



A Rare Case of Thoracic Intradural Epidermoid Cyst after Spinal Cord Stimulator Insertion: A Case Report

척수 자극기 삽입술을 받았던 환자에게 드물게 생긴
 흉추부 경막내 표피양 낭종: 증례 보고

Sun Ha Min, MD , Ji Hae Lee, MD* , Jae Hyung Kim, MD ,
 Myeong Ja Jeong, MD , Soung Hee Kim, MD ,
 Ji-Young Kim, MD , Mi-jin Kang, MD

Department of Radiology, Sanggye Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Seoul, Korea

Spinal epidermoid cysts are extremely rare benign tumors and can be congenital or acquired. Acquired spinal epidermoid cysts are found in the lumbosacral region. To our knowledge, no case of epidermoid cyst related to spinal cord stimulator insertion has yet been reported. We report the MRI findings of a rare case of thoracic intradural epidermoid cyst acquired after spinal cord stimulator insertion in a 50-year-old female.

Index terms Epidermoid Cyst; Magnetic Resonance Imaging; Spine; Spinal Cord Stimulation

서론

척수에 생긴 표피양 낭종은 척수 종양의 1% 이내를 차지하는 매우 드문 종양이다(1). 이는 표피하에 미입한 표피조직이 낭포를 형성한 것으로, 주로 요천추부에서 나타나며, 서서히 진행되는 양성 병변이다(2). 선천적 또는 후천적으로 생길 수 있는데 선천성인 경우, 신경관 결손증과 척추의 기형과 연관이 있으며, 후천성인 경우 주로 외상, 수술과 관련이 있다(1-3). 척추 천자 시 척주관으로 표피 조직이 삽입되어 의인성 표피양 낭종이 생길 수 있으며, 대다수의 경우 제1 요추 높이보다 아래에서 생기게 되는데 이는 척추 천자가 장골능선 높이에서 이루어지기 때문이다(3). 흉추부에 생기는 경우는 매우 드물며, 특히 척수 자극기 삽입과 관련하여 표피양 낭종이 생긴 증례는 보고된 바 없다. 저자들은 척수 자극기를 삽입했던 환자에서 척수 자극기 끝의 위치와 인접하여 제8-9 흉추부 경막 내 척수외 공간에 발생한 극히

Received September 17, 2021
 Revised October 21, 2021
 Accepted October 29, 2021

*Corresponding author

Ji Hae Lee, MD
 Department of Radiology,
 Sanggye Paik Hospital,
 Inje University College of Medicine,
 1342 Dongil-ro, Nowon-gu,
 Seoul 01757, Korea.

Tel 82-2-950-1187
 Fax 82-2-950-1220
 E-mail merita@paik.ac.kr

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://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.

ORCID iDs

Sun Ha Min
<https://orcid.org/0000-0002-5067-3719>
 Ji Hae Lee
<https://orcid.org/0000-0001-7560-0586>
 Jae Hyung Kim
<https://orcid.org/0000-0002-1195-4657>
 Myeong Ja Jeong
<https://orcid.org/0000-0001-8220-4899>
 Soung Hee Kim
<https://orcid.org/0000-0002-7232-4069>
 Ji-Young Kim
<https://orcid.org/0000-0003-0588-0505>
 Mi-jin Kang
<https://orcid.org/0000-0001-8510-3268>

드문 사례의 표피양 낭종을 경험하였기에 MRI 소견 및 문헌 고찰과 함께 이를 보고하고자 한다.

증례 보고

50세 여자 환자가 4개월 전부터 점차 악화된 양측 하지의 감각 이상, 근력 약화와 대소변 장애를 주소로 내원하였다. 환자는 9년 전 교통사고 이후 복합부위통증증후군 2형을 진단받았으며 약 20차례에 걸쳐 척수강 내 약물 주입술을 받았다. 지속적인 좌측 종아리 통증으로 7년 전 척수 자극기를 삽입하였으며 3개월 전 이를 제거하였다. 신경학적 검사상 제10 흉추 신경근 이하 부위에서 통각, 진동감, 위치감의 감각을 느끼지 못하였다. 양측 하지 근력은 전반적으로 Grade 0으로 확인되었으며, American Spinal Injury Association (ASIA) 척도 A에 해당하였다. 척수 자극기 삽입 이전에 찍은 척추 MRI에서 종괴와 같은 소견은 보이지 않았다(Fig. 1A). 4개월 전 촬영한 요추 사진에서 척수 자극기의 끝이 제10 흉추부의 아래종말판 높이에 위치해 있었고(Fig. 1B), 이외 특이 소견은 없었다. 내원하여 촬영한 척추 MRI에서 제8-9 흉추간 부위에 경막 내 척수의 종괴가 관찰되었으며, 크기는 1.4 cm × 1.2 cm × 2.6 cm으로 측정되었다. 주위와 경계가 명확한 타원형의 종괴였으며, 척수를 심하게 압박하고 있었다(Fig. 1C). T2 강조영상에서 비균질하고 높은 신호강도를 보였고, T1 강조영상에서는 척수보다 낮고 뇌척수액보다는 약간 높은 신호강도를 보였으며, 가돌리늄 조영증강 영상에서 조영증강 소견은 보이지 않았다(Fig. 1D). CT에서는 뇌척수액과 비슷한 정도의 저음영 종괴로 관찰되었으며 조영증강은 되지 않았다.

수술 시 제8 흉추부터 제10 흉추까지의 후궁을 절제 후 경막을 절개하자 경막내 척수의 종괴가 관찰되었으며 척수를 압박하고 있었다. 이를 완전 절제하였으며, 조직학적 소견상 낭종의 외벽은 중층편평상피로 구성되어 있었고, 내부는 각질성 물질과 콜레스테롤 물질이 포함되어 있었다(Fig. 1E). 병리 조직 생검 결과상 표피양 낭종으로 확진되었다.

이 연구는 본 기관 연구 윤리 위원회로부터 승인을 받았고, 환자동의서는 면제되었다(IRB No. SGPAIK 2021-04-006).

고찰

척수 종양은 발생 위치에 따라 경막외 종양과 경막내 종양으로 나뉘며, 경막내 종양은 다시 척수내 종양과 척수외 종양으로 나눌 수 있다. 경막내 척수외 종양에는 신경초종과 수막종 등이 대부분을 차지한다.

표피양 낭종은 표피하에 미입한 표피조직이 낭포를 형성한 것으로, 주로 요천추부 척주관에서 생기며, 선천적 또는 후천적으로 발생할 수 있다(1, 2). 선천성인 경우, 배아기 3-4주의 신경관이 닫히는 시기에 신경관 결손증이나 척추의 기형으로 인해 외배엽이 함입되는 것과 관련이 있으며, 후천성인 경우 외상, 수술 등이 원인이 된다(1-3). Choremis 등(2)은 요추부 천자가 경막내 척수외 표피양 낭종의 중요한 발생 원인이라고 밝혔으며, Manno 등(4)에 따르면 척추 천자를 한 5-7년 후 발병하였다. Gibson과 Norris (5)는 탐침을 쓰지 않고 피부를 관통한 주사바늘의 69%에서 표

Fig. 1. An intradural extramedullary epidermoid cyst formed at the T9 after spinal cord stimulator insertion in a 50-year-old female.

A. The T2-weighted (TR/TE 3100/105) sagittal MRI image reveals no mass at the T9 level before spinal cord stimulator insertion.

B. The tip of the spinal cord stimulator is located around the lower endplate of T10 on the T-spine AP view (arrow).

C. Axial images of MRI at the T9 level show that the spinal cord (arrow) is severely compressed and shifted anterolaterally by the intradural extramedullary tumor (*).

AP = anterior-posterior, Gd = gadolinium, TE = echo time, TR = repetition time, T1WI = T1-weighted image, T2WI = T2-weighted image



피세포를 관찰하였다. 즉, 척추 천자 시 척주관으로 표피 조직이 삽입되어 의인성 표피양 낭종이 생길 수 있다.

이번 증례의 환자는 9년 동안 약 스무 차례에 걸쳐 척추 천자를 통해 척수강 내 약물 주입술을 받았으며, 7년 전 척수 자극기를 그 끝이 제10 흉추부의 아래종말판 높이에 위치하도록 삽입하였고, 수술 당시 경막의 공간의 유착이 심하여 경막을 수차례 관통하였던 과거력이 있었다. 이 환자에서 종괴는 척추 천자에 의해 생기는 의인성 표피양 낭종의 대다수가 제1 요추 높이보다 아래에서 생기는 것과 달리, 척수 자극기 끝과 인접한 부위인 제8-9 흉추간 부위까지 올라가 발생했다는 점에서 극히 드문 경우에 해당하겠다.

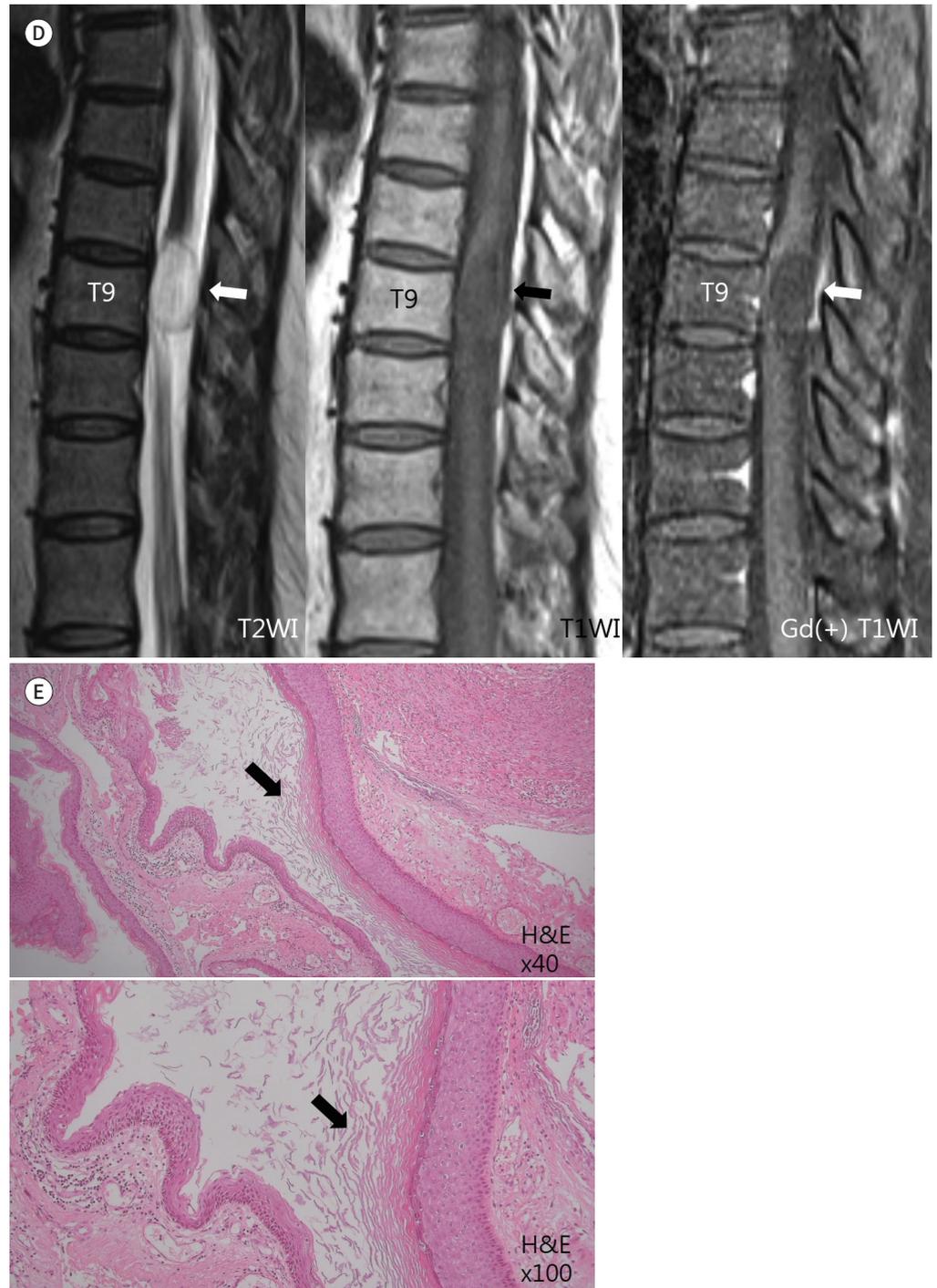
임상 증상은 낭종의 크기, 위치 등에 따라 차이가 있으나 주로 척수 신경과 신경근의 견인이나 압박에 의해 발생한다. 무증상에서부터 본 증례의 환자와 같이 점차 진행되는 감각 이상이나 운동

Fig. 1. An intradural extramedullary epidermoid cyst formed at the T9 after spinal cord stimulator insertion in a 50-year-old female.

D. T2-weighted (TR/TE 3520/92) sagittal MRI image shows the heterogeneous high signal intensity of the mass (arrow). T1-weighted (TR/TE 721/11) sagittal image reveals slightly low and high signal intensities of the mass (arrow) compared to the spinal cord and cerebrospinal fluid, respectively. The Gd-enhanced fat-saturated T1-weighted (TR/TE 540/13) image displays no signal enhancement of the mass (arrow).

E. Photomicrograph shows fibrous tissue lined by the stratified squamous epithelium containing keratinous materials (arrows).

Gd = gadolinium, H&E = hematoxylin and eosin, TE = echo time, TR = repetition time, T1WI = T1-weighted image, T2WI = T2-weighted image



기능 마비로 나타날 수 있다.

표피양 낭종은 조직학적으로 중층편평상피로 구성된 낭벽을 갖고 있고 내부에는 탈락성 세포와 각질 부스러기를 포함하고 있다. 유피양은 조직학적으로 표피양 낭종과 유사하지만 모낭, 땀샘, 피지샘과 같은 피부부속기 및 이 구조물에서 형성된 지방성분을 많이 포함하는 분비물을 갖는다는 점이 다르다(4).

표피양 낭종의 영상 소견을 살펴보면, 일반 촬영 사진에서는 주로 정상 또는 비특이적인 소견을 보이며, CT에서는 일반적으로 얇은 벽을 가지는 경계가 명확한 저음영의 낭성 종괴로 보인다. 이러한 저음영은 탈락된 상피의 콜레스테롤과 각질에 의한 것으로 생각된다. 때로 고음영으로 보이는 경우도 있는데, 이는 낭종 내의 고단백 물질, 이전의 출혈, 과다한 다형핵 백혈구, 또는 혈색소의 침착 등이 원인이 될 수 있다(6).

척수조영술을 통해서 표피양 낭종에 의한 척수의 편위, 경막내 충만결손, 지주막하 공간의 막힘 등을 평가할 수 있다(3).

MRI는 표피양 낭종을 진단하는데 유용하다. 이는 종양이 고형성인지 낭종성인지 성분을 파악하는데 도움을 주며, 크기가 매우 작은 종양도 발견할 수 있고, 주위 구조물과의 관계도 분명하게 보여준다. 표피양 낭종 내부의 물, 각질과 콜레스테롤의 비율에 따라 신호강도가 다양하게 나타날 수 있는데, 전형적인 표피양 낭종은 T2 강조영상에서 뇌척수액과 비교하여 고신호강도로 보이며, T1 강조영상에서 신경조직과 뇌척수액 사이 정도의 신호강도를 보인다(3, 7).

신호강도가 뇌척수액과 비슷한 경우 표피양 낭종은 지주막 낭종과 구분하기 어려우나, 본 증례의 환자와 같이 표피양 낭종은 T2 강조영상에서 주로 비균질한 신호강도를 보이며, 지주막 낭종은 모든 펄스연쇄에서 뇌척수액에 동일한 균질한 신호강도를 보인다. 또한 종양의 가장자리가 표피양 낭종은 불규칙하거나, 불규칙한 부분과 매끈한 부분이 섞여있는 것에 비해 지주막 낭종은 경계가 보다 매끈하다(7). 확산강조영상이 있는 경우 표피양 낭종은 고신호강도를 나타내어, 저신호강도를 보이는 지주막 낭종과 쉽게 구분할 수 있다. 또한 지주막 낭종은 대부분 지주막하 공간과 연결되어 있어서 조영제를 지주막하 공간으로 주입하면 조영이 된다.

비전형적인 표피양 낭종의 경우 T1 강조영상에서 고신호강도로 보일 수 있는데, Lai 등(8)은 케라틴에 기인한 것으로 보았으며, Horowitz 등(9)은 낭종 내의 중성지방과 비포화 지방산의 높은 함유가 T1 강조영상상의 고신호강도를 나타낼 수 있다고 하였다. 또한 낭종 내의 출혈로 생기는 메트헤모글로빈도 고신호강도의 원인이 될 수 있다.

대부분의 경우 조영증강은 되지 않으나, 변연부가 얇게 증강되는 경우도 있으며 이는 낭종을 둘러싼 중층편평상피와 섬유 조직과 관련이 있을 수 있다(10). 이때 표피양 낭종은 변연부가 부분적으로 약간 두꺼운 부분을 포함하여 비교적 얇게 조영증강된다는 점에서, 상대적으로 두꺼우면서 불규칙하게 조영증강되는 낭종성 신경초종과 구분이 된다(10). 척수내 종양 중 흔하게 발생하는 뇌실막세포종이나 경막내 척수의 종양 중 가장 흔한 신경막종양, 수막종은 강한 조영증강을 보인다는 점에서 표피양 낭종과 감별이 가능하다.

환자가 신경학적 결손이 있는 경우, 수술적 치료가 필요하다. 주위 신경조직이 손상되지 않도록 주의해야 하며, 완전 절제가 이루어져야 한다. 그러나 표피양 낭종의 피막이 매우 얇고, 종종 지주

막, 척수, 신경근에 유착되어 있어 완전 절제가 어렵기도 하며, 이 경우 재발 가능성이 높아진다(3).

요약하면, 척수의 표피양 낭종은 드물게 발생하는 질환이며 주로 요천추부에 발생하고 흉추부에서는 매우 드물지만, 척수 자극기를 삽입했던 과거력이 있는 환자에서 그 부근에 T2 강조영상에서 비균질하고 높은 신호강도를 보이는 경막내 낭성 종괴가 보이는 경우 이의 가능성을 고려해 볼 수 있다.

Author Contributions

Conceptualization, L.J.H.; data curation, M.S.H.; K.J.H.; formal analysis, J.M.J., K.S.H.; investigation, M.S.H., K.J.; methodology, L.J.H., K.M.; project administration, L.J.H., K.J.H.; resources, M.S.H., K.M.; supervision, L.J.H.; validation, J.M.J., K.S.H., K.J.; visualization, M.S.H.; writing—original draft, M.S.H.; and writing—review & editing, all authors.

Conflicts of Interest

The authors have no potential conflicts of interest to disclose.

Funding

None

REFERENCES

1. Gotecha S, Ranade D, Sharma S, Punia P, Kotecha M. Giant intradural intramedullary epidermoid cyst report of two cases with varied presentations. *Asian J Neurosurg* 2014;9:244
2. Choremis C, Economos D, Papadatos C, Gargoulas A. Intraspinial epidermoid tumours (cholesteatomas) in patients treated for tuberculous meningitis. *Lancet* 1956;2:437-439
3. Funao H, Isogai N, Daimon K, Mima Y, Sugiura H, Koyanagi T, et al. A rare case of intradural and extramedullary epidermoid cyst after repetitive epidural anesthesia: case report and review of the literature. *World J Surg Oncol* 2017;15:131
4. Manno NJ, Uihlein A, Kernohan JW. Intraspinial epidermoids. *J Neurosurg* 1962;19:754-765
5. Gibson T, Norris W. Skin fragments removed by injection needles. *Lancet* 1958;2:983-985
6. Lee YS, Kim JO. Pericoccygeal epidermoid cyst: report of two cases. *J Korean Soc Radiol* 2011;65:519-523
7. Steffey DJ, De Filipp GJ, Spera T, Gabrielsen TO. MR imaging of primary epidermoid tumors. *J Comput Assist Tomogr* 1988;12:438-440
8. Lai SW, Chan WP, Chen CY, Chien JC, Chu JS, Chiu WT. MRI of epidermoid cyst of the conus medullaris. *Spinal Cord* 2005;43:320-323
9. Horowitz BL, Chari MV, James R, Bryan RN. MR of intracranial epidermoid tumors: correlation of in vivo imaging with in vitro ¹³C spectroscopy. *AJNR Am J Neuroradiol* 1990;11:299-302
10. Matsui H, Kanamori M, Yudoh K, Ohmori K, Yasuda T, Wakaki K. Cystic spinal cord tumors: magnetic resonance imaging correlated to histopathological findings. *Neurosurg Rev* 1998;21:147-151

척수 자극기 삽입술을 받았던 환자에게 드물게 생긴 흉추부 경막내 표피양 낭종: 증례 보고

민선하 · 이지혜* · 김재형 · 정명자 · 김성희 · 김지영 · 강미진

표피양 낭종은 척수에 매우 드물게 발생하는 양성 병변이다. 선천적 또는 후천적으로 생길 수 있는데, 후천적 표피양 낭종은 주로 요천추부 높이에서 발생한다. 척수 자극기 삽입과 관련하여 표피양 낭종이 생긴 증례는 보고된 바 없다. 저자들은 척수 자극기 삽입술을 받았던 50세 여자 환자에서 표피양 낭종이 척수 자극기 끝의 위치와 인접한 흉추부 경막 내에 발생한 드문 증례를 경험하였기에 MRI 소견 및 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

인제대학교 의과대학 상계백병원 영상의학과