



동맥류성 골낭종으로 오인된 거골에 발생한 연골모세포종: 증례 보고

박지수, 서진수, 최준영

인제대학교 의과대학 일산백병원 정형외과학교실

Chondroblastoma of the Talus Mimicking an Aneurysmal Bone Cyst: A Case Report

Ji Soo Park, Jin Soo Suh, Jun Young Choi

Department of Orthopedic Surgery, Ilsan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Goyang, Korea

Chondroblastoma is a rare benign tumor that produces giant cells and cartilage matrix. The tumor occurs in people between 10 and 25 years with slightly higher incidence in males. The condition occurs in the proximal epiphysis of the tibia and humerus, distal epiphysis of the femur, but its occurrence in the talus is relatively rare, accounting for 4% of the total number of chondroblastoma cases. Chondroblastoma is often misdiagnosed as a primary aneurysmal bone cyst, giant cell tumor, chondromyxoid, and lesion of a secondary aneurysmal bone cyst by fibrous dysplasia. The most commonly used surgical method for chondroblastoma is broad curettage with bone grafting. In general, an aneurysmal bone cyst is associated with a second degree chondroblastoma, which is approximately 20%. Chondroblastoma of the talus and secondary aneurysmal bone cysts can be misdiagnosed as primary aneurysmal bone cysts. This paper reports a case of a young male patient with chondroblastoma of the talus, which was initially misdiagnosed as an aneurysmal bone cyst with involvement of the talo-navicular joint.

Key Words: Talus, Chondroblastoma, Aneurysmal bone cyst, Bone graft

연골모세포종(chondroblastoma)은 장관골의 골단부에 발생하는 특이한 양성 골종양으로, 거대세포와 유연골 기질을 생성하는 드문 양성 종양이다. 10~25세 사이에서 발생하며, 남자에서 발생 빈도가 약간 높다고 보고되고 있다.^{1,2)} 전체 골종양의 약 2% 이하를 차지하고 양성 골종양 중에서는 약 5% 정도를 차지한다. 2차 골화 중심이 있는 곳은 어디에서나 발생할 수 있으며 경골 및 상완골의 근위 골단부 및 대퇴골의 원위 골단부에 호발하는 것으로 알려져 있고,¹⁻³⁾ 거골에서 발생하는 경우는 상대적으로 드물다.^{1,2,4,6)} 양성 종양이지만 폐 전이를 일으킬 수 있고, 국소 재발이 있는 경우에는 골육종이나 연골육종과의 감별이 필요하다.¹⁾ 증상으로는 장

기간의 국소 통증 및 인접한 관절의 운동장애, 드물게 압통이나 근 위축이 나타날 수 있다. 수술적 치료로는 광범위 소파술과 함께 골 이식술 또는 시멘트충전술이 주로 시행되고 있다.¹⁾ 저자들은 거주 상 관절을 침범한 동맥류성 골낭종으로 오인된 거골의 연골모세포 종에 대하여 광범위 소파술 및 자가 및 동종골이식술을 시행하여 치험한 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다. 본 증례 보고는 인제대학교 일산백병원 윤리위원회의 심의를 통과하였다.

증례 보고

24세 남자 군인 환자로, 내원 4개월 전 장시간에 걸친 행군 후에 발생한 우측 족관절 전방 내측 부위의 통증으로 인해 보존적 치료를 하면서 경과관찰을 하였으나 오래 걸거나 서 있을 때 점차적으로 통증이 악화되는 양상을 나타내어 본원 외래를 방문하였다. 외래 방문 당시 시행한 이학적 검사상 우측 족관절 전방의 내측, 거주상 관절 부근에서 압통이 있었다. 우측 족관절의 운동 제한은 보

Received November 12, 2018 Revised January 8, 2019 Accepted January 28, 2019
Corresponding Author: Jun Young Choi
Department of Orthopedic Surgery, Inje University Ilsan Paik Hospital, 170 Juhwaro, Ilsanseo-gu, Goyang 10380, Korea
Tel: 82-31-910-7968, Fax: 82-31-910-7967, E-mail: osddr8151@paik.ac.kr
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3864-9521>

Financial support: None.
Conflict of interest: None.

Copyright ©2019 Korean Foot and Ankle Society. All rights reserved.

©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.

이지 않았으며 동반된 피부 발적 및 국소 열감, 종창 등의 감염 징후 역시 보이지 않았고 거주상 관절 주변으로 골극이나 종괴 또한 촉진되지 않았다. 체중부하 족부 전후면 및 측면 단순 방사선 사진에서 거주상 관절을 침범한 것으로 관찰되는, 거골의 골두 내부에 경화성 띠를 동반한 방사선 투과성 낭종성 병변이 관찰되었다(Fig. 1). 컴퓨터 단층촬영에서 거주상골 관절의 연골하골까지 침범하였으며 불규칙한 형태를 나타내는 골용해 병변이 관찰되었고(Fig. 2A, B) 내부에 석회화 소견은 관찰되지 않았다. 자기공명영상 T1 및 T2 강조 관상면과 시상면 사진상에서 거주상 관절 관절연골 직전까지 침범한, 경계가 명확하고 균질한 단발성 종괴가 관찰되었으며 종괴의 경계는 T1에서 저신호 강도(Fig. 2C), T2에서 고신호 강도(Fig. 2D)로 관찰되고 종괴를 둘러싼 주변골의 부종이 관찰되었다(Fig. 2E).

거골에 발생한 동맥류성 골낭종(aneurysmal bone cyst)을 의심하여 방사선 투과기로 확인하며 우측 거골두 족배부 중앙에 4 cm 세로 방향 절개를 가하였으며 연부조직을 박리하고 거주상 관절

및 거골두의 족배부를 노출시켰다. 절골도(osteotome)를 이용하여 $1 \times 1 \text{ cm}^2$ 크기의 창(window)을 거골두 피질골에 만들었으며(Fig. 3A), 이 창을 들어올려 내부에서 $3 \times 3 \times 4 \text{ cm}^3$ 크기의 낭성 종괴를 관찰할 수 있었다. 낭성 종괴의 내부는 대부분이 적색의 혈액 성분으로 가득 차 있었으며 거주상 연골하골까지 침범하여 있었으나 관절연골은 비교적 보존되어 있었다. 적색의 액체를 완전히 제거하고 낭성 종괴를 싸고 있던 막을 충분히 소파한 뒤 동측의 근위 경골에서 채취한 자가골 및 동종골을 함께 섞어서 이식하였다(Fig. 3B). 감염 등의 급성 합병증 소견은 보이지 않았으며, 수술 후 4주간 단하지 석고붕대 고정 및 목발을 이용한 부분 체중부하를 실시하였다.

낭성 병변을 싸고있던 막을 소파하여 얻은 조직으로(Fig. 4A) 시행한 병리학적 검사상, 다수의 단핵세포 및 소수의 거대세포가 관찰되고 세포 핵의 커피콩 형태가 관찰되어(Fig. 4B), 비록 석회화 소견은 관찰되지 않았지만 연골모세포종에 해당하다는 결론을 얻었다.

술 후 1년간 추시 관찰 중으로, 방사선 사진상 종양을 소파하고 골이식을 실시한 부분에 골생성이 이루어졌음을 확인하였고(Fig. 5), 술 전에 나타냈던 통증 없이 스포츠 활동을 포함한 정상적인 일상생활을 하고 있다.

고 찰

거골에 발생하는 가장 흔한 종괴는 골 내 결절종으로 거골에 발생하는 연골 모세포종은 그에 비해 드물게 보고되고 있으며,⁷⁾ 전체 연골모세포종의 4% 정도가 거골에 발생하는 것으로 알려져 있다.⁸⁻¹⁰⁾ 연골모세포종의 가장 흔한 임상 양상은 수개월간 지속되는 통증이며, 20%에서 50% 환자에서 외상의 과거력이 있는 것으로 보고된 바 있다.^{11,12)} 또한 국소화된 종창 및 관절 운동의 제한이 동반될 수 있고 대다수의 환자에서 압통이 있으며,^{5,11,13)} 특정 환자군에서는 종괴로 인한 피로 골절, 근위축 소견이 동반되는 경우도 있다.^{14,15)} 연골모세포종은 영상 검사상에서 원발성(primary) 동맥류

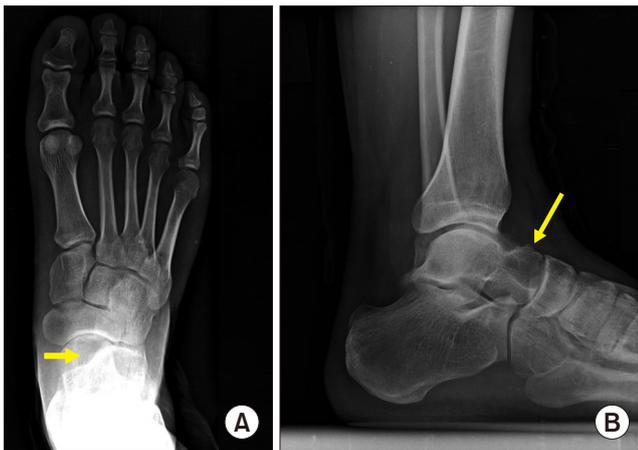


Figure 1. Preoperative standing foot anteroposterior (A) and lateral (B) radiographs present well circumscribed osteolytic lesion (arrows) with a sclerotic rim involving talo-navicular joint in the talar head.

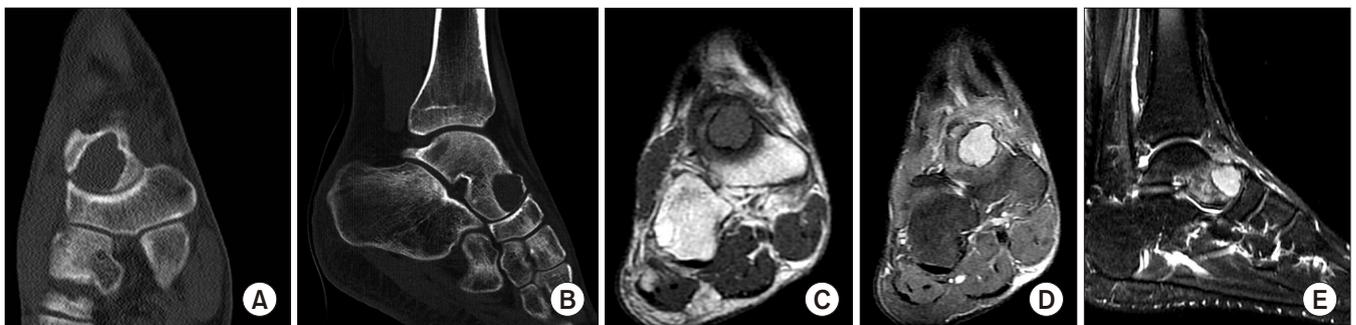


Figure 2. Preoperative computed tomographic images (A, B) show well margined bony cyst with a preserved articular cartilage at talo-navicular joint. A low on T1-weighted coronal image (C), high signal intensity on T2-weighted coronal image (D), and T2-weighted sagittal image (E) on magnetic resonance imaging were shown.

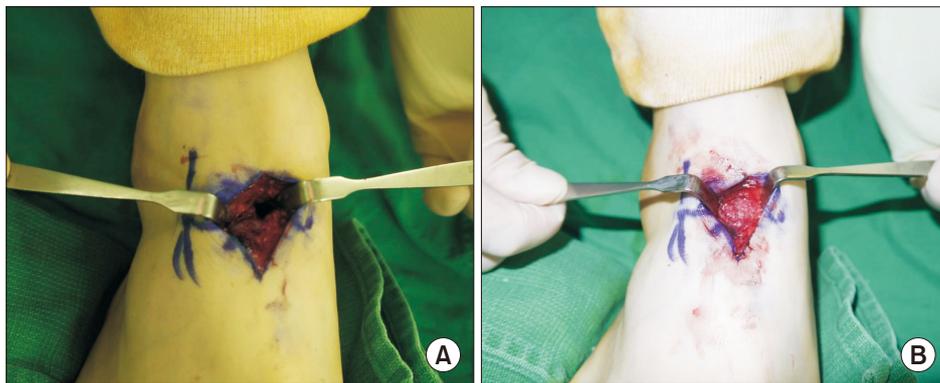


Figure 3. (A) A 1×1 cm² cortical window was made on the dorsal side of talar head with an osteotome to approach the intraosseous mass lesion. (B) An aspiration of hemorrhagic fluid and removal of sclerotic wall with curette were conducted. Mixed bone graft was filled in the space.

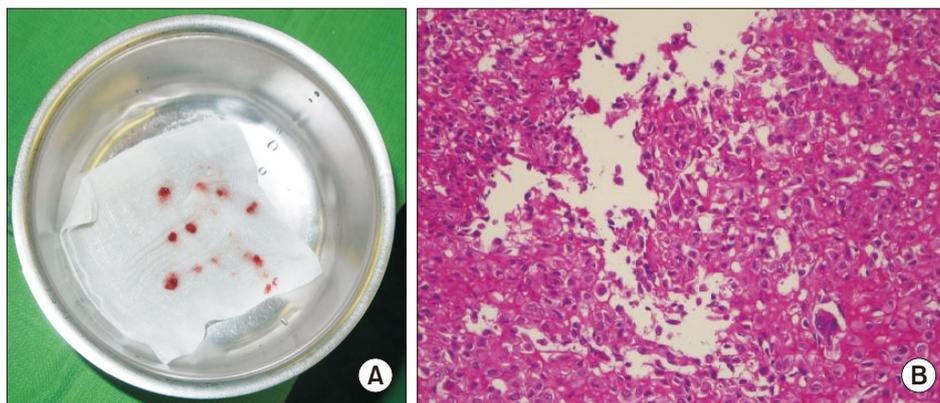


Figure 4. (A) A removed sclerotic wall tissue was sent for histopathologic confirmation. (B) Multinucleated giant cell with a background of chondroid matrix compatible to chondroblastoma was noted. (H&E stain, ×200) Dystrophic calcification surrounding individual cells, giving the classic “chicken wire appearance” was not detected.



Figure 5. A consolidation of bone graft site was noted on the postoperative 1 year radiography.

성 골낭종 및 거대 세포종(giant cell tumor), 연골 점액 유사 섬유종(chondromyxoid fibroma), 섬유 이형성증(fibrous dysplasia) 등에 의한 이차성(secondary) 동맥류성 골낭종의 병변과 오인되는 경우가 많다.⁸⁾ 일반적으로 연골모세포종의 방사선 검사에서는 침범 부위의 골용해 및 골파괴, 그리고 경계 부위의 경화성 병변이 특징적으로 나타난다. 컴퓨터 단층촬영 검사상에서 인접 관절면으로 연

결되는 골파괴 소견이 확인되는 경우에는 반드시 동맥류성 골낭종과의 감별이 필요하며 조직학적 검사를 반드시 시행하여야 한다.⁸⁾

반면 동맥류성 골낭종의 방사선 검사에서는 관절면으로 연장되는 골용해 및 골파괴, 소염성 경계 병변이 특징적으로 나타나지만,¹³⁾ 영상학적 검사 소견만으로 동맥류성 골낭종과 연골모세포종을 구분해내는 것은 매우 어렵다. 그러므로 임상적으로 골낭종의 의심되는 상황이라 하더라도 연골모세포종이 발견될 가능성을 염두에 두는 것이 가장 중요하다고 하겠다.

연골모세포종의 전형적인 조직병리 소견은 난원형의 단핵세포와 골파괴세포 기능의 거대세포가 관찰된다는 점이나 단핵세포나 거대세포 소견만으로는 완전한 진단을 내릴 수가 없어 동반된 연골양 분화 또는 석회화 소견이 반드시 확인이 되어야 한다고 보고된 바 있다.³⁾ 또한 전형적인 소견으로 각각의 세포들을 이영양성 석회침착(dystrophic calcification)이 둘러싸고 있는 양상인 치킨 와이어 모양(chicken wire appearance)이 나타날 수 있다.

연골모세포종의 치료를 위해 가장 많이 사용되는 수술적인 방법으로는 광범위 소파술 및 골종괴 제거 부위의 골이식술이며, 병변 내 소파술에 비해 재발률이 현저히 낮은 것으로 알려져 있다.^{16,17)}

본 증례 환자의 경우, 젊은 남성에서 발생한 3개월 이상의 족관절 통증으로 내원 하였으며 방사선 검사상 거골의 골두에서 경부까지 이어지는 방사선 투과성 골 용해 소견 및 주변에 경화성 띠를 동반한 낭종성 병변이 관찰되었다. 방사선 사진에서는 거주상 관

절을 침범한 것으로 보였으나 컴퓨터 단층촬영 및 자기공명영상 검사상에서는 거주상 관절의 연골하골까지 침범하고 연골은 비교적 보존되어 있는 것으로 확인되었다. 또한 자기공명영상 검사에서 단발성의 골파괴 병변 및 병변 내 균질한 신호강도, 종괴 주변으로 발생한 골종창 소견 역시 추가적으로 확인할 수 있었다. 수술실에서 육안으로만 확인한 종양의 형태는 거의 동맥류성 골낭종에 가까웠다. 낭종 내부에 혈액과 유사한 액체가 가득 차 있었으며, 그로 인해 수술은 동맥류성 골낭종의 치료에 준하여 광범위 소파술 및 골이식술을 하는 방식으로 이루어졌다.

일반적으로 연골모세포종에서 이차적으로 동맥류성 골낭종이 동반되는 경우는 20% 정도인 것으로 보고되고 있으며,¹⁾ 중수골에 발생한 연골모세포종이 동맥류성 골낭종으로 오인되어 치료된 경우는 이전에 보고된 바가 있다.⁴⁾ 연골모세포종의 수술 후 재발은 10%에서 20% 정도로 알려져 있는데, 재발한 경우라도 원발성 병변과 동일하게 광범위한 소파술 및 골이식술이 권고되고 흉부의 전이 여부를 확인하기 위하여 수술 후 3년 동안은 최소 6개월 간격으로 흉부 방사선 검사를 해보아야 한다.¹⁾ 저자들은 거골에서 발생한 연골모세포종에 대해서 초기에 동맥류성 골낭종으로 진단하고 이에 준하여 광범위 소파술과 골이식술 이후 1년간 추시하였으며 현재까지는 국소적인 종양의 재발 없이 증상의 호전을 보이고 있다. 향후에도 재발 여부를 조기에 확인하기 위하여 정기적으로 추시할 예정으로, 거골에 발생한 연골모세포종과 그로 인해 이차적으로 발생한 동맥류성 골낭종이 원발성 동맥류성 골낭종으로 오인될 수 있음이 임상적으로 시사하는 바가 크다고 생각되어 보고하는 바이다. 동맥류성 골낭종에 대한 수술적 치료를 하는 경우라도 연골모세포종에 대한 가능성을 늘 염두에 두고 광범위한 소파술을 시행하고 술 후에 반드시 조직검사를 시행하여 불 것을 권고한다.

REFERENCES

1. Heck RK Jr, Toy PC. Benign/aggressive tumors of bone. In: Azar FM, Beaty JH, Canale ST, editors. *Campbell's operative orthopaedics*. 13th ed. Philadelphia: Elsevier; 2017. p.925-31.
2. Ningegowda RV, Subramanian K, Suresh I. Chondroblastoma of the talus. *J Foot Ankle Surg*. 2013;52:673-7.
3. Ryu JJ, Kim W, Lee JS, Kim YK, Lee HS, Seo SG. Combined autograft and bone cement for painful chondroblastoma: a case report. *J Foot Ankle Surg*. 2018;57:396-400.
4. Kudo T, Okada K, Hirano Y, Sageshima M. Chondroblastoma of a metacarpal bone mimicking an aneurysmal bone cyst: a case report and a review of the literature. *Tohoku J Exp Med*. 2001;194:251-7.
5. Springfield DS, Capanna R, Gherlinzoni F, Picci P, Campanacci M. Chondroblastoma. A review of seventy cases. *J Bone Joint Surg Am*. 1985;67:748-55.
6. Ramappa AJ, Lee FY, Tang P, Carlson JR, Gebhardt MC, Mankin HJ. Chondroblastoma of bone. *J Bone Joint Surg Am*. 2000;82:1140-5.
7. Bloem JL, Mulder JD. Chondroblastoma: a clinical and radiological study of 104 cases. *Skeletal Radiol*. 1985;14:1-9.
8. Zhang K, Gao Y, Dai H, Zhang S, Li G, Yu B. Chondroblastoma of the talus: a case report and literature review. *J Foot Ankle Surg*. 2012;51:262-5.
9. Anderson AF, Ramsey JR. Chondroblastoma of the talus treated with osteochondral autograft transfer from the lateral femoral condyle. *Foot Ankle Int*. 2003;24:283-7.
10. Sterling G, Wilson A. Chondroblastoma of the talus: a case report. *J Foot Ankle Surg*. 2002;41:178-82.
11. Nolan DJ, Middlemiss H. Chondroblastoma of bone. *Clin Radiol*. 1975;26:343-50.
12. Huvos AG, Marcove RC. Chondroblastoma of bone. A critical review. *Clin Orthop Relat Res*. 1973;(95):300-12.
13. Sharma S, Gupta P, Sharma S, Singh M, Singh D. Primary aneurysmal bone cyst of talus. *J Res Med Sci*. 2012;17:1192-4.
14. Sherman RS, Uzel AR. Benign chondroblastoma of bone; its roentgen diagnosis. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*. 1956;76:1132-40.
15. Lehner B, Witte D, Weiss S. Clinical and radiological long-term results after operative treatment of chondroblastoma. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2011;131:45-52.
16. Turcotte RE, Kurt AM, Sim FH, Unni KK, McLeod RA. Chondroblastoma. *Hum Pathol*. 1993;24:944-9.
17. Sailhan F, Chotel F, Parot R; SOFOP. Chondroblastoma of bone in a pediatric population. *J Bone Joint Surg Am*. 2009;91:2159-68.