

족저에서 발생한 골외 골육종

- 1예 보고 -

가톨릭대학교 의과대학 임상병리학교실

민기욱 · 지미경 · 강석진 · 김병기 · 김선무

Extraskeletal Osteosarcoma of the Sole

- A case report -

Ki Ouk Min, M.D., Mi Kyung Jee, M.D., Seok Jin Kang, M.D.
Byoung Kee Kim, M.D. and Sun Moo Kim, M.D.

Department of Clinical Pathology, Catholic University Medical College

Compared with osteosarcoma of bone, primary osteosarcoma of the soft tissue is very rare. Extraskeletal osteosarcoma is also a highly malignant pleomorphic sarcoma composed of cells exhibiting primarily osteoblastic, and to a lesser extent, chondroblastic differentiation. A case of extraskeletal osteosarcoma in the right sole is presented in a 67 year old male. The patient had noticed a progressively enlarging soft tissue mass, during about 14 months. This sarcoma was located in the soft tissues without attachment to the skeleton, as determined by examination of the X-Ray findings. The mass of right plantar portion was simply excised and pathologically confirmed to be an extraskeletal osteosarcoma. The clinical and pathological features of this sarcoma are described, and brief review of the literature is made. (Korean J Pathol 1993; 27: 279~282)

Key Words: Extraskeletal, Osteosarcoma

서 론

연부조직에서 골육종이 발생하는 경우는 매우 드물며 골조직에서 원발성으로 생긴 골육종과 달리 성인에서 빈발하고 20세 이하에서는 거의 발생하지 않는다¹⁾. 또한 골외 골육종은 골의 원발성 골육종처럼 다양한 조직학적 소견을 보이지만¹⁾ 예후는 극히 불량하다고 알려져 있고²⁾ 주로 사지와 후복막에서 발생한 예들이 문헌상에 보고되어 있다^{2~4)}. 국내 보고로는 김광희, 조재림, 이광현⁵⁾이 방사선 조사후 생긴 1예를 처음 보고한 이래 3예가 추가로 보고되어 있다^{6~8)}. 저자들은 최

근 67세 남자에서 뚜렷한 원인이 없이 우측 발바닥 연부조직에 발생하여 폐에 전이한 골외 골육종 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다

증 례 보 고

환자는 67세 남자로 약 14개월 전부터 우측 발바닥에서 비교적 빨리 자라는 종괴가 만져져 내원하였다. 종괴 부위의 동통이 수개월 전부터 시작되었으며 최근 증상이 악화되었다. 입원시 환자는 아파 보였으며 발바닥 종괴 부위의 피부는 종창과 발적이 있었고 촉진시 동통을 호소하였다. 환자의 과거력과 가족력상에는 특이 소견이 없었다. 우측발의 단순 X-선 소견상 발바닥의 연부조직이 중등도로 미만성 비후를 보였으며 제 1과 2 중족골 사이에서 장경약 5 cm의 종괴가 영상구조를 보였으나 골 구조와는 어떤 연관성도 없었다 (Fig. 1). 단순 흉부 X-선 소견과 전산화 단층 촬영상 양쪽 폐에 방사성 비투과성의 다발성 소결절들이 발견

접 수: 1992년 12월 26일, 게재승인: 1993년 2월 6일
주 소: 서울시 서초구 반포동 505번지, 우편번호 137-040
강남성모병원 임상병리과, 민기욱

*본 논문은 가톨릭중앙의료원 학술연구조성비로 이루어졌음.

되어 전이성 암결절로 생각되었다(Fig. 2). 전신 골 단층촬영에서 중족골을 포함한 모든 골에 골 미란, 골 파괴 및 골 비후와 같은 이상소견을 전혀 관찰할 수 없었다. 방사선과학적 감별진단은 횡문근육종과 활막

육종(synovial sarcoma)이었다. 우측 대퇴혈관조영술의 동맥 및 모세혈관상 발바닥 중족골 주변의 연부 조직을 침범하는 큰 난원형 종괴내에서 불규칙한 조영색소 집합을 보여 혈관이 풍부한 육종을 의심하였다. 임상적으로 연부조직에서 발생한 육종을 생각하고 생검하였다.

육안소견상 5×4×3 cm의 생검조직이었으며 단면상 경계가 불분명한 4×2 cm의 회갈색 고형성 종괴가 관찰되었고 종괴 중심부에는 괴사와 출혈이 있었다. 종괴 주변에는 피하지방조직과 회백색 섬유성 조직이



Fig. 1. Right foot AP view showing an opaque mass shadow around the 1st and 2nd MP joint without bone involvement.

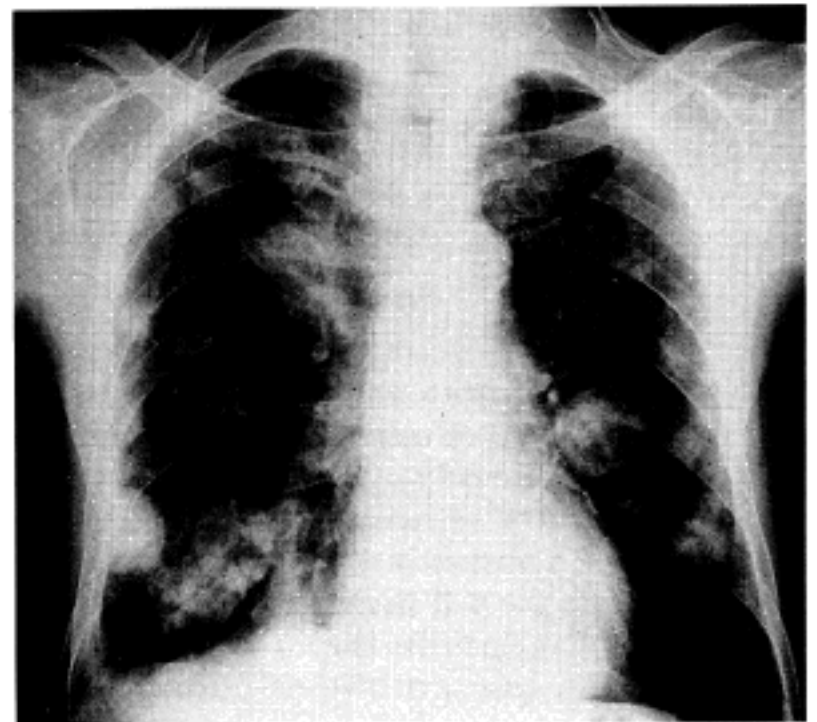


Fig. 2. Chest PA showing multiple metastatic, small nodular densities in both lungs.

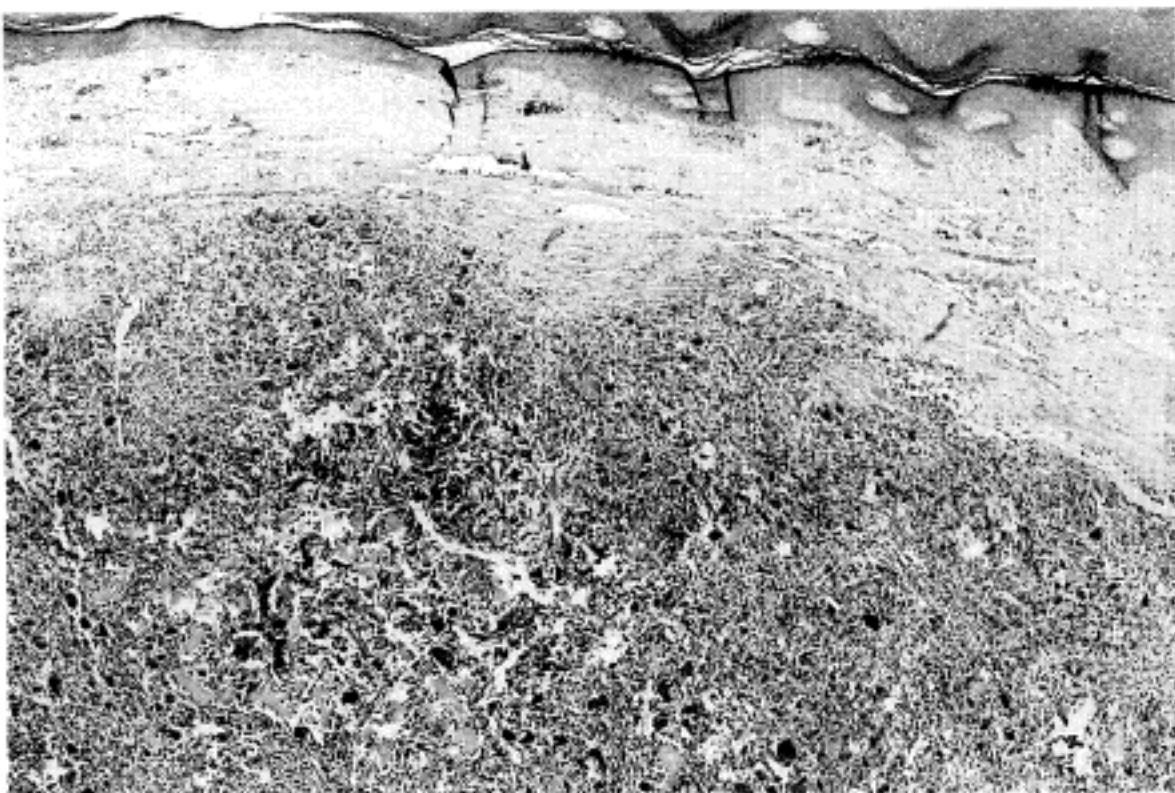


Fig. 3. Extension of mid to lower dermis by solid tumor.

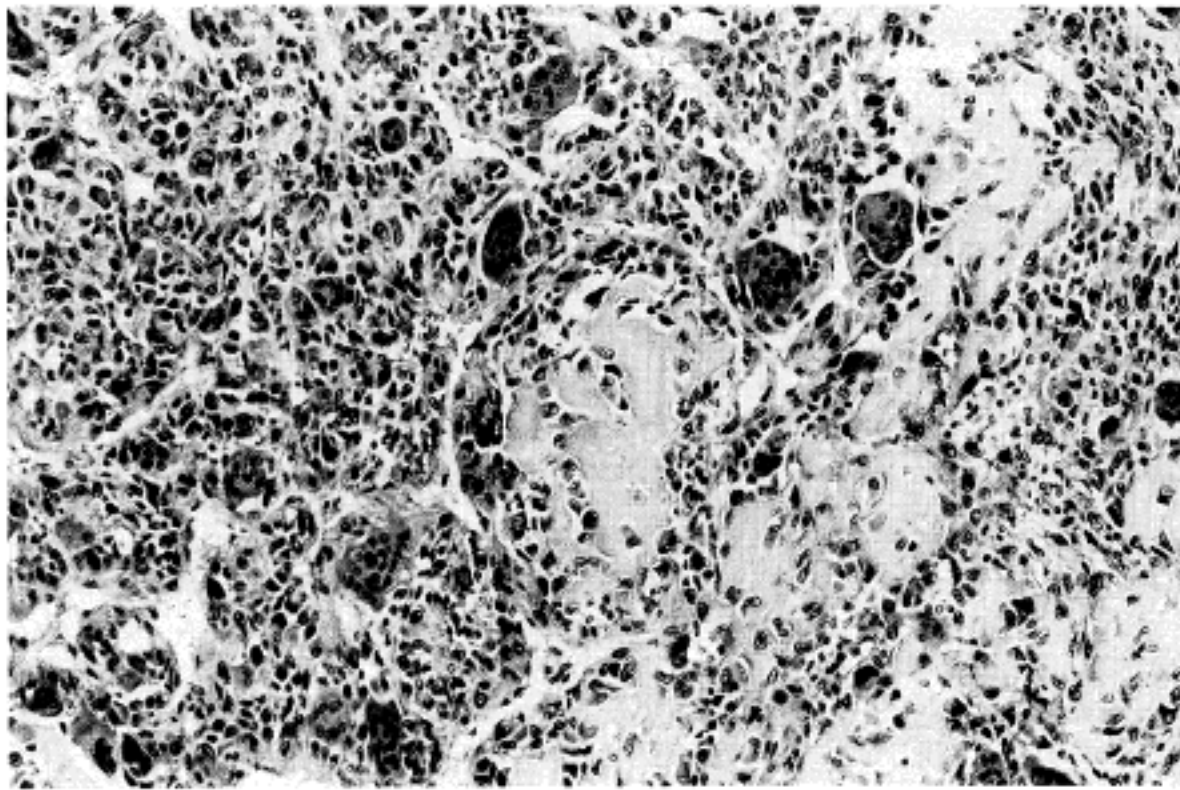


Fig. 4. Characteristic osteoid deposits and intervening malignant osteoblasts.

유착되었으며 피부로 피복된 표면은 암갈색으로 변색되어 있었다. 광학현미경상 저배율 소견에서 종양은 종양세포들이 밀집되어 증식하는 고형성 부위와 광범위한 출혈 및 괴사 부위로 나누어져 있었다. 종양세포들은 주위의 섬유성 결합조직과 피하지방조직으로 미만성 침윤을 하고 있었으며 피부의 진피로 침습하고 있었다(Fig. 3). 고배율 소견에서 종양은 악성 골아세포들이 증식하면서 유골물질들을 형성하고 있었고 부위에 따라서는 불규칙한 모양의 유골소주(trabeculae of osteoid)들이 보였다(Fig. 4). 유골소주안과 주변에서 증식하고 있는 골아세포들은 형태가 원형에 가까웠으며 핵은 크고 다형성과 과염색성을 보였고 풍부한 호산성 세포질을 보였다. 출혈 및 괴사주변에는 파골세포형 양성 거대세포들이 많이 관찰되고 거대세포들 사이에는 방추형 악성 골아세포들이 증식하고 있었다. 악성골아세포가 밀집되어 증식된 부위에는 고배율당 다섯개 이상의 세포분열이 보였다. 부위에 따라 다양한 정도의 세포증식을 보이는 비정형 연골들이 관찰되었다. 면역조직화학적 검사에서 악성골아세포들은 vimentin에 국소적으로 양성반응을 보였다.

고 찰

골외 골육종은 주로 중년기 성인에서 호발하며 남녀가 거의 비슷하게 발생한다고 하는데⁹⁾ 본 증례는 67세 남자였다. 골외 골육종의 호발부위는 문헌에 따라 차이가 있으나 일반적으로 하지에서 가장 잘 생기는 것으로 알려져 있으며 Chung등⁴⁾은 46.6%, Fine과 Stout¹⁰⁾는 83.3%가 하지에서 발생한다고 보고하였다. 하지중에서 특히 대퇴부에 가장 많이 발생하지만 본 예처럼 발바닥에서 발생한 예는 문헌에서 찾을 수가

없었다. 임상 소견상 통증은 수반하고 빨리 자라는 종양으로 나타나는데⁹⁾ 본 예도 심한 통증을 동반한 종괴를 주소로 내원하였다. 육안 소견은 종양의 경계가 뚜렷하거나 또는 주변 조직에 침윤성으로 증식하여 들어가 종양 주변부의 경계가 불분명한 경우도 있으며 낭종, 출혈, 괴사를 형성하여 다양하게 나타날 수 있는데⁹⁾ 본 예도 다른 종류의 육종과 구분이 될 만한 특이한 육안 소견은 보이지 않았다. 광학 현미경상 골외 골육종은 원발성 골육종 처럼 다양한 조직학적 양상들을 보인다고 하는데, 본 예는 악성골아세포들이 뚜렷하게 유골 물질을 만들고 있으나 주된 종양 구성은 골아세포성 영역(osteoblastic area)과 파골세포성 영역(osteoclastic area)으로 이루어져 있었다. 골아세포성 영역은 분화가 나쁜 원형의 종양 세포들이 밀집되어 증식하였고 파골세포 영역은 파골세포와 유사한 거대세포들이 증식하였다. 출혈 및 괴사부위 주변에서만 거대세포들이 증식하고 있어서 파골세포성 부위는 출혈과 연관성이 있다고 생각하였다. 소수의 거대세포는 핵의 이형성과 과염색성을 보이는 악성세포이었다. 문헌에 보고된 다수의 골외 골육종처럼 본 예에서도 이형성 연골이 국소적으로 관찰되었다. 악성 또는 이형성 연골이 종양의 큰 비율을 차지하고 있는 연골아세포성(chondroblastic) 골외 골육종도 드물게 문헌에 보고되어 있다. 골외 골육종의 발생기전에 대하여는 아직 정설이 없으며 뚜렷한 원인을 모르나, 외상이나 방사선 치료를 받은 부위에서 생길 수도 있다고 한다¹¹⁾. 그러나 본 예에서 이와같은 특기할 만한 소견들은 없었다. 대부분의 골외 골육종이 나쁜 임상경과를 보여 국소적 재발 및 골을 비롯한 여러 장기에 광범위한 전이가 빈번하게 나타나는데 가장 흔하게 전이되는 부위는 폐와 임파절이다.^{9,11)} 본 예에서도 전이성 암으

로 생각되는 다발성 소결절들이 양측 폐에서 발견되었다. 예후는 극히 불량하여 5년내 환자 사망률이 75~85%라고 한다⁹⁾. 본 증례에서 환자는 Cisplatin, Ifosfamide으로 4일간 화학요법을 시행받았으나 폐의 전이성 소결절들은 별다른 변화가 없었고 임상적으로 계속 추적 검사중이다. 저자들은 임상적 및 방사선 과학적으로 연부조직 기원 육종으로 오인하였던 골외 골육종 1예를 병리학적으로 진단하였고, 족저에서 발생한 예를 문헌에서 찾을 수 없어 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Silverberg SG. *Principles and practice of surgical pathology. volume 1. 2nd ed., Churcill Livingstone, New York, 1990; 295.*
- 2) Sordillo PP, Hajdu SI, Magill GB, Golbey RB. *Extraosseous osteogenic sarcoma. A review of 48 patients. Cancer 1983; 51: 727-34.*
- 3) Huvos AG. *Osteogenic sarcoma of bones and soft tissues in older persons: A clinicopathologic analysis of*

117 patients older than 60 years. Cancer 1986; 57: 1442-49.

- 4) Chung EB, Enzinger FM. *Extraskeletal osteosarcoma. Cancer 1987; 60: 1132-42.*
- 5) 김광희, 조재림, 이광현. 연부조직에 발생한 골육종 - 증례보고 -. 대한정형외과학회지 1984; 19: 411-15.
- 6) 이수용, 장자준. 연부조직골육종 - 증례보고 -. 대한정형외과학회지 1987; 22: 581-86.
- 7) 김효민, 지제근, 김용일 외. 방사선조사후성 골외 골육종 -aggressive fibromatosis를 동반한 1예-. 대한병리학회지 1987; 21: 98-101.
- 8) 허기영, 이성경. 연부조직골육종 - 증례보고 -. 대한병리학회지 1988; 22: 489-94.
- 9) Nash AD. *Soft tissues sarcomas. Histological diagnosis. Biopsy interpretation series, Raven press, New York, 1989; 177-83.*
- 10) Fine G, Stout AP. *Osteogenic sarcoma of the extraskeletal soft tissues. Cancer 1956; 9: 1027-43.*
- 11) Enzinger FM, Weiss SW. *Soft tissue tumors. 2nd ed., Mosby, Washington, D.C, 1988; 892-902.*