

양측 슬관절에 발생한 활액막 골연골종증

— 1례 보고 —

한림대학 강남성심병원 정형외과학교실

정영기 · 조원호 · 조석현 · 류중곤*

=Abstract=

A Case of Synovial Osteochondromatosis of the Both Knee Joints

Yung Khee Chung, M.D., Won Ho Cho, M.D., Suk Hyun Cho, M.D.
and Jung Gon Ryoo, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Kang Nam Sacred Heart Hospital, Hallym University,
Seoul, Korea

A typical synovial osteochondromatosis within the both knee joints occurred in a 29-year-old man.

The patient complained of palpable masses in the both knee joints showed multiple round, oval, amorphous calcified loose bodies.

Arthrotomy of the left knee joint, removal of loose bodies and total synovectomy were performed.

The microscopic findings of loose body revealed a degenerated cartilage cap and showed area of calcification, ossification and fibroadipose tissue in the central part of the body.

The microscopic findings of synovium revealed a cartilagenous metaplasia of the fibrovascular tissue and showed no evidence of calcification or ossification. The cartilagenous tissue was relatively matured form.

Key Words : Knee, Synovial osteochondromatosis.

서 론

활액막 연골종증은 관절의 활액막에서 결체조직의 화생(metaplasia)에 의해 연골 및 연골조직이 형성되어 증식하는 비교적 드물게 발생하는 양성 종양으로서¹¹⁾ 대부분은 관절내에 발생되나 드물게 건초(tendon sheath), 활액낭(bursa)등에 발생하는 수도 있다^{5,13,21)}. 이러한 연골종의 대다수는 점차 석회화(calcification)되며 어떤 것은 골화(ossification)된다^{6,13,17,18)}.

발생원인은 밝혀져 있지 않으며, 연령별로는 20~25세 사이에 많고, 슬관절에 빈발하며, 대부분이 단일관절(monoarticular)로 발생한다고 알려져 있으나^{6,7,8,10,13,18)} 아주 드물게는 양측성

으로 발생하기도 하며, 국내에서는 강¹⁾등이 보고한 활액막 연골종증 5례중에서 양측 슬관절에 발생한 증례가 보고된 바가 있다.

본 교실에서도 양측 슬관절에 발생한 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

환 자 : 서○오, 남자, 29세

주 소 : 좌측 슬관절 운동시 동통 및 양측 슬관절 이물감.

병력기간 : 약 4년간

가족력 : 특이사항 없음.

과거력 : 우측 및 좌측 슬관절에 입원 약 7년 전, 5년전에 각각 외상력이 있었다.

Fig. 1. Anteroposterior and lateral radiographs of the both knee joints, showing multiple round, oval and amorphous calcifications within the joint.

Fig. 2-A. Macroscopic appearance of synovial osteochondromatosis at arthrotomy.

현병력 : 입원 약 4년전부터 좌측 슬관절에 이동성 종물을 처음 촉진하였으나 동통이 없어 별다른 치료없이 지내다가 우측 슬관절에서도 같은 종물을 촉진하게 되었으며, 내원 약 수주전부터 좌측슬관절에서 운동시 동통이 유발되기 시작하여 내원하였다.

이학적 소견 : 전신적인 건강상태는 양호하였으며 관절운동범위는 정상이었다. 촉진상 관절막의 비후와 정도의 관절액 저류에 의한 슬개골 유주가 좌측 슬관절에 있었으며, 양측관절에 이동성 이물이 촉진되었으나 압통을 느끼는 부위는 없었다.

검사소견 : 일반혈액검사, 요검사 및 혈침검사는 정상이었다.

방사선소견 : 양측 슬관절의 전후면 및 측면

Fig. 2-B. Photograph of the loose bodies removed from the left knee joint. Note the variation in size of the glistening with cartilage bodies with irregular surface.

사진에서 관절내에 다수의 원형 또는 부정형의 석회화소견이 보였다(Fig. 1-A, B).

수술소견 : 전신마취하에 슬관절의 전내측 절개를 통하여 슬관절내에 도달하였으며, 관절내에는 여러개의 연골종괴가 있었다. 활액막은 비후되고 증가된 혈액 분포를 볼 수 있었으며 표면에는 연골체로 보이는 소결절들이 부착되어 있었다. 유리체 제거술 및 활액막 전절제술을 시행하였고, 관절 연골은 퇴행성 변화가 있었다(Fig. 2-A).

병리학적 소견 : 육안적소견에서 유리체는 불규칙한 표면을 가진 7개의 회백색연골체로 이중가장 큰것은 $2.0 \times 1.5 \times 1.0$ cm였다(Fig. 2-B). 활액막은 비후되고 표면에 수많은 작은연골체가 부

Fig. 3-A. Microscopic findings of loose body is covered with a degenerated cartilage cap and shows area of calcification, ossification and fibroadipose tissue in the central part of the body ($\times 40$).

Fig. 3-B. Higher magnification showing the immature cartilage cells ($\times 400$).

Fig. 4-A. The microscopic findings of synovium reveals a cartilagenous metaplasia of the fibrovascular tissue and shows area of cartilagenous island and fibrovascular tissue with lymphocytic infiltration just beneath the synovial lining cells ($\times 200$).

Fig. 4-B. Higher magnification of cartilagenous island showing relatively well differentiated cartilage lacunar cells ($\times 400$).

착되어 있었다.

현미경 소견 : 제거된 유리체는 미성숙 연골세포로 되어 있으며 중심부에 석회화 및 골화소견이 보였다(Fig. 3-A, B). 활액막은 활액막조직 내에 위치한 연골조직이 혈관분포가 증가되고 단핵세포의 침윤이 있는 결체조직에 쌓여 있으며, 결체조직은 초자양 변성에 의해 연골조직으로 이행되는 소견이 있었다(Fig. 4-A).

수술후 경과 : 술후 조기관절운동을 시행하여 거의 정상범위의 관절운동이 가능하였으나 과도한 조기관절운동이 원인으로 생각되는 내측지대

박리(retinacular detachment)가 발생되었다. 술후 약 8주경에 재봉합 수술을 하였으며, 이때 활액막조직검사를 시험적으로 시행하여 활액막이 재생되고 있는 소견을 볼 수 있었고 조직검사상 연골조직은 인지할 수 없었다(Fig. 5).

고 찰

활액막 연골종증은 관절의 활액막에서 결체조직의 화생(metaplasia)에 의하여 연골 및 연골조직에 형성되는 드문 질환으로서 그 원인은 아직 분명하게 밝혀져 있지 않은 상태로 외상이나 감염, 배세포군의 과잉활동(overactivity of embryonic rest)이 원인이 되거나 양성과오종(benign hamartous)과정으로 추측되고 있으나, 현

Fig. 5. Microscopic finding shows dense collagen tissue covered by regenerating synovial lining cells($\times 200$).

재로서는 활액막조직이 연골성조직으로 화생되어 생기는 양성종양으로 받아들여지고 있다^{6,10)}.

20~50세의 남성에서 호발하며, 슬관절이 가장 많이 발생된다. 주로 큰 관절에 단일관절(mono-articular)로 발생하며^{6,7,8,10,18)}, 양측성으로 발생하는 것은 드문것으로 되어있다^{1,2,9)}. 건초나 활액낭등에서도 드물게 발생되며^{1,5,12,13,15)}, 관절낭 밖에 발생하는 경우도 보고되고 있다²¹⁾.

임상증상으로는 관절의 동통이 주된 증상이며, 슬관절 내장증의 일반적 증세를 호소하기도 한다^{6,8,16)}. 이학적 소견으로는 관절액 저류, 관절운동 범위제한, 압통, 관절내 이물촉진등이 나타날 수 있다.^{8,18)} 방사선 소견상에는 연골이 석회화나 화골현상이 있는 경우 관절간내에 다수의 방사선 음영이 증가된 난형의 유리체가 나타나나, 관절조영술을 하여야만 비로소 유리체를 확인할 수 있는 경우도 있다^{6,15)}.

관절연골은 정상인것이 이 질환의 특징이나 병변이 장기간 지속된예에서는 퇴행성 변화가 나타날수도 있다¹⁹⁾.

육안적 소견은 침범된 활액막이 비후되어있고, 한 관절내에서도 침범되지 않은 부위는 정상소견을 보인다^{13,18)}. 연골체는 크기가 미소한 것에서부터 직경이 수 cm에 달하는 것까지 다양하며, 둥글거나 타원형인 백색 혹은 회백색의 연골체가 활액막내 또는 면에 부착되어 있거나 관절내에 유리된것을 볼 수 있다. 미소한 연골체가 수없이 많을때는 서로 집결되어 자갈 모양으로 나타난다. 현미경 소견에서는 침범된 활액막은 혈관의 증식 및 단핵세포의 침윤을 보이며, 연골조직으로의 국소적 화생상을 나타낸다¹⁹⁾.

연골체는 섬유조직이나 초자양 연골로 이루어지며, 연골 중심부에는 석회화현상이 관찰되고 간혹 골화도 보인다¹⁸⁾.

최근 McCarthy¹⁴⁾등은 이러한 골화된 결절들은 연골내 골화과정에 의해 형성되며, 층판상골로 이루어진다고 하였다. 또한 전자현미경 소견으로 활액막 조직내의 연골결절에 인접한 일부 부분에서 잘 발달된 골기 소체를 가진 길쭉한 세포들이 나타나며, 이 부분이 섬유모세포가 연골기질을 분비하여 화생(metaplasia)을 나타내는 곳으로 생각된다고 하였다. 연골세포의 핵은 흔히 국소적으로 비전형적이며, 양성골내 연골종양보다 다형성(pleomorphism), 유사핵분열(mitotic activity), 세포충실성(cellularity)의 증가등이 현저하게 나타나는 것으로 되어있고, Enneking⁶⁾은 저등급 연골육종(low grade chondrosarcoma)과 병리학적 소견이 유사하다고 하였다.

본증과 감별하여야할 질환은 퇴행성 관절염(osteoarthritis), 유리성 골연골염(osteochondritis dissecans), 신경병성 관절염(neuropathic joint disease), 결핵성 관절염(tuberculous arthritis), 류마티스성 관절염(rheumatoid arthritis), 골연골성 골절(osteochondral fracture)과 같이 유리체를 형성할 수 있는 질환들이다. 그러나 이들 질환에는 활액막연골종양의 특징인 활액막에서의 연골화생소견을 현미경적으로 관찰할 수 없다^{6,10,16,17,18)}.

치료로는 유리체의 제거와 함께 침범된 활액막의 완전절제를 시행하는 것이 가장 좋은 방법으로 받아들여지고 있으나^{6,15,18,20,22)}, Jeffrey¹⁰⁾등은 유리체의 단순제거를 주장하기도 하였다. Milgram¹⁶⁾등은 임상 및 병리학적 경과에 따라 각 Stage로 구분하였는데, Stage I은 활액막내 활동성 병변이 있으나 유리체가 없는 경우, Stage II는 활액막내 활동성 증식과 유리체가 공존하는 이행 병소, Stage III는 활액막내 병변은 없으면서 유리체가 존재하는 경우로 나누어, Stage III에서는 활액막 절제술은 필요치 않다고 하였다.

본 증례에서는 Stage II에 속하였으며, 유리체 제거와 함께 활액막 절제술을 시행하였다. 합병증으로는 수술 후 슬관절의 내측 인대의 석회화가 보고되었으¹⁸⁾, 장기간 지속된 예에서는 관절의 퇴행성 변화를 보인 경우도 있다¹⁹⁾. 본례에서도 관절연골의 퇴행성변화가 있었다.

예후는 양호하며, 악성변화는 거의 없는 것으로 알려져 있으나^{6,13,18)} 극히 드문예에서 악성화한 보고가 있다^{7,12)}.

결 론

본 한림대학 강남성심병원 정형외과학교실에서는 희귀한 질환인 활액막 연골종증이 양측 슬관절에서 발생한 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

- 1) 강창수 · 손승원 · 이종열 : 활액막 연골종증 5례보고. 대한정형외과학회잡지, Vol. 16, No. 4, 920-926, 1981.
- 2) 강창수 · 편영식 · 손승원 · 송광순 · 권영철 · 김규동 : 활액막 연골종증, 대한정형외과학회지, Vol. 20, No. 5, 967-973, 1985.
- 3) Bogumill, G.P. and Schwamm, H.A. : *Orthopaedic pathology. Saunders Comp.*, 606-613, 1984.
- 4) Carey, R.P.L. : *Synovial chondromatosis of the knee in childhood, A report of two cases. J.B.J.S.(Br.)*, 444-447, 1983.
- 5) DeBeneditti, M., Waugh, T.R. and Evanski, P.M. : *A popliteal cyst with a large osteochondral mass. J.B. J.S.*, 61-A : 147, 1979.
- 6) Enneking, W.F. : *Musculoskeletal tumor surgery. Vol. 2, Churchill Livingstone Inc. 1006-1020*, 1983.
- 7) Henderson, E.D. and Dahlin, D.C. : *Chondrosarcoma of bone, A study of two hundred and eighty-eight cases. J.B.J.S.*, 45-A, No. 7, 1963.
- 8) Jacob, R.A., Campbell, W.P. and Niemann, K.M.W. : *Synovial chondrometaplasia. Clin. Orthop.*, 106 : 152-154, 1975.
- 9) Jaffe, H.L. : *Tumor and tumorous condition of the bone and joints. Philadelphia: Lea and Febiger*, 558-576, 1958.
- 10) Jeffrey, T.E. : *Synovial chondromatosis. J.B.J.S.*, 49-A, 530-534, 1967.
- 11) Jones, H.T. : *Loose body formation in synovial osteochondromatosis with special reference to the etiology and pathology. J.B.J.S.*, 407-458, 1924.
- 12) Kaiser, T.E., Ivins, J.C. and Unni, K.K. : *Malignant transformation of extra-articular synovial chondromatosis. Skeletal Radiology*, 5, 223-226, 1980.
- 13) Lichtenstein, L. : *Tumors of synovial joints, bursae and tendon sheaths, vol. 8*, 816-830, 1955.
- 14) McCarthy, E.F. and Dorfman, M. D. : *Primary synovial chondromatosis, an ultrastructural study. C.O.R.R.*, 168, 178-186, 1982.
- 15) McIlvor, R.R. and King, D. : *Osteochondromatosis of the hip joint, J.B.J.S.*, 44-A, 87-97, 1962.
- 16) Milgram, J.W. : *The classification of loose bodies in human joints. Clin. Orthop.*, 124, 282-291, 1977.
- 17) Milgram, J.W. : *Synovial osteochondromatosis. J.B.J.S.*, 59-A, 792-801, 1977.
- 18) Murphy, F.P., Dahlin, D.C. and Sullivan, C.R. : *Articular synovial chondromatosis. J.B.J.S.*, 44-A, 77-86, 1962.
- 19) Mussey, R.D., JR. and Henderson, M.S. : *Osteochondromatosis, J.B.J.S.*, 31-A, 619-627, 1949.
- 20) Nixon, J.E., Frank, G.R. and Chambers, G. : *Synovial osteochondromatosis : With report of four cases, one showing malignant change, U.S. Armed Forces Med. J.*, 11, 1434-1445, 1960.
- 21) Sim, F.H., Darlin, D.C. and Ivins, J.C. : *Extraarticular synovial chondromatosis. J.B.J.S.*, 59-A, 492-495, 1977.
- 22) Wilmoth, C.L. : *Osteochondromatosis. J.B. J.S.*, 23, 367-374, April, 1941.