

Case Report

레미테징후 단독으로 나타난 재발성 아토피척수염

인제대학교 의과대학 부산백병원 신경과학교실¹, 삼성합천병원²

지기환¹ · 최원철² · 서정화¹ · 정은주¹ · 김상진¹ · 김응규¹ · 배종석¹

Recurrent Atopic Myelitis Presenting as an Isolated Lhermitte's Sign

Ki-Hwan Ji¹, Won-Cheol Choi², Jung Hwa Seo¹, Eun Joo Chung¹, Sang-Jin Kim¹,
Oeung Kyu Kim¹, Jong Seok Bae¹

¹Department of Neurology, Busan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Busan; ²Samsung Hapcheon Hospital, Hapcheon, Korea

Atopic myelitis (AM) is a relatively mild form of myelitis associated with allergic diathesis, and present with predominant sensory manifestations. Lhermitte's sign has been considered as a relatively non-specific clinical sign suggesting demyelinating lesion in cervical cord. Here we report a patient with recurrent AM who presented with isolated Lhermitte's sign, both in first and second attacks. This report suggests that either the diagnosis or recurrence of AM can be frequently underdiagnosed because of its predominant sensory manifestations.

Key Words: Myelitis, Atopy, Lhermitte's sign

Received 3 September 2013; received in revised form 11 November 2013; accepted 13 December 2013.

아토피척수염은 고IgE혈증, 집먼지진드기 특이IgE항체 양성, 아토피질환 등을 특징으로 가지는 척수염으로서 최근 새로이 분류되는 질환군이다.^{1,2} 1997년 첫 보고가 있는 이후 주로 일본을 중심으로 보고가 있지만, 최근 우리나라에도 몇몇 보고가 있다.^{3,4} 아토피척수염은 다른 척수염에 비해 단계적인 증상악화나 변동이 있고, 감각증상이 흔한 반면 운동마비증상은 경미한 경향을 보이는 것으로 알려져 있다.^{4,5} 따라서 아토피척수염은 임상에서 감각증상을 주의 깊게 진찰하지 않으면 간과할 가능성이 있다. 필자들이

은 최근 척수염이 의심되지만 다른 증상이 전혀 없이 레미테징후(Lhermitte's sign)만을 보이는 아토피척수염 환자를 경험하였기에 보고한다.

증 례

48세 남자가 고개를 숙일 때 발생하는 등과 허리로 내려가는 전기가 흐르는 듯한 느낌이 불편하다고 왔다. 특이 질환이 없던 환자로서 50일 전부터 증상이 발생하였는데, 등에 전기가 오르는 느낌이 있으면서 좌측 다리까지 증상이 퍼져나갔고 이후 진행하여 양하지 모두에 불편감이 발생하였다. 환자는 용접하는 일을 하다가 현재는 자영업을 하고 있으며, 3년 전부터 해산물을 섭취 시에 피부가려움증이 생긴다고 하였다. 신경계 진찰에서 레미테징후가 저명하게 나타났고, 기타 근력, 감각 및 건반사는 정상이었다. 다른 신경계 이상 증상이나 징후는 없었으나 레미테징

Address for correspondence;

Jong Seok Bae

Department of Neurology, Busan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, 75 Bokji-ro, Busanjin-gu, Busan 614-735, Korea
Tel: +82-51-890-6148 Fax: +82-51-890-6130
E-mail: jsb_res@hotmail.co.kr

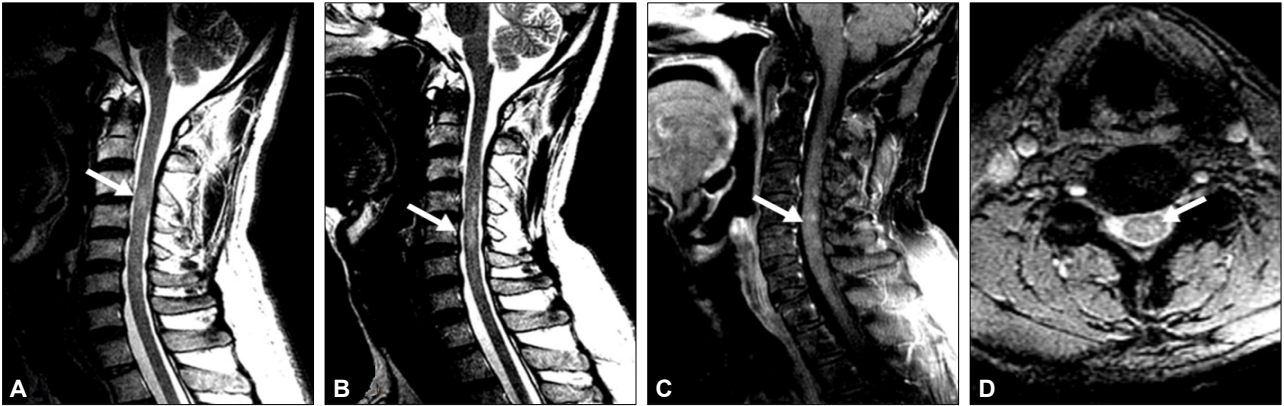


Figure 1. Cervical MRI findings. Initial image (A) showed focal high signal intensity at C3-4 level in T2-weighted image. Follow-up scans after 3 months demonstrate new lesion at C4-5 level in sagittal T2-weighted (B) and axial multiplanar gradient echo sequence (D) with a subtle enhancement in gadolinium-enhanced T1-weighted (C) image and original signal disappeared. Arrow indicates each lesion.

후가 명확하여 경수의 병변을 의심하고 척수자기공명영상을 시행하였다. 척수자기공명영상에서 C3-4부위에 부종을 동반하고 T2강조 영상에서 강한 신호음영을 보이는 병변을 확인하였다(Fig. 1-A). 시각 및 뇌간청각유발전위검사는 정상이었다. 체성감각유발전위 검사에서 좌측 후경골신경 (posterior tibial nerve) 자극시 P37 잠복기 및 LP-P37의 파간잠복기가 증가되어 중추 체성감각경로계 이상을 시사하였다. 혈액학적 검사에서 혈중 호산구는 7.8%, 혈중 IgE는 526.7 IU/mL (참고치: 240 IU/mL 미만)로 증가하였다. 형광면역분석법에 의한 특이 항체 검사에서, *Dermatophagoides farinae*에 대한 항체가 8.84 RU/L로, *Dermatophagoides pteromyssinus*에 대한 항체가 0.53 RU/L로 증가되었으며(정상치: 0.35 RU/L 미만), 계와 새우에 대한 항체도 증가하였다. 뇌척수액 검사에서 적혈구, 백혈구, 단백질 및 당은 정상이었으며, 올리고클론띠(oligoclonal band)는 관찰되지 않았다. 항핵항체, 항SS-A/SS-B 항체, 항카디오리핀항체, 루푸스 항응고제 등 자가면역항체는 검출되지 않았다. 뇌자기공명영상도 정상이었다.

아토피척수염으로 진단하고, methylprednisolone 1 g을 5일간 정주 치료 후 prednisolone 경구제재로 바꾸어 환자는 미약한 증상의 호전을 보인 상태에서 퇴원하였다. 3개월 뒤 prednisolone 10 mg을 복용하며 촬영한 척수자기공명영상에서는 이전 C3-4부위의 병변은 소멸되었으나, C4-5부위에 조영증강을 동반하는 T2강조 영상에서 강한 신호음영을 보이는 병변이 새롭게 관찰되었다(Fig. 1-B, C, D). 다시 자세한 신경계 진찰을 하였으나 환자는 레미테징후 이외 특이 소견은 보이지 않았고 퇴원 시와 증상의 차이는 없었다. 이후 prednisolone을 고용량으로 유지하면서 레미테징

후의 변화를 관찰하고자 하였으나 현재는 추적이 안 되는 상태이다.

고 찰

레미테징후는 경추부에서 호발하며, 목을 앞으로 굽힐 때 전기가 흐르는 듯하거나 저린 느낌이 순간적으로 목뒤로부터 허리를 따라 사지로 퍼지고, 바른 자세를 취하면 사라진다. 경우에 따라서 고개를 뒤로 젖힐 때 증상이 나타나는 reverse 레미테징후나, 사지로부터 위로 퍼지는 inverse 레미테징후가 발생하기도 한다.⁶ 레미테징후의 병태생리학적 메커니즘은 불명확하다. 보통 고개를 숙이는 행동이 척수 병변 부위의 손상된 유수축삭(myelinated axons)을 기계적으로 늘리고, 변형시켜 증상이 나타나는 것으로 보고 있다.^{7,8} 척수 내 배측 척주(dorsal column)의 감각 축삭의 손상, 자극 또는 압박을 가하는 어떠한 이유에도 발생할 수 있기 때문에, 다발성경화증, 비타민B12결핍증, 방사선노출, 시스플라틴독성, 척수종양 등 다양한 상황에서 나타날 수 있다.⁷ 보통 척수병변에서 레미테징후는 단독으로 나타나지 않고, 특이적인 감각 또는 운동증상 등을 동반한다. 신경과적으로는 다발성경화증, 비타민B12결핍증에서 대표적으로 나타나며,⁷ 다발성 경화증의 경우 환자의 반 정도에서 보인다.⁸ 신경과 외 영역에서는 주로 방사선 치료, 항암 치료제, 경추 손상 등에서 일부 보고되어, 유발 요인을 확인할 수 있는 경우가 대부분이다. 여러 형태의 척수 손상에서의 레미테징후는 수초의 합성과 전환 이상과 연관된 경부척수내 배측척주의 분절성수초탈락(segmental demyelination)이 원인이고, 희소돌기아교세포(oligodendrocyte)가 손

상으로부터 회복되어 수초 합성이 재개 시 호전된다.⁷

아토피척수염은 일반적으로 40대에 호발하고 2주 이상의 경과를 보이며 서서히 증상이 악화되고 비대칭적으로 나타난다. 운동증상은 없거나 미약한 반면 주로 감각증상이 나타나며 팔약근 증상은 드물다. 척수자기공명영상에서 조영증강되고 뇌척수액은 정상이다.⁵ 최근 한국의 보고와 비교하면 대부분은 일치하지만, 한국은 남성의 비율이 높고 병변이 경추보다 흉추 부위에서 호발하고 재발하는 경우가 많았다.^{3,4}

본 증례의 경우 40대 남성에서 아급성 경과를 취하여 아토피척수염에 부합되었지만, 레미떼징후 외에는 척수염을 의심할만한 어떠한 특이적 신경학적 증상이나 징후를 동반하지 않았다. 일반적인 척수염과 달리 스테로이드 치료 효과가 미미했고 경추부위에서 재발 하는 경과를 보였다. 최근의 연구는 이전 연구와는 달리 아토피척수염에서 재발이 드물지 않다고 보고하고 있다.³ 본 증례도 재발성의 아토피척수염이었고 첫 증상과 재발 모두 레미떼징후만이 단독 증상이었다는 점은 아토피척수염이 운동이상이 드문 이유로 인해 최초 진단이 안되거나 재발의 감지가 어려울 가능성을 시사한다. 추적관찰이 되지 않아서 장기적인 예후에 대해서는 알 수 없는 점과 기생충(toxocariasis 등)과 연관된 척수염에 대한 검사를 시행하지 않은 점은 한계점들이다.

본 증례는 레미떼징후 외에 어떠한 신경학적 이상도 동반하지 않는 아토피척수염이 존재할 수 있고, 뚜렷한 증상의 변화 없이도 아토피척수염이 재발할 수 있음을 제시한다. 레미떼징후는 환자가 느끼는 주관적인 증상이므로 의사가 레미떼징후의 의미를 알지 못하면 척수 MRI 검사를

시행하지 않게 되어 임상에서 간과할 가능성이 높다. 따라서 레미떼징후는 척수의 병변을 시사하는 중요한 신경학적 징후인 점과 아토피척수염이 운동이상이 없이 감각이상이 우세한 정도의 척수염인 점을 염두에 두고 이 병의 가능성에 주의를 기울인다면 임상에서 아토피 척수염의 진단 또는 재발의 감지를 간과하는 일을 최소화할 수 있을 것이다.

REFERENCES

1. Isobe N, Kanamori Y, Yonekawa T, Matsushita T, Shigeto H, Kawamura N, et al. First diagnostic criteria for atopic myelitis with special reference to discrimination from myelitis-onset multiple sclerosis. *J Neurol Sci* 2012;316:30-35.
2. Kira J, Yamasaki K, Kawano Y, Kobayashi T. Acute myelitis associated with hyperIgEemia and atopic dermatitis. *J Neurol Sci* 1997;148:199-203.
3. Lee KJ, Baek IC, LEE JY, Kim SB, Park SM, Lim JG, et al. Characteristics of atopic myelitis and its relationship with toxocara canis myelitis. *J Korean Neurol Assoc* 2013;31:158-164.
4. Yoon JH, Joo IS, Li WY, Sohn SY. Clinical and laboratory characteristics of atopic myelitis: Korean experience. *J Neurol Sci* 2009;285:154-158.
5. Osoegawa M, Ochi H, Minohara M, Murai H, Umehara F, Furuya H, et al. Myelitis with atopic diathesis: a nationwide survey of 79 cases in Japan. *J Neurol Sci* 2003;209:5-11.
6. Kempster PA, Rollinson RD. The Lhermitte phenomenon: variant forms and their significance. *J Clin Neurosci* 2008;15:379-381.
7. Gemici C. Lhermitte's sign: Review with special emphasis in oncology practice. *Crit Rev Oncol Hematol* 2010;74:79-86.
8. Al-Araji AH, Oger J. Reappraisal of Lhermitte's sign in multiple sclerosis. *Mult Scler* 2005;11:398-402.