

Fig. 3. The section from mesentery, showing characteristic osteoid deposits and intervening aggressive cells with osteoblastic differentiation and frequent mitosis. (H & E, ×200)

이후 계속하여 추적하던중 또다시 둔부 연조직에 큰 종괴가 재발함과 동시에 직장폐쇄증상이 있어 1986년 8월 9일 다시 입원하여 결장개구술을 시행하였다. 수술소견상 직경 7cm 크기의 종괴가 부분적으로 골반골에 유착이 되어 있었으나 골과의 직접 연결은 없었으며, 0.2~1cm 크기의 수많은 소결절들이 장간막에 파종되어 있어 결장개수술과 함께 몇개의 소결절만 절제생검하고 수술을 마쳤다.

절제생검하여 받은 조직은 1×1×0.8cm 크기의 소결절을 포함하여 몇개의 작은 소결절들로서 섬유지방조직으로 싸여 있었으며 육안소견상 절단면은 붉은 기운이 감도는 황회색이었고 괴사나 출혈은 볼 수 없었다.

광학현미경 소견상 유골질을 형성하는 골아세포들과 유골질내에는 간혹 다형태의 세포가 있었고 간질은 빈번한 유사분열을 보이는 간질세포들과 함께 풍부한 혈관의 증식을 볼 수 있었다(Fig. 3).

전자현미경 소견상 종양세포는 불규칙하며 함입된 핵이 뚜렷한 핵소체를 가지고 있으면서 세포질내에는 많은 과립성내형질세망이 확장되어 있는 모습을 보였고, 종양세포인 골아세포 주위에는 다소의 차이는 있으나 불규칙하게 배열하고 있는 교원질섬유를 갖는 유골질도 볼 수 있었다.

## 고 찰

방사선조사후 성골외골육종의 진단을 위하여는 몇가지 충족사항이 있어야 하는데 이들은 1) 과거에 방사선치료를 받은 부위중 연조직에서 생긴 종양이어야 하고, 2) 방사선치료를 한 후 상당한 잠복기가 있어야 하며, 3) 조직학적으로 골육종과 일치하여야 한다는 것이다. 이러한 사항외에 종양의 상층의 연조직에서 두꺼워진 피부, 모세혈관확장 그리고 방사선동맥염등의 만성 방사선피부염과 위축성혈관변화가 있어야 한다<sup>4)</sup>.

연조직에서 생기는 골육종의 조직형성은 아직 분명히 이해되지 않고 있으나, 몇가지 설이 있다<sup>5)</sup>. 즉, 첫째는 골외골육종이란 기본적으로는 섬유육종이 주변환경으로 인해 수동적으로 골화하여 생기는 것이란 견해를 보이고 있고, 골형성을 하는 방추세포육종을 골육종이라고 하는 것 보다는 화생성골형성을 동반하는 섬유육종이라고 하는 것이 더 논리적이라고 주장하기도 한다. 둘째, 설은 종양성 섬유아세포가 골아세포로 분화하여 골형성을 하므로써 골외골육종이 된다고 믿고 있다. 한편 Binkley와 Stewart<sup>6)</sup>는 어떠한 주변환경으로 인해 모세혈관벽이 초자화되고 더 나아가 혈관계쇄, 허혈현상이 생기고 무

산소혈중에 이르게 되면 유리화된 부위에서 석회화와 골화가 생기게 되며, 이러한 과정에서 악성종양이 여러 형태로 나타날 수 있는데 악성종양이 시작될 때 심한 석회화나 골화가 있게 되면 골육종과 아주 유사하다고 한다<sup>1)</sup>.

본 증례는 종양 윗부분의 연조직에서 aggressive fibromatosis의 소견과 함께 방사선 동맥염 및 위축성 혈관변화등 방사선조사로 인한 조직학적 변화를 보이고, 방사선조사후 골외골육종에서의 증축사항으로서 23년이라는 상당한 기간의 잠복기가 있었고, 방사선치료를 받은 부위의 연조직에서 종양이 생겼으며, 조직학상 골육종이 분명한 점 등을 갖추고 있으므로 방사선조사후성 골외골육종으로 진단하는데 무리가 없다고 생각한다.

한편 본 증례에서 방사선조사후 골외골육종의 조직형성은 종양주위 연조직에서 방사선조사로 인해 생긴 것이 분명한 aggressive fibromatosis가 있는 점으로 보아 방사선조사후성 골외골육종의 전 단계로서 aggressive fibromatosis를 생각할 수 있으며, 여기서 악성종양으로 변하는 과정에서 섬유아세포가 골아세포로 분화하여 골형성을 하므로써 골육종이 된다고 생각된다. 또한 aggressive fibromatosis와 골육종을 볼 수 있었으나 섬유육종은 볼 수 없었던 점으로 미루어 방사선조사후 골외골육종의 조직형성과정 중 섬유육종이 반드시 있다고는 할 수 없다.

## 결 론

57세된 주부가 자궁경부암종으로 수술 및 방사선치료를 받은 후 23년만에 방사선치료를 받은 부위의 연조직에서 골육종과 aggressive fibromatosis가 발생하였고 골육종의 주위 연조직에서 방사선동맥염 및 위축성 혈관변화를 볼 수 있어 과거의 방사선조사로 인하여 생긴 골외골육종 및 aggressive fibromatosis로 생각하였고, 골육종의 조직형성으로는 aggressive fibromatosis가 악성변화를 하는 과정에서 섬유아세포가 골아세포로 분화하여 골형성을 하므로써 방사선조사후성 골외골육종이 된다고 생각했다.

## REFERENCES

1) Auerbach O, Friedman M, Weiss L, Amory HI:

*Extraskeletal osteogenic sarcoma arising in irradiated tissue. Cancer 4:1095, 1951*

2) Alpert LI, Abaci IF, Werthamer S: *Radiation-induced extraskeletal osteosarcoma. Cancer 31:1359, 1973*

3) Kauffman SL, Stout AP: *Extraskeletal osteogenic sarcomas and chondrosarcomas in children. Cancer 16:432, 1963*

4) Boyer CW, Navin JJ: *Extraskeletal osteogenic sarcoma. Cancer 18:628, 1965*

5) Allan CJ, Soule EH: *Osteogenic sarcoma of the somatic soft tissue. Cancer 27:1121, 1971*

6) Binkley JS, Stewart FW: *Morphogenesis of extraskeletal osteogenic sarcoma and pseudoosteosarcoma. Arch Pathol 29:42, 1940*

7) 하정용, 조덕연, 김기용 : 골반골에 발생한 조사후발골육종. 1에보고, 대한정형외과학회잡지 12:529, 1977

## — Abstract —

### Postirradiation Extraskeletal Osteosarcoma (A case associated with aggressive fibromatosis)

Hyomin Kim, M.D., Je Geun Chi, M.D.  
Yong Il Kim, M.D. and Eui Keun Ham, M.D.

Department of Pathology, College of Medicine,  
Seoul National University

A case of postirradiation extraskeletal osteosarcoma with aggressive fibromatosis of the overlying soft tissue of radiation field is reported in a 57 year old house wife who was treated with operation and radiation therapy for cervix carcinoma of the uterus 23 years ago.

The overlying aggressive fibromatosis showed characteristic radiation angiitis and atrophic vascular changes such as hyaline degeneration and obliteration of the capillaries which were highly compatible with radiation changes. She also had multiple osteogenic sarcoma in pelvic cavity, occurring in the mesentery bed.

As for the histogenesis in this case, we thought the possibility that fibroblasts went through a process of differentiation into osteoblasts that were responsible for bone formation in the process of malignant change of the aggressive fibromatosis.

## 방사선조사후성 골외골육종 —Aggressive fibromatosis를 동반한 1예—

서울대학교 의과대학 병리학교실

김효민 · 지제근 · 김용일 · 합의근

### 서 론

### 증 례 보고

골조직 이외에서 골육종이 생기는 경우는 매우 드물며 특히 과거에 방사선 치료를 받은 것이 원인이 되어생기는 이른바 방사선조사후성 골외골육종(postirradiation extraskeletal osteosarcoma)은 더욱 드물어 1951년 Auerbach등<sup>1)</sup>이 처음 증례보고를 한 이래 1973년 Alpert 등<sup>2)</sup>이 1예를 보고한 것까지 문헌상 6예에<sup>1-6)</sup> 불과하다 (Table 1). 우리나라에서는 방사선조사후 골에 발생한 골육종에 대한 증례보고<sup>7)</sup>는 있었으나 골외골육종에 대해서는 아직 보고된 예가 없다.

저자들은 23년전 자궁경부암종으로 수술후 방사선치료를 받은 사람에게서 생긴 방사선조사후성 골외골육종 1예를 경험하였기에 이 예를 보고코자 한다.

환자는 57세의 주부로서 23년전 자궁경부암종으로 근치적 자궁적출술을 받고 이어 5,000 Rads로 추정되는 방사선 조사를 받았다. 이 당시만 해도 방사선 치료가 우리나라에 있어서는 초창기였기 때문에 정확한 사항은 알 수 없으나 추정하건데 골반부위에 적어도 5,000 Rads의 방사선 조사가 있었다고 생각된다.

환자는 1985년 8월 9일 20×15 cm 크기의 둔부 종괴와 직경 4 cm의 천추부종괴를 주소로 서울대학교병원에 입원하여 생검을 시행한 결과 aggressive fibromatosis로 진단을 받았다. 그후다시 천추부종괴가 점차 커져 8×4 cm에 달하여 1986년 1월 9일 다시 입원하여 생검한 결과 역시 aggressive fibromatosis로 진단을 받았다.

**Table 1.** Summaries of postirradiation extraskeletal osteosarcoma in the literature

	Primary tumor	Age at time of radiation	Radiation dosage	Latent interval	Tumor location	Clinical course
Auerbach etc. (1951)	Seminoma	23	4000 rads skin dose	4 yrs	Lumbar soft tissue	Local & metastatic recurrence, Death in 3 yrs
Kauffman etc. (1963)	Retino-blastoma	1	14387 rads tissue dose	11 yrs	Orbital soft tissue	Local recurrence, Death in 3 months
Boyer & Navin (1965)	1. Seminoma	29	4500 rads skin dose	4 yrs	Lumbar soft tissue	Extensive local recurrence with 25 % paraplesia
	2. Malignant teratoma	33	5400 rads skin dose	10 yrs	Anterior abdominal wall	Local recurrence, Death in 13 months
Allan & Soule (1971)	Melanoma	26	Extensive	27 yrs	Shoulder	Alive 2 yrs after forequarter amputation
Alpert etc. (1973)	Breast Ca.	33	2400 rads 8 fractions	8 yrs	Chest wall	No recurrence in 6 month after local excision
Present case	Uterine cervix Ca.	34	5000 rads (?)	23 yrs	Pelvic cavity soft tissue	Local recurrence

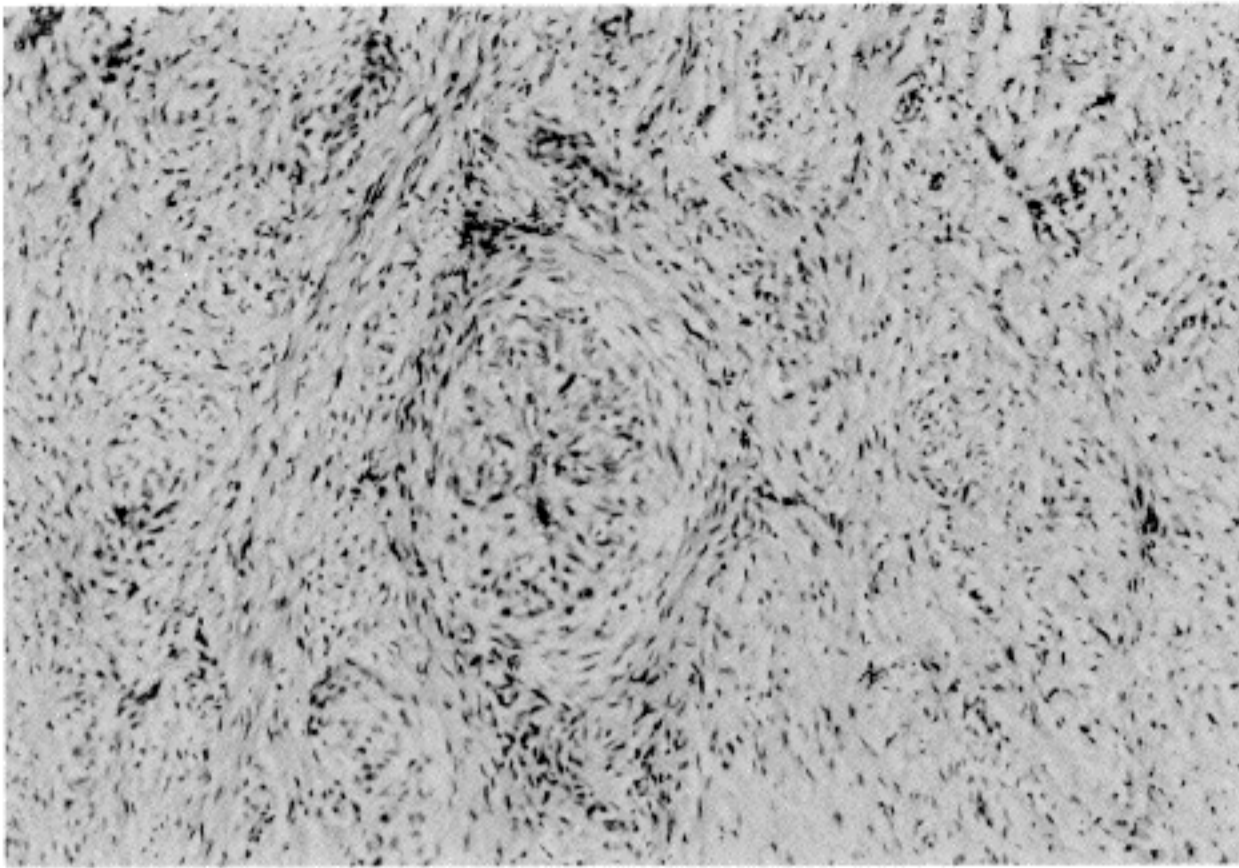


Fig. 1. Photomicrography of aggressive fibromatosis showing a central focus of vasculitis with endothelial proliferation and surrounding fibrous tissue. (H & E,  $\times 100$ )

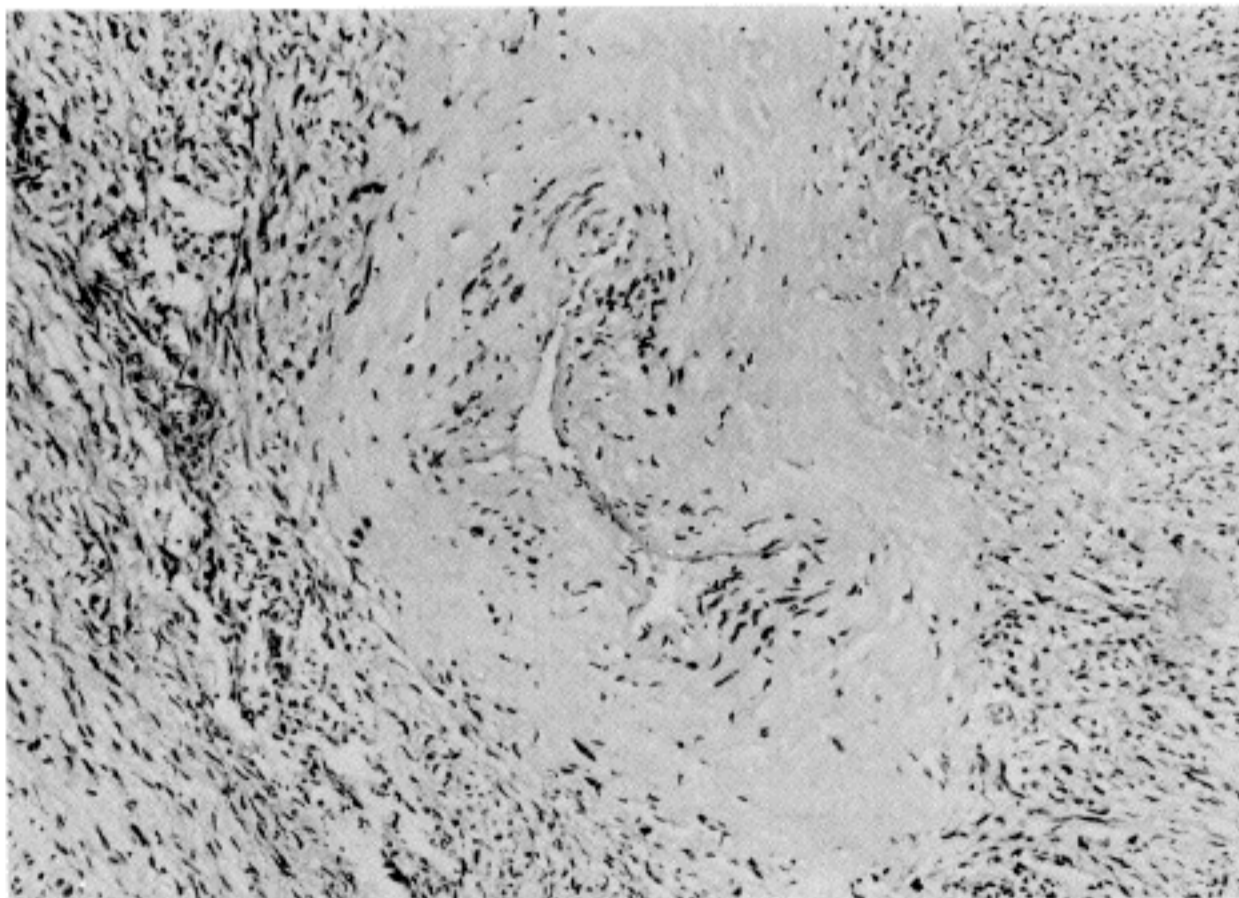


Fig. 2. Another focus of aggressive fibromatosis with hyaline change of the vessel in the center. Note also aggressive spindle cells running haphazardly. (H & E,  $\times 100$ )

둔부와 천추부 종괴에서 생검한 조직은 모두 같은 조직학적소견을 보였는데 길고 가름한 장방형의 섬유아세포가 불분명한 섬유속을 형성하면서 사이사이에는 풍부한 교원질을 가지고있었고 장소에 따라서는 유리질변성을 일으킨 곳도 있었으나 비정형세포나 과염성핵은 볼

수 없었다. 특히 혈관의 변화는 특징이 있게 두드러졌는데 동맥내피세포가 거의 대부분 돌출하면서 내측 근세포의 증식과 부종이 있으면서 혈관을 중심으로 층판을 형성하듯이 배열하고 있었고 어떤 혈관은 폐쇄가 일어나기도 하고 유리질변성을 보이기도 하였다(Fig. 1, 2).