학령전기 보행 장애의 원인 중 양성 급성 소아기 근염의 의미

충북대학교 의과대학 소아과학교실

이지호·김원섭

Clinical Meanings of Benign Acute Childhood Myositis in Gait Disturbance of Preschool-aged Children

Ji-Ho Lee, MD, Won Seop Kim, MD

Department of Pediatrics, College of Medicine,
Chungbuk National University, Cheongju, Korea

Purpose: To find a method that can differentiate benign acute childhood myositis from other diseases to avoid unnecessary invasive procedures.

Method: Compared clinical manifestations and laboratory findings among patients visited Chungbuk National University Hospital with sudden-onset gait disturbance from Jan 1, 2009 to Dec 31, 2013.

Results: Upper respiratory symptoms within recent 4 weeks and serum aspartate aminotransferase level showed significant differences.

Conclusion: AST could help to make a decision to undergo some invasive procedures to rule out other causes of gait disturbance, with a cut-off value of 45 IU/L.

Key Words: Gait, Myositis, Child

서론

평소 잘 걷던 소아가 갑자기 걷지 못하게 되었다는 증상을 주소로 보호자와 함께 응급실에 내원하는 경우가 종종 있다. 소아연령에서 보행 장애는 아주 드문 일은 아니며¹⁾, 대부분 외상에 의해서 발생하나 간혹 외상이 아닌 다른 전신적 또는 국소적 질환에 의해서 2차적으로 발생하는 경우도 있다²⁾. 이러한 질병에 의해 발생하는 2차적 보행장애의 원인은 여러 가지가 있을 수 있으나, 흔히 알려진 것으로는 소아과적으로는 길랑-바레 증후군(Guillain-Barre syndrome, GBS)을 들 수 있고, 정형외과적으로는 일과성 활액막염(transient synovitis, TS) 또는 화농성 관절염(septic arthritis, SA), Perthes' disease 등을 들 수 있다. 이들 질환에 대해서는 이미 많은 연구가 이루어져 있고, 유병률 및 발병원인에 대해서도 비교적 많은 연구가 이루어져 있다. 그러나 실제로 일차 진료 환경에서 보행장애 환아를 접하다 보면, 일차 검사 결과 이와 같이 잘 알려진 질환의 진단 기준에는 들어가지 않으나 일측성 또는 양측성 고관절통증을 호소하며 양쪽 하지의 근위약이 보이고, 혈액검사상에서 원인을 알 수 없는 크레아틴 인산화 효소와 간 효소, 그리고 혈중 마이오글로빈의 상승을 통해 횡문근융해로 진단되어 입원하여 수액공급, 요알칼리화 등 보존적 요법을 시행하며 보행장애에 대한 검사를 시행하던 중, 수 일 내로 임상증상 및 검사소견이 호전되어 결국 원인을 밝히지 못한 채 퇴원하는 경우가 종종 있다. 양성 급성 소아기 근염(benign acute childhood myositis, BACM)으로 알려진 이와 같은 현상은, 아직은 비교적 잘 알려지지 않은 낯선 질환이지만, 어쩌면 상기에 기술한 잘 알려진 질환들보다 더 주의를 기울여야 할 소아기 보행장애의 원인일지도 모른다.

Submitted: 3 March, 2015

Revised: 30 March, 2015

Accepted: 30 March, 2015

Correspondence to Won Seop Kim, MD

Department of Pediatrics, Pediatrics, College of Medicine,
Chungbuk National University, 766, 1Sunhwan-ro,
Seowon-gu, Cheongju-si, Chungbuk-do, 361-711, Korea
Tel: +82-043-269-6044, Fax: +82-043-264-6620
E-mail: wskim@chungbuk.ac.kr

Copyright © 2015 by The Korean Child Neurology Society

<http://www.cns.or.kr>

BACM은 1957년 Lundberg에 의해 “Myalgia Cruris Epidemica”라는 이름으로 처음 기술된 질환으로³⁾, 갑작스럽게 발생하는 하지 통증 또는 보행 장애를 특징으로 하며⁴⁾, 바이러스성 상기도 감염 후에 면역매개 반응에 의해 일어나는 근육의 염증이다⁵⁾. 이는 대부분 양성 질환으로, 특별한 치료 없이 보존적 요법만으로도 1주일 이내에 완전히 회복된다^{4,5)}. 그러나 최초로 기술된 후 50년이 넘게 지났음에도, 아직 이 병에 대해서는 유병률 및 발병기전 등에 대한 많은 것들이 명확히 알려져 있지 않다. 이에 저자들은, 비외상성 보행장애를 주소로 내원한 학령전기 소아를 대상으로, BACM의 발병 빈도가 얼마나 되고, 또 유사한 증상을 보이는 대표적인 다른 질병들과 비교해 구별되는 특징이 어떤 것이 있는지를 알아보고자 하였다.

대상 및 방법

2009년 1월 1일부터 2013년 12월 31일까지 충북대학교병원 응급실에 보행장애를 주소로 처음 내원한 만 1세 이상 6세 이하의 소아 중 외상성 원인인 경우를 배제한 환아들을 대상으로 후향적 의무기록 조사를 시행하였다. 총 68명이 연구에 참여되었고, 이들은 모두 응급실 일차진료 후 소아청소년과 또는 정형외과로 진료의뢰가 시행되었다. 이 중 27명이 소아청소년과로, 41명이 정형외과로 진료의뢰되었고, 모두 입원하여 치료받았다. 소아청소년과로 입원한 경우의 최종 진단은 GBS가 9례, BACM이 18례이었고, 정형외과로 입원한 경우의

최종 진단은 TS가 32례, SA가 8례, 골수염이 1례였다. 이 중 고관절 이외의 다른 부위의 명백한 정형외과적 질환이 동반된 경우는 분석에서 제외하였고 (발목부위의 골수염 1례, 무릎관절의 화농성 관절염 1례), 나머지 66명의 환아들을 대상으로 내원 당시의 임상양상 및 혈액검사 결과에 대해 통계분석을 시행하였다(Fig. 1).

임상 양상으로는 각 군 환자들의 내원당시 체온과 기침, 가래, 콧물 등의 호흡기증상 유무, 최근 4주 이내의 상기도 감염 여부, 발열 및 하지 통증의 동반 여부, 침범된 관절의 일측성/양측성 여부를 비교하였고, 질병의 발생 원인으로 알려졌거나 강하게 의심되고 있는 바이러스 감염과의 연관성을 확인하기 위해 BACM군에서는 선행하는 상기도 감염이 있었던 경우 호흡기 바이러스 12종 중합효소 연쇄 반응 검사를 시행하였다. 계절별 발병 빈도의 차이를 비교하기 위해 응급실 내원 당시의 계절을 봄(3-5월), 여름(6-8월), 가을(9-11월), 겨울(12-2월)로 나누어 비교하였다.

혈액검사 소견으로는 혈장 총 백혈구수(white blood cell count, WBC), 총 혈소판수(platelet count, PLT), 백혈구 중 호중구 분율, 백혈구 중 림프구 분율, C-반응성 단백질(C-reactive protein, CRP), 단백질, 알부민, 아스파르트산 아미노기전달효소(aspartate aminotransferase, AST), 알라닌 아미노기전달효소(alanine aminotransferase, ALT), 알칼리 인산화효소(alkaline phosphatase, ALP) 등을 비교하였다. 또, BACM군에 대해서는 CPK (creatinine phosphokinase), CK-MB, 그리고 myoglobin을 측정하였으며, TS군과 SA군에 대해서는 관절액 적혈구 수, 백혈구 수, 그리고 관절액 배양

Fig. 1. Flow chart of children eligible for study analysis. Finally, 66 children were enrolled from 68 children who visited emergency department due to nontraumatic gait disturbance.

검사를 시행하였다.

통계 자료의 분석은 SPSS for Windows (version 12.0 SPSS Inc., Chicago, IL, USA) 통계프로그램을 사용하였고, 비연속변수에 대해서는 chi-square test와 Fisher's exact test를 시행하였고, 연속변수에 대해서는 Student's *t*-test를 시행하였으며 또한 BACM군과 전체 환자군 사이에서 receiver operating characteristics (ROC) 곡선을 구하여 곡선하면적이 가장 큰 지점에서의 값을 가장 적절한 분별한계치로 적용하여 진단적 민감도 및 특이도를 구하였다. *P*-value가 0.05 미만이면 통계적으로 의미가 있는 것으로 정의하였다.

질병군간 비교는 일원배치 분산분석 방법을 사용하여 BACM군과 다른 세 군을 비교한 후, 유의한 차이를 나타낸 항목에 대해 TS군과는 Student's *T*-test를 시행하였고, GBS 또는 SA군과는 모수적 검정을 시행하기에는 표본 개수가 충분하지 않아 Mann-Whitney의 비모수적 검정을 시행하여 통계학적 유의성을 재평가하였다.

결과

최종적으로 4개 군 66명의 환아들이 이번 연구에 참여하였으며, BACM군이 18명, GBS군이 9명, TS군이 32명, SA군이 7명이었었다(Fig. 1). BACM군에서 CPK 수치가 정상수치 (남: 190 IU/L, 여: 167 IU/L) 이상으로 상승되지 않은 경우는 2례(11.1%)이었으며, 값은 각각 36 IU/L와 140 IU/L 이었다. TS군에서 관절액 배양 검사가 시행된 경우는 25례(78.1%)이었으며, 균이 동정된 경우는 없었다. 또한 양측성 하지 통증을 호소한 경우가 5례 있었고, 이들 중에서는 2례에서 관절

천자가 시행되었다.

1. 성별과 연령

연구에 참가된 환아들의 성별 및 연령별 분포는 표(Table 1)와 같다. 먼저 성별에 대해서 각 군을 비교한 결과, BACM군과 GBS군 사이에는 유의한 차이가 없었고($P=0.420$), BACM군과 TS군 역시 통계적으로는 유의한 차이는 없었으며($P=0.157$), BACM군과 SA군 사이에도 성별의 유의한 차이는 없었다($P=0.355$). 연령에 대하여는 일원배치 분산분석 방식으로 BACM군과 나머지 세 군을 비교하였고, BACM군이 GBS군에 비해 통계적으로 유의하게 연령이 많았으나($P=0.018$), BACM군과 TS군, BACM군과 SA군 사이에서는 통계적으로 유의한 연령의 차이는 없었다(각각 $P=0.709$, $P=0.523$) (Table 2).

2. BACM군과 다른 질병군 사이의 임상 양상의 차이

네 질병군의 임상 양상을 조사한 결과는 Table 3와 같다. BACM군에서 내원 4주 이내에 선행하는 상기도 감염이 있었던 경우는 17례(94.4%) 이었고, 내원 당시 상기도 감염 증상이 있었던 경우는 15례(83.3%) 이었다. 내원 당시 38.3°C 이상의 발열이 있었던 경우는 6례(33.3%) 이었고, 37.6°C 이상 38.2°C 이하의 미열이 있었던 경우도 6례(33.3%) 이었다. 봄에 발생한 경우가 11례(61.1%) 이었고, 여름에 발생한 경우가 3례(16.7%), 가을에 발생한 경우가 3례(16.7%), 겨울에 발생한 경우가 1례(5.6%) 이었다. 하지 통증을 호소한 경우는 15례(83.3%) 이었고, 1례는 오른쪽, 14례는 양측성이었다.

GBS군과 비교한 결과, 내원 4주 이내의 상기도 감염과 내원 당시 상기도 감염 증상이 있었던 경우가 BACM군이 GBS군에 비해 통계적으로 유의하게 많았다($P=0.030$, $P=0.004$). 체온 또한 BACM군이 GBS군에 비해 통계적으로 유의하게 높았다($P=0.002$). 계절별 발병 경향에 대해서는 두 군 사이에 유의한 차이가 없었고($P=0.280$), 하지 통증을 호소한 경우 역시 두 군 사이에 유의한 차이가 없었다($P=0.175$).

Table 1. General Characteristics of Disease Groups

	BACM group (n=18)	GBS group (n=9)	TS group (n=32)	SA group (n=7)
Sex (M/F)	10/8	3/6	24/8	6/1
Age (year)	5.1 [3.0-6.9]	3.5 [1.1-5.6]	4.7 [2.6-6.6]	4.3 [2.5-6.8]

Mean [min-max].

BACM, benign acute childhood myositis; GBS, Guillain-Barre syndrome; TS, transient synovitis; SA, septic arthritis.

Table 2. Comparisons of General Characteristics and Clinical Manifestations among Disease Groups

	BACM vs. GBS Group	BACM vs. TS Group	BACM vs. SA Group
Sex	0.420	0.157	0.355
Age	0.018	0.709	0.523
Recent UR*	0.030	<0.005	0.053
URI Symptoms†	0.004	<0.005	0.003
Body temperature	0.002	0.010	0.458
Season of onset	0.280	0.325	0.397
Leg pain	0.175	0.017	0.534

All values are *P*-value.

BACM, benign acute childhood myositis; GBS, Guillain-Barre syndrome; TS, transient synovitis; SA, septic arthritis.

*Upper respiratory infections in previous 4 weeks.

†Upper respiratory symptoms: cough, sputum, rhinorrhea.

Table 3. Clinical Manifestations of Disease Groups

	BACM group (n=18)	GBS group (n=9)	TS group (n=32)	SA group (n=7)
Recent UR	17 (94.4%)	5 (55.6%)	13 (40.6%)	4 (57.1%)
URI Symptoms	15 (83.3%)	2 (22.2%)	4 (12.5%)	1 (14.3%)
High Fever	6 (33.3%)	0 (0%)	5 (15.6%)	3 (42.6%)
Mild fever	12 (66.7%)	0 (0%)	10 (31.2%)	6 (85.7%)
Body temperature (°C)	37.9 [36.4-39.9]	36.9 [36.4-37.5]	37.3 [36.0-39.3]	38.3 [37.3-39.7]
Leg pain	15 (83.3%)	5 (55.6%)	32 (100%)	7 (100%)
Season of onset				
Spring	11 (61.1%)	4 (44.4%)	12 (37.5%)	2 (28.7%)
Summer	3 (16.7%)	0 (0%)	9 (28.1%)	3 (42.7%)
Autumn	3 (16.7%)	4 (44.4%)	5 (15.6%)	1 (14.3%)
Winter	1 (5.5%)	1 (11.2%)	6 (18.8%)	1 (14.3%)

Mean [min-max].

BACM, benign acute childhood myositis; GBS, Guillain-Barre syndrome; TS, transient synovitis; SA, septic arthritis.

*Upper respiratory infections in previous 4 weeks.

†Upper respiratory symptoms: cough, sputum, rhinorrhea.

TS군과 비교한 결과, 내원 4주 이내의 상기도 감염과 내원 당시의 상기도 감염 증상이 있었던 경우 모두 BACM군이 TS군에 비해 통계적으로 유의하게 많았다($P<0.005$, $P<0.005$). 내원당시 체온 역시 BACM군이 통계적으로 유의하게 높았다($P=0.010$). 계절별 발병 경향은 두 군 사이의 유의한 차이는 없었고($P=0.325$), 하지 통증을 호소한 경우는 TS군이 통계적으로 유의하게 많았다($P=0.017$).

SA군과 비교한 결과, 내원 4주 이내의 상기도 감염이 있었던 경우는 BACM군이 SA군에 비해 비교적 많았으나 통계학적인 유의수준은 경계선상에 있었다($P=0.053$). 내원 당시에 상기도 감염 증상이 있었던 경우는 BACM군이 SA군에 비해 통계적으로 유의하게 많았으나($P=0.003$), 내원당시 체온은 두 군 사이에 유의한 차이가 없었다($P=0.458$). 계절별 발병 경향은 두 군 사이의 유의한 차이는 없었고($P=0.397$), 하지 통증을 호소한 경우 역시 두 군 사이의 유의한 차이는 없었다($P=0.534$) (Table 3).

3. BACM군과 다른 질병군 사이의 혈액검사 소견의 차이

BACM군과 각 질병군 사이의 혈액검사 소견은 Table 4와 같고, BACM군과 다른 세 군을 각각 비교한 결과는 표 5와 같다. 통계적으로 유의한 차이를 나타낸 항목들은, BACM군과 GBS군 사이의 비교

에서는 AST가 유일하였고, BACM군이 GBS군에 비해 유의하게 높았다($P=0.008$). PLT는 BACM군이 GBS군에 비해 비교적 낮았으나, 통계학적으로는 경계선상의 차이를 보였다($P=0.064$). BACM군과 TS군 사이의 비교에서는 AST, ALT, WBC, PLT 그리고 호중구 분율과 림프구 분율이 통계적으로 유의한 차이를 나타냈고, AST, ALT, 그리고 림프구 분율은 BACM군이 TS군보다 높았으며(각각 $P<0.001$, $P<0.001$, $P=0.007$), WBC, PLT, 그리고 호중구 분율은 BACM군이 TS군보다 낮았다(각각 $P=0.006$, $P=0.003$, $P=0.005$). BACM군과 SA군 사이의 비교에서는 AST, CRP, 그리고 WBC가 통계적으로 유의한 차이를 보였고, AST는 BACM군이 SA군보다 높았고($P=0.005$), CRP와 WBC는 BACM군이 SA군보다 낮았다(각각 $P=0.002$, $P=0.045$). 림프구 분율은 BACM군이 SA군보다 비교적 높았으나, 통계학적으로는 경계선상의 차이를 보였다($P=0.059$).

4. BACM군과 다른 질병군을 감별할 수 있는 임상적 또는 혈액학적 지표

BACM군과 나머지 세 질병군 사이의 비교에서, 모든 경우에 통계적으로 유의한 차이를 나타내는 임상 증상은 내원 당시의 상기도 감염 증상이 유일하였고, 혈액검사 소견 중에서는 AST가 유일하였다. 내원 당시의 상기도 감염 증상은 BACM군이 다른 모든 군에 비해 빈도가 높았으며, AST도 BACM군이 다른 모든 군에 비해 높았다.

고찰

1957년에 BACM에 대한 기록이 처음 서술된 지 50년 이상 지났음에도, 이 병에 대해서는 아직 많은 주의가 기울여지지 않고 있다. 특별한 치료 없이, 보존적 요법만으로도 후유증이나 합병증 없이 수 일 내로 완전히 호전되는 BACM의 자연 경과를, 수많은 BACM 환아들에게 그보다 위험하고 심한 후유증이 나타날 수 있는 다른 질병에 대한 검

Table 4. Laboratory Findings of Disease Groups

Parameter	BACM Group	GBS Group	TS Group	SA Group
WBC(μ L)	6,784 [2,500-21,560]	9,628 [3,600-21,560]	6,784 [2,500-21,560]	12,298 [5,760-18,300]
PLT ($10^3/\mu$ L)	207 [113-370]	289 [172-387]	293 [153-486]	319 [155-590]
NE% (%)	44.9 [32.8-66.8]	40.2 [22.6-64.2]	59.0 [28.3-87.8]	56.0 [29.9-76.9]
LY% (%)	44.7 [20.3-58.9]	50.1 [29.4-68.6]	31.8 [7.8-58.1]	33.4 [11.2-58.9]
Protein (g/dL)	6.7 [6-7.9]	6.9 [6.5-7.9]	7.0 [5.7-8.6]	7.0 [5.9-7.8]
Albumin (g/dL)	4.4 [3.9-4.7]	4.5 [3.9-5.2]	4.5 [3.1-5.1]	4.4 [3.9-4.6]
AST (IU/L)	124 [39-499]	43 [26-71]	29 [21-41]	31 [20-73]
ALT (IU/L)	39 [16-123]	22 [10-58]	15 [8-58]	22 [9-48]
ALP (IU/L)	518 [234-656]	606 [497-819]	650 [315-2305]	482 [201-571]
Creatinine (mg/dL)	0.53 [0.43-0.83]	0.46 [0.38-0.50]	0.48 [0.23-0.62]	0.48 [0.37-0.61]
CRP (mg/dL)	0.79 [0.02-5.07]	0.20 [0.03-0.77]	1.24 [0.03-9.95]	4.57 [0.33-14.17]
CPK (ng/mL)	3,166.3 [36-18,834]	219.1 [36-735]		
CK-MB (ng/mL)	24.11 [1.51-83.13]			
Myoglobin (ng/mL)	734 [21-2840]			

Mean [min-max]

BACM, benign acute childhood myositis; GBS, Guillain-Barre syndrome; TS, transient synovitis; SA, septic arthritis; WBC, white blood cell; PLT, platelet; NE%, neutrophil percentage; LY%, lymphocyte percentage; AST, aspartate transaminase; ALT, alanine transaminase; ALP, alkaline phosphatase; CRP, C-reactive protein; CPK, creatine phosphokinase; CK-MB, Creatine kinase-myocardial band.

Table 5. Comparisons of Laboratory Findings among Disease Groups

Parameter	BACM vs. GBS Group	BACM vs. TS Group	BACM vs. SA Group
Creatinine	0.115	0.180	0.768
Protein	0.786	0.322	0.820
Albumin	0.906	0.539	1.000
AST	0.008	<0.001	0.005
ALT	0.094	<0.001	0.126
ALP	0.849	0.364	0.976
CRP	0.923	0.914	0.002
WBC	0.365	0.006	0.045
Hb	0.715	0.344	0.983
Hct	0.577	0.186	0.947
PLT	0.064	0.003	0.168
NE%	0.844	0.005	0.085
LY%	0.749	0.007	0.059

All values are *P*-value.

BACM, benign acute childhood myositis; GBS, Guillain-Barre syndrome; TS, transient synovitis; SA, septic arthritis; AST, aspartate transaminase; ALT, alanine transaminase; ALP, alkaline phosphatase; CRP, C-reactive protein; WBC, white blood cell; Hb, hemoglobin; HCT, hematocrit; PLT, platelet; NE%, neutrophil percentage; LY%, lymphocyte percentage.

사를 최우선적으로 시행하게 했고, 아이러니하게도 그 검사 결과가 나오기 전에 병이 자연 호전되어 추가적인 검사 또는 연구의 필요성을 낮추게 해 왔으며 동시에 이 병에 대한 연구자들의 관심도 낮추어 왔다. 그러나, 이러한 양성의 경과를 보이는 질병의 빈도가 경과가 좋지 않은 질병의 빈도에 비해 상당히 높다면, 그리고 이를 조기에 감별할 수 있는 유용한 방법이 있다면, 양성의 질병도 조기에 발견하여 불필요한 침습적 검사를 예방하는 것에도 임상적인 의미가 있을 것이다. 저자들은 이러한 유의한 임상적 증상이나 징후, 또는 검사결과가 있는지 찾아보고자 하였다.

이 질병에 주의를 기울인 이전의 여러 연구자들에 의해 BACM이 선행하는 바이러스성 감염, 특히 인플루엔자 A 또는 B 바이러스와 상관관계가 있다는 것과⁶⁻⁸⁾, 학령기/학령전기의 남아들에게서 호발하며^{4,8)}, 계절적으로는 늦겨울과 초봄 사이에 호발하고^{7,9)}, CPK와 간 효소(특히 AST)의 상승이 관찰되며^{8,10-18)}, 정도의 백혈구 감소증, 호중구 감소증, 혈소판 감소증과 같은 일과성 혈액학적 변화가 나타나고^{10,12,16-18)}, 적혈구 침강속도(erythrocyte sediment rate, ESR)와 CRP는 대부분 정상범위이거나 약간 상승되는 경향이 있다는 것^{8,10-12,14)}이 알려져 있다. 저자들의 연구에서도 BACM군에서 몇 종류의 호흡기 바이러스 감염 influenza A virus 5례, parainfluenza virus type 2 2례, parainfluenza virus type 3 1례, metapneumovirus 1례가 관찰되었고, 여아에 비해 남아의 비율이 높았으며, 봄과 겨울에 발생한 경우가 전체의 60% 이상이었고, 정도의 백혈구감소증과 상대적 림프구 증가증이 관찰되었으며, CPK, AST, ALT의 명백한 상승에 비해 비교적 정도의 CRP 상승을 보여, 이전의 연구 결과와 일치되는 소견을 보였다.

그러나 TS group과 SA group에서도 남아가 월등히 많기 때문에 특징이라고 하기에는 무리가 있고, 열이 동반된 상기도 감염이 있고, 관절이 아닌 근육에 통증을 호소하며 CPK 상승, AST 상승이 있을 때 의의가 있는 것 같다.

BACM과 비슷한 임상양상을 보이는 정형외과적 질환으로 저자들이 본 연구에서 차이점을 발견하고자 했던 TS와 SA의 경우, 이전의 연구 결과들을 살펴보면 대부분 TS 자체의 혈액학적 소견에 대한 내용보다 SA와의 감별에 중점을 두고 연구가 시행되어 왔다. 1999년 Kocher 등¹⁹⁾에 의해 시행된 연구에서, TS와 SA를 구별하기 위한 4가지 단서로 체중 지탱에 대한 거부, 발열(구강체온 38.5°C 이상), WBC 12,000개/μL 이상, ESR 40 mm/hr 이상을 제시하였고 이 모두를 만족하는 경우 99.6%의 확률로 TS를 감별할 수 있다고 한 이후, 수많은 연구자들이 임상증상과 혈액검사 소견을 통해 TS와 SA를 감별하기 위한 방법에 대해 연구하였으나²⁰⁻²³⁾, 대부분 SA군에서 WBC가 증가되기는 하지만 TS군과 통계적으로 유의한 차이가 항상 나타나지는 않았고, Kocher의 4가지 항목 중 단일로 가장 변별력 있는 항목은 오히려 임상증상인 발열인 것으로 나타났다. 저자들은 이번 연구에서 BACM과 TS, SA군을 각각 비교하였는데, 발열의 경우 TS군과는 통계적으로 유의한 차이를 나타냈으나($P=0.010$), SA군과는 차이를 보이지 않아($P=0.458$), 이 두 정형외과적 질환과 BACM군을 서로 감별할 수 있는 지표로 삼기에는 부적절하였다. 또한, SA군이 TS군에 비해 발열이 나타날 확률이 높다는 이전의 연구 결과와는 일치하는 결과를

나타냈다.

또한 본 연구에서, 임상 증상 중 내원당시의 상기도 감염 증상이 BACM군과 다른 질병군 모두와의 사이에서 통계적으로 유의한 차이를 나타내었으나, 이는 논란의 여지가 있다. 우선 응급실 진료 환경에서 정형외과로 진료 의뢰할 당시, 소아청소년과로 의뢰할 때에 비해 최근의 상기도 감염 증상 또는 내원 당시의 상기도 감염 증상에 대해 자세한 병력 청취가 생략되었을 가능성이 그것이다. 이전의 여러 연구에서 TS군과 선행하는 바이러스성 상기도 감염과의 연관성이 수 차례 입증되어 왔으나, 본 연구에서는 TS군에서 최근의 그리고 내원 당시의 상기도 감염이 관찰된 경우가 매우 적었던 부분이 연구의 제한점이 될 수 있을 것이다.

Jain 등¹⁶⁾은 BACM에 관한 연구에서 BACM과 감별이 필요한 몇 가지 소아과적 질환에 대한 감별 방법을 소개하고 있는데, 이 중 GBS와의 비교시 선행하는 상기도 감염과 하지 보행장애 또는 하지 근위약 증상의 발현까지의 기간이 감별점이 될 수 있다고 하였다. BACM은 바이러스성 상기도 감염의 초기 회복기에, GBS는 후기 회복기에 발생한다는 점인데, 이 점을 두 군을 구별하는 지표로 사용할 수 있을지에 대해 두 군의 이전 상기도 감염 증상 발현시부터 응급실 내원시까지의 기간을 일 단위로 분석해 보았다. 비록 GBS군의 환자 수가 많지 않아 많은 수를 비교하지는 못했으나, 최근 4주 이내의 상기도 감염 증상이 있었다고 응답한 환자 17명(BACM군)과 5명(GBS군)의 상기도 감염 증상 발생시부터 내원시까지의 기간은 BACM군은 평균 4.29 ± 1.57 일이었고 GBS군은 평균 4.40 ± 2.19 일이었으며, Mann-Whitney 방식의 비모수적 검정으로 두 군을 비교한 결과 $P=0.820$ 으로 두 군 사이의 유의한 차이가 없었다. 이는 비교대상 군의 수가 적어서 발생한 통계적 오류일 수도 있고, 또는 Recall bias에 의한 교란일 수도 있으나, 적어도 보행장애 증상을 주소로 응급실에 내원한 경우 이전의 상기도 감염 증상과의 기간을 BACM과 다른 질병을 감별할 수 있는 지표로 삼기는 어렵다고 판단된다.

BACM은 잘 걷던 학령기 아동이 갑자기 걷지 않으려 하고 다리가 아프거나 또는 힘이 들어가지 않는다는 증상을 호소할 때 반드시 의심해 보아야 할 질환중 하나이다. 특히 남아에서, 늦겨울부터 봄 사이에 외상 없이 발생한 경우, 최근에 또는 내원시 상기도 감염 증상이 있을 경우, 그리고 발열이 있을 경우엔 BACM일 가능성이 높으며, 이와 비슷한 증상을 보이는 GBS, TS, 그리고 SA와 감별하기 위해서는 AST를 측정하여 45 IU/L 이상일 경우, 추가적인 침습적 검사를 진행하기에 앞서 보존적 요법을 시행하며 경과관찰을 하는 것을 고려해 볼 수 있겠다. 또한, 본 연구에서 유의한 차이를 보인 임상적 소견인 내원 당시의 상기도 감염 증상은, 일차진료 상황에서 병력 청취상의 생략이 발생하였을 가능성이 있으므로 보다 많은 환자들을 대상으로 한 추가적인 연구가 필요할 것으로 보인다.

요약

목적: 길랑-바레 증후군과 같은 드물지만 심각한 질병에 대한 관심과 마찬가지로, 양성이지만 빈도가 높은 양성 급성 소아기 근염에 대

해서도 관심을 가질 필요가 있다고 생각하였다. 이에, 양성 급성 소아기 근염 환아들의 임상 양상과 검사 소견을 보행장애를 일으키는 다른 원인질환과 비교하여, 침습적 검사 없이 이를 다른 질병군과 감별할 수 있는 방법을 찾아보고자 하였다.

방법: 2009년 1월 1일부터 2013년 12월 31일까지 보행장애를 주소로 충북대학교병원 응급실을 방문한 환아는 총 68명이었고, 모두 입원하여 치료받았으며, 진단된 원인 질환은 양성 급성 소아기 근염, 길랑-바레 증후군, 일과성 활액막염, 그리고 화농성 관절염이었다. 양성 급성 소아기 근염군과 다른 세 질병군 사이의 임상 양상과 검사 소견을 비교하였다.

결과: 통계적으로 유의하게 양성 급성 소아기 근염군을 다른 질병군과 구별할 수 있는 한 가지의 증상과 한 가지의 검사 소견이 있었다. 내원 4주 이내의 상기도 감염 여부와 아스파르트산 아미노기전이효소 (AST) 가 그것이다. AST가 45 IU/L 이상일 때를 양성 급성 소아기 근염 진단의 감별점으로 하였을 경우, 진단적 민감도는 94.4%, 특이도는 89.6%, 양성 예측도는 77.3%, 음성 예측도는 97.7%, 그리고 정확도는 90.9% 이었다.

결론: 양성 급성 소아기 근염은 학령전기 아동에게서 갑작스런 비외상성 보행장애를 일으킬 수 있는 양성 일과성 병태로, 특히 남아이면서, 늦은 겨울부터 봄 사이에, 상기도 감염 증상과 발열이 동반된 경우에 양성 급성 소아기 근염일 가능성이 높다. 또한, AST를 측정하여 45 IU/L 이상일 경우, 보행장애의 다른 원인을 확인하기 위한 추가적인 침습적 검사를 시행할 필요성이 비교적 낮다고 할 수 있다.

References

- 1) Leung AK, Lemay JF. The limping child. *J Pediatr Health Care* 2004;18:219-23.
- 2) Singer JJ. The cause of gait disturbance in 425 pediatric patients. *Pediatr Emerg Care* 1985;1:7-10.
- 3) Lundberg A. Myalgia cruris epidermica. *Acta Paediatr* 1957;46:18-31.
- 4) Mackay MT, Kornberg AJ, Shield LK, Dennett X. Benign acute childhood myositis: laboratory and clinical features. *Neurology* 1999;53:2127-31.
- 5) Barasz M. Benign acute myositis. *Am J Emerg Med* 2000;18:735.
- 6) Middleton PJ, Alexander RM, Szymanski MT. Severe myositis during recovery from influenza. *Lancet* 1970;2:533-5.
- 7) Zafeiriou DI, Katzos G, Gombakis N, Kontopoulos EE, Tsantali C. Clinical features, laboratory findings and differential diagnosis of benign acute childhood myositis. *Acta Paediatr* 2000;89:1493-4.
- 8) Agyeman P, Duppenhaler A, Heininger U, Aebi C. Influenza-associated myositis in children. *Infection* 2004;32:199-203.
- 9) Dietzman DE, Schaller JG, Ray CG, Reed ME. Acute myositis associated with influenza B infection. *Pediatrics* 1976;57:255-8.
- 10) Hall G, Schranz CI. Benign acute childhood myositis—a rare cause of abnormal gait. *Am J Emerg Med* 2014;32:193.e1-2.
- 11) Heiner JD, Ball VL. A child with benign acute childhood myositis after influenza. *J Emerg Med* 2010;39:316-9.
- 12) Koliou M, Hadjiloizou S, Ourani S, Demosthenous A, Hadjidemetriou A. A case of benign acute childhood myositis associated with influenza A (H1N1) virus infection. *Clin Microbiol Infect* 2010;16:193-5.
- 13) Neocleous C, Spanou C, Mpampalis E, Xatzigeorgiou S, Pavlidou C, Poulos E, et al. Unnecessary diagnostic investigations in benign acute childhood myositis: a case series report. *Scott Med J* 2012;57:182.
- 14) Rubin E, De la Rubia L, Pascual A, Domínguez J, Flores C. Benign acute myositis associated with H1N1 influenza A virus infectioHu JJ, Kao CL, Lee PI, Chen CM, Lee CY, Lu CY, et al. Clinical features of influenza A and B in children and association with myositis. *J Microbiol Immunol Infect* 2004;37:95-8.n. *Eur J Pediatr* 2010;169:1159-61.
- 15) Hu JJ, Kao CL, Lee PI, Chen CM, Lee CY, Lu CY, et al. Clinical features of influenza A and B in children and association with myositis. *J Microbiol Immunol Infect* 2004;37:95-8.
- 16) Jain S, Kolber MR. A stiff-legged gait: benign acute childhood myositis. *CMAJ* 2009;181:711-3.
- 17) King BA. Benign acute childhood myositis as a cause of failure to weight bear. *J Paediatr Child Health* 2003;39:378-80.
- 18) Rennie LM, Hallam NF, Beattie TF. Benign acute childhood myositis in an accident and emergency setting. *Emerg Med J* 2005;22:686-8.
- 19) Kocher MS, Zurakowski D, Kasser JR. Differentiating between septic arthritis and transient synovitis of the hip in children: an evidence-based clinical prediction algorithm. *J Bone Joint Surg Am* 1999;81:1662-70.
- 20) Luhmann SJ, Jones A, Schootman M, Gordon JE, Schoenecker PL, Luhmann JD. Differentiation between septic arthritis and transient synovitis of the hip in children with clinical prediction algorithms. *J Bone Joint Surg Am* 2004;86-A:956-62.
- 21) Kocher MS, Mandiga R, Zurakowski D, Barnewolt C, Kasser JR. Validation of a clinical prediction rule for the differentiation between septic arthritis and transient synovitis of the hip in children. *J Bone Joint Surg Am* 2004;86-A:1629-35.
- 22) Caird MS, Flynn JM, Leung YL, Millman JE, D'Italia JG, Dormans JP. Factors distinguishing septic arthritis from transient synovitis of the hip in children. A prospective study. *J Bone Joint Surg Am* 2006;88:1251-7.
- 23) Del Beccaro MA, Champoux AN, Bockers T, Mendelman PM. Septic arthritis versus transient synovitis of the hip: the value of screening laboratory tests. *Ann Emerg Med* 1992;21:1418-22.