

동맥류성 골낭종(動脈瘤性 骨囊腫)의 치험 3예 보고

충남대학교 의과대학 정형외과학교실

윤승호 · 이광진 · 민형식

=Abstract=

Three Cases of Aneurysmal Bone Cysts

Seung Ho Yune, M.D., Kwang Jin Rhee, M.D. and Hyung Sik Min, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery Chung-Nam National University Hospital, Daejeon, Korea

Aneurysmal bone cyst is an uncommon tumor-like lesion of the bone containing distended vascular channels or cvities filled with blood. These cases, twenty-nine old female, eighteen years old male and female patients complained of pain and swelling in Rt. Medial aspect of proximal foot, Lt. proximal tibial portion and Rt. entire talar aspect of foot, respectively.

Roentgenograms showed ballooned-out distensions and eccentric buldging of those lesions and soap-bubble like multiple radiolucent cystic changes within interiors of the bones at talar neck, Proximal tibia and entire talus. Those cases were treated with radical curettage and autogenous iliac bone grafts and snugly fitted long leg casts in functional positions, respectively.

On 2nd postoperative day, Cast windows were made and daily sterile dressings were carried out until complete wound healing. Pathological Examinations grossly and Microscopically revealed typical Aneurysmal bone cysts in all 3 cases.

All-Patients had good therapeutic recovery within about seven weeks post-operatively.

Key Word: Aneurysmal bone cyst.

서 론

동맥류성 골낭종(動脈瘤性 骨囊腫, Aneurysmal bone cyst)은 인체골격내의 맥류성현상(脈瘤性現象)으로써 양성골병변을 일으키는 종양^{1,10)}으로 이전에는 Atypical giant cell tumor⁹⁾ 혹은 Aneurysmal giant cell tumor⁸⁾ Subperiosteal giant cell tumor¹⁰⁾ 혹은 Ossifying subperiosteal hematoma¹¹⁾ 등으로 언급되었으며 1942년경 까지도 거대세포종양(Giant cell tumor) 그룹에 포함되어 취급 및 진단되어 있었다. 그러나 Jaffe와 Lichtenstein¹²⁾ 등의 학자들은 1942년경, 본 양성골낭종은 거대세포종과는 분명히 구별되는 병변임을 규명하고, 별개의 골병변으로 분리 및 분류하고 이를 "Aneurysmal bone cyst"라고^{13,14)} 명명하였다. 그들은 또한 본종양의 병리조직학적 특징을 상술하고 거대세포종과의 감별점을 지적하여 감별진단함에 크게 공헌하였다¹⁵⁾. 저자 등은 충남대학병원 정형외과에서 3예

의 맥류성낭종을 발견하여 병소를 철저히 소파한후 자가장골이식술(autogenous iliac bone grafts)을 수행하여 양호한 치료결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 분 석

증례 1 : 조○남, 여 29세, 우측거골(Talus)의 경(頸) 및 두(頭)부 내측에 Aneurysmal bone cyst.

증례 2 : 강○근, 남 18세, 좌측거골 근위간부 및 골간단부에 Aneurysmal bone cyst.

증례 3 : 임○분, 여 18세, 우측거골—체(體), 경·두부 등 Talus 전체가 Aneurysmal bone cyst들이었다.

유발인자 : 증례 1, 2는 각각 3년 및 33일전에 상등부 위들에 외상을 입은 병력이 있고 증례 3은 원인불명성으로 3년전부터 우측거골경부에 동통으로 시작된 원인모를 종물이 증악(增惡)된 병력이 있었다.

가족력 : 전례들에서 특기할 사항이 없었다.

1. 병 력

증례 1 : 3년전에 우측측관절부에 외상을 입고 통통성 운동제한 등의 증세로 모병원에서 측관절염과(捻挫)로 진단되어 보존요법치료를 받았으나, 외상후 약 1개월후부터 우측거골의 경 및 두부 내측에 제란알 크기의 종물발생 및 심한 통증이 점차 악화되어 본원에 입원하였다(Fig. 1 참고).

증례 2 : 33일전에 콘크리트 전신주가 넘어지면서 좌측경골근위부를 후려친 외상력이 있고, 2일 후부터 동부위에 극심한 통증 및 창과 Skin discoloration 및 파행 (limping) 등으로 안정과 진통제복용 및 장하지 석고붕대적용 등 보존요법을 받았으나 수상후 3주부터는 경골근위부내측에 평편히 융기된 달걀만한 통통성종물이 촉진되는 등 증상이 더욱 악화되었고 입원시엔 증대된 종물이 거위알 이상의 크기로 성장하여 있었다(Fig. 3 참고).

증례 3 : 3년전에 우측거골 경부내측에 원인불명으로 소아주먹만한 통통성 종물이 발생하여 점차로 증대되었고 입원 1개월전엔 거위알 크기 정도로 서서히 커졌으며 통통성파행 등을 일으켜 입원하였다(Fig. 5 참고).

2. 이학적소견 : 전맥들에서 전신 및 영양상태는 대체로 양호하였다.

증례 1 : 右 근위측부내측에 심히 증가된 통통감각파민(tenderness), 중등도종창(swelling), 약간의 local-heating, 우측관절의 운동범위는 정상이나 adduction, dorsiflexion, eversion 등은 종물에 의한 통통 및 mechanical blocking 등으로 다소간 제한되어 있었다(Fig. 1 참고).

증례 2 : 좌하퇴근위 내측면에 약한 통통감각파민과 중등도종창 및 평편히 융기된 피하조직하에 거위알 이상 크기의 종물이 촉진되고, local heating이 현저히 증가되어 있었다(Fig. 3).

증례 3 : 우측측부근위 내측부에 피하에 위치된 거위알 크기의 통통성 종물이 촉진되었고 통통감각파민이 현저했고 동부위의 Local heating은 없었으나 족부의 equinovalgus deformity가 있어서 관절운동은 다소 제한되어 있었다(Fig. 5).

3. 검사실 소견 : 혈액 및 노점사를 통틀어서 특별한 소견은 발견할 수 없었다.

4. 방사선 소견 : 먼저 증례 2에서는 좌측경골의 상 1/2위의 골간부 및 골간단부가 현저히 Ballooned out 되어 있었고, 예리하게 국한경계된 Radioluscent multiple cystic lesion이 존재하였으며, 팽창된 골피는 골

Fig. 1. 증례 1의 우측 측관절 X-ray사진. 거골의 체·경·두부내측에 multiple radiolucent cystic lesions 및 overlying cortex의 thinned out된 음영이 보인다.

Fig. 2. 증례 1의 골소파술 및 자가장골이식술후 약 8주된 우측측관절의 X-선 사진. 치유된 음영이 보이고 있다.

Fig. 3. 증례 2. 입원당시의 좌측 근위경골간부 및 간단부의 X-선 사진. 동부위에 심한 ballooned out 및 large soap-bubble like radiolucent cystic lesion들이 보이고 있다.

Fig. 4. 증례 2의 술후 8주된 X-선 사진. 철저한 소파술 및 장골이식골을, 강(腔)내에 packing시켰고, 현저한 신골증식 반응이 일어났음을 볼 수 있다.

Fig. 5. 증례 3의 입원당시 우측 족관절의 X-선 사진. 우측 거골의 전제부위에 광범위하게 확장된 large radiolucent cystic lesions가 보이고 있다.

밀도가 현저히 증가되어 있었고 최소한의 골막성신골 형성의 음영을 보였다(Fig. 3 참고). 증례 1에서는 우측 거골의 제·경·두부의 내측에 다발성 낭종성병변 및 overlying cortex의 thinned out 된 음영을 보였다(Fig. 1 참고). 증례 3에서는, 우측 거골(右側 距骨)의 전제부위에 확장된 Soap-bubble like appearance로써 촬영된 multiple radiolucent cystic lesion이 보였고, overlying cortex는 얇아져서 egg-shell shape 음영이었

Fig. 6. 증례 3의 술후, 7주된 X-선 소견. Talus 자체가 병소였기에, talectomy 후 Tibio-Calcaneal fusion을 시행하였다.

다(Fig. 5 참고).

5. 수술소견 : 제1, 3예 둘에서는 족관절의 전방도달법을 사용, 즉 Tibialis anterior와 Extensor Hallucis Longus 및 Anterior tibial neurovascular bundle들은 내측으로, Extensor digitorum longus와 peroneus tertius는 외측으로 각각 retract하고 피부절개와 동일 절개선으로 족관절피막 및 활액막을 절개하여 각각 retract 시킨후 심히 ballooned out된 병소(病巢)를 발견하고, 약 2×3cm 넓이의 골피질(骨皮質)에 난원형(卵圓型)으로 소창(小窓)을 내었다. Large cystic cavity 내에는 암적색(暗赤色) 혈액이 충만(充滿)되어 있었고 낭종벽의 성상은 혈관이 없는 회색의 두꺼운 섬유조직(纖維組織)이었다. 또한 낭종강(囊腫腔) 내엔 무수한 fibroosseous septae들이 포함되어 있었다. 고로 suction 및 철저한 소파술(搔爬術)로써 섬유성낭종벽 및 old blood contents들을 철저히 제거하였고 미리 베어둔 자가장골이식골들을 preparation하여 수질골들은 낭종강 내에, 골피질들은 강(腔)의 overlying cortex부분에 packing시켰고, 술창주변은 항생제염용액으로 철저히 세척했으며, 증례 3에선 우측거골전체가 병소였기에 Talectomy한후 2 strong steinmann pins로써 Tibio-calcaneal fusion을 시행하였다(Fig. 6 참조).

그후 술창은 routine suture manner로 깔끔히 봉합한 뒤 장하지석고붕대를 정상 경위치로 하여 감았고, 술후 2일에 cast windows를 내고 daily sterile dressing을 실시하였다.

증례 2 : 근위경골의 anterior border의 내측면에 약 15cm 크기의 curved incision을 가하고서 해당부위 병

소상방의 골막을 최소한으로 박리하여 병소에 도달하였다. 육안적으로는 정상모습의 평면히 용기된 난원형의 10×5cm 크기의 골피가 노출되어 그의 변연부를 따라 4각형으로 multiple drilling 등으로 8×4cm 크기의 소창을 내고보니, 약 30cc 이상의 신선혈(Fresh blood)로 충만된 작은 물웅덩이 모습의 12×6×5cm의 병소가 출현—이속엔 small brittle masses는 보였으나 전형적인 fibro-osseous septae 모습은 드물었고, 강(腔)의 상방내측에 약 4개의 낭종들이 존재하였고, 낭종벽은 무혈관성의 암화색의 두꺼운 섬유조직이었다.

역시 상기된 동일조작으로 병소를 철저히 소파하고 미리 베어둔 자가장골이식골들을 강내에 채웠으나 워낙 크게 넓어진 낭종공간이라 그의 하 2/3부만 채워졌고 상 1/3부는 남겨둔채, 철저한 생리염수세적만 한후 슬창은 역시 routine suture manner로써 봉합한뒤 compression dressing하고, 슬관절은 굴곡위 약 25도, 족관절은 정상정위치로 하여 장하지석고붕대 적용후 증례 1, 3과 같이 슬후처치 하였다(Fig. 4 참고).

6. 병리조직학적 소견

육안적 소견 : 전기(前記)되었음.

현미경적 소견 : 증례 1, 2, 3 전부 동일 하였음.

즉 ① 병소바깥의 골막조직 ; 현저한 부종 well vascularization 만성염증세포들의 존재 및 일부의 교원섬유 증가 소견(Fig. 7 참고).

② 골피조직 ; 소수의 소골편(Bone spicules)들·연골질 및 무수한 다형핵 중앙거대세포들 및 육중한 출혈지역·증식된 섬유배세포들·만성염증세포의 침윤(Fig. 7, 8 참고).

③ 종물절단조직 ; 많은 소골편, 수많은다형핵중앙거대세포들, 섬유배세포들의 증식물들, 많은 macrophages 및 혈관화된 현저한 출혈성지역들 존재(Fig. 8 참고).

④ 낭종벽조직 ; 확산성의 현저한 섬유증식증, 수많은다형핵중앙거대세포들, 소수의 미숙한 소골편들, 만성염증세포들(Fig. 7, 8 참고).

⑤ 골수조직 ; 확산성의 섬유증식증·골수내에 수많은 Osteoclasts들 산재...등의 소견들을 보이고 있었다 Fig. 9. 참고).

7. 치료후 경과 : 전기된 관혈적요법들을 수행한후 현재까지 각각 2.5년, 3개월, 1.5개월간의 추시에 제발, 악성변화 등의 합병증 발생은 없이 경과중이다. 전례들은 슬후 약 7주에 석고제거후 X-ray checking 하였고, 증례 2에서는 슬후 8주된 X-선 사진상 아직도 병소의 상 1/3부에 operative bony defect가 보이

나 현저한 신골증식반응이 보였다(Fig. 4 참고). 증례 1에서는 Talar dome이 잘 유지되어 있고 거골의 무혈성괴사소견은 전혀 찾아볼 수 없으며 거골의頸 및 경부의 낭종성병소는 거의 신생골로써 채워져 있었다(Fig. 2 참고).

Fig. 7. 소파해낸 골편·낭종벽 조직. 두꺼워진 낭종벽이 섬유증식증과 신골형성의 모습을 보이고 있다. (×100).

Fig. 8. 수많은 Hemosiderin 색소, 거대중앙세포 및 무수한 vascular channels 등이 보이며 hemosiderin 색소 이외에 lipid를 포함하는 macrophages도 관찰되고 있다(×450).

Fig. 9. 확산성의 현—저한 섬유증식증 및 다형핵 중앙거대세포들, 산재된 만성염세포들이 보이고 있다 (×450).

고찰

본 종양은 Lichtenstein¹²⁾씨에 의해 거대세포종 과는 구별되는 병변으로 분류된 후 학계의 관심은 증가되었고 Barnes²⁾씨는 본 질환은 동맥류성골낭종으로 기술함이 타당하다고 하였고, Lichtenstein^{13,14)}씨는 본 낭종을 Giant cell tumor와, 또 Barnes²⁾와 Booher⁴⁾씨 등도 그와 거대세포종과의 감별점들을 임상·방사선적·병리적 전이들에서 지정한 바 있었다¹⁾. 이환율은 드물고 Dahlin⁶⁾씨 등은 1950년후 2년간에 Mayoclinic에서 수술가료한 2000여명의 골종양환자들에서 26예(1.3%)의 본 질환들을 발견하였다. 호발은 10—30세, 성은 남자이고, 부위는 사지장관골의 골간단·평면골·척추골·족골 등의 순서라 한다¹⁴⁾. 또 장관골의 골간단부에 발생시엔 골막하에 偏心的으로 위치하며 外向으로 확장—본래의 골피질을 파괴하고, 골단부는 침범치 않는다한다¹⁴⁾. 척추골에 발생시엔 대부분이 척추궁에 발생되고^{3,12)} 방사선상에 수직성횡줄문(vertical striations)이 생기지 않음이 혈관종과의 감별점이라 한다¹⁴⁾. 본 증례들 모두는 전기된 연령범위내이나, 여자에 호발했고, 부위는 전기된 바의 가장 희귀부위에 호발한듯 하였다. 발생기전은 Lichtenstein씨의 “골격 어느부분에서 동·정맥문합현상 등으로 국소순환장애가 생겨 정맥압이 증가되며 고로 맥관의 기저부는 확장되고 울혈이 속발되어 지속적국소자극이 가해져서 골변화를 일으킨다”는説이 가장 지지를 받는 정설로써 인정되고 있다¹⁾.

또한 외상은 病痕部에 동통, 병적골절 등을 유발시킨다 했다⁷⁾. 본 증례 1, 2도 외상에 의해 선행성병소에서 시초증상이 유발된 걸로 사료된다. 증상은 운동시에 악화되는 통증·종창·관절운동제한·척추발생시엔 척수·신경근 등의 압박증상등이라 한다^{13,14)}. 본 폐들도 유사한 소견들이었다. 방사선소견은 병소골은 팽창(ballooned out)되고 radiolucent cystic changes 및 편심적 위치·골피파괴·골막성 신골형성은 계란껍질같은 모습 등이라 했고¹²⁾, 전증례들에서 동일한 소견이었다.

병리조직소견은 육안적으론, 종괴들이 broad base에 의해 골간단에 부착된채 외함성장 및 주변 연부조직을 치환시키고, 낭종들은 血로 충만된 공간을 서위하는 얇은 骨殼으로 싸여있고, 중심부에는 半液狀內容物이 기질화된 혈운고체의 모습으로 존재 및 낭종공간전역에 걸쳐 fibro-osseous septae가 존재한다 했다¹⁴⁾. 본 폐들도 상기와 유사한 소견들이었고, 증례 2는 fibro-osseous septae가 small brittle masses로써 보이는듯

하였다. 현미경적 소견은 the spongy bone and marrow는 대소의 blood pools로써 치환되며¹⁴⁾, 이 pools는 다시 fibro osseous septae에 의해 被掩되며, 병소절제조직은 다형핵거대세포들·신골형성 및 석회성축적물 등을 포함하며¹⁴⁾, 거대세포종의 세포와 비교시, 더 작은 크기·더 적은 核數를 포함함이 감별점이 타고 한다¹⁴⁾. 본 예들도 거의 유사한 소견들이었다 (Fig. 7, 8, 9 참고). 감별질환들은 ① Giant cell tumor, ② fibrous dysplasia, ③ 단순골낭종 ④ non-ossifying fibroma 등이며 치료는 근치적소파술·골 결손부는 자가장골이식술...등이 있으며, inaccessible lesions에 한해서는 중등량의 방사선 조사요법이 있으나 악성변형 등의 합병증·유발가능성 등으로 難用된다 한다^{3,9,14)}. 전 폐들은 상기된 관혈적 요법으로 술후 약 7주에 양호한 치료결과를 얻었다. 예후는 본 낭종은 본질적으로 양성이라 하였다^{2,9,14,15,16)}.

결론

저자들은 78년 7월 이후 약 2.5년내에 29세 여자·18세 남자·18세 여자들의 우측거골들 및 좌측 경골근위부에 발생된 맥류성골낭종 총 3례를, 낭종병소들을 철저히 소파·자가장골이식술·장하지 석고붕대의 적용 등, 관혈적 요법을 시행하여 양호한 결과를 얻고, 현재까지 합병증없이 경과하고 있기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) 박병문·한대용·박일진 : A Case of Aneurysmal bone Cyst. 대한정형외과학회지, 7:1, 171-174, March, 1972.
- 2) Barnes, R.: Aneurysmal bone Cyst. J. Bone and Joint Surgery, 38-B, 301, 1956.
- 3) Beeler, J.W.: Helman C.H. and Campbell J.A. aneurysmal bone cyst. J. Am. Med. Assn., 163:914, 1957.
- 4) Booher, R.J.: Aneurysmal Bone Cyst. J. Bone and Joint Surgery, 39-A:435, 1957.
- 5) Coley, B.L. and Miller, L.E.: Atypical Giant Cell tumor. Am. J. Roentgen, 47:541, 1942.
- 6) Dahlin, D.C., Besse, B.E. Puch, D.G. and Ghommley, R.K.: Aneurysmal Bone Cyst. Radiology, 64:56, 1955.

- 7) Donaldson, W.F.: *Aneurysmal Bone Cyst. J. Bone and Joint Surg.*, 44-A:25, 1962.
- 8) Ewing, J. *Neoplastic diseases: A treatise on tumors Edition 4th. pp. 323. Philadelphia. W.B. Saunders Co., 1940.*
- 9) Garnjobst, W. and Hopkins, R.: *Aneurysmal Bone Cyst. J. Bone and Joint Surg.*, 49-A: 971. 1967.
- 10) Geshickter, C.F., and Copeland, M.M.: *Tumors of bone. Ed. 3, Philadelphia, J.B. Lippincot 1949.*
- 11) Jaffe, H.L. and Lichtenstein, L.: *Solitary unicameral bone cyst, with emphasis on the roentgen picture, the pathogenesis. Arch. Surg.*, 44:1004, 1942.
- 12) Jaffe, H.L.: *Tumors and tumorous conditions of bones and joints. pp. 54, Lee and Febiger, 1958.*
- 13) Lichtenstein, L.: *Aneurysmal bone cyst. Cancer*, 3:279, 1950.
- 14) Lichtenstein, L.: *Aneurysmal bone cyst. Cancer*, 6:1228, 1953.
- 15) Parish, F.F. and Pervey, J.K.: *Surgical management of aneurysmal bone cyst of the vertebral column. J. Bone and Joint Surg.*, 49-A:1597, 1967.
- 16) Samuel, L. and Turek, M.D.: *3rd edition. Orthopaedic principles and their application. J.B. Lippincott Co. P. 549-550.*