

후경골 신경에서 기인한 신경초종의 재발로 발생한 족근관 증후군

김재영, 이혜경*, 조재호

인제대학교 의과대학 서울백병원 정형외과학교실, *병리학교실

Tarsal Tunnel Syndrome Secondary to Recurred Schwannoma Arising from the Posterior Tibial Nerve

Jae Young Kim, Hye Kyung Lee*, Jaeho Cho

Departments of Orthopedic Surgery and *Pathology, Seoul Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Seoul, Korea

Tarsal tunnel syndrome is defined as a compressive neuropathy of the posterior tibial nerve in the tarsal canal. Schwannoma is a benign tumor that arises from the peripheral nerve sheath. It presents as a discrete, often tender, and palpable nodule associated with neurogenic pain or paresthesia when compressed or traumatized. The growth rate is usually slow, and these lesions seldom exceed 2 cm in diameter. In addition, local recurrence occurs less than 5%. We report on a case of tarsal tunnel syndrome caused by a large recurred space-occupying lesion measuring 4.3×2.7×2.7 cm³.

Key Words: Tarsal tunnel syndrome, Schwannoma, Neurilemmoma, Recurrence

족근관 증후군은 족장 터널 내의 후경골 신경의 말초 신경이 압박받아 발생하는 말초 신경 압박 증후군의 일종이며 후경골 신경에서 기인한 신경초종에 의한 족근관 증후군은 국내외에서 드물게 보고되어 왔다.¹⁻⁴⁾ 신경초종은 그 성장 속도가 매우 느려서 지름 2 cm 이상 크기를 갖기가 어렵고,⁵⁾ 수술적으로 완전한 제거 시 재발률은 5% 미만으로 아주 낮다고 보고되고 있다.⁶⁾ 이에 본 저자들은 후경골 신경에서 기인한 신경초종이 다소 크기가 거대하게 재발되어 족근관 증후군을 유발한 증례를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례 보고

45세 여자 환자로 좌측 족부 내측에 통증을 동반한 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 3년 전 본원에 내원하여 동일 부위에 종괴

Received January 6, 2014 Revised January 14, 2014 Accepted January 27, 2014

Corresponding Author: Jaeho Cho

Department of Orthopedic Surgery, Seoul Paik Hospital, Inje University College of Medicine, 9 Mareunnae-ro, Jung-gu, Seoul 100-032, Korea
Tel: 82-2-2270-0042, Fax: 82-2-2270-0023, E-mail: hohotoy@nate.com

Financial support: None.

Conflict of interest: None.

가 만져져 초음파(Fig. 1)를 시행한 뒤 타국의 타 병원에서 수술을 시행한 병력이 있었다. 환자는 당시 집도의에게 수술로 완전히 절제하지 못했다는 이야기를 들었다고 하였다. 또한, 환자는 그 당시 절제한 종괴의 조직 검사는 하지 않았다고 진술하였다. 환자는 본원에 내원하기 6개월 전부터 종괴의 크기가 커지는 것을 인지하였으며, 종괴 자체의 통증 및 압통이 심해지고 족관절 내과의 하방, 족근관 위치의 통증 및 그 원위부의 통증과 발바닥의 경미한 감각둔화를 호소하였지만 죽지의 굴근 마비나 약화는 없었다. 이학적 검사상 Tinel 검사 양성이었고 내측 죽저 신경 분지를 따라 이상 감각이 확인되었다. 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 검사상 장무지 굴건근의 후외측에 위치한 다분엽화된(multilobulated) 종괴가 T2 강조 영상에서 고신호 강도로 관찰되었다 (Fig. 2). 이러한 영상 소견은 말초 신경집 종양(peripheral nerve sheath tumor)의 전형적인 소견이 아니라서 육종, 활막 육종 혹은 거대 세포 종양 등 양성 및 악성 원인 질환에 대한 감별 진단이 필요하였다. 하지만 종괴의 크기가 거대하고, 종괴로 인한 명확한 통증 및 압통으로 인하여 바로 수술적 치료를 결정하였다. 수술 시 피부 절개를 하고 종괴의 변연을 따라 주변 조직을 박리하면서 종괴를 절제하였고 수술 소견상 장무지굴건근과 장족지굴건근에 접



Figure 1. The sagittal (A) and coronal (B) sonogram shows an oval shaped well-defined hypoechoic mass with inhomogeneous echo texture. (C) Color-coded Doppler scan shows flow signals in the mass.



Figure 2. Sagittal T2-weighted magnetic resonance imaging image with high signal intensity on the total mass without target sign.



Figure 3. Intraoperative finding of mass arising from posterior tibial nerve.

해있는 윤기 있는(glistening) 낭종성 병변이 후경골 신경에 그 뿌리가 연결되어 있었다(Fig. 3). 주행하는 후경골 신경 손상에 주의하며 종괴를 조심스럽게 절제하였으며 절제 후 완전한 적출이 이루어졌는지에 대한 세심한 확인을 재차 시행하였다. 종괴의 크기

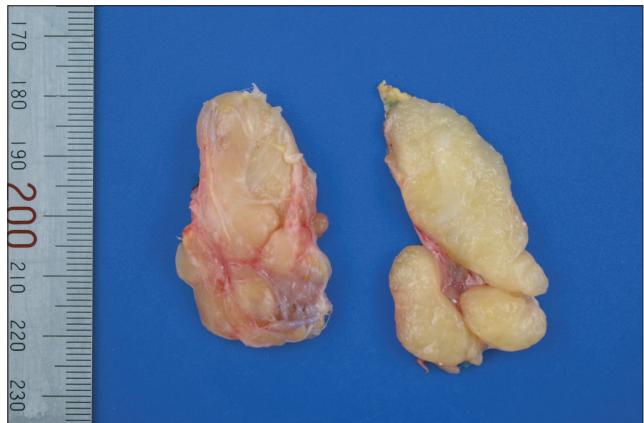


Figure 4. A well circumscribed, encapsulated, multilobulated, solid mass revealed diffusely myxoid and homogenously grayish yellow cut surfaces.

는 $4.3 \times 2.7 \times 2.7 \text{ cm}^3$ 로 측정되었다(Fig. 4). 병리학적으로 경계가 분명하며 얇은 피막에 싸여 있었고 미만성으로 황색조를 띠는 점액성의 고형성 종괴였으며 괴사나 출혈을 동반하지 않았다. 현미경적으로 끝이 뾰족하고 굽은 핵을 가진 방추형의 종양세포로 구성되어 있었으며 핵의 비정형성이나 다형성은 일부에서만 경도로 동반되어 있었으나 유시분열상은 거의 관찰할 수 없었다. 종양세포의 핵은 울타리모양으로 정렬하여(palisading) 세포밀도가 높은 Antoni A 부분과 세포밀도가 극히 낮은 Antoni B 부분이 서로 교대하는 양상으로 배열하고 있었다. 면역조직화학적 염색상 방추형 종양세포는 S-100 단백에 미만성으로 반응함으로써 신경초종으로 확진할 수 있었다(Fig. 5). 환자는 수술 후 2주간 단하지 부목 고정을 시행하였고 이후 봉합사 제거 후 일상생활을 하도록 허용하였다. 환자는 수술 직후부터 종괴에 의한 통증 및 압통은 바로 호전을 보였으며 수술 후 6개월 추시 관찰 결과 동통 및 이상 감각은 관찰되지 않았고 재발의 증거는 찾을 수 없었다.

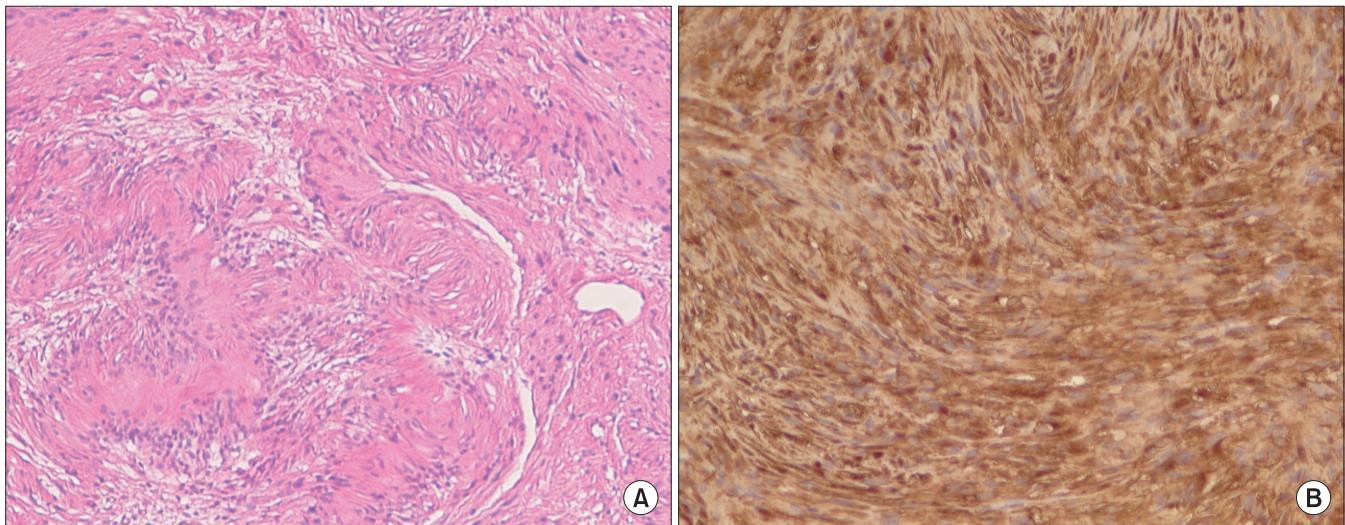


Figure 5. (A) Histological features exhibit neurogenic, spindle cell proliferation with biphasic pattern of growth and prominent nuclear palisading (H&E stain, $\times 100$). (B) Spindle tumor cells express diffuse strong immunoreactivity for S-100 protein ($\times 200$).

고 찰

신경초종의 임상 증상은 아무런 증상이 없이 외부에서 만져지는 종괴로 인하여 처음에 발견이 되는 경우가 많고 진단 및 증상이 발병되는 평균 시간이 5.5년이라고 보고될 정도로 신경초종의 성장 속도는 느려서 몇 달에서 몇 년까지 증상이 없을 수 있다고 알려져 있다.¹⁾ 본 증례에서는 일반적인 신경초종의 임상 양상과 비교하였을 때 성장 속도가 비교적 빠르고 그 크기가 상대적으로 거대한 신경초종이 재발하였는데, 그 이유로 저자들은 이전의 절제술이 완전하지 못하여 남아 있던 신경초종이 재발된 신경초종의 크기와 성장 속도에 영향을 주었을 것이라고 생각하였다.

공간 점유 병소에 의한 족근관 중후군에서 가장 좋은 치료는 수술적 절제이다.⁷⁾ 신경초종의 경우도 경계가 분명한 피막에 싸인 종괴이므로 기인한 신경 자체의 손상 없이 쉽게 제거될 수 있으며 다른 양성 종양과 마찬가지로 변연절제술을 통해 기능적인 신경 이상 증상 없이 좋은 결과를 보였음을 문헌보고들을 통해 확인할 수 있었다.^{1,3)} 또한, 변연절제술 후 재발률은 5% 미만으로 보고되고 있으며 완전하지 못한 수술적 절제를 재발의 원인으로 예상하는 연구보고도 있었다.⁶⁾ 따라서, 신경초종의 경우 완전하지 못한 수술적 절제가 이후 종양의 재발을 유발할 수 있음을 본 증례를 통해 확인할 수 있었다. 재발한 종괴 또한 변연을 주변 조직과 박리하고 후경골 신경에서 종괴를 완전히 절제한 후 통증 및 신경 증상 없이 좋은 결과를 보였다.

신경초종과 같은 양성 말초 신경집 종양의 경우 MRI 검사상 52% 이상에서 나타나는 ‘target pattern’이라 불리는 특징적인 신호 강도를 T2 강조 영상에서 보이므로 다른 연부조직 종양과 구별할 수 있다고 한다.⁸⁾ 하지만 본 증례에서는 이러한 전형적인 소견을 보이지 않았다. 양성 및 악성 원인 질환에 대한 감별 진단을 위해서 원

칙적으로 세침흡입 조직생검(fine needle aspiration biopsy)을 시행하여야 하나 본 증례의 경우 MRI 검사상 주위 조직과 명확한 경계를 보였고, 명백히 크기가 거대한 종괴로 인한 압통 및 신경 압박 증상을 보여 생검을 실시하지 않고 종괴에 대한 변연절제술을 시행하였으며 6개월간의 추시기간 동안 재발은 발견되지 않았다.

본 증례 보고는 타 병원에서 첫 번째 수술 시에 조직 검사를 시행하지 않아 병리학적인 진단이 없다는 것이 다소 한계점이라 할 수 있다. 하지만, 수술 전에 시행하였던 초음파 소견을 살펴보면 경계가 명확한 타원형의 종괴로 에코 질감이 불균질하며 에코 양상은 저에코인 고형성 연부 조직 종양이며 색도플라 검사상 혈관성이 보이는 것으로 유추하여 볼 때 신경초종으로 충분히 추정할 수 있었다.⁹⁾

본 증례를 통하여 후경골 신경에서 기인한 신경초종에 의한 족근관 중후군에서 수술적 절제를 할 때 완전한 변연절제술을 시행하지 않을 경우 재발할 가능성이 있음을 확인할 수 있었고, 재발한 신경초종도 수술적 방법으로 완전히 절제를 한다면 좋은 결과를 얻을 수 있을 것으로 판단된다.

REFERENCES

- Boya H, Ozcan O, Oztekin HH. *Tarsal tunnel syndrome associated with a neurilemoma in posterior tibial nerve: a case report*. Foot (Edinb). 2008;18:174-7.
- Grossman MR, Mandracchia VJ, Urbas WM, Mandracchia DM. *Neurilemmoma of the posterior tibial nerve with an uncommon case presentation*. J Foot Surg. 1992;31:219-24.
- Miranpuri S, Snook E, Vang D, Yong RM, Chagares WE. *Neurilemoma of the posterior tibial nerve and tarsal tunnel syndrome*. J Am Podiatr Med Assoc. 2007;97:148-50.
- Kwag SY, Yoon BS, Choi CS, Kim YJ. *Tarsal tunnel syndrome*

- caused by neurilemoma of the posterior tibial nerve. *J Korean Orthop Assoc.* 1978;13:57-9.
5. Kwon JH, Yoon JR, Kim TS, Kim HJ. Peripheral nerve sheath tumor of the medial plantar nerve without tarsal tunnel syndrome: a case report. *J Foot Ankle Surg.* 2009;48:477-82.
 6. Belding RH. Neurilemoma of the lateral plantar nerve producing tarsal tunnel syndrome: a case report. *Foot Ankle.* 1993;14:289-91.
 7. Bailie DS, Kelikian AS. Tarsal tunnel syndrome: diagnosis, surgical technique, and functional outcome. *Foot Ankle Int.* 1998;19: 65-72.
 8. Varma DG, Moulopoulos A, Sara AS, Leeds N, Kumar R, Kim EE, et al. MR imaging of extracranial nerve sheath tumors. *J Comput Assist Tomogr.* 1992;16:448-53.
 9. Choi JO, An JH, Cho KH, Park BH, Hwang MS, Lee JK, et al. US findings of neurilemmoma of the extremities: pathologic correlation. *J Korean Soc Med Ultrasound.* 1999;18:221-6.