

Kyphotic Deformity after Spinal Fusion in a Patient with Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis - A Case Report -

Jaedong Kim, M.D., Jaewon Lee, M.D., Ye-Soo Park, M.D.

J Korean Soc Spine Surg 2017 Jun;24(2):103-108.

Originally published online June 30, 2017;

<https://doi.org/10.4184/jkss.2017.24.2.103>

Korean Society of Spine Surgery
Asan Medical Center, 88 Olympic-ro 43 Gil, Songpa-gu, Seoul, 05505, Korea
Tel: +82-2-483-3413 Fax: +82-2-483-3414

©Copyright 2017 Korean Society of Spine Surgery

pISSN 2093-4378 eISSN 2093-4386

The online version of this article, along with updated information and services, is
located on the World Wide Web at:

<http://www.krspine.org/DOIx.php?id=10.4184/jkss.2017.24.2.103>

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Kyphotic Deformity after Spinal Fusion in a Patient with Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis - A Case Report -

Jaedong Kim, M.D., Jaewon Lee, M.D., Ye-Soo Park, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Guri Hospital, Hanyang University College of Medicine, Guri, Korea

Study Design: Case report.

Objectives: To report a case of progressive kyphotic deformity after spinal fusion in a patient with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH).

Summary of Literature Review: DISH is characterized by spinal and peripheral enthesopathy, and is a completely different disease from ankylosing spondylitis (AS). Though DISH can be associated with thoracic kyphosis, no reports have described a progressive thoracolumbar kyphotic deformity after spinal fusion surgery in a DISH patient.

Materials and Methods: A 47-year-old male presented with pain in the thoracolumbar region. After excluding the possibility of AS and confirming the diagnosis of DISH, we performed spinal fusion for the treatment of a T11-T12 flexion-distraction injury. The kyphotic deformity was found to be aggravated after the first operation, and we then performed corrective osteotomy and additional spinal fusion.

Results: The kyphotic deformity of the patient was corrected after the second operation.

Conclusions: In DISH patients in whom AS must be excluded in the differential diagnosis, a kyphotic deformity can become aggravated despite spinal fusion surgery, so regular and continuous follow-up is required.

Key words: Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH), Kyphotic deformity

미만성 특발성 골격 과골증(Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis, DISH)은 비염증성 척추관절증으로 척추의 관절 강직증과 골부착부 병증을 보인다.¹⁾ 미만성 특발성 골격 과골증은 강직성 척추염(Ankylosing spondylitis, AS)과 근본적으로 다른 질환으로 임상적, 방사선학적 특징을 통해 감별할 수 있다.²⁾ 미만성 특발성 골격 과골증과 강직성 척추염을 감별하는 데 도움이 되는 소견으로는 미만성 특발성 골격 과골증은 강직성 척추염에 비하여 상대적으로 발병 나이가 늦고 임상적으로 추체부의 통증과 추체 관절 운동 범위의 제한을 환자가 호소하나 일반적으로 강직성 척추염에 비해서는 그 정도가 경미하다.²⁾ 강직성 척추염은 천장골 관절의 하부를 침범하는 반면, 미만성 특발성 골격 과골증은 상부의 전인대를 비대칭적으로 침범하고 강직성 척추염에서는 특징적으로 척추체의 사각화(squaring)나 골단성 관절의 강직이 있는 반면, 미만성 특발성 골격 과골증에서는 해당 소견이 없다.²⁾ HLA B-27 검사 결과에 있어서도 강직성 척추염에서는 대부분 양성 소견을 보이나 미만성 특발성 골격 과골증에서는 매우 드물다.²⁾ 후종인대의 골화는 강직성 척추염 보다는 미만성 특발성 골격 과골증에서 더

흔한 증상이다.²⁾

척추 후만 변형은 나이, 성별, 외상력 등 다양한 원인에 의해 발생할 수 있고 미만성 특발성 골격 과골증과 척추 후만 변형의 관련성은 기존의 보고에서 찾을 수 있으나^{3,4)} 미만성 특발성 골격 과골증으로 진단된 환자에서 척추 유합술을 시행 후 진행되는 척추 후만 변형을 보고한 사례는 없었다. 이에 저자들은 강직성 척추염과 감별을 요하는 미만성 특발성 골격 과골증 환자에서 골절로 인한 수술적 치료 후 진행되는 후만 변형 1예를 경험하고 치료하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

Received: November 5, 2016

Revised: December 30, 2016

Accepted: April 25, 2017

Published Online: June 30, 2017

Corresponding author: Ye-Soo Park, M.D.

ORCID ID: 0000-0002-2801-2674

Department of Orthopedic Surgery, Hanyang University Guri Hospital, 153 Gyeongchun-ro, Guri 471-701, Korea

TEL: +82-31-560-2317, **FAX:** +82-31-557-8781

E-mail: hyparkys@hanyang.ac.kr

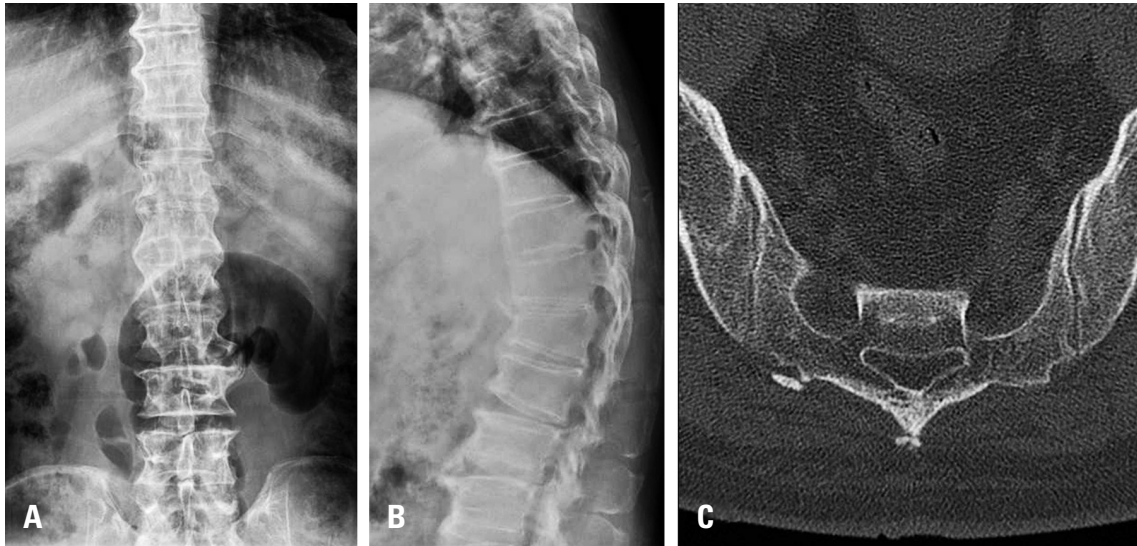


Fig. 1. Preoperative radiographs. **(A)** Anteroposterior view of a thoracolumbar spine radiograph shows osteophytes connecting the thoracic vertebrae. **(B)** Lateral view of a thoracolumbar spine radiograph shows a 'melted candle wax' appearance. **(C)** An axial computed tomography image of the pelvis shows no evidence of fusion, erosion, or sclerosis of the sacroiliac joint.

증례 보고

47세 남성이 흉요추부 동통을 주소로 내원하였다. 환자는 평소 특별한 허리 통증 없이 지내던 자로 내원 전 계단에서 넘어진 후 흉-요추 이행부의 심한 통증이 시작되었다고 하였다. 내원 당시 생체 징후는 안정된 상태로 이학적 소견상 흉-요추 이행부에 동통 및 운동 제한이 있었으나 신경학적 검사상 상하지의 감각 및 운동 마비는 없었다. 내원 후 시행한 흉요추부 단순 방사선 검사 상 전후면 영상에서 인접한 척추의 외측 변연을 이어나는 골화 소견이 관찰되며 “Bamboo Spine” 소견과 유사하게 관찰되었고 측면 영상에서 “melted candle wax” 소견이 관찰되었으며 흉추부 추간판 높이는 비교적 보전되어 있었다(Fig. 1A, B). 천추부 전산화 단층 촬영 소견 상 천장관절의 미란, 경화, 융합 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1C). 흉요추부 전산화 단층 촬영 및 자기 공명 영상 소견 상 제 11, 12흉추체의 골절과 극돌기 골절 소견이 보여(Fig. 2) 제 11-12흉추간의 굴곡-신연 손상을 진단하였다.

미만성 특발성 골격 과골증과 강직성 척추염을 감별하기 위하여 HLA-B27를 추가로 시행하였고 검사 결과 음성 소견을 보였다. 증상의 발현 시점이 비교적 늦고 영상 소견상 흉추 부위에 인접한 4개 이상의 척추 전인대의 골화가 뚜렷하며 추간판 높이가 비교적 보전되어 있고 천장 관절의 미란, 경화, 융합 등의 소견은 보이지 않았다는 점과 HLA-B27 검사상 음성 소견을 종합하여 강직성 척추염의 가능성을 배제하고, 미만성 특발성 골격 과골증을 진단하였다.

제 11-12흉추의 굴곡-신연 손상에 대하여 제 11흉추 관혈적 정복과 제 10흉추-제 1요추의 분절간 척추경 고정술 및 척추 유합술을 시행하였다. 수술 중이나 수술 후에 별다른 합병증은 없었고 수술 직후 시행한 단순 방사선 사진에서 흉추 후만각은 49도, 요추 전만각 -35도, 시상 수직축은 8.6 mm로 확인되었고 골반입사각은 65.2도, 골반 경사 22.6도, 골반 기울기 42.6도로 확인되었다(Fig. 3A). 이후 환자는 본원 외래에 내원하지 않다가 수술 후 2년이 지나서 흉요추부의 통증 및 진행되는 척추 후만 변형으로 인한 일상 생활의 제한을 주소로 재내원 하였다. 당시 시행한 단순 방사선 사진에서 흉추 후만각은 52도, 요추 전만각 -41도, 시상 수직축은 69.3 mm로 확인되었고 골반입사각은 65.2도, 골반 경사 21.0도, 골반 기울기 64.2도로 확인되었다(Fig. 3B). 환자가 호소하는 보행 및 전방 주시 장애를 개선하고자 교정 수술을 결정하였고 교정 각도는 수술 전 Surgimap spine software(Nemaris, Inc., New York, NY, USA)을 이용한 컴퓨터 시뮬레이션을 통해 결정하였다.⁵⁾ 시뮬레이션 결과 교정 술기는 다분절 Smith-Peterson 절골술을 시행하기 보다는 한분절 Smith-Peterson 절골술과 척추경 후방 절골술을 동시에 시행하는 것이 보다 좋은 교정 각을 보여 기존 삼입물을 제거하고 제 11-제 12흉추의 Smith-Peterson 절골술과 제 2요추의 척추경 후방 절골술(Pedicle subtraction osteotomy)을 시행하였고 제 10흉추-제 4요추까지 척추 유합술을 시행하였다. 수술 후 단순 방사선 검사에서 흉추 후만각은 42도, 요추 전만각 -50도, 시상 수직축은 13.1 mm로 측정되었고 골반입사각은 65.2도, 골반 경사 22.7도, 골반 기울기 42.5도로 확인되었으며(Fig. 3C)

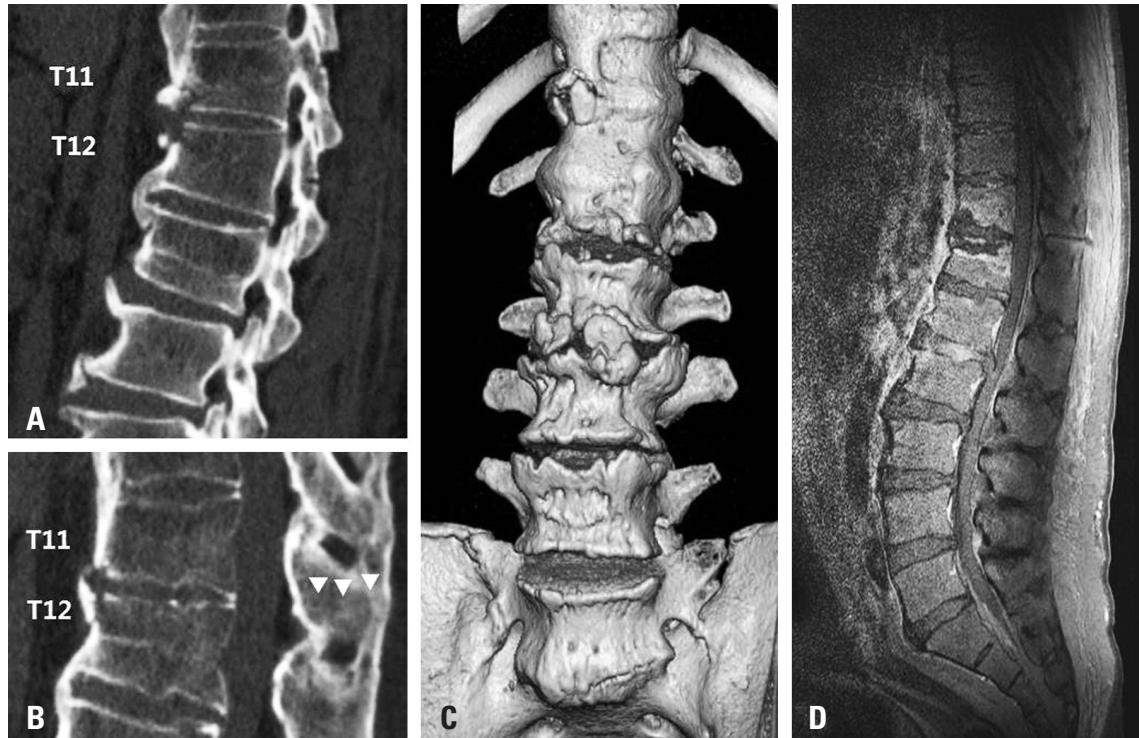


Fig. 2. Preoperative CT and MRI. **(A)** Sagittal CT shows a fracture of the vertebral body of T11 and T12. **(B)** Sagittal CT (arrowheads) shows a fracture of the spinous process of T11. **(C)** Three-dimensional CT shows the fracture of the vertebral body of T11 and T12. **(D)** Sagittal MRI shows the fracture of the vertebral body and spinous process of T11 and the fracture of the vertebral body of T12. All the images indicate a T11-T12 flexion-distraction injury. CT, computed tomography; MRI, magnetic resonance imaging.

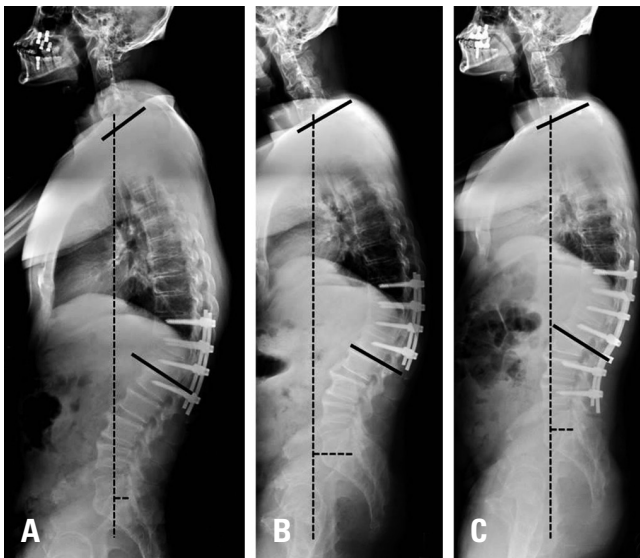


Fig. 3. **(A)** A radiograph taken 2 months after the first operation, showing a sagittal vertical axis (dashed line) of 8.6 mm and a thoracic kyphosis angle (solid line) of 49°. **(B)** A radiograph taken 2 years after the first operation, showing a sagittal vertical axis (dashed line) of 69.3 mm and a thoracic kyphosis angle (solid line) of 52°. **(C)** A radiograph taken 2 months after the second operation, showing a sagittal vertical axis (dashed line) of 13.1 mm and a thoracic kyphosis angle (solid line) of 42°.

현재 외래 추시 중이다.

고찰

미만성 특발성 골격 과골증은 척추와 척추 외 관절의 골화와 인대의 석회화를 특징으로 하는 질환으로 국내 유병률은 진단 기준에 따라서 2.9%에서 4.1%에 이른다.⁶⁾ 골화는 경추부, 흉추부, 요추부 한 부위에 국한될 수도 있고 동시에 여러 부위에 나타날 수도 있는데 주로 흉추부에 발병한다.²⁾ 일반적으로 미만성 특발성 골격 과골증의 진단은 흉추부의 침범을 기본 전제로 하고 강직성 척추염과의 감별을 위해 Resnick의 기준을 따른다. 즉, 척추의 추체-추간판 인접 부위에 병소의 국소적 돌출 유무에 관계없이 적어도 4개의 연속된 척추에서 전외측을 따라 석회화 및 골화 형성을 보이고 침범된 부위에 추간판 높이가 비교적 보존되어 있으며, 진공 현상, 척추 외연 경화를 포함한 퇴행성 추간판 질병의 방사선학적 변화가 없고 골단성 관절의 골강직과 천장골 관절의 미란, 경화, 융합이 없는 경우로 미만성 특발성 골격 과골증을 진단한다.¹⁾

본 증례에서는 증상 및 방사선 소견, HLA B-27 검사결과를 토대로 강직성 척추염을 배제하고 미만성 특발성 골격 과골증

을 진단하였다. 이러한 미만성 특발성 골격 과골증과 강직성 척추염의 감별이 최근 더욱 중요해진 이유는 강직성 척추염의 치료에 있어서 항 TNF- α 치료(Anti-TNF- α therapy)가 중요하기 때문이다.²⁾ 역으로, 미만성 특발성 골격 과골증의 경우 항 TNF- α 치료의 효과를 기대할 수 없으므로 본 증례에서 환자의 수술 전 두 질환의 감별은 수술 후 치료의 측면에 있어서 매우 중요했다.

미만성 특발성 골격 과골증 환자의 경우 척추 골절의 위험도가 상대적으로 증가한다.⁷⁾ Diederichs 등⁸⁾은 65세 이상 342명을 대상으로 한 연구에서 미만성 특발성 골격 과골증 환자군의 경우 대조군에 비해 척추 골절의 빈도가 흔하다고 보고하였다. Westerveld 등⁹⁾은 문헌 고찰(systemic review)을 통해 미만성 특발성 골격 과골증 환자의 척추 손상 중 69.1%는 저에너지 충격에 의해 발생하였고 고에너지 충격에 의한 척추 손상은 23.6%에 불과하였다고 보고하였다. 일반적으로 척추의 경우 외부의 충격이 가해지면 유동성이 있는 여러 추체를 따라서 에너지가 분산되지만 척추의 유동성이 상대적으로 사라진 미만성 특발성 골격 과골증의 경우 외부 충격의 분산이 이루어지지 않으므로^{7,8,9)} 이번 증례에서 보는 바와 같이 약한 충격에도 쉽게 골절이 일어날 것으로 추측할 수 있다.

본 증례에서 환자는 척추 골절로 인해 척추 유합술을 받고 2년 후 척추 후만 변형이 진행되어 내원하였다. 미만성 특발성 골격 과골증과 척추 후만 변형의 관련성에 대해서는 기존의 보고에서 살펴볼 수 있다. Nardo 등³⁾은 1,172명의 환자를 대상으로 미만성 특발성 골격 과골증과 척추 후만 변형의 상관 관계를 Cobb 각도를 측정하여 분석하였다. 이 중 흉추부에 국한된 DISH 환자는 101명으로 대조군에 비하여 Cobb 각도가 통계학적으로 유의하게 증가하였고 이는 인종에 따라라도 유의한 차이를 보였다. Yamada 등⁴⁾은 40세 이상 척추 협착증에 대한 치료가 필요한 환자 132명을 대상으로 한 후향적 연구에서 39.4%에 해당하는 52명의 환자가 미만성 특발성 골격 과골증으로 진단되었고 나이가 들수록 발병률은 점차적으로 증가한다고 보고하였다. 미만성 특발성 골격 과골증 환자의 경우 대조군에 비하여 흉추부의 척추 후만 변형이 증가하고 요추부의 전만각은 통계적으로 유의하게 감소하였으며 특히 DISH 환자 중 추체 골화 수가 증가할수록 통계적으로 유의하게 흉추 후만각은 증가하고 요추 전만각은 감소하였다. 흉추부는 해부학적으로 척추 후만이 있는 부위인데 미만성 특발성 골격 과골증이라는 질환의 특성상 전종인대와 주변의 결체 조직 등의 석회화 및 골화 양상, 척추체 전면의 새로운 골 형성, 추체 전면부의 퇴행성 변화 등으로 인해 본 증례에서처럼 척추 후만 변형이 진행될 것으로 추측해볼 수 있다.^{3,4)}

미만성 특발성 골격 과골증 환자에서 발생한 척추 골절에

대한 치료는 보조기 착용 또는 침상 안정과 같은 보존적 치료를 고려할 수 있으나 일반적으로 수술적 치료가 더 선호된다. Westerveld 등⁹⁾은 문헌 고찰을 통해 척추 손상을 받은 미만성 특발성 골격 과골증 환자 중 54.5%가 수술적 치료를 받은 반면, 45.5%가 보존적 치료를 받았으며 보존적 치료를 받은 주요 이유는 단지 수술 위험도가 높거나 환자가 수술적 치료를 거부했기 때문이라고 보고하였다. 또한 수술적 치료를 받은 미만성 특발성 골격 과골증 환자군의 경우 보존적 치료를 받은 환자에 비해 신경학적 이상 증상이 더 호전됐다고 보고하였다. 단, 미만성 특발성 골격 과골증 환자의 경우 흉요추 이행부의 유연성이 감소하므로 척추에 가해지는 피로가 요추부에 집중될 수 있다. Otsuki 등¹⁰⁾은 요추부 척추 협착증을 진단 받고 단분절 요추부 척추 체간 유합술을 시행 받은 환자 208명을 대상으로 한 연구에서 미만성 특발성 골격 과골증 환자의 경우 수술 후 가관절증(pseudoarthrosis) 또는 인접분절 질환(ASD)으로 인한 재수술 비율이 일반 환자군에 비해 높다고 보고하였다. 따라서 본 증례의 환자의 경우에도 지속적인 추적 관찰이 필요할 것으로 판단된다.

REFERENCES

1. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Radiology*. 1976;119:559-68.
2. Olivieri I, D'Angelo S, Palazzi C, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: differentiation from ankylosing spondylitis. *Curr Rheumatol Rep*. 2009;5:321-8.
3. Nardo L, Lane NE, Parimi N, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis association with thoracic spine kyphosis: a cross-sectional study for the Health Aging and Body Composition Study. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2014;24:1418-24.
4. Yamada K, Toyoda H, Terai H, et al. Spinopelvic alignment of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in lumbar spinal stenosis. *Eur Spine J*. 2014;6:1302-8.
5. Park YS, Kim HS, Baek SW, et al. Preoperative computer-based simulations for the correction of kyphotic deformities in ankylosing spondylitis patients. *Spine J*. 2014;14:2420-4.
6. Kim SK, Choi BR, Kim CG, et al. The prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in Korea. *J Rheumatol*. 2004;10:2032-5.
7. Mader R, Verlaan JJ, Buskila D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: clinical features and pathogenic mechanisms. *Nat Rev Rheumatol*. 2013;12:741-50.

8. Diederichs G, Engelken F, Marshall LM, et al. Osteoporotic fractures in men research group. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): relation to vertebral fractures and bone density. *Osteoporos Int.* 2011;6:1789–97.
9. Westerveld LA, Verlaan JJ, Oner FC. Spinal fractures in patients with ankylosing spinal disorders: a systematic review of the literature on treatment, neurological status and complications. *Eur Spine J.* 2009;2:145 – 56.
10. Otsuki B, Fujibayashi S, Takemoto M, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis(DISH) is a risk factor for surgery in short segment lumbar interbody fusion. *Eur Spine J.* 2015;11:2514–9.

미만성 특발성 골격 과골증 환자에서 척추 유합술 후 발생한 후만 변형 - 증례 보고 -

김재동 · 이재원 · 박예수

한양대학교 의과대학 구리병원 정형외과학교실

연구 계획: 증례 보고

목적: 강직성 척추염과 감별을 요하는 미만성 특발성 골격 과골증 환자에서 골절로 인한 척추 유합술 후 진행되는 척추 후만 변형 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

선행 문헌의 요약: 미만성 특발성 골격 과골증은 주로 인대 및 골부착부의 석회화 및 골화를 특징으로 하는 질병으로 강직성 척추염과 유사하나 두 질환은 근본적으로 다르다. 미만성 특발성 골격 과골증은 척추 후만증과 관련되어 있으나 골절로 인해 시행한 척추 유합술 후 흉추부의 진행되는 척추 후만 변형을 보고한 사례는 없다.

대상 및 방법: 47세 남성이 흉요추부 동통으로 내원하였다. 강직성 척추염의 가능성을 배제하고 미만성 특발성 골격 과골증을 진단하였으며 제 11-12흉추간의 골극-신연 손상을 진단한 후 척추 유합술을 시행하였다. 이 후 척추 후만 변형이 진행되어 기존 삽입물을 제거한 뒤 절골술 및 척추 유합술을 시행하였다.

결과: 수술 후 후만 척추 변형은 교정되었고 외래 추시 중이다.

결론: 미만성 특발성 골격 과골증은 강직성 척추염과의 감별을 요하고 골절에 취약하며 척추 유합술 후에도 척추 후만 변형이 진행될 수 있으므로 지속적인 추적 관찰이 필요하다.

색인 단어: 미만성 특발성 골격 과골증, 후만변형

약칭 제목: 미만성 특발성 골격 과골증에서 척추 유합술 후 발생한 후만 변형

접수일: 2016년 11월 5일

수정일: 2016년 12월 30일

게재확정일: 2017년 4월 25일

교신저자: 박예수

경기도 구리시 경춘로 153 한양대학교 구리병원 정형외과학교실

TEL: 031-560-2317

FAX: 031-557-8781

E-mail: hyparkys@hanyang.ac.kr