

전족부 거대신경초종: 증례 보고

서은석, 이주한, 전숙하

국립중앙의료원 정형외과

Large Forefoot Schwannoma: A Case Report

Eun-Seok Seo, Joo-Han Lee, Suk-Ha Jeon

Department of Orthopaedic Surgery, National Medical Center, Seoul, Korea

A schwannoma is a benign neurogenic tumor derived from Schwann cells. A rare case of a large painful schwannoma in the foot with metatarsal deformity was presented. Due to suspicion of malignancy, amputation had been recommended previously. We report on a rare case of a large forefoot schwannoma causing pain and paresthesia of the forefoot.

Key Words: Forefoot, Schwannoma, Mass excision

신경초종(schwannoma)은 신경을 둘러싸는 관상의 구조인 신경초 세포(Schwann cell)에서 발생하는 말초신경종양으로, 신경에 붙어있으나 비교적 주변 조직과의 경계가 분명하고 피막에 잘 싸여져 있어 수술적으로 제거가 잘되는 종양이다. 통상 무통성의 종괴로 발견되는 경우가 많고 진단에서 증상이 발현되는 시간이 5.5년이라는 보고도 있다.¹⁾ 그러나 저자들은 알려진 바와 달리 비교적 드문 전족부의 거대 신경초종이 심한 전족부 동통과 감각저하, 중족골의 변형을 일으킨 증례를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다. 본 증례 보고와 관련해 환자의 동의를 얻었으며, 본원 윤리위원회의 심의를 통과하였다.

심해졌다고 호소하였다. 내원 당시에 본원에서 촬영한 단순방사선 사진상 제 2중족골과 제 3중족골 간부에 외측 각형성(lateral angulation) 및 경화(sclerosis)가 관찰되었다(Fig. 1). 자기공명영상(magnetic resonance imaging)에서는 제 1물갈퀴 공간을 중심으로 제 1중족골에서 제 3중족골 하방에 걸쳐 족저부와 족배부에 다분엽화된(multilobulated) 거대 종괴를 확인하였으며, T2 강조영

증례 보고

55세 여자 환자가 우측 전족부의 통증과 족저부 감각저하를 동반한 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 약 2년 전부터 종괴의 크기가 커지는 것을 느꼈으며 최근 들어 보행 시 전족부의 통증이



Figure 1. Anteroposterior radiograph shows lateral angulation and sclerosis of second, third metatarsal shaft.

Received October 6, 2014 Revised October 31, 2014 Accepted October 31, 2014

Corresponding Author: Suk-Ha Jeon

Department of Orthopaedic Surgery, National Medical Center, 245 Eulji-ro, Jung-gu, Seoul 100-799, Korea

Tel: 82-2-2260-7198, Fax: 82-2-2260-7192, E-mail: mdjsh@nate.com

Financial support: None.

Conflict of interest: None.

Copyright ©2014 Korean Foot and Ankle Society. All rights reserved.

© This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

상에서 저신호 강도와 고신호 강도가 함께 관찰되는 비교적 경계가 분명한 종괴가 관찰되었다(Fig. 2). 자기공명영상 소견이 T2 강조영상에서 고신호 강도를 보이는 전형적인 신경초종의 예와 다르고 또한 단순 방사선 사진상 제 2, 3중족골에 외측 각형성(lateral angulation) 및 경화(sclerosis)가 있음을 염두에 두고 활액막육종(synovial sarcoma), 거대세포종(giant cell tumor), 섬유종(fibromatosis) 등과의 감별이 필요하여 조직 생검을 시행하였으며, 신경초종이라는 결과를 얻고 종양의 전절제술을 시행하였다.

종양의 모양이 제 1물갈퀴 공간을 중심으로 덩벨(dumbell) 모양으로 족저부와 족배부에 걸쳐있는 형태를 고려해 족배부와 족저



Figure 2. The axial T2-weighted magnetic resonance image shows a heterogenous cystic mass with low to hyperdense signal intensity, with dorsal and plantar extension.

부 양측으로 접근하였으며, 중족골의 절골 등은 고려하지 않았다. 우선 제 1물갈퀴 공간을 따라 약 6 cm의 종절개를 가하고 종괴의 변연을 따라 주변 조직과 박리하였다. 족저부 역시 제 1물갈퀴 공간 제 2중족골의 내측연을 따라 약 7 cm 종절개 후 종괴의 변연을 따라 주변 조직과 박리하였으며 매끈하고 윤기나는 낭종성 병변(glistering cystic mass)이 관찰되었다. 병변의 족배부와 족저부에서 신경으로 짐작되는 구조물이 관찰되었으나 매우 얇아져 있었고, 종괴의 크기가 너무 커 정상적인 위치를 벗어나 있어 종괴를 제거하기 전까지 정확한 해부학적 위치를 파악하기 힘들었다. 육안으로 보이는 종괴를 최대한 박리 후 종괴를 족배부에서 족저부 쪽으로 밀어 족저부 절개 위치로 제거하였으며, 완전한 적출이 이루어졌는지 확인하고 종괴 주변부에 박리된 구조물들을 확인하였다. 내측 족저신경(medial plantar nerve)에서 제 1물갈퀴 공간으로 가는 신경(common proper digital nerve)이 다소 늘어나고 얇아진 것을 관찰하였고, 심비골신경(deep peroneal nerve) 역시 종양의 족배부에서 관찰되었다(Fig. 3). 제거된 종괴는 병리학적으로 경계가 분명한 고형성 종괴였으며, 얇은 피막에 싸여 있었고, 크기는 6.5×5.5×3.5 cm였다. 절단면상 연노랑색을 띠고 있었으며 점액성 변화가 관찰되었고, 종괴 내부에 출혈이나 괴사는 없었다(Fig. 4). 현미경 소견상 비정형성 핵(atypical nucleus)이나 다형성의 핵(polymorphic nucleus)을 가진 세포는 없었으며 방추상의 세포핵들이 울타리처럼 뻗곡히 배열되어있는 형태(palisading)의 Antoni A 지역과 세포밀도가 낮은 Antoni B 지역이 교대로 나타나는 형태였다. 또한 신경초종에 가장 특이적인(specificity) 면역조직화학염색 검사인 S-100 단백 염색에서 양성으로 나타나 신경초종으로 확

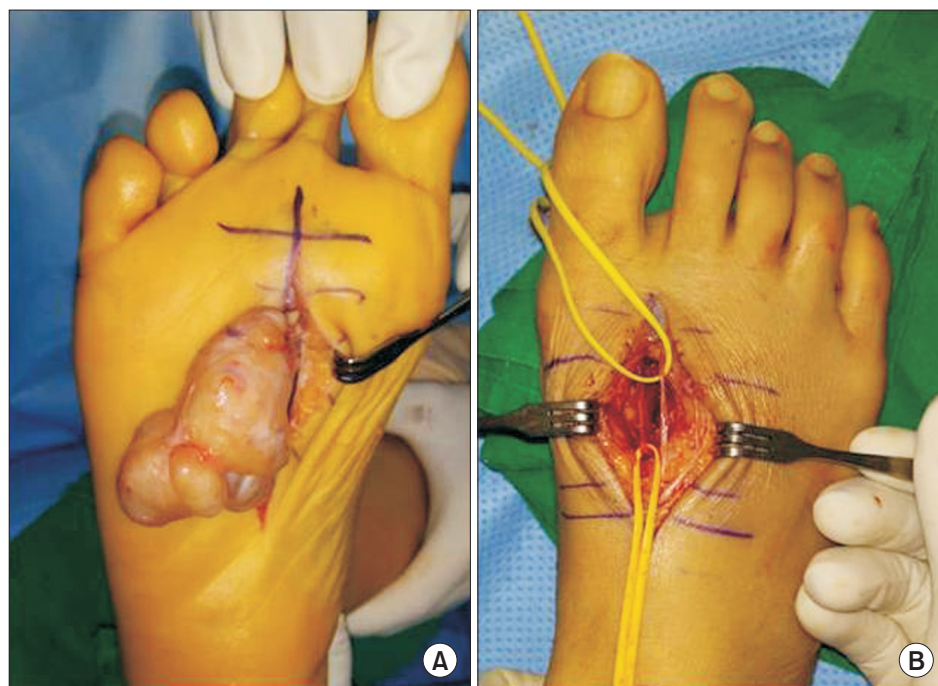


Figure 3. (A) An excised mass was removed through a plantar incision. (B) A clinical photograph after mass excision shows both a deep peroneal nerve and a common proper digital nerve derived from the medial plantar nerve.



Figure 4. (A) Gross photograph shows a well circumscribed and encapsulated mass. (B) The cross section of mass appears diffusely myxoid and grayish yellow cut surfaces without hemorrhage or necrosis.

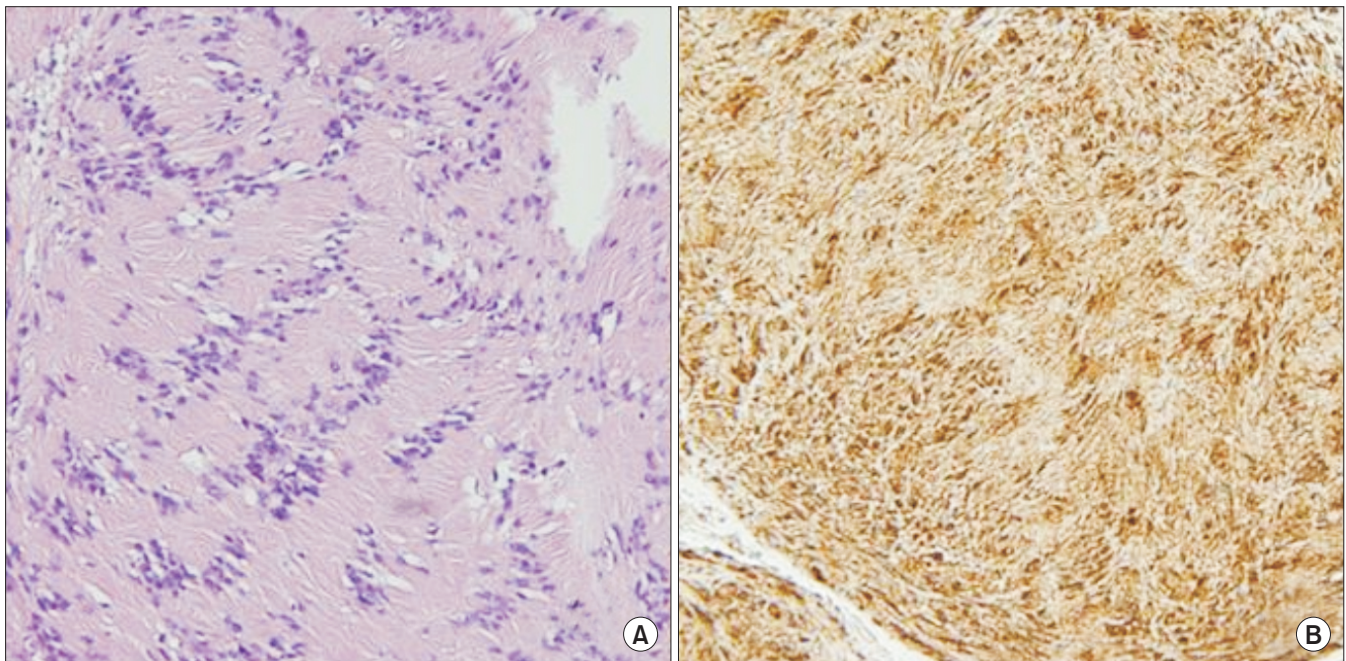


Figure 5. (A) Histological features show a characteristic biphasic pattern of Antoni A and Antoni B of neurogenic spindle cell proliferation (H&E stain, $\times 100$). (B) Immunostaining for the S-100 protein was strong and diffuse confirming the diagnosis of schwannoma ($\times 100$).

진하였다(Fig. 5).²⁾

수술 직후부터 환자의 전족부 동통과 감각저하는 상당 부분 호전되었다. 수술 후 6개월 추시상 통증은 사라졌고, 전족부에 미미한 감각저하만 남아있는 상태로 보행이나 일상생활에 불편함은 없었으며 단순 방사선 검사상 각변형과 경화를 보였던 제 2, 3중족골

간부는 재형성(remodeling) 과정이 진행 중임을 확인하였다(Fig. 6). 또한 수술 후 1년째 전화 추시상 환자는 이전 추시에 남아있던 전족부의 감각저하도 다소 호전되었으며 다른 불편감을 호소하지 않았다.



Figure 6. Anteroposterior radiograph shows a remodeling of second, third metatarsal shaft six month later.

고 찰

신경초종은 비교적 흔한 말초신경의 양성종양이다. 남녀 간의 발생 비율은 차이가 없고 평균 40~60세에 호발하며 대부분 종양의 크기가 5 cm 미만이라고 알려져 있다.³⁾ 또한 천골신경이나 좌골신경과 같은 굵은 말초신경에 호발하고 사지에서는 주로 굴곡근 쪽에 발생하며 하지보다는 상지에 호발하는 것으로 알려져 있다.⁴⁾ Das Gupta 등⁵⁾은 종양의 기원을 알 수 있는 경우는 소수에 그치며 족부에서 발생하는 경우는 없다고 하였고, Odom 등⁶⁾은 족부에서 발생하는 신경초종은 전체의 2.93% 정도에 불과하다고 보고하였다. 그러나 본 증례는 족저부 신경에서 유래한 것으로 추측되는 전 족부의 거대 신경초종으로 2년 정도의 비교적 짧은 시간에 커지는 양상을 보였으며 심한 전족부 동통과 중족골의 변형을 일으켰다. 또한 전형적인 신경초종의 경우 자기공명영상의 T1 강조영상에서 저신호 강도를 보이고 T2 강조영상에서 고신호 강도를 보이나⁷⁾ 본 증례의 경우 T2 강조영상에서 저신호 강도와 고신호 강도가 혼재되어 나타났으며 'target pattern'도 관찰되지 않았다.

신경초종의 진단은 자기공명영상 소견 외에 조직학적으로 확진하게 되는데, 본 증례에서와 마찬가지로 방추형의 종양세포들이 높은 세포밀도로 관찰되는 Antoni A 지역과 세포밀도가 낮으며 점액성이나 여러 다른 변성 소견을 동반하기도 하는 Antoni B 지역으로 구성된다. 또 Antoni A 지역에서는 특징적으로 종양세포의 핵들이 울타리 모양으로 배열되거나 일렬로 Verocay체를 형성하기도 한다.^{4,8)} 연부조직 종양에서 S-100 단백 염색의 가치에 대해서 신경초종이 가장 강력하게 염색된다고 보고된 바 있고,²⁾ 본 증례의 경우에서도 S-100 단백 염색을 시행하여 양성 소견을 확인할 수 있었다.

신경초종의 치료는 다른 연부조직 양성종양의 경우와 마찬가지로

로 외과적으로 완전하게 절제하는 것이며 재발은 드문 것으로 알려져 있다.^{4,8)}

Flores Santos 등⁹⁾은 어느 신경에서 유래한지는 알 수 없으나 입방골(cuboid)을 침범한 거대신경초종을 종양 전절제술과 소파술, 자가골 이식으로 완치했다고 보고한 바 있고, Mangrulkar 등³⁾ 역시 후경골신경(posterior tibial nerve)에서 기원해 족관(tarsal tunnel)부터 전족부(forefoot)에 이르는 거대 신경초종을 치료한 바 있다고 보고하였다.

본 증례의 경우 족저부 감각저하 및 체중부하 시의 동통은 신경초종의 크기가 커지면서 주변 조직을 압박하여 나타난 증상으로 생각된다. 수술장 소견상 종괴 제거 후 내측 족저신경에서 제 1물갈퀴 공간으로 가는 신경이 다소 늘어나고 얇아진 것을 관찰하였고, 심비골신경 역시 종양의 족배부에서 관찰되어 종양의 기원을 명확히 결정하기 어려운 경우였다. 그러나 족저부에 감각저하를 호소했던 점, 자기공명영상에서 제 1물갈퀴 공간을 중심으로 족저부의 종양의 크기가 훨씬 크고 방사선 사진상 제 2, 3중족골 간부의 외측 각변형과 경화, 제 1, 2중족골 사이와 족배부까지 종양이 연속되어 있는 점 등을 고려할 때 종양은 족저부에서 발생한 것으로 생각해 볼 수 있다. 족저부에서 기원한 신경초종이 지속적인 체중부하를 받고 있는 상태에서 조직학적으로 비교적 치밀하고 두꺼운 족저부보다 비교적 얇고 저항성이 적은 족배부 쪽으로 성장하여 제 1물갈퀴 공간을 통해 족배부로까지 커졌으며, 이 과정에서 제 2중족골과 제 3중족골에 물리적인 압박이 가해지면서 외측 각형성을 일으키고 이것이 또한 체중부하 시 통증의 원인이 되었을 것으로 추측된다.

신경초종은 드물지만 족부에서도 발생하며 그 크기가 커지는 경우 여러 가지 증상들을 일으킬 수 있다. 특히 본 증례에서처럼 거대신경초종의 경우 전형적인 자기공명영상 소견이 보이지 않을 수 있으며 종양 자체의 압박력으로 감각저하나 심한 동통 및 골 변형을 초래할 수 있어 감별진단이 중요할 것으로 판단된다.

REFERENCES

1. Enzinger FM, Weiss SW. Benign tumors of peripheral nerves. In: Enzinger FM, Weiss SW, editors. *Enzinger and Weiss's soft tissue tumors*. 5th ed. St Louis: Mosby; 2008. p.853-69.
2. Weiss SW, Langloss JM, Enzinger FM. Value of S-100 protein in the diagnosis of soft tissue tumors with particular reference to benign and malignant Schwann cell tumors. *Lab Invest*. 1983;49:299-308.
3. Mangrulkar VH, Brunetti VA, Gould ES, Howell N. Unusually large pedal schwannoma. *J Foot Ankle Surg*. 2007;46:398-402.
4. Pyun YS, Kim SR, Joh YR. Surgical treatment of the neurilemoma in extremities. *J Korean Bone Joint Tumor Soc*. 1998;4:88-93.
5. Das Gupta TK, Brasfield RD, Strong EW, Hajdu SI. Benign solitary Schwannomas (neurilemmomas). *Cancer*. 1969;24:355-66.
6. Odom RD, Overbeek TD, Murdoch DP, Hosch JC. Neurilemoma

- of the medial plantar nerve: a case report and literature review. *J Foot Ankle Surg.* 2001;40:105-9.
7. **Rettenbacher T, Sögner P, Springer P, Fiegl M, Hussl H, zur Nedden D.** Schwannoma of the brachial plexus: cross-sectional imaging diagnosis using CT, sonography, and MR imaging. *Eur Radiol.* 2003;13:1872-5.
 8. **Lee SH, Jung HG, Lee HK.** Neurilemoma of trunk and extremities. *J Korean Orthop Assoc.* 1996;31:556-63.
 9. **Flores Santos F, Pinheiro M, Felicissimo P.** Large foot schwannoma with bone invasion: a case report. *Foot Ankle Surg.* 2014;20:e23-6.