

하악과두에 발생한 골연골종의 증례보고

경희대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
최옥진 · 황의환 · 이상래

The Osteochondroma of the Mandibular Condyle: Report of a Case

Wook-Jin Choi, Eui-Hwan Hwang, Sang-Rae Lee

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyung Hee University, Seoul, Korea

ABSTRACT

The osteochondroma, also known as osteocartilagenous exostosis, is one of the most common benign tumors of the axial skeleton, but is rarely found in the facial bones. When present, the tumor is most often reported to affect the mandibular coronoid process. Osteochondroma of the mandibular condyle is extremely rare and may cause signs and symptoms like those seen in patients with temporomandibular joint dysfunction. Sometimes, differentiation between osteochondroma and condylar hyperplasia is not possible on histologic grounds alone, but the radiographic and intraoperative findings together are usually sufficient to establish a definite diagnosis. This report reviews the literature concerning osteochondroma, especially of the maxillofacial region, and describes a case of osteochondroma of the condyle. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2000 ; 30 : 138-143)

KEY WORDS : osteochondroma, mandibular condyle

골연골성 외골증으로도 알려져 있는 골연골종은 중축 골격계에서 흔히 발생하는 양성 종양의 하나로서, 특징적으로 종양조직이 이환골의 표면으로부터 외측으로 성장하는 외방 증식성 양상을 보인다.^{1,2}

골연골종의 병인에 관하여서는 많은 연구보고들이 있었는데, Keith³는 태내시기에 골단판 연골의 공포부위(vacuolizing zone)를 둘러싸고 있는 골막에 결합이 발생되면, 이 부위로 골단판 연골이 빠져나와 골연골종이 발생된다고 하였으며, Geshicketer와 Copeland⁴는 건(tendon)이 삽입되는 모든 골부위에는 국소적으로 연골 형성능을 가진 세포들이 축적되어 있는데, 이 부위에 긴장과 스트레스가 가해지면 이러한 세포들이 과증식성 변화를 일으켜 골연골종이 유발된다고 하였다. 또한 Langenskiold⁵는 골단의 미분화된 세포층의 증식으로 인해 골연골종이 발생된다고 하였고, Lichenstein⁶은 골모세포와 연골모세포의 생성능을 가지고 있는 골막의 이형성으로 인해 연골이 형성되면, 이러한 연골에서 연골내 골화가 이루어짐으로써 골연골종이

발생된다고 하였으나,⁶ 현재까지도 골연골종이 발육성인지, 종양성인지, 또는 반응성 병소인지는 확실하지 않다.⁷

한편 골연골종에 이환된 환자의 약 75%에서는 단독성으로, 약 25%에서는 다발성으로 발생되는데, 다발성으로 발생하는 경우 골연골종증(osteochondromatosis)으로도 불리우며, 상염색체 우성 유전과 관련이 있는 것으로 알려져 있다.⁸ 또한 골연골종은 골육종성 변화를 보이기도 하는데, 단독성 병소의 경우 약 1% 정도에서, 다발성 병소의 경우 약 11% 정도에서 골육종성 변화를 보이므로, 골연골종이 단독성으로, 또는 다발성으로 발생되었는지의 여부를 감별하는 것은 매우 중요하다.⁹

임상적으로 골연골종은 10대와 20대에서 주로 발생되며, 남성에서 1.6:1로 약간 더 호발되는 것으로 알려져 있다.¹⁰ 골연골종 환자에서는 운동시의 기계적 자극, 또는 신경 압박에 의해 근육, 인대, 또는 건부위에 동통을 종종 호소하기도 한다. 대부분의 골연골종은 장골,^{10,11} 특히 대퇴골의 원심 골간단과 경골의 근심 골간단에서 가장 흔히 발생되는데, 견갑골, 척추, 그리고 드물게는 하악골에서도 발생되며, 하악과두에 발생하는 경우는 극히 드물다.¹² 하악과두에 발생한 골연골종에 관하여서는, Nwoku¹³가 3,200증례의 두경부 종양을 조사한 결과, 이 중 하악과두에 발생한 종양은 7증례로서, 하악과두에서는 종양의 발생이 매우 드물다

접수일 : 2000년 4월 8일 채택일 : 2000년 5월 10일
Correspondence to : Eui-Hwan Hwang
College of Dentistry, Kyung Hee University, #1 hoeki-dong, Dongdaemun-ku Seoul
130-701 Korea
Tel) 82-02-958-9406, Fax) 82-02-965-1256
E-mail) hehan@nms.kyunghee.ac.kr

고 하였고, Brady¹⁴ 등은 골연골종에 관한 문헌을 검토한 결과, 10증례만이 하악과두와 연관성을 가지고 있는 골연골종이었음을 보고한 바 있다.

골연골종은 방사선학적으로 골 표면상에 편평한 결절이나 꽃자루 형태의 용기로 나타나며, 병소의 해면골은 정상골의 해면골과 혼재되어 나타난다. 병소가 큰 경우 이와 접촉된 인접골에서는 골침식 소견이 관찰되기도 한다.⁸

조직학적으로 골연골종은 골수세포와 지방세포가 산재되어 있고, 다양한 두께의 연골로 덮혀 있는 치밀한 침상의 층판골로 구성되어 있으며, 연골내 골화가 골과 연골의 연결부위에서 자주 관찰된다.

저자들은 임상적, 방사선학적 및 병리조직학적 소견으로부터 26세 된 여성 환자의 하악과두에 발생한 매우 드문 골연골종 1예를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례 보고

1. 임상 소견

본 증례의 환자는 26세의 여성으로서, 무통성 종창으로

인한 안면비대칭을 주소로 내원하였다(Fig. 1A, 1B). 환자가 종창을 처음 인지한 것은 내원하기 약 5년 전이었고, 내원 약 2-3년 전부터는 좌측으로의 하악 편위가 심하게 나타났다고 하였으며, 그 외에 특기할만한 과거병력은 없었다. 임상검사시 하악골의 좌측 편위로 인해 전치부와 이 환측 우측 구치부에서는 개교합이, 비이환측 좌측 구치부에서는 교차교합이 관찰되었다(Fig. 1C, 1D). 또한 개구시에 뚜렷한 운동제한은 없었으나, 우측으로의 측방 운동제한이 있었으며, 개·폐구시에는 양측 측두하악관절에서 관절잡음이 있었다.

2. 방사선학적 소견

파노라마방사선사진, 이하두정방사선사진, 후전방 두부방사선사진, 및 측방 두부규격방사선사진에서 하악이 좌측으로 편위된 소견과 함께 우측 하악과두가 전상방으로 증대된 소견이 관찰되었으며, 하악과두의 피질골은 비교적 균일한 두께였다(Fig. 2A, 2B, 2C). 특히 측방 두부규격방사선사진에서는 개교합 및 좌·우측 하악골 하연 위치의 상대적 차이가 뚜렷하였다(Fig. 2D). 경두개방사선사진에서는 개·폐구 운동시에 하악과두의 현저한 운동제한은 보이지 않았으나, 관절와 및 관절융기에서 골경화상이 관찰되었

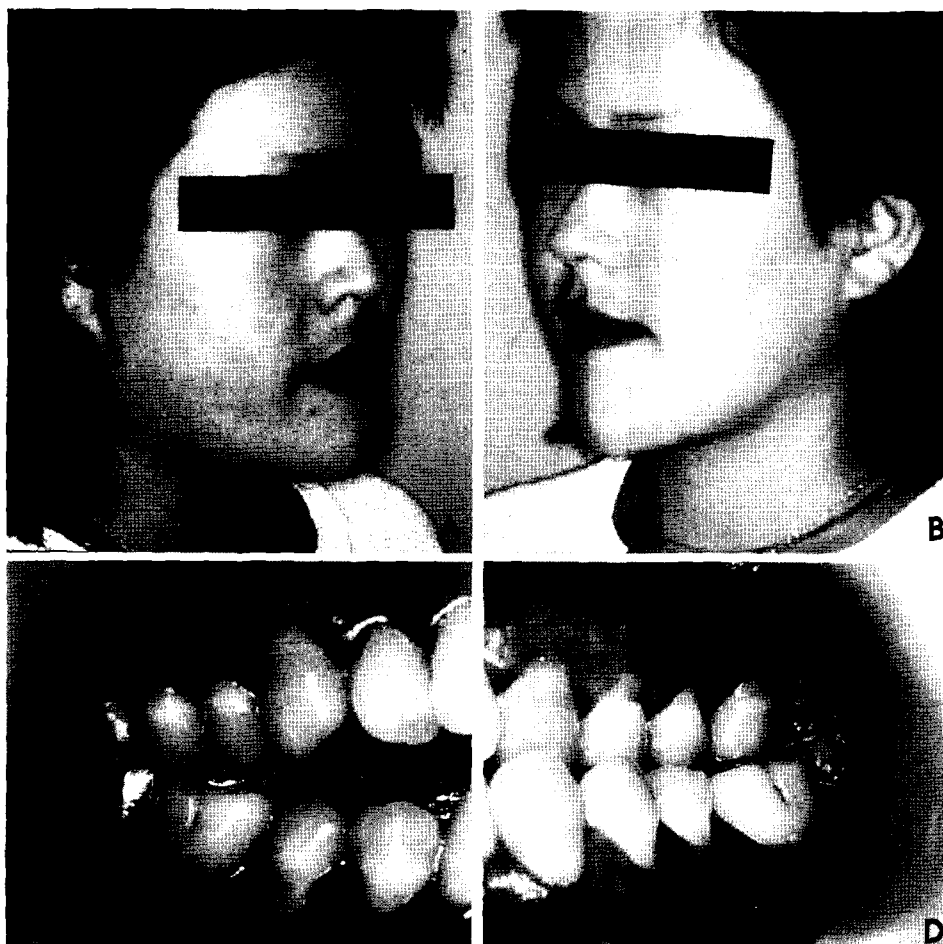


Fig. 1. A, B. Facial photographs show facial asymmetry. C, D. Intra-oral photographs show malocclusion with open bite and cross bite.

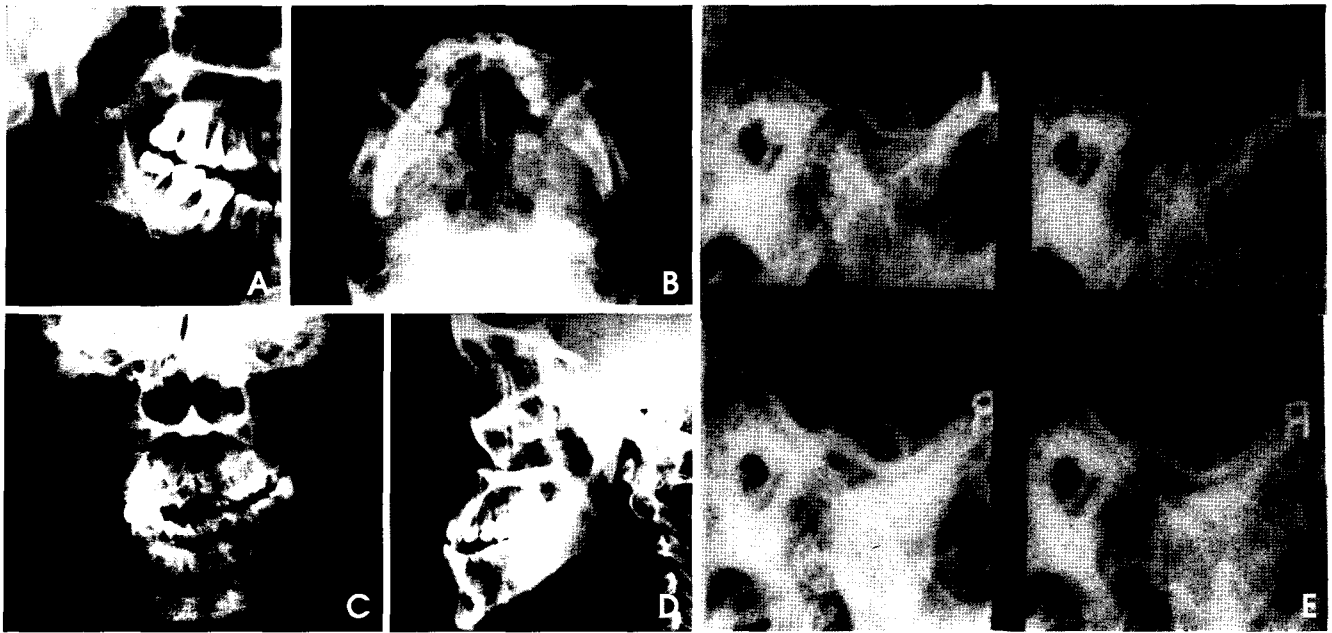


Fig. 2. A, B, C. Panoramic, submentovertex, and posteroanterior mandibular radiographs show irregular condylar enlargement. D. Lateral cephalogram shows positional discrepancy of both mandibular inferior borders. E. Transcranial views show no marked limitation of mandibular condylar movement.

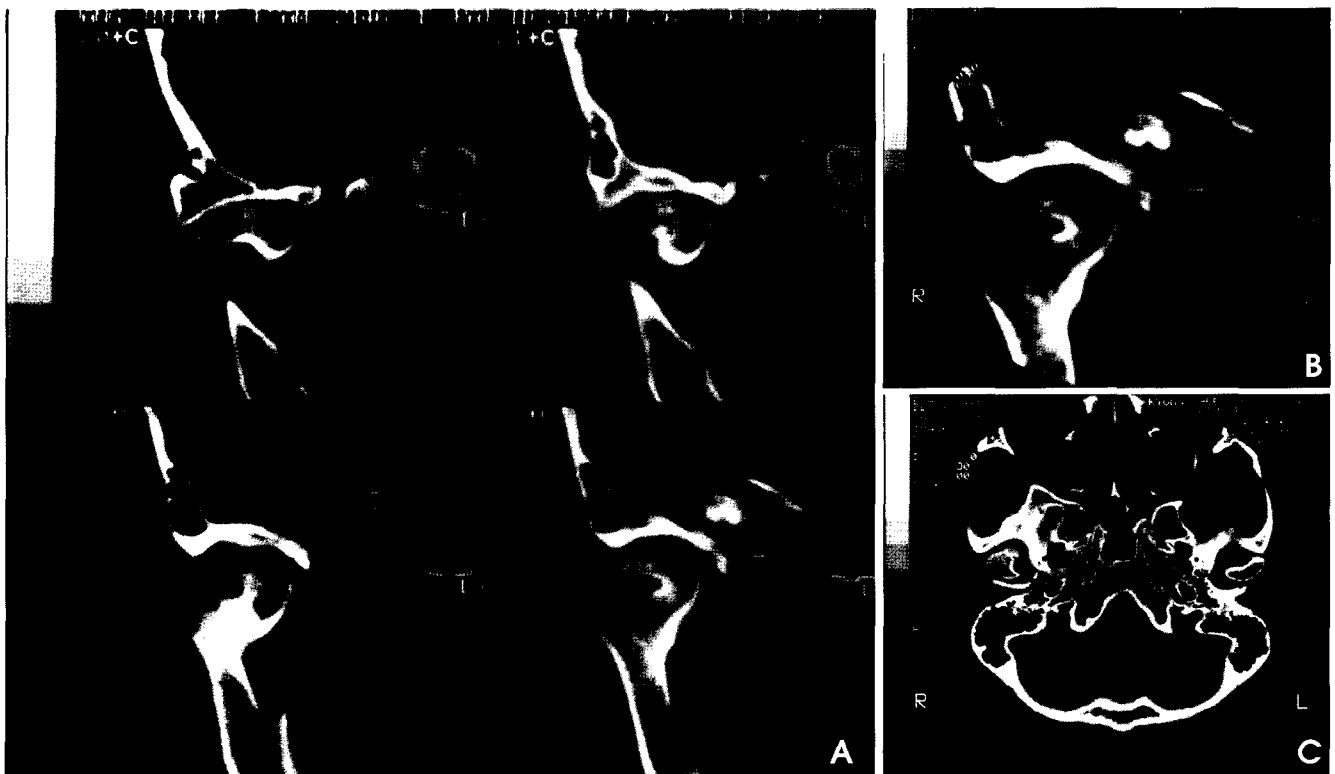


Fig. 3. A, B. Computed tomographs show large and irregular bony growth on anteromedial surface of right mandibular condyle. C. Computed tomograph shows apposition of irregular calcified foci.

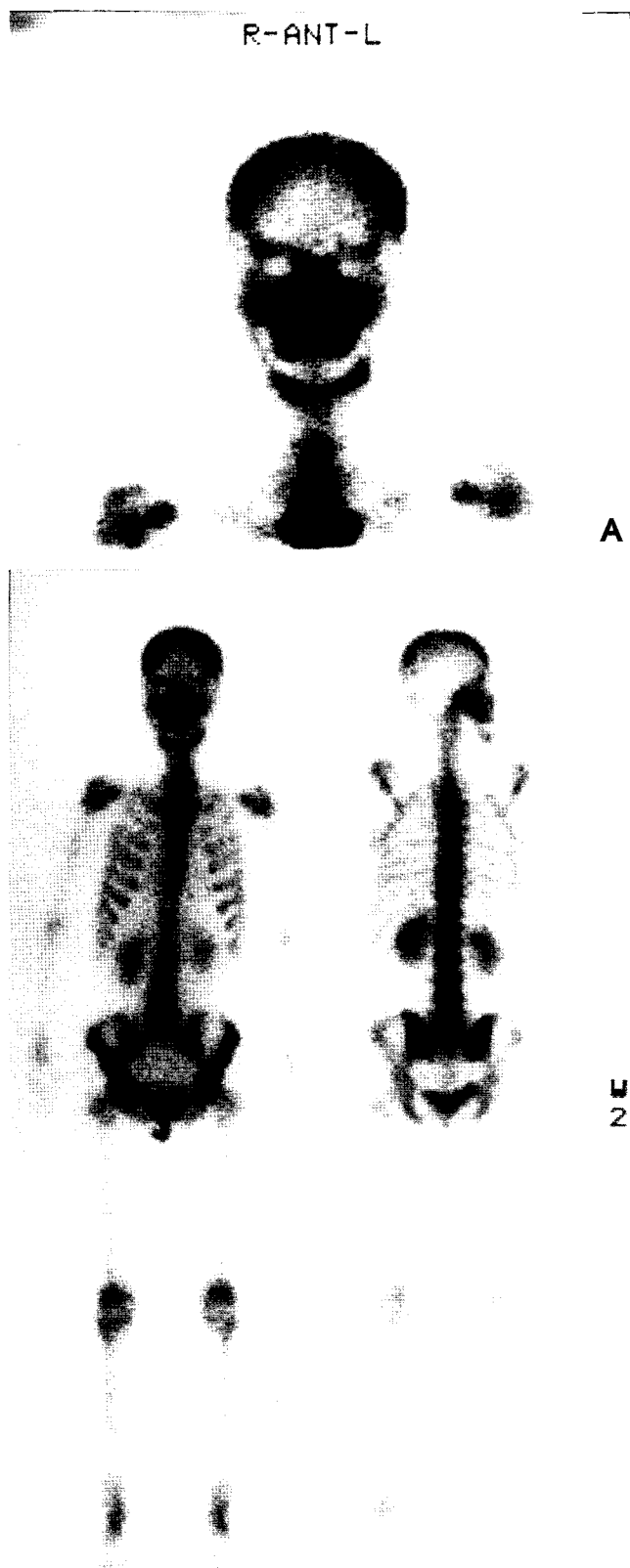


Fig. 4. A, B. ^{99m}Tc-MDP bone scan show increased uptake on right mandibular condylar area.

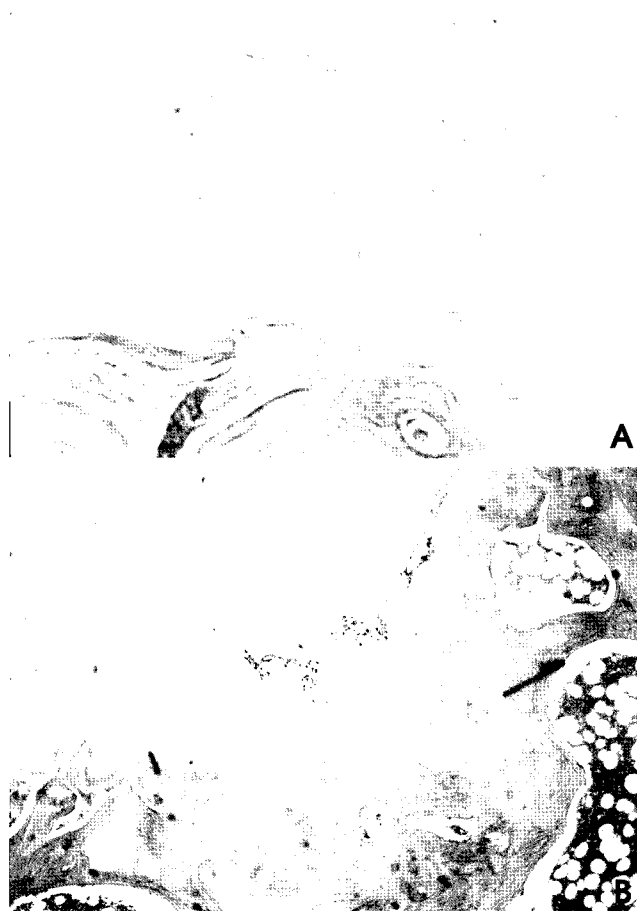


Fig. 5. A, B. Microscopic sections show varying sized chondrocytes and foci of ossification within cartilagenous matrix.

2

다 (Fig. 2E).

전산화단층방사선사진에서는 우측 하악과두에 약 3×3×1 cm 크기의 국소적으로 과증식된 골돌기가 관찰되었으며, 이러한 골돌기는 하악과두의 전내상방에서 시작하여 하악과두의 상방으로 불규칙한 성장양상을 보였다. 또한 하악과두의 피질골과 골돌기의 피질골은 서로 연결되어 있었으며, 피질골의 파괴소견은 관찰되지 않았다 (Fig. 3A, 3B). 또한 하악과두와 골돌기의 내부는 골소주로 채워져 있었으나, 횡단면상에서는 부분적으로 골돌기 전방 부위에 불규칙적인 석회화 침착상이 관찰되었다 (Fig. 3C).

^{99m}Tc-MDP를 이용한 골스캔영상에서는 우측 측두하악 관절부위에 방사성동위원소의 집적이 증가되어 있었고, 그 외의 전신 골격에서는 정상적인 방사성동위원소의 집적이 대칭적으로 관찰되었다 (Fig. 4A, 4B).

B

3. 병리조직학적 소견

환자의 수술 후 조직사진상에서 골수세포가 산재되어 있는 치밀골과 이를 덮고있는 연골성 기질이 관찰되었으며, 연

골성 기질내에는 다양한 크기의 연골세포와 골화부분이 존재하였다 (Fig. 5A, 5B).

고 찰

골연골종은 안면골에서 드물게 발생하는 양성 종양으로서, 안면골에서 발생하는 경우에는 근돌기가 호발부위이나,¹⁴⁻¹⁶ 이 외에도 상악의 후방 부위,¹⁴ 하악정중결합부,⁷ 또는 부정중결합부¹⁴ 및 관골궁¹⁸에서도 발생되는데, 하악과두 부위에 골연골종이 발생하는 경우는 극히 드물다.^{10, 11, 15-17, 19} 하악과두 부위에 골연골종이 발생하는 경우에는 외측 익돌근의 부착부위인 하악과두의 전내측면에서부터 발생하는 경우가 많은데,²⁰ 이는 장골에서도 전 부착부위에서 골연골종이 발생하는 것과 발생위치가 일치되며,⁶ 좌측 하악과두에서 발생될 확률이 우측 하악과두에 비해 좀 더 높은 것으로 보고¹⁹된 바 있다.

하악과두의 골연골종의 발생원인으로는 외상이나 염증이 제시된 바 있는데,¹⁰ Gruca와 Meisels²¹은 만성 중이염이 하악과두의 염증성 과증식을 유발시킬 수 있다고 하였다. 본 증례에서는 환자의 측두하악관절부위에 외상 등의 특기할만한 기왕력이 없었으며, 또한 측두하악관절부위의 뚜렷한 염증성 질환의 증후 및 증상을 관찰할 수도 없었다. 따라서 하악과두의 골연골종의 발생과 관련된 외상 및 염증의 관련성은 불확실한 것으로 사료되며, 이에 관하여서는 향후 지속적인 연구가 필요할 것으로 생각된다.

임상적으로 하악과두에서 골연골종이 발견되는 평균연령은 약 39.6세이며,¹⁶ 여성에게서 약간 더 호발되는 것으로 알려져 있다.^{16, 22} 골연골종은 매우 서서히 증식되기 때문에 수개월에서 수년에 걸쳐 임상 증상이 나타나는데, 하악과두에 골연골종이 발생한 경우에는 안면비대칭과 부정교합이 가장 흔한 주소이다. 또한 교합의 변화로 인해 이 환측에서는 개교합이, 비이환측에서는 교차교합이 나타나고, 하악전돌증을 동반한 악간정중선의 편위도 나타나며, 측두하악관절부위에서는 무통성의 촉진 가능한 종괴가 만져지기도 한다.^{11, 19, 23} 환자는 하악과두의 종괴로 인해 측두하악관절의 심한 동통, 운동제한, 관절잡음, 개구불능 및 두통과 경추의 동통을 호소하기도 하는데, 대개의 경우 하악운동의 제한은 근돌기에 종양이 발생한 경우 흔히 나타난다.¹² 본 증례의 환자는 안면비대칭을 주소로 내원한 26세의 여성 환자로서, 우측 하악과두에서 골연골종이 발생되었으며, 하악과두의 골연골종의 평균 발생연령에 비해서는 비교적 낮은 연령의 환자이었다. 또한 본 증례의 환자의 경우 특이한 임상증상 및 현저한 개구제한 등의 소견을 보이지 않았던 것은 종양의 발생부위와 형태 및 이에 따른 관절와 등의 개형에 의한 것으로 생각된다.

하악과두의 골연골종은 방사선학적으로 골경화상의 종괴로 인해 하악과두가 증대된 소견을 보인다.¹⁰ 형태적으로

는 전반적으로 소엽의 형태를 보이거나, 불규칙적인 외형을 보여 하악과두의 변형을 야기시키는데, 이러한 형태 변화는 하악과두 과증식과의 중요한 감별점의 하나이다.⁸ 또한 병소의 해면골은 정상골의 해면골과 혼재되어 나타나며, 병소가 큰 경우 이와 접촉된 인접골에서는 골침식 소견이 관찰되기도 하는데, 이러한 소견은 일반 방사선사진에서도 관찰이 가능하지만, 전산화단층방사선사진에서 보다 더 선명히 관찰된다.⁸ 전산화단층방사선사진 및 자기공명영상에서는 하악과두의 전내측에 위치한 종양의 외방증식상, 연골성 모자 (cartilagenous cap), 그리고 하악과두의 구조 등을 상세히 파악할 수 있으므로 골연골종의 진단이 용이한데, 특히 전산화단층방사선사진에서는 골연골종의 전체적인 형태 및 접형골의 피질골 침식상을, 자기공명영상에서는 연골성 모자를 가장 잘 관찰할 수 있다.²⁴ 부가적으로 3차원 영상재구성을 시행하면 골연골종의 범위와 형태, 그리고 관절와와 측두하악와의 관계를 보다 명확히 관찰할 수 있으므로 외과적 치료계획을 세우는데 유용하다.²⁴ 본 증례의 경우에는 일반 방사선사진에서 하악과두의 변형은 뚜렷하였으나, 골소주의 파괴상이나 하악과두 내에서 비정상적인 신생골의 형성 소견 등은 관찰되지 않았다. 따라서 하악과두의 과증식과 골연골종으로 가진단하였다. 이후 병소의 정확한 진단을 위해 전산화단층방사선사진촬영을 시행하고, 이를 판독한 결과, 외측 익돌근의 부착부위에 불규칙한 형태의 골돌기와 골돌기 전방부에 부분적인 석회화 침착상을 관찰할 수 있었다. 골연골종이 하악과두에 발생한 경우 방사선학적으로 감별해야할 질환으로는 골종, 연골종, 하악과두의 과증식, 거세포육아종, 점액종, 섬유성 이형성종, 연골육종, 연골형성성 하악과두내 병소 (chondro-genic intrachondylar lesion), 그리고 골연골성 외골증 등이 있는데, 간혹 감별진단이 어려울 때가 있다.^{10, 11, 16, 17, 23} 따라서 하악과두의 골경화성 팽창성 병소의 경우 임상증상과 일반 방사선사진만으로는 진단하기 어려울 때가 많기 때문에 전산화단층방사선사진 및 자기공명영상사진을 병행해서 진단하여야 할 것으로 판단된다. 또한 본 증례의 골스캔영상에서는 우측 측두하악관절부위에서만 방사성동위원소의 집적이 관찰되었으므로 골육종성 변화를 보이기도 하는 다발성 골연골종을 배제시킬 수 있었다.

하악과두에 발생한 골연골종의 조직학적 소견은 연골내 골화가 완료되기 전의 하악과두의 조직학적 소견과 유사하다.²⁵ 대개 종양조직은 연골세포를 함유하는 비후된 세포성 골막의 층으로 이루어져 있으며, 연골성 모자에는 해면골을 형성하는 골화 부분이 있다.²⁵ 연골성 모자는 부분적으로 흡수가 일어나기도 하는데, 특히 성인에서는 연골내 골화에 의한 흡수로 인해 연골성 모자가 전혀 관찰되지 않기도 한다.²⁶ 연골성 모자에서는 세포충실도 (cellularity)가 증가, 또는 감소되어 나타나며, 간혹 이핵의 연골세포 (binucleated chondrocyte)가 관찰되기도 한다.⁸ 본 증례에서

는 다양한 크기의 연골세포를 포함하는 연골성 모자가 하악과두 하방의 치밀골과 비교적 불규칙하게 결합되어 있으며, 또한 그 두께도 불규칙하여 하악과두의 과증식과 감별이 가능하였다.

하악과두에 발생한 골연골종의 외과적 절제 후 병소의 재발은 보고된 바 없으나, 장골 등에 발생한 골연골종의 경우에는 약 2% 정도의 재발율을 보이는 것으로 보고되고 있으며,²² 이는 연골성 모자의 불완전한 제거가 재발의 원인인 것으로 알려져 있다.²² 한편 하악골에 발생한 골연골종에 대한 악성 변이는 아직 보고된 바 없다. 본 증례에서도 술후 2년 동안의 주기적 검사를 통해 재발 및 악성 변이는 나타나지 않았다.

참 고 문 헌

- Dahlin DC, Unni KK. Bone tumors. General aspects and data on 8542 cases. Springfield: Charles C Thomas; 1986. p. 18-32.
- Koole RMH, Steenks TD, Witkamp PJ, Slootweg JS. Osteochondroma of the mandibular condyle. A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1996; 25: 203-205.
- Keith A. Studies on the anatomic changes which accompany certain growth disorders of the human body. *J Anat* 1920; 54: 101.
- Geshickter CF, Copeland MM. Tumors of Bone. 3rd ed. Philadelphia: Saunders; 1963.
- Langenskiold A. The development of multiple cartilagenous exostosis. *Acta Orthop Scand* 1967; 38: 259.
- Lichenstein L. Bone Tumors. 5th ed. St Louis: Mosby; 1977.
- Allan J, Scott J. Osteochondroma of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1974; 37: 556-65.
- Mirra JM. Bone tumors: Clinical, radiologic and pathologic correlations. vol 2. Philadelphia: Lea & Febiger; 1989. p. 1626-60.
- Jaffe HL. Tumors and tumorous conditions of the bones and joints. Philadelphia: Lea & Febiger; 1961. p. 150.
- Keneda T, Torri S, Yamashita T, et al. Giant osteochondroma of the mandibular condyle. *J Oral Maxillofac Surg* 1982; 40: 818-21.
- Keen RR, Callahan GR. Osteochondroma of the mandibular condyle: report of case. *J Oral Surg* 1977; 35: 140-143.
- Sanders B, McKelvy B. Osteochondromatous exostosis of the condyle. *J Am Dent Assoc* 1977; 95: 1151-1153.
- Nwoku ALN, Koch H. The temporomandibular joint: a rare localization for bone tumors. *J Maxillofac Surg* 1974; 2: 113-119.
- Brady FA, Sapp JP, Christensen RF. Extracondylar osteochondromas of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1978; 46: 658-68.
- Forssell H, Happonen RP, Forssell K, et al. Osteochondroma of mandibular condyle: report of a case and review of the literature. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1985; 23: 183-9.
- Vezeau PJ, Fridrich KL, Vincent SD. Osteochondroma of the mandibular condyle: literature review and report of two atypical cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1995; 53: 954-63.
- Henry CH, Granite EL, Rafetto LK. Osteochondroma of the mandibular condyle: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50: 1102-8.
- Pool JW. Osteochondroma of the zygomatic arch: report of a case. *J Oral Surg* 1979; 37: 673.
- Gaines RE, Lee MB, Crocker DJ. Osteochondroma of the mandibular condyle: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50: 899-903.
- Wang-Norderud R, Ragab RR. Osteocartilagenous exostosis of the mandibular condyle. *Scand J Plast Reconstr Surg* 1975; 9: 165-9.
- Gruca A, Meisels E. Asymmetry of the mandible from unilateral hypertrophy. *Ann Surg* 1926; 83: 755.
- Dahlin DC: Bone tumors. 3rd ed. Springfield: Charles C Thomas; 1978. p. 17-27.
- Simon GT, Kendrick RW, Whitlock RH. Osteochondroma of the mandibular condyle: case report and its management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1977; 43: 18-24.
- Tateyuki I, Gerhard S, Hubert L, Kurt L. Osteochondroma of the mandibular condyle: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1996; 54: 495-501.
- Chaudhry A, Robinovitch M, Mitchell D, et al. Chondrogenic tumors of the jaws. *Am J Surg* 1961; 102: 403-11.
- Roy E, Gaines JR. Osteochondroma of the mandibular condyle: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50: 899-903.