

활액막 연골종증 5례 보고

계명대학교 의과대학 부속 동산병원 정형외과

강창수 · 손승원 · 이종열

=Abstract=

Synovial Chondromatosis

Chang Soo Kang, M.D., Sung Won Shon, M.D. and Jong Youl Lee, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Keimyung University College of Medicine, Taegu, Korea

Synovial chondromatosis is an uncommon benign lesion characterized by multiple cartilagenous and osteocartilagenous nodules of the synovium and loose bodies.

The affection is monoarticular and most commonly involves the knee and has an unknown etiology.

Of the five cases of synovial chondromatosis experienced by the authors, both knee joints were involved in a case, two the elbow joint, and one the proximal phalanx of the left middle finger.

The diagnosis of synovial chondromatosis was made by the histopathological findings of the excised masses.

Key words: Synovial chondromatosis.

서 론

증 례

활액막 연골종증은 관절의 활액막에서 결체조직의 화생(mataplasia)에 의해 연골 및 연골조직이 형성되는 드문 질환으로서 때로는 건초(tendon sheath), 활액낭(bursa)에 발생하는 수도 있다¹³⁾.

형성된 연골종은 육경에 의해 활액막에 부착되거나 분리되어 관절강 내에서 활액에 의해 영양공급을 받아 성장한다¹⁰⁾.

발생원인은 밝혀져 있지 않으며, 연령별로는 20~50세 사이에 많고 주로 슬관절이나 고관절 같은 큰관절(large joint)에서 빈발하나 대부분이 단일관절(monoarticular)로 발생한다고 알려져 왔다^{5,13,17,18)}.

그러나 저자들은 희귀하게도 양측슬관절에서 발생한 각 1례를 포함하여 주관절에서 2례, 수지관절초에서 1례, 도합 5례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례 1

40세된 남자로서 약 18년전에 좌측 슬관절부에 외상이나 감염같은 특기할만한 병력이 없이 동통, 관절의 제동감 및 종창이 발병되어 본원에서 활액막 연골종증의 진단을 받은후 수술을 권유받았으나 이에 응하지 않았으며 발병약 2달후 우측 슬관절부에도 상기증상이 나타났으나 역시 특별한 치료를 받지 않았다. 그후 동통 및 관절의 제동감등은 간헐적으로 나타났으며, 내원 20일전 부터는 우측 슬관절부에 심한 동통 및 종창이 발병되어 X-선 촬영후 입원하였다.

이학적 소견: 전신적인 발육 및 영양상태는 양호하였으나 양측 대퇴부 및 하퇴부는 정상인에 비해 경도의 근위축이 있었으며 슬관절부의 이동성 종물은 양측에 공히 촉진되었으나, 슬관절의 운동범위는 좌측은 정상이었으며 우측은 종창으로 인하여 약간의 굴곡장애가 있음과 동시에 압통 및 경도의 관절액 저류가 있

*본 논문의 요지는1981년 9월 대한정형외과학회 경북지회 월례 집담회에서 발표되었음.

*본 논문은 1981년도 계명대학교 의과대학 부속 동산병원 임상연구비 보조로 이루어진 것임.

었다.

X-선 소견 : 좌측 슬관절 X-선 상에서는 슬관절강 후방에 비교적 음영이 증가된 0.5×0.3 cm 크기로 부터 1.8×1.5 cm 크기의 4개의 유리체를 볼 수 있었고 대퇴내과 후상방에도 역시 1.2×1 cm 크기의 진한 음영을 가진 종물을 볼 수 있었다. 그러나 관절면이나 관절강은 정상소견이었다(Fig. 1).

우측 슬관절 X-선 상에서는 관절강 외후방에 비교적 음영이 증가된 0.9×0.7 cm 크기와 1.5×0.8 cm 크기의 2개의 유리체를 볼 수 있었고, 비골두의 상부에 해당되는 부위 즉, subpopliteal recess 부근에서도 역시 0.3×0.5 cm 크기의 타원형 음영이 보였다. 관절면이나 관절강은 정상이었다(Fig. 2).

수술소견 : 동통과 종창을 호소하고 있는 우측 슬관절부터 먼저 수술을 시행하여 슬관절의 후방절개에 의해 관절강에 도달하였을때 대퇴골 외과의 후하방의 활액막에 부착되어 있는 $1.0 \times 0.9 \times 0.7$ cm 크기와 $1.5 \times 1.2 \times 0.8$ cm 크기의 회백색의 단단한 종물을 발견할 수 있었다. 이 종물들이 부착된 부위 이외의 활액막은 정상이었으며, 이 종물만을 쉽게 제거할 수 있었다.

또한 subpopliteal recess의 활액막에 부착되어 있는 $0.5 \times 0.4 \times 0.3$ cm 크기의 회백색 종물을 발견할 수 있었으며, 주위의 활액막은 비후되어 있었다. 종물과 더불어 활액막부분 절제술을 시행하였다.

5일후 좌측 슬관절도 후방절개에 의해 관절강에 도달하였다. 관절강 후방의 활액막에 부착되어 있는 회백색의 표면이 매끈한 $1.8 \times 1.6 \times 1.5$ cm 크기의 종물 1개와 직경이 약 0.5cm 크기의 종물 3개를 발견할 수 있었고, 대퇴내과 후상방에서도 $1.3 \times 1.2 \times 1$ cm 크기의 회백색의 종물 1개를 발견할 수 있었다. 종물이 부착된 부위 이외의 활액막은 역시 정상이었으며 종물만을 제거하였다.

현미경적 소견 : 우측 슬관절에서 제거된 연골세포로 구성된 유리체는 석회화되어 섬유성 조직으로 덮혀 있었으며 중앙부의 화골현상을 일으킨 유리체는 경화(sclerotic)되어 있었고, thickened trabeculae가 보였다(Fig. 3).

활액막은 말초혈관의 증식과 섬모성미대(villi hypertrophy)를 볼 수 있었으며, 기질에는 교원성 섬유조직의 변화가 보였다(Fig. 4).

좌측 슬관절의 유리체도 역시 섬유성조직이 연골세포를 덮고 있으며 연골세포의 석회화와 더불어 화골화되고있는 과정도 보였다.

증 례 2.

17세된 남자로서 약 1년전부터 우측주관절부위에 동

통 및 운동시 열발음이 있었지만, 특별한 치료없이 지냈으나 내원 5일전부터 동통이 악화되어 수술권유를 받고 입원하였다.

이학적 소견 및 X-선 소견 : 주관절의 운동범위는 정상이었으며 이동성 종물은 촉진할 수 없었다.

X-선 상에서는 주두와(olecranon fossa)에 0.8×0.7 cm 크기의 난형의 변연부가 보다 radioopaque한 유리체를 볼 수 있었다.

수술소견 : 주관절 후방절개로 주두와를 노출시켜 $0.8 \times 0.8 \times 0.7$ cm 크기의 백색의 불규칙한 표면을 가진 유리체를 쉽게 적출할 수 있었으며 육안적으로 활액막은 비후되어 있었으나 표면의 다른 염증소견 등은 볼 수 없었다.

현미경 소견 : 연골세포로 구성된 유리체는 섬유성조직으로 덮혀 있었으며 석회화와 화골화를 볼 수 있었다(Fig. 6).

증 례 3

발육 및 영양상태 양호한 8세된 남아로서 우측 제 3 수지 근위지골의 수장부에 약 2년전부터 특별한 병력 없이 종물이 자라나오기 시작하여 내원당시는 성인 모지단 크기였다(Fig. 7).

이학적 소견 : 종물은 아주 단단하였고, 압통은 없었으며, 근위지절 및 원위지절부의 운동범위는 정상이었으며 수지의 감각이상등도 없었다.

X-선 소견 : 수지 건후방 X-선상에 근위지골이 횡으로 넓어져 있었으며, 약간의 연부조직의 팽대가 있었고 측방 X-선상에서는 근위지골의 수장부측의 피질골이 잘 보존은 되어있었으나 완만한 곡선으로 함몰을 보여 주었는데 이는 어떤 종물에 의해 압박된 양상을 나타내는 것으로서 이에 상당하는 연부조직의 종창을 동반하게 나타내었으나 연부조직의 석회화나 화골의 현상은 보이지 않았으며 근위 및 원위지절의 관절면은 잘 보존되어 있었다.

수술소견 : 제 3 수지 근위지절의 수장부측의 굴진초에 부착된 불규칙한 표면을 가진 $2.5 \times 2 \times 1.8$ cm 크기의 회백색 종물을 제거하였다(Fig. 8)

현미경 소견 : 적출된 종물은 교원성섬유조직과 미성숙 연골세포가 보임으로서 연골세포로 이행되고 있는 상태임은 알 수 있다(Fig. 9)

증 례 4

28세된 남자로서 약 3년전부터 발생한 우측주관절부의 동통 및 운동제한을 주소로 내원하였다.

이학적 소견 및 X-선 소견 : 이학적 소견상 약 30°의

Fig. 1. 증례 1. 수술전 좌측 슬관절부의 X-선소
견 : 관절강 후방에 여러개의 종물이 보이나 관절면은
잘 보존되어 있다.

Fig. 2. 증례 1. 수술전 우측 슬관절부의 X-선소
견 : 관절강 외후방에 종물들이 보이며 관절면은 정상
소견이다.

Fig. 3. 증례 1. 우측 슬관절부에서 적출한 연골
체의 현미경소견 : 섬유성 조직적으로 덮여 있는 연골
조직의 대부분은 석회화되어 있으며 중앙부의 화골현
상을 일으킨 부분은 Sclerotic하고 thickened trabeculae
가 보인다(X40).

Fig. 4. 증례 1. 우측 슬관절부에서 제거한 활액
막의 현미경 소견 : 섬유성 비대와 말초혈관의 증식을
볼 수 있으며 기질에는 연골세포로 이행되는 교원성 섬유
조직의 변화가 보였다(X40).

Fig. 5. 증례 2. 수술전 우측 주관절부의 관절 조영술 소견 : 주두와 내에 원형의 종물이 보인다.

Fig. 7. 증례 3. 우측 제 3 수지 수술전 소견 : 근위지골이 종물에 의해 팽창된 모습이 보인다.

Fig. 6. 증례 2. 연골체의 현미경 소견 : 섬유조직이 연골세포를 덮고 있으며 연골세포의 석회화와 더불어 화골현상이 보이고 있다(X10).

Fig. 8. 증례 3. 우측 제 3 수지에서 제거된 종물소견 : 회백색의 표면이 불규칙한 타원형 종물이었다.

Fig. 9. 증례 3. 연골체의 현미경소견 : 교원성 섬유조직과 미성숙 연골세포가 보인다($\times 40$).

Fig. 11. 증례 4. 수술전 관절조영술 소견 : 주두와 내에 난형의 종물이 보인다.

Fig. 10. 증례 4. 수술전 X-선소견 : 주두와 내에 석회화된 종물이 보인다.

주관절 신전제한 이외의 모든 방향의 운동범위는 정상이었으며 굴곡시 주관절 후방에서 단단한 이동성종물을 촉진할 수 있었다.

X-선 상에서는 주두와(Olecranon fossa)에 1.7×1.4 cm 크기의 변연부가 radio-opaque한 유리체를 볼 수 있었다(Fig. 10).

수술 소견: 주두와에서 $1.7 \times 1.6 \times 1.4$ cm 크기와 불규칙한 표면을 가진 난형의 백색 유리체를 제거하였으며 육안적으로 비후된 활액막을 볼 수 있었다.

조직 소견: 연골세포로 구성된 유리체는 석회화 및 화골현상을 볼 수 있었다.

고 찰

활액막 연골종증은 주로 한 관절만을 침범하는 원인 미상의 희귀한 질환이다^{8,9,13,17}. Savino¹⁷ 등은 외상이나 감염, 배세포군의 과잉활동(overactivity of embryonic rest)이 원인이 되거나 양성 과오종화 과정(a benign hamartomatous process)으로 추측하고 있으며 Mussey와 Henderson¹⁴도 104예중 약 과반수에서 외상의 과거력이 있는것을 근거로 하여 외상이 원인이 될 수 있다고 하였으나 Jones⁹는 감염이나 외상은 원인이 될 수 없다고 하면서 양성종양으로 믿었고 Murphy¹³는 32예중 1예에서도 가족력은 없었음을 보고하였다.

본증은 20~50세 사이의 주로 호발하며^{5,6,8,13} 사춘기 이전에는 비교적 드물다. 그러나 Jacob⁶ 등은 7년 2개월된 예를 문¹ 등은 2세된 예를 보고한 적이 있다.

일반적으로 남성에서 다발하며^{6,10,13} Mussey¹⁴ 등은 104예중 79예에서 Murphy¹³ 등은 32예중 21예에서 남성에서 발생함을 보고하였다.

발생부위 별로는 슬관절이 가장 많고^{5,8,10,13,14} 그의 주관절, 고관절, 족관절, 전갑관절, 완관절, 수관절에서도 발생되며, 드물게는 활액낭이나 건초에서도 발생할 수 있다^{1,14}. Mussey¹⁴는 105예에서 슬관절에 73예, 주관절에 22예, Murphy¹³는 32예중 슬관절에 22예, 고관절에 5예를 보고하였다. 주로 단일관절(monoarticular)에 국한되어 발생하는 질환으로서 Murphy¹³ 등은 32예중 전예가 단일관절(monoarticular)에 발생됨을 보고하였다. 그러나 저자의 경우 중케 1은 슬관절에 발생하였는데 희귀하게도 양측성이었다.

임상증상으로는 대부분의 예에서 관절의 통증을 주소로하며 그의 종창, 관절운동제한, 파행, 관절의 강직, 관절의 제동감 등이 나타나며^{6,10,13,14} 환자의 약 반수에서 병이 진행됨에 따라 위의 증상들이 점점더 심

해진다고 한다¹³.

이학적 소견으로는 관절의 운동제한, 압통, 관절액 저류, 관절강내 이물촉진, 파행 등을 볼 수 있다^{10,13}.

X-선 소견으로는 관절강내 다수의 난형의 radio-opaque한 유리체가 나타나나 항상 단순 X-선 상에 보이는 것은 아니며 연골의 석회화나 화골현상이 없으면 전혀 보이지 않으므로¹⁰ 관절조영술을 실시 하여야만 유리체를 확인할 수 있다. 또한 병변이 장기간 지속된 예에서는 관절연골에 퇴행성변화가 나타나기도 한다¹³.

활액막의 육안적 소견으로는 적어도 2cm² 이상의 활액막 침범을 볼 수 있는데, 어떤 예에서는 전 활액막이 침범되는 경우도 있다고 한다. 침범된 활액막은 일반적으로 비후되어 있으며 한관절내에서도 침범되지 않는 부위는 정상적인 활액막을 그대로 유지하는 것이 이 질환의 특징이다¹³.

또한 연골체의 육안적 소견으로는 화생에 의해 형성되어 크기가 미소한 것에서부터 직경이 수 cm에 달하고 흔히 둥글거나 타원형인 백색 혹은 회백색의 연골체를 활액막내 또는 관절강내에서 볼 수 있는데 연골체는 흔히 석회화되며, 간혹 화골화 된것도 볼 수 있다^{2,14}. 그러므로 골연골종증(osteochondromatosis)이라고 불리기도 하며 synovial chondrometaplasia, synovial chondromata, diffuseenchondroma of joint capsule, chondromatosis 등의 동의어도 있다¹³. 연골체는 수없이 많을때도 있으며 이연골체들이 군(group)을 형성하여 대부분 서로 집결되어 활액막에 대해서 자갈(cobble stone)과 같은 형태를 나타내기도 한다¹³.

현미경 소견으로는 활액막은 혈관의 증식 및 단핵세포의 침윤을 보이며 현저한 화생상을 볼 수 있다¹⁴. 연골체는 섬유조직과 초자양 연골로 이루어지며 연골중심부에는 석회화현상이 관찰되고 간혹 화골현상도 보이며 연골세포의 핵은 흔히 비전형적으로 대개 구형이나 간혹 단핵세포가 보이기도 한다¹³.

진단으로는 청장년층에서 한관절만을 침범하여 나타나는 임상증상 및 이학적소견, X-선소견, 슬후적출물의 육안적 소견, 조직학적 소견 등으로 쉽게 확진할 수 있다^{5,13}.

본증과 감별해야 할 질환은 퇴행성 관절염(degenerative arthritis), 유리성골연골염(osteochondritis dissecans), 신경병성관절염(neurotrophic arthritis), 결핵성 관절염(tuberculous arthritis), 류마티스성 관절염(rheumatic arthritis), 골연골골절(osteochondral fracture) 등과 같이 유리체를 형성할 수 있는 질환들이나 이들 질환은 활액막 연골종의 특징인 활액막에서의 연골화생을 볼 수 없다^{8,12,13}.

본증의 치료에 대하여 Murphy¹²⁾는 침범된 활액막의 절제와 유리체의 완전제거를 원칙으로 한다고 하였으나 Milgram¹¹⁾은 활액막의 반응이 없는 후기에는 유리체만을 제거하면 된다고 하였으며, McIvor¹⁰⁾ Mussey⁴⁾등도 유리체의 완전 제거를 강조하였다. Jeffrey⁸⁾등은 광범위한 활액막 절제술은 좋지 않으며 유리체의 단순한 제거만이 가장 좋은 수술방법이라 하였다. 그러나 Pardee¹⁶⁾ Wilmoth¹⁷⁾등은 가능한한 활액막의 완전절제함이 좋다고 하였다.

합병증에 대해서 Murphy¹²⁾등은 32예중 슬후 슬관절의 내측부인대 (medial collateral ligament)의 석회화등 3예를 보고하였고, Mussey⁴⁾등은 병변이 장기간 지속된 예에서는 대부분 X-선상 퇴행성 관절염의 소견을 보여준다고 하였다.

활액막 연골종의 악성변화에 대해서 Jaffe⁷⁾ Murphy¹³⁾ 등은 경험한적이 없다고 하였으나 Geschickter³⁾등은 2예에서 악성화를 Nixon¹⁵⁾과 Henderson⁴⁾등은 각각 1예씩의 chondrosarcoma로 악성변화한 예를 보고 하였다.

예후는 일반적으로 양호하며 재발율은 매우 적다.^{6,12)} Murphy¹²⁾등은 32예의 활액막절제술 및 연골종 제거술후 평균 8년간의 추후관찰에서 전반적으로 좋은 결과를 얻었다고 보고하면서 심한 통증을 호소한 예는 1예도 없었고 17예에서 관절운동이 정상이거나, 극히 적은범위의 제한이 있었고, 6예만이 중등도 이상의 관절운동의 제한이 있었다고 보고하였다.

결 론

저자들은 양측슬관절에서 발생한 각 1예를 포함하여 5예의 희귀한 질환인 활액막 연골종증(Synovial Chondromatosis)을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

- 1) 서광후, 김 인. 문명상 : 활액막 연골종증. 대한정형외과학회잡지, Vol. 14, No. 3, 395—398, 1979.
- 2) Eisenberg, K.S. and Johnston, J.O.: Synovial Chondromatosis of the hip Joint Presenting as an Intrapelvic Mass. *J. Bone and Joint Surg.*, 54-A : 176, 1972.
- 3) Geschickter, C.F. and Copeland, M.M.: *Tumors of Bone*. Ed. 3, pp. 697—701, Philadelphia.

J.B. Lippincott Co., 1949.

- 4) Henderson, E.D. and Dahlin, D.C.: Chondrosarcoma of Bone. *J. Bone and Joint Surg.*, 45-A : 1450—1458, 1963.
- 5) Holm, C.L.: Primary Synovial Chondromatosis of the Ankle. *J. Bone and Joint Surg.*, 58-A : 878—880, 1976.
- 6) Jacob, R.A., Campbell, W.P. and Niemann, K.M.W.: Synovial Chondrometaplasia. *Clin. Orthop.*, 106 : 152—154, 1975.
- 7) Jaffe, H.L.: *Tumors and Tumorous Condition of the Bone and Joints*, pp. 558—576, Philadelphia: Lea and Febiger, 1958.
- 8) Jeffreys, T.E.: Synovial Chondromatosis. *J. Bone and Joint Surg.*, 49-A : 530—534, 1967.
- 9) Jones, H.T.: Loose Body Formation in Synovial Osteochondromatosis with Special Reference to the Etiology and Pathology. *J. Bone and Joint Surg.*, 6 : 407—458, 1924.
- 10) McIvor, R.R. and King, D.: Osteochondromatosis of the Hip Joint. *J. Bone and Joint Surg.*, 44-A : 87—97, 1962.
- 11) Milgram, T.W.: Synovial Osteochondromatosis. *J. Bone and Joint Surg.*, 59-A : 792—801, 1977.
- 12) Milgram, J.W.: The Classification of Loose Bodies in Human Joints. *Clin. Orthop.*, 124 : 232—291, 1977.
- 13) Murphy, F.P., Dahlin, D.C. and Sullivan, C.R.: Articular Synovial Chondromatosis. *J. Bone and Joint Surg.*, 44-A : 77—86, 1962.
- 14) Mussey, R.D., JR. and Henderson, M. S. Osteochondromatosis. *J. Bone and Joint Surg.*, 31-A : 619—627, 1949.
- 15) Nixon, J.E., Frank, G.R. and Chambers, George, Synovial, Osteochondromatosis: With Report of Four Cases, one Showing Malignant Change, *U.S. Armed Forces Med. J.*, 11 : 1434—1445, 1960.
- 16) Pardee, M.L.: Synovectomy of the Knee Joint. *J. Bone and Joint Surg.*, 30-A : 908, 1948.
- 17) Savino, A.W. and Kuo, K.N.: Synovial Chondromatosis in Association with Turner's Syndrome. *Clin. Orthop.*, 144 : 183—185,

1979.

- 18) Weiss, C., Averbuch, P.E. and Steiner, G.C.:
*Synovial Chondromatosis and Instability of the
Proximal Tibiofibular Joint. Clin. Orthop.,*

108 : 187—190, 1975.

- 19) Wilmoth, D.L.: *Osteochondromatosis. J. Bone
and Joint Surg., 23 : 367, 1941.*