

手指骨破壞를 同伴한 腱鞘巨大細胞腫의 治驗例

高麗大學校 醫科大學 整形外科學教室

樊 春 紡 · 邊 永 壽 · 李 弘 鍵

—Abstract—

A Case of Giant Cell Tumor of Tendon Sheath Associated with Regional Bone Destruction

Bun, Chun Bang, M.D., Byun, Young Soo, M.D., Lee, Hong Kun, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, College of Medicine, Korea University

An giant cell tumor arising from the tendon sheath and other soft tissue of the extremities, has been of clinical and pathologic interest for many years, which is the second most common tumor of the hand, but it is not common in other location.

One case of tendon sheath giant cell tumor with regional bone destruction on the pharangeal bone is presented which experienced at Department of Orthopaedic Surgery, Korea University recently.

At first, the lesion of bone that is confused with Enchondroma in roentgenographically, which is confirmed regional bone destruction of tendon sheath giant cell tumor by histologically.

The tumor is composed of a vascularized network of spindle shaped or ovoid stromal cell regularly and rather interspersed with multinuclear cell and xanthoma cells.

We report a case of giant cell tumor of tendon sheath and review of literature.

I. 緒 論

手指部に發生하는 腱鞘巨大細胞腫(Giant cell tumor of tendon sheath)은 그렇게 稀貴한 疾病은 아니다.

그러나 아직까지 正確한 原因은 究明할 수 없으나 滑液膜 및 腱鞘等에 Cholesterol ester 와 hemosiderin 이 沈着하여 黃褐色을 呈하는 良性陳舊性 滑膜炎症의 結果인 것 같다고 한다.

腱鞘巨大細胞腫은 一名 腱鞘黃色腫(Tendon Xanthoma), 腱鞘纖維腫(Tendon fibroma)¹⁾或은 色素性絨毛結節滑膜炎(pigmented villonodular synovitis)라

고도 稱한다.

本疾患은 組織檢査에 依해 쉽게 診斷이 可能하나 骨破壞를 同伴한 腱鞘巨大細胞腫에 있어서는 正確한 檢査 및 臨床考察을 소홀히 할 境遇 誤診하기가 쉽다고 한다

最近 本整形外科學教室에서 手指骨破壞를 同伴한 腱鞘巨大細胞腫 一例을 經驗했기에 文獻考察과 함께 報告하는 바이다.

II. 症 例

患者는 右側손으로 投球을 하는 23歲의 健康한 野球選手로서, 右側第四手指의 中位指骨部位에 大豆大의 堅

固하고 不規則한 小結節과 該當手指運動時에 疼痛을 主訴로 1975年 12月 4日 當高麗大學校 醫科大學 附屬病院 整形外科에 入院하였다. 約三年前부터 該當手指에 米粒大小結節이 觸知되기 始作하였으며, 疼痛은 없었으나, 漸次的으로 結節이 커져감에 따라, 手指運動時에 多少 疼痛을 느끼게 되었으며 近來에 와서는 選手生活에 支障을 줄 程度로 疼痛이 甚했다고 한다.

1) 家族歷 및 既往歷

1973年 7月, 胸部打撲後 肋膜炎으로 入院加療한 事實 以外는 特記할만한 것은 없었다고 한다.

2) 理學的所見

全身狀態 良好하였으며, 右手第四手指 中位指部の 手 掌面에 約 1.0×1.0×1.0 cm 크기의 堅固하고 不規則한 結節性 腫塊가 觸知되었으며 壓痛을 同伴하고 手指의 屈伸運動時에 疼痛을 誘發하고 있었다.

3) 檢査所見

末梢血液像, 尿 및 血清電解質所見 모두 正常範圍였으며, Alkaline-phosphatase 및 其他 化學的檢査에서도 別 異狀은 없었다.

4) X-線所見

右手第四手指 中位指骨 遠位端에 掌面偏在性으로 大豆大의 橢圓形의 境界가 比較的 뚜렷한 Radiolucent bone destruction을 보여주고 있었다(Fig. 1 참조).

5) 手術所見

該當手指 屈面에 “L”字形의 皮膚切開下에 手指髓을

Fig 2. Biopsied tumor mass. (1 cm×1 cm×1 cm)

Fig 3. Low power view H&E×100.

露出시켰다. 露出된 髓鞘에는 典型的인 黃褐色의 堅固한 分葉狀의 小結節이 形成되어 있었고 若干 出血을 同伴하고 있었으며, 本手指骨遠位端에 侵蝕性 骨破壞(Erosive bone destruction)을 同伴하고 있어 모두 切除하였다(Fig. 2).

6) 病理組織所見

結節의 切開面은 多發性 分葉狀의 模樣을 나타내며, 低倍率顯微鏡의 組織檢査 (Fig. 3 참조)에서 硝子基質(Hyalinized stroma) 바탕에 多面細胞로 構成된 纖維質로 잘 被覆되어 있었다. 濃黃色의 色素顆粒이 細胞形質에서 나타나며, 多形核巨大細胞(multinucleated giant cell)들이 存在하고 있었다(Fig. 3 참조).

Ⅲ. 考 察

本疾患은 1835年 프랑스의 皮膚科醫師인 Rayer²⁾가 그의 著書에서 “Yellow plaque of the Eye lids”라는 病名으로 처음 報告한 以來 많은 學者들이 여러가지 名稱으로 記述해 왔다.

Fig 1. A-P Lateral and oblique view of Hand: before operation.

Fig 4. High power view of Fig 3. H&E×450.

1845年 Lebert³⁾는 이黃色軟部組織을 Xanthos 라命名했고, 1851年 Addison과 Gull⁴⁾은 肝機能障礙로오는黃疸(Jaundice)와 脾臟障礙로 인한 糖尿病患者에 同伴된 多發性黃色腫(multiple xanthoma)를 報告한 바있다.

또한 1860年 Broca에 의해 腱鞘에 發生된 黃巨大細胞腫을 처음 記述하였고 特히 1891年 프랑스의 Heurtaux⁵⁾에 의해 單離된 腱鞘: 巨大細胞腫을 2例나 發表하였으며, 1898年 Dor⁶⁾은 이 腫瘍의 病理所見에 對하여 泡沫細胞(foam cell)의 出現을 發見하고, 骨髓黃色腫(Myeloxanthoma)라고 命名 했었다.

1941年 Jaffe⁷⁾는 滑液膜의 纖維性黃色腫(Fibrous xanthoma of Synovioma)와 色素性絨毛結節性滑膜炎(Pigmented Villonodular Synovitis)의 相關關係에 對하여, 이는 결코 眞正한 惡性腫瘍이 아니며, 하나의 外傷에 依한 反應(reaction)이라고 主張했다.

1961年 Stout⁸⁾와 그 同僚들은 纖維性黃色腫(Fibrous xanthoma)에 對한 惡性腫瘍細胞의 組織學的 分類를 하여, 腱鞘에 發生된 腫瘍은 皮膚에서 發生한 腫瘍과 같은 樣狀을 보여 준다고 報告했다.

1968年 Bliss와 Reed⁹⁾는 惡性腱鞘巨大細胞腫이 轉移된 2例를 報告했다.

그러나 下腿에 骨破壞를 同伴한 腱鞘巨大細胞腫은 1919年 Broders¹⁰⁾에 依하여 報告되었고, 1925年에 와서야 手指骨骨破壞를 隨伴한 腱鞘巨大細胞腫을 Vermooten¹¹⁾이 報告하였다.

또한 여러學者들의 主張에 依하면, 或者는 眞性惡性腫瘍, 또는 外的刺戟에 依한 炎症反應(inflammatory reaction), 또는 代謝障礙(cholesterin disturbance by weber by Weber) 등으로 起因한다고 推測하고 있으나, 아직 分明하지 않다.

Jaffe¹²⁾는 腱鞘巨大細胞腫은 一名 局所的腱滑膜炎(lacalized tenosynovitis)라고도 하며 脂肪泡沫細胞

(lipid foam cell)을 包含하므로 腱鞘黃色腫(Xanthoma tendon sheath)로 呼稱되기도 한다.

Michael and Woolston¹³⁾에 依하면, 本疾患의 好發年齡은 8~83歲까지 넓을 發生分布를 가지나, 40~60歲에 主로 發生한다고 하며, 性別로는 男性에 若干 많이 發生되고, 많이 使用되는 右側手指가 左側보다 더 많이 發生된다고 하였다.

특히 手指에 있어서 示指(index finger), 中指, 拇指, 小指(little finger) 및 環指順으로 發生頻度¹⁴⁾를 나타내며, 다른 部位로서는, 手掌部(palmar region), 아킬레스腱, 肘關節(Elbow), 膝關節 및 眼瞼(Eye lid) 등에 生길수도 있으며, 距踵骨의 纖維性關節膜, 大腿의 皮下組織과 尺骨神經에서 發生된 例도 있다고 한다.

興味있는 것은 Vermooten의 研究報告에서 2例가 腱鞘에서 起因한 것인지, 아니면 隣接 骨에서 發生된 것인지 判別하기가 어려웠다고 했다.

本症例에서 처음 X-線所見에서는 軟骨腫(Enchondroma)로 診斷이 되었으나, 病理組織檢査로 腱鞘에서 起始된 巨大細胞腫으로 判明되었다.

Vermooten은 骨과 腱鞘에서 始作된 巨大細胞腫(Giant cell tumor)을 組織學的으로 다음과 같이 區別하였다.

1) 腱鞘 起始(origin)인 巨大細胞腫인 境遇, 骨性巨大細胞腫(Bone origin)에 비해 好酸性間質(Eosinophilic stroma) 및 其他基質이 豊富하다.

2) 細胞型(Type cell)은 모두 비슷하게 나타나나, 骨性巨大細胞腫인 境遇, 核(nuclei)이 더욱 相異한 形態를 이루고 間接分裂狀(mitotic figure)을 보여준다.

3) 泡沫細胞(foam cell)은 骨性巨大細胞腫에서 매우 적게 나타난다.

4) 骨性巨大細胞腫의 巨大細胞(Giant cell)가 매우 많이 나타나고 低倍率鏡檢에서 平均 30~60%程度로 出現된다고 한다.

5) 骨性巨大細胞腫에 있어서 微細血管形成이 豊富하며, 血清素(Hemosiderin)의 着色된 덩어리가 있는 것이 特徵이며, 콜레스테롤裂片(Cholesterol Cleft)은 本骨性巨大細胞腫에서는 보이지 않는다.

Flecher와 Robert¹⁵⁾는 腱鞘巨大細胞腫의 限定된 侵蝕性骨破壞를 일으키는 率은 全例에 있어서 約 50%을 占한다고 하며, 限定된 骨破壞의 原因은 特히 甚한 骨破壞의 있는 例에 있어서, 이는 骨腫瘍 自體의 成長 또는 増大가 아니라, 腱鞘에서 發生된 腫瘍은 靱帶(ligament)나 腱(Tendon)에 依해 堅固하게 被覆되어 어떤 다른 方向으로 膨脹(expansion)이 되지 못하고 骨皮質

(Bone cortex)을 向해 繼續的인 接觸으로 骨皮質의 破壞가 오고, 甚하면 骨髓腔까지 侵犯한다고 한다.

比較的 적은 腫瘍은 明白한 骨破壞(Bone erosion)과 關係되나, 조금 큰 腫瘍은 어떤 壓迫(Compression)이 없어도 最少限의 骨變化를 가져올 수도 있다고 한다.

本疾患은 이미 上述한 바와 같이 臨床症狀 및 單純 X-線所見이 診斷上 도움이 되지만 組織學的檢査로 特徵的인 纖細한 網絲(Fine-mesh-work)가 無形의 膠原質로 形成된 넓은 띠(Broad band of amorphous collagen)로 構成되는, 所謂 細胞型(Type cells)에 依한 基礎的인 細胞集團의 成分으로 이루어 졌고, 其他 巨大細胞(giant cells), 泡沫細胞와 血色素(Hemosiderin)着色을 發見하므로써 確診이 可能했다.

鑑別해야 할 疾患은 軟骨腫(Chondroma), 脂肪腫(lipoma)가 있으나, 이는 本疾患과 比較해서 堅固하거나, 더욱 軟하기 때문에 鑑別이 可能하고, 癌腫(Carcinoma)은 主로 皮膚에서 好發하므로써 쉽게 區別이 되며, 骨腫(osteoma)은 骨에 密着되어 있고 堅固한 것이 特徵이다.

手부에서 가장 發生頻도가 높은 結節腫(ganglion)은 크기가 비교적 적으며, 主로 手指伸展面에 發生한다.

手부結核은 腕關節이나 兩側掌面, 또는 手背部에 好發한다.

其他 纖維腫(Fibroma)은 腱鞘에서 起因될 수 있으나, 이는 아주 稀貴하다고 한다.

腱鞘巨大細胞腫의 再發率은 約 10%程度이며, 드물지만 惡性變化도 있다고 한다. 治療에 있어서, 手指에 發生된 腱鞘巨大細胞腫은 腫瘍自體만 除去하면 되나, 어떤 例에서는 發生된 手指를 完全切斷한 境遇도 있었다고 한다.

如何間, 包括的인 治療方法으로서 骨에 發生된 巨大細胞腫에 對한 治療法과 같은 方法이 理想的이라 生覺

된다.

本 例에 있어서 腫瘍自體만 除去한 後 一定期間동안 外固定 및 物理加療를 施行하고 經過良好하여 退院하였으며, 現在 選手生活를 繼續하고 있다(Fig. 5 참조).

IV. 結 論

今番 高麗大學校 醫科大學 整形外科學教室에서는, 單純 X-線所見 및 肉眼의 으로 手指에 發生한 軟骨腫(Enchondroma)에 恰似하였던 一例를 手術切除後, 病理組織學的 檢査로 腱鞘에서 起始된 巨大細胞腫으로 判明되어, 興味있는 症例로 治驗하였기에 文獻考察과 아울러 報告하는 바이다.

REFERENCES

1. Aegerter: Orthopaedic, W.B. Saunders Company: p. 761, 1975.
2. Rayer: French dermatologist, Yellowish plaques of xanthelasma in textbook of the dermatology, 1836.
3. Lebert: Physiologic pathologie, Paris, JB. Bailliere, 1845.
4. Addison, T & Gull, W: On a certain affection of the skin. Guy's Hosp. rep. 2s, p. 265, 1851.
5. Heitau, M. A.: Myelome des gaines tendineuses, Arch. Gen. Med., 167:40-54, 160-169, 1891.
6. Bellamy, H. F.: Myeloid tumor of tendon sheaths, J. pathol. & bacteriol. 7. 465-480, 1901.
7. Jaffe, H. Lichtenstein, Louis & Sutro, C. J.: Pigmented villonodular synovitis, burusitis and tenosynovitis, Arce, pathol. 31:731-1941.
8. O'Brien, J. E. & Stout, A. P: Malignant fibrous Xanthomas, Cancer, 17:1455-1455.
9. Bliss, B. O, Reed, R. J.: Large cell sarcomas of tendon sheath. Malignant giant cell tumors of tendon sheath. Am. J. Clin. Pathol., 49:776-781, 1968.
10. Broders, A. C.: Benign Xanthic Extraperiosteal Tumor of the Extremities containing Foreign body Giant cells. Ann. Surg., 70:574, 1919.
11. Vermooten, V. E.: Xanthosarcoma of Thumb, A central Benign giant cell tumor of the proximal phalanx of the thumb, Ann. Surg. 1925,

Fig 5. After Operation

Ann. of Surg. March. 1951.

12. Jaffe, H.L, *Tumors and tumorous conditions of the bones and joints* Lea & Fibiger, Asian Edition. 533.
13. Michael L. Mason & W.H. Woolston, M.: *Achives of Surgery, Octover 1927, No. 4, p. 500.*
14. Frank E. Jones, & Edward H. Souel.: *Fibros Xanthoma of Synovium, J.B. & J.S., vol, 51-A, No.1 Jan. p.80, 1969.*
15. Flecher A.G. & Robert C. Hoen., *giant cell tumors of tendon sheath Origin. Ann. of Surgery, March 1951.*
15. Crenshaw, A.H., editor: *Campbell's Orthopaedic., ed. 5. ST. Louis, The C.V. Mosby Co. 375, 1971.*