

악관절에 발생한 윤활연골종증의 치험례

이종복 · 이대정 · 최문기 · 김은철¹

원광대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, ¹구강병리학교실

Abstract

CASE REPORT OF SYNOVIAL CHONDROMATOSIS IN THE TEMPOROMANDIBULAR JOINT

Jong-Bok Lee, Dae-Jeong Lee, Moon-Gi Choi, Eun-Cheol Kim¹

Department of oral and maxillofacial surgery, ¹Department of oral and maxillofacial pathology, School of Dentistry, Wonkwang University, Iksan, Korea

Although synovial chondromatosis is most frequently found in the knee, they have been reported in temporomandibular joint. Synovial chondromatosis is a cartilaginous metaplasia of the mesenchymal remnants of the synovial tissue of the joint. It is characterized by the formation of cartilaginous nodules (loose bodies) in the synovium and within the articular space. Pain and swelling are the most common symptoms of the synovial chondromatosis and sometimes deviation of the mandible toward the unaffected side during motion may occur. When these lesions become symptomatic, they should be removed surgically.

Key words: Synovial chondromatosis, Temporomandibular joint

I. 서 론

윤활연골종증(synovial chondromatosis)은 관절내 윤활성 연골조직의 간질성 잔사로부터 발생하는 연골성 화생(metaplasia)에 의해 발생하는 질병이며 윤활막내와 관절강내에 연골성결절, 즉 유리체(loose body)가 형성되는 것을 가장 큰 특징으로 한다.¹⁾ 보통 무릎, 팔꿈치, 팔목, 어깨에 많이 발생하며 악관절에는 드물게 나타나는데 1933년에 Axhausen²⁾이 악관절에 발생한 윤활연골종증을 처음 보고한 이후 지속적인 보고가 이루어져왔다. 보통 여성이 남성보다 4배 더 호발하며 우측이 좌측보다 4배 더 호발하는 것으로 알려져 있다.³⁾ 병인론은 명확히 밝혀져 있지 않으나 환자들에게서 외상이나 염증의 과거력이 발견되는 것이 보통이다.^{4,5)} 주된 증상은 통증, 부종, 하악운동시 과두 걸림이다. 종종 비슷한 증상을 보이는 연골종(chondroma), 골연골종(osteochondroma) 등과의 감별이 필요하다.⁶⁾ 또한 이하선의 종양과 연골육종(chondrosarcoma)과의 감별이 필

요하다.

조직학적으로 윤활 연골종증의 화생변화(metaplasia)를 3단계로 나눈다.⁷⁾ 1기는 오직 활막내에만 화생이 있으며 유리체(loose body)가 없는 단계이며 2기는 활막내에 화생이 있으며 활막의 화생으로 유리체가 떨어져 나온 단계이며 3기는 활막내 화생이 끝난 단계로 화생이 보이지 않고 다양한 크기의 다발성 유리체만 관찰되는 단계이다.

이렇게 단계적으로 조직학적인 화생변화가 이루어지기 때문에 병소가 어느 정도 석회화되기 전까지는 전통적인 방사선사진과 단층촬영만으로는 결절을 확인하기 어려운 경우가 많다.⁸⁾ 이런 이유로 치료가 늦춰질 경우 턱이 비이환부로 변위되는 증상이 나타나며 심해지면 병소가 두개저까지 확산되기도 한다.⁸⁾ 악관절 내장증과는 달리 비수술적 치료에는 반응하지 않으며 보통 전이개부 접근법을 통한 수술적 제거가 추천된다.

본 교실에서는 악관절에 발생한 윤활연골종증을 경험하였으며 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

* 이 논문은 2008년도 원광대학교의 교비지원에 의해서 수행됨.

II. 증례보고

50세 남자환자로 환자는 음식을 먹다가 우측 악관절에 불편감이 생겨 구강내과에서 교합안정장치로 치료를 받은 병력이 있으며 이후 지속적인 불편감을 호소해왔다. 구강내과에서 물리치료를 받던 중 파노라마상에 우측 악관절의 전방부에 아주 미약한 방사선 불투과성 병소가 발견되었으며 본 과로 의뢰되었다(Fig. 1). 우측 악관절의 통증을 동반한 부종과 개구제한(최대개구량 27 mm)이 환자의 주소였으며 환자는 일상생활을 못할 정도의 극심한 통증을 호소하고 있었으며 pain VAS (동통 VAS)는 7-8을 보였다. 임상검사상 최대 개구량은 27 mm, 우측 편향운동은 4-5 mm, 좌측 편향운동은 4-5 mm, 전방운동시에는 3-4 mm였고 동시에 우측으로 2 mm변위되었다.

파노라마 상에 병소가 명확하게 보이지 않았으며 삼차원적인 위치평가가 필요할 것으로 보여 추가적으로 3차원 단층촬영(3D-CT)을 시행하였다(Fig. 2).

3차원 단층촬영 상에서 우측 악관절에 다발성 석회화 병

소가 보이며 접형골 및 유양돌기에 경화성 변화와 함께 골 침식성 병소가 보이지만 천공은 되지 않은 상태였다. 또한 병소는 주로 과두내측, 전방, 외측에 주로 존재하고 있었으며 후방에는 존재하지 않는 상태로 윤활 연골종증 또는 연골성 종양을 감별해야할 필요성이 제기되었다. 또한 병소가 상관절강에만 국한되어 있는지 아니면 하관절강에까지 침습해 있는 지의 여부를 감별하기 위하여 자기 공명 영상(MRI)을 촬영하였다(Fig. 3).

자기공명영상 촬영 상에서는 우측 상관절강에만 국한되어 관절강을 확장시키는 작은 결절들로 이루어진 연골성 병소가 관찰되었으며 병변의 가장자리를 따라 윤활막이 비후된 소견을 보였다. 하지만 과두를 포함한 중요한 골과괴 병소나 두개내로 병소가 확장된 소견도 보이지 않았다. 이러한 소견을 바탕으로하여 윤활연골종증으로 잠정 진단하였으며 골 스캔상 상악골의 임플란트를 위한 골이식 부위에만 국소적으로 조영제의 흡수가 증가되어 있고 악관절에는 증가되어 있지 않은 것으로 보아 골질환이 없는 것으로 판단되었다(Fig. 4).

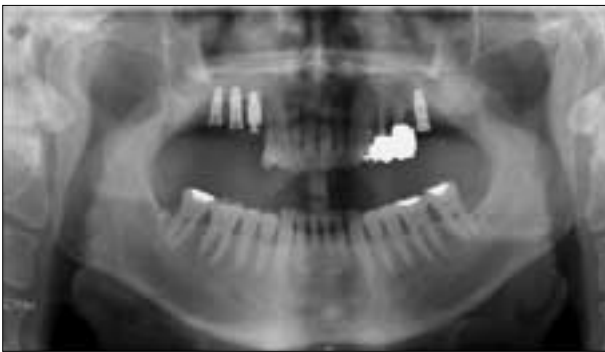


Fig. 1. Panorama view was taken at the first visit. It showed obscure and tiny radio-opaque materilas around the right temporomandibular joint space.

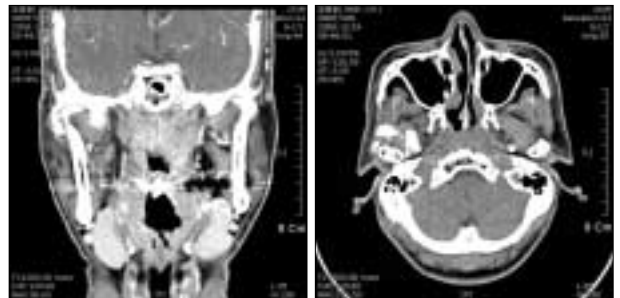


Fig. 2. Preoperative CT. CT showed multiple calcified bodies in the right temporomandibular joint space and sclerotic changes around the right temporomandibular joint. Bony erosion and destruction were not seen in the both temporomandibular joint.



Fig. 3. Preoperative TMJ MRI. Left (T2 sagittal view) showed the high signal intensity mixed with internal multiple low signal intensity on the upper joint space. This low signal mass implied the loose bodies. Right (T1 coronal view) showed the low intensity mass on the upper joint cavity.

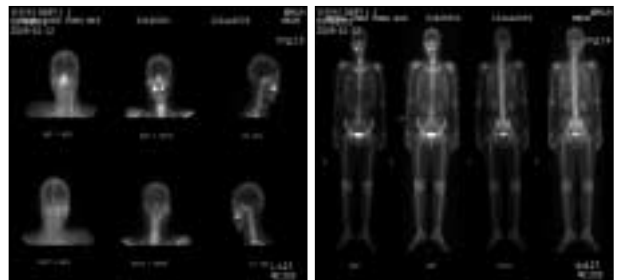


Fig. 4. Preoperative bone 3-phase scan. It showed focal intense uptake in both side of maxilla and others were unremarkable.

종합하여 유리체가 형성된 2기 병소나 화생의 최종단계로 간 3기 병소의 윤회연골증으로 진단하였다.

술전 검사상 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치가 731 U/L이 나와 수술이 연기되었다. 하지만 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치는 간병변, 파렛병이나 류마티스 관절염등의 골대사성 질환에 의해서도 상승할 수 있기 때문에 이에 대한 감별이 요구되었다. 간질환과의 감별을 위해 환자는 간담도 내과로 의뢰되었으며 검사 결과가 나올 때까지는 상당한 시일이 소요될 것으로 예상되었다. 하지만 환자의 동통이 일상생활을 할 수 없을 정도로 심한 상태였기 때문에 수술전에 동통완화를 위해 관절강 세척술을 시행하기로 결정하였다. 2번에 걸친 관절강 세척술을 시행하였으며 관절강 세척술 시에 18개이지의 바늘을 사용하였으며 하얀 점액성 물질이 윤활액과 함께 배출되었으며 지속적인 개폐구 운동을 하게 함으로써 배출이 용이하게끔 하였다. 관절강 세척술후 환자의 동통은 술전과 비교하여 급격히 감소하여 동통 VAS가 0을 보

였으며 내부의 팽창압에 대한 감압효과에 의해 급격한 통증 감소가 일어난 것으로 판단되었다(Fig. 5).

간담도내과 의뢰결과 간병변은 없고 대사성 질환에 의한 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치의 상승으로 판단되어 전신마취하에 수술을 시행하기로 하였다.

통법의 전이개부 접근법을 이용하여 접근하였으며 자기공명영상상에 병소가 상관절강에만 국한되어 있었기 때문에 하관절강은 노출시키지 않았다. 상관절강을 개방했을 때 유리체가 자유롭게 떠다니는 것 아니라 주변 연조직에 부착되어 있는 양상을 보였다. 이는 술전에 시행한 관절강 세척술에 의해 윤활액이 배출되어 유리체가 연골활막에 부착된 것으로 생각하였다. 또한 윤활막도 부분적으로 비후되어 있는 양상을 보였다. 따라서 유리체를 완벽하게 제거하기 위하여 condyle separator를 이용하여 상관절강을 최대한 노출시켜 유리체를 제거하였으며 동시에 부분적으로 병적인 윤활막도 제거하였다(Fig. 6). 유리체는 1-2 mm 정도의 구 형태를 보였으며 약 100여개 정도에 이르렀다.



Fig. 5. Arthrocentesis was done. During arthrocentesis, white myxoid materials mixed with synovial fluid was discharged.



Fig. 6. Intraoperative view. Over the hundred of loose bodies were removed from the upper joint space in the right temporomandibular joint and thickened synovium was removed simultaneously. The loose bodies looked liked small ball. Its size was about 1-2 mm in diameter.

술후 조직검사상 윤활연골증종으로 확진을 하였으며 조직 소견상 내부에 거대세포와 파골세포가 보이며 염증 소견을 나타냈으며 심한 연골성 화생을 보이는 두꺼운 활막이 관찰되었다(Fig. 7).

술후 단층촬영상에 관절강의 내측부에 잔존병소가 남아있는 것을 확인할 수 있었다(Fig. 8). 유리체가 관절상 세척술로 인해 활액이 줄어들면서 주변 활막에 부착되었으며 외과적 접근이 어려운 부위였기 때문에 유리체가 남은 것으로 판단하였다. 조직검사 상에서 화생이 활발하게 이루어지는 단계인 2기 병소로 판단되었기 때문에 재발 가능성이 있을 것으로 생각되어 지속적으로 추적조사를 통해 재발 여부를 판단하기로 하였다.

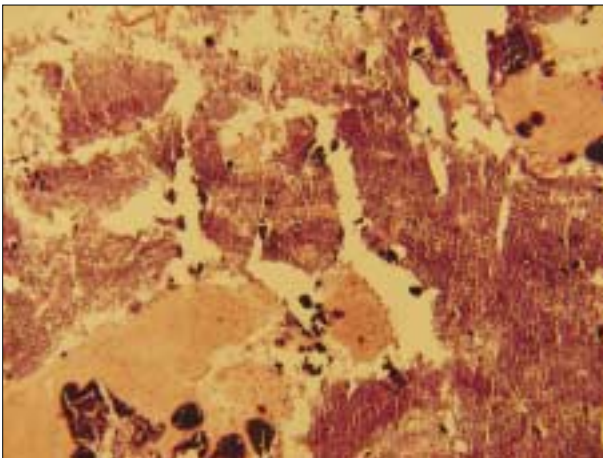


Fig. 7. Biopsy. Thick fibrosis with chondroid metaplasia in synovium were observed. The metaplasia was very severe. H & E (x40)



Fig. 8. Post-operative CT. Left(coronal view), Right(horizontal view). Not removed loose bodies were seen on the medial side of right temporomandibular joint.



Fig. 9. Follow up CT after 9 months postoperatively. Residual mass almost vanished.

이후 술후 2개월후의 검사상 최대개구량이 40 mm, 우측 편향운동량이 8 mm, 좌측편향 운동량이 18 mm, 전방운동량이 4 mm (2 mm 우측편위 동반)로 전반적인 하악의 운동성이 증가되었으며 통증도 완전히 사라졌다. 또한 상승되었던 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase) 수치도 정상수치로 돌아와 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치의 상승이 윤활연골증종에 의한 것이었음을 확인케 하였다. 술후 약 9개월 후 추적 조사시 3차원 단층촬영상 잔존 병소가 거의 발견되지 않았으며 악관절 운동장애, 동통 등의 이상소견은 보이지 않았다(Fig. 9).

III. 고 찰

Milgram⁷⁾은 윤활연골증종의 진행을 3단계를 제시했으며 그 후 Blankenstijn⁹⁾은 이를 다시 조사하였다. 첫 단계로는 유리체의 생성이 없이 미분화세포의 증식과 함께 윤활막의 화생을 나타내며 두 번째 단계로는 윤활막으로부터 유리체가 형성되며 느리게 점진적으로 진행되는 화생을 보이며 유리체는 부분적으로 윤활막에 둘러싸인 연골모세포를 포함하고 있다. 세 번째 단계는 윤활막내의 화생 반응이 없으며 유리체가 석회화되는 반응을 보이며 이는 Henderson-Jones syndrome으로 불리운다.¹⁰⁾ 본 증례의 경우 유리체가 형성되었으나 화생이 남아있어 2기 병소로 판단되었다.

몇몇 저자들은 윤활연골증종을 일차적 형태(primary form)와 이차적 형태(secondary form)로 나누기도 한다.¹²⁾ 일차적 형태는 아직도 병인론이 잘 알려져 있지 않지만 대부분의 연구자들은 발생학적인 병증으로 윤활조직내의 연골성 화생이 잔존해 있는 것으로 생각하고 있다. 이차적 형태는 외상, 염증성 혹은 비염증성 골연골염등의 관절 질환, 염증과 연관되어 있다.

윤활연골증종의 적절한 치료는 정확한 진단하에서 이루어진다. 진단은 임상적 증상 발현과 부가적인 검사를 통해 이루어지며 주된 증상으로는 통증, 관절내 부종, 강직, 염발

음, 기능적 제한이 점진적으로 오랜 기간에 걸쳐 나타나는 것으로 알려져 있으며 이 때문에 악관절 내장증으로 진단하여 잘못 치료하는 경우도 있다.¹²⁾ 본 증례 역시 본과로 의뢰되기 전 구강내과에서 지속적인 교합안정장치를 이용한 치료를 받은 과거력이 있었으며 부가적인 검사를 하기 전까지는 윤활연골종증으로 진단을 할 수 없었다. 따라서 삼차원 단층 촬영(CT)과 자기 공명 영상 촬영(MRI)이 윤활연골종증의 진단을 위한 훌륭한 도구가 되며 본 증례 역시 위 검사들을 통해 잠정적 진단 및 병소의 정확한 위치를 알 수 있었다.¹³⁾

윤활연골종증과 감별해야 할 악관절에 발생하는 방사선 불투과성 병소들은 골종(osteoma), 골모세포종(osteoblastoma), 골연골종(osteochondroma), 연골모세포종(chondroblastoma), 골형성 섬유종(ossifying fibroma) 등이 있는데 이는 방사선학적으로 어느 정도 감별이 가능하다. 보통 골모세포종은 2 cm 이상, 유골성 골종은 2 cm 이하의 방사선 불투과성 병소를 보이는데 반해 윤활연골종증은 다양한 크기의 쭈뼌모양을 보이는 다발성 병소를 보이는 것이 특징이다. 또한 골형성 섬유종(ossifying fibroma)과 같은 섬유골 병소는 병소 주변에 방사선 투과성의 띠를 보이는 점으로 윤활연골종증과 감별할 수 있다.¹⁴⁾ 병소가 악관절에서 발생하기 때문에 비슷한 위치에서 발생하는 이하선의 종양과도 감별이 필요하다.¹²⁾

또한 명확한 진단을 내리기 위해서는 조직검사가 필수적이며 이는 연골육종(chondrosarcoma)와 감별진단도 가능하게 해준다. 윤활연골종증은 연골육종과는 달리 괴사, 유사분열, 점액상의 연골, 방추상 세포의 양상을 보이지 않는다.¹³⁾ 본 증례 역시 CT와 MRI를 통해 잠정진단을 내렸으며 조직검사를 통해 확진을 내리게 되었다.

본 증례에서 특징적이었던 점이 환자의 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치가 높았던 것인데 이는 간질환과의 감별을 필요로 했다. 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)수치는 간병변에 의해서도 상승할 수 있지만 파렛병이나 류마티스 관절염등의 골대사성 질환에 의해서도 상승할 수 있기 때문이다.

환자의 동통이 일상생활을 못할 정도로 심했음에도 수술을 연기하게 되었으며 환자의 동통감소를 위해 관절강 세척술을 시행하게 되었다. 이후에 동통은 씻은 듯이 사라졌으며 알칼리성 인산분해효소(Alkaline phosphatase)상승의 원인이 밝혀질 때 까지 효과적인 동통조절을 할 수 있었다. 동통의 감소는 병소가 관절강내에서 팽창하려는 압력을 줄여줌으로써 얻어진 것으로 판단되었다.

치료는 비침습적인 방법으로 관절경 수술이 있지만 윤활연골종증은 재발성을 가진 질환이기 때문에 재발 가능성을 줄이기 위해서는 언제나 수술적인 방법을 통해 이루어져야만 한다.¹⁵⁾ 이는 관절경 수술을 통해서도 관절강내의 유리체

및 병적인 윤활막을 완벽하게 제거할 수가 없기 때문이다.¹⁶⁾ 심지어는 재발 가능성을 가진 조직을 제거하는 윤활막절제술이나 디스크절제술을 시행하기 위해 관절 절제술이나 관절 성형술이 필요할 수도 있다. 본 증례에서는 통법의 전이 개부 접근법을 통해서 상관절강내로 접근을 하였으며 육안으로 확인하였을 때 디스크는 정상적인 상태였고 윤활조직이 병적으로 비대되어 있었다. 또한 유리체가 이전의 두 번에 걸친 관절강 세척술로 인하여 윤활조직 및 관절강 내에 부착되어 있는 듯한 양상을 보였다. 그래서 유리체를 완벽하게 제거하기 위해 condyle separator를 이용하여 관절강을 충분히 확장시킨 후에 병소를 최대한 제거해냈으며 병적인 윤활 조직도 완전히 제거해냈다. 하지만 술후 CT상 관절강의 내면에 잔존병소가 있는 것을 확인할 수가 있었다. 관절강 세척술이 환자의 동통 조절을 위해서는 효과적인 방법이 되었지만 수술시에는 제한 요소로 작용했음을 알 수 있었다. 또한 병소의 위치가 관절강의 전내방에 위치해 있었기 때문에 접근도가 상당히 저하되었다. 이에 대한 좀 더 확실한 접근을 위해서는 하악과두절제술(condylectomy) 또는 관골절제술(zygotomy)이 필요한 것으로 알려져 있다.¹⁷⁾

질환의 활성도는 낮은 것으로 판단하였으며 내부의 잔존 병소가 악관절의 운동성에 영향을 끼치지 않은 상황이고 하악과두와 디스크가 정상적인 양태를 보였기 때문에 하악과두절제술 또는 관골절제술 등의 접근 방법은 다소 공격적인 치료 방법이라는 판단하에 시행하지 않았다. 하지만 수술후 조직 검사상에서는 화생의 정도가 심한 2기 정도의 소견을 보여 어느 정도의 재발성이 있을 것으로 판단하였다. 하지만 술 후 추적조사시 CT상 관절 전내방부의 병소는 상당 부분 소실(resolution)된 것으로 파악되었으며 악관절의 운동장애, 동통 등의 재발 소견이 보이지 않아 현재까지는 양호한 치료 결과를 보였다. 하지만 잔존 병소가 남아있는 상태이므로 지속적인 추적 조사가 필요할 것으로 보인다.

IV. 결 론

윤활연골종증의 적절한 치료를 위해서는 정확한 진단이 가장 중요하며 이를 위해서는 임상적인 평가도 중요하지만 CT나 MRI의 부가적 검사장비가 굉장히 중요한 역할을 하며 ALP등의 골대사나 연골대사성 변화를 반영해줄 수 있는 혈액검사 방법도 도움이 될 수 있음을 알 수 있었다. 또한 윤활연골종증의 치료시 완벽한 수술적 절제가 추천됨을 여러 문헌 조사를 통해 알 수 있었으며 이를 위해서는 관절 절제술이나 기타 여러 접근법을 통한 관절강내로의 완벽한 접근이 중요하다는 것을 알 수 있었다. 또한 윤활연골종증의 동통조절을 위해서 관절강 세척술이 하나의 치료방법이 될 수 있음을 알 수 있었다.

References

1. Martin-Granizo R, Sanchez JJ, Jorquera M *et al* : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. A clinical, radiological and histological study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 10 : 272, 2005.
2. Axhausen G : Pathologie und therapie des kiefergelenkes. *Fortschr Zahnheilk* 9 : 171, 1933.
3. Fee WE, Windhorst P, Wissins R *et al* : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Otolaryngol Head Neck Surg* 87 : 741, 1979.
4. Miller AS, Harwick RD, Daley DJ : Temporomandibular joint synovial chondromatosis : report of a case. *J Oral Surg* 36 : 467, 1978.
5. Alling SC, Rawson DW, Staats J *et al* : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *J Oral Surg* 31 : 691, 1973.
6. Mendonca-Caridad JJ, Schwartz HC : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint : arthroscopic diagnosis and? treatment of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 52 : 624, 1994.
7. Milgam JW : Synovial chondromatosis : a histopathologic study of thirty cases. *J Bone Joint Surg* 59 : 792, 1977.
8. Quinn PD, Stanton DC, Foote JW : Synovial chondromatosis with cranial extension. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 73 : 398, 1992.
9. Blankenstijn J, Panders AK, Vermey A *et al* : Synovial chondromatosis of the temporo-mandibular joint. Report of three cases and a review of the literature. *Cancer* 55 : 479, 1985.
10. Miyamoto H, Sakashita H, Wilson DF *et al* : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Br J Oral Maxillofac Surg* 38 : 205, 2000.
11. Lustmann J, Zeltser R : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Review of the literature and case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 18 : 90, 1989.
12. Bruno De SB, Lucas GP, Sérgio Antonio AC *et al* : Temporomandibular joint synovial chondromatosis. *Rev Bras Otorrinolaringol* 74 : 480, 2008.
13. Dolan EA, Vogler JB, Angelillo JC : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint diagnosed by MRI : report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 47 : 411, 1989.
14. Huh JK, Park JY, Lee S : Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint with condylar extension. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 101 : 83, 2006.
15. Cascote P, De Biase A, De Ponte F *et al* : Therapeutic planning in synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *J Craniofac Surg* 7 : 352, 1996.
16. Shibuya T, Kino K, Yoshida S *et al* : Arthroscopic removal of nodules of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Cranio* 20 : 304, 2002.
17. Mustafa AA : A Case of Synovial Chondromatosis of the TMJ : Treatment Based on Stage of the Disease. *J craniofacial surgery* 13 : 670, 2002.

저자 연락처

우편번호 570-711
 전라북도 익산시 신룡동 344-2
 원광대학교 치과대학 구강악안면외과학 교실
최문기

원고 접수일 2010년 03월 04일
 게재 확정일 2010년 04월 30일

Reprint Requests

Moon-Gi Choi
 Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
 College of Dentistry, Wonkwang University
 344-2 Shinyongdong, Iksan, Chonbuk, 570-711, Korea
 Tel: +82-63-850-2924 Fax: +82-63-852-4939
 E-mail: omschoi@wonkwang.ac.kr

Paper received 04 March 2010
 Paper accepted 30 April 2010