

제3족지 근위지골에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증: 1예 보고

Bizarre Parosteal Osteochondromatous Proliferation in the Proximal Phalanx of the Third Toe: A Case Report

노행기 • 전호승 • 전승주 • 문찬삼 • 강서구 • 송경섭*

성애병원 정형외과, *광명성애병원 정형외과

기괴성 방골성 골연골성 증식증은 수부와 족부의 단관골의 표면에 발생하는 양성 종양이다. 치료는 일반적으로 변연부 절제술을 시행하지만 절제 후 국소적인 재발을 잘한다. 국내에서는 족부에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증에 대한 보고가 극히 드물다. 저자들은 44세 여자 환자에서 우측 제3족지의 근위지골에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증을 경험하고 이를 보고하고자 한다.

색인단어: 족지, 기괴성 방골성 골연골성 증식증, 변연부 절제술

골연골종 및 방골성 골육종과 조직학 및 방사선학적으로 구별되는 기괴 방골성 골연골성 증식증(Bizarre Parosteal Osteochondromatous Proliferation)은 1983년 Nora 등¹⁾이 주로 손과 발 등의 크기가 작은 골에 발생한 이상 증식을 보고하면서 알려지기 시작하여 일명 Nora씨 병변으로 불려지기도 한다. 발생 빈도는 드물며, Nora 병변은 골연골종과 유사하지만 재발률이 높고 다른 병변들과 구분되는 임상적, 방사선학적, 조직학적 특징을 나타내는 양성 질환이다.^{1,2)} 국내에서도 족부,³⁾ 수부,⁴⁾ 장골^{5,6)}에 발생한 경우들이 보고된 적은 있으며, 특히 족부에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증에 대한 보고가 극히 드물다. 저자들은 우측 제3족지의 근위지골에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증 1예를 경험하여 보고하고자 한다.

사상 우측 제3족지 근위지골 내측과 배측에 걸쳐 압통성의 단단한 종괴가 26×17 mm 정도로 촉지 되었다(Fig. 1). 원위지 관절의 운동범위 제한이 있었으나 족지에 감각의 이상이나 혈행의 이상은 없었다. 혈액 검사에서 특별한 이상 소견은 없었다. 단순 방사선 촬영과 동위원소를 이용한 골주사 검사, 전산화 단층 촬영 및 자기 공명 영상 촬영 상에서 제3족지 근위지골 내측과 배측에 걸쳐 21×13 mm 크기의 골병변 소견이 있었으며(Fig. 2, 3) 근위지골의 골수강과 연결이 없는, 골 피질 표면에 생긴 양성 종양으로 진단하여 수술을 시행하였다. 수술 소견상 21×13 mm 크기의 불규칙한 황백색의 종물이 관찰되었으며(Fig. 4) 육안적으로는 전형적인 골연골종과 유사하였다. 수술은 정상 피질골과 골막 일부를 포

증례 보고

44세 여자 환자로 수년 전 우연히 발견된 우측 족부 제3족지 근위지골의 배측에 무통성 종괴가 그 크기가 서서히 커졌으며, 내원 4개월 전부터 시작된 동통과 보행장애를 주소로 내원하였다. 과거력상 특별한 외상의 병력이나 가족력은 없었다. 내원시 이학적 검

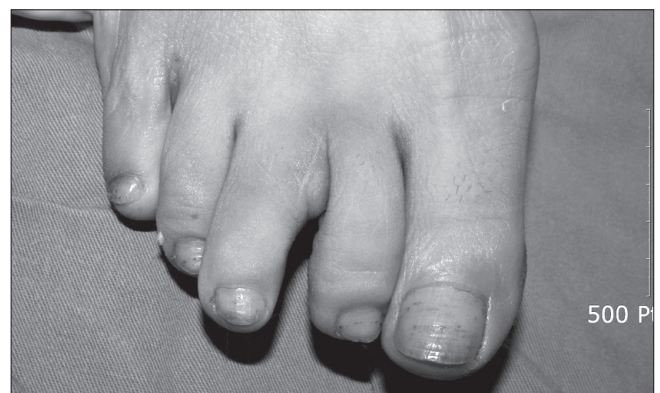


Figure 1. Preoperative photograph shows a bony mass located on the medial-plantar aspect of proximal phalanx of the 3rd toe.

접수일 2011년 9월 30일 심사수정일 2011년 11월 25일 게재확정일 2011년 11월 30일
교신저자 전승주

서울시 영등포구 신길1동 451-5, 성애병원 정형외과
TEL 02-840-7232, FAX 02-840-7755
E-mail jsj232@naver.com

대한골관절종양학회지 : 제17권 제2호 2011 Copyrights © 2011 by The Korean Bone and Joint Tumor Society

"This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited."

합한 변연 절제술을 시행하여 종양을 제거하였다. 절제한 종양 조직의 병리 검사 결과, 기괴 연골세포, 유골, 방추 세포 등의 특징적인 기괴성 방골성 골연골성 증식증의 소견을 보였다(Fig. 5). 수술 후 단순 방사선 검사를 통하여 종괴의 완전 절제를 확인하였다(Fig. 6). 수술 후 환자는 동통이 없이 정상적인 보행이 가능하였다. 술 후 2년 동안 추적 관찰을 시행하였으며, 임상적으로 국소 재발의 소견은 없었다.

고 찰

기괴 방골성 골연골성 증식증(Bizarre Parosteal Osteochondromatous Proliferation)은 1983년 Nora 등¹⁾이 수부와 족부의 소골에 발생한 35예의 종물에서 육안적으로는 골연골증과 유사하나 방사

선 및 조직학적 소견상 골연골증과는 상이한 병변을 발견하여 이를 처음으로 보고하였다. 초기에는 주로 손과 발 등 작은 골에서 발생하는 것으로 보고되었으나, 장골에서도 발생할 수 있는 것으로 알려져 있다. 발생은 남녀에서 비슷한 비율을 보이고 있으며, 20대와 30대에서 발병률이 높고 종괴의 성장 기간은 2개월에서 3년까지로 다양하지만 급격한 성장이 특징적으로 나타나는 경우도 있다고 보고하였다.²⁾ 임상적 증상은 대부분 특이한 소견이 없는 경우가 많고 대부분이 골종괴로 인한 자극증상을 나타낸다. 육안적으로는 전형적인 골연골증과 유사하며 돌출된 종양이 밀착된 섬유조직에 의해 싸여 있으며 이는 정상골의 골막과 연결되어 있다.⁷⁾ 방사선학적으로 경계가 명확한 골 이형성 종괴의 돌출이 있으며 인접 피질골의 골간단과 연결되어 있지만 인접 피질골을 파괴하지 않고 병변 내 연부조직 구성물은 없다.^{1,2,8,9)} 골연골증과는 달리 기괴 방골성 골연골성 증식증은 인접 피질골에서 유래하지만 피질골의 구조를 파괴하지 않고, 종괴와 속주골간의 골수강의 연결이나 피질골의 지속적인 연결은 관찰되지 않으며 표면은



Figure 2. Preoperative radiograph shows a 21×13 mm sized exostotic mass on the medial-plantar aspect of proximal phalanx of the 3rd toe (white arrow). The protruding bony mass does not connect with the medullary cavity of proximal phalanx.

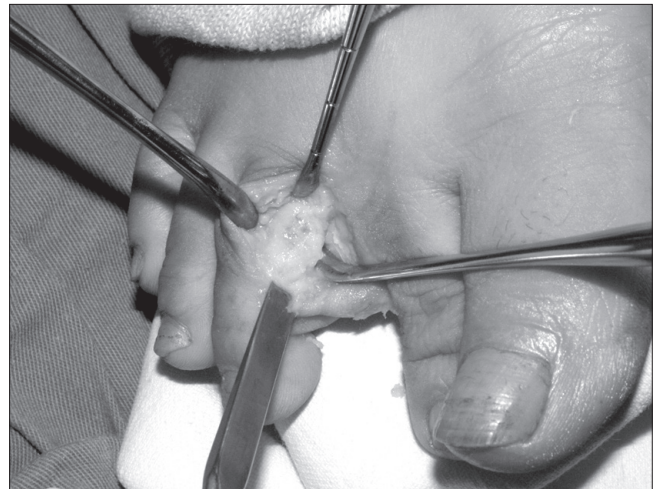


Figure 4. Intraoperative photograph shows a relatively well margined whitish irregular calcified mass.

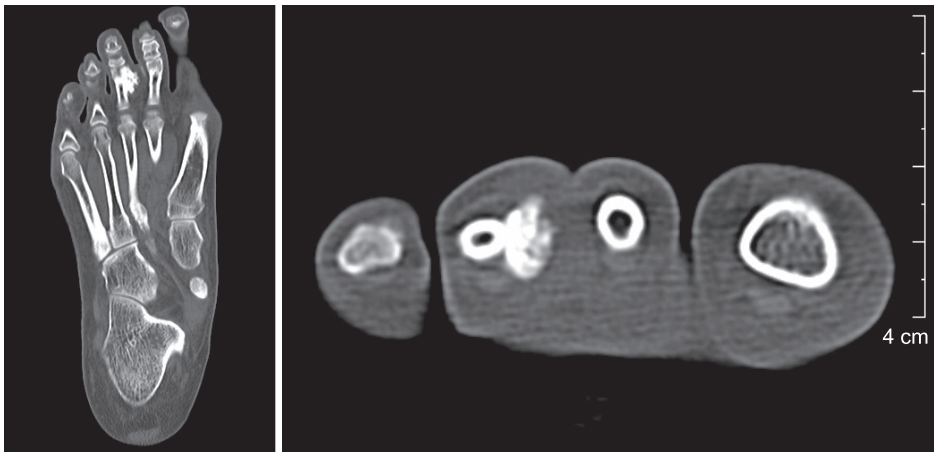


Figure 3. Preoperative computed tomography scans show an irregular and calcified mass of the proximal phalanx.

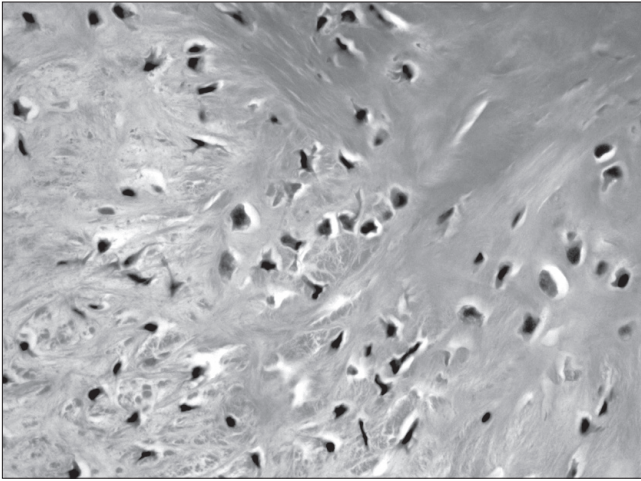


Figure 5. Photomicrograph shows bizarre chondrocyte, osteoid and spindle cells that favor parosteal osteochondromatous proliferation (BPOP).

매우 불규칙적이다. 또한 병변이 진행함에 따라 골의 구조는 좀 더 성숙되면 경계가 뚜렷해진다.²⁾ 본 증례에서도 단순 방사선 사진과 컴퓨터 단층 촬영상 숙주골의 변형은 없었으며 골연골종과는 다르게 종괴와 숙주골의 골수강 연결이나 피질골의 연속성은 없었다.

감별해야 할 질환으로는 골연골종, 피질골 인접 골막 연골종, 조갑하 외골종, 방골성 골육종, 화골성 근염, 이소성 골연골화, 반응성 골막염 등이 있다.

특히 장골에 발생하였을 경우에는 악성 병변인 방골성 골육종과의 감별이 중요하다. 방사선 소견상 기괴 방골성 골연골 증식증은 불규칙한 석회화, 분엽화된 표면, 그리고 종괴가 붙은 부위의 골피질이 두꺼워 보인다는 점에서 방골성 골육종과 다르며 조직학적으로는 기괴 방골성 골연골성 증식증은 좀 더 크기가 작고 가늘고 불규칙한 골소주를 보이며, 방골성 골육종에서 보이는 주위 연부 조직으로의 침습이나, 비전형 세포 분열상을 보이는 섬유세포와 유골이 섬유성 기질과 혼재되어 있는 섬유성 비전형이 없다는 점에서 감별할 수 있다.²⁾

기괴 방골성 골연골 증식증은 조직학적으로는 연골, 골, 방추상 세포로 구성되어 있으며 연골은 방추상 세포나 섬유성 세포 배경 안에 정렬되어 있다. 본 증례에서도 수술 후 조직학적 소견상 기괴 연골세포, 유골 세포, 방추 세포 등이 모두 관찰되는 특징적인 기괴 방골성 골연골성 증식증의 소견을 보였다.

기괴 방골성 골연골 증식증의 치료는 단순 절제술에 의한 종괴의 완전한 제거로 알려져 있으나, 재발율이 높은 질환으로 Nora 등은 35예 중 18예(51%)에서 재발, 이 중 8예(22%)가 2회 이상 재발하였다고 보고하고 있으며,¹⁾ Meneses 등도 55%의 재발율과 20%에서는 2번 이상의 재발율을 보고하였다.²⁾ 이러한 생물학적 성장과 비정형적 조직 소견에도 불구하고 기괴 방골성 골연골성



Figure 6. Postoperative radiograph shows no evidence of local recurrence.

증식증은 양성 병변으로 다른 유사 종양과는 구별이 되며, 국소 절제술로 치료가 가능하지만 이러한 재발로 인하여 장기간 추시 관찰이 중요한 것으로 생각된다.

본 증례에서는 술 후 2년 추시상 단순 방사선 검사상 종괴의 재발은 보이지 않았다. 저자들은 우측 제3족지의 근위지골에 발생한 기괴성 방골성 골연골성 증식증에서 수술적 치료 후 2년 추시 관찰상 재발소견을 보이지 않는 1예를 경험하고 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Nora FE, Dahlin DC, Beabout JW. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of hands and feet. *Am J Surg Pathol.* 1983;7:245-50.
2. Meneses ME, Unni KK, Swee RG. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of bone (Nora's lesion). *Am J Surg Pathol.* 1993;17:691-7.
3. Chung DW, Lee JH, Bae SC. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (Nora's lesion): a case report. *J Korean Soc Surg Hand.* 2002;7:101-4.
4. Kang HJ, Cho NH, Park JH, Ha JW. Nora's lesion in the foot. *J Korean Foot Ankle Soc.* 1998;2:48-51.
5. Kim KT, Lee S, Kim JH, Ji MK, Park JS, Park KY. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (Nora's-lesion) which affects humeral shaft: a case report. *J Korean Bone & Joint Tumor Soc.* 2004;10:142-6.
6. Shin BK, Cho HD, Yum BW, Choi JS, Kim CH. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of the femur (Nora's

- lesion): a case report. J Korean Bone & Joint Tumor Soc. 1999;5:178-81.
7. Spjut HJ, Dorfman HD. Florid reactive periostitis of the tubular bones of the hands and feet. A benign lesion which may simulate osteosarcoma. Am J Surg Pathol. 1981;5:423-33.
 8. Breidahl WH, Wylie EJ. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of the hands and feet. Australas Radiol. 1995;39:401-4.
 9. Twiston Davies CW. Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation in the hand. A case report. J Bone Joint Surg Am. 1985;67:648-50.

Bizarre Parosteal Osteochondromatous Proliferation in the Proximal Phalanx of the Third Toe: A Case Report

Haeng-Kee Noh, M.D., Ho-Seung Jeon, M.D., Seung-Joo Jeon, M.D.,
Chan-Sam Moon, M.D., Seo-Goo Kang, M.D., and Gyung-Sub Song, M.D.*

*Department of Orthopedic Surgery, Sung-Ae Hospital, Seoul, *Kwangmyung Sung-Ae Hospital, Gwangmyeong, Korea*

Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (BPOP) otherwise known as Nora's lesion, is a benign surface tumor of the small tubular bone of the hands and feet with high probability of local recurrence. The report of BPOP in the foot is very rare in our country. We report a case of BPOP of proximal phalanx of right 3rd toe in 44-year-old female, successfully managed by en-bloc marginal excision with a review of the literatures.

Key words: toe, bizarre parosteal osteochondromatous proliferation, marginal excision

Received September 30, 2011 **Revised** November 25, 2011 **Accepted** November 30, 2011

Correspondence to: Seung-Joo Jeon, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Sung-Ae Hospital, 451-5, Shingil-1-dong, Youngdeungpo-gu, Seoul 150-960, Korea

TEL: +82-2-840-7232 **FAX:** +82-2-840-7755 **E-mail:** jsj232@naver.com