



측두하악관절 장애를 보인 두개저 골수염: 증례보고

류병길 · 윤현중 · 이상화

가톨릭대학교 여의도성모병원 구강악안면외과

Abstract

Temporomandibular Joint Disorder from Skull Base Osteomyelitis: A Case Report

Byoung-Gil Ryu, Hyun-Joong Yoon, Sang-Hwa Lee

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yeouido St. Mary's Hospital, The Catholic University of Korea

Skull base osteomyelitis is a very rare disease that affects the bone marrow of the temporal bone, sphenoid bone, occipital bone. It occurs typically chronic ear canal infections by malignant otitis externa, but some of atypical osteomyelitis have been reported. It most commonly presents old diabetic patients, and have high morbidity and mortality rate if diagnosis and treatment are delayed. However with respect to pain or dysfunction, it appeared similar to the initial symptoms of temporomandibular joint disorder. So frequently, definitive diagnosis is tend to delayed. We have clinical experience that a patient who presented with symptom similar to temporomandibular disorder, and differential diagnosed by skull base osteomyelitis. We will report this case with literature review

Key words: Osteomyelitis, Skull base, Temporomandibular disorders

서론

두개저 골수염(skull base osteomyelitis)은 측두골, 접형골, 후두골의 골수에 영향을 미치는 매우 드문 질환이다. 일반적으로 악성 외이도염에 의한 외이도 감염이 두개저로 진행하여 만성화되어 발생하나, 외이도염의 기왕력 없이 생기는 비정형적 두개저 골수염도 보고되고 있다. 주로 고령의 당뇨병을 가진 환자에서 발생하며, 다발성 뇌신경 마비와 더불어 높은 사망률을 가지는

심각한 질환이다. 하지만 이는 초기 증상으로 두통을 호소하는 등 동통이나 기능장애의 양상이 측두하악관절 장애(temporomandibular joint disorder, TMD)와 유사하게 나타나므로 임상적으로 감별 및 진단하기가 어려울 때가 많고, 자주 진단이 지연되는 경향이 있다[1]. 턱관절 관절 잡음과 저작 시 통증을 주소로 본원에 내원한 환자가 TMD와 유사한 증상으로 두개저 골수염으로 감별 진단한 임상경험이 있어 이에 대한 증례보고와 함께 문헌고찰을 하고자 한다.

원고 접수일 2012년 9월 19일, 원고 수정일 2012년 10월 6일,
게재 확정일 2012년 11월 23일

책임저자 이상화
(150-713) 서울시 영등포구 63로 10, 가톨릭대학교 여의도성모병원 구강악안면외과
Tel: 02-3779-2014, Fax: 02-769-1689, E-mail: justina@catholic.ac.kr

RECEIVED September 19, 2012, REVISED October 6, 2012,
ACCEPTED November 23, 2012

Correspondence to Sang-Hwa Lee
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yeouido St. Mary's Hospital,
The Catholic University of Korea
10, 63-ro, Yeongdeungpo-gu, Seoul 150-713, Korea
Tel: 82-2-3779-2014, Fax: 82-2-769-1689, E-mail: justina@catholic.ac.kr

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례보고

50세의 여환이 우측 턱의 관절 잡음과 저작 시 통증이 있다는 주소로 본원 이비인후과에서 구강악안면외과에 협진 의뢰되었다. 우측 이명과 청력 감소를 호소하여 이비인후과 진료를 시행하였으나 특이소견을 찾을 수 없었다. 환자는 문진상 약 1개월 전부터 시작된 우측 턱관절과 주변부의 불편감과 함께 두통, 안면부종을 호소하였다. 과거력상 혈압, 당뇨 그리고 면역결핍질환 등의 특이 사항은 없었다.

임상 검사상 우측 턱관절의 염발음(crepitus)이 확인되었으며 능동적 개구량은 42 mm로 측정되었고, 개구 시 우측 턱관절 부위의 통증이 관찰되었으며, 편향된 개구 소견은 보이지 않았다. 통증은 전혀 통증이 없는 경우를 0, 참을 수 없을 정도의 심한 통증이 존재하는 경우를 100으로 하는 visual analogue scales (VAS) 수치로 평가할 때 최대 개구 시 50, 전방 운동 시 50, 우측방 운동 시 30이었다. 통증은 개구 시 지속적으로 증가하여, 의식적인 개구운동의 제한이 있었다. 우측 측두근과 교근 그리고 우측 턱관절 측부에 압통점이 존재하였다.

파노라마 방사선 사진상 우측 측두하악관절 부위와 주변골의 특별한 변화는 발견되지 않았다(Fig. 1). 측두하악관절 자기공명 영상(temporomandibular joint magnetic resonance imag-

ing)에서 개구 시 좌측 관절원판의 정복성 전방변위가 관찰되었다. 이와 함께 T2 강조 영상에서 우측 측두골과 하악와는 주변 정상적인 골에 비해 저신호 강도를 보이고 동일부위의 조영 증가 양상을 보였다. 우측 측두골의 경화성 변화 그리고 하악와의 낭성 변화를 동반한 섬유성 골이형성이 관찰되어 만성 골수염으로 진단하였다(Fig. 2). ⁹⁹Tc (technetium) 골스캔(bone scan)상 우측 측두골 부위에 고도 섭취 증가 소견을 보였고(Fig. 3), 이에 측두골, 하악위에 발생한 만성 두개저 골수염으로 확정 진단하였다.

이후 환자는 2주간 Quinolone계 항생제와 통증 조절을 위하여 Aceclofenac과 함께 Tramadol, Acetaminophen 복합제의

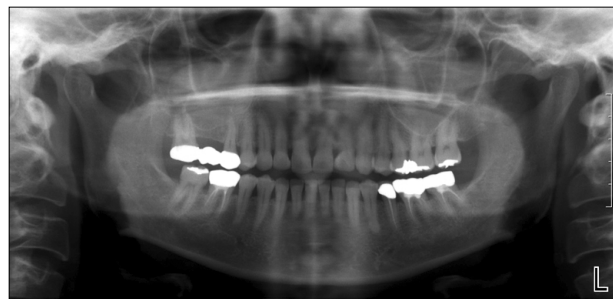


Fig. 1. Dental panoramic view.



Fig. 2. (A, B) Coronal, sagittal T1-weighted image demonstrates abnormal marrow enhancement that soft tissue with cystic change in mandibular fossa (arrow). (C) Sagittal T2-weighted image show low signal density as compared with normal muscle (arrow).

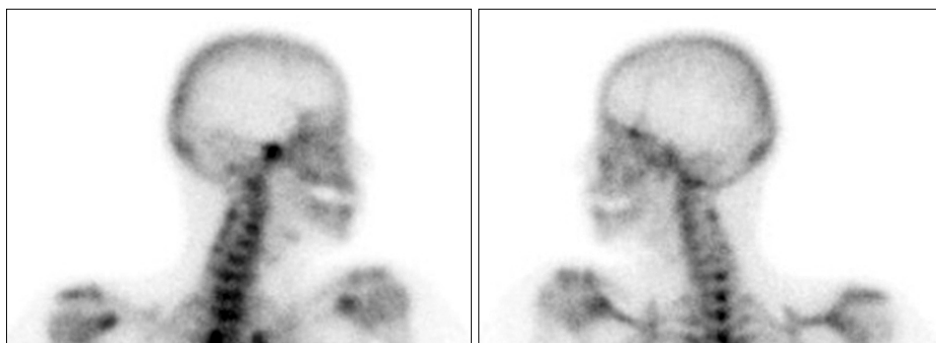


Fig. 3. Technetium bone scan shows intensive uptake is seen in right temporomandibular joint region.

치치를 진행하였다. 투약 3주 후 내원 시 환자는 양호한 통증 감소 결과와 기능회복을 보였다. 이후 지속적인 경과관찰을 시행하고 있다.

고 찰

두개저 골수염은 주로 악성 외이도염(malignant otitis externa)의 이차적인 감염을 통하여 나타난다. 악성 외이도염은 연조직, 연골 그리고 심각한 경우 기저골에까지 진행되는 괴사성 감염으로, 괴사성 외이도염(necrotizing otitis externa) 또는 두개저 골수염으로 분류된다. 만약 질병이 연조직에 국한된다면 악성 외이도염으로 불리며, 측두골이나 뇌기저 다른 부위로 진행된다면 두개저 골수염으로 불린다. 여러 연구에서 두개저 골수염과 악성외이도염은 동일한 개념으로 언급하나 병태 생리학적으로 기저골 침범 시 두개저 골수염으로 언급하는 것이 더욱 적합하다[1].

중요한 위험인자로는 면역억제, 당뇨, 만성 유양돌기염(mastoiditis), 부비동염, 악성 외이도염, 감염질환이 항생제로 불충분하게 치료된 경우, 스테로이드 사용 또는 인간면역결핍 바이러스(human immunodeficiency virus)에 감염되는 등 면역이 저하된 경우이다[2]. 이 중 두개저 골수염으로 입원한 환자에 연관된 가장 많은 질환은 당뇨였으며[3], 두개저 골수염이 가장 특징적으로 나타나는 경우는 당뇨가 있는 노인에서 만성 외이도염에 의한 감염이 이차적으로 측두골에 연관되어 나타나는 경우였다[4]. 하지만 외이도염에 대한 기왕력 없이 생기는 비정형적 두개저 골수염(atypical skull base osteomyelitis)도 드물게 보고되고 있다[5].

두개저 골수염은 진단과 치료가 지연될 경우 다발성 뇌신경마비와 더불어 사망률이 28~60%에 이르는 치명적 질환이다[6]. 원인으로 대부분 녹농균(*Pseudomonas aeruginosa*, 99.2%)이 가장 흔하며 국균(*Aspergillus*), 칸디다(*candida*)가 원인인 진균성 두개저 골수염도 매우 드물게 관찰된다[7].

두개저 골수염의 진단을 위하여 전산화 단층촬영(computed tomography) 및 자기공명영상, 골스캔이 유용하게 쓰이며, 생검은 종양의 확인을 위하여 쓰인다. 전산화 단층촬영은 외이도의 골침식과 두개저 골염의 변화(osteitic changes)와 골 파괴 정도를 구분한다. 자기공명영상은 부인두강 지방(parapharyngeal fat) 또는 목혈관 신경집(carotid sheath)에 침투한 감염의 확산에 의한 안면 부종을 설명할 수 있으며, 연조직의 변화를 나타내 병변 범위를 확인하는 데 도움이 된다. 또한 T2 강조영상을 통하여 염증에 의한 체액성 내용물을 볼 수 있고 신호 강도의 변화와 조영 강도의 변화는 두개저부 골의 병적인 변화를 알 수 있는 장점이 존재한다[8,9]. 골스캔 중 technetium 골스캔은 전산화 단층촬영으로 골파괴를 확인하기 어려운 경우 필요하다. 이는 골형성 또는 골파괴 세포의 활동성이 있으면 양성반응을 보이므로

골수염의 초기 진단에 도움이 될 뿐만 아니라 질병의 활성을 평가하는 데 유용하다. Gallium 골스캔은 감염 진행 여부와 치료의 정도를 판단하는 데 유용하다

치료는 당뇨나 면역결핍 환자에서 일차적으로 즉시 전신상태를 조절하는 것이 가장 중요하다. 이후, 적절한 국소적, 정맥내 항생제 사용과 외이도 염증성 육아조직의 제거를 시행한다. 치료 반응은 gallium 골스캔과 환자의 증상 호전 정도로 평가하며[10] gallium 골스캔이 정상이 되면 1주일간 더 항생제 투여를 시행하고 치료를 중지하며, 1달 후 재촬영을 한다[2]. 치치는 보존적 치료가 우선적으로 시행되지만, 염증조직의 제거 및 소파술의 수술적인 치치는 질병의 진행을 멈추고 증상을 완화시키는 선택적 치료방법이 될 수 있다[11]. 또한 고압산소요법(hyperbaric oxygen)이 적용된 환자에서도 치료의 성공적 사례가 보고되기도 하였다[9].

전형적인 두개저 골수염은 당뇨나 면역 억제 환자에서 외이도의 감염이 뇌기저로 진행되어 발생한다. 따라서 모든 악성 외이도염 환자들은 위험요소를 가진다. 특히 당뇨와 같은 전신질환을 가진 환자, 오랜기간 악성 외이도염 치료를 받은 환자는 두개저 골수염의 가능성을 고려해야 할 것이다[12]. 하지만 본 증례와 같은 두통 이외에 외이도염 또는 뇌신경마비 등의 증상이 존재하지 않는 비정형적 두개저 골수염은 자기공명영상이 기저골의 이상을 나타내기 전까지 진단할 수 없다[5]. 초기 증상으로 두통을 나타내나, 이때 명백한 감염원이 없고 당뇨나 면역결핍 등의 위험인자가 없어 진단이 어려우며 TMD와 같은 다른 질환과 두통과의 감별진단 또한 어렵다. 따라서 정확한 진단을 내리지 못한 채 뇌신경침범으로 인한 외안근의 약화가 발생 이후 방사선 영상을 통하여 발견하게 된다[13].

이와 같이 두개저 골수염으로 종양, 골수염 등에 의한 질병특유의 전형적인 증상 및 징후가 동반되지 않고 이차적으로 TMD의 증상만 유발하는 경우, 해당원인에 대한 진단 및 치료가 지연됨으로 심각한 합병증이 초래될 수 있다. 특히 두개저 골수염은 치료가 지연됨에 따라 제7신경에 가장 빈번하게 이환되는 뇌신경 마비를 발생하게 하며 이 경우 예후는 상당히 불량하다[12]. 이후 두개내 병소의 확대와 더불어 사망에까지 이르게 된다[5].

일반적으로 치과의사는 비정상적 하악운동과 구강안면부 통증을 동반한 환자의 진단 시 다른 진단을 배제하며 TMD로만 진단하는 경향이 있다. 이때 다른 병적인 상태가 TMD와 유사한 증상을 나타낼 수 있다. 그러므로 술자는 항상 오진의 가능성을 인지하며, 일반적인 TMD 치료에 대한 반응을 알고 이를 주의 깊게 관찰해야 할 것이다[14].

Heo 등[14]은 초기 TMD로 잘못 진단된 환자에 대한 비교연구에서 최종진단은 양성, 악성 종양, 감염이나 염증 상태였음을 보고하였다. 특히 통증부위의 부종이 발생하거나 환자의 보고에 의하여 종괴가 발견될 때, 치료 시작 이후 증상의 호전 없이 악화될 때, 감각이상 등 신경학적인 문제를 발생할 때, 열이 발생할

때 재진단할 필요가 있다고 하였다. 이때 세심한 병력 청취, 주의 깊은 임상 검사가 필수적이며, 진단은 통상적 안면 방사선 사진 외 전산화 단층촬영과 골스캔 촬영 등 부가적인 진단검사를 적극적으로 시행하는 것이 바람직하다[15]. 특히 자기공명영상은 연조직 병소의 침습에 의한 골파괴의 특징적 결과를 보여주며, T2강조 영상의 저신호 강도를 보이는 경우 많은 경우에서 악성종양을 나타낸다[14].

Chang 등[16]은 TMD 증상과 비슷한 의이도 전상방의 비압통성 종괴의 돌출 및 턱관절 부위의 통증 그리고 경미한 부정교합을 동반한 측두골에 발생한 거대세포종양 증례를 보고하였다. 이는 혈액 검사를 포함한 진신 검사상 이상소견을 발견할 수 없었으나, 측두골 전산화단층촬영 영상과 자기공명영상에서 턱관절낭과 유착되어 있는 좌측 측두골의 종괴를 발견할 수 있었다.

최근 연구에서 신경학적 증상에서는 일반적인 방사선 영상보다 초기 진단에서 양전자 방출 단층촬영(dihydroxy phenyl alanine positron emission tomography, DOPA PET-CT)의 진단 검사가 유용함을 보고하였다. Terzic 등[17]은 턱관절 통증을 호소하는 환자에서 시행한 DOPA PET-CT상 재발된 악성 부신경절종(paraganglioma)으로 최종진단을 내린 증례를 보고하였다.

생검은 종양의 확인을 위하여 쓰일 수 있다. Menezes 등[18]은 초기 TMD로 진단된 후 하악골의 유방암의 전이로 진단된 증례를 보고하였다. 좌측 턱관절의 심한 통증을 호소한 환자는 임상적, 방사선적인 평가뿐 아니라 조직학적인 평가가 시행되었으며 하악골에 전이된 선암종(adenocarcinoma)으로 최종 진단하였다.

본 증례에서는 TMD를 나타낸 환자에서 진단검사 후 측두골에 발생한 두개저 골수염으로 확정 진단하였다. 환자는 현재까지 양호한 치유결과를 얻었기에 보고하는 바이다. TMD 증상을 나타내는 환자의 진단에서 세심한 병력청취 및 주의 깊은 임상검사가 필요하며, 정확한 감별진단을 위하여 통상적인 안면 방사선 촬영 이외에 전산화 단층촬영 및 자기공명영상 촬영 등 부가적인 진보된 방사선 진단검사를 적극적으로 시행하는 것이 바람직할 것이라 생각한다.

References

1. Benecke JE Jr. Management of osteomyelitis of the skull base. *Laryngoscope* 1989;99:1220-3.
2. Jeong HJ, Nam SK, Song IA, Lee SC, Kim YC. Cervicogenic headache from skull base osteomyelitis: a case report. *Korean J Pain* 2009;22:88-91.
3. Rothholtz VS, Lee AD, Shamloo B, Bazargan M, Pan D, Djalilian HR. Skull base osteomyelitis: the effect of comorbid disease on hospitalization. *Laryngoscope* 2008;118:1917-24.
4. Hsiao YC, Lee JC, Kang BH, Lin YS. Idiopathic osteomyelitis at the base of the skull. *South Med J* 2006;99:1121-3.
5. Chang PC, Fischbein NJ, Holliday RA. Central skull base osteomyelitis in patients without otitis externa: imaging findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 2003;24:1310-6.
6. Kountakis SE, Kemper JV Jr, Chang CY, DiMaio DJ, Stiernberg CM. Osteomyelitis of the base of the skull secondary to Aspergillus. *Am J Otolaryngol* 1997;18:19-22.
7. Marzo SJ, Leonetti JP. Invasive fungal and bacterial infections of the temporal bone. *Laryngoscope* 2003;113:1503-7.
8. Kountakis SE, Kemper JV Jr, Chang CY, DiMaio DJ, Stiernberg CM. Osteomyelitis of the base of the skull secondary to Aspergillus. *Am J Otolaryngol* 1997;18:19-22.
9. Friedman EM, Valdez TA. Otitis externa. In: Feigin RD, Cherry JD, Demmler-Harrison GJ, *et al.*, editors. *Feigin and Cherry's textbook of pediatric infectious disease*. 6th ed. Philadelphia: Saunders/Elsevier; 2009. p.215.
10. Parker KM, Nicholson JK, Cezayirli RC, Biggs PJ. Aspergillosis of the sphenoid sinus: presentation as a pituitary mass and postoperative gallium-67 imaging. *Surg Neurol* 1996;45:354-8.
11. Byun IY, Kim JH, Kang SH, Kim MK. Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2011;37:535-8.
12. Jacobsen LM, Antonelli PJ. Errors in the diagnosis and management of necrotizing otitis externa. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2010;143:506-9.
13. Malone DG, O'Boynick PL, Ziegler DK, Batnitzky S, Hubble JP, Holladay FP. Osteomyelitis of the skull base. *Neurosurgery* 1992;30:426-31.
14. Heo MS, An BM, Lee SS, Choi SC. Use of advanced imaging modalities for the differential diagnosis of pathoses mimicking temporomandibular disorders. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003;96:630-8.
15. Park JH, Kwon JS. Osteomyelitis involved in mandibular condyle. *Korean J Oral Med* 2008;33:383-6.
16. Chang KH, Lee BH, Jeon EJ, Yeo SW. A case of giant cell tumor in the temporal bone. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2007;50:1069-72.
17. Terzic A, Becker M, Wissmeyer M, Scolozzi P. 18F-DOPA PET/CT unravels malignant paraganglioma mimicking temporomandibular joint disorder. *Dentomaxillofac Radiol* 2011;40:315-9.
18. Menezes AV, Lima MP, Mendonca JE, Haiter-Neto F, Kurita LM. Breast adenocarcinoma mimicking temporomandibular disorders: a case report. *J Contemp Dent Pract* 2008;9:100-6.