

족지 외 족부에 발생한 사구종의 보고 (1예 보고)

단국대학교 의과대학 정형외과학교실

박현우 · 유문집 · 황성수

Glomus Tumor in a Extradigital Lesion of Foot (A Case Report)

Hyun-Woo Park, M.D., Moon-Jib Yoo, M.D., Sung-Su Hwang, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Dankook University College of Medicine, Cheonan-si, Chungcheongnam-do, Korea

=Abstract=

Glomus tumors are uncommon soft tissue tumors which usually found in a subungual lesion of hand, producing pain. This uncommon tumors have been reported in other locations, including nasal cavity, stomach, mediastinum, heart, lung, and vagina etc. Especially, it was a very rare case found in an extradigital lesion of foot. Glomus tumors should not be ruled out for an extradigital mass lesion of foot and also any other locations. Although glomus tumors are generally considered a benign lesion, it should be considered that glomus tumors have also reported as a malignant type tumor, even the diagnosis based on histologic features not clinical one.

Key Words: Foot, Extradigital lesion, Malignant glomus tumor

서 론

사구종은 대개 수부의 원위부, 조갑하에 특징적으로 호발하며, 통증을 유발하는 양성 연부 조직 종양으로서 그 빈도는 그리 흔하지 않다⁶⁾. 그 중에서도 매우 드물게 수지, 족지 외의 특이한 위치에 발생 하게 되는데, 예를 들면, 비강, 위, 기관지, 종격(mediastinum), 심장, 폐, 질 등에서 발견되기도 한다^{2,6)}. 특히 족지가 아닌 족부에 발생한 경우는 매우 드문 경우로 본 저자들은 족저부에 발생한 사구종 환자 1예를 경험하여 보고 하는 바이다.

증례 보고

32세 남자 환자가 우 족저부의 통증을 동반한 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 과거력상 내원 약 9년 전부터 족저부에 종괴 소견 있었고, 서서히 커지긴 하였으나, 내원 2개월 전까지는 통증 없이 잘 지내왔다고 하였다. 내원 약 2개월 전부터는 발을 디딜 때마다 통증이 심하여, 인근병원에서 보존적 치료를 받았으나 호전 없어 본원 외래로 내원 하였다.

환자는 이학적 소견상, 건 측에 비해 족저 외측의 전반에 걸쳐 약 1-2 cm 정도 높이로 융기 되어, 경계가 분명하지 않은 둥글고 피하에 위치한 종괴가 보였다(Fig. 1). 또한, 족저부 전반에 걸쳐 심한 압통이 있어, 체중 부하시 심한 통증을 호소하였다. 감각 및 운동 신경과 혈액 순환은 정상 이었다.

본원에서 촬영한 단순 방사선 소견상에서는 특이 소견 없었으나, 외부에서 촬영한 자기공명영상 소견상, 족저 외

• Address for correspondence

Hyun-Woo Park, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Dankook University College of Medicine, 16-5 Anseo-dong, Cheonan-si, Chungcheongnam-do, 330-715, Korea

Tel: +82-41-550-6579 Fax: +82-41-550-3950

E-mail: m3artist@daum.net



Figure 1. Preoperative clinical photo shows the elevated plantar surface due to the mass lesion on the left foot. It is about 5 cm x 8 cm x 1 cm sized mass with diffuse boundary.

측의 피하 지방층의 비후 소견과 함께, 약 4.6 × 2.9 cm 크기의 불규칙한 경계의 족저부에 위치한 종괴가 발견되었으며, 추정 진단으로는 혈관종, 섬유종증, 건초의 거대 세포종으로 생각되어, 종괴 전 절제술을 시행하기 위해 입원하였다.

수술 소견상, 이학적 검사와 마찬가지로 피하 지방층의 지방이 많이 비후되어 있는 소견이 관찰 되었으나, 정상적인 조직으로 보였다. 보다 심부에 위치한 병변은, 육안적으로도 결절종은 아니었으며, 좁쌀 크기의 작고 소엽화 된 종괴로서 흩어져서 중족골들과 족저부 내재근들 사이에 침윤되어 있어서, 조직들을 완전히 제거하기에 불가능한 상황이었다. 정상적인 내재근 일부를 포함하여 절제 가능한 종괴 조직들을 모두 제거한 후 봉합을 시행하였다.

수술 후 조직검사 시행 상, 피하에서 제거한 지방조직은 정상이었고, 보다 심부에서 제거한 조직은 사구종이라 보고 되었었고(Vimentin & SMA: Positive; CD34, Pan CK, EMA, Desmin, CEA, S-100 protein: Negative), 매우 드문 증례

로 생각되어 다시 확인하였으나, 병변의 위치가 피하층 보다 깊고, 그 크기가 2 cm 이상으로 크기 때문에, 사구종의 분류에 따라 악성 사구종이라 확진 되었다(Table 1)⁶⁾.

임상적으로 수술 전 환자는 족저부를 지면에 대지도 못할 만큼 통증을 호소하였으나, 수술 직후부터 환자의 증상은 크게 호전되어, 술 후 1일째부터는 부분 체중부하를 해도 통증이 별로 없을 만큼 호전 되었다.

또한, 증상은 없었지만, 제1 중족-족지 관절 족저부에도 유사한 신호강도를 갖는 약 1 cm 크기의 연부 종괴가 자기 공명영상 상 발견 되었으므로, 이 곳 역시 악성 사구종 병변으로 생각되어, 현재 술 후 7개월 째 외래 통원하며 경과 관찰 중으로 제거하지 않은 두 번째 병변에 대해서는 수술 예정이다.

고찰

사구종은 1812년 Wood에 의해 “통증 있는 피하 결절” 이라고 임상적으로 처음 기술되었으며⁴⁾, 그 후 많은 문헌에 의해 조갑하 병변으로 보고되어 왔기 때문에 수지, 족지 이외에 발생한 병변에 대해서는 그 빈도도 드물어서, 주목 받지 못해왔다.

사구종을 임상적으로는 크게 단독인지 다발성인지 두 가지로 분류하는데, 단독 병변에 대해서 1924년에 Masson에 의해 처음으로 조직병리학적으로 기술 되고 분류 되었으며, 다발성 병변의 경우에는 1936년에 Touraine 등에 의해 처음 보고 되었다. 또한, Sluiter는 1959년에 국소형(localized)과 범발형(disseminated)으로 다시 세분하였다⁵⁾.

병리학적으로는 사구종은 “정상 사구체의 변형된 평활근 세포와 유사한, 중간엽 세포들로 이루어진 종양”이라고 정

Table 1. Classification of Glomus Tumors with Atypical Features

Malignant glomus tumor
Marked atypia + mitotic activity (>5/50 HPF) <i>or</i>
Atypical mitotic figures <i>or</i>
Large size (>2 cm) + deep location
Glomus tumor of uncertain malignant potential
Superficial location + mitotic activity (>5/50 HPF) <i>or</i>
Large size (>2 cm) only <i>or</i>
Deep location only
Symplastic glomus tumor
Lacks criteria for malignant glomus tumor <i>and</i>
Marked nuclear atypia only
Glomangiomas
Lacks criteria for malignant glomus tumor or glomus tumor of uncertain malignant potential <i>and</i>
Diffuse growth resembling angiomatosis with prominent glomus component

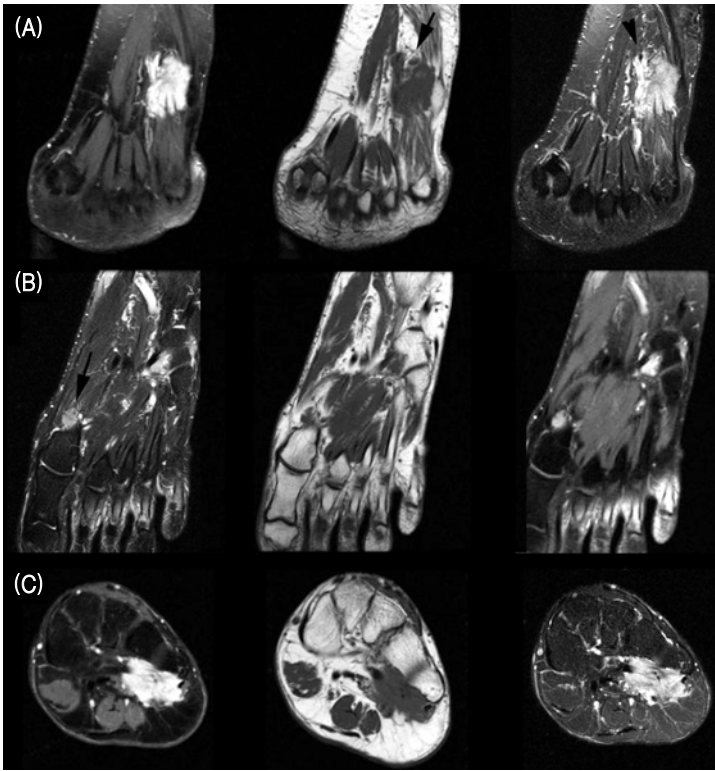


Figure 2. MRI findings of the foot. (A) Coronal images with plantar glomus tumor. 1. Coronal T2-weighted fat-suppressed MR image shows high-signal plantar mass with surrounding irregular high signal intensity. 2. Coronal T1-weighted image shows mass (arrow) isointense relative to muscle and ill-defined hypointense perilesional signal extending to adjacent tissues. 3. Coronal T1-weighted image with fat saturation obtained after administration of gadolinium shows that mass (arrowhead) enhances avidly. (B) Coronal images with plantar glomus tumor. Notice another lesion around the 1st metatarsal neck area (arrow). The same findings with the above figure (A) are found except the size and locations. (C) Axial images of the plantar lesion. The same findings with the above figure (A).

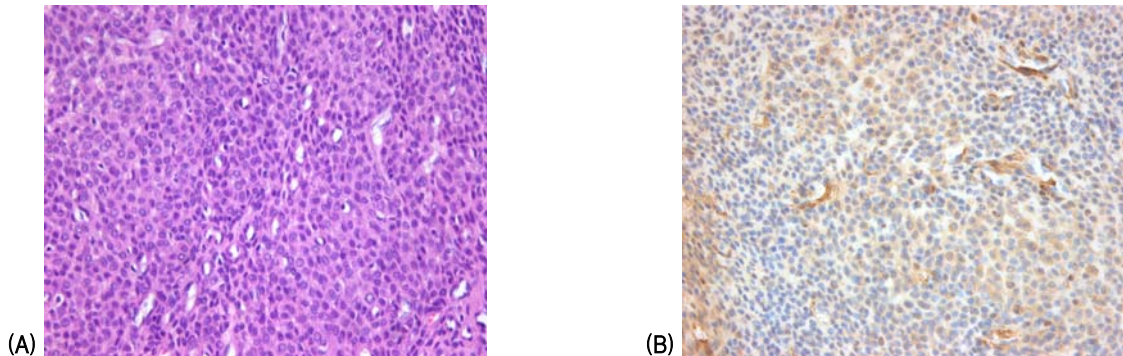


Figure 3. Microscopic findings of the mass lesion. (A) It is composed of capillary sized vessels surrounded by solid sheets of tumor cells with mild nuclear atypia (H-E, original magnification $\times 200$). (B) Tumor cells are SMA (smooth muscle actin) positive (SMA, $\times 200$).

의한다^{2,6}. Folpe 등에 의하면, 전형적인 사구종 이외의 비전형적 사구종을 다음 네 가지로 분류하고, 분류 기준을 제시 하였다(Table 1)³. 또한, 현재 세계 보건기구 분류법 (WHO)에서는 사구종은 혈관주위 종양(pericytic tumor)의 범주에 속하며, 다시 이를 양성 및 그 변종(variants), 악성의 두 가지로 분류하였다(Table 2)².

Table 2. WHO Classification of Glomus Tumors

Pericytic (Perivascular) tumors
Glomus Tumor (and variants)
Malignant glomus tumor
Myopericytoma

사구종의 발생 빈도는 드물어서, 연부조직 종양의 약 2% 미만으로 보고하고 있으며, 악성 사구종은 더욱 드물어서 사구종들 중에서 약 1% 미만으로 보고한다^{2,6}. 또한, 조직학적으로 악성 사구종일 경우에 대개 조갑하 이외의 곳에 깊게 위치하나, 피하에 발생할 수도 있다고 보고 한다².

Carroll은 사구종의 임상적 특징으로, 통증, 압통, 추위 민감성을 삼주징이라 하였고, 이를 진단의 열쇠라고 하였다⁵. 그러나, 실제로 임상에서 이는 비 특이적인 증상이며, 모든 사구종 환자에서 이러한 삼주징이 다 관찰되지 않았다고도 하였다¹. 또한, 사구혈관종증(glomangiomas)인 경우엔, 각 사구종들 사이로 혈관과 성숙한 지방세포들이

동반될 수도 있다고 하였는데, 본 증례에서의 피하 지방층의 비후를 설명할 수 있는 문헌으로 생각된다⁶⁾.

감별 진단해야 할 질환으로는 섬유종, 지방종, 혈관평활근종, 결절종, 한선종, 신경섬유종, 평활근종, 육종, 혈전성 정맥염 등이 있으며⁵⁾, 가장 많이 오진되는 병명은 혈관종, 신경종, 신경섬유종이라고 하였다⁴⁾.

치료로는 단독 병변인 경우 수술적 제거술로 완치 되어 재발은 드물다고 알려져 있고, 국소적 다발성 병변인 경우에는 제거술로 즉시 증상은 완화되나, 재발은 단독 병변보다 흔히 일어나는 것으로 보고되고 있으며^{4,7)}, 수술적 제거시 구체적 절제면(resection margin)에 대해 자세히 언급된 문헌은 찾을 수 없었다.

또한, 다발성 병변인 경우, 악성 변환 및 원격 전이도 보고되어 있어, 주의 깊은 추시 관찰이 필요하며, 특히, 병리학적으로 악성으로 판단될 때에 예후는 약 40%의 환자에 있어서 폐 전이 등 원격 전이가 발견되었다고 보고하고 있으나^{2,6)}, 방사선 치료 또는 화학 요법 등의 추가적 처치를 한 문헌은 없었다.

흔히 사구종은 수지 조갑부에 특징적으로 호발하는 양성 종양이라고 알려져 있지만, 매우 드물게 전혀 다른 위치에서 발견될 수도 있으며, 조직학적으로는 양성이지만 다발성인 경우와 그 크기가 클 경우에는 악성으로 분류될 수 있으며, 다른 양성 및 악성 종양과도 감별을 요하는 바, 사구종의 삼주징인 극심한 통증, 추위 민감성, 압통의 증상

유무를 주의 깊게 관찰하여, 사구종도 감별해야 함을 이 증례를 통하여 알 수 있었다. 또한, 악성 사구종의 예후에 대한 연구가 부족하므로, 장기적 추시 관찰이 필요하다고 하겠다.

REFERENCES

1. **Carroll RE and Berman AT:** *Glomus tumors of the hand: review of the literature and report on twenty-eight cases. J Bone Joint Surg, 54-A: 691-703, 1972.*
2. **Fletcher CD, Umri KK and Mertens F:** *Pathology & genetics tumours of soft tissue and bone. 5th ed. Lyon IARC press: 136-137, 2002.*
3. **Folpe AL, Fanburg-Smith JC, Miettinen M and Weiss SW:** *Atypical and malignant glomus tumors: analysis of 52 cases with a proposal for the reclassification of glomus tumors. Am J Surg Pathol, 25: 1-12, 2001.*
4. **Schiefer TK, Parker WL, Anakwenze OA, Amadio PC, Inwards CY and Spinner RJ:** *Extradigital glomus tumors: a 20-year experience. Mayo Clin Proc, 81: 1337-1344, 2006.*
5. **Thomann BW, Mamani ZA and Klaue K:** *Glomus tumors of the foot and ankle: case report of a rare disease and review of the literature. J Foot Ankle Surg, 4: 13-20, 1998.*
6. **Weiss SW and Goldblum JR:** *Enzinger and Weiss's soft tissue tumors. 4th ed. Mosby, Inc: 985-1001, 2001.*
7. **Wetherington RW, Lyle WG and Sanguenza OP:** *Malignant glomus tumor of the thumb: a case report. J Hand Surg, 22-A: 1098-1102, 1997.*