대한방사선의학회지 1994 : 30(2) : 305~308

비후성 골관절증과 동반된 흉곽내 종양의 CT 소견[1]

황 희 성[2]·최 규 옥·정 진 일·오 세 정

목 적:비후성 골관절증(HOA)은 골막신생골 형성과 곤봉상 수지, 그리고 활막염을 특징으로 하는 질환으로, HOA의 가장 흔한 원인은 흉곽내 종양, 그 중에도 원발성 폐암이다. 그러나 HOA와 동반되는 흉곽내 종양의 CT소견은 거의 보고되어 있지 않아, 본 논문에서는 HOA와 같이 동반되는 흉곽내 종양의 CT 소견을 중심으로 그 특징적 양상을 분석해 보았다.

대상 및 방법:99mTc 골스캔이나 골촬영 소견에서 이차적 HOA의 특징적 소견을 보인 7명의 환자를 대상으로 하였으며, 이 환자들에서 흉곽내 종양의 CT 소견을 후향적으로 분석하였다.

결 과:HOA와 동반된 흉곽내 종양은 5예의 원발성 기관지암과 2예의 흉선암이었고, 그 크기는 6-13cm(평균 8.0cm)으로 컸으며, 모든 흉곽내 종양이 흉막과 연접해 있었고 그 연접한 길이는 5-18cm(평균 9.9cm)이었다. 모든 예에서 내부에 괴사소견을 보였고, 1예는 동공형성을 하였다.

결 론:이차적 HOA 소견을 보인 흉곽내 종양은 그 크기가 크고, 흉막에 넓게 근접해 있었으며, 종괴내 괴사를 갖는 경향이 있었다.

서 론

비후성 골관절증(Hypertrophic osteoarthropathy, HOA)은 골막 신생골 형성(periosteal new bone formation)과 곤봉상 수지(clubbing of the fingers), 그리고 관절의 활막염(synovitis of the joints)을 특징으로 하는 질환이다. HOA는 Bamberger(1)와 Marie(2)가 흉곽내 만성 염증성 질환인 농흉과 폐농양에서 동반된 예를 처음 기술하였으며, Thompson이 원발성 폐암에서 동반된 예를 보고하였고(3), 현재까지 여러 저자들에 의해 원발성 폐암이 HOA의 가장 흔한 원인으로 되어 있다(4-8). 어떤 경우엔 흉곽내 종양이 발견되기 전에 관절증상이 초기 증상으로 나타날 수 있어서 임상적으로 그 중요성이 강조되기도 한다(4). 그러나 HOA와 동반된 흉곽내 종양의 단순흉부촬영 소견은 보고된 바 있으나 CT 소견에 대한 연구는 저자가 아는 한 보고된 바 없다(4, 8, 9, 11).

이 논문에서는 HOA와 같이 동반되는 흉곽내 종양의 CT 소견을 중심으로 그 특징적 양상을 분석해 보고자 한다.

대상 및 방법

신촌세브란스병원에서는 흉곽내 악성종양 환자의 대부분에서 골전이를 발견하기 위하여 99mTc 골스캔을 시행하고 있으며, 이중 1988년부터 1991년까지 4년간에 걸쳐, 상하지와 쇄골등 관상골의 골간과 골간단에 피질을 따라 대칭적인 핵종의 섭취를 보인 환자 7명을 대상으로 하였다. 이중 4명에서는 단순 골촬영에서 HOA와 합당한 골막반응 소견을 확인하였다. 흉곽내 종양은 5예의 원발성 폐암환자와 2예의 흉선종 환자가 해당되었는데, 이중 한 환자는 3개월전부터 생긴 대퇴부 종양을 주소로 내원하여 행한 골촬영상 비정상적인 골막반응을 발견하였고 흉부사진에서도 흉곽내 종양이 발견되었다. 이 환자에서 대퇴부 종괴는 악성 섬유성 조직구종(Malignant fibrous histiocytoma), 흉부종괴는 편평 상피암(Squamous cell ca)으로 확진되었다. 그리고 한 소세포암 환자는 3개월전부터 관절통이 있어서 관절염으로 치료받다가 본 병원으로 의뢰되어 시행한 흉부사진에서 흉곽내 종양을 발견하였고 골스캔과 골촬영에서는 HOA의 소견을 보였다. 연령 분포는 50-75세(평균 62세)였고 남자 4명, 여자 3명이었다.

이 환자들에서 GE 9800 scanner를 사용하여 흉부 단층촬영을 하였고, 이때 나타난 흉곽내 종양의 크기, 내부 밀도와 함께 흉막에 접해있는지 여부와 접해있는 경우 그 길이를 재서 종양의 특징을 비교 분석하였다.

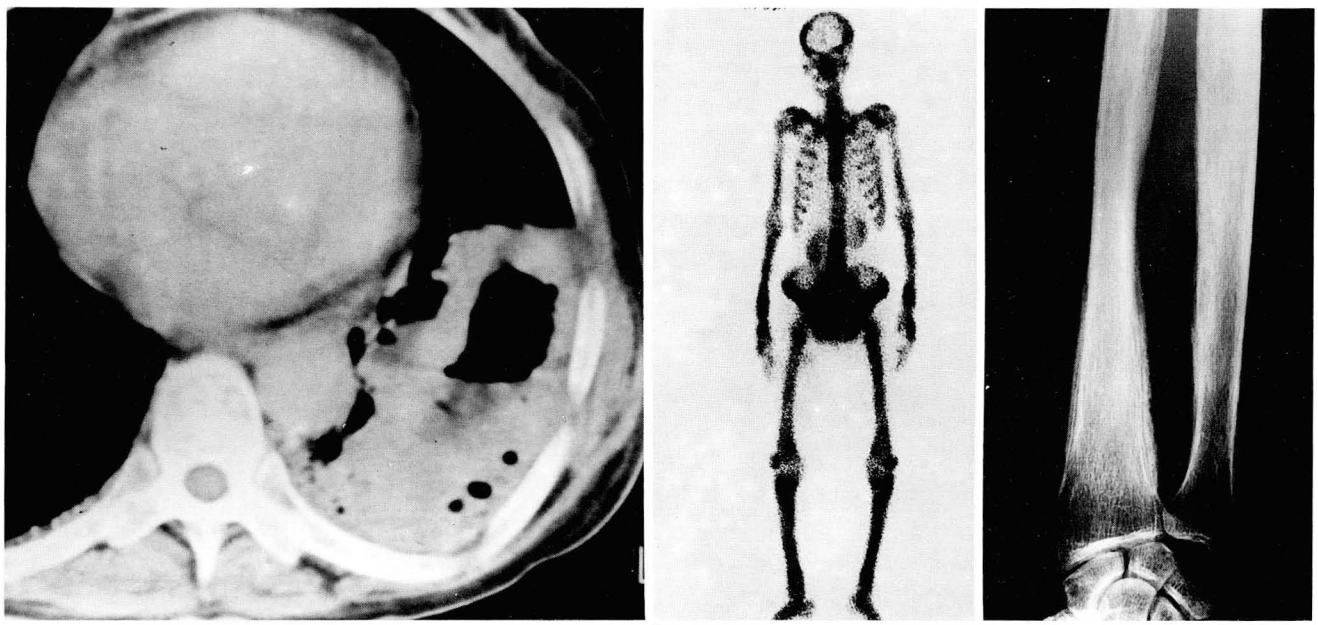
[1]연세대학교 의과대학 진단방사선과학교실
[2]옥포 대우병원 방사선과
이 논문은 1993년 1월 18일 접수하여 1993년 11월 6일에 채택되었음

결 과

비후성 골관절증을 동반했던 7예의 흉곽내 종양중에서 5예가 원발성 기관지암이었는데 이중 3예가 편평상피암이었고 나머지가 선암과 소세포암 1예씩이었다. 나머지 2예는 전종격동 종양으로 침윤성 흉선종과 흉선상피암 이었다. 임상적으로는 6명의 환자가 사지의 관절통과 부종을 호소하였고, 1명의 환자는 대퇴부 종양을 동반하고 있었다. 이 환자의 대퇴부 종양은 악성 섬유성 조직구종이었고 HOA와 합당한 증상이 없었다. 1예의 소세포암 환자에서 3개월전부터 있어온 하지의 관절통과 손과 발의 부종을 주소로 내원하여 흉곽내 종양을 발견할 수 있었다.

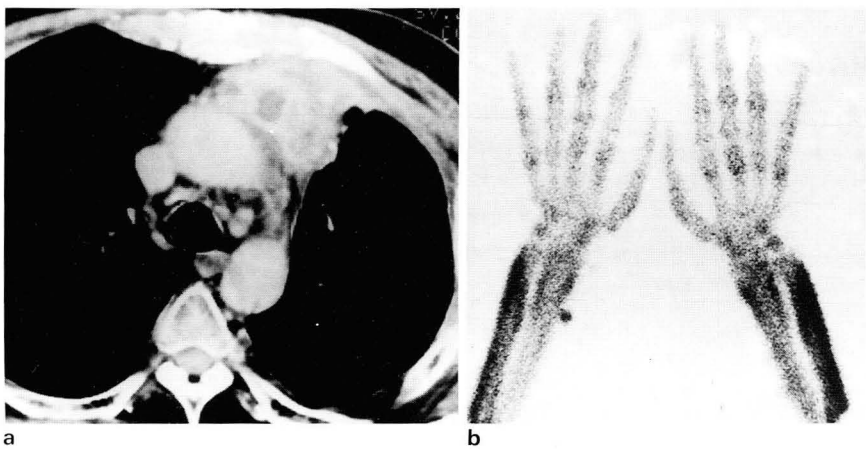
골스캔 소견에서는 장관골에 대칭적이고 광범위하게 골간과 골간단의 피질변연을 따라 핵종 섭취가 증가되었고, 단순골촬영에서 골막반응이 보였던 부위는 요척골(n=6), 경비골(n=5), 대퇴골(n=3), 쇄골(n=1)의 순이었다.

CT 소견으로 흉곽내 종양의 크기는 6-13cm(평균 8.0cm, SD=2.6)으로 그 크기가 큰 경향을 보였다. 7예 모두가 늑막에 연접해 있었고 흉선상피암의 예에서는 흉곽의 침습도 관찰되었다. 늑막에 연접한 부위의 길이는 5-18cm으로 평균 9.9cm 이었다(SD=4.67)(Table 1). 또한 모든 예가 CT상 저음영의 종괴내 괴사를 보였고, 1예에서는 동공형성도 동반되어 있었다(Fig. 1, 2).



a b c

Fig. 1. 67-year-old female patient with lung ca(squamous cell ca) and malignant fibrous histiocytoma.
a. Chest CT scan shows a large parenchymal mass abutting chst wall, measuring about 9cm in diameter, and containing central necrosis and cavity.
b. Bone scan shows symmetric, linear increased uptake on all extremities.
c. Plain radiograph shows thick linear periosteal osseous deposit, separated from underlying bone.



a b

Fig. 2. 50-year-old male patient with thymic carcinoma(squamous cell ca).
a. Chest CT scan shows anterior mediastinal mass containing central necrosis and invading anterior chest wall.
b. Bone scan shows double stripe sign on upper extremites.

Table 1. CT Features of Neoplasm Associated with HOA

Histology	size[@] (cm)	Pleural contact (cm)
Lung CA		
Squamous cell ca	9	9
Squamous cell ca	6	6*
Sequamous cell ca	9	14
Adenoca	6	5
Small cell ca	7	10
Thymic tumor		
Invasive thymoma	13	18
Thymic ca	6	7

[@] The tumor size indicated the diameter in long axis.
*In this case, the tumor abuted the mediastinal pleura only.

고 찰

비후성 골관절증은 크게 특발성 HOA와 이차적 HOA로 나눌 수 있다. 특발성 HOA는 남자에 주로 나타나고 경피증과 같은 피부 변화가 특징이며, 이차적 HOA는 다른 질환과 동반된 것으로 주로는 폐 병변내지 흉막 병변에서 동반된다. 이차적 HOA는 원발성 기관지암이 가장 주된 원인 질환으로 되어있고 그 외 흉막종양이나 다른 흉곽 외 종양의 폐 전이시에도 나타난다(6). 또한 원발성 기관지암의 0.7-12%에서 HOA를 동반한다고 한다(9,10). HOA는 골스캔 소견상 장관골의 피질 변연을 따라 골간과 골간단에 대칭적이며 미만성의 핵종섭취를 보이는 "double stripe" 또는 "parallel track" 징후를 보인다. 이것은 골전이 시에 핵종 섭취의 위치가 축골격과 골수에 나타나고 비대칭적이며 국소적인 것과는 구별이 된다. HOA는 골촬영 소견상 사지 장관골의 골간 부위에 대칭적으로 생기는 여러층의 신생골의 골막반응(양파껍질 모양)이나 피질골과 분리되는 틈을 가진 비후된 선상 골 침착으로 나타나게 된다. 이때의 골막반응은 골간에서 골간단까지 침범할 수 있으나 골단침범은 없다. 골촬영 소견상 감별해야할 질환으로 경피골외막증(Pachydermoperiostosis), 갑상선 선단부 질환(Thyroid acropathy), 만성 정맥저류(Chronic venous stasis), 과비타민 A증(Hypervitaminosis A) 이 있는데 이것은 호발부위와 침범정도, 그리고 임상증상을 고려하여 제외시킬 수 있다(11).

HOA의 정확한 발생기전은 아직 정립되어 있지 않으나 여러가지 설이 분분한데, HOA의 조직학적 소견이 골막에 혈관 분포가 풍부하고 비염증성 삼출액을 동반하며 피질골 바깥쪽으로 신생골 형성이 있는 것으로 보아, 흉곽내 종양과 골막의 증가된 혈관분포와의 사이에 어떤 중개되는 기전이 있을 것으로 생각되며, 이 때 신경학적 기전으로 설명하는 것이 가장 유력시 되고있다. HOA는 원발성 폐종양, 전이성암, 종격동 종양, 동맥류, 흉막섬유종, 횡격막의 신경성종양과 동반될 수 있으며(12-15), 이들 흉곽내 종양은 주로 폐의 변연부나 종격동에 위치하며, 크기가 크고, 내부에 괴사를 가지며 흉막에 넓게 접해있는 양상을 보인다. 이러한 경향에서 미루어 볼 때 종양에 의한 흉막이나 흉막하의 미주신경의 자극과 관계되는 기전이 가장 유력하다(10, 16). 즉 흉막이나 흉막하에서 기원하는 미주신경이 구심경로를 맡고 있는 것으로 보는 것인데, 이는 폐동맥 결찰이나 미주신경 절단 후 골막반응이 호전되는 것으로서 증명할 수 있다(15-18). 이 구심성 미주신경은 연수에서 시냅스를 이룬다고 생각되나 그 중추경로는 알려져 있지 않다(16). 원심성 경로는 불확실하지만 호르몬의 일종인 신경 펩타이드가 담당한다는 설이 받아들여지고 있다(16). 흉곽내 종양이 내부에 괴사나 공동 형성을 하는 것은 종양의 크기가 커짐에 따라 혈류 공급이 중단되기 때문으로 생각된다.

HOA에서 관절증상이 30-40%에서 나타나는데 관절증상이 먼저 나타나는 경우 흉부질환을 의심할 만한 증상이 동반되지 않았을 때 관절염으로만 진단을 내려 초기에 흉부질환의 발견, 특히 폐암의 진단이 늦어지는 경우가 보고되고 있다. Berg는 흉부종양을 발견하기 2주에서 2년전에 관절증상이 먼저 나타난 20예를 보고하였다(5). 따라서 관절염이 의심되어 행한 동위원소 검사나 골촬영 소견상 골막반응이 HOA에서 보는 것과 같은 양상로 나타나면 반드시 흉부질환을 조사해 보는 것이 필요하다. 저자들의 경우에도 1예의 소세포암 환자에서 관절증상이 흉곽내 종양이 발견되기 3개월전부터 있어서 관절염으로만 치료하였다가 본원에 의뢰되어 행한 흉부 촬영에서 흉곽내 종양을 발견한 사례가 포함되었다.

본 보고에서 HOA와 동반되는 흉곽내 종양 7예중 5예가 원발성 기관지암이었고, 그 중 3예가 편평상피암, 나머지가 선암과 소세포암 각 1예였는데, 이는 Yacoub 등의 보고에서 편평상피암이 가장 많았던 것과 일치가 된다(7). 7예 중 나머지 2예가 종격동 종양인 흉선종이었으며, 흉선종과 동반되었던 HOA가 보고된 바 있다(12, 20).

결론적으로 이차적 HOA의 소견을 보인 흉곽내 종양은 원발성 기관지암 5예와 흉선종 2예였고, 이 종양들은 그 크기가 크고 흉막에 넓게 근접해 있는 공통점이 있어 흉막하 미주신경 자극에 의한 HOA 생성기전을 뒷받침해 주고, 이 종양들의 종괴내 괴사를 갖는 경향은 종괴의 크기에 기인하는 부차적 소견으로 추측된다.

참 고 문 헌

1. Bamberger E. Uber Knochenveranderungen bei Chronischen Lungen- und Herzkrankheiten. *Ztsch f Klin Med* **1891**; 18:193-217
2. Marie P. De l'osteo-arthropathie hypertrophiente pheunonique. *Rev Med* **1890**; 10:1-36
3. Tompson HES. Hypertrophic pulmonary osteoarthropathy. *Medico-chirurgical Transactions* **1904**; 87:85
4. Yacoub MH, Simon G, Ohnsorge J. Hypertrophic pulmonary osteoarthropathy in association with pulmonary metastases from extrathoracic tumors. *Thorax* **1967**; 22:226-231

5. Berg RJ. Arthralgia as a first symptom of pulmonary lesions. *Dis of Chest* **1949** ; 16 : 483-487
6. Coury C. Hippocratic fingers and hypertrophic osteoarthropathy : study of 350 cases. *Br J Dis Chest* **1960** ; 54 : 202-209
7. Yacoub MH. Relation between the histology of bronchial carcinoma and hypertrophic osteoarthropathy. *Thorax* **1965** ; 20 : 537-541
8. Semple T, McCluskie RA. Generalized hypertrophic osteoarthropathy in association with bronchial carcinoma. A review, based on 24 cases. *Br Med J* **1955** ; 1 : 754-759
9. Firooznia H, Seliger G, Genieser NB, Barasch E. Hypertrophic pulmonary osteoarthropaty in pulmonary metastases. *Radiology* **1975** ; 115 : 269-274
10. Bhate DV, Chandrasekhar H, Greenfield GB, Vadantham KS, Lo MC. Case report 126. *Skeletal Radiol* **1980** ; 5 : 258-262
11. Resnick D, Niwayama G. *Enostosis, hyperostosis and periostitis.* In : Resnick D, Niwayama G, eds. *Diagnosis of bone and joint disorders.* 2nd ed. Philadelphia : Saunders, **1988** ; 4104-4115
12. Lesser M, Mouli CC, Jothikumar T. Hypertrophic osteoarthropathy associated with a malignant thymoma. *Mt Sinai J Med(NY)* **1980** ; 47-51
13 Ray ES, Fisher HPJ. Hypertrophic osteoarthropathy in pulmonary malignancies. *Ann Intern Med* **1953** ; 38 : 239-246
14. Shapiro M. Hypertrophic osteoarthropathy. *Arch Intern Med* **1956** ; 98 : 700-711
15. Wierman WH, Clagett OT, McDonald JR. Articular manifestations in pulmonary diseases : an analysis of their occurrence in 1024 cases in which pulmonary resection was performed. *JAMA* **1954** ; 155 : 1459-1463
16. Shneerson JM. Digital clubbing and hypertrophic osteoarthropathy : the underlying mechanisms. *Br J Dis Chest* **1981** ; 75 : 113-131
17. Diner WC. Hypertrophic osteoarthropathy : Relief of symptoms by vagotomy in a patient with pulmonary metastases from a lympho-epithelioma of the nasopharynx. *JAMA* **1962** ; 181 : 555-557
18. Holling HE, Brodey RS, Boland HC. Pulmonary hypertrophic osteoarthropathy. *Lancet* **1961** ; 2 : 1269-1274
19. Rex MAE. Effect of surgical intervention in case of chronic pulmonary osteoarthropathy in dog. *Vet Record* **1959** ; 71 : 409-411
20. Miller ER. Carcinoma of the thymus with marked pulmonary osteoarthropathy. *Radiology* **1939** ; 32 : 651-660

Journal of the Korean Radiological Society, 1994 ; 30(2) : 305~308

CT Findings of Intrathoricic Neoplasm Associated with Hypertrophic Osteoarthropathy

Hee Sung Hwang, M.D.[1] Kyu Ok Choe, M.D., Jin Ill Chung, M.D., Sei Chung Oh, M.D.

Department of Diagnostic Radiology, Severance Hospital, College of Medicine, Yonsei University
[1]Department of Diagnostic Radiology, Okpo Daewoo Hospital

Purpose : Hypertrophic osteoarthropathy(HOA) is a clinical syndrome consisting of clubbing, periostitis and synovitis. Most frequent causes of hypertrophic osteoarthropathy are intrathoracic neoplasms, among which the bronchogenic carcinoma ranks the highest. But computed tomographic evaluation of intrathoracic neoplasm associated with HOA has been seldom reported. The purpose of this study is to evaluate CT findings of intrathoracic neoplasm associated with HOA, and to infer possible mechanism.

Meterials and Methods : Seven cases of intrathoracic neoplasm associated with HOA were included in our study. Diagnoses of HOA were made by Tc99m bone scintigraphy or plain radiography. The findings of chest CT scans were reviewed retrospectively, with main interests on their size, location and internal characteristics, ect.

Results : Seven cases of intrathoracic neoplasm consisted of five bronchogenic carcinomas and two thymic tumors. The size of intrathoracic tumors were relatively large ranging from 6cm to 13cm(average 8.0cm). All thoracic neoplasms showed wide pleural contact, and one of them invaded thoracic wall. The range of length of pleural contact was 5—18cm(average 9.9cm). All of seven patients had internal necrosis, and one of them showed cavitation in thoracic mass.

Conclusion : Intrathoracic neoplasms associated with HOA had a tendency to be large, to contain internal necrosis, and to widely abut the thoracic pleura.

Index Words : Lung neoplasm
Osteoarthropathy, hypertrophic

Address reprint requests to : Hee Sung Hwang, M.D., Department of Diagnostic Radiology, Severance Hospital
134, Shinchon-dong, Seodaemun-ku, Seoul, 120-752 Korea. Tel. (02) 361—5837