

악관절에 발생한 활액성 연골종증(Synovial Chondromatosis); 증례보고

김일규 · 최진호 · 오성섭 · 오남식 · 김형돈 · 이성호 · 양동환

인하대학교 의과대학 치과학교실

Abstract

SYNOVIAL CHONDROMATOSIS OF THE TEMPOROMANDIBULAR JOINT: A CASE REPORT

Il-Kyu Kim, Jinho Choi, Seong-Sub Oh, Nam-Sik Oh, Hyung-Don Kim, Seong-Ho Lee, Dong-Hwan Yang

Department of Dentistry, College of Medicine, Inha University.

Synovial chondromatosis is an uncommon disease of cartilage transformation of synovial membrane with formation of loose bodies within the joint space. The knee and elbow are the most commonly involved sites and involvement of temporomandibular joint is very rare. Symptoms include swelling, pain, stiffness of the jaw, and inability to close the jaw. A case involving the temporomandibular joint(TMJ) is presented.

A 28-year-old women had experienced pain of the left TMJ area and limitation of mouth opening. Radiographs of the left TMJ revealed calcified mass surrounding over the mandibular condyle and under the glenoid fossa. Treatment consisted of removal of calcified mass, reshaping of affected condyle and reconstruction with a auricular cartilage. After surgery, the patient's range of motion improved although deviation to the affected side. Until present after surgery there have been no recurrence of symptoms. We think that findings of this patient agree with those of synovial chondromatosis in many aspects.

Key words: Synovial chondromatosis, Temporomandibular joint

I. 서 론

활액성 연골종증(Synovial chondromatosis)은 드문 양성병소로서 활액내에 수 많은 연골성, 골연골성 결절과 관절강내의 소성체(loose body)가 형성되는 질환으로¹⁾ 관절강내에 소성체를 형성하는 활액막의 연골성 변성으로 정의될 수 있다²⁾. 무릎과 팔꿈치가 가장 흔하게 발병되는 부위로서 50% 이상의 증례가 무릎에서 발생된다고 하며, 고관절, 손목, 발목 등의 부위에서도 보고되고 있는데³⁾ 악관절 부위에서는 극히 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다. 원인은 잘 모르지만, 활액막에 대한 지속적인 외상, 퇴행성 관절질환, 혹은 부정교합이나 전위된 관절원판에 의한 비정상적인 부하 등이 원인일 것으로 추정하고 있다⁴⁾.

대부분의 환자들이 호소하는 임상 증상은 동통과 악관절부위의 부종, 개구제한, 개구시 이환측으로의 편위, 관절잡음, 재발성 악관절탈구 등 다양하며^{1,3)} 방사선학적 소견은 특별한 방사선학적 변화를 보이지 않는 경우도 있으나 대부분 수 많은 소성체가 관절강내에 존재하는 양상을 보이며 일부는 관절와로부터 종물

이 돌출되는 양상을 보이기도 한다고 한다⁵⁾. 또한, 악성종양의 특징적인 소견인 골파괴는 보통 존재하지 않지만 관절와의 미란(erosion)이 보고되기도 한다⁶⁾.

치료법으로는 일반적으로 종물의 제거와 활액막의 제거가 시행되지만 질환의 정도에 따라 관절원판제거술, 악관절재건술 및 과두절제술이 시행되기도 한다⁵⁾.

이 질환은 그 다양한 임상증상과 방사선학적 소견 때문에 진단이 어려울 뿐 아니라 비교적 드문 질환으로 알려져 있다⁷⁾. 따라서 이 논문의 목적은 구치부 개교합, 좌측 악관절부위의 동통 및 개구제한을 주소로 본원에 내원한 28세 여자환자를 임상검사 및 방사선 사진 검사 결과 좌측 악관절부위의 골 증식을 동반한 악관절 강직이라는 가진하에 악관절 재건술을 시행한 후 환자의 과거력, 임상검사 및 방사선 사진 소견 및 수술소견, 그리고 조직학적 소견 등을 참고로 하여 관절강내에 골증식이 초래된 원인을 추적하던 중 활액성 연골종증과 여러 가지 일치하는 양상들을 발견하여 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 하는 것이다.

II. 증례보고

1. 환자 : 김 O O (28세, 여자)(Fig. 1)

2. 주소

구치부 개교합(Fig. 2), 좌측악관절부위의 동통, 및 개구장애

최진호

400-103 인천광역시 중구 신흥동3가 7-206

인하대학교 의과대학 치과학교실

Jinho Choi

Dept. of Dentistry, college of Medicine, Inha university hospital

7-206, 3rd ST, Shinheung-Dong, Choong-Gu, Incheon, 400-103, Korea

Tel) 032-890-2470 Fax) 032-890-2475

3. 기왕력

환자는 본원에 내원하기 약 1년전인 1995년 9월 경에 좌측 악관절부위의 동통과 개구시 하악의 좌측편위를 주소로 개인 치과의원에 내원하였다. 개인치과의원의 당시 임상검사를 검토해보면 교합에서 심한 수평피개 양상을 보이는 외에 특별한 소견은 보이지 않았다고 기록되어 있으며 당시의 방사선 사진 검사상, 좌측측두하악관절의 관절강이 다소 좁아져 있는 것을 제외하고는 특이한 이상소견은 발견되지 않았다고 기록되어 있었다(Fig. 3). 환자는 그후 약 1년간 동 병원에서 교정치료와 전방위교합장치(Fig. 4)를 이용한 교합치료를 시행받고 다소간의 증상완화가 있었으나 다시 증상이 악화되며 심한 개구제한과 함께 구치부 개교합이 발현되어 1996년 8월 본원에 내원하게 되었다.

4. 임상검사

본원의 임상검사상, 최대개구량은 약 20mm로 제한되어 있었

고 개구시 좌측악관절 부위에 동통을 호소하였으며 촉진시 양측 교근과 좌측 측두근에 압통을 보였고 구강검사상 양측 구치부의 개교합 양상을 보였다(Fig. 2).

5. 방사선학적 검사

컴퓨터 단층사진 촬영 및 악관절 단층사진 촬영, 파노라마 사진촬영을 시행하였는데 검사결과 좌측과두를 감싸고 있는 방사선 불투과성의 골증식 소견을 관찰할수 있었으며 특히 컴퓨터 단층사진 상에 과두와 일정한 간격을 두는 불연속성의 방사선 불투과성의 결절들이 다발성으로 보였으며 이들은 각각 독립적으로 존재하기도 하고 또는 서로 유합되어 있는 듯한 양상을 보이고 있었다(Fig. 5, 6).

6. 환자의 전신상태 및 과거력

환자의 전신상태는 양호한 편이었으며, 특별한 외상력도 없었다.



Fig. 1. 환자의 초진시 정면사진



Fig. 2. 환자의 초진시 구강내 사진(교합상태)



Fig. 3. 개인치과 최초 내원 당시의 panoramic view



Fig. 4. 교합장치 장착한 구강내 사진



Fig. 5. 술전 panoramic view



Fig. 6. 술전 CT



Fig. 7. 수술장면

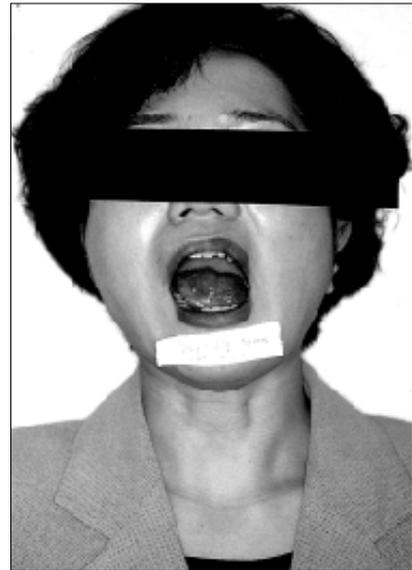


Fig. 8. 술후 환자의 개구상태



Fig. 9. 제거된 골증식물

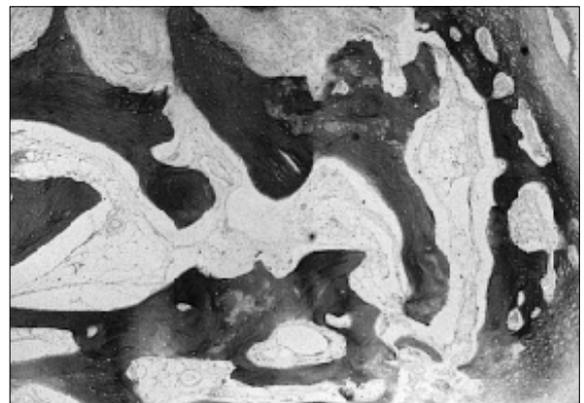


Fig. 10. 조직소견(HE stain, x40)

7. 임상진단

임상검사 및 방사선사진 검사결과 좌측 악관절부위의 보상성 골증식을 동반한 악관절 강직으로 가진하고 수술을 계획하였다.

8. 수술 및 경과

1996년 10월 좌측 악관절 성형술 및 이연골 이식술을 시행하였는데 수술시 관절와를 감싸고 있는 듯한 형태의 좌측과두에서 관절와에 이르는 광범위한 골증식소견을 관찰할수 있었다(Fig. 7). 수술시 증식된 골성 조직은 푸석푸석한 느낌으로 비교적 쉽게 제거될수 있었고 과두로부터 비교적 쉽게 제거되었다. 그리고 증식물이 모두 제거된 뒤의 과두는 골흡수나 기타의 손상 없이 양호한 상태를 유지하고 있어 부가적인 골성형술은 필요하지 않았다. 수술직후 환자는 개구시 미약한 하악의 좌측 편위를 보였지만 최대 개구량은 34mm로 상당한 개선을 보였고(Fig. 8) 그 후 현재까지 재발소견없이 양호한 결과를 보이고 있다.

9. 조직병리학적 소견

병리 검사결과, 관절낭 부분의 조직은 섬유조직이었으며 관절 원판으로 추정되었던 조직은 변성된 연골, 그리고 관절와 부분에서 제거한 조직은 피질골이었다(Fig. 9, 10).

Ⅲ. 총괄 및 고찰

활액성 연골종증(Synovial Chondromatosis)의 원인은 잘모르지만 외상, 염증, 연골 잔사 등이 그 병인에 있어 가능성이 있는 원인으로 추정하고 있으며 대부분의 학자들이 활액막의 양성 종양성 혹은 세포 변성의 과정으로 간주하고 있다²⁾. 또한 1995년 Tominaga 등³⁾은 이 질환의 원인이 활액막에 대한 계속적인 외상 때문인 것 같다고 하였으며 퇴행성 관절질환과 부정교합이나 변위된 관절원판에 의한 비정상적인 압력 또한 원인일 수 있다고 보고한 바 있다. 병리학적으로 활액성 연골종증(Synovial Chondromatosis)은 대개 하나의 관절의 활액막에 다수의 연골성 결절이 발생하는 것으로 특징 지워질 수 있다. 초기에는 활액막에 변형이 생겨 결절이 발생되었다가 점점 유경을 가진 폴립(polyp)형태를 가지다가 이것이 관절강내에 떠다니게된다고 설명하고 있다. 이 연골종증(chondromatosis)이라는 어원은 활액막의 전반적인 변성을 의미하는 말로써 외상에 의해 생긴 한개 혹은 몇개의 관절내 유리체와는 구별되어야 한다고 하였다²⁾. 조직학적으로 활액막 결절과 관절 유리체는 hyaline cartilage 양상을 보이며 부분적인 석회화나 골화가 자주 발생한다고 하였다. 또한 중증도의 세포 이형성증(cellular atypia)와 이핵세포도 흔한 조직학적 소견이라고 하였다. 따라서 이런 조직학적 변화가 연골육종(chondrosarcoma)과 유사하기 때문에 연골육종과의 조직학적 감별진단이 어렵다고 알려져 있다²⁾. 1972년 Ballard와 Weiland⁴⁾은 이 질환의 조직학적 소견은 섬유성 조직과 연골성 변성과 증

식을 동반한 활액막(synovium)을 보이며 자주 이형성 연골세포를 포함하고 있어 연골육종과 감별이 어렵다고 하였다. 본 증례의 경우 조직학적 검사상 세포변이나 악성 종양의 증거 없는 두꺼워진 피질골의 소견을 보였지만 부위에 따라서는 외측의 관절막 부위에서 제거된 조직은 섬유조직, 내부의 악관절원판부위로 추정되는 부분에서 제거된 조직은 변성된 연골의 소견을 보여 저자 등은 석회화나 골화의 정도와 양상에 따라 다양한 소견을 보이는 활액성 연골종증이라는 임상진단명을 사용할 수 있을 것으로 생각하였다.

임상증상도 상당히 다양해서 악관절부위의 종창, 하악운동의 제한, 촉진시 통증과 관절잡음의 소견을 보인다고 일반적으로 알려져 있다²⁾. 또한 1978년 Ronald 등⁵⁾은 활액막성 연골종증의 뚜렷한 자각증상은 동통, 종창, 하악운동제한이라고 하였으며 임상소견으로는 이환된 악관절 측으로의 편위를 포함하는 제한된 운동범위의 양상과 증대된 관절, 촉진시 동통의 소견을 보인다고 보고한 바 있다. 본 증례에서는 임상검사상, 최대개구량은 약 20mm로 제한되어 있었고 개구시 좌측악관절 부위에 동통을 호소하였으며 촉진시 양측교근과 좌측 측두근에 압통을 보였고 구강검사상 양측 구치부의 개교합 양상을 보여(Fig. 2) 앞서의 Ronald 등⁵⁾이 정의한 뚜렷한 임상증상과 일치하는 소견을 보이며 단지 양측구치부의 개교합은 장치(posterior bite block type)에 의한 현상인 것으로 생각하였다. 따라서 이런 증상이 나타난, 초기에 개인치과의원을 내원할 당시 이미 좌측 악관절 부위의 동통과 함께 개구시 좌측 편위를 보인 것으로 기록되어 있어 저자 등은 이때 이미 이 질환이 시작되었던 것이 아닌가 추측하였다.

이 질환의 방사선학적 소견은 석회화나 골화 정도에 따라 다양한 소견을 보이는데 흔하게 비정상적인 방사선 소견을 보이지 않기도 하지만, 때때로 활액막내에 다양한 방사선 불투과성의 종괴를 보이기도 하고 혹은 관절막내에 유리체로서 관찰되기도 한다고 보고되고 있다⁶⁾. 1978년에 Ronald 등⁵⁾은 18예의 활액성 연골종증의 증례들을 보고하며 그 중 6례는 방사선학적인 특이사항이 없었으며 5례에서 소성체를 발견할 수 있었고 3례에서는 방사선불투과성 종괴가 관찰되었으며 그중 한예에서는 관절와에 미란을 보였다고 보고하였다. 또한 1979년 Fee 등⁷⁾은 그들의 논문에서 6례는 방사선학적으로 이상 소견을 보이지 않았지만 대부분의 증례에서 악관절내에 다발성의 유리체가 존재하였으며 다른 방사선학적 소견으로 증가된 관절강과 관절와로부터 돌출된 종괴의 소견을 보인 경우도 있었다고 하였다.

이 질환의 침범범위에 있어서 대부분의 문헌이 관절내에 국한되어 존재하였지만, 1995년 Tominaga 등³⁾은 관절낭 밖으로 확장된 증례를 보고한 바 있으며 1990년 Sun 등⁸⁾, 1992년 Quinn 등⁹⁾은 두개내로 침범된 증례들을 보고한 바 있다. 본 증례의 경우, 저자 등은 악관절에 골 증식이 발생하게 된 원인으로 파노라마 방사선사진 상에서 골 증식이 상관절강 전체를 채우며 하악 관절와를 감싸는 듯한 형태를 보이며 특히 하관절강으로 보이는 방사선 투과성의 공간이 하악과두와 방사선 불투과성 종괴 사이에 존재하는 점(Fig. 5)과 CT소견상 방사선 사진의 절단 수준에 따라서는 여러개의 골 증식체가 존재하며 이들이 부분적으로 연결된

소견(Fig. 6)을 관찰하여 활액성 연골종증의 방사선 소견과 부합되는 점이 있다고 생각하였다.

활액성 연골종증의 치료법은 증상이 있다면 관절낭내에 존재하는 소성체를 제거하는 것이 원칙이다²⁹⁾. 하지만 방사선학적으로 소성체 없이 퇴행성 변화만을 보이는 경우, 물리치료, 스테로이드 주사, 교합조정 등의 보존적인 치료법이 제안되기도 한다. 그러나 변성된 연골성 병소의 제거와 활액막 제거술을 시행하는 것이 보다 선호되는 치료법이며 병의 진행에 따라 관절원판 절제술과 악관절제건술 또는 과두 부분절제술이 시행되기도 한다³⁰⁾. 1979년 Fee 등³¹⁾은 15증례의 활액성 연골종증 중 대부분의 증례를 관절원판제거술을 동반한 활액막 제거술을 이용하여 치료하였고 5증례에서 과두절제술이 시행되었다고 보고한 바 있다.

대개 예후는 좋으며 잔존하는 활액막이 연골변성의 원인이 될 수 있어 연골성 병소나 과증식된 활액막이 잔존해 있는 경우 재발의 가능성이 있다고 알려져 있다. 재발의 원인에 대해서도 밝혀진 것은 없지만, 어떤 밝혀지지 않은 국소요인 혹은 전신적인 요인이 작용한다고 추측되고 있다. 따라서 술후 장기간의 추적 관찰이 요구된다고 할 수 있다³²⁾. 한편, 이 질환의 악성전이에 대해서도 현재까지 보고된 증례수가 작고 추적기간이 짧은 이유로 정확히 밝혀지지 않았지만 이런 연골성 변성이 악성 혹은 전암 병소는 아니라는 점에 대부분의 학자들이 동의하고 있다³³⁾.

본 증례의 경우 환자의 임상증상을 놓고 볼 때, 초기에 개인치과의원을 내원할 당시 이미 좌측 악관절 부위의 동통과 함께 개구시 좌측 편위를 보인 것으로 기록되어 있어 저자 등은 이때 이미 이 질환이 시작되었던 것이 아닌가 추측하고 있다. 즉 앞서의 여러 학자들의 보고에서도 알 수 있듯이 30% 가까운 레에서 방사선학적으로 변화를 보이지 않는다는 보고^{5,10)}가 있고 석회화와 골화의 정도에 따라 방사선 소견이 매우 다양하기 때문이다⁷⁾. 특히 이 질환의 원인 중 중요한 부분이 외상 때문일 것으로 추정하고 있는 많은 논문들을 참고로 해 볼 때 약 1년간의 전방위교합상 치료와 교정치료가 악관절부위에 지속적인 외상을 제공하였을 것으로 추정해 볼 수 있을 것이며 이에 따라 이 질환이 더욱 심하게 진행 된 것이 아닌가 추측하고 있다. 1995년 Tominaga 등³⁴⁾은 2년간의 개구제한과 악관절 동통의 병력을 가진 환자로서 약 10개월간 교합장치로 치료받은 환자에서 발생한 활액성 연골종증의 증례를 보고하였다. 하지만 그들은 발생원인에 대해서는 잘 모르지만, 활액막에 대한 지속적인 외상이 원인인 것 같고 퇴행성 관절질환과 부정교합이나 관절원판 변위에 의한 비정상적인 부담이 다른 원인일 수도 있다고 제안하며 따라서 교합조정이나 교합상에 의한 치료가 증상을 개선하고 재발을 방지하는데 중요한 요소라고 하였다. 이 환자의 초기 개인치과 내원 당시의 방사선 사진(Fig. 3)에서는 우측에 비해 좌측 악관절강이 좁아진 소견외에는 특별한 이상 소견을 보이지 않다가 본원 내원 직전 개인 치과의원에서의 파노라마 사진 및 본원의 방사선 사진 검사상 뚜렷한 골 증식 소견을 보이고 있었다. 또한 방사선 소견에서도 알 수 있듯이 일반적인 악관절의 골성 강직과는 다르게 과두와 방사선 불투과성 중물 사이에 뚜렷한 방사선투과성의 경계가 보이며 이 중물의 증식 양상도 관절와를 따라 악관절막을 감

싸는 듯한 형태로 증식된 양상을 보이고 있다(Fig. 5, 6) 수술시의 소견 역시 비슷한 양상이었는데 좌측 악관절 부위를 노출 시켰을 때, 관절강 전체를 둘러싸고 있는 듯한 양상의 골증식 소견을 볼 수 있었고 이것은 비교적 쉽게 제거되었고 그 성상은 무르고 푸석푸석한 망상골 같은 느낌이었다(Fig. 7, 9). 술후 조직학적 검사상 관절와 부분에서 제거된 골 증식 조직은 악성변이 없는 피질골의 소견이었는데(Fig. 10) 연골 결절이나 결체조직 등은 관찰되지 않았지만, 이것은 석회화 정도와 병의 진행 정도에 따라 이 질환이 다양한 조직학적인 소견을 보인 결과라고 저자들은 추정하였으며 바깥부분의 관절을 감싸듯이 증식된 부분은 섬유조직, 그리고 관절원판의 위치에서 제거한 조직은 변성된 연골조직이었는데 이 역시 이런 골 증식 소견이 활액막으로부터 기원하였을 것으로 추정할 수 있는 근거가 된다고 생각하였다.

술후 현재까지 환자는 별다른 재발 양상없이 비교적 정상적인 하악골 운동기능을 보이고 있다(Fig. 8).

IV. 결 론

저자 등은 좌측 악관절부위의 동통과 개구제한을 주소로 본원에 내원한 28세 여자환자에게 술전 임상검사 및 방사선학적 검사 후 좌측 악관절 부위에 생긴 골증식물의 제거술 및 이연골이식을 동반한 악관절 성형술을 시행하여 술후 현재까지 재발소견 없이 양호한 결과를 보이고 있으며 임상증상 및 방사선학적 소견, 그리고 술중의 소견 들을 종합하여 이러한 골증식이 초래된 원인을 추적하여 여러 가지 측면에서 활액성 연골종증의 증상들과 부합되는 점 들을 발견하여 이를 문헌 고찰과 함께 보고 하고자 한다.

참고문헌

1. Akhtar M et al. : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: report of a case. The Journal of Bone and Joint Surgery 59-A(2): 266-267, 1977.
2. Fee WE et al. : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Otolaryngol Head Neck Surg 87: 741-748, 1979.
3. Tominaga K et al. : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Dentomaxillofac. Radiol., 24(1): 59-62, 1995.
4. Trever D : A case of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Postgrad Med J 28:408-409, 1952.
5. Ronald JB et al. : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. J Oral Surgery 36: 13-19, 1978.
6. Ballard R and Weiland LH : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Cancer 30(3): 791-795, 1972.
7. Lomba JA et al. : Synovial chondrometaplasia of the temporomandibular joint: report of case. J Oral Surgery 35: 675-681, 1977.
8. Sun S et al. : Synovial chondromatosis with intracranial extension: A case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 70: 5-9, 1990.
9. Quinn PD et al. : Synovial chondromatosis with cranial extension. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 73: 398-402 1992.
10. Silver CM et al. : Chondromatosis of the Temporomandibular Joint arising in the meniscus. J Oral Maxillofac Surg 44:70-73, 1986.