삼피질골의 분절성형 골이식을 통한 거골 거대 동맥류성 골낭종의 치료 1예: 증례 보고

이승진, 이효범, 김갑래, 김동현

강동성심병원 정형외과

Treatment of a Huge Aneurysmal Bone Cyst of the Talus through a Segmental Bone Graft of the Tricortical Bone: A Case Report

Seung-Jin Lee, Hyobeom Lee, Gab-Lae Kim, Donghyeon Kim

Department of Orthopedic Surgery, Kangdong Sacred Heart Hospital, Seoul, Korea

An aneurysmal bone cyst (ABC) can occur in many parts of the human body, but a primary ABC of the talus is extremely rare. ABCs are benign, but aggressively growing tumors that usually occur in the first two decades of life. Patients mainly complain of pain, limited movement of the involved joint or a palpable mass. Pain may worsen suddenly because of pathological fractures. If not treated properly, ABC has a risk of local recurrence, followed by the destruction of the joint and a significant functional deficit. While the complete removal of the bone tumor is essential, it is also important to treat the resultant bone defect after removal. The talus has an important part to play in weight-bearing. Therefore, an appropriate bone graft is required for large bone defects that occur after an ABC removal from the talus. We report a primary ABC of the talus in a 28-year-old male that was treated by curettage and a bone pillar pattern graft of autologous tricortical iliac crest bone. The patient had an excellent functional outcome with early weight-bearing, and there was no recurrence at 16 months of follow-up.

Key Words: Talus, Aneurysmal bone cyst, Bone graft

동맥류성 골낭종은 일반적으로 20세 이하에서 주로 장골(long bone)의 골간단(metaphysis)에 발생하고, 약 20%에서 척추에 발생하며, 주로 요추부에서 발생하는 특징이 있는 양성 골종양의 하나이다.¹⁾ 골 내부에 비응고성 혈액으로 구성되어 있으며 확장된 혈관 조직 및 여러 개의 방(multiloculated)으로 구성된 낭성 변화가 관찰되는 점이 특징이며 임상적으로 매우 빠른 속도로 성장하기 때문에 방사선 소견상 악성으로 판단하기 쉬운 질환이다. 거골의 용해성 병변이 있는 환자에서 동맥류성 골낭종 외에 다른 감별 질환의 가능성을

염두에 두고 있어야 하며, 영상 검사만으로는 거골에 발생한 동맥류성 골낭종과 거대세포종 등을 구별하기 어려울 수 있다.²⁾ 따라서 정확한 진단 및 감별진단을 배제하기 위해서 조직검사가 시행되며 수술적 제거 이후 발생하는 골결손에 대하여 골이식술을 같이 진행하게 된다. 거골은 족관절을 구성하고 있으며 체중부하 관절면을 지지하는 위치의 골결손에 대한 적절한 골이식술이 중요하다.³⁾

본 증례에서 28세 남성의 거골 체부 외측에 발생한 연골조직을 침범하지 않은 동맥류성 골낭종을 임상증상 및 영상, 조직학적 검사 결과로 진단하였다.

거골 외측에 접근하기 위해 비골 원위부에 절골술을 시행하고 병변 내 낭종의 경계를 포함하는 변연절제술을 진행하였다. 변연절제술로 인해 발생한 거골 체부의 70%를 차지하는 면적의 결손에 대하여 장골능선에서 확보한 삼피질골을 기둥 형태로 성형하여 자가골이식술을 시행하였다.

본고는 골낭종의 제거 이후 거골 체부에 발생한 큰 골결손 부위에

Received August 23, 2021 Revised October 9, 2021

Accepted October 14, 2021

Corresponding Author: Gab-Lae Kim

Department of Orthopedic Surgery, Kangdong Sacred Heart Hospital, 150

Seongan-ro, Gangdong-gu, Seoul 05355, Korea

Tel: 82-2-2224-2230, Fax: 82-2-489-4391, E-mail: kiga9@hanmail.net

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0282-1721>

Financial support: None.

Conflict of interest: None.

Copyright © 2021 Korean Foot and Ankle 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/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

치밀한 골이식을 위하여 기둥 형태로 성형한 자가 삼피질골을 이용해 골이식술을 시행한 이후 조기 체중부하 재활 및 만족스러운 관절 운동의 회복과 영상의학적 검사 결과를 얻었기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

본 연구는 본원 임상연구심의위원회(Institutional Review Board)로부터 승인을 받아 진행되었음을 밝힌다.

증례 보고

28세 남자 환자로 약 1년 전부터 보행 시 악화되는 우측 족관절의 통증 및 종창을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이 소견은 없었으며

Figure 1. [A~C] Radiolucent oval cystic lesions on the lateral body of the talus with reactive sclerotic borders on preoperative ankle radiographs.

내원 당시 촉진되는 종물이나 관절운동 제한은 없었다. 단순 방사선 검사상 거골 외측 체부에 저음영의 타원형 낭성 병변이 확인되었으며, 반응성 경화성 경계를 보였다(Fig. 1). 골절이나 피질골의 손상을 보이지 않았으며, 병변 주변으로 골막 반응을 시사하는 변화도 확인되지 않았다. 혈액검사, 소변검사, 혈액화학검사 등은 모두 정상이었다.

자기공명영상 촬영(magnetic resonance imaging, MRI) 검사상 거골 체부에 족관절 관절연골의 손상 없이 연골하골까지 침범하며 경계가 명확한 거골 체부의 70%를 차지하는 크기의 다엽성 낭종이 관찰되었다. T1강조영상에서 저신호강도(Fig. 2A, B), T2강조영상에서(Fig. 2C, D) 고신호강도로 확인되었다. 병변을 둘러싼 주변골의 부종이 관찰되었으며 피질골의 손상은 관찰되지 않았다. 진찰 소견 및 방사선학적 검사상 거골의 동맥류성 골낭종을 의심하여 병변 내 소파술 및 자가골 이식술을 계획하였다. 입원 시 시행한 American Orthopaedic Foot and Ankle Society (AOFAS) ankle-hindfoot functional score는 56점이었다.

수술 방법으로 우측 족관절 외측으로 10 cm의 J자 모양 절개를 가하였으며 연부조직을 박리하고 비골을 노출시킨 뒤 방사선 투과기로 병변의 위치를 확인하고 병변 접근을 위해 비골 원위부 절골술을 시행하였다(Fig. 3). 거골 외측벽에 메스를 이용하여 족관절 연골면을 주의하면서 $2 \times 2 \text{ cm}^2$ 크기의 창(window)을 만들었고(Fig. 3B), 이 창을 통하여 내부에 적색의 액체 및 다엽성 낭종을 관찰할 수 있

Figure 2. On the preoperative magnetic resonance imaging, the T1 image shows a well-delineated low-signal intensity lesion (A, B). The T2 image shows the high-signal intensity image (C, D). Multiple fluid lines and peripheral edema of the talus body without breakage or soft tissue expansion are observed.

Figure 3. (A) Distal fibular osteotomy was performed to access the lateral talar wall. (B) A window was created on the lateral talar wall by mess.

었다. 적색의 액체를 제거하고 낭성 종괴 및 엽을 구성하고 있는 막에 대하여 소파술을 시행하였다. 거골의 골결손에 대한 골이식술을 위하여 전상장골극(anterior superior iliac spine)의 2 cm 후방에서 장골능을 따라 알맞은 크기의 삼면 피질골을 채취하였고(Fig. 4), 채취한 자가골과 거골의 골결손 부위 간의 모양 차이를 확인하였다. 치밀한 골이식술을 위해 삼면 피질골을 2.5 cm 높이의 직육면체 모양의 기둥 형태로 성형하여 골결손 부위에 빈틈 없이 위아래로 세워서 10개의 골기둥을 삽입하였으며(Fig. 5), 준비해둔 동종골을 함께 섞어서 골이식술을 시행하였다(Fig. 5). 단단히 고정된 골이식을 확인한 이후 거골 외측벽에 확보한 창을 흡수성 봉합사로 봉합하였고(Fig. 5), 절골술을 시행한 비골 원위부에 금속판, 금속나사를 이용하여 내고정술을 시행하였다.

수술 후 시행한 조직검사 결과상 낭종 내부는 섬유성 격(septa)으로 나누어져 있었으며 파골세포와 유사한 거대세포(Fig. 6A), 구형 또는 방추형의 단핵세포, 유골(osteoid) 등이 서로 불규칙하게 엉켜 있는 골조직이 관찰되었다. 세포학적 비정형성 및 유사분열은 관찰되지 않았다(Fig. 6B).

수술 후 감염 등의 합병증은 보이지 않았으며, 수술 과정에서 4주

간 단하지 석고고정을 시행하였으며 목발을 이용해 체중부하를 제한하였다. 수술 4주 후 석고고정을 제거한 이후 점진적으로 보조기와 목발을 이용하여 부분 체중부하를 실시하였다. 수술 8주 후부터 족관절과 거골하 관절에 대하여 수동적으로 관절운동 재화와 전체 체중부하를 실시하였다. 수술 8주 후까지 2주 간격으로 외래 추시와 함께 단순 방사선 검사를 시행하였으며 환자에게 체중부하 및 수동적 관절운동 재화에 대한 교육을 진행하였다. 수술 후 15개월간 추시 관찰하였으며, 체중부하 이후 확인된 단순 방사선 사진상에 보이는 이상은 없었고 수술 전에 호소하던 보행 시의 통증과 불편함도 사라졌다. 수술 15개월 후 단순 방사선 사진상 비골 원위부 절골술 부위의 골유합이 관찰되었으며 거골 체부에 소파술을 시행한 부위는 피질골 골절이나 관절면의 손상 없이 유지되었다(Fig. 7). 따라서 골유합이 이루어진 원위부 비골에 위치한 금속제거술을 시행하였다. 수술 후 시행한 컴퓨터 단층촬영(computed tomography, CT) 영상에서 비골 원위부 절골술을 실시한 부분의 골유합 및 자가 골이식을 실시한 부위에 적절한 골유합이 이루어졌으며, 재발로 보이는 병

Figure 4. Autologous bone in the form of tricortical bone was harvested from the iliac crest.

Figure 5. Tricortical bone was divided and molded into 2.5 cm high cuboid-shaped pillars and bone pillars were implanted through a window by turning them standing up and down without any gaps in the bone defect.

Figure 6. Bone graft was done with autologous iliac bone columns and allogenic bone (A) and window was repaired with absorbable suture (B).

Figure 7. On medium magnitude power, microscopic finding shows basically thin various cystic septa structures. These septa are composed of loosely arranged spindle cells, benign multinucleated giant cells and some inflammatory cells. Also, there is no atypia at spindle cells (H&E, x200) (A). Microscopic finding shows predominantly solid area, at which spindle cell proliferation and several giant cells are prominent. Also, there are some foci of reactive new bone formation (H&E, x200) (B).

Figure 8. (A~C) On the postoperative 15 months ankle radiographs show bone union of the distal fibula osteotomy site. Ankle joint and talar height were maintained without cortical bone fracture or damage of the articular surface.

변이 없음을 확인할 수 있었다(Fig. 8). 금속 제거술 후 CT 결과상 거골 체부에 치밀하게 이식되었음을 확인할 수 있었다(Fig. 9). 4주째 환자는 통증 없이 등산, 스포츠 활동을 포함한 일상생활을 하였으며, 수술 후 AOFAS ankle-hindfoot score는 수술 전 56점에서 94점으로 호전되었다.

고 찰

동맥류성 골낭종은 1950년 Jaffe²⁾와 Lichtenstein⁴⁾에 의해 처음 보고되었으며, 양성 골종양으로 70% 이상이 20세 이하에서 발생한다.⁵⁾ 동맥류성 골낭종을 동반할 수 있는 양성 골종양으로는 거대세포종양, 연골 점액양 섬유종, 연골모세포종 등이 있으며 악성 종양으로는 골육종 등이 있다.¹⁾ 동맥류성 골낭종은 반응성으로 생각되는 양성 병변으로 보통 장골의 골간단 내에 한쪽으로 치우치거나 중앙에 위치하며 팽윤되는 것이 특징적인 소견이다. 하지만 일부의 경우 피질골을 손상시키고 연부조직까지 팽윤되기도 하는데 이때는 종괴의 변연부에 석회화의 얇은 띠가 관찰된다.²⁾ 하지만 영상학적 검사

소견만으로 동맥류성 골낭종과, 단순 골낭종, 거대세포종양, 연골 모세포종 등을 구분해 내는 것은 매우 어렵다.⁶⁾ 그러므로 임상적 및 영상학적 소견으로 동맥류성 골낭종이 의심되더라도 다른 감별진단의 가능성을 고려하는 점이 중요하다. 따라서 동맥류성 골낭종의 진단은 조직병리 소견이 중요하며, 파골세포와 유사한 다핵거대세포들이 섞여 있는 소견을 보인다. 동맥류성 골낭종의 대부분은 골 형성 부위를 가지고 있는데 이 부위에는 느슨하게 배열되는 방추성 세포들이 증식되어 있다. 특히 이 세포들은 유사분열을 하기도 하지만, 비정형 유사분열이나 세포학적 비정형성은 관찰되지 않는다.⁷⁾

일반적으로 장골에 발생하는 동맥류성 골낭종의 치료로 소파술을 시행한다. 빠르게 성장하는 동맥류성 골낭종의 특징상 소파술 이후 골결손 부위는 광범위한 경우가 많고 결손 부위에 골이식술을 시행한다. 거골은 비골 원위부와 경골의 원위부, 종골, 주상골 등 여러 개의 뼈로 둘러싸여 있어 거골의 동맥류성 골낭종은 수술적 접근이 어려운 특징이 있다. 여러 저자들이 거골 내에 국한된 골용해성 병변에 대하여 비골 원위부나 경골 내측 절골술을 이용한 접근방법과 소파술 및 자가골 이식으로 좋은 결과를 보고한 바가 있다.^{8,9)} 삼면 피질골을 이용한 자가골 이식술을 시행한 이후 12주간 체중부하를 금하였으며 골종양의 재발 없이 만족스러운 골유합과 얻었으나 족관절 배굴 제한에 대한 재활운동을 실시한 보고가 있다.¹⁰⁾ Manjunatha와 Thimmegowda¹¹⁾의 보고에 따르면 삼면 피질골이 아닌 자가 해면골을 이용하여 이식술을 시행하고 12주간 체중부하를 금한 이후 골유합을 얻었으나 족관절의 강직을 보고한 바가 있다.

본 증례의 경우, MRI에서 족관절 연골 하골까지의 침범이 있었으나 연골 및 관절면의 침범은 없었으며 낭종 주변으로 골종창을 확인할 수 있었다. 접근하기 어려운 거골 내에 국한된 골용해성 병변에 대하여 비골 원위부 절골술을 시행하였으며 거골 외측벽에 창을 확보한 이후 광범위 소파술을 시행하였다. 골결손 부위에 대하여 자가 삼피질골을 성형하여 골이식을 시행하였다. 삼피질골을 바로 이식하지 않고 치밀하게 골이식이 이루어질 수 있도록 자가 삼피질골을 기

Figure 9. [A, B] After surgery for metal remove, computerized tomography scan shows no evidence of talar dome collapse. Proper bone union was achieved at the site of autologous bone graft and distal fibular osteotomy, there were no recurrent lesions.

등모양으로 성형한 이후 골결손 부위로 견고하게 이식을 시행하였다. 일반적으로 거골의 70%에 해당하는 골결손에 대한 골이식술 이후 체중부하는 주의해서 진행하여야 한다. 본 보고에서는 삼피질골을 골기둥 모양으로 성형하여 견고하게 골이식을 시행하였고, 수술 후 4주부터 목발을 이용하여 체중부하를 점진적으로 시작하였고 수술 후 8주부터는 전체 체중부하를 실시하였다. 수술 후 영상의학적 검사상 적절한 골유합과 관절운동 제한 없이 환자의 임상적 증상 호전을 확인할 수 있었다.

수술적 소파술 이후 골결손 부위가 광범위할 경우, 자가골 이식술 시 자가골을 골기둥 형태로 성형하여 결손 부위에 치밀하게 이식하는 것이 수술 이후 재발 방지 및 골유합뿐만이 아닌 조기 재활과 체중부하를 가능하게 하여 환자에게 수술 후 만족스러운 예후를 기대할 수 있을 것이다.

ORCID

Seung-Jin Lee, <https://orcid.org/0000-0001-8951-0039>

Hyobeom Lee, <https://orcid.org/0000-0003-3334-9180>

Donghyeon Kim, <https://orcid.org/0000-0003-3808-795X>

REFERENCES

1. Cybulski GR, Anson J, Gleason T, Homsy MF, Reyes MG. Aneurysmal bone cyst of the thoracic spine: treatment by excision and segmental

- stabilization with Luque rods. *Neurosurgery*. 1989;24:273-6. doi: 10.1227/00006123-198902000-00020.
2. Jaffe HL. Aneurysmal bone cyst. *Bull Hosp Joint Dis*. 1950;11:3-13.
3. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Villafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. *J Clin Oncol*. 2005;23:6756-62. doi: 10.1200/JCO.2005.15.255.
4. Lichtenstein L. Aneurysmal bone cyst. A pathological entity commonly mistaken for giant-cell tumor and occasionally for hemangioma and osteogenic sarcoma. *Cancer*. 1950;3:279-89. doi: 10.1002/1097-0142(1950)3:2<279::AID-CNCR2820030209>3.0.CO;2-F.
5. Silverberg SG, DeLellis RA, Frable WJ. *Principles and practice of surgical pathology and cytopathology*. 3rd ed. New York: Churchill Livingstone; 1997.
6. Park JS, Suh JS, Choi JY. Chondroblastoma of the talus mimicking an aneurysmal bone cyst: a case report. *J Korean Foot Ankle Soc*. 2019;23:31-4. doi: 10.14193/jkfas.2019.23.1.31.
7. Rosai J. *Rosai and Ackerman's surgical pathology*. 9th ed. Edinburgh: Mosby; 2004.
8. Dhillon MS, Singh B, Gill SS, Walker R, Nagi ON. Management of giant cell tumor of the tarsal bones: a report of nine cases and a review of the literature. *Foot Ankle*. 1993;14:265-72. doi: 10.1177/107110079301400506.
9. Luna AR, Fahandez-Saddi H, Garcia AV, Reina Cde J, Martin JV. Aneurysmal bone cyst in children involving infrequent locations. Report on two cases. *Chir Organi Mov*. 2004;89:347-52.
10. Sharma S, Gupta P, Sharma S, Singh M, Singh D. Primary aneurysmal bone cyst of talus. *J Res Med Sci*. 2012;17:1192-4.
11. Manjunatha V, Thimmegowda RB. Aneurysmal bone cyst of talus- a case report. *In J Sci Res Rev* 2016;5:52-9.