

3

두개저까지 확장된 측두하악관절의 윤활막 연골종증의 희귀 증례

¹동아대학교 의과대학 구강악안면외과학교실

²동아대학교 의과대학 병리학교실

홍기은¹, 박 준¹, 윤지연¹, 김정한¹, 김철훈¹, 한송희², 김복주¹

ORCID ID

Ki-Eun Hong,  <https://orcid.org/0000-0003-3358-8325>

Jun Park,  <https://orcid.org/0000-0002-0790-4884>

Ji-Eon Yun,  <https://orcid.org/0000-0002-4928-7327>

Jung-Han Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-3469-6136>

Chul-Hoon Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-2719-1922>

Song-Hee Han,  <https://orcid.org/0000-0002-4564-7014>

Bok-joo Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-7654-2418>

ABSTRACT

A rare case of temporomandibular joint synovial chondromatosis with cranial base extension

¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Dong-A University

²Department of Pathology, College of Medicine, Dong-A University

Ki-Eun Hong¹, Jun Park¹, Ji-Eon Yun¹, Jung-Han Kim¹, Chul-Hoon Kim¹, Song-Hee Han², Bok-Joo Kim¹

Synovial chondromatosis is an uncommon benign lesion in which the synovial membrane within the joint forms cartilaginous nodules and loose bodies due to cartilaginous metaplasia. It is rare to develop in the temporomandibular joint, and may be accompanied by cranial base expansion or temporal bone morbidity. A 41-year-old male patient visited our hospital complaining of preauricular pain and crepitus. On CT and MRI, increased synovial fluid in the joint cavity, loose body, temporal bone erosion and cranial base expansion were observed. It was diagnosed as synovial chondromatosis through imaging and clinical symptoms. After arthrocentesis, the symptoms slightly decreased, and arthrotomy was performed for complete resolution of the pain. The patient's pain and crepitus were resolved, and no recurrence of the lesion was observed.

Key words : temporomandibular joint, synovial chondromatosis

Corresponding Author

Bok-joo Kim, DDS, PhD, Associate Professor

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Dong-A University, 26, Daesingongwon-ro, Seo-gu, Busan, 49201, Republic of Korea.

Tel : +82-51-240-5470 / fax : +82-51-241-5475 / Email : omsbjkim@dau.ac.kr

서론

윤활막연골종증은 흔하지 않은 양성병소로 관절 내에 윤활막의 연골성 변성으로 인하여 연골성 결절 및 유리체(loose body)를 형성하는 질환이다¹⁾. 이 질환은 주로 큰 관절에 발생하는데 무릎, 고관절, 팔꿈치 관절순으로 호발한다²⁾. 측두하악관절에 발생하는 경우는 흔하지 않으며, 1993년 Georg Axhausen에 의해 처음 알려진 후 많은 보고가 있었다³⁾.

측두하악관절에 발생하는 윤활막연골종증의 여성과 남성의 발현비율은 5:3이며 발생연령대는 20대에서 60대까지 다양하나 주로 60대에 호발한다²⁾. 발생원인은 정확히 밝혀지지 않았으며 전이개부 동통, 부종, 개구제한, 염발음 등 측두하악관절 관련증상을 동반한다^{4,5)}. 하지만 이러한 비특이적 임상증상들은 다른 측두하악관절질환에 동반되는 증상들로서 윤활막연골종증으로 명확히 진단하기까지 오랜 기간이 소요되기도 한다. 이러한 이유로 적절한 치료가 늦어질 경우 병소의 측두골 이환과 두개저 확산이 나타나기도 한다.

단순 방사선영상에서 측두하악관절강 내외 주위에 결절들이 관찰되는 것이 윤활막연골종증의 특징이지만, 골연골골절(osteochondral fracture), 퇴행관절염(degenerative arthritis), 무혈관괴사(avascular necrosis), 박리뼈연골염(osteochondritis dissecans), 신경성관절병(neurogenic arthropathy) 등의 질환에도 결절들이 관찰되기 때문에 이에 대한 감별진단이 필요하다⁶⁾.

윤활막연골종증의 초기단계에서는 석회화된 결절이 관찰되지 않는다. 그러므로 정확한 진단을 위해서는 추가적인 방사선학적 검사를 필요로 한다. 관절강내시경(arthroscopy), 컴퓨터단층촬영 또는 자기공명영상을 촬영함으로써 더욱 쉽게 진단할 수 있다. 치료방법으로 보존적인 방법은 약물치료, 관절강세척술 등이 있지만 병소의 완전한 제거가 어렵기때문에 수술적 접근법으로 해결하

는 것이 일반적이다⁷⁾.

본 증례에서는 윤활막연골종증을 진단받은 환자에게 관절강세척술 및 외과적으로 치료한 증례를 발표하고자 한다.

증례보고

기저질환이 없는 41세 남성환자가 좌측 귀주변 통증 및 염발음을 주소로 본원으로 의뢰 되었다. 내원 당시 환자는 타병원에서 이미 임상적 증상 및 방사선학적 검사로 윤활막연골종증으로 가진단된 상태였다. 본원에서 파노라마 사진을 추가로 촬영하였다(Fig. 1). 타병원 컴퓨터단층촬영, 자기공명영상에서 측두하악관절강 내에 증가된 윤활액과 석회화된 결절들이 관찰되고 중두개와(middle cranial fossa)에 낭종성 병소가 1.9x1.5x1.2cm크기로 관찰되었다. 수술을 이용한 치료방법에 대해 설명하였으나 환자가 거부하며 보존적치료만을 원하였다. 따라서 좌측 측두하악관절부위에 관절강세척술을 시행하였으며 그 결과 점도가 높은 삼출물과 윤활액이 배출되었다(Fig. 2). 관절강세척술을 해당부위에 총 4회 실시하였고 통증이 감소하는 경향을 보였다. 그러나 통증 및 염발음에 대한 증상이 완전히 해소되지 않았다. 컴퓨터단층촬영과 자기공명영상을 추가 촬영하여 내원 당시와 비교하였을 때 측두하악관절 내부에 존재하는 병소의 크기 및 위치 변화는 관찰되지 않았으나 측두골의 squamous part mastoid air cell에 유사 병변이 추가로 관찰되었다(Fig. 3,4). 측두하악관절강 내 및 두개저 병소 절제와 동시에 측두골 상의 병소를 함께 제거하기 위해 신경외과와 협진수술을 계획하였다.

전신마취하에 전이개부접근법으로 측두하악관절의 상관절강을 개방했다. 관절강내에 2~5mm 구형의 유리체들을 총 80개 이상 제거하였으며 주변의 윤활막을 부분적

CASE REPORT



Figure. 1. Preoperative Panoramic radiograph. No radiographic features of synovial chondromatosis were observed.



Figure. 2. Exudate discharged after Arthrocentesis.

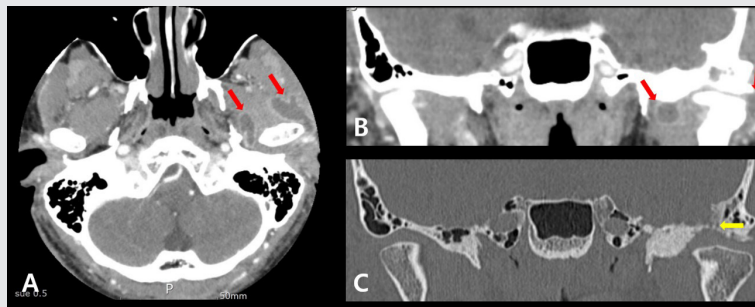


Figure. 3. Preoperative CT image. (A) Axial view of enhanced CT. (B) Coronal view of enhanced CT. (C) Coronal view of CT. The preoperative CT image shows enlargement of the joint cavity on the enhanced CT image (A,B red arrow) and bone erosion of the temporal bone on the CT image (C yellow arrow).

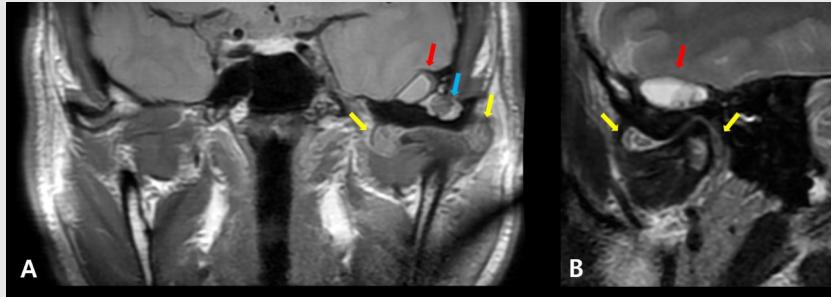


Figure. 4. Preoperative MRI (T2) images. (A) Coronal view. (B) Sagittal view. The preoperative MRI image showed a cystic lesion (red arrow) at the base of the skull, a lesion in the temporal squamous cell area (blue arrow), and anterior, posterior, medial, and lateral calcified nodules (yellow arrow) in the left temporomandibular joint cavity.



Figure. 5. More than 80 loose bodies with a size of 2-5 mm located in the joint cavity have been removed.

으로 제거하였다(Fig. 5). 전이개부 상방으로 연장한 추가 절개부위를 통해 측두골의 측면에서 천두공(burr hole)을 형성하였다. 병소는 경막외에 위치하였고 뇌척수액 누출은 없었다. 측두골의 병소와 중두개와에 위치한 낭종성 병소의 일부 낭종벽을 제거한 후 천두공부위를 titanium mesh로 고정하였다. 채취한 조직을 H-E 염색하였고 조직검사 결과, 윤활막 결합조직 내부에서 호염기성 연골

기질과 세포 증식으로 이루어진 다결절 유리체가 관찰되었다(Fig. 6).

수술 전과 수술 후 컴퓨터단층촬영과 자기공명영상을 비교하였을 때 관절강 내의 병소와 중두개와에 위치한 낭종성 병소는 제거되었으나 측두골의 squamous part mastoid air cell의 병소는 일부 남아 있는 것을 볼 수 있다(Fig. 7,8). 하지만 수술 후 8개월까지 통증 및 염발음

CASE REPORT

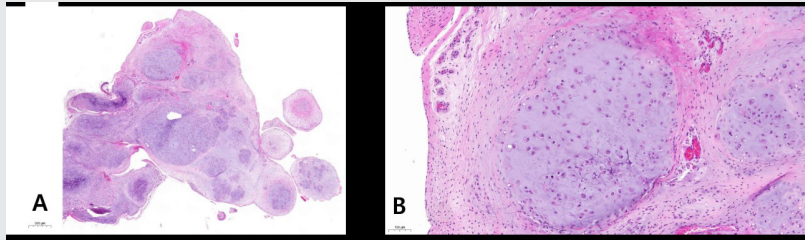


Figure. 6. Histologic images. A. Multi-nodular masses composed of basophilic cartilage matrix and cell proliferation are observed inside the synovial connective tissue.(H&E, X10) B. Synovial membrane, cartilage matrix, and chondrocytes are observed.(H&E, X100)

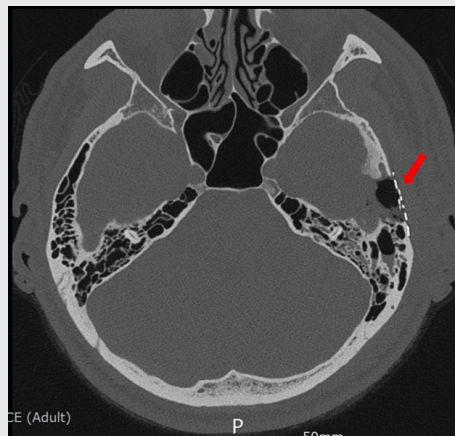


Figure. 7. Postoperative CT image. A titanium mesh was applied to the burr hole on the side of the temporal bone.

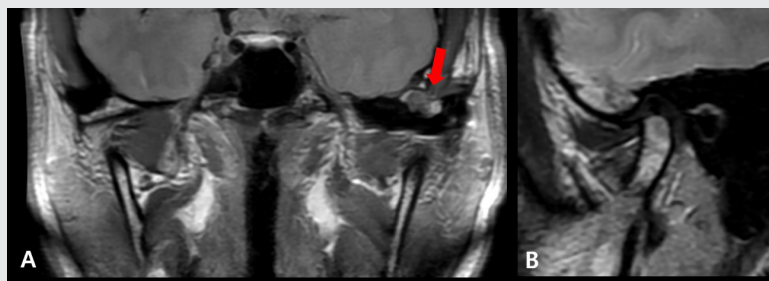


Figure. 8. MRI(T2) image 6 months after surgery. (A) Coronal view. (B) Sagittal view. The loose body removal of the mandibular condyle can be confirmed with an MRI image taken 6 months after surgery. It can be seen that the lesion remains in the temporal squamous part mastoid air cell (red arrow).

이 해소되었고 수술 전 개구량이 45mm로 수술 후 개구량 42mm까지 회복되었으며 중두개와 및 측두하악관절강 내에 추가적인 병소가 관찰되지 않았다. 또한 측두골의 squamous part mastoid air cell의 병소의 크기 변화는 관찰되지 않았다.

고찰

윤활막연골종증은 윤활막의 중간엽조직 잔사의 화생(metaplasia)으로 인해 형성된 연골성 결절, 유리체로 인해 발생한다. 동통, 부종, 개구제한, 염발음 등을 동반하며 때로는 청각소실 또는 안면신경 이상을 나타내기도 한다⁸⁾. 단순 방사선영상만으로는 윤활막연골종증을 진단하기 쉽지 않지만 종종 넓어진 관절강, 관절의 불규칙한 표면 또는 석회화된 유리체가 관찰되기도 한다⁹⁾. 현재는 관절강내시경, 컴퓨터단층촬영 및 자기공명영상을 통해 진단이 용이해졌다^{10,11)}.

윤활막연골종증이 있는 경우 컴퓨터단층촬영의 영상에서 악관절부위의 연조직 부종, 석회화된 유리체, 두개저의 골변화를 관찰할 수 있다. 자기공명영상에서는 피질골의 침식(erosion), 경화, 골증식 등의 골변화는 뚜렷하게 관찰되지 않지만 다량의 윤활액, 관절강의 팽창 등이 관찰되며 유리체를 미세하게 관찰할 수 있다¹²⁾. 두개저의 골변화가 있는 경우 두개내 확장을 의심해 볼 수 있다¹³⁾. 병소가 천천히 진행되면서 연골결절들이 윤활막에서 분리되어 관절강에 위치하게 된다. 그리고 결절의 석회화가 진행되면서 크기가 커지며 윤활막 또한 비대해진다. 이러한 과정이 진행되면서 관절부위의 침식이 발생하고 이하선 또는 측두골 내로 병소가 확장되기도 한다¹⁴⁾.

윤활막연골종증은 조직학적으로 3단계로 나눌 수 있다. 1단계에서는 윤활막에 제한된 화생이 관찰된다. 2단계에서는 윤활막의 화생과 함께 관절강에서 분리된 결절들이

관찰된다. 3단계에서는 1~10mm까지의 다양한 결절들이 관절강에서 분리된다¹⁵⁾. 본 증례의 환자는 관절강에 분리된 다양한 크기의 유리체가 관찰되며 측두골에 병소의 확장이 관찰되므로 2단계에 해당될 수 있다고 하겠다.

윤활막연골종증을 치료하기 위해 일반적으로 유리체 제거와 일부 윤활막을 제거하는 관절절개술을 시행한다⁷⁾. 본월에 내원한 환자는 수술에 대한 거부감이 컸기에 관절절개술에 앞서 먼저 보존적인 방법을 고려해야 했다. 유리체의 크기가 작거나 극심한 동통을 감소하기 위해 관절강세척술을 시행할 수 있다. 보고된 바에 따르면 유리체의 크기가 0.4~0.8mm인 경우 관절강세척술만으로도 환자의 동통 및 개구제한 등의 임상증상이 개선되고 관절강세척술 후 18개월 이후에도 재발이 발생하지 않았다고 한다¹⁶⁾. 또다른 보존적 치료방법으로 Interleukin-1 α 를 관절강 내에 주입함으로써 유리체의 성장을 저해하거나 분해하는 방법도 보고되었다¹⁷⁾. 하지만 병소의 크기가 큰 경우는 관절절개술, 윤활막절제술 등의 수술이 필요할 수 있다.

본 증례에서는 환자의 관절절개술을 계획하였다. 관절절개술로는 두개저로 확장된 낭종성병소와 측두골 내 이환부위를 제거하기 위해 관절강 상방의 측두골 침식부위로 접근하는 것에 한계가 있을 것으로 판단하였고 측두골의 측면에서 접근하는 수술이 필요하여 신경외과와 협진을 계획하였다. 두개저로 확장된 낭종성병소는 피질골화로 경계가 명확하여 제거하였지만 측두골 내의 이환부위는 mastoid air cell의 벌집모양의 구조로 일부를 제거하지 못했다.

윤활막연골종증에 대한 추적기간은 문헌마다 다양하며 수술 후 3개월, 1년, 3년까지의 추적기간을 요구하고 있다¹⁸⁾. 재발률은 낮은 편으로 문헌에 따르면 윤활막연골종증을 진단받은 환자 75명 중 61명이 수술을 시행하였고 이중 3명에게 재발이 확인되었다⁹⁾. 재발이 확인된다면 추가적인 수술시 윤활막절제술을 포함한 좀 더 침습적인 방

법을 선택해야 한다. 강직(ankyloses)이 존재한다면 관절 용기절제술(Condylectomy)이 필요할 수도 있다²⁰⁾.

결론

측두골 및 두개저까지 확장된 측두하악관절에 발생한

윤향막연골증상을 가진 환자에서 관절강 세척술을 시행하여 통증이나 증상의 호전은 있었지만 관절절개술 및 측두골 측면 접근법을 통해 병소를 제거함으로써 환자의 주소를 해결하였다. 수술 후 8개월까지 재발은 관찰되지 않았으나 지속적인 경과관찰이 필요하다.

참 고 문 헌

- Holmlund AB, Eriksson L, Reinholt FP. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: clinical, surgical and histological aspects. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2003;32(2):143-147
- von Lindern JJ, Theuerkauf I, Niederhagen B, Bergé S, Appel T, Reich RH. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: clinical, diagnostic, and histomorphologic findings. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2002;94(1):31-38
- Blankestijn, J., Panders, A.K., Vermey, A. and Scherpbier, A.J.J.A. Synovial chondromatosis of the temporo-mandibular joint. Report of three cases and a review of the literature. *Cancer.* 1985;55:479-485
- Forssell K, Happonen RP, Forssell H. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Report of a case and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1988;17(4):237-141
- Ronald JB, Keller EE, Weiland LH. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Journal of Oral Surgery (American Dental Association : 1965).* 1978;36(1):13-19
- Milgram JW. The classification of loose bodies in human joints. *Clinical Orthopaedics and Related Research.* 1977;124:282-291
- Mendonca-Caridad JJ, Schwartz HC. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: arthroscopic diagnosis and treatment of a case. *J Oral Maxillofac Surg.* 1994;52(6):624-5
- Rosati LA, Stevens C. Synovial Chondromatosis of the Temporomandibular Joint Presenting as an Intracranial Mass. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1990;116(11):1334-1337
- Noyek AM, Holgate RC, Fireman SM, Rosen P, Pritzker KP. The radiologic findings in synovial chondromatosis (chondrometaplasia) of the temporomandibular joint. *The Journal of otolaryngology. Supplement.* 1977;3:45-48
- Nokes SR, King PS, Garcia R Jr, Silbiger ML, Jones JD 3rd, Castellano ND. Temporomandibular joint chondromatosis with intracranial extension: MR and CT contributions. *AJR Am J Roentgenol* 1987;148:1173-1174
- Dolan EA, Vogler JB, Angelillo JC. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint diagnosed by magnetic resonance imaging: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1989;47:411-413.
- Kim HG, Park KH, Huh JK, Song YB, Choi HS. Magnetic resonance imaging characteristics of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *J Orofac Pain.* 2002;16(2):148-153
- Yu Q, Yang J, Wang P, Shi H, Luo J. CT features of synovial chondromatosis in the temporomandibular joint. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004;97(4):524-528
- Reddy PK, Vannemreddy PS, Gonzalez E, Nanda A. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint with intracranial extension. *J Clin Neurosci.* 2000;7(4):332-324
- Milgram JW. Synovial osteochondromatosis: a histopathological study of thirty cases. *J Bone Joint Surg Am.* 1977;59(6):792-801
- Adachi PL, Kaba SP, Martins MT, Hueb CH, Shinohara EH. Arthrocentesis in the treatment of loose bodies of the temporomandibular joint associated with synovial chondromatosis. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2008;46(4):320-321
- Ikebe T, Nakayama E, Shinohara M, Takeuchi H, Takenoshita Y. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: the effect of interleukin-1 on loose-body-derived cells. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1998;85(5):526-531
- Lee Mui Lee, Yao Min Zhu, Dan Di Zhang, Yong Qiang Deng, Ying Gu., Synovial Chondromatosis of the Temporomandibular Joint: A clinical and arthroscopic study of 16 cases. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery.* 2019;47(4):607-610
- Xingguang Liu, Zhongyang Huang, Wangyong Zhu, Peisheng Liang, Qian Tao. Clinical and Imaging Findings of Temporomandibular Joint Synovial Chondromatosis: An Analysis of 10 Cases and Literature Review. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery.* 2016;74(11):2159-2168
- Miyamoto H, Sakashita H, Wilson DF, Goss AN. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2000;38(3):205-208