

제1 중족골에 발생한 재발성 거대 세포종의 수술적 치료

김갑중[✉] · 이광원 · 이종신

을지대학교 의과대학 정형외과학교실

Surgical Treatment of Recurrent Giant Cell Tumor Occurring at the First Metatarsal

Kap Jung Kim, M.D.[✉], Kwang-Won Lee, M.D., and Jong Shin Lee, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, College of Medicine, Eulji University, Daejeon, Korea

Giant cell tumor is a benign but locally aggressive tumor with common recurrence. Most cases occur around the knee joint. Giant cell tumor of the foot is rare and very few cases involving the first metatarsal have been reported. Its characteristics and treatment in adult patients remain unclear. This paper reports a case of recurrent giant cell tumor at the first metatarsal that was excised surgically and subsequently reconstructed with non-vascularized fibula graft.

Key words: first metatarsal, giant cell tumor, excision

거대 세포종은 양성 종양으로 분류되지만 국소 재발을 잘하는 공격적인 특징을 보이는 종양이다. 주 호발 부위는 장관골의 골단에서 편심성으로 발생하며 주로 슬관절 주위에서 발생한다.¹⁾ 치료는 철저한 병소내 소파술과 보조 치료(adjuvant therapy)를 동시에 시행한다. 병소내 소파술로 인해 발생한 병소의 결손 부위는 골이식 또는 골 시멘트를 이용하여 보강할 수 있다. 성인의 중족골에 발생한 거대 세포종은 그 빈도가 매우 낮으며 보고된 증례도 매우 드물다.^{2,3)} 이 부위에 발생한 거대 세포종의 치료는 호발 부위에 발생한 거대 세포종과 다르게 고려되어야 할 것이다.

저자들은 제1 중족골에 발생한 재발성 거대 세포종을 절제술 후 비혈관성 자가 비골을 이용해 재건술을 시행한 증례를 보고하는 바이다.

증례보고

20세 남자 환자가 외상의 병력 없이 9개월 전부터 발생한 좌측 족부의 반복적인 통증을 주소로 내원하였다. 통증은 지난 수개월간 점점 심해졌으며, 특히 보행 시 통증이 악화되었다. 환자는 1년 전 타 병원에서 좌측 족부 제1 중족골의 병소 내 소파술 및 골이식술을 시행 받은 병력이 있었으며 그 당시 조직학적 진단은 거대 세포종으로 진단되었다.

진찰 소견상, 좌측 족부 내측 등배부의 피하에서 5.5×3.5 cm 크기의 골성 종물이 촉진되었으며 제1 중족골 부위에 이전에 타 병원에서 수술 받은 세로 방향의 수술 반흔이 관찰되었다. 단순 방사선 소견상 좌측 족부 제1 중족골에서 팽창된(expansile) 형태의 골 용해성 병변이 관찰되었으며 병변 내부는 다중 격막(multi-septated)의 형태로 피질골은 매우 얇아져 있었다. 또한 제5 중족골 경부의 스트레스 골절 후 유합 소견도 확인되었다(Fig. 1A). 제5 중족골에 발생한 스트레스 골절은 환자가 보행 또는 달리기 등을 할 때 좌측 족부 내측에 심한 통증이 발생하므로 이에 대한 보상으로 족부 외측에 반복적인 부하가 발생하면서 제5 중족골 경부에 스트레스 골절이 발생한 것으로 판단되었다. 족부의 컴퓨터 단층 촬영에서 제1 중족골의 팽창된 골 용해성 병변과 피

Received May 2, 2018 Revised June 4, 2018 Accepted June 4, 2018

[✉]Correspondence to: Kap Jung Kim, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, College of Medicine, Eulji University, 77 Gyeryong-ro 771beon-gil, Jung-gu, Daejeon 34824, Korea

TEL: +82-42-611-3280 FAX: +82-42-611-3283 E-mail: oskkj@eulji.ac.kr

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3604-4964>

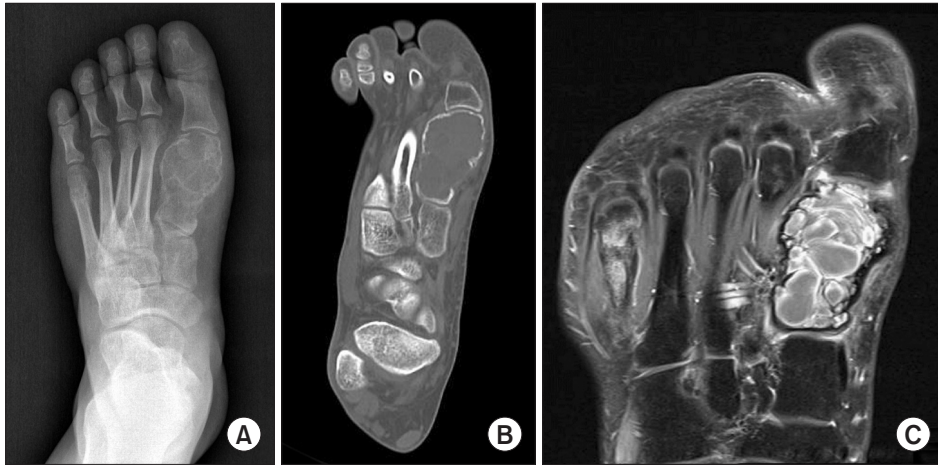


Figure 1. (A) Plain radiograph showing an expansile and osteolytic lesion at the first metatarsal of the left foot. The lesion was multi-septated, lobulated, and combined with cortical thinning. Stress fracture of the fifth metatarsal neck area was also visible. (B) Computed tomography scan showing the entire expansive osteolytic lesion with marked cortical thinning of the peripheral shell and subtle cortical destruction of the first metatarsal. No trans-articular extensions into the adjacent proximal phalanx and medial cuneiform bone were observed. (C) T1-weighted enhanced image of a coronal scan showing multiple septated, lobulated and osteolytic masses replacing the first metatarsal bone with multiple fluid-fluid levels. Each septum showed high signal wall enhancement and intermediate signal within each septum. Stress fractures with callus formation were also visible at the fifth metatarsal neck.

질골이 얇아진 소견 및 제1 중족골 일부에서 미세한 피질골 골절도 확인되었다. 병변 인접부인 내측 설상골과 제1 족지 근위 지골로의 침범은 발견되지 않았다(Fig. 1B). T1-강조 조영제 자기공명 영상에서 병변 내부의 다중 격막의 소견이 관찰되었고 다수의 격막 내부에는 액체층(fluid-fluid level)이 발견되었다. 제5 중족골의 스트레스 골절 후 유합된 소견도 확인되었다(Fig. 1C).

본 증례의 종양은 이미 수술을 시행한 후 재발한 종양으로 재치료 시 병소 내 소파술을 다시 시행하는 방법, 절제술 후 재건술, 종양 분포 혈관의 색전술, 방사선 치료, denosumab을 통한 약물 치료 등 다수의 치료 방법이 고려될 수 있었다. 내원 당시 환자의 심한 통증 호소, 방사선적으로 제1 중족골의 심한 파괴 등을 고려해 볼 때, 저자들은 광범위 절제술 후 비혈관성 자가 비골을 이용해 재건술을 시행하기로 결정하였다. 재발한 종양은 이전의 수술 반흔으로 접근 후 절제하였다(Fig. 2A). 인접 관절인 내측 설상골-제1 중족골 간 관절과 제1 중족골-제1 족지 근위 지골 간 관절은 종양이 침범하지 않았다. 절제술 후 결손 부위와 같은 길이의 비혈관성 비골을 동측에서 채취하였다. 채취한 비혈관성 자가 비골을 결손 부위에 위치시키고 금속판을 이용해 내측 설상골-자가 비골, 자가 비골-제1 족지 근위 지골을 고정하였다(Fig. 2B). 수술 후 촬영한 방사선 사진에서 재발한 종양의 완전한 절제와 비혈관성 자가 비골 이식을 확인할 수 있었다(Fig. 2C). 조직학적 진단은 재발성 거대 세포종으로 보고되었다.

수술 후 6개월에 촬영한 족부 단순 방사선 사진 및 컴퓨터 단층 촬영에서 이식된 비골은 잘 유지되고 있었으며 인접 골인 내측 설상골과 제1 족지 근위 지골 사이에 유합이 이루어진 소견이

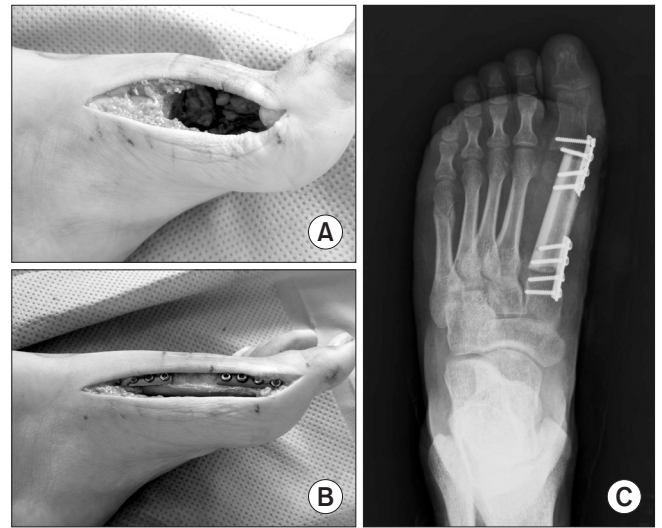


Figure 2. (A) Intraoperative photograph showing an *en-bloc* excision of the first metatarsal through the previous incision. (B) Intraoperative photograph showing the non-vascularized fibula graft at the defect that was fixed with plates at both sides; medial cuneiform-fibula graft and fibula graft-proximal phalanx. (C) Postoperative plain radiograph showing a successful *en-bloc* excision of the recurrent tumor followed by non-vascularized fibula graft.

확인되었다(Fig. 3A, 3B). 좌측 족부 통증은 점차적으로 사라졌으며 추시 기간 동안 종양은 재발하지 않았다. 그러나, 엄지 발가락의 신전 제한이 발생하였으며, 수술 후 18개월에 나사못의 이완으로 인한 피부 자극이 발생하여 금속판 제거를 시행하였다. 금속

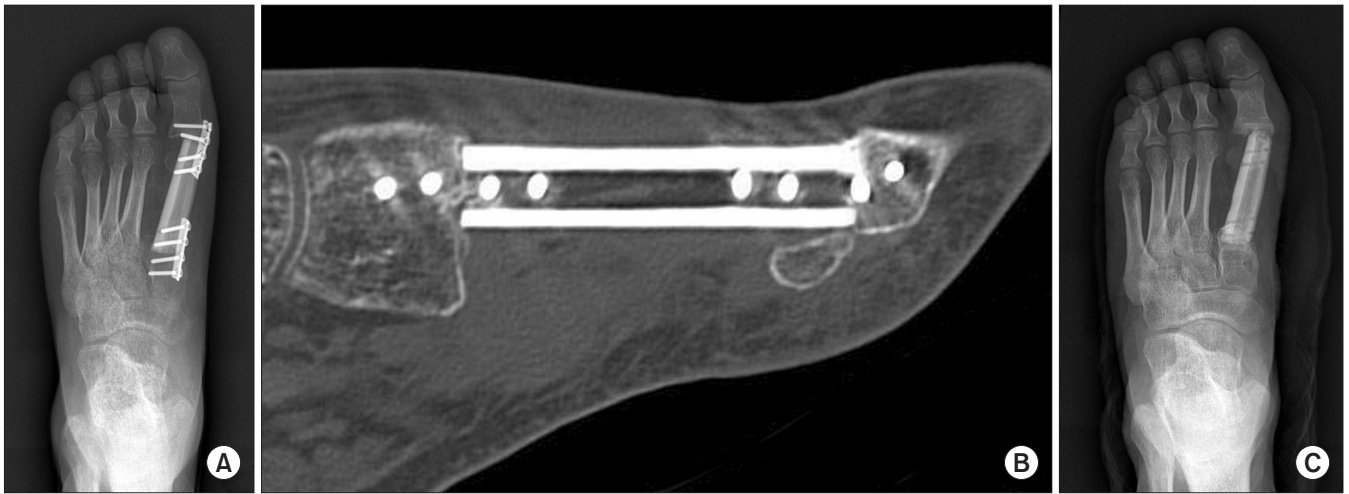


Figure 3. (A, B) Plain radiograph and computed tomography scan showing good maintenance and incorporation of the graft between both sides at postoperative 6 months. (C) Plain radiograph showing implant removal at postoperative 18 months. Sound incorporations between the fibula graft and host bones (medial cuneiform and proximal phalanx) were visible.

판 제거 시 이식된 비골과 숙주골인 내측 설상골 및 제1 족지 근위 지골 사이의 완전한 골유합이 확인되었다(Fig. 3C).

고 찰

거대 세포종은 전체 골종양의 5%, 양성 골종양의 약 20%를 차지하는 종양이며,^{4,5)} 20세부터 40세 사이에서 호발한다. 주 발생 부위는 원위 대퇴골, 근위 경골, 원위 요골(10%~12%), 천골(4%~9%) 순으로 나타난다.⁶⁾ 거대 세포종의 가장 흔한 임상 증상은 이환 부위의 통증과 부종으로 주로 관절 주변에서 발생하여 관절의 운동 범위 제한의 원인이 된다.⁵⁾ 단순 방사선 사진에서는 장관골의 골단에서 편심성, 팽창성 및 골 용해성 병변을 보인다. 병소 주변의 연부조직으로 침범 여부를 확인하기 위해 자기공명영상 촬영이 필요하다. 대부분 거대 세포종의 치료는 철저한 소파술 시행 후 액체 질소, 골 시멘트 또는 폐놀 등을 이용한 보조 치료를 시행하며,⁵⁾ 또는 소파술 후 발생한 병소의 결손 부위를 보강하기도 한다.⁵⁾ 대부분의 거대 세포종이 관절 주변 골단에서 호발하기 때문에 수술 후 관절의 운동 범위 회복도 매우 중요하다.

족부의 거대 세포종은 매우 드물다. O'Keefe 등⁷⁾의 연구에 의하면 이들이 분석한 3,000예의 거대 세포종 중에서 단지 12예만 족부에서 발생하였다고 보고한 바 있다. Unni와 Dahlin⁸⁾에 따르면, 족부 및 족관절에 발생한 거대 세포종은 전체 족부 및 족관절 종양의 단지 1.5%만 차지한다고 보고하였다. 이처럼 발생 빈도는 매우 낮지만 족부 및 족관절에서 발생한 거대 세포종은 다른 부위에서 발생한 것보다 더 공격적인 양상을 보이며 임상 증상이 발생할 때까지 훨씬 짧은 이환 기간, 더 젊은 나이에서 발생하며 재발률도 더 높은 특징들을 보인다. 특히 거대 세포종이 제1

중족골에 발생하여 절제술 후 재건술을 시행한 증례는 전무하다. 족부는 체중 부하를 담당하는 곳이므로 족부에 발생한 거대 세포종의 치료 원칙은 족부 기능의 회복 및 체중 부하 가능 여부에 초점을 두어야 한다. 자가 골을 이용한 재건술은 공여 후 발생할 수 있는 자가골 부위의 기능 손실, 수술 술기의 어려움 등을 신중하게 고려해야 한다. 이러한 관점에서 볼 때 비골은 자가골 이식술을 위해 채취해도 비골 결손 부위 재건술이 필요 없다는 점에서 매우 우수한 공여 부위로 판단된다. 제1 중족골 절제술 후 재건을 위해 비혈관성 자가 비골은 길이, 모양, 강도 등의 측면에서 매우 우수한 이식 재료이다.⁹⁾ 본 증례의 가장 큰 단점은 제1 족지 근위 지골과 이식된 비골을 금속판을 이용해 고정했기 때문에 엄지 발가락의 굴곡-신전을 할 수 없고 단지 제1 족지 지골 간 관절의 움직임만 가능하다는 점이다. 이는 걷거나 뛰려 할 때, 지면을 뒤로 미는 데 매우 어렵다.

결론적으로, 제1 중족골에 발생한 재발성 거대 세포종의 절제술 후 비혈관성 자가 비골을 이용한 재건술은 매우 효과적인 수술 방법으로 판단된다. 임상적 증상은 호전되었으며 국소 재발도 발견되지 않았다. 족부에 발생한 재발성 거대 세포종의 치료 시 절제술은 재발을 예방할 수 있는 해결책으로 판단되지만 일부 족부 기능의 손실은 불가피하였다. 추후 장기간 추시를 통해 재발 유무, 이식 비골의 골절 유무에 대한 세심한 관찰이 필요할 것으로 판단된다.

CONFLICTS OF INTEREST

The authors have nothing to disclose.

REFERENCES

1. Campanacci M, Baldini N, Boriani S, Sudanese A. Giant-cell tumor of bone. *J Bone Joint Surg Am*. 1987;69:106-14.
2. Rajani R, Schaefer L, Scarborough MT, Gibbs CP. Giant cell tumors of the foot and ankle bones: high recurrence rates after surgical treatment. *J Foot Ankle Surg*. 2015;54:1141-5.
3. Siddiqui YS, Zahid M, Bin Sabir A, Julfiqar. Giant cell tumor of the first metatarsal. *J Cancer Res Ther*. 2011;7:208-10.
4. Ly JQ, Arnett GW, Beall DP. Case 122: giant cell tumor of the second metatarsal. *Radiology*. 2007;245:288-91.
5. Turcotte RE. Giant cell tumor of bone. *Orthop Clin North Am*. 2006;37:35-51.
6. Murphey MD, Nomikos GC, Flemming DJ, Gannon FH, Temple HT, Kransdorf MJ. From the archives of AFIP. Imaging of giant cell tumor and giant cell reparative granuloma of bone: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 2001;21:1283-309.
7. O'Keefe RJ, O'Donnell RJ, Temple HT, Scully SP, Mankin HJ. Giant cell tumor of bone in the foot and ankle. *Foot Ankle Int*. 1995;16:617-23.
8. Unni KK, Dahlin DC. Dahlin's bone tumors: general aspects and data on 11,087 cases. 5th ed. Philadelphia: Lippincott-Raven; 1996. 263-83.
9. Balaji GG, Roy AC, Justin SV. Techniques in recurrent giant cell tumour of the first metatarsal in adolescents - A rare report of 2 cases. *Foot Ankle Surg*. 2013;19:e1-4.

제1 중족골에 발생한 재발성 거대 세포종의 수술적 치료

김갑중[✉] · 이광원 · 이종신

을지대학교 의과대학 정형외과학교실

거대 세포종은 양성 종양으로 분류되지만 국소 재발이 매우 흔하며 공격적인 성향을 보이는 종양으로 주로 슬관절 주위에서 발생한다. 거대 세포종이 족부에서 발생하는 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있으며 제1 중족골에 발생하는 경우는 더욱 그러하다. 성인의 제1 중족골에 발생하는 거대 세포종의 특징 및 치료 방법도 아직 확실하게 정립된 것이 없다. 이에 저자들은 제1 중족골에 발생한 재발성 거대 세포종에 절제술 시행 후 비혈관성 자가 비골을 이용하여 재건술을 시행한 증례를 보고하는 바이다.

색인단어: 제1 중족골, 거대 세포종, 절제술

접수일 2018년 5월 2일 수정일 2018년 6월 4일 게재확정일 2018년 6월 4일

[✉]책임저자 김갑중

34824, 대전시 중구 계룡로 771번길 77, 을지대학교 의과대학 정형외과학교실

TEL 042-611-3280, FAX 042-611-3283, E-mail oskkj@eulji.ac.kr, ORCID <https://orcid.org/0000-0003-3604-4964>