

# 악성 골 종양으로 오인된 요추의 고형 동맥류성 골낭종

## The Solid Variant of the Aneurysmal Bone Cyst in the Lumbar Spine Mimicking a Malignant Bone Tumor

곽윤해 • 류호동 • 박혜림\* • 김석우

한림대학교 의과대학 한림대학교성심병원 정형외과학교실, \*병리학교실

고형 동맥류성 골낭종은 전형적인 동맥류성 골낭종의 약 5-7.5%를 차지하는 비교적 드문 질환으로서 고형 성분으로 인해 골육종 및 골모세포종과 같은 악성 골종양과의 감별이 어려워 그 치료 계획 및 예후 결정에 차이가 있으므로 임상적으로 중요한 질환이다. 방사선학적으로 전형적인 동맥류성 골낭종의 특징 중 하나인 용액-용액 경계가 보이지 않으며 병리학적으로는 기질 세포의 역형성이 관찰되지 않아 전형적인 동맥류성 골낭종으로부터 고형 동맥류성 골낭종을 감별할 수 있다. 현재까지 척추에서 발생한 14예의 고형 동맥류성 골낭종 증례를 보면 전 예에서 소아청소년에서 발생하였으며 경추 후궁에 호발하는 전형적인 경우에 비하여 경추 및 흉, 요추에 고루 보고되고 있다. 본 증례에서는 하부 요통과 신경 증상을 동반한 11년 6개월 남환으로서 방사선학적 검사에서 악성 골종양으로 오인되어 이에 준한 수술 전 검사를 진행하였으며 술장 소견상 악성 가능성 낮아 병소를 절제하고 경과 관찰 중에 있다. 본 증례와 문헌 고찰을 통해 악성 종양과 감별할 수 있는 고형 동맥류성 골낭종의 방사선 및 병리 소견을 보고하고자 한다.

**색인단어:** 요추, 고형 동맥류성 골낭종, 후궁 절제술

동맥류성 골낭종은 전체 골종양의 약 1-2%를 차지하는 비교적 드문 질환으로서 국소 파괴를 동반한 양성 병변의 형태로 관찰된다. 장골 골간부에 이어 척추에서도 10-20% 발견되며 10대 소아청소년에서 호발하는 것으로 보고되고 있다.<sup>1)</sup> 고형 동맥류성 골낭종은 보다 드문 형태로서 일반 동맥류성 골낭종에 비해 방사선학적으로나 병리학적으로 감별이 힘든 것으로 알려져 있으며, 이는 양성 병변에 비해 고형 성분이 우세하여 골모세포종, 연골모세포종의 양성 골종양에서부터 경계성 종양인 거대세포종 그리고 악성 골종양인 골육종에 이르기까지 다양한 종양과의 감별이 쉽지 않기 때문이다.<sup>2)</sup> 국내에서는 동맥류성 골낭종의 호발 부위인 원위 대퇴부에 발생한 1예만이 보고되고 있어<sup>3)</sup> 요추에서 발생한 고형 동맥류성 골낭종에 대한 저자들의 경험을 보고하고자 한다.

## 증례보고

11년 6개월 남자로 약 한달 간의 요통과 최근 발생한 우측 하지 방사통을 주소로 내원하였다. 과거력상 약 한달 전 농구한 이후 처음 증상이 발생하였으며 타 병원에서 보존적 치료 시행 후에 호전 없이 최근 악화되는 하지 통증으로 전원되었다. 내원 당시 시행한 신체 검진상 통증 부위의 국소 발열 및 부종 소견은 관찰되지 않았으나 우측 제4-5번 요추 주위 압통 및 우측 하지로 방사통이 있었으며 우측 하지 직거상 검사에서 양성이었다. 단순 방사선 검사상 정상적인 시상 및 관상정렬을 보였으나 측면상에서 제4, 5번 요추 후주에 저음영의 골파괴 소견이 보였다. 환자의 증상이 주로 우측 늑골척추각(costovertebral angle) 부위에 국한되어 신장 및 척추 주위 근육의 병변 가능성에 대한 감별을 위하여 우선 초음파검사와 임상병리검사를 시행하였다. 검사상 특이 소견은 관찰되지 않았으나 초음파검사상 하부 요추의 우측 척추 후주 주위로부터 척수강 내로 침범하는 양상의 종양이 관찰되었으며 증가된 혈관분포로 인해 악성 골 종양이 의심되어(Fig. 1) 입원하여 추가 검사를 진행하였고 우선 병변 부위의 자기공명영상 및 전신 골스캔, 흉부 전산화단층촬영검사를 시행하였다. 자기공명

접수일 2011년 12월 9일 수정일 2012년 1월 9일

게재확정일 2012년 2월 1일

교신저자 김석우

안양시 동안구 관평로 138, 한림대학교성심병원 정형외과학교실

TEL 031-380-6000, FAX 031-380-1814

E-mail swkim@hallym.or.kr

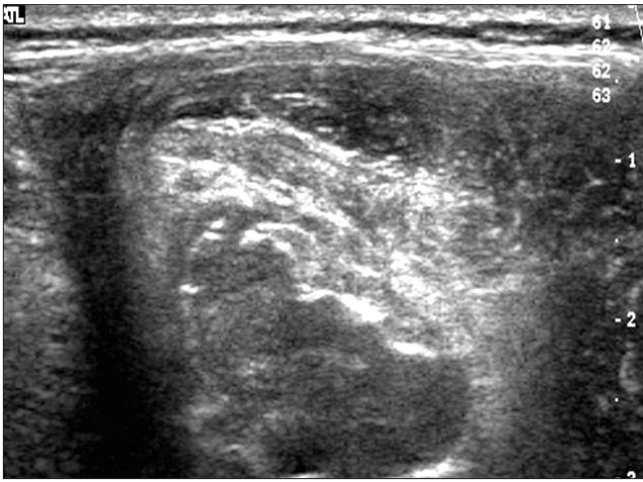


Figure 1. Ultrasonography of the patient. Partially scanned right posterior paravertebral mass at the lower lumbar area extending into the spinal canal.

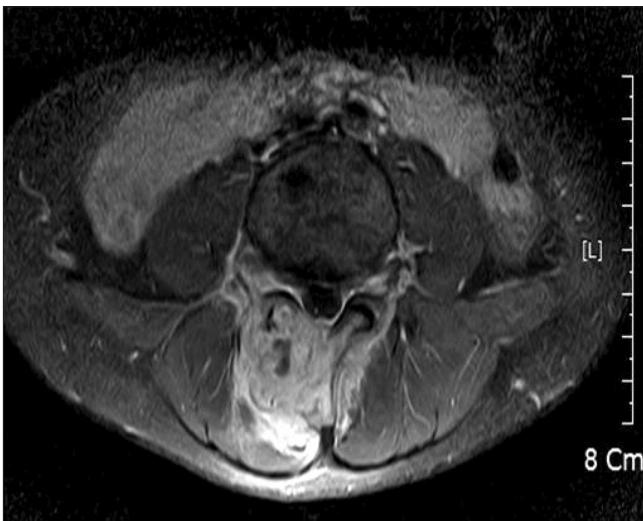


Figure 2. Magnetic resonance imaging of the patient showed mass lesion with heterogeneous enhancement involving posterior column of L4 and adjacent posterior paravertebral muscle and posterior epidural soft tissue.

영상검사 결과 약  $3 \times 2 \times 3.5$  cm 크기의 종양으로 제4번 요추의 후궁에서 시작하여 제4번 요추의 후궁과 인접한 척추 주위 근육, 경막외 지방조직을 침범하여 제5번 요추의 우측 척추경 및 상부 후관절을 침범하는 병변이 관찰되었다. T1 강조 영상에서 낮은 신호 강도의 종괴로 관찰되었으며 T2 강조 영상에서 고신호 강도와 저신호 강도의 병변이 산재하는 양상으로 나타났으며 조영증강 영상에서는 주변의 부척추근육과 경막외 부위의 주위 연부조직을 침범하는 불규칙한 조영증강(heterogeneous enhancement) 양상으로 관찰되었다(Fig. 2). 함께 시행한 전신 골스캔 및 흉부 전산화단층촬영상 요추 이외의 타 부위 병변 소견은 관찰되지 않았

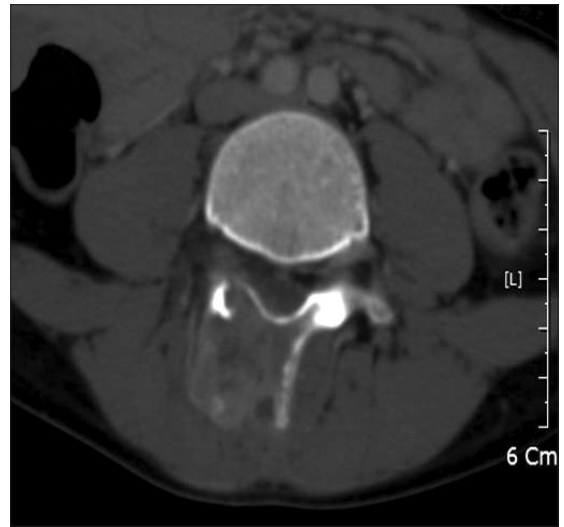


Figure 3. Computed tomography showed destructive bony lesion in lamina of right 4th lumbar.



Figure 4. For selective embolization, right L4 lumbar artery angiography showed round hypervascular tumor staining at the L4, 5 vertebral body level.

으며 전산화단층촬영상 병소는 피질골을 침범하고 완전히 파괴하여 주위 연부조직으로 풍선과 같이 팽대되어 피질골이 얇은 계란처럼 보였으며 낭종과 주위골의 경계가 불분명하여(Fig. 3) 이상의 소견에서 골육종(osteosarcoma) 및 골모세포종(osteoblastoma)을 감별해야 할 것으로 판단되었다. 악성 골종양의 가능성이 있으며 종양이 척추관을 침범하여 척수 및 신경근 압박에 의한 증상이 나타난 상태로 판단되어 조직 채취를 통한 병리검사 및 후방 감압술을 시행하기 위하여 수술적 치료를 계획하였으며 수술 전 제4 요추 동맥의 색전술(Fig. 4)을 시행하였다. 약 5 cm의 절개로 접근하여 시행한 술장 소견상 병소 조직은 적갈색으로 병

변과 정상 조직의 경계는 분명하지 않아 국소적으로 파괴된 피질 골을 포함하여 절제하였다. 수술 과정에서 대량의 출혈은 관찰되지 않았으며 수술 장에서의 냉동 조직 생검상 악성 이형성 세포는 확인되지 않아 병소 내 절제 및 척추궁 절제술을 시행하였다 (Fig. 5). 최종 병리 소견상 섬유성 격막(fibrous septa)과 함께 방추 세포의 증식(spindle cell fibroblastic proliferation) 사이로 모세혈관들과 성숙된 유골조직(osteoid)의 형성, 골모세포로 둘러싸인 반응성 골조직의 형성이 관찰되었다. 방추세포는 낮은 분화도로 이형성 형태는 보이지 않았으며 핵의 이상 분화 및 괴사 등의 악성 종양의 소견이 관찰되지 않았다. 다핵 거대 세포가 드문드문 산재되어 있으며 혈액 성분을 포함한 작은 동맥류성 낭종이 간간이 관찰되어 이상의 소견에서 고형 동맥류성 골낭종과 일치하는 것으로 판단했다(Fig. 6). 수술 후 환아는 요통 및 하지 방사통이 호전되었으며 약 6주간 흉요추 보조기를 착용한 보행을 권유하였고 재원 기간 중 병리조직검사상 양성의 골종양인 동맥류성 골낭종으로 확인되어 신경학적 증세와 종양의 진행을 경과관찰 후 결

정적 치료 예정하에 있다.

## 고 찰

척추에 발생하는 골종양의 약 90% 이상은 악성 종양의 전이 소견이며 비교적 드물게 발생하는 병변으로 공격성 양성 척추 종양의 하나로서 동맥류성 골낭종이 있다.<sup>4)</sup> 호발 연령은 10대의 소아청소년으로서 방사선학적 소견상 특징적으로 용액-용액 경계(fluid-fluid level)가 관찰되는 것으로 알려져 있으며 활동도가 높은 초기 단계에서는 병소의 경계가 불분명하여 악성 종양과 유사하게 보일 수 있다. 고분화성 양성 조직으로 낭종 형태로 T1 강조 영상에서 중등도, T2 강조영상에서 고신호 강도를 보인다.<sup>4)</sup> 고형 동맥류성 골 낭종은 낭종이라 표현되지만 고형 성분을 주로 포함하므로 다소 역설적 용어이다. 수지골 및 족지골에 발생하는 경우 거대세포 반응성 육아종(giant cell reparative granuloma)이라고 불렸으며 일반적인 동맥류성 골 낭종의 약 5.0-7.5%를 차지하는 것으로 알려져 있는 드문 질환이다.<sup>1)</sup> Sanerkin 등<sup>2)</sup>이 1983년에 고형 동맥류성 골낭종이라는 용어를 처음 사용하였으며 일반 유형과 같이 장골의 골간단부에 가장 흔하게 발생하는 것으로 알려져 있으며 모든 부위에 발생할 수 있으나 척추에 발생하는 고형 동맥류성 골낭종 또한 매우 드문 병변으로 현재까지 영어권의 약 8논문에서 14예가 보고되어 있다(Table 1).<sup>1,2,4-9)</sup> 전형적인 동맥류성 골낭종은 자기공명영상상 T1과 T2 영상에서 병소의 얇고 부드러운 중격 형성의 조영증강을 보이나 고형 동맥류성 골낭종에서는 병소 내에서 더 균질한 고 신호 강도의 조영증강을 보인다고 보고되기도 하나<sup>9)</sup> 임상 증상 등으로 뚜렷이 구분되는 특징을 보이지 않아 본 증례와 같이 고형 동맥류성 골낭종은 악성 종양으로 오인되기도 한다. 병리학적으로도 거대세포종 및 골육종과 같은 악성 골종양과의 감별이 쉽지 않은데 이는 거대세포와 방추형 기질세포와의 분포, 세포충실도(cellularity)와 다양한 유사분열 활성(variable mitotic activity)에 따라 진단하기 때문이다.<sup>6)</sup> 거대세포종에서는 주로 20개 이상의 다양한 정도의 비정형 핵을 가진



Figure 5. Postoperative plain radiograph after right L4 laminectomy.

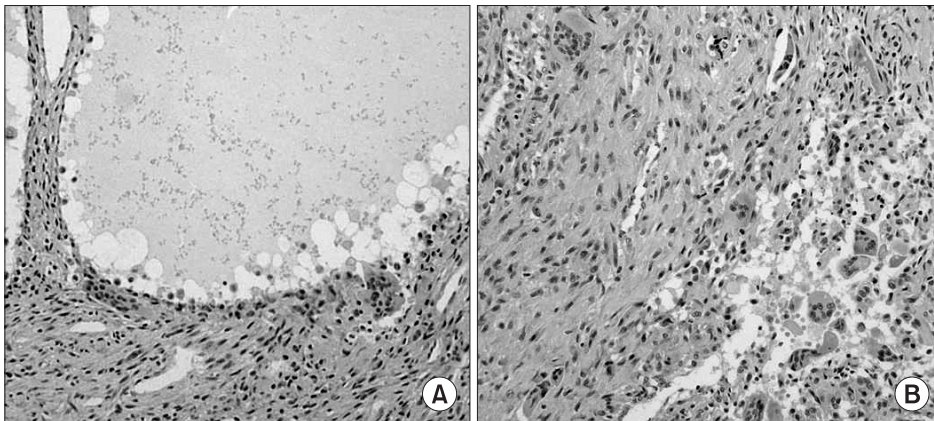


Figure 6. (A) Blood-filled cavities are lined by osteoclast-like multinucleated giant cells. The intervening stroma is fibroblastic but contains no neoplastic osteoid. (B) Osteoclast-like giant cells are irregularly distributed within the fibroblastic stroma (H&E,  $\times 100$ ).

Table 1. Overview of Reported Cases of Spinal Solid Variant of Aneurysmal Bone Cyst

Author (yr)	Age/sex	Site	Imaging	Treatment
Sanerkin et al (1983) <sup>2)</sup>	M/7	L4	Expansile cystic lesion in lamina	Tumor shelled out laminectomy
	F/6	T2	Destruction of lamina	Partial piecemeal removal
	M/13	T7	Destruction of lamina with paravertebral mass	Subtotal excision, laminectomy, irradiation then curettage and bone graft due to recurrence
Buirski and Watt (1984) <sup>5)</sup>	M/8	L5	Expansile cystic lesion in lamina/soft tissue mass causing L5 root compression	
	F/6	T2	Destructive lytic lesion in lamina/small rim of cortex in left paravertebral area	
	M/14	T7	Destructive lytic lesion in pedicle	
	F/14	C7	Expansile lytic lesion in spinous process	
Edel et al (1992) <sup>6)</sup>	F/12	T3-T4	Lytic lesion with destruction of neural arch	Excision and complete curettage
Oda et al (1992) <sup>7)</sup>	F/17	T1	Expansile lytic lesion in lamina and spinous process	Subtotal excision, laminectomy
	F/16	T7	Lytic lesion in lamina and transverse process	Curettage and bone graft/irradiation
Vergel de Dios et al (1992) <sup>1)</sup>		Spine		
Sato et al (1996) <sup>8)</sup>	F/9	L3	Expansile osteolytic lesion in vertebral body, pedicle, transverse process and lamina	Irradiation
Suzuki et al (2004) <sup>4)</sup>	F/9	C4	Expansile lytic lesion in lamina	Laminectomy, curettage and bone graft
Al-Shamy et al (2011) <sup>9)</sup>	M/18	T2	Expansile osteolytic lesion in vertebral body, lamina, pedicle and rib	Total spondylectomy with resection of rib and pedicle screw fixation
Present case	M/11	L4	Expansile lytic lesion in lamina, paravertebral muscle	Subtotal excision, laminectomy

M, male; F, female.

거대세포가 방추형 세포로 구성된 기질 사이에서 일정한 간격으로 분포되어 있다. 기질을 구성하는 방추형 세포들도 비정형이며 과염색성이다. 반면 고형 동맥류성 낭종에서는 거대 세포가 주변의 방추 세포들 사이에 불규칙적으로 분포되어 있으며 방추 세포의 핵도 비정형성이 없기에 조직학적으로 감별이 된다. 또한 골육종과는 달리 고형 동맥류성 낭종에서는 양성의 골모세포와 반응성 골소주가 관찰되며 핵의 과염색성이나 비정형성이 없다. 일반적인 동맥류성 낭종과는 혈액 성분으로 채워진 큰 공간이 없이 고형 물질을 갖고 있다는 점에서 차이가 있다.<sup>10)</sup> 본 증례에서는 악성 종양의 소견인 비정형 핵 및 과염색성이 없었으며 불규칙한 분포의 거대 세포, 유골조직 및 반응성 골조직의 형성, 낮은 분화도의 방추세포가 관찰되어 최종적으로 고형 동맥류성 골 낭종으로 진단되었다. 진단이 확정된 후에 치료는 척추에 발생하는 일반적인 동맥류성 골낭종과 같이 수술적 접근에 의한 병소 내 완전 절제 및 골이식술이 가장 좋은 치료로 알려져 있으며 그 외 선택적 색전술 및 경과 관찰, 수술 후 방사선 치료 등이 사용되고 있다.<sup>1)</sup> 기존의 연구에서 동맥류성 골낭종의 치료 후 재발은 술 후 20%에서, 방사선 단독요법에서 25% 정도로 알려져 있고 수술적 치료의 경우 불완전 절제 이후 수개월 이내에 발생하는 것으로 알려져 있으며 완전 절제가 이루어진 경우 높은 완치율을 보인다

고 한다. 방사선 치료를 동반할 시 골육종, 성장판 손상 및 방사선성 척수증 등의 합병증을 유발할 수 있어 소아청소년 환자에서 시행 시 수술적 절제가 불가능한 경우에 한하여 제한적으로 고려해야 할 것이다.<sup>8)</sup> 그러나 현재까지 고형 동맥류성 골낭종의 경우에는 증례로만 보고되고 있어 치료 과정이 확립되지는 않아 기존의 동맥류성 골낭종에 준해 치료를 시행하고자 하였다. 본 환자의 경우 병소내 절제 생검 및 후궁 절제술을 통해 수술 후 통증과 신경학적 증상이 호전되었으며 제4, 5 요추의 병소의 위치로 인하여 완전 절제 시 후방 기기 고정기 불가피한 상태였으나 동맥류성 골낭종이 양성 종양이며 드물게 자연 퇴행이 보고된 바 있어 신경학적 증세와 종양의 진행을 경과관찰 중이나 불완전한 절제 시 30% 이상의 재발률을 보이기 때문에 추후 근치 수술 및 후방 기기 고정의 시행이 필요할 수 있을 것으로 생각한다.

고형 동맥류성 골낭종은 양성 병변 외에 고형 성분으로 인해 방사선학적 검사상 골육종 등의 악성 골종양과의 감별이 필요하고 병리학적으로도 거대세포종과 유사하여 진단에 어려움이 있으나 비교적 드물게 발생하여 본 증례와 같이 악성 종양으로 오인할 수 있다. 임상적으로 경막외 연부조직의 침범을 동반한 악성 골종양과 양성 골종양의 치료 방향과 예후에 큰 차이가 있으므로 영상의학과, 정형외과 그리고 병리과의 협의 진료하에 드문

아형인 고형 동맥류성 골낭종에 대한 이해가 필요할 것으로 생각하여 본 증례를 보고하는 바이다.

## 참고문헌

1. Vergel De Dios AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer*. 1992;69:2921-31.
2. Sanerkin NG, Mott MG, Roylance J. An unusual intraosseous lesion with fibroblastic, osteoclastic, osteoblastic, aneurysmal and fibromyxoid elements. "Solid" variant of aneurysmal bone cyst. *Cancer*. 1983;51:2278-86.
3. Kim HY, Park JH, Lee BK, Han TI, Kang DW, Choy WS. Solid variant of aneurysmal bone cyst (a case report). *J Korean Bone Joint Tumor Soc*. 1998;4:216-20.
4. Suzuki M, Satoh T, Nishida J, et al. Solid variant of aneurysmal bone cyst of the cervical spine. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2004;29:E376-81.
5. Buirski G, Watt I. The radiological features of "solid" aneurysmal bone cysts. *Br J Radiol*. 1984;57:1057-65.
6. Edel G, Roessner A, Blasius S, Erlemann R. "Solid" variant of aneurysmal bone cyst. *Pathol Res Pract*. 1992;188:791-6.
7. Oda Y, Tsuneyoshi M, Shinohara N. "Solid" variant of aneurysmal bone cyst (extragnathic giant cell reparative granuloma) in the axial skeleton and long bones. A study of its morphologic spectrum and distinction from allied giant cell lesions. *Cancer*. 1992;70:2642-9.
8. Sato K, Sugiura H, Yamamura S, Takahashi M, Nagasaka T, Fukatsu T. Solid variant of an aneurysmal bone cyst (giant cell reparative granuloma) of the 3rd lumbar vertebra. *Nagoya J Med Sci*. 1996;59:159-65.
9. Al-Shamy G, Relyea K, Adesina A, et al. Solid variant of aneurysmal bone cyst of the thoracic spine: a case report. *J Med Case Rep*. 2011;5:261.
10. Vester H, Wegener B, Weiler C, Baur-Melnyk A, Jansson V, Dürr HR. First report of a solid variant of aneurysmal bone cyst in the os sacrum. *Skeletal Radiol*. 2010;39:73-7.

# The Solid Variant of the Aneurysmal Bone Cyst in the Lumbar Spine Mimicking a Malignant Bone Tumor

Yoon Hae Kwak, M.D., Ho-Dong Lyu, M.D., Hye-Rim Park, M.D.\*, and Seok Woo Kim, M.D.

*Departments of Orthopedic Surgery, \*Pathology, Hallym University Sacred Heart Hospital,  
Hallym University College of Medicine, Anyang, Korea*

The Solid variant of the aneurysmal bone cyst is clinically important, because its solid composition is comparable to that observed in osteosarcoma or osteoblastoma, presenting difficulty for the correct diagnosis. The fluid-fluid level, which is a common sign of the conventional aneurysmal bone cyst, is not apparent in radiographs of the solid type. These cysts were localized, equally within the whole spine as compared to most conventional aneurysmal bone cysts in which are localized to the posterior neural arch of the cervical spine. In this particular patient case, a young male aged 11.5 years presented with lower back pain and radiating pain which was misdiagnosed as a malignant bone tumor. Surgical intervention was considered and the incisional biopsy and laminectomy were conducted due to the low possibility of malignancy. We present this case and literature reviews with radiological and pathological findings as an example of the differential diagnosis of malignant tumors.

**Key words:** spine, aneurysmal bone cyst, laminectomy

**Received** December 9, 2011 **Revised** January 9, 2012 **Accepted** February 1, 2012

**Correspondence to:** Seok Woo Kim, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Hallym University Sacred Heart Hospital, 138, Gwanpyeong-ro, Dongan-gu, Anyang 431-070, Korea

**TEL:** +82-31-380-6000 **FAX:** +82-31-380-1814 **E-mail:** swkim@hallym.or.kr