

천미골부에 발생한 척삭종의 완전 절제술

—치험 1례 보고—

경희대학교 의과대학 정형외과학교실

김봉건 · 안제환 · 이증달 · 유성기 · 박재공

=Abstract=

Block Resection of the Chordoma in Sacrococcygeal Region

—A Case Report—

Bong Keon Kim, M.D., Jae Whan Ahn, M.D., Jung Dal Lee, M.D., Soung Ki You, M.D.,
and Je Gong Park, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Kyung Hee University, Seoul, Korea

Chordomas are malignant tumors which arise in the remnants of the embryonic notochord, and exhibit a definite predilection for the extremes of the spinal axis, the great majority arising either in the basioccipital or in the sacrococcygeal regions.

Particularly, complete surgical removal is almost impossible, therefore, local recurrence after the surgical removal of this tumor is common or rule. This report describes a case of chordoma arising sacrococcygeal region treated with block resection.

Key Words: Chordoma, Block resection.

서 론

척삭종(chordoma)은 척삭의 잔유물(notochordal remnants)에서 기원하는 악성도가 낮은 종양으로 원 발생, 골종양의 3%를 차지하는 반면에 중심 신경계 종양(CNS tumors)에서는 1%를 차지한다. 1856년 Luschka에 의해 뇌의 기저부(skull base)에 작은 젤리 모양의 절절조직을 처음 기술한데 이어 1857년 Virchow가 이 조직을 연골성 성장(cartilaginous growth)하는 ecchordosis physaliphora라고 처음 명명했다. 1858년 Müller는 이 종양이 척삭에서 유래한다고 보고하였으며 1894년 Ribbert는 동물 실험을 통해 척삭종을 확증한바 있다^{1,2,12,17}. 척삭종은 원격 전이(distant metastasis)는 드르나 국소적 침윤(local invasion)이 빈번하고 완전 제거할 수 없는 장소에 호발하므로 수술적 제거에 어려움이 많다.

이에 본 경희대학교 정형외과 교실에서는 두개의 분리된 절제술, 즉 복부하방절제와 천골후부도발방법을

사용하여 천미골부에 발생한 척삭종 1례를 천골과 함께 완전히 제거하는 수술을 성공하였으며 국내 문헌 고찰상 척삭종의 완전 절제의 성공률이 보고된 바 없기에 수술 수기를 중심으로 문헌 고찰과 함께 보고 하는 바이다.

증 례

환 자 : 유○성, 남자, 50세

주 소 : 천미골부 동통 및 종물 배뇨 곤란

병 력 : 80년 5월부터 천미골부 동통과 회음부 및 음낭 주위의 감각 이상과 배뇨 곤란으로 계속적인 수면 장애를 호소하던중 후방절제술을 이용하여 조직 검사와 부분 절제후 척삭종으로 판명되어 본원 정형외과에 입원함.

가족력 및 과거력 : 특기할만한 사항 없음.

이학적 소견 : 전신 상태는 양호하였으며 천미골부 및 둔부에 직경이 약 15cm 되는 경계가 불분명하며 표면이 불규칙적이고 비교적 굳은(solid) 종물로 압통을

동반했으며 열감 발작은 없었다. 회음부 및 음낭 주위의 감각 이상을 보였고 근력 쇠약(motor weakness)이 양측 하지에 나타났다.

서는 천미골 주위에 uptake 증가로 hot area를 나타내고, 전산화 단층 촬영(CT scan)에서 제 2천추 하연부터 시작되는 골파괴 양상이 하방으로 내려갈수록 심해져서 제 4천추 주위에서는 천골이 완전히 종양으로 대체되었으며 종양내에는 석회 침착을 보여주었다(Fig. 2A, B, C.).

수술 방법 : 양와위로 전신 마취하에 먼저 복부하방 절개(lower abdominal midline incision)로 복막을 절개한 후 소장과 대장은 근위부로, 직결장은 전우측으

(A)

Fig. 2. A: 제 2천추부.

(B)

Fig. 2. B: 제 4천추부.

Fig. 1. 수술전 천미골부 전후방 및 좌우 사진. 광범위한 골파괴 및 골피질의 팽창, 석회화, 그리고 큰 연부조직 음영을 보여준다(→).

혈액학적 검사 소견 : 특기할만한 사항 없음.

방사선 소견 : 천미골부 전후방 및 좌우 사진에서 천미골의 광범위한 골파괴 및 골피질의 팽창, 석회화 큰 연부조직의 음영을 볼 수 있었다(Fig. 1) Barium enema 소견상 큰 종양에 의해 직장부가 전방으로 전위된 소견을 보여 주었다. 골주사(Tc⁹⁹ bone scan)에

Fig. 2. C: Coccygeal area.

Fig. 2. 전산화 단층촬영(CT scan) 제 2천추 하연부터 시작되는 골파괴 양상이 하방으로 내려갈수록 심해져서 제 4천추 주위에서는 천골이 완전히 종양으로 대체됨을 보여준다.

로 피축하면서 후복막부를 박리하였다. 중심 천골 혈관(mid sacral vein)을 절찰한 후 수술중 출혈을 극소화 하기 위해서 제대줄(umbilical tape)을 이용하여 양측 내장골 혈관(internal iliac vessels)을 일시적으로 점자(ligation) 하였다. 직결장부 및 항문 괄약근을 보존하고 계속 종양을 박리하였는 바 종양의 상방 및 전방을 축지 확인하여 종양의 형태와 크기를 알 수 있었다. 제 1 및 제 2천추간에 K-강선을 삽입한 후 그 서에서 절골술을 시행하였는 바 K-강선은 후방 천골 도달시 종양의 완전한 제거 부위를 용이하게 알 수 있도록 하기 위하여 사용하였다. 다시 환자를 lateral position으로 하여 천골부를 중심으로한 십자 모양의 절개를 가한 후 양와위에서 삽입된 K-강선을 확인하고 그 부위에서 다시 절골술을 완전하게 시행하며 종물을 천골과 함께 제 1천추 이하부에서 완전하게 박리 제거할 수 있었다.

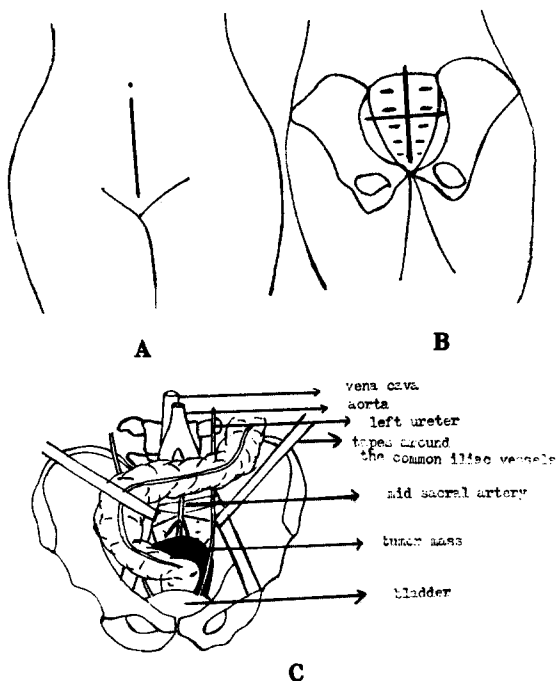


Fig. 3. A: Lower abdominal midline incision, B: Post sacral cruciate incision, C: Peritoneum 절개후 Intestine을 retraction시 단면도.

제 2 및 제 3천골 신경은 종양과 밀착이 심해 제거시 손상을 받았다. 후방천골도달방법시 우측 내장골 정맥에서 심한 출혈이 있어 그 혈관 부위를 staple과 함께 천골에 고정시킴으로써 지혈을 하였으며 20 pints의 혈액이 소모됐다. 종양 제거후 생긴 결손 부위는 좌측

대둔근(gluteus maximus)을 번전(rotation)시켜 사강(dead space)을 채웠다(Fig. 3A-C).

수술후 전신 상태는 양호하였으며 뇌척수액 누출 빈도, 창상 감염 등의 합병증은 없었으나 신경인적 방광중에서 자율 방광(autonomous bladder)을 초래하고 좌측 하지의 제 2 및 제 3천추 신경 지배부와 좌측부 주위의 감각 상실을 보였다. 술후 방사선 소견상 제 1천골 이하부의 골과종골의 완전 제거와 지혈 및 근육

A

B

C

B

Fig. 4. 수술후 방사선 소견: 제 1천골이하의 골과 종골의 완전제거와 지혈 및 근육의 번전시 사용된 staple의 음영이 보인다(→).

의 번진시 사용된 staple의 음영이 보인다(Fig:4).

병리학적 소견 : 육안적 소견상 연부 조직내 연골양 조직이 혼합되어 있는 불규칙한 외관을 가지고 있었다. 활면에서 분엽상을 나타내는 회색색의 연한점액성 물질이 섬유 조직으로 둘러 쌓여 있고 이러한 조직은 연골 및 견고한 골양 조직에 의하여 엽상으로 분리되어 있었다. 점액성 조직은 중앙 조직의 대부분을 차지하고 주위 섬유 조직내로 침윤성 증식을 하고 있었다(Fig.5). 천미경적 소견상 중앙 조직은 주위 연부조직 및 천골의 골수내로 피막의 형성이 없이 침윤성 증식을 하고 있었다. 중앙세포들은 엽상으로 군집을 이루고 그 주위에 가는 섬유 조직이 경계를 이루고 있었다. 중앙 세포는 원형내지 방추상이며 호산성이지만 세포질내에 대소 부동의 공포를 함유하고 있어서 마치 물거품 처럼 보이는 physaliphorous cell을 볼 수 있었으며 전형적인 척삭종의 조직 소견을 나타냈다(Fig.6).

고 찰

척삭종(chordoma)은 척삭의 잔유물(notochordal remnants)에서 기원한다. 척삭은 태생에 4주에 형성되어 척추를 이루고 7주에 퇴행(regression)한다^{1,2)}. 호발 연령은 40~60세이고 남녀 발생 비율은 2:1로 Dahlin은 보고하였으며 호발 부위는 척추에서 천미골부가 가장 많이 침범된다^{3,4)}. 천미골부에 발생한 척삭종은 환자 병력에서 외상이 있는 예가 있다¹⁾. Winder는 외상과 중앙의 인과 관계는 불확실하지만 4예중 3예에서 외상이 영향을 준다고 지적한 바 있다¹⁾.

임상 증상으로 두부 척삭종에서는 두개내압(ICP) 증가로 두통이 가장 흔하며 구토 및 압박 증상이 나타나고 천미골부 척삭종은 변비, 직장 출혈, 배뇨 곤란, 감각 및 운동 신경 이상으로 동통과 하지 근무력증을 나타낼 수 있다^{4,14,17)}. 육안적 병리 소견으로 중앙의 크기와 무게는 다양하며 둥글고 불규칙한 소엽모양으로 섬유성 피막을 갖춘 회색빛의 반짝이는 점액성 중앙이다. 천미경적 소견에서 중앙 세포는 대혹은 작은며(cords or strand)로 섬유막(fibrous septa)에 의해 수직으로 배열하며 세포내 공포가 보이는 공포세포(physaliphorous cell)를 특징으로 하며 glycogen 소체를 함유하고 집합체(aggregates)를 형성한다^{8,12)}. 세포간(intercellular space)에는 동질 혹은 무형(homogenous or amorphous)의 점액질이나 젤라틴 물질이 많이 형성되어 있다. 전체적으로는 유상피(epitheloid)가 육종의(sarcomatous) 모습을 나타낸다. 전자 현미경적으로는

Fig. 5. 육안적 병리소견 : 불규칙한 외관으로 활면에서 분엽상을 나타내며 점액성 및 섬유성 물질로 침윤성 증식을 보인다.

A

B

Fig. 6. 천미경적 병리소견 : 중앙세포들은 엽상으로 군집을 이루고 가는 섬유조직이 엽상의 경계를 이루며 세포는 원형내지 방추상이며 호산성으로 특징적인 공포를 나타낸다.

성상세포(stellate cell)와 공포세포(physaliphorous cell)로 구성되며 성상세포로부터 공포과정(vacuolation

process)을 통해서 형성되는 중간 단계의 전이성 세포 (transitional cell)가 존재한다^{8,9,10,16}. 방사선 소전상 골파괴와 큰 연부 조직의 용융이 특징인데, Hsieh and Hsieh는 방사선 소전상 4가지의 중요한 현상으로 천골의 전후방 혹은 외측의 골피질 팽창, 파괴된 골의 소엽모습 (lobulated appearance) 파괴되지 않은 골의 주상 구조 (trabeculation) 형성 및 종양내의 석회 침착을 들고 있다^{4,9,11}.

감별 진단으로 척삭종은 두개인두관 종양 (craniopharyngioma) 뇌하수체 선종 (ca. of pituitary gland) 뇌막종, 거대 세포종, 연골 육종, 골절핵, 골수염, 전방 경막 수종, 직장 선종 그리고 전이성 종양을 들 수 있다^{4,14}.

원적 전이는 10% 내외로 폐, 골격, 간 피하 조직, 림프 결절을 주로 침범하고 골격근과 심근으로의 전이는 드르나 국소 침윤이 일반적으로 많다^{8,9,16}. 치료로는 수술적 제거와 방사선 요법 및 두가지의 병행 요법을 들 수 있고 수술적 도달 방법으로 Littman은 반복적 국소 제거 및 소파술 (repeated local excision or excrochleation)을 소개했다¹². Butler는 예비 복부 절개술 (preliminarily laparotomy)로 종양의 크기를 측정하고 직장을 후복막부와 박리한 후 복사위에서 후방천골 도달법을 소개했다^{1,13}. MacCarty & Waugh는 환자를 복외위로 하고 후방중절개 (post. vertical incision)를 사용하여 제 2 및 제 3 천추 사이에 절골술을 시도하였다¹⁵. Localio들은 4에서 환자를 외측 자세 (lateral position)로 하고 복부 및 천골후방도달법 (abdominal & sacral approach)을 시행하여 종양의 완전 절제를 위한 수술적 방법을 제시했다¹⁶. 수술후 합병증으로 뇨 정체, 창상 감염, 뇌척수액 누출, 분루 (fecal fistula), 대천골부 탈장 (large sacral hernia)을 들 수 있으나 Localio는 완전 절제술후 야기되는 신경인적 방광 증세에 대해서 뇨도 개산술 (urinary diversion technique) 혹은 경뇨도 절제술 (transurethral resection)로 증세의 호전을 가져올 수 있으므로 종양의 완전한 절제를 함으로써 국소 재발을 방지하는데 역점을 두어야 한다고 주장하였다¹³. 방사선 요법은 동통의 제거와 종양의 퇴행 (regression)에 영향을 주는 비수술적 방법으로 사용할 수 있으나 그 효과는 매우 적게 보고되어 있다^{1,4,13}. Montgomery & Wolman은 소아에서 발생한 척삭종이 방사선 조사에 매우 민감하다고 보고하였고¹³ Key & Berven에 의하면 방사선 요법은 수술로 근본적 제거를 못하였을 때 사용하는 방법임을 강조했다¹³.

저자들이 치험한 1예에서는 Localio가 제시한 복부 및 후방절개술을 시도하여 완전하게 종양을 제거하였다.

결 론

국내 저자들의 문헌 고찰상 척삭종의 완전 절제에는 보고된 바 없이 본 경희대학교 정형외과학교실에서는 천미골부에 발생한 척삭종 1예를 복부 및 후방도달법으로 완전 제거시킨 수술을 성공하였기에 그 희귀성에 비추어 수술 수기와 문헌 고찰을 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Beaugie, J.M., Mann, C.V. and Bulter, E.C.B.: *Sacroccygeal Chordoma*, *Brit. J. Surg.*, 56: 586 August 1969.
- 2) Cancell, P., Robeck, R. and Hurwitt, E.S.: *Fine Structure of a Recurrent chordoma*, *Archives of Neurology*, 11: 289, September 1964.
- 3) Cappell, D.F.: *Chordoma of the vertebral column with three new cases*, *Journal of Pathology*, XXXI, 797.
- 4) Charles, M.G., Meaney, T.F. and Hughes, C.R.: *Chordoma-Uncommon destructive lesion of cerebrospinal axis*, *JAMA*, 663: 1240, April 1957.
- 5) Collin, S.M., John, M.W. and Mark, B.C.: *Sacroccygeal chordomas*, *Surgery, Gynecology and Obstetrics*, 551, Nov. 1961.
- 6) David G.D. and Collin, S.M.: *Chordoma*, *Cancer* 5: 1170, Nov. 1951.
- 7) Falconer, M.A., Bailey, I.C. Leo, W.D.: *Surgical treatment of chordoma and chordoma of the skull base*, *J. Neurosurg.*, 29: 261, Sept. 1968.
- 8) Friedmann, I., Harrison, D.F.N. and Bird, E.S.: *A fine structure of chordoma with particular reference to the Physalporous cell*, *J. Clin. Path.* 15, 116 1962.
- 9) Halmans, J.G. and Heard, B.E.: *A metastatic chordoma* *J.B.J.S.*, 54-B: 526, August 1972.

- 10) Harlan, J.S. and Sarah, A.L.: *Chordoma-An electron microscopic study*, *Cancer*, 17 : 643, May 1964.
- 11) Harman, S.: *A case of chordoma involving the body and pedicles of the third cervical vertebra*, *J.B.J.S.* 59-B : 1515, Nov. 1977.
- 12) Horwitz, T.: *Chordal ectopia and its possible relation to chordoma*. *Archives of Pathology*, 31, 354, 1941.
- 13) Hugo, R. and Saltzman, G.F.: *Sacroccygeal and vertebral chordomas and their treatment*, *A.C.T.A.*, 52 : 177, 1959.
- 14) Kanrin, R.P., Potanos, T.J.N.: *An evaluation of the diagnosis and treatment of chordoma*, *J. Neurosurg. Psychiat.* 27 : 157, 1964.
- 15) Localio, S.A., Francis, K.C. and Rossano, P. C.: *Abdominosacral resection of sacroccygeal chordoma*, *Annals of Surgery*, 166 : 394, Sept. 1967.
- 16) Pena, C.E., Horrat, B.L. and Fisher, E.R.: *The ultrastructure of chordoma*, *Am. J. Clin. Pathology* 53 : 544, April 1970.
- 17) Utne, J.R. Pugh, D.G.: *The roentgenologic aspect of chordoma*, *Mayo Clinic Rochester, Minnesota*, 74 : 593, October 1955.
- 18) Windeyer, B.W.: *Chordoma*, *Section of radiology*, p 24, *Precedings of the Royal Society of Medicine*, p 1088, Meeting April 17, 1959.