

신경원성 종양으로 오인된 이소성 골 형성: 증례 보고

Heterotopic Ossification Mimics Neurogenic Tumor: A Case Report

양현기 · 정성택 · 조아름 · 문재영

전남대학교 의과대학 정형외과학교실

이소성 골 형성은 수술 후 또는 특정 선행요인 없이 연부조직에 생기는 골 형성을 말한다. 고관절 및 슬관절 등 큰 관절에서 호발하며, 위험인자로 수술 및 수술 후 빠른 관절운동 등이 있다. 저자들은 슬관절 근위 경골 절골술 후 발생한 신경원성 종양으로 오인된 이소성 골 형성 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

색인단어: 이소성 골 형성, 신경원성 종양

이소성 골 형성은 수술 후 또는 특정 선행요인 없이 연부조직에 생기는 골 형성을 말한다. 주로 고관절, 견관절, 주관절, 슬관절 등 큰 관절에 호발하며, 골절이나 탈구 등의 외상이나 수술로 인한 연부조직 손상 또는 뇌나 척수와 같은 신경계의 손상과 관련되어 있다고 알려져 있다. 저자들은 근위 경골 절골술 후 발생한 신경원성 종양으로 오인된 이소성 골 형성을 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례 보고

59세 남자 환자로 내원 3개월 전부터 발생한 우측 하지의 이상감각을 주소로 내원하였다. 과거력상 내원 3개월 전 우측 슬관절 내측 단일 구획 골 관절염에 대하여 관절경적 내측 반월상 연골판 부분 절제술 및 근위 경골 절골술을 시행 받았었다. 수술 이후 특별한 이상 없이 정상적으로 재활 치료를 시행 받았다. 신체검사상 우측 슬관절 후방에 2×2 cm 크기의 만져지는 종물이 있었으며, 이 종물은 3개월 전부터 커지는 경향이 있었으며, 종물을 만졌을 때 우측 하지 후방으로 저린 감각이 유발되었다. 혈액 검사상 alkaline phosphatase (ALP)가 153 U/L로 증가되어 있는 소견이 외에는 특이한 소견은 없었다. 단순 방사선 사진상 슬관절 후방에 석회화를 보이는 2×2 cm 크기의 종양 발견되었다(Fig. 1). 초

음파를 시행하였을 때 종양은 불균질한 음영을 보이며, 경골 신경 (posterior tibial nerve)의 주행에 따라 존재하였다(Fig. 2). 자기공명 영상 검사상 우측 슬와부에 경골 신경의 상 하부와 연결되어 있는 중등도의 경계를 갖는 $3 \times 2.5 \times 2$ cm 크기의 종물이 있었다. 이 종물은 T1강조영상에서 중등도의 신호강도를 보이고 T2 강조영상에서 대부분 높은 신호강도를 보였으며, 조영제 주입 후 불균질한 조영 증강을 보였다(Fig. 3). 환자 근위 경골 절골술을 시행하기 전 타 병원에서 시행한 자기공명영상 검사에서는 상기 명시된 부위에 특이한 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 4). 종양이 발생한 위치와 단기간에 발생하여 크기가 증가하였으며, 신체검사 및 방사선 학적 검사 결과를 종합하였을 때, 악성의 가능성이 있는 신경원성



Figure 1. Plain radiograph of the right knee showing 2×2 cm sized calcified mass in the posterior knee joint (arrow).

접수일 2013년 11월 1일 심사수정일 2013년 11월 23일

제재확정일 2013년 11월 25일

교신저자 문재영

광주시 동구 제봉로 42, 전남대학교병원 정형외과학교실

TEL 062-220-6336, FAX 062-225-7794

E-mail osjymoon@naver.com

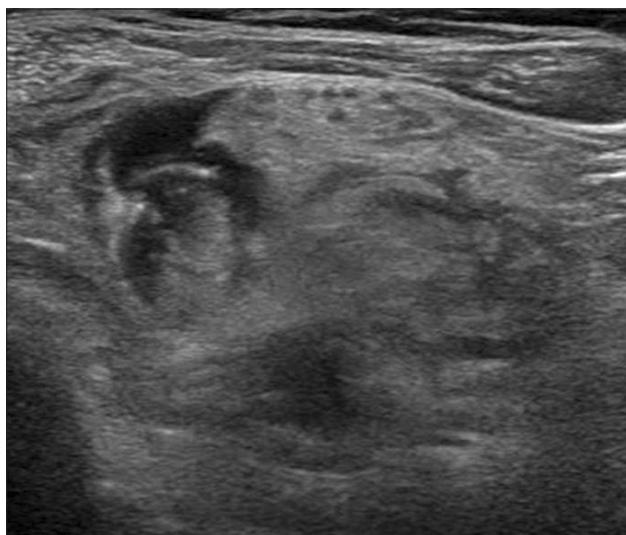


Figure 2. Ultrasonography on right knee. Inhomogeneous mass connected on tibial nerve.

종양(neurogenic tumor)으로 진단하였고, 이에 절제 생검술을 시행하였다. 수술 소견상 경골 신경의 주 분지에 신경 섬유 다발(nerve fascicle)과 유착이 심한 석회화된 종물이 보였으며, 이를 정상 신경조직과 박리하여 절제하였다(Fig. 5). 병리조직 검사 소견상 종물은 이소성 골화 소견을 보였다(Fig. 6). 환자 수술 후 외래 추시 결과 약간의 저린 감각은 남아있으나, 수술 전에 비하여 호전된 소견 보이고 있다.

고 찰

이소성 골 형성은 정상적으로 골을 형성하지 않는 조직에서 골 형성이 되는 것으로, 연부 조직에서의 빠른 골 형성을 특징으로 한다. 이소성 골 형성이 이루어지기 위해서는 유발 인자, 간접 세포, 국소환경인자 등 세 가지의 조건이 충족되어야 한다고 알려져 있다. 이소성 골 형성의 위험 인자로 수술 수기와 관련하여 수술 시

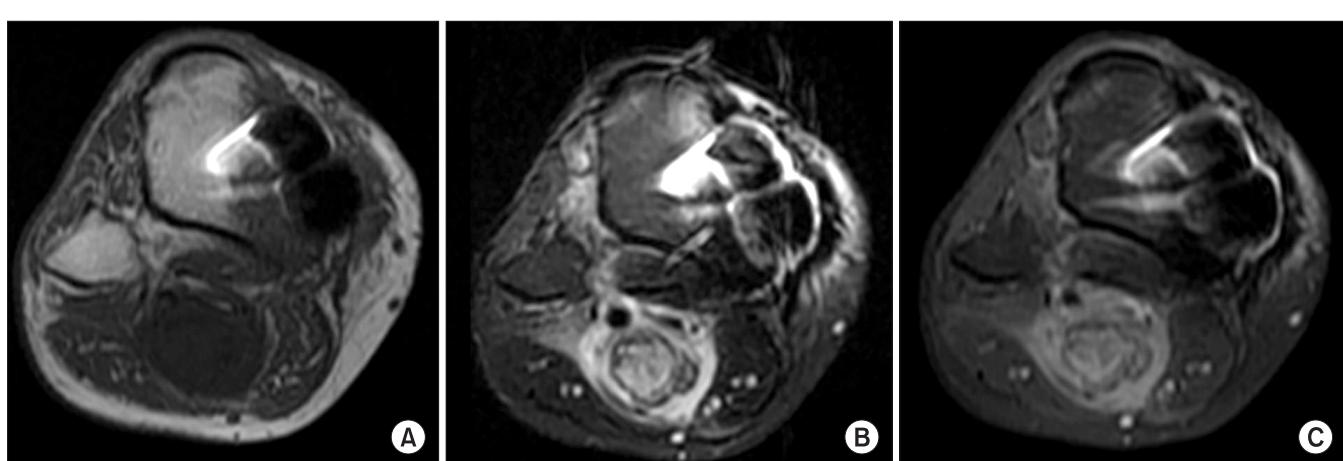


Figure 3. Preoperative magnetic resonance image shows 3×2.5×2 cm sized tumor arising from tibial nerve in popliteal region. (A) Axial T1weighted MR image shows inhomogeneous low signal intensity. (B) Axial T2 weighted MR image shows heterogeneous high signal intensity. (C) Axial gadolinium enhanced MR image shows heterogeneous enhanced mass.

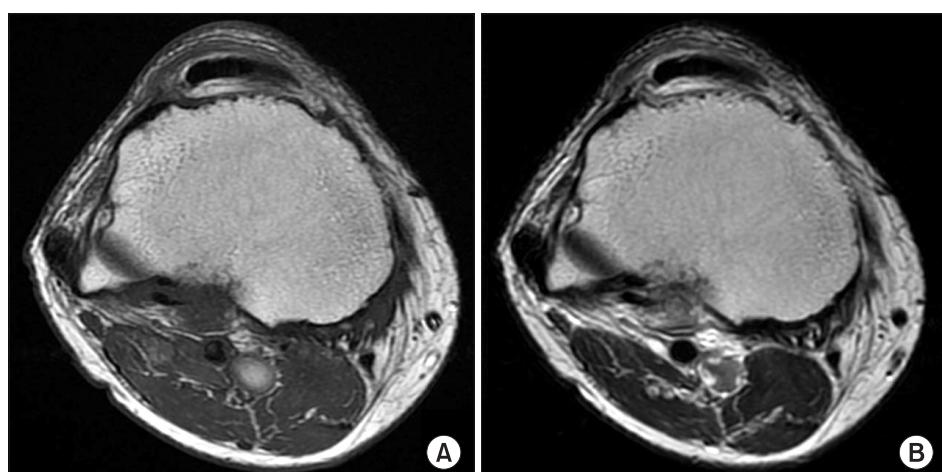


Figure 4. Magnetic resonance image before the high tibial osteotomy on right knee. There is no mass formation in right knee popliteal area. (A) T1 weight MR image, (B) T2 weight MR image.

골막의 박리, 근육의 손상, 수술 후 슬관절 내 삼출, 혈종 등이 알려져 있다.¹⁾ 그 외 외상의 과거력, 골 관절염, 이소성 골화의 과거력 등도 위험 인자로 추정되고 있다.²⁻⁴⁾ 수술 후 너무 빠른 능동 운동의 시도나 과도한 수동 운동 조작으로 인한 연부 조직의 손상은 이소성 골화를 악화시킬 수 있다고 알려져 있다.⁵⁾ 본 환자의 경우 근위 경골 절골술을 시행할 때 골막과 주변 근육의 손상이 있었던 것으로 생각되어지며, 수술 후 관절의 혈종의 형성 또한 이소성 골 형성에 기여하였을 것으로 추정된다. 또한 근위 경골 절골술 후 환자의 빠른 회복을 위해 조기에 슬관절 운동을 시행하였던 것도 한가지 원인으로 추정해 볼 수 있다.

이소성 골 형성을 예측하는데 있어 혈액학적 검사로는 ALP가

사용된다. ALP는 골화가 시작될 때에는 골 모세포(osteoblast) 내에 존재하며, 이후 초기 석회화 과정에서 골 모세포에서 유리된다. 간이나 신장, 위장관 계통의 이상이 없다면, 외상 후 나타나는 ALP 수치의 증가는 골조직의 이상을 암시한다고 할 수 있다.⁶⁾ 본 증례의 환자의 경우 근위 경골 절골술을 시행 후 본원 내원하여 시행한 혈청 ALP 수치가 153 IU/L으로 상승되어 있었으며, 이에 이소성 골 형성에 대한 감별 진단의 필요가 있었어야 했다고 사료된다.

신경원성 종양은 사지에서 발생시 굴곡 부위에서 호발하며, 만져지는 종물이 주 증상으로 보이는 경우가 많다. 그 외 국소 통증 및 Tinel 증후 양성 소견을 보일 수 있다. 일반적으로 초음파와 자기공명영상검사를 통하여 정확한 진단이 가능하다고 알려져 있으며, 특징적으로 초음파에서는 모 신경에 연결된 비균질한 음영이 보이며 자기공명영상검사에서는 T1 강조영상에서는 중간 신호강도, T2 강조영상에서는 높은 신호강도를 보이는 종양을 보인다.⁷⁾ 본 증례에서 신체검사 및 초음파, 자기공명영상 검사에서 종물의 위치 및 소견에서 신경원성 종양의 특징을 가지고 있어 첫 진단은 신경원성 종양으로 생각하였다.

이소성 골 형성의 치료방법으로 물리 치료, 활동 제한 등 보존적 요법이 우선되고, 약물 요법으로는 비스테로이드 소염제 bisphosphonate를 사용할 수 있다. 비스테로이드 소염제는 염증 반응을 저해하거나 간엽 세포의 증식을 억제하는 것으로 알려져 있고, bisphosphonate는 calcium hydroxyapatite의 응집, 침착을 방해하여 결국 무기질화를 억제하여 치료 효과를 보인다. 방사선 치료는 이소성 골 형성을 예방하는데 사용될 수 있다고 알려져 있으나, 이미 형성된 이소골에 대해서는 효과가 없다고 알려져 있다. 형성된 이소골로 인한 관절 운동범위 제한이 있거나 통증이 지속될 때, 수술적 제거를 고려할 수 있다고 알려져 있다.⁸⁾ 본 환자의



Figure 5. Intraoperative photograph shows tumor that divided into several pieces.

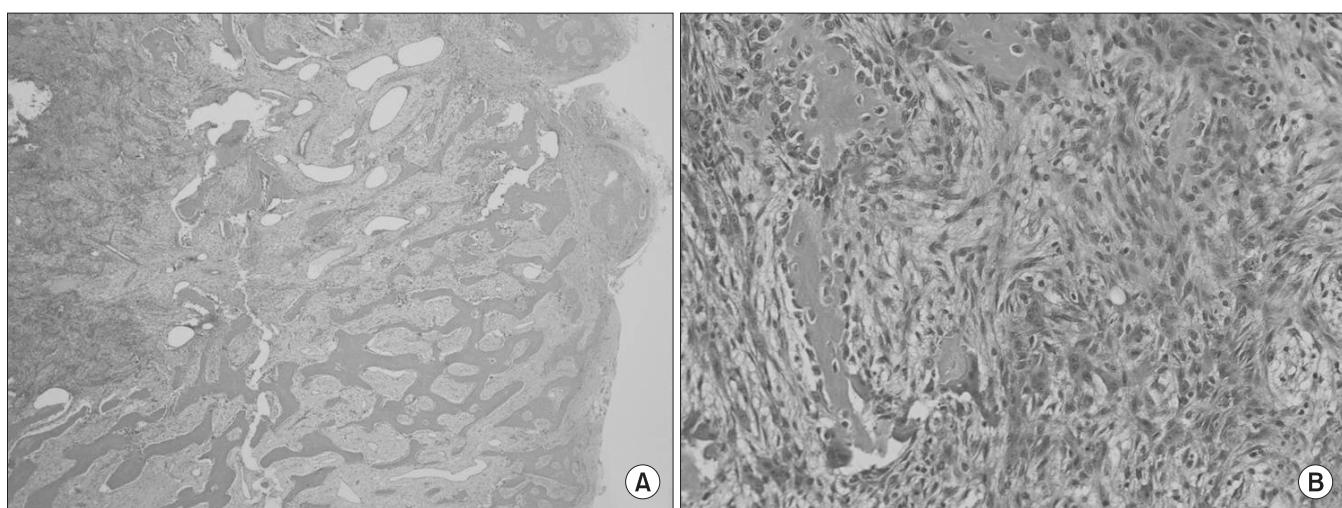


Figure 6. Hematoxylin and eosin stain of the heterotopic ossification of the right knee popliteus demonstrating osseous tissue and bone marrow formation. (A) H & E $\times 100$, (B) H & E $\times 400$.

경우 저명한 증상이 있었으며, 환자 영상학적 검사상 악성 신경원성 종양으로 진단되어 즉시 수술적 치료를 시행하였으며 외래 추시 결과 재발 없이 양호한 결과를 보이고 있다.

이에 저자들은 정형외과 수술 이후 발생한 신경원성 종양으로 오인된 이소성 골 형성을 수술적 치료 후 양호한 결과를 보였음을 보고한다.

참고문헌

1. Harwin SF, Stein AJ, Stern RE, Kulick RG. Heterotopic ossification following primary total knee arthroplasty. *J Arthroplasty*. 1993;8:113-6.
2. Cook J, Scott RD. Bony ankylosis following total knee arthroplasty: a case report. *J Arthroplasty*. 2005;20:122-4.
3. Furia JP, Pellegrini VD Jr. Heterotopic ossification following primary total knee arthroplasty. *J Arthroplasty*. 1995;10:413-9.
4. Hasegawa M, Ohashi T, Uchida A. Heterotopic ossification around distal femur after total knee arthroplasty. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2002;122:274-8.
5. Figgie HE 3rd, Goldberg VM, Heiple KG, Moller HS 3rd, Figgie MP. The incidence and significance of heterotopic ossification following total knee arthroplasty. *Adv Orthop Surg*. 1986;10:12-7.
6. Mollan RA. Serum alkaline phosphatase in heterotopic paraarticular ossification after total hip replacement. *J Bone Joint Surg Br*. 1979;61B:432-4.
7. Isobe K, Shimizu T, Akahane T, Kato H. Imaging of ancient schwannoma. *AJR Am J Roentgenol*. 2004;183:331-6.
8. Pape HC, Marsh S, Morley JR, Krettek C, Giannoudis PV. Current concepts in the development of heterotopic ossification. *J Bone Joint Surg Br*. 2004;86:783-7.

Heterotopic Ossification Mimics Neurogenic Tumor: A Case Report

Hyun-Kee Yang, Sung-Taek Jung, Ah-Reum Jo, and Jae-Young Moon

Department of Orthopedic Surgery, Chonnam National University Hospital, Gwangju, Korea

Heterotopic ossification is an abnormal bone formation after surgery or without any reason. Large joint, such as hip and knee joint, is a known most common site. Operation itself and postoperative early range of motion exercise are risk factors. We present a case of heterotopic ossification mimics neurogenic tumor after high tibial osteotomy.

Key words: heterotopic ossification, neurogenic tumor

Received November 1, 2013 **Revised** November 23, 2013 **Accepted** November 25, 2013

Correspondence to: Jae-Young Moon

Department of Orthopaedic Surgery, Chonnam National University Hospital, 42, Jebong-ro, Dong-gu, Gwangju 501-757, Korea

TEL: +82-62-220-6336 **FAX:** +82-62-225-7794 **E-mail:** osjymoon@naver.com