

중수골에 발생한 골육종

김태완 · 서창효 · 천상진 · 이상현 · 김정일[✉]

부산대학교 의학전문대학원 정형외과학교실

Osteosarcoma of the Metacarpal Bone

Tae Wan Kim, M.D., Chang Hyo Seo, M.D., Sang Jin Cheon, M.D., Sang Hyun Lee, M.D., and Jeung Il Kim, M.D.[✉]

Department of Orthopaedic Surgery, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea

Osteosarcoma commonly develops around the knee joint, and rarely in the hand. Patients with osteosarcoma of the hand often present with pain and swelling, and osteosarcoma of the hand has a biological behavior that differs from that of osteosarcoma at conventional sites. However, although it usually occurs in the older age group, compared with conventional osteosarcoma, the most common sites of hand osteosarcoma correlate with the most active growth and longest growing bones in the hand like conventional osteosarcoma, particularly in the metacarpophalangeal joints in the second and third digits. However, development of osteosarcoma in the metacarpal bone of the hand in an elderly patient has not yet been reported in the country. Thus, we report on two cases of osteosarcoma in the metacarpal bone of the hand in elderly patients, treated by ray amputation of the digit and preoperative and postoperative chemotherapy.

Key words: metacarpal bones, osteosarcoma, ray amputation, chemotherapy

골육종은 원발성 악성 골종양 중에 가장 흔한 종양으로 대개의 경우 장골의 골간단부에 발생한다고 알려져 있으며 50% 정도가 슬관절 주위에 발생한다. 골육종이 수부에 발생하는 빈도는 매우 낮으며 수부 중에서는 가장 성장이 활발히 일어나는 제2, 3 수지의 중수지 관절이나 중수골에서 잘 발생한다고 한다.^{1,2)} 골육종은 일반적으로 10대와 20대 사이에서 약 75%가 발생된다고 알려져 있으나 수부에 발생한 골육종은 대개 40세 이후의 고령에서 발생하는 경향이 있다.³⁾ 그러나 수부에 발생하는 골육종은 전체 골육종 발생의 1% 미만으로 매우 드물게 보고되고 있으며,^{1,2,4)} 국내에는 아직 보고된 바가 없다.

이에 저자들은 고령의 환자에서 중수골에 발생한 골육종에 대해 술 전 및 술 후 항암 화학요법과 수지 열 절단술(ray amputation)로 치료한 2예의 드문 증례에 대해 문헌 고찰과 함께 보고하

고자 한다.

증례보고

첫 번째 증례는 56세 남자 환자로 특별한 외상의 과거력 없이 약 6-7개월 동안 지속된 우측 제2 수지의 동통 및 종창으로 타 병원에서 수부의 골낭종 의심하에 시행한 조직검사상 골육종이 의심되어 부산대학교병원 정형외과 외래로 내원하였다. 내원 당시 시행한 이학적 검사상 우측 제2 수지 중수골 부위에 중등도의 종창 및 동통이 있었으며, 기타 신경적 증상이나 관절 운동의 제한 등의 증상은 없었다. 본원에서 시행한 우측 수부 단순 방사선 검사상 제2 중수골 골두 부위에 경계가 불분명한 골용해 소견이 관찰되었으며 피질골 파괴 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1A). 혈액검사상 알칼리성 인산효소가 214 U/L로 약간 증가해 있는 것 외에 특이소견은 없었다. 자기공명영상 소견상 T1 신호 강조 영상에서 저신호 강도, T2 신호 강조 영상에서 고신호 강도, 가돌리니움(gadolinium) 조영 증강 영상 소견상 이질성(inhomogenous)의 조영 증강 소견을 보이는 피질골을 파괴하는 2.5×2.5×3.0 cm 크기의 종괴가 제2 중수골 골두 부위에서 관찰되었으며 이 종괴는 중

Received July 12, 2013 Revised August 23, 2013 Accepted November 3, 2013

[✉]Correspondence to: Jeung Il Kim, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Pusan National University Hospital, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 602-739, Korea

TEL: +82-51-240-7248 FAX: +82-51-247-8395 E-mail: osteokim@yahoo.co.kr

*This study was supported by a clinical research grant from 2013 Pusan National University Hospital.

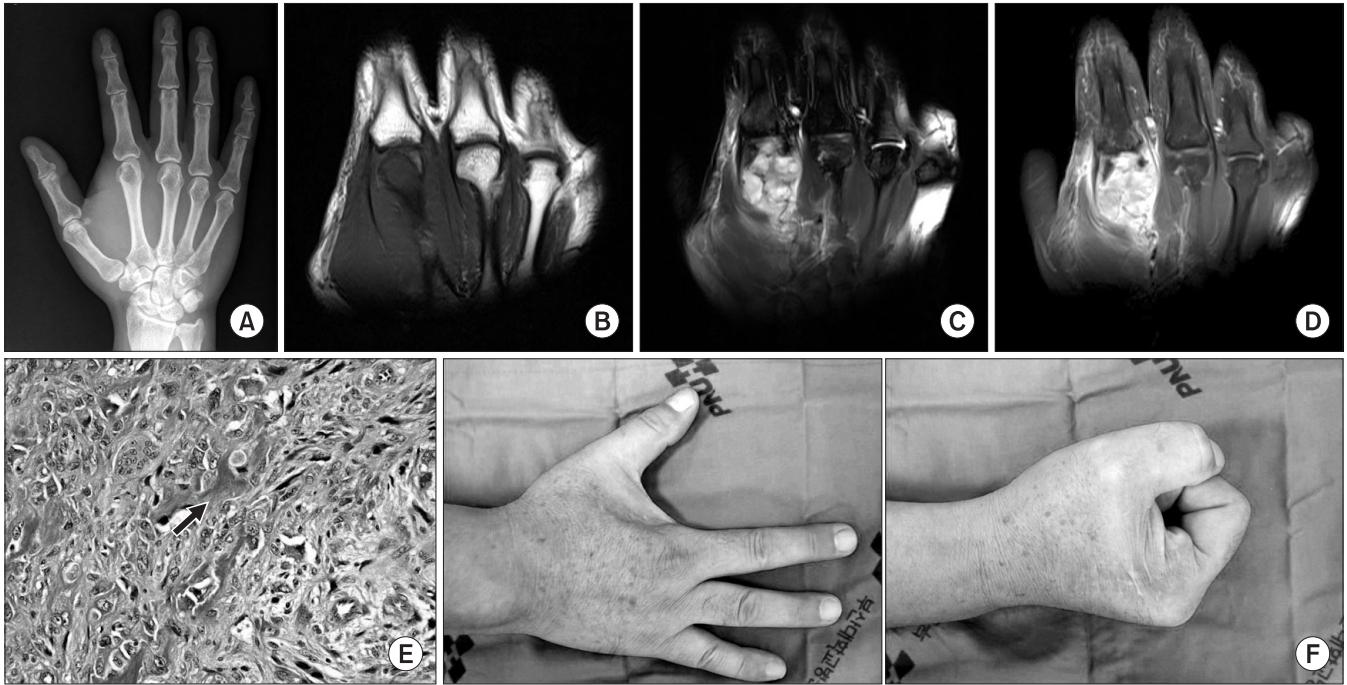


Figure 1. Osteosarcoma of the hand of a 56-year-old male patient. (A) Posteroanterior radiograph of the hand showed an ill-defined osteolytic lesion of the head of the second metacarpal bone, and no definite cortical destruction or soft tissue was found. (B) Coronal T1-weighted image showed a low signal intensity mass in the head of the second metacarpal bone and soft tissue. (C) Coronal T2-weighted image showed a high signal intensity mass in the head of the second metacarpal bone and soft tissue with cortical destruction, and the mass was expanding on the volar side. (D) Gadolinium-enhanced fat saturated T1-weighted image showed inhomogeneous contrast enhancement in the head of the second metacarpal bone and soft tissue. (E) Histologic feature showed a fibroblastic osteosarcoma, showing atypical stromal cells with malignant osteoid (black arrow) (H&E, $\times 400$). (F) Gross appearance of the right hand four years after ray amputation of second finger showed excellent function and appearance.

수골 주위의 연부조직으로 팽창되는 양상을 보였다(Fig. 1B-1D). Positron emission tomography (PET) 단층촬영상 우측 제2 중수골 부위의 열소 소견 이외에 다른 부위의 이상 소견은 없었으며, 흉부 전산화 단층촬영상 폐로의 전이 소견도 없었다. 환자는 혈액 종양내과로 의뢰되어 종괴의 크기를 줄이고 미세전이를 막기 위해 고용량 methotrexate를 사용하여 술 전 항암 화학요법을 시행하였다.

수술적 치료로 종양의 광범위 절제연을 얻기 위해 제2 중수골을 포함한 제2 수지 열 절단술을 시행하였으며, 확진을 위해 실시한 조직검사에서 섬유모세포성 골육종으로 진단되었으며(Fig. 1E). 술 후 환자는 methotrexate와 adriamycin, cisplatin을 사용하여 술 후 항암 화학요법을 시행하였다. 현재 환자는 술 후 4년째 본원 정형외과 외래 추시 관찰 중에 있으며 촬영한 자기공명영상이나 PET 단층촬영, 흉부 전산화 단층촬영상 재발이나 전이 소견을 보이지 않고 관절 운동에도 제한 없이 잘 지내고 있다(Fig. 1F).

두 번째 증례는 73세 여자 환자로, 넘어지면서 수상한 우측 수부의 타박상으로 타 병원에서 시행한 검사상 우측 3 수지 중수골 부위의 내연골종이 의심되어 수술을 받았고, 수술 중 시행한 조직검사에서 골육종이 의심되어 본원 정형외과 외래로 내원하였다. 내원 당시 시행한 이학적 검사상 우측 제3 수지 중수지골 부위의

중등도의 종창 및 동통이 있었다. 본원에서 시행한 우측 수부 단순 방사선 검사상 제3 중수골 전장에 걸쳐 심한 변형 소견을 보이며 피질골의 파괴와 함께 비정형적 골팽창 소견을 보이고 있었다(Fig. 2A). 혈액검사상 알칼리성 인산효소가 264 U/L로 약간 증가해 있는 것 외에는 특이소견은 없었다. 자기공명영상 소견상 제1 수지 근위지골과 제2 수지 중수골 골두에 다수의 5 mm의 원형의 종양이 관찰되었으며 제3 수지 중수골 전장에 걸쳐 피질골의 파괴와 함께 비정형적 골팽창 소견을 보이는 종양이 관찰되었다. 이러한 종양은 T1 신호 강조 영상에서 저신호 강도, T2 신호 강조 영상에서 중등도 강도, 가돌리늄 조영 증강 영상 소견상 이질성의 조영 증강의 소견을 보여 다발성 내연골종의 악성 변화의 양상으로 생각되었다(Fig. 2B-2D). PET 단층촬영과 흉부 전산화 단층촬영상 좌 폐하엽에 폐 전이로 의심되는 6 mm 크기의 결절이 발견되었으나 환자와 보호자가 거부하여 추가적인 조직검사는 시행하지 않았다.

수술적 치료로 종양의 광범위 절제연을 얻기 위해 제3 중수골을 포함한 제3 수지 열 절단술을 시행하였으며 확진을 위해 실시한 조직검사에서 골모세포성 골육종으로 진단되었다(Fig. 2E). 수술 후 항암 화학요법을 시행하려 하였으나 환자와 보호자가 거부하여 시행하지 못하였다. 현재 환자는 술 후 5년째 본원 정형외과



Figure 2. Osteosarcoma of the hand of a 73-year-old female patient. (A) Posteroanterior radiograph of the hand showed an endosteal expansile calcified mass in the entire third metacarpal bone suggesting as malignant transformation of enchondroma. (B-D) Magnetic resonance image showed 5 mm multifocal ring-like masses in the first proximal phalanx and head of the second metacarpal bone, and a large endosteal expansile mass with cortical destruction in the entire third metacarpal bone, suggesting malignant transformation of enchondroma. This mass showed low signal intensity in a T1-weighted image, intermediate signal intensity in a T2-weighted image, and inhomogeneous contrast enhancement in a gadolinium-enhanced fat saturated T1-weighted image. (E) Histologic feature showed an osteoblastic osteosarcoma, showing atypical stromal cells with malignant osteoid (black arrow) (H&E, $\times 200$). (F) Gross appearance and radiographs of the right hand five years after ray amputation of the third finger showed excellent function and appearance.

외래 추시 관찰 중에 있으며 촬영한 자기공명영상이나 PET 단층 촬영, 흉부 전산화 단층촬영상 재발이나 전이 소견을 보이지 않고 관절 운동에도 제한 없이 잘 지내고 있다(Fig. 2F).

고 찰

골육종은 일반적으로 대퇴골 원위부(52%), 경골 근위부(20%), 상

완골 근위부(9%) 등 장골의 골간단부에 주로 발생하며, 골육종이 수부에 발생하는 빈도는 0.18%–0.39%로 매우 드물게 보고되고 있다.^{1,2,4)} Okada 등⁴⁾은 전체 1,681예의 골육종 중 3예만이 수부에 발생한 골육종이었다고 보고하였으며, Clifford와 Kelly⁵⁾는 전체 9,741예의 악성 종양 중 63예만이 수부에서 발생하였다고 보고하였다. 또한 2013년 Anninga 등¹⁾은 4,221예의 골육종 중 13예(0.31%)만이 수부에 발생한 골육종이었다고 보고하였다. 수부에

발생하는 골육종은 발생 자체가 흔하지 않기 때문에 일단 진단이 어렵고 간과하는 경우가 많다. 특히 단순 방사선 소견상 장관골에 발생한 골육종에서 보여주는 햇살 모양이나 침골과 같은 전형적인 골막 반응이 없고 단순한 골흡수나 골형성의 소견만을 보여 병의 초기에는 지방종, 골낭종, 결절종, 내연골종 등의 양성 골종양으로 간과하는 경우가 많으며, 병이 진행되어 피질골 파괴나 연부조직 종괴가 발견되면 그때서야 악성 종양으로 진단하게 되어 증상 시작으로부터 골육종 진단 시기까지 1-2년의 시간이 걸린다는 보고도 있다.^{1,6)} 게다가 수부 골육종 환자들이 가장 흔히 호소하는 증상은 수부의 종창과 동통이며, 몇몇 환자들은 초기 증상으로 동통 없이 단순한 수부의 종창만을 호소하기도 하므로 수부 골육종의 진단을 더욱 어렵게 한다. 따라서 비록 수부에 발생하는 골육종의 빈도가 매우 낮긴 하지만 휴식 시나 야간에 종창과 동반되어 발생하는 수부 동통이 있는 경우에는 골육종의 가능성을 고려해 보아야 할 것이다.

본 증례에서도 첫 번째 증례에서는 단순 방사선 사진상 제2 중수골 골두 부위에 단순한 골용해 소견만이 관찰되어 증상 발현 후 6-7개월이 경과한 후 타 병원에서 골낭종 의심하에 시행한 조직검사상 골육종으로 진단되었으며, 두 번째 증례에서도 수부의 타박상 이후 촬영한 단순 방사선 검사상 제3 수지 중수골 부위의 내연골종이 의심되어 시행한 조직검사상 골육종으로 진단되었다.

골육종은 일반적으로 10대와 20대 사이에서 약 75%가 발생된다고 알려져 있으나, 수부에 발생한 골육종은 대개 40세 이후의 고령에서 발생하는 경향이 있다.³⁾ Anninga 등¹⁾은 4,221예의 골육종 중 수부에 발생한 13예의 골육종이 평균 42.3세에 발생하였다고 보고하였으며, Fowble 등²⁾은 여러 문헌들을 고찰한 결과 수부에 발생한 41예의 골육종 환자들의 평균 연령은 43.3세였으며, 이중 약 36%의 환자들이 60세 이후에 골육종이 발생하였다고 보고하였다. 따라서, 본 증례에서처럼 장기간의 수부 통증을 호소하는 40세 이후의 고령의 환자에서 단순 방사선 사진상 골흡수나 골형성의 소견이 관찰되면 자기공명영상 등 추가적인 검사를 시행하여 수부에 발생한 골육종을 의심해 보는 것이 필요할 것으로 생각된다.

Fowble 등²⁾은 수부에 발생하는 골육종은 비록 전형적인 골육종보다는 더 고령에서 발생하지만 수부에서 가장 성장이 활발히 일어나는 중수지 관절, 특히 제2, 3 수지의 중수지 관절에서 가장 많이 발생한다고 보고하였다. 이는 전형적인 골육종이 대퇴골 원위부나 경골 근위부, 상완골 근위부에서 잘 발생하는 경향을 가진 것과 일치하며, Kerin⁷⁾이 123예의 수부에 발생한 전이성 암이 수부의 모든 부위에 대칭적으로 분포하였으며, 특히 원위지골에 주로 발생하였다는 보고와는 대조적이다. 또한 Anninga 등¹⁾도 13예의 수부 골육종 중 8예(62%)의 경우에서 중수골에 발생하였다고 보고하였다. 본 증례에서도 각각 제2 중수골 골두와 제3 중수골에서 골육종이 발생하여 이러한 이전 보고의 결과와 일치하였

다.

일단 수부의 골육종이 의심되는 환자가 내원하면 침범부위의 단순 방사선 검사 및 골이나 연부조직 침범정도를 알아보기 위해 가돌리니움 조영 증강 영상을 포함한 자기공명영상을 시행하고, 다른 부위의 전이 유무를 알기 위해 흉부 전산화 단층촬영 및 골주사 스캔, PET 단층촬영 등을 시행하여야 한다. 그 후 조직적 확진을 위한 천자 생검(needle biopsy)나 개방 생검(open biopsy) 등을 시행하여야 한다. 치료는 대부분에서 술 전 항암 화학요법을 먼저 실시하여 종양의 크기를 줄이고 미세전이를 막아 화학요법 자체에 대한 반응 및 약제를 결정한다. 이후 광범위 절제술을 시행하고 술 후 항암 화학요법을 시행하고 있다.⁸⁾ 종양의 절제연을 정확하게 정하는 것에 대해서는 아직도 이견이 있지만 술 전 화학요법을 시행하기 전에는 약 5 cm 정도가 적절하고, 술 전 화학요법을 시행하였을 경우 3 cm 정도를 절제연으로 하고 있다.⁹⁾ 따라서 수부의 중수골에 발생한 골육종에 있어서는 종양의 광범위 절제연을 얻기 위해 침범된 수지의 열 절단술을 시행하는 것이 최선의 치료 방법이며 수지 열 절단술 후의 열 전환술(ray transposition)로 수지 물갈퀴 공간을 초기에 폐쇄할 수 있고 손의 파악력(grip strength)을 더 강하게 할 수 있을 뿐 아니라 손의 외관상의 모습도 더 좋게 할 수 있다.¹⁰⁾ 본 증례에서도, 종양의 광범위 절제연을 확보하기 위해 첫 번째 증례에서는 제2 수지 열 절단술을, 두 번째 증례에서는 제3 수지 열 절단술을 시행하였다.

수부에 발생한 골육종의 예후에 있어서 Okada 등⁴⁾은 수부에 발생한 골육종은 주로 공격적 성향이 적은 저등급의 잘 분화된 종양의 경우가 많으며 다른 부위에 발생한 골육종에 비해 수술적 치료에 반응을 잘한다고 보고하였다. 그러나 12세 이하의 어린 나이에 발생하였거나 고등급의 병리조직적 특성을 나타내는 경우, 병적 골절이 동반된 경우, 폐 등으로의 원격전이가 동반된 경우에는 나쁜 예후를 보인다고 한다.³⁾

이처럼 저자들은 고령의 환자에서 중수골에 발생한 골육종에 대해 술 전 항암 화학요법, 수지 열 절단술, 술 후 항암 화학요법으로 치료한 1예 및 수지 열 절단술로만 치료한 1예의 드문 증례에 대해 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Anninga JK, Picci P, Fiocco M, et al. Osteosarcoma of the hands and feet: a distinct clinico-pathological subgroup. *Virchows Arch.* 2013;462:109-20.
2. Fowble VA, Pae R, Vitale A, Bryk E, Vigorita VJ. Case reports: osteosarcoma of the hand: one case and a literature review. *Clin Orthop Relat Res.* 2005;440:255-61.
3. Sforzo CR, Scarborough MT, Wright TW. Bone-forming tumors of the upper extremity and Ewing's sarcoma. *Hand Clin.*

- 2004;20:303-15.
4. Okada K, Wold LE, Beabout JW, Shives TC. Osteosarcoma of the hand. A clinicopathologic study of 12 cases. *Cancer*. 1993;72:719-25.
5. Clifford RH, Kelly AP Jr. Primary malignant tumors of the hand. *Plast Reconstr Surg* (1946). 1955;15:227-32.
6. Larsson SE, Lorentzon R, Wedrén H, Boquist L. Osteosarcoma. A multifactorial clinical and histopathological study with special regard to therapy and survival. *Acta Orthop Scand*. 1978;49:571-81.
7. Kerin R. Metastatic tumors of the hand. A review of the literature. *J Bone Joint Surg Am*. 1983;65:1331-5.
8. Rosen G, Marcove RC, Caparros B, Nirenberg A, Kosloff C, Huvos AG. Primary osteogenic sarcoma: the rationale for preoperative chemotherapy and delayed surgery. *Cancer*. 1979;43:2163-77.
9. Papagelopoulos PJ, Galanis EC, Vlastou C, et al. Current concepts in the evaluation and treatment of osteosarcoma. *Orthopedics*. 2000;23:858-67.
10. Posner MA. Ray transposition for central digital loss. *J Hand Surg Am*. 1979;4:242-57.

중수골에 발생한 골육종

김태완 • 서창호 • 천상진 • 이상현 • 김정일[✉]

부산대학교 의학전문대학원 정형외과학교실

골육종은 주로 슬관절 주위에 발생하며, 수부에 발생하는 경우는 드물다. 수부에 발생한 골육종 환자들은 종종 수부의 통증이나 종창 등의 증상을 호소하며, 일반적인 위치에 발생한 골육종과는 다른 생물학적 특성을 가진다. 수부에 발생한 골육종은 대개 일반적인 골육종보다는 더 고령에서 발생하지만 전형적인 골육종처럼 수부에서 가장 성장이 활발히 일어나는 제2, 3 수지의 중수지 관절에서 가장 잘 발생한다. 그러나 고령의 환자에서 수부의 중수골에 발생한 골육종에 대한 경우는 아직 국내에 보고된 바가 없다. 이에 저자들은 고령의 환자에서 중수골에 발생한 골육종에 대해 술 전 및 술 후 화학요법과 수지 열 절단술로 치료한 2예의 증례를 보고하고자 한다.

색인단어: 중수골, 골육종, 열 절단술, 화학요법

접수일 2013년 7월 12일 수정일 2013년 8월 23일 게재확정일 2013년 11월 3일

[✉]책임저자 김정일

부산시 서구 구덕로 179, 부산대학교병원 정형외과

TEL 051-240-7248, FAX 051-247-8395, E-mail osteokim@yahoo.co.kr

*이 논문은 2013년도 부산대학교병원 임상연구비에 의하여 연구되었음.