

족관절에 생긴 활액막성 연골종증

인제대학교 의과대학 일산백병원 정형외과교실, 병리학교실*

서진수 · 김지훈 · 김종인 · 김한성*

Synovial Chondromatosis of the Ankle Joint

Jin-Soo Suh, M.D., Ji-Hoon Kim, M.D., Jong-In Kim, M.D., Han-Seong Kim, M.D.*

Departments of Orthopedic Surgery and Pathology*, Inje University, Ilsan Paik Hospital, Goyang, Korea

=Abstract=

Purpose: We evaluated the results of treatment and clinical symptoms of 11 cases of synovial chondromatosis in the ankle joint.

Material and Method: From February 2001 to May 2008, 11 cases with synovial chondromatosis involving ankle joint underwent surgical treatment. There were 5 males and 6 females. The average age at surgery was 51 years. The average follow-up period was 42 months. Duration from onset of symptom to treatment was 117 months. Chief complaints of patients, 9 cases were pain and 1 case was mass like lesion, 1 case was found on x-ray. Preoperatively, all cases were evaluated on simple x-ray, 4 cases on CT, 4 cases on MRI and 1 case on ultrasonogram. 10 cases underwent synovectomy and loose body removal. 5 cases of 10 cases underwent open synovectomy and loose body removal and arthroscopic surgery. 4 cases of 10 cases underwent only open synovectomy and loose body removal and 1 case of 10 cases underwent only arthroscopic surgery. 1 case underwent tibiotalar arthrodesis.

Results: The location of loose bodies was 7 cases on posterior and 4 cases on anterior and 4 case on lateral and 3 cases on multiple site. Postoperatively, all patients showed marked clinical improvement and had subjective satisfaction except reoperation 2 cases and arthrodesis 1 case. AOFAS score of all patients was average 82.2.

Conclusion: Clinical results of the synovial chondromatosis of ankle joint were satisfactory. More accurate preoperative evaluation is required to achieve prevention of postoperative recurrence and better outcome.

Key Words: Ankle joint, Synovial chondromatosis, Synovectomy

서 론

활액막성 연골종증은 비교적 드문 양성 종양으로 관절 내

활액막 결체 조직의 양성 반응성 이형성에 의해 여러 개의 연골성 결절을 형성하고 이것이 관절 내로 유리되어 유리체를 형성하는 질환이다. 주로 단일 관절을 침범하며 50% 이상에서 슬관절에 발생하는 것으로 알려져 있으며, 족관절에는 매우 드물게 보고되고 있고 국내에서는 그 임상 양상에 대한 단독 보고가 아직 없다^{2,5,7,8,12)}. 단순 방사선 사진상 관절강 내에 다수의 유리체가 존재하면 이 질환을 의심할 수 있으나, 유리체의 관절 내 위치를 잘못 파악하거나 크기 및 개수를 실제보다 낮게 평가할 수 있고, 불충분한 수술로 인하여 증상의 재발이 있을 수 있어 임상 경과에 대한 분석과

• Address for correspondence

Jin-Soo Suh, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Ilsan Paik Hospital, Inje University, 2240 Daehwa-dong, Ilsan-gu, Goyang-si, Gyeonggi-do, 411-706, Korea

Tel: +82-31-910-7968 Fax: +82-31-910-7967

E-mail: sjs0506@paik.ac.kr

이해가 중요하다. 본 교실에서는 족관절에 발생한 조직학적으로 활액막성 연골종증으로 확진된, 1년 이상 추시 가능하였던 11예의 임상 양상 및 치료 결과를 분석하여 보고하고자 한다.

대상 및 방법

1. 연구 대상

2001년 2월부터 2008년 5월까지 족관절의 유리체로 수술을 시행 받고 조직 검사상 활액막성 연골종증으로 진단된 환자 중 1년 이상 추시되었고, 퇴행성 관절염, 박리성 골연골염, 관절내 골절 등에 따른 속발성 연골종증이라고 판단되는 경우를 제외한 11예를 대상으로 하였다. 남자 5명, 여자 6명이었고, 진단 당시 평균 연령은 51.5세(범위, 35~74세)였다. 발생 부위는 우측 2예, 좌측 9예였다. 증상 발생 후 치료까지의 기간은 평균 116.9개월(범위, 2~360개월)이었으며, 평균 추시기간은 41.9개월(범위, 12~96개월)이었다.

2. 임상적 평가

술 전 족관절의 압통, 부종, 잠김 현상 등의 이학적 소견을 평가하였으며, 수술 후 입원 및 외래 기록 그리고 전화 면담을 통하여 임상적 평가를 하였고, 족관절의 기능의 정도는 미국정형외과족부족관절학회 평가표(AOFAS score)를 통해 평가하였다.

3. 방사선학적 평가

수술 전 평가 방법으로 전례에서 체중 부하 단순 방사선 촬영을 하였으며, 컴퓨터 단층 촬영 4예, 자기 공명 영상 촬영 4예, 초음파 1예를 시행하였다. 방사선학적 평가로 유리체의 개수, 크기, 위치 등을 분석하였으며, 동반된 족관절의 퇴행성 관절염 유무와 골 침식 유무 등을 확인하였다.

4. 수술 방법 및 병리학적 병기

치료로 활액막 절제술을 포함한 유리체 제거술을 개방적 수술로 시행했는지 혹은 관절경을 이용했는지 여부와 족관절의 구조적 특성상, 위치에 따른 수술적 접근법에 대한 분석을 시도 하였다. 조직 검사를 통한 병기 분류는 Milgram의^{9,10)} 분류를 이용하여 단일 병리 의사에 의해 분석, 분류 하였다.

결 과

1. 임상적 분석

환자의 주증상으로는 동통 9예, 종물 촉진 1예, 특이 증상 없이 방사선 촬영상 관절내 유리체가 발견된 경우가 1예였으며 그 외 증상으로 압통 9예, 부종 6예, 잠김 현상 4예 등이 있었다. 재수술을 시행한 2예와 족관절 유합술을 시행한 1예를 제외한 8예 모두에서 현재까지 재발 없이 임상 증상의 현저한 호전을 보였으며, AOFAS 평가 수치는 술 전 평균 58.8에서 술 후 평균 82.2점으로 향상되었다.

2. 방사선학적 분석

유리체가 있는 경우에 수술을 시행하였기에 전례에서 단순 방사선 촬영상 유리체가 발견되었으며, 컴퓨터 단층 촬영과 자기 공명 영상 촬영 등 정밀 검사도 참고하여 유리체에 대한 분석을 하였다. 유리체의 평균 개수는 4.9개(범위, 2~13개)였으며 가장 큰 유리체는 4~14 mm로 평균 6.4 mm였고 가장 작은 유리체는 1~4 mm로 평균 2.3 mm였다. 유리체의 위치는 후방 7예, 전방 4예, 외측 4예, 다발성 3예로 후방에 존재하는 경우가 가장 많았다. 단순 방사선 촬영상 골극, 골미란 및 관절 간격의 협소 등 족관절의 퇴행성 관절염이 진행된 경우가 3예에서 관찰되었다.

3. 수술 방법에 따른 분석 및 병리학적 분석

10예에서 활액막 절제술과 유리체 제거술을 시행하였으며 1예에서 족관절 유합술을 시행하였다. 활액막 절제술과 유리체 제거술을 시행한 환자 중 5예에서 개방적 수술과 관절경 수술을 같이 시행하였고 4예에서 개방적 수술만을, 1예에서는 관절경적 수술만을 시행하였다. 개방 활액막 절제술 및 유리체 제거술 시행시 수술적 접근 방법으로 전, 후방 접근법은 5예, 전방 접근법은 3예, 후방 접근법은 2예에서 시행하였다. 병기 분류에서 활동적인 활액막염과 유리체가 공존하는 이행적인 병변을 보이는 Milgram stage II (Fig. 1)가 6예로 가장 많았으며, 활동적인 활액막염 없이 다발성의 유리체만 존재하는 Milgram stage III가 5예로 분석되었고 유리체가 있는 경우에 수술을 시행하였기에 유리체 없이 활동적인 활액막염이 존재하는 Milgram stage I은 본 연구에서 포함되지 않았다.

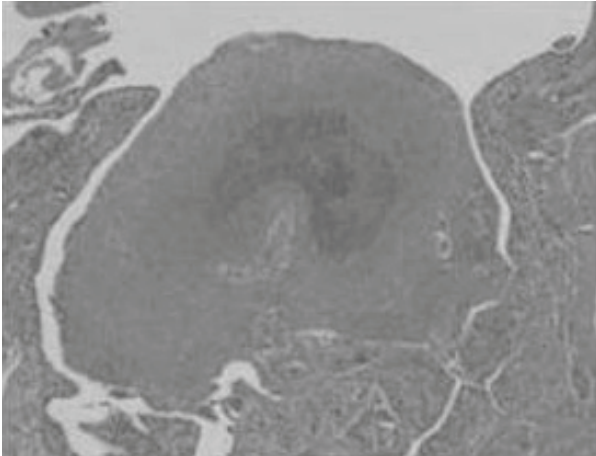


Figure 1. Microscopical finding demonstrates circumscribed hyaline cartilage nodule in the connective tissue. The mass is covered by synovium: Milgram stage II (H&E stain, ×40)

증례보고

증례 1.

43세 여자로서 한 달 전부터 특이계기 없이 발생한 우측 족관절 통증으로 내원하였고 압통이 족관절의 후방 부위에 있었으며 종창도 동반되었다. 단순 방사선 촬영 상 거골 후방에 석회화 음영이 관찰되었으며 자기 공명 영상 촬영상 T1 강조 영상에서 저강도 신호, T2 강조 영상에서 중등도의 신호를 보이며 주변에 관절 삼출액을 동반한 다발성 유리체가 관찰되었다(Fig. 2). 후외측 접근에 의한 개방성 활액막 절제술과 유리체 제거술 시행하였고 거골의 골미란 소견에 대하여 다발성 천공술을 시행하였다(Fig. 3). 제거한 유리체는 13개였으며 Milgram 병기 분류는 III였다 술 후 10개월째

관절 운동은 정상이었고 주관적 증상도 전혀 없었으며 AOFAS 평가 수치는 술 전 62점에서 술 후 95점으로 향상되었다.

증례 2.

53세 남자로서 족관절 통증으로 시행한 단순 방사선 촬영상 족관절의 전후방에 다수의 유리체가 관찰되어(Fig. 4A) 관절경적 활액막 절제술 및 유리체 제거술을(Fig. 4B) 시행하였다. 유리체가 완전히 제거되지 않은 것이 관찰되었으나 증세 호전되어 특별한 처치 없이 추시 관찰 중 술 후 6년째 점차로 통증 악화되었다. 컴퓨터 단층 촬영상 족관절 후방과 전외측에 유리체가 발견되었고 거골과 원위 경골의 관절면에 골극과 연골하 낭종 등이 관찰되었다(Fig. 5). 전후방의 개방적 활액막 절제술 및 유리체 제거술 시행하였고 골극 제거술과 연골하 낭종에 대한 다발성 천공술 시행하였다(Fig. 6). 제거한 유리체는 4개로 Milgram 병기 분류상 III이었으며 이후 환자의 증상은 현저히 개선되었고 AOFAS 점수는 술 전 56점에서 술 후 86점으로 일상 활동에 제한은 없지만 장시간의 보행이나 체중 부하시 둔통을 호소하고 있어 호상바닥창 신발 착용하고 추시 관찰중이다.

고 찰

활액막성 연골종증은 1958년 Jaffe⁶⁾에 의해 처음 기술되었으며, 활액막 결체 조직의 연골성 화생에 의해 다발성 관절내 유리체가 발생하는 질환으로 퇴행성 관절염, 골연골골절, 박리성 골연골염 등 다른 질환에 따른 진행경과에 따른 속발성 활액막성 연골종증과는 다르다. 1977년 Milgram은^{9,10)} 활액막성 연골종증에 대해 병리경과에 따라 3단계 과

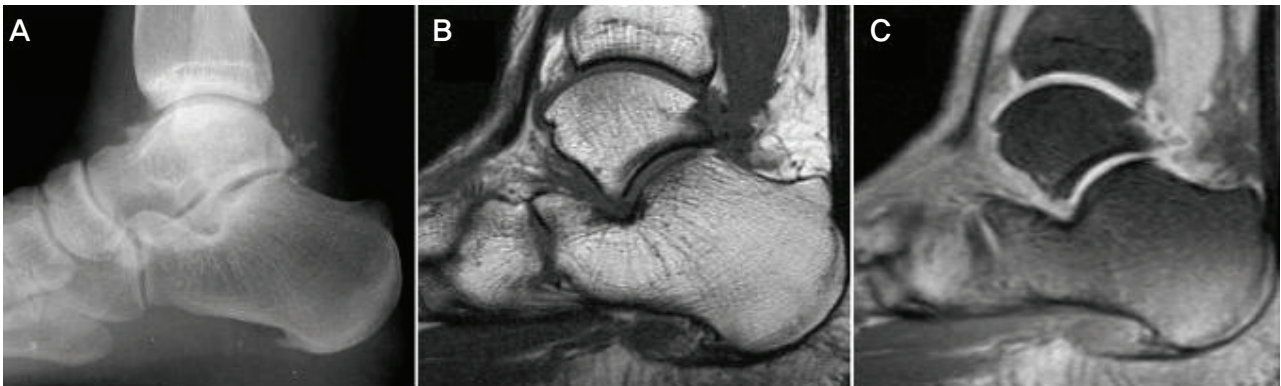


Figure 2. (A) Lateral image of 43 year old female patient shows multiple calcified nodules of posterior aspect of talus. (B) Sagittal T1 weighted image shows multiple nodular lesions with low signal changes. (C) Sagittal T2 weight image shows multiple nodular lesions with intermediate signal changes and surrounded with fluid collection.

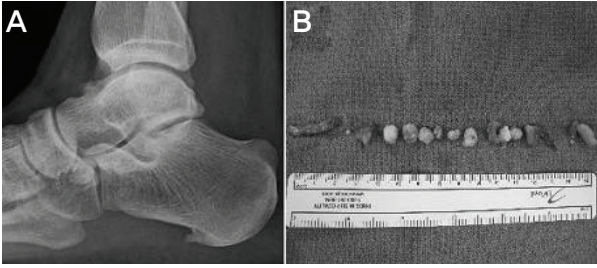


Figure 3. (A) Post-operative x-ray: Removed state of loose bodies. (B) Gross photo of removed multiple loose bodies.

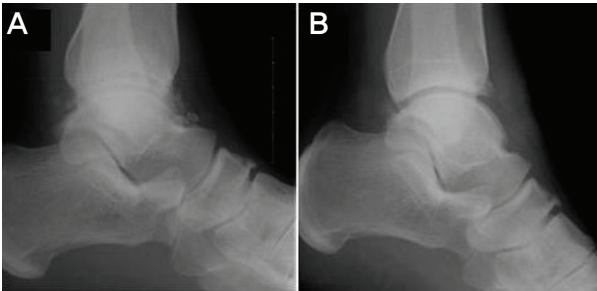


Figure 4. (A) Pre-operative x-ray: There were multiple calcified loose bodies at anterior and posterior aspect of ankle joint (B) Post-operative x-ray: There were no loose body at anterior aspect of ankle joint but some loose bodies were remained at posterior aspect of ankle joint.

정을 주장하였는데 오늘날 활액막성 연골종증의 분류에 널리 쓰이고 있다. 1단계는 관절내 유리체가 없는 활발한 활액막염만 있는 경우이며, 2단계는 1단계와 3단계 사이의 이행기로서 관절내 유리체와 함께 활액막 내에 붙어 있는 유리체가 같이 공존한 경우이다. 3단계는 활액막염이 없으면서 관절내 유리체만 존재하는 경우이다. 저자들의 경우 방사선 촬영상 유리체가 있는 경우에 수술을 시행하였기에 1단계는 없었으며 2단계와 3단계는 각각 6예, 5예로 비슷하였는데 두 군간의 임상적 차이는 발견할 수 없었고 실제 병리적 진단상의 한계로 인해 검체 부위가 한 쪽에 치우쳐 있거나 매우 작은 경우, 단계를 명확히 분류하기 어려운 적이 있었다.

활액막성 연골종증에서 단순 방사선 촬영, 관절 조영술 검사, 컴퓨터 단층 촬영, 그리고 자기 공명 영상 촬영이 수술 전 평가에 사용될 수 있는데 단순 방사선 검사는 연골이 석회화나 화생이 되어야만 볼 수 있는 단점이 있어 초기 진단이 어렵고 단지 Milgram의 2단계 이상에서만 유효하며, 또한 실제 유리체의 크기와 개수를 과소평가 할 수 있는 단점이 있다. 관절 조영술은 침습적 시술로 근래에는 잘 사용되지 않으며 컴퓨터 단층 촬영은 단순 방사선 사진보다 석회화된 부위나 관절 단면을 잘 보여줄 수 있어 유리체의 정확한 크기, 위치, 개수를 파악하거나 골극이나 골미란 등을

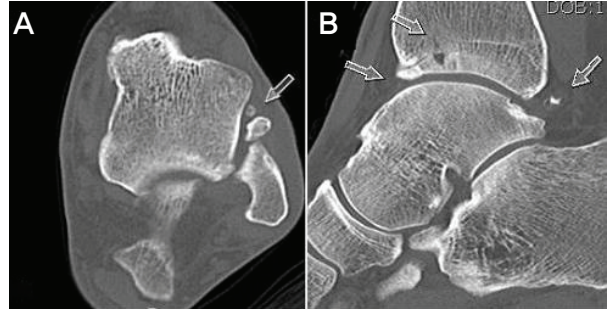


Figure 5. CT was evaluated at post-operative 6 years. (A) Axial image shows multiple loose bodies at anterolateral aspect of ankle joint. (B) Sagittal image shows calcified loose bodies at posterior aspect of ankle joint and anterior bony spur and subchondral cyst at distal tibia.

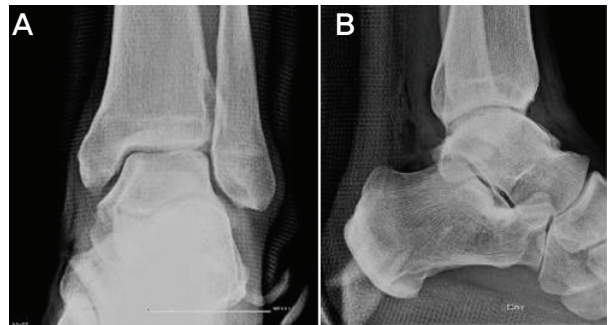


Figure 6. After reoperation, loose bodies and bony spur were removed on x-rays.

발견하는데 가장 정확하며 활액막성 연골종증이 의심될 시술 전 검사로 유용하나 활액막 병변을 밝혀주는 데는 제한성을 가지고 있다. 자기 공명 영상 촬영은 유리체가 주로 관절막의 부착 부위에 붙기 때문에 이에 대한 정확한 위치 및 관절 내 확장 정도를 미리 알 수 있고 활액막성 연골종증의 조기 단계에서 색소 용모 결절성 활액막염 등 다른 질환을 감별하는 데에도 장점이 있기 때문에 가장 많은 정보를 줄 수 있어 최근에 많이 이용되고 있다.

활액막성 연골종증의 치료로는 Jeffreys⁷⁾는 유리체의 단순한 제거만이 가장 좋은 수술 방법이라 하였고 Milgram⁹⁾도 3단계에서는 활액막 제거 없이 유리체의 제거만으로 충분하다고 하였다.

그러나 Maurice 등⁸⁾은 약 22%의 환자에게서 수술 후 재발을 보고하였고, Oglivie-Harris와 Saleh¹¹⁾는 단순 골연골종 제거와 관절경적 활액막 절제술을 비교한 논문에서, 재발 방지를 위해서는 유리체의 제거와 더불어 활액막 절제술을 같이 시행해야 한다고 주장하였다. 반면, Shpitzer 등¹³⁾은 단순 골연골종 제거와 활액막 절제술을 병행한 군 사이에 임상적으로 차이가 없다고 하였다. 최근 다른 부위에서 관

절경을 이용한 활액막 절제술 및 유리체 제거술¹⁾ 좋은 결과를 보고하고 있으나 족관절 자체가 관절경 시술의 시야가 좁고 관절경으로 도달하기 어려운 후방에 유리체가 존재하는 경우가 많아 전후방의 동시적인 접근법이 필요할 것으로 생각된다. 저자들의 경우 관절경을 시행한 5예에서 후방에 따로 절개하여 개방적 수술을 병행하였고 관절경만을 시행한 1예에서 공고롭게 재수술하게 되었으나 이는 관절경 수술의 한계라기보다 관절경 술기의 발달에 따라 전후방으로 완전 절제가 가능하다면 좋은 결과도 가능하리라 생각된다.

활액막성 연골종증의 악성 변화는 Davis 등³⁾이 처음 보고한 이래 최근 드물게 보고되고 있다. Galat 등²⁾은 족부 족관절에 발생한 8예의 활액막성 연골종증을 치료하여 2예에서 연골육종 변화를 보고하였다. Wittkop 등¹⁴⁾은 일차성 활액막성 연골육종과의 방사선학적 구별은 매우 어려우며, 단순 방사선 사진상 골을 침식하며 자라는 형태, 조직학적인 세포 충실도 정도, 연골 세포의 핵의 유사 분열과 과다 염색성, 기질의 형태 등에 따라 구분할 수 있다고 하였다. 이는 드물지만 매우 치명적인 합병증이므로, 방사선 사진상 골의 침식이 있거나, 조기에 재발하는 경우에는 반드시 악성 변화의 가능성을 염두에 두고 치료에 임해야한다. 본 연구의 경우 장기 추시가 되지 않았으나 악성화 된 예는 없었고 2예에서 재발하였는데 이는 엄밀한 의미에서 재발이라기보다 일차 수술 전의 부정확한 진단으로 인한 활액막의 불완전 절제 및 유리체의 불완전한 제거로 인한 것으로 사료되어 철저한 유리체 제거술과 활액막 절제술이 더욱 중요하다고 생각되며 전체적으로 임상적 결과는 양호한 결과를 보였다. 활액막성 연골종증과 동반되는 관절염도 보고되고 있는데, 병변이 장기간 지속된 예에서 퇴행성 관절염을 나타낼 수 있다고 보고되고 있고 저자들의 경우에도 1예에서 족관절 유합술을 시행하였으나 본 연구에서는 증상의 기간과 퇴행성 관절염 간의 상관관계는 찾을 수 없었다.

결 론

드문 질환인 족관절의 활액막성 연골종증을 치료하여 비교적 양호한 임상적 결과를 얻었으며, 재발 방지 및 정확한 치료를 위해 수술 전, 보다 적극적인 평가가 필요할 것으로 사료되며, 유리체와 과증식된 활액막의 완전한 제거가 필요할 것이다.

REFERENCES

1. Bae DK, Kwon OS, LEE JH and Lim CT: *Arthroscopic treatment of synovial chondromatosis. J Korean Arthroscopy Soc*, 6: 43-48, 2002.
2. Galat DD, Ackerman DB, Spoon D, Turner NS and Shives TC: *Synovial chondromatosis of the foot and ankle. Foot Ankle Int*, 29: 312-317, 2008.
3. Davis RJ, Hamilton A and Biggart JD: *Primary synovial chondromatosis: a clinicopathological review and assessment of malignant potential. Hum Pathol*, 29: 683-688, 1998.
4. Ginaldi S: *Computed tomography feature of synovial osteochondromatosis. Skel Radiol*, 5: 219-222, 1980.
5. Halstead AE: *Floating bodies in the joints. Ann Surg*, 22: 327-342, 1985.
6. Jaffe HL: *Tumor and tumorous conditions of bone and joints. Philadelphia, Lea and Febiger Co: 558-567, 1958.*
7. Jeffreys TE: *Synovial chondromatosis. J Bone Joint Surg*, 49-B: 530-534, 1967.
8. Maurice H, Crone M and Watt I: *Synovial chondromatosis. J Bone Joint Surg*, 70-B: 807-811, 1988.
9. Milgram JW: *Synovial chondromatosis. J Bone Joint Surg*, 59-A: 792-801, 1977.
10. Milgram JW and Dunn EJ: *Para-articular chondromas and osteochondroma: A report of three cases. Clin Orthop Rel Res*, 148: 147-151, 1980.
11. Ogilvie-Harris DJ and Saleh K: *Generalized synovial chondromatosis of the knee: a comparison of removal of the loose bodies alone with arthroscopic synovectomy. Arthroscopy*, 10: 166-170, 1994.
12. Park YS, Park KH and Choi HJ: *Synovial chondromatosis of the hip joint. J Korean Orthop Assoc*, 34: 1047-1051, 1999.
13. Shpitzer T, Ganel A and Engelberg S: *Surgery for synovial chondromatosis. 26cases followed up for 6years. Acta Orthop Scand*, 61: 567-569, 1990.
14. Wittkop B, Davies AM and Mangham DC: *Primary synovial chondromatosis and synovial chondrosarcoma. Eur Radiol*, 12: 2112-2119, 2002.
15. Wong K, Sallomi D, Janzen DL, Munk PL, O'Connell JX and Lee MJ: *Monoarticular synovial lesions: radiologic pictorial essay with pathologic illustration. Clin Radiol*, 54: 273-284, 1999.