 윗관절부 병소는 림프구와 형질세포의 미만성 침윤, 림프소포의 형성, IgG, IgA가 증가된 혈장을 보인다. 강직화 현상은 처음 윗관절부의 염증으로 시작되어 이 부위의 조직이 육아조직화되고 섬유모세포가 증가하여 이환된 관절강의 섬유화가 나타나고 칼슘이 침착되어 골성 강직이 유발된다.⁷

강직성 척추염환자의 혈액화학적 검사에서는 적혈구침강속도가 증가되며 IgA의 수치가 증가되고 혈청 creatinine kinase와 알카리성 인산효소가 증가되며 중등도의 호중구성 백혈구가 증가되어 나타난다. 또한 강직성 척추염환자는 HLA-B27 조직적합성 항원과 관련성이 많은 것으로 보고되고 있다.^{7,8}

증 례 보고

본 환자는 32세 남성 환자로 1998년 심한 개구제한을

접수일: 2000년 6월 5일 채택일: 2000년 7월 1일
Correspondence to: Prof. Kwang-Joon Koh
Department of Oral & Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Chonbuk National University, 634-18 Keumam-dong, Dukjin-gu, Chonju, Chonbuk, South Korea 561-712
Tel) 063-250-2023, Fax) 063-250-2081
E-mail) radkoh@moak.chonbuk.ac.kr

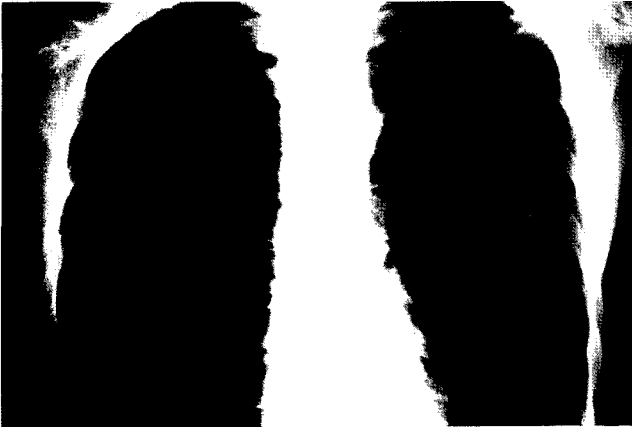


Fig. 1. Chest P-A view shows straightening and squaring of the vertebrae, formation of syndesmophyte between vertebrae, so called "bamboo spine".

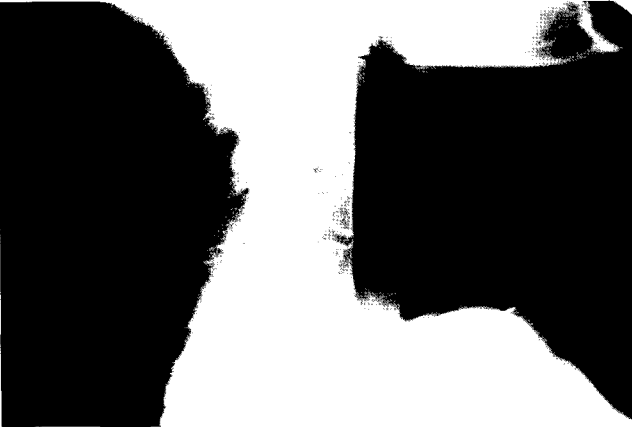


Fig. 2. Conventional lateral radiograph shows intervertebral syndesmophyte formation and straightening of the cervical spines.

주소로 본원에 내원하였다. 1991년 고관절 부위에 재건수술을 받은 경험이 있으며 정상적인 보행이 어려운 상태였다. 환자는 최대 개구량이 1 mm 미만인 상태였으며, 개구장애에 의한 식사곤란으로 인해 마른 체형을 보이고 있었다. 또한 전신적으로 경추의 굴절과 강직 양상, 그리고 척추만곡을 보여 상체가 전방으로 굽은 상태였다.

흉부후전방사선사진에서는 경추와 요추에서 인대결합의 석회화, 요추에서 방형화된 척추형태로 인해 특징적인 대나무모양의 척추상을 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 경추의 측방사진에서는 척추간 인대결합의 석회화 및 경추의 직선화를 관찰할 수 있었다(Fig. 2). 또한 슬관절부측방방사선사진에서는 관절부 골의 진행된 경화상을 관찰할 수 있었으나 관절강의 협소화나 소실은 관찰할 수 없었다. 이는 약 20년전 슬관절부의 관절염치료에 의한 것으로 보인다.

경두개방사선사진과 스캐노라 단층사진에서 좌우측 측

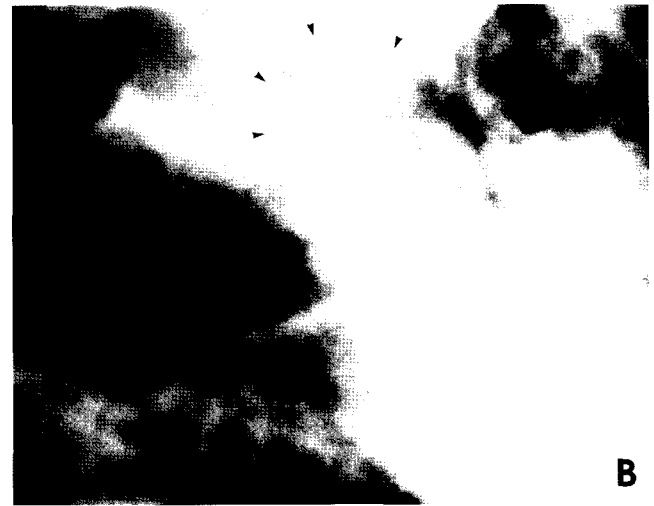


Fig. 3 A, B. Transcranial view (maximum opening) shows narrowing of joint space, marked limitation of the both condyles during opening.

두하악관절의 골형성으로 인해 골변연이 불분명하며 관절강이 소실되어 있고 하악과두의 전방운동이 거의 이루어지지 않고 있었다(Figs. 3, 4). 또한 전산화단층사진에서는 좌우측 측두하악관절의 골성 강직을 관찰할 수 있었다(Fig. 5).

혈액화학적검사소견으로 적혈구침강속도가 22 mm/hr의 수치를 보였으며 HLA-B27조직적합성 항원에 양성반응을 보였다.

치료는 좌우측 측두하악관절부의 증식된 골을 제거하고 하악과두의 형태를 복원시킨 후 보철물을 삽입하였다.

수술직후 최대개구량은 약 20 mm였으며 지속적으로 증가하여 3주 뒤 재내원하여 검사하였을 때 최대개구량은 30 mm로 초진시보다 호전된 상태를 보였다. 또한 자발적인 동통이나 촉진시 통증은 발생하지 않았으며 양측 측두하악관절부의 종창도 관찰되지 않았다.

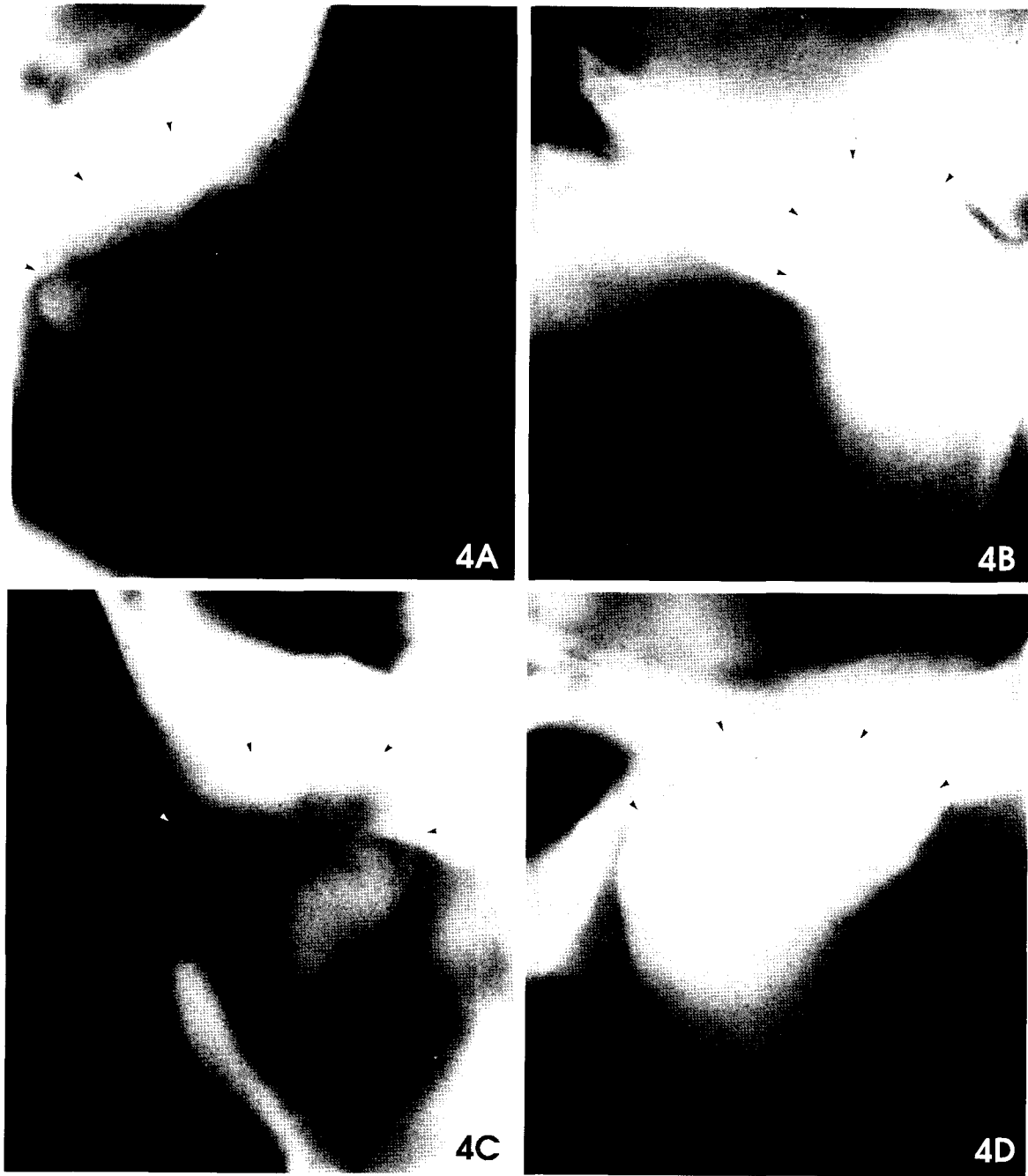


Fig. 4 A, B(Rt). C, D(Lt). Scanograms show extensive irregular bone formation between articular fossa and condylar head, narrowing of joint space and marked limitation of condylar movement.

고 찰

강직성 척추염은 주로 척추와 천대퇴골 관절을 침범하는 만성 염증성 관절질환으로 말초관절부에서 심한 임상 증상을 나타낸다.^{1,3,8,13} 주로 인대의 석회화와 골화로 인해 침범된 관절에 골성 강직을 유발한다. 또한 말초관절의 침범은 양측성으로 많이 발생되며 고관절과 측두하악관절에 주로 침범되고 양측에서 거의 유사한 소견을 관찰할 수

있다.^{7,8}

강직성 척추염은 드물게 발생하는 질환으로 환자의 성별에 따른 이환율의 차이는 없다. 측두하악관절의 이환은 주로 양측성으로 나타나며,⁸ Maes와 Dihlmann¹⁰은 관절강의 협소화, 과두형태의 불규칙화, 측두근이 부착되는 인접근돌기의 골막염 등을 포함하여 약 4%의 이환율을 보고하였다. 또한 Crum과 Loiselle¹¹은 동통과 제한된 개구운동 등을 포함하여 약 15%의 이환율을 보고하였는데 이들은

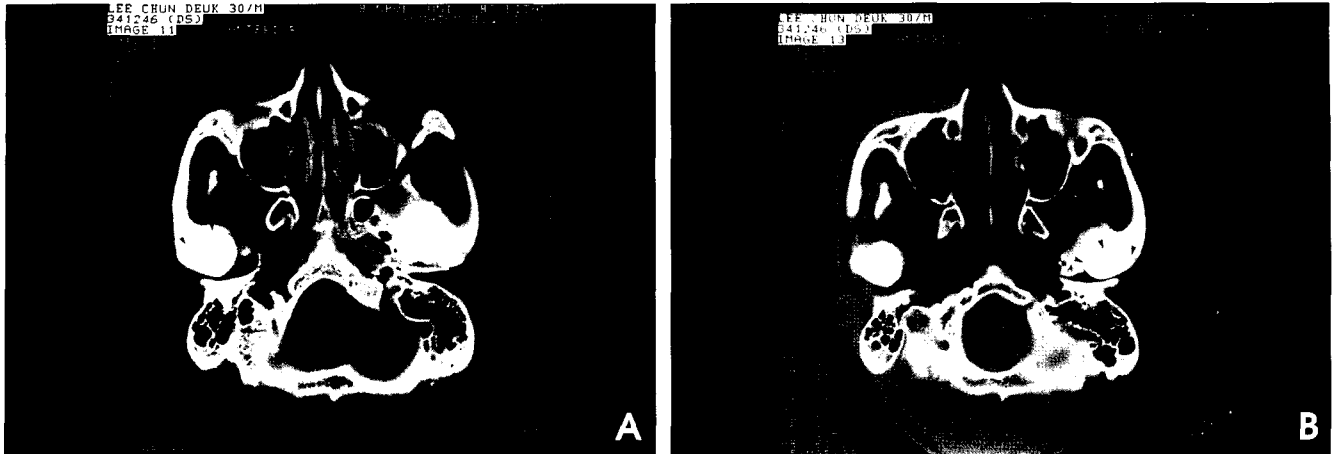


Fig. 5 A, B. Computed tomograph shows irregular bone formation between articular fossa and condylar head on the both sides. And it shows irregular margin of cortical bone on the both condylar heads.

이러한 증상이 주로 근경련이나 두경부의 자세이상, 교합 이상에 따라 2차적으로 발생한다고 하였다. 한편 Davidson 등¹²은 측두하악관절을 포함한 말초관절부 이환율이 약 42%라고 보고하였으며 제한된 개구운동이 주된 임상증상이라고 하였다. Wenndeberg와 Kopp¹³는 강직성 척추염 환자와 건강한 사람으로 구성된 그룹을 비교하여 측두하악관절부에서 개구운동의 제한, 동통, 뻣뻣함 등의 증상이 약 32%의 환자에서 나타났다고 보고한 바 있다. 또한 Forestier 등,¹⁴ Einaudi와 Viara²²는 6-8%로 보고한 바 있으나 Sander¹⁵는 매우 낮다고 하였다.

양측성으로 측두하악관절이 이환된 경우에는 관절부에 광범위한 융합과 골의 과증식, 운동제한 등이 나타날 수 있다. 이러한 상태는 환자의 경추가 강직되어 더욱 심해질 수 있다.

측두하악관절강직은 주로 외상, 국소적 또는 전신적 감염, 그리고 강직성 척추염, 류마티스성 관절염, 건선형 관절염과 같은 전신성 류마티스질환과 관련되어 나타날 수 있다. 류마티스성 관절염의 경우에는 자발적으로 해소되는 급성 동통이나 압통이 나타나는데 영구적인 개구운동의 제한은 거의 일어나지 않는다. 강직성 척추염 환자에서 측두하악관절이 이환된 경우 관절운동이 심하게 제한되기 이전에는 심각한 임상증상은 발현되지 않는다. 이러한 경우 류마티스성 관절염에 비해 질병의 진행이 비교적 완만하고 면역학적 반응이 발생되지 않아 간과되는 경우도 있다.¹⁶ 또한 강직성 척추염의 경우 저작근이 이환될 수 있으며 측두하악관절의 운동제한이나 경추의 강직으로 인해 과부하되어 두부의 자세가 변화될 수 있다. 또한 경추가 굴곡되어 이로 인해 턱이 가슴에 근접됨으로써 측두하악관절 기능의 평가가 어려울 수 있다.¹⁷ 본 증례의 환자에서도 경추가 전방으로 굴곡되고 강직되어 있었으나, 이미 양측 측두하악관절에 골성 강직이 유발되어 기능이 현저히

제한되어 있었기 때문에, 이로 인해 측두하악관절에 관련된 저작근의 긴장이나 신경전도의 이상으로 측두하악관절에 기능 이상이 초래되는지는 확인할 수 없었다.

임상적으로 측두하악관절의 심한 강직과 연관되어 구강 위생상태의 불량으로 치아나 치주질환이 야기될 수 있으며, 본 증례의 환자에서도 상악 전치부 순측에 치아우식이 다수 관찰되었다. 또한 NASID에 의해 위장질환이 발생된 경우에는 구강을 통한 기구사용이 제한되어 진단과 치료가 어렵다. 그리고 측두하악관절의 심한 강직시에는 전신 마취시 그 위험도가 상당히 증가되므로 주의해야 한다.¹⁷

이 질환은 조직적합성 항원인 HLA-B27과 밀접한 관련이 있는 것으로 보고되고 있으며,^{7,8} 약 90% 이상의 강직성 척추염환자에서 양성반응을 보이고 주로 류마티스성질환에서 HLA-B27 항원에 양성반응을 보이는 것으로 알려져 있다. HLA-B27에 양성반응을 보이는 경우에는 안구의 통증이나 광공포증, 결막출혈 등의 증상이 나타나며, 이는 질환의 심각성과는 관련이 없다.⁷

심한 강직성 척추염 환자는 상부 폐부위에 양측성으로 만성적인 침윤성 섬유화가 진행되며 이러한 양상은 결핵 소견과 유사한데, 이는 섬유화와 공동화에 의해 간질성 폐렴이 치유되는 과정에서 나타나는 것이다. 이러한 경우 임상증상은 기침, 가래, 호흡곤란 등이 있을 수 있으며 폐기능의 감소는 늑골척추관절, 늑연골관절의 강직화로 인해 유발된다. 그러나 가스의 교환기능은 일반적으로 횡격막의 기능이 유지되므로 손상받지 않는다. 또한 이 질환에 수반되는 심혈관계 합병증으로는 동맥부전, 심비대 등이 있으며 이는 약 3-10%의 환자에서 나타난다.⁷

척추의 방사선사진에서 대나무모양의 척추, 인대결합의 석회화, 척추체 상부나 하부에서의 침식병소인 Romanus 병소, 경추의 융합, 척추후만증 (kyphosis), 척추측만곡 (scoliosis), 골다공증, 척추의 방형화 등이 주로 관찰되는데, 척

주간 인대결합의 석회화는 HLA-B27 항원에 양성인 환자에서 음성인 환자에서보다 더 많이 관찰되며 다른 소견들은 그 발생빈도에 있어 통계학적으로 유의한 차이는 보이지 않는다. 또한 요추의 직선화, 요추골 및 하부 흉추골의 방형화, 척추원판의 전외측을 따라 인대결합의 석회화로 인해 인접 척추골간에 'bridge'를 형성하여 특징적인 'bamboo spine' 양상을 보인다. 이러한 양상은 성인의 류마티스성 관절염에서는 나타나지 않는 양상으로 질환의 감별점이 될 수 있다.^{7,8,16}

측두하악관절의 골변화를 인지하는데는 전산화단층촬영이 가장 우수한 검사방법이며, 일반단층촬영과 비교하였을 때 특히 관절의 외측과 내측에서 더 높은 대조도와 공간해상도를 나타낸다.² 한편 Remus 등¹⁸은 강직성 척추염환자의 측두하악관절에 대한 자기공명영상을 연구한 바 있다.

측두하악관절이 이환된 경우 과두 관절면의 편평화와 골증식체 형성으로 과두의 형태가 변화되고 관절면의 침식이나 골경화로 인해 피질골 외형의 변화가 관찰될 수 있다. 관절의 골 침식상은 관절주변에서의 염증성 반응에 의해 야기되는 것으로 생각된다.^{1,16} Wenndberg와 Kopp¹³는 방사선사진에서 주로 관절강의 협소화, 관절부 골침식상, 과두운동의 제한, 골증식체 형성, 관절부 골탈회, 광범위한 골경화상 등을 관찰할 수 있다고 보고하였다. 본 증례의 환자에서는 양측 측두하악관절에서 하악과두와 하악와 사이에 불규칙한 골형성으로 관절강이 협소화되고 소실되어 있었으며, 개구시 하악과두의 운동이 관찰되지 않았다. 그러나 관절부의 골침식상이나 골경화상등은 명확히 관찰되지 않았는데, 이는 이 질환이 상당히 진행되어 광범위하게 골이 형성되었기 때문으로 사료된다.

한편 Wenneberg 등^{1,16}은 류마티스성 관절염 환자에서는 과두의 피질골 침식상이 남성에서보다 여성에서 더 흔하다고 하였으며, 강직성 척추염환자에서 측두하악관절이 이환된 경우에는 여성보다 남성에서 과두 피질골의 침식상이나 편평화가 더 흔하게 나타난다고 하였고, 건선형 관절염환자에서는 성별 차이가 없다고 보고하였다. 또한 이들 환자에서 정상인보다 측두하악관절의 과두에서 방사선사진상 변화가 더 흔하게 발견된다고 하였다. 방사선학적 변화는 강직성 척추염에 수반된 측두하악관절강직을 나타내는 환자에서보다 류마티스성 관절염환자에서 더 많이 관찰되며, 특히 관절의 피질골 변화가 다른 질환에 비해 더 뚜렷하게 관찰된다.¹⁶ 또한 강직성 척추염에 이환된 측두하악관절에서는 초기에는 비정상적인 방사선사진상을 거의 관찰할 수 없으며 비교적 질환의 후기에 변화된 양상을 관찰할 수 있다. 그러나 류마티스성 관절염의 경우에는 초기부터 관절부 골침식상이 방사선사진에서 관찰될 수 있다.¹⁹

조직병리학적으로 강직성 척추염의 초기 양상인 활액병

소는 혈관내막의 세포과증식을 수반한 류마티스성 관절염의 양상과 유사하다. 이 두 질환에서 모두 림프구와 형질세포의 미만성 침윤, 림프세포의 형성, IgG나 IgA를 함유한 혈장을 관찰할 수 있다.⁷

혈액화학검사서 본 증례의 환자는 적혈구침강속도가 정상 성인 남성의 0-9 mm/hr 범위보다 증가된 수치인 22 mm/hr를 보였다. 적혈구 침강속도의 증가는 대개 급성염증이나 기질적인 조직의 파괴가 일어난 경우에 나타나는 것으로 본 환자의 관절부의 파괴와 염증상태에 의해 유발된 것으로 사료된다.

강직성 척추염의 원인은 알려져 있지 않으며 치료는 대부분 증상의 완화에 중점을 두고 있다. HLA-B27과 관련되어 나타나는 증상은 국소적인 스테로이드와 동공산대제를 투여함으로써 증상을 완화시킬 수 있다. NSAIDs는 동통과 염증을 해소시키기 위해서 투여한다. phenylbutazone은 배통이나 요통을 해소하거나 척추의 융합속도를 감소시킬 목적으로 투여하는데 이는 치명적인 골수기능 손상의 부작용이 있을 수 있다. 또한 indomethacin은 두통과 현기증 등의 부작용이 있을 수 있다. 그리고 강직성 척추염의 치료시에는 자세교정을 통한 물리적인 치료가 요추와 고관절부에 부착된 신근을 신장시키는데 도움을 주며 적절한 자세와 수면자세를 유지함으로써 증상을 완화시킬 수 있다. 비가역적으로 골격변형이 유발된 경우에는 'wedge ostectomy'가 시행될 수 있다.⁷

Thoma²⁰는 악골운동이 심하게 제한된 경우에는 condylectomy를 시행하여 상태의 개선을 도모할 수 있다고 하였다. 중두개와로의 이환을 최소화하기 위해서 Gap arthroplasty로 부드러운 관절면을 형성하고 이형골의 형성을 최소화하기 위해 silastic을 삽입할 수 있다.²¹ 수술 후 초기에 적극적인 물리치료가 하악개구운동을 유지시키기 위해서 필요하나 수술 1년이 지나면 환자의 개구량은 다시 상당히 감소되므로 지속적인 물리치료와 자세교정이 시행되어야 한다.^{9,21} 본 증례의 환자에서는 양측 측두하악관절부에 과두절제술을 시행하고 잔존된 과두 형태를 부드럽게 재형성하였다. 수술 후 적극적인 자세교정과 개구 운동을 통해 최대개구량이 30 mm를 보였으며 이후 주기적인 재내원시에 최대개구량의 감소는 관찰되지 않았다.

결론적으로 강직성 척추염은 드물지만 심각한 합병증을 유발할 수 있으며 측두하악관절의 심한 강직을 초래할 수 있으므로, 이러한 변화를 초기에 인지하기 위해서 정기적으로 문진, 촉진 및 절치간 거리나 하악골의 전방과 측방운동을 포함한 임상검사가 시행되어야 하며 척추에 대한 평가도 적절히 이루어져야 한다. 이러한 주의깊은 관찰과 적절한 검사는 강직성 척추염환자의 생리적인 기능을 회복시키기 위한 성공적인 치료에 필수적인 것으로 사료된다.

참 고 문 헌

1. Wenneberg B, Hollender L, Kopp S. Radiographic changes in the temporomandibular joint in ankylosing spondylitis. *Dentomaxillofac Radiol* 1983; 12: 25-30.
2. Chow TK, Ng WL, Tam TK, Kung N. Bilateral ankylosis of temporomandibular joint secondary to ankylosing spondylitis in a male Chinese. *Scand J Rheumatol* 1997; 26: 133-4.
3. Wenneberg B, Kopp S, Hollender L. The temporomandibular joint in ankylosing spondylitis. Correlations between subjective, clinical, and radiographic features in the stomatognathic system and effects of treatment. *Acta Odontol Scand* 1984; 42: 165-73.
4. Moll JMH. *Ankylosing spondylitis*. Edinburgh, London, Melbourne & New York: Churchill Livingstone; 1980.
5. Katzberg RW. Temporomandibular joint imaging. *Radiology* 1989; 170: 297-307.
6. Wenneberg B, Kopp S. Subjective symptoms from the stomatognathic system in ankylosing spondylitis. *Acta Odontol Scand* 1982; 40: 215-22.
7. Dachowski MT, Dolan EA, Angelillo JC. Ankylosing spondylitis associated with temporomandibular joint ankylosis: report of a case. *J Craniomandib Disord* 1990; 4: 52-7.
8. Spencer DG, Park WM, Dick HM, Papazoglow SN, Buchanan WW. Radiological manifestations in 200 patients with ankylosing spondylitis: Correlation with clinical features and HLA B27. *J Rheumatol* 1979; 6: 305-15.
9. Topazian RG. Comparison of gap and interposition arthroplasty in the treatment of temporomandibular joint ankylosis. *J Oral Surg* 1966; 24: 405-9.
10. Maes HJ, Dihlmann W. Befall der temporomandibulargelenke bei der spondylitis ankylopoetica. *Fortschr Roentgenstr* 1968; 109: 513.
11. Crum RJ, Loisel RJ. Temporomandibular joint symptoms and ankylosing spondylitis. *J Am Dent Assoc* 1971; 83: 630-3.
12. Davidson C, Wojtulewski JA, Bacon PA, Winstock D. Temporomandibular joint disease in ankylosing spondylitis. *Ann Rheum Dis* 1975; 34: 87-91.
13. Wenneberg B, Kopp S. Clinical findings in the stomatognathic systems in ankylosing spondylitis. *Scand J Dent Res* 1982; 90: 373-81.
14. Forestier J, Jacqueline F, Rotes-Querol. *Ankylosing spondylitis*. St. Louis: Mosby; 1956. p. 154.
15. Sanders B. Temporomandibular joint ankylosis secondary to Marie-Strumpell disease. *J Oral Surg* 1975; 33: 784-6.
16. Wenneberg B, Könönen M, Kallenberg A. Radiographic changes in the temporomandibular joint of patients with rheumatoid arthritis, psoriatic arthritis, and ankylosing spondylitis. *J Craniomandib Disord Facial Oral Pain* 1990; 4: 35-9.
17. Wenneberg B and Kopp S. Clinical findings in the stomatognathic system in ankylosing spondylitis. *Scand J Dent Res* 1982; 90: 373-81.
18. Remus CR, Rocha OP, Ludwig RN, et al. Magnetic resonance changes in the temporomandibular joint in ankylosing spondylitis. *J Rheumatol* 1997; 24: 123-7.
19. Franks AST. Temporomandibular joint in adult rheumatoid arthritis. *Ann Rheum* 1969; 28: 139.
20. Thoma KH. *Oral Surgery*. 5th Ed. St. Louis: Mosby; 1969. p. 659.
21. Rankow R. Question: What is the best method to deal with bony ankylosis of the temporomandibular joint?. *Ann Plast Surg* 1978; 1: 627.
22. Einaudi G, Viara M. Ricerche sul comportamento dell'articolazione temporomandibolare nei paziente affetti da spondilite anchilosante. *Reumatismo* 1964; 16: 351.
23. Chou CT, Pei L, Chang DM et al. Prevalence of rheumatic diseases in Taiwan: a population study of urban, suburban, rural differences. *J Rheumatol* 1994; 21: 302-6.