

하악과두에 발생한 골연골종 및 이와 연관된 안면비대칭의 치료: 증례 보고

이효지 · 강영훈 · 송원욱 · 김성원 · 김종렬

부산대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실

Abstract

OSTEOCHONDROMA OF THE MANDIBULAR CONDYLE AND ACCOMPANYING FACIAL ASYMMETRY: REPORT OF A CASE

Hyo-Ji Lee, Young-Hoon Kang, Won-Wook Song, Sung-Won Kim, Jong-Ryoul Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Pusan National University

Osteochondroma is one of the most benign tumors of the axial skeleton, but is rarely found in the facial bones. Typical facial features of condylar osteochondroma include striking facial asymmetry, malocclusion with openbite on the affected side, and prognathic deviation of the chin and crossbite to the contralateral side. In this case, twenty four year-old female showed facial asymmetry, chin deviation, openbite on the affected side but have no symptoms of pain or dysfunction. Concomitantly she had maxillary occlusal cant and hemimandibular hypertrophy. Panoramic radiograph showed radiopaque mass on right mandibular condyle extended along the lateral pterygoid muscle. Computed tomogram demonstrated enlarged condylar head and bony spur on posteromedial side of condyle and ^{99}Tc bone scintigraphy showed a focal hot image. These findings were correspond with osteochondroma. The lesion was treated with condylectomy and residual facial asymmetry was corrected with 2-jaw orthognathic surgery. Herein, we report a case of osteochondroma of the mandibular condyle and accompanying facial asymmetry.

Key words: Osteochondroma, Condylectomy, Facial asymmetry

I. 서 론

골연골종은 연골내골화로 형성되는 뼈에서 생기는 골성 종물로서 주로 장골 (long bone)에서 발생하며 비교적 흔하게 발생하는 양성종양으로 전체 양성 골종양의 35-50%에 해당하며 전체 골종양 중에서는 약 11%를 차지한다.¹⁾ 종축 성골격 중 대퇴골의 원위 골간단 (metaphysis)과 경골의 근위 골간단이 가장 호발하는 부위이다.²⁾ 그러나 막뼈발생으로 이루어지는 안면골에서는 드물게 관찰된다. Brady³⁾는 대부분의 악골 골연골종이 근돌기에 발생하였다고 보고하였으나, 하악과두에 생긴 골연골종 역시 빈번히 보고된다. 이 외에 상악골,³⁾ 두개저,⁴⁾ 상악동,⁵⁾ 관골궁,⁶⁾ 하악정중부,⁷⁾ 하악체,³⁾ 하악각,⁸⁾ 경상돌기,⁹⁾ 비중격¹⁰⁾ 등이 보고되었다.

골연골종은 일반방사선사진에서 비교적 명확한 경계를 가지는 방사선불투과성병소로 나타난다. 하악과두에 생기는 방사선불투과성의 종물로는 골모세포종, 골화성 섬유종, 연골종, 활액막 연골종증 (synovial chondromatosis) 등이 있고 악성종양 중에서는 연골육종이나 골육종이 비교적 흔히 발생하므로 이들과의 감별진단이 필요하다.^{2,11)}

하악과두에 생긴 골연골종은 안면비대칭, 이환측의 개교합, 비이환측의 반대교합, 악관절 기능이상 등을 초래하며, 통증을 수반할 수도 있다. 전통적인 과두 골연골종의 치료는 종양절제술이나 과두절제술, 악관절의 재건 등으로 이루어지며^{1,2,11)} 재발은 드물게 보고되었다.¹²⁾ 종축성골격의 단발성 골연골종에서 약 1-2%가 연골육종으로 악성 변화를 보이나²⁾ 악골에서의 악성 전이는 일반적으로 없다고 알려져

있다.¹³⁾ 그러나 1996년 Barrett¹⁰⁾이 비중격에 생긴 골연골종의 이차성 연골육종을 보고하였다.

본 증례에서 환자는 안면비대칭을 주소로 내원하였으며, 이환측의 개교 및 일부의 편위를 보이고 있었고 통증이나 개구제한은 보이지 않았다. 방사선 검사상 우측하악과두에 골연골종으로 추정되는 풀성 병소가 발견되었다. 부가적으로 상악골에도 비대칭이 존재하였다. 본 교실에서는 하악과두에 이환된 골연골종 및 안면비대칭을 과두절제술 및 양악수술로 양호하게 치료하였기에 보고하는 바이다.

Ⅱ. 증례 보고

24세의 여자환자가 안면비대칭을 주소로 부산대학교병원 구강악안면외과에 내원하였다. 임상검사상 환자는 안면비대칭과 일부의 좌측 편위, 우측 구치부의 개교를 보이고 있었다. 악관절 기능 시 운동의 제한이나 통증은 없었으나, 우측에 거대관절잡음이 존재하였다. 상악골에서도 횡적비대칭이 존재하여 교합평면이 우측으로 4도 가량 기울어있었다.

파노라마상에서 우측 하악과두의 과증식 및 과두 내측으로 돌출되어 있는 종물을 관찰하였으며 동시에 하악골 우측의 편측비대, 우측 하악지의 bowing과 좌측 과두의 저형성 및 flattening도 볼 수 있었다. ^{99m}Tc 을 이용한 골스캔에서 우측 악관절 부위에 동위원소의 집적이 보였으며 CT 상 전반적으로 비대한 우측 하악과두 및 외측익돌근을 따라 전내측으로 뻗어있는 풀성 종물이 관찰되었다. 진단모형 상 이환측 과두의 종물을 배제한 교합관계는 비교적 양호하였다. 환자의 병력, 임상증상과 방사선학적 소견을 종합하여 우측 하악과두에 발생한 골연골종으로 가진단하고 과두절제술을 계획하였다.

전신마취하에 측두부로 연장한 내이개절개를 통하여 하악과두에 접근하였다. 라운드버 (round bur)를 이용하여 10 mm 가량 높이로 하악과두를 절제하고, 술전에 적용한 선부자 (arch bar)를 이용하여 악간고정을 시행하였으며 양호한 교합관계를 확인하였다. 적출된 종물의 표면은 연골성 조직으로 이루어져 있었으며 경계는 뚜렷하지 않고 하부골과 연속적이었다. 종물은 조직검사에서 골연골종으로 확진되었다. 7일간 악간고정하였으며 이후 탄성고무 (elastic)

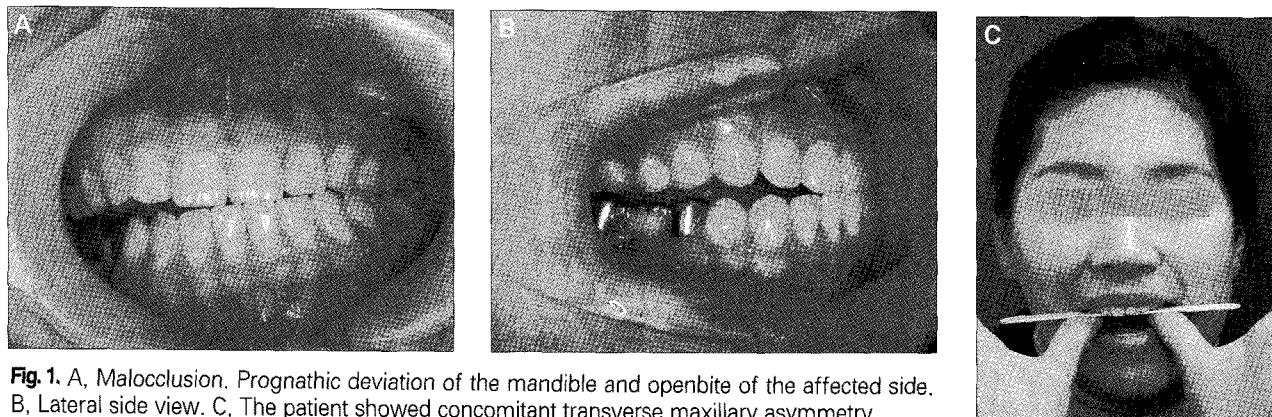


Fig. 1. A, Malocclusion. Prognathic deviation of the mandible and openbite of the affected side. B, Lateral side view. C, The patient showed concomitant transverse maxillary asymmetry.

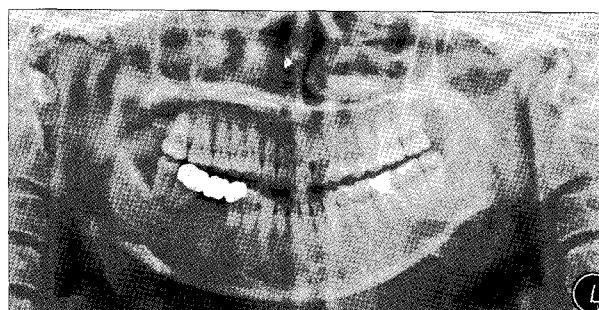


Fig. 2. Initial paroramic view shows flag-like mass on the right mandibular condyle. Also it can be seen hemimandibular hypertrophy tendency.

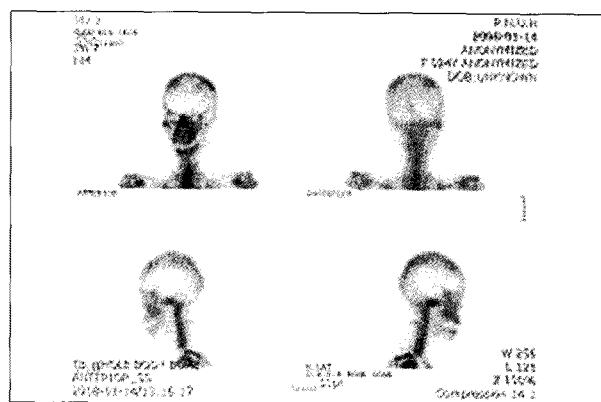


Fig. 3. ^{99m}Tc bone scan. There is a focal hot spot in the right mandibular condyle.

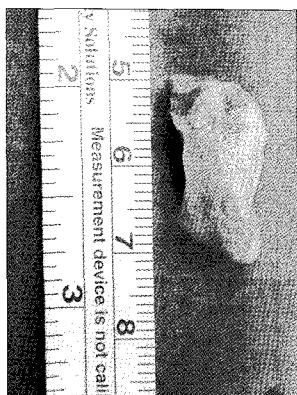


Fig. 4. Resected specimen.
Lateral view.

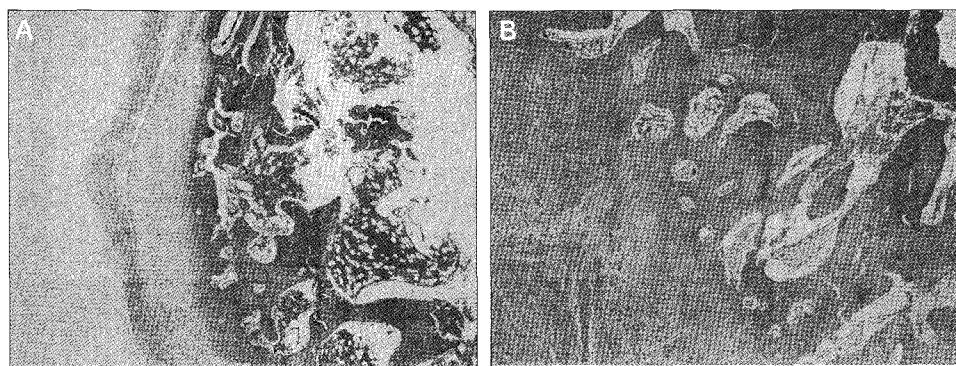


Fig. 5. A, Photomicrograph shows cartilaginous cap and endochondral ossification. Hematoxylin and eosin stain ($\times 40$). B, Magnification of the area of endochondral ossification. Hematoxylin and eosin stain ($\times 100$).

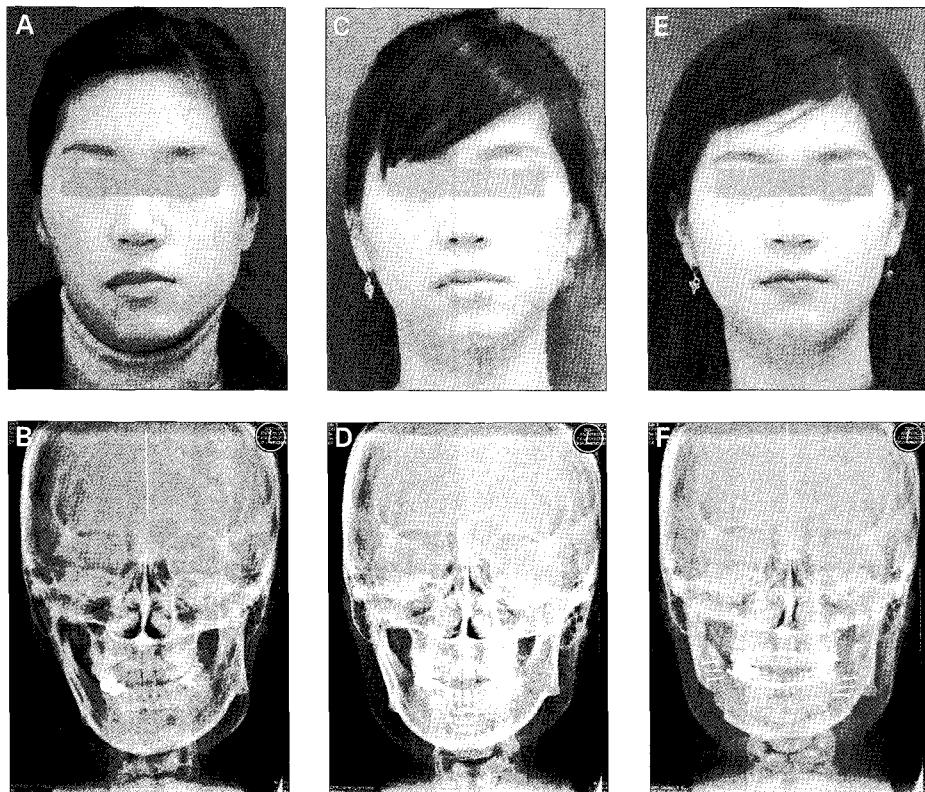


Fig. 6. Serial faical views and cephalograms.
A, B, Initial view. C, D, 9 months after condylectomy. E, F, 6 months after 2-jaw orthognathic surgery.

를 장착하여 개구운동을 하였고 약 두 달 후 선부자를 제거하였다. 환자는 안정된 교합을 보였으며 하악골의 편위없이 32 mm 이상 개구 가능하였다.

과두절제술 후 안모와 교합의 현저한 개선이 있었으나 상악골의 횡적비대칭 및 하악골의 우측 편측 비대로 인해 안모비대칭이 다소 잔존하였다. 환자가 추가적인 악교정수술을 원하여 과두절제술 후 9개월에 양악수술을 시행하였다. 교합관계는 양호하므로 추가적인 치열 교정 치료는 시행하

지 않았다.

상악교합평면은 우측으로 4도 기울어져 있었으며 상악전치노출정도는 약 5 mm였다. 우측 상악골의 과잉성장으로 진단하고 상악골 르포트씨 1급 골절단술 및 하악양측상행지시상골절단술을 시행하였다. 두 차례의 수술에서 환자는 특별한 합병증 없이 회복되었다. 안면비대칭은 모두 해소되었으며 악관절기능 또한 정상적이다. 2년 이상의 추적관찰에서 재발은 관찰되지 않았다.

III. 고 칠

골연골종의 병리학적 발생 및 병인에 관해서 여러 이론이 있지만 이 병소가 발육성 (developmental) 문제인지, 진성 신생물인지 아니면 단순한 과보상성 (exuberant repair activity)인지는 아직 논쟁 중이다.¹³⁾ 골연골종을 나타내는 또다른 용어인 골연골성 과골증(osteocartilaginous exostoses)은 이 병소의 기원에 대한 불확실성을 보여주는 장점이 있다.¹⁴⁾

문헌상 논의되고 있는 원인으로는 골막결합부로의 골단연 골 함입(herniation),¹⁵⁾ 근부착부의 응력,¹⁶⁾ 골간단으로 이주한 미분화 골단 세포의 증식,¹⁷⁾ 다능성(pluripotential) 골막세포의 화생 및 그에 이은 연골내 골화²⁾ 등이 있다. 상악을 포함한 다양한 부위의 골연골종이 보고되었지만³⁻¹⁰⁾ 이 병소는 주로 하악과두 및 근돌기에 빈번히 발생하며 이것은 골표면에 존재하는 비정상적인 연골핵 이론을 지지한다. 연골성장능을 가진 세포가 국소적으로 모여있는, 전이 부착하는 부위에 가해진 응력(stress)이 이러한 종양을 발생시킨다고 믿어지며 이것은 병변이 측두근이 부착하는 근돌기나 외익돌근이 부착하는 과두의 전내면에서 자주 발생하는 것을 설명해준다.¹⁸⁾

Kermer¹⁹⁾ 등은 3개의 증례 보고에서 병소의 신생변화를 나타내는 세포의 다형태성이거나 세포이형성을 발견하지 못했다고 보고하며 발육성 병인에 더 무게를 두었다. 또한 골연골종은 종종 과오종으로 기술된다.^{11,20)} 이와는 반대로, 몇몇 저자들은 재발한 증례 및 악성변이를 보인 증례를 토대로 진성신생물의 가능성을 주장하였다.^{12,13)} 하지만 Peroz¹²⁾ 등은 일차 절제술 후 골연골종이 재발하였으나 장기간의 추적관찰에서 병소의 크기가 증가하지 않는 것을 확인하고 이차 절제술을 하지 않았다고 보고하고 있어서 병소의 과오종적 성격을 추측해 볼 수 있다.

장골에 발생한 골연골종과 두개안면영역에 발생한 골연골종은 다소 차이를 보인다. 장골의 골연골종은 성별차이가 없거나 약간의 남성호발경향을 보인다. 평균연령이 20세 정도로 비교적 이른 나이에 발생하며 종종 무증상으로 수술 없이 관찰하기도 한다.^{1,2,13)} 반면 악골에서는 여성 호발 경향을 보이고 발생연령이 평균 40세로 높다.^{12,20)} 그리고 하악과두에 이환된 골연골종은 종종 기능적, 미용적으로 이상을 초래하며 제거를 요한다.^{12-14,18)}

조직학적으로 골연골종은 골종, 양성 골모세포종, 연골종, 연골모세포종과 감별이 필요하다. 골연골종의 조직학적 진단기준은 평행하게 배열된 군집으로 이루어진 연골모자와 타원형의 소와 공간 등으로, 정상 골단 연골과 유사한 모습을 보이며 연골내 골화로 이루어진 골소주가 관찰된다. 하부 해면골은 병소의 봄체를 구성하며 인접골과 연속적이다.²⁾ 과두 과증식 (condylar hyperplasia)도 안면비대칭을 야기

하는 질환이며 특히 성장기 환자에서 골연골종과 감별이 어려울 수 있다.¹⁸⁾ 진성 과두 과증식의 경우 과두의 크기는 정상적이나 수직적 길이가 증가되고 하악지 역시 길이가 증가되고 바깥으로 휘는 (bowing) 현상이 있을 수 있다. 편측 하악과두 과증식이 일찍 발생할 경우 하악골이 점진적으로 편향되며 이환측은 수직성장이 증가된다. 병소의 진행이 느릴 경우 하악골의 수직길이증가에 따라 상악골에도 보상적인 수직성장이 일어나서 교합평면의 경사(canting)가 생긴다.²¹⁾ 본 증례에서는 과두과증식과의 감별을 필요로 하는 임상증상이 다수 관찰되었으나 파노라마상 뚜렷히 관찰되는 것발 형태¹¹⁾의 골성 종물과 개교 및 반대교합 등의 증상이 심한 것을 토대로 골연골종으로 가진단하였으며 종물의 조직학적 검사에서 골연골종으로 확진할 수 있었다. 그러나 골연골종과 환자의 상악골 횡적비대칭 및 교합평면의 경사, 하악지의 bowing 등의 상관관계를 명확하게 논할 수는 없다.

골연골종의 치료는 국소적절제술 또는 과두절제술이다. 크기가 작고 증상이 없으면서 성장이 멈춘 경우는 관찰치료도 가능하다.¹⁴⁾ 과두절제술 시행시 하악의 수직 길이가 짧아지므로 재건술이 포함되는 경우가 많다.^{11,13)} 하지만 과두절제량은 종양의 크기에 의존하며 일괄적으로 재건술을 시행할 경우 과도한 수술이 될 수 있다.¹⁸⁾ 본 증례에서는 과두의 전내면에 발생한 골연골종으로서 과두경부로 병소가 연장되어 있지 않으며 이환측의 하악 수직 길이가 길었기 때문에 과두절제술만을 시행하였다. 과두절제술 이후 절단면(stump)이 관절과 내로 위치되었으며 안정된 교합 및 양호한 악관절운동을 관찰하였다.

Wolford¹⁸⁾ 등은 골연골종 치료에서, 공존하는 안면기형(defortuity)이 있을 경우 골연골종의 수술과 동시에 교정한 증례를 발표하였다. 본 증례에서는 상악의 횡적부조화가 비교적 경미하였고 진단모형을 통해서 본 교합상태가 양호하였으며 과두절제술로 하악의 비대칭이 상당히 해소될 것으로 예상하여 동시적인 악교정수술은 시행하지 않았다. 일차수술 후 예상대로 환자의 안면비대칭은 상당히 호전되었으며 교합도 안정적이었다. 환자는 일차수술의 만족도가 높아 추가적으로 상악골의 비대칭 해소를 위한 악교정수술을 희망하였으며 치열에 대한 추가적 교정 치료 없이 양악수술을 시행하였다. 하지만 공존하는 안면기형의 양이 비교적 커서 수술적 교정이 꼭 필요하다고 판단되고, 환자의 동의를 얻는다면 골연골종의 치치와 함께 시행하는 것이 환자의 부담을 줄이고 만족도를 높일 수 있을 것으로 생각된다.

References

- Mirra JM : Bone tumors, diagnosis and treatment, Philadelphia, Lippincott, 1980, p.520.

2. Lichtenstein L : Bone tumors, 5th ed. The C. V. Mosby, St. Louis, 1977, p.17.
3. Brady FA, Sapp JP, Christensen RE : Extracondylar osteochondromas of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 46 : 658, 1978.
4. Castillo M, Hudgins PA, Hoffman JC Jr : Lockjaw secondary to skull base osteochondroma: CT findings. J Comput Assist Tomogr 13 : 338, 1989.
5. Traub DJ, Marco WP, Eisenberg E et al : Osteochondroma of the maxillary sinus: Report of a case. J Oral Maxillofac Surg 48 : 752, 1990.
6. Pool JW, Tilson HB, Thornton WE : Osteochondroma of the zygomatic arch: Report of a case. J Oral Surg 37 : 673, 1979.
7. Tanaka E, Iida S, Tsuji H et al : Solitary osteochondroma of the mandibular symphysis. Int J Oral Maxillofac Surg 33 : 625, 2004.
8. Koga K, Toyama M, Kurita KJ : Osteochondroma of the mandibular angle: Report of a case. J Oral Maxillofac Surg 54 : 510, 1996.
9. Xi Q, Liang LM, Bu RF : Styloid process osteochondroma. Int J Oral Maxillofac Surg 37 : 587, 2008.
10. Barrett AW, Hopper C, Speight PM : Oral presentation of secondary chondrosarcoma arising in osteochondroma of the nasal septum. Int J Oral Maxillofac Surg 25 : 119, 1996.
11. Marx RE : Oral and maxillofacial pathology: a rationale for diagnosis and treatment. Illinois, Quintessence, 2003, p.772.
12. Peroz I, Scholman HJ, Hell B : Osteochondroma of the mandibular condyle: a case report. Int J Oral Maxillofac Surg 31 : 455, 2002.
13. Gain RE Jr, Lee MB, Crocker DJ : Osteochondroma of the mandibular condyle: case report and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 50 : 899, 1992.
14. Ward BB, Pires CA, Feinberg SE : Osteochondromas of the mandible: case reports and rationale for treatment. J Oral Maxillofac Surg 63 : 1039, 2005.
15. Keith A : Studies on the anatomical changes which accompany certain growth-disorders of the human body: I. The nature of the structural alterations in the disorder known as multiple exostoses. J Anat 54 : 101, 1920.
16. Geshickter CF, Copeland MM : Tumors of bone, 3rd ed, Philadelphia, WB Saunders, 1963, p.56.
17. Lagenskiold A : The development of multiple cartilagenous exostosis. Acta Orthop Scand 38 : 259, 1967.
18. Wolford LM, Mehra P, Franco P : Use of conservative condylectomy for treatment of osteochondroma of the mandibular condyle. J Oral Maxillofac Surg 60 : 262, 2002.
19. Ch Kermér, M Rasse, G undt, S Lang : Cartilaginous exostoses of the mandible. Int J Oral Maxillofac Surg 25 : 373, 1996.
20. Fonseca RJ : Oral and maxillofacial surgery, vol.5, surgical pathology, 1st ed, Philadelphia, Saunders, 2000, p420.
21. Herbosa EG, Rotskoff KS : Condylar osteochondroma manifesting as Class III skeletal dysplasia: Diagnosis and surgical approach. Am J Orthod Dentofac Orthop 100 : 472, 1991.

저자 연락처

우편번호 626-770

경상남도 양산시 물금읍 범어리

부산대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실

김종렬

원고 접수일 2009년 09월 21일
개재 확정일 2010년 01월 12일

Reprint Requests

Jong-Ryoul Kim

Dept. of OMFS, School of Dentistry, Pusan National University
Beomeo-ri, Mulgeum-eup, Yangsan-si, Gyeongsangnam-do, Korea
Tel: 82-55-360-5103 Fax: 82-2-364-0992
E-mail: jorkim@pusan.ac.kr

Paper received 21 September 2009

Paper accepted 12 January 2010