

연골모세포종의 치료 및 임상적, 종양학적 결과: 거대세포종과의 결과 비교

신덕섭[✉] • 최치범 • 박재우 • 나호동

영남대학교의료원 정형외과

The Clinical Characteristics, Treatments and Oncologic Outcomes of Chondroblastoma: Comparison with Giant Cell Tumor

Duk-Seop Shin, M.D.[✉], Chi-Bum Choi, M.D., Jae-Woo Park, M.D., and Ho-Dong Na, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Yeungnam University Medical Center, Daegu, Korea

Purpose: The purpose of the study was to compare clinical, oncological outcomes between chondroblastoma and giant cell tumor.

Materials and Methods: This retrospective study reviewed 25 patients with histologically confirmed chondroblastoma of bone between 1998 and 2012. During the same period, 42 patients diagnosed as a giant cell tumor were also reviewed. We then analyzed clinical and oncological results of chondroblastoma compared with giant cell tumor. In chondroblastoma, 17 cases were male, and 8 cases were female, with a mean age of 20.6 years (range from 11 to 38 years). In giant cell tumor, 20 cases were male, and 22 cases were female, with a mean age of 39.26 years (from 17 to 75 years). All patients underwent surgical treatment that extended curettage with electrocauterization. After curettage, bony cavity was filled with autogenous bone, allogenic bone chip, bone cement, tricalcium phosphate, and so on. The results were compared in recurrence and metastatic rate. The minimum follow-up period was 1 year.

Results: In chondroblastoma, mean size was 2.18 cm (0.3 to 9.5 cm). Local recurrence and metastasis were absent. In giant cell tumors, mean size was 3.71 cm (0.3 to 11 cm). Local recurrence rate was 9.5% (4 of 42 cases) and there was one lung metastasis.

Conclusion: Chondroblastoma is less invasive with better prognosis than giant cell tumor. Treatment of chondroblastoma and giant cell tumor is surgery. Electrocauterization as an adjuvant therapy showed good results.

Key words: chondroblastoma, giant cell tumors, prognosis

서 론

연골모세포종은 드문 양성 연골기원의 종양으로 골종양의 1%~2%를 차지하고 있다.^{1,2)} 1942년 Jaffe와 Lichtenstein³⁾에 의해 처음 명명된 종양으로서 미성숙 연골모세포로 이루어져 있다. 여자보다 남자에게서 호발하며 호발 부위로는 대퇴골 원위부, 경골 근위부, 근위 상완골 등 장관골의 골단에서 주로 발생한다.^{4,5)} 연

골세포종은 거대세포종과 영상학적으로 유사성을 가지며, 거대세포종으로 오진되기도 한다.^{6,7)} 거대세포종은 연골모세포종과 예후에 있어서 차이가 있기 때문에 감별 진단해야 할 종양으로서 골종양의 5%를 차지하고 있다.⁸⁾ 거대세포종은 여성에서 상대적으로 호발한다고 보고되고 있으며, 주위와 잘 경계 지어지는 용해성 병변을 갖는 것이 특징이다.^{9,10)} 호발 부위는 대퇴골 원위부, 경골 근위부 요골 원위부 등 연골모세포와 마찬가지로 장관골의 골단에서 주로 발생한다.⁷⁾ 연골모세포종은 주로 10대에서 20대에 호발하는 것으로 보고되고 있다. 이에 반해 거대세포종은 성장판이 닫힌 후인 20대에서 40대 사이에 호발하는 것이 특징이다.^{7,10,11)} 연골모세포종과 거대세포종 모두 치료는 주로 수술적 방법을 통해 시행한다. 수술은 소파술 후 국소 보조요법으로 골시멘트 충

Received May 11, 2015 Revised July 31, 2015 Accepted September 21, 2015

[✉]Correspondence to: Duk-Seop Shin, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Yeungnam University Medical Center, 170 Hyeonchung-ro, Nam-gu, Daegu 42415, Korea

TEL: +82-53-620-3640 FAX: +82-53-628-4020 E-mail: dukseop@gmail.com

전술, 액화질소를 이용한 냉동소작술, 열소작술 등을 추가로 시행한다.^{7,11)} 치료 후 국소 재발 및 드물게 원격 전이를 일으킬 수 있다고 보고되고 있다.^{1,12)} 본 연구에서는 연골모세포종의 치료 및 임상적, 종양학적 결과를 거대세포종과 비교 분석하고자 한다.

대상 및 방법

1998년부터 2012년까지 병리학적으로 연골모세포종으로 진단받은 25예의 환자를 후향적으로 추적 분석하였다. 결과를 비교하기 위해 같은 기간 동안 영남대학교의료원에서 진단 및 치료받은 거대세포종 환자 42명을 대조군으로 만들어 이들의 치료 성적을 분석하였다. 두 군 간의 성별, 평균 나이, 추시 기간, 종양의 발생 부위 및 크기, 재발 및 전이 여부에 대해 비교 분석하였다. 모든 환자는 동일한 술자에 의해 수술적 치료를 시행하였다. 술 전 단순촬영 X선 검사 및 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI)을 통하여 골간단으로의 침범 및 주변 골간, 연부조직으로의 침범 여부, 피질골의 파괴 등 병변의 범위를 파악하였다. 종양의 크기는 MRI상의 가장 긴 길이로 하였다. 이후 수술은 병변 부위에 최소 침습적 절개를 시행하여 주위 조직으로의 오염이 되는 것을 최소화하며 골조직검사를 시행하였다. 동결절편 조직검사

상 술 전 예상되었던 연골모세포종 또는 거대세포종이 맞을 경우 충분한 소파술을 시행하였으며, 이후 추가로 전기소작술을 시행하였다. 다음으로 빈 공간에 자가골 이식술, 동종 골이식술, 골시멘트 삽입술을 시행하였으며 필요 시 골종양 대체 삽입술을 시행하였다. 동결절편 조직검사상 확진이 어려울 경우 지혈 후 창상 봉합하였으며 영구절편 조직검사를 확인하여 2단계 수술을 시행하였다(Fig. 1).

수술 후, 재발 및 전이 여부를 단순 촬영 X선 검사 및 필요 시 MRI 촬영을 통해 추시관찰 후 예후를 분석하였다. 양 군 모두 최소 12개월 이상 추시관찰하였으며 평균 추기 기간은 연골모세포종에서 86개월(12-195개월), 거대세포종에서 103개월(12-203개월)이었다.

결 과

연골모세포종군은 남자 17명, 여자 8명이었으며 평균 나이는 20.6세(11-38세)였다. 거대세포종군은 남자 20명, 여자 22명이었으며 평균 나이는 39.26세(17-75세)였다. 병변 부위는 대퇴골 9예, 슬개골 3예, 상완골 원위부 3예, 경골 3예, 거골 3예, 중족골 2예, 척골 1예, 종골 1예 순으로 나타났다. 병변의 평균 크기는 2.18 cm (0.3-

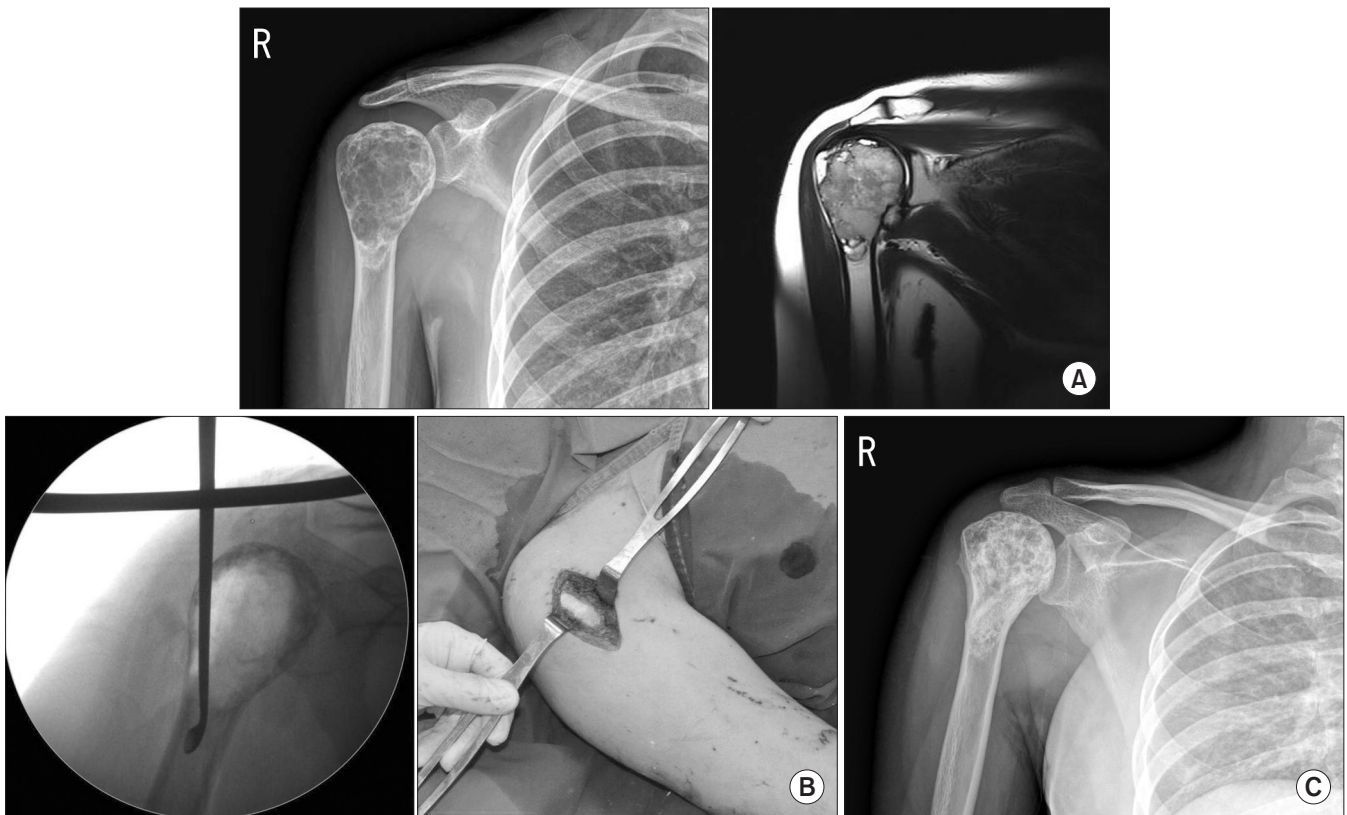


Figure 1. A 28-year-old female with humeral chondroblastoma. (A) Preoperative radiograph of the right proximal humerus. (B) Intraoperative radiograph and photo. After curettage and allochip bone graft, the opening site was covered with bone cement. (C) Follow-up radiograph 2 years after surgery.

Table 1. Clinical and Oncologic Outcomes of Chondroblastoma: Comparison with Giant Cell Tumor

Variable	Chondroblastoma (25 cases)	Giant cell tumor (42 cases)
Gender (male/female)	17/8	20/22
Mean age (yr)	20.6 (11–38)	39.26 (17–75)
Follow-up period (mo)	86 (12–195)	102 (12–203)
Size (cm)	2.18 (0.3–9.5)	3.71 (0.3–11)
Clinical complications	0	0
Recurrence cases	0	4
Metastasis cases	0	1

Values are presented as number only or median (range).

9.5 cm)였다. 모든 환자는 소파술을 시행하였으며, 이 중 10명은 자가골 이식술, 7명은 동종 골이식술을 시행하였고, 6명은 골시멘트를 이용하였다. 2명은 자가골 및 동종골을 이용하였으며, 1명은 자가골 및 동종 골, 골시멘트를 이용하여 소파술 후 비어 있는 공간을 채워 넣었다. 거대세포종은 총 42명이었으며, 병변 부위는 대퇴골 19예, 경골 7예, 요골 5예, 비골 5예, 상완골 2예, 슬개골 1예, 척골 1예, 중수골 1예, 거골 1예로 나타났다. 장관골 외에도 다양한 부위에서 병변이 관찰되었으며, 특히 연골모세포종에서는 없었던 요골 원위부에 5예가 관찰된 것이 특징이었다. 병변의 평균 크기는 3.71 cm (0.3–11 cm)였다(Table 1).

소파술 시행 후 동종 골이식술 20명, 골시멘트 13명, 소파술 후 자가골 이식술을 시행한 환자 7명, 골절제 및 골종양 대체 삽입술을 시행한 환자 2명이었다. 두 군 모두 소파술 후 전기소작술을 추가로 시행하였다. 연골모세포종에서는 25명의 환자 중 국소 재발한 환자는 관찰되지 않았으며, 거대세포종에서는 42명 중 4명(9.5%)의 환자에서 국소 재발이 관찰되었다. 연골모세포종에서 전이가 확인된 환자는 없었으며, 거대세포종에서는 42명 중 1명에서 폐 전이가 확인되었다.

고 찰

연골모세포종은 전체 골종양에서 드문 양성 종양으로 성장 중인 10대에서 20대에 호발하는 것으로 알려져 있다.¹¹⁾ 주로 장관골의 골단에서 발생하며 방사선적, 조직학적으로 양성의 특징을 가지는 반면 폐전이기가 드물게 발생할 수 있다.^{1,7)} 연골모세포종과 감별해야 할 거대세포종은 마찬가지로 양성 골종양으로 분류되지만, 골단에서 발생하여 때때로 연골하골의 파괴 및 관절내 침범을 보일 수 있으며 골간단부 이행 및 골파괴가 일어날 수 있다. 또한 연골모세포와 다르게 성장판이 닫힌 뒤인 20대에서 40대 사이에 호발한다.^{7,9,10)} 이들은 영상학적으로 구분하기가 힘들나 병리학적으로 쉽게 구분 가능하다. 연골모세포종은 연골세포와 혼합 세포들

이 바탕으로 닭장 양상의 석회화가 동반되지만 거대세포종은 타 원형의 단핵세포들과 함께 바탕으로 수많은 파골형의 거대세포들이 존재한다.¹³⁾ 연골모세포종은 수술적 치료 후 국소 재발률이 10%–25%, 거대세포종은 10%–31%로 보고되고 있다.^{6,14–16)}

본 연구에서는 연골모세포종에서 25명의 환자 중 국소 재발한 환자는 관찰되지 않은 반면, 거대세포종에서 42명 중 4명(9.5%)에서 국소 재발이 관찰되었다. 거대세포종의 국소 재발률은 기존의 연구와 비교하여 비슷한 수치를 보였으나 연골모세포종은 본 연구에서 재발한 환자가 관찰되지 않은 좋은 결과를 보였다. 연골모세포종은 거대세포종과 유사한 면이 많이 있으나 실제 치료 성적을 비교해보았을 때 상대적으로 비침습적이며 양성종양의 성향이 더 강한 것으로 생각된다.

또한 소파술 후 보조 요법으로 전기소작술을 시행한 것이 치료 성적 향상에 도움이 되었을 것으로 생각된다. van der Geest 등¹⁷⁾은 소파술과 저온수술을 함께 시행하면 국소 재발률을 낮출 수 있다고 보고하고 있으며 Atalar 등¹⁸⁾은 소파술 시 burr를 이용할 경우 도움이 되며 특히 접근이 어려운 병변에서 유용하다고 보고하였다. 동시에 전기소작술을 보조치료로 시행할 경우 열로 소파술 후 남아 있는 종양세포를 죽여서 예후 향상에 도움을 줄 수 있다고 보고하였다.^{11,18)} 성장판이 닫히지 않은 환자에서는 burr를 이용한 소파술 및 전기소작술을 이용 시 성장판 손상을 주의해야 한다.¹¹⁾ 이외에도 Dürr 등¹⁹⁾은 폐쇄, 과산화 수소가 도움이 된다고 보고하고 있으며 Swarts 등²⁰⁾은 메틸메타아크릴산을 골시멘트와 함께 사용 시 방출되는 고열과 메토티렉세이트와 아드리아마이신과 같은 세포독성 물질이 재발을 줄여줄 것으로 보고하였다.

또한 색전술을 사용할 수 있는데 이는 절제 불가능한 천추, 골반 골 종양 시 일정한 간격의 색전술을 통하여 크기의 감소 및 이로 인한 배뇨, 배변 장애 호전과 통증 호전을 기대할 수 있다.^{7,11,18)}

연구 대상의 연골모세포종과 거대세포종은 기존의 연구에서 보고하였듯이 장관골에서 주로 관찰되었다. 장관골 중 주로 대퇴골, 경골에서 흔히 관찰되었으며, 이 외에 연골모세포는 상완골근위부, 거대세포종은 요골 원위부에 호발하였다. 장관골 외에도 중수골, 거골, 슬개골, 중족골 등 다양한 부위에서 병변이 관찰되었다. 종양의 흔한 호발 부위가 아니라도 환자의 증상 및 영상학적 검사를 통해 연골모세포종 및 거대세포종을 감별해야 할 것이다. 파제트병(Paget's disease)의 경우 두개골이나 골반골에서도 이차적으로 거대세포종이 발생할 수 있다고 보고되고 있다.²¹⁾ 본 연구의 일례 중 타 병원을 통하여 영상학적으로 관찰되었던 골종양을 발견하지 못하고, 퇴행성 슬관절염 소견하 인공 슬관절 치환술을 계획 후 수술을 시행하였으며, 술 중 골절단부에 골종양 의심 병변이 발견되어 창상 봉합 후 본원으로 전원되어 거대세포종 진단 하 소파술 및 골시멘트 삽입술 시행 및 이차적으로 인공 슬관절 치환술을 시행한 경우가 있다(Fig. 2). 이를 미루어 호발 부위에서의 증상 시 거대세포종 또는 연골모세포종의 세심한 감별 또한



Figure 2. A 62-year-old female with a distal femoral Giant cell tumor. (A) Preoperative radiograph of the right distal femur showing an osteolytic lesion. (B) Preoperative magnetic resonance image showing a heterogeneous mass with mild enhancement in the distal femur and in X-ray, showing a skin stapler after making a parapatella incision at the local medical center. (C) Intraoperative gross photo, after extended curettage and electrocauterization, the cavity was filled with allochip bone and the opening site was covered with bone cement. (D) Postoperative radiograph and the patient underwent a total knee arthroplasty 1 year later.

필요하다.

연골모세포종과 거대세포종에서 발생할 수 있는 합병증으로는 우선 국소 재발률이 있다. 수술적 치료 후 반드시 충분한 기간 동안 추시관찰을 통해 국소 재발 여부 확인이 필요하다. 추시 2년간 재발이 가장 많은 것으로 보고되고 있으며 국소 재발 여부는 환자의 통증과 영상학적으로 지속된 골이식 또는 주변 해면골로의 골융해 병변이 진행 시 의심해야 한다. 골 시멘트 사용환자에서는 첫 6개월간 고열 손상으로 인한 시멘트 주변 2 mm 골융해 병변이 관찰가능하나 6개월 후 얇은 골 경화 경계가 생기는데 이후에도 골경화 경계가 생기지 않을 시 국소 재발을 의심해야 한다. 다음으로 병적 골절이다. 병변에서 병적 골절이 있을 경우 국소 재발률을 높일 수 있으며, 치료 후 기능 저하 등이 발생할 수 있으므로 병변이 발견되었을 경우 치료가 끝날 때까지 골절이 발생하지 않도록 유의해야 한다. 그 외에도 타 부위로의 전이, 술 후 감염 등이 발생할 수 있다.^{6,7,11,22)}

결론

연골모세포종과 거대세포종은 임상증상 및 발생 위치가 비슷한 종양으로 감별이 필요하다. 본 연구에서는 연골모세포종이 상대적으로 비침습적이며 양성종양의 성향이 더 강한 것으로 생각된다. 연골모세포종과 거대세포종 모두 수술적 치료를 시행을 시행하며 수술적 치료 시 충분한 소파술을 시행 후 보조 요법으로의 전기소작술을 시행할 경우 예후에 도움될 것으로 생각된다. 또한 연골모세포종과 거대세포종 모두 재발 및 드물지만 폐 전이 가능성이 있다. 따라서 치료 전 반드시 환자에게 재발 및 전이 가능성에 대한 충분한 설명이 필요하며 수술 후 지속적인 경과관찰이 필요하다.

CONFLICTS OF INTEREST

The authors have nothing to disclose.

REFERENCES

1. Dahlin DC, Ivins JC. Benign chondroblastoma. A study of 125 cases. *Cancer*. 1972;30:401-13.
2. Springfield DS, Capanna R, Gherlinzoni F, Picci P, Campanacci M. Chondroblastoma. A review of seventy cases. *J Bone Joint Surg Am*. 1985;67:748-55.
3. Jaffe HL, Lichtenstein L. Benign chondroblastoma of bone: a reinterpretation of the so-called calcifying or chondromatous giant cell tumor. *Am J Pathol*. 1942;18:969-91.
4. Davila JA, Amrami KK, Sundaram M, Adkins MC, Unni KK. Chondroblastoma of the hands and feet. *Skeletal Radiol*. 2004;33:582-7.
5. Suneja R, Grimer RJ, Belthur M, et al. Chondroblastoma of bone: long-term results and functional outcome after intralesional curettage. *J Bone Joint Surg Br*. 2005;87:974-8.
6. Bloem JL, Mulder JD. Chondroblastoma: a clinical and radiological study of 104 cases. *Skeletal Radiol*. 1985;14:1-9.
7. Raskin KA, Schwab JH, Mankin HJ, Springfield DS, Horneicek FJ. Giant cell tumor of bone. *J Am Acad Orthop Surg*. 2013;21:118-26.
8. Han CS, Bae DK, Kwon HS, Lee JW, Park MS. Treatment of the giant cell tumor using electric cauterization with cement. *J Korean Bone Joint Tumor Soc*. 1998;4:136-41.
9. Olivera P, Perez E, Ortega A, et al. Estrogen receptor expression in giant cell tumors of the bone. *Hum Pathol*. 2002;33:165-9.
10. Su YP, Chen WM, Chen TH. Giant-cell tumors of bone: an analysis of 87 cases. *Int Orthop*. 2004;28:239-43.
11. Lin PP, Thenappan A, Deavers MT, Lewis VO, Yasko AW. Treatment and prognosis of chondroblastoma. *Clin Orthop Relat Res*. 2005;438:103-9.
12. Kyriakos M, Land VJ, Penning HL, Parker SG. Metastatic chondroblastoma. Report of a fatal case with a review of the literature on atypical, aggressive, and malignant chondroblastoma. *Cancer*. 1985;55:1770-89.
13. Edel G, Ueda Y, Nakanishi J, et al. Chondroblastoma of bone. A clinical, radiological, light and immunohistochemical study. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol*. 1992;421:355-66.
14. Turcotte RE, Kurt AM, Sim FH, Unni KK, McLeod RA. Chondroblastoma. *Hum Pathol*. 1993;24:944-9.
15. Ghert MA, Rizzo M, Harrelson JM, Scully SP. Giant-cell tumor of the appendicular skeleton. *Clin Orthop Relat Res*. 2002;400:201-10.
16. Blackley HR, Wunder JS, Davis AM, White LM, Kandel R, Bell RS. Treatment of giant-cell tumors of long bones with curettage and bone-grafting. *J Bone Joint Surg Am*. 1999;81:811-20.
17. van der Geest IC, van Noort MP, Schreuder HW, Pruszczynski M, de Rooy JW, Veth RP. The cryosurgical treatment of chondroblastoma of bone: long-term oncologic and functional results. *J Surg Oncol*. 2007;96:230-4.
18. Atalar H, Basarir K, Yildiz Y, Ereku S, Saglik Y. Management of chondroblastoma: retrospective review of 28 patients. *J Orthop Sci*. 2007;12:334-40.
19. Dürr HR, Maier M, Jansson V, Baur A, Refior HJ. Phenol as an adjuvant for local control in the treatment of giant cell tumour of the bone. *Eur J Surg Oncol*. 1999;25:610-8.
20. Swartz SJ, Neff JR, Johansson SL, Bridge JA, Nelson M. Significance of abnormalities of chromosomes 5 and 8 in chondroblastoma. *Clin Orthop Relat Res*. 1998;349:189-93.
21. Rendina D, De Filippo G, Ralston SH, et al. Clinical characteristics and evolution of giant cell tumor occurring in Paget's disease of bone. *J Bone Miner Res*. 2015;30:257-63.
22. Huvos AG, Marcove RC. Chondroblastoma of bone. A critical review. *Clin Orthop Relat Res*. 1973;95:300-12.

연골모세포종의 치료 및 임상적, 종양학적 결과: 거대세포종과의 결과 비교

신덕섭[✉] • 최치범 • 박재우 • 나호동

영남대학교의료원 정형외과

목적: 연골모세포종의 치료 및 임상적, 종양학적 결과를 거대세포종과 비교하고자 한다.

대상 및 방법: 1998년부터 2012년까지 연골모세포종으로 진단받은 25예의 환자를 후향적으로 추적 분석하였으며, 거대세포종 환자 42명을 대조군으로 만들어 비교하였다. 모든 환자는 수술적 치료를 시행하였으며 술 후 예후를 분석하였다. 양 군 모두 최소 12개월 이상 추시 관찰하였다.

결과: 연골모세포종으로 진단받은 환자는 25명이었으며, 병변 부위는 대퇴골 9예, 슬개골 3예, 상완골원위부 3예, 경골 3예, 거골 3예 등으로 나타났다. 병변의 평균 크기는 2.18 cm (0.3-9.5 cm)였다. 거대세포종은 총 42명이었으며, 병변 부위는 대퇴골 19예, 경골 7예, 요골 5예, 비골 5예 등으로 나타났다. 병변의 평균 크기는 3.71 cm (0.3-11 cm)였다. 연골모세포종에서는 국소 재발한 환자는 관찰되지 않았으며, 거대세포종에서는 42명 중 4명(9.5%)의 환자에서 국소 재발이 관찰되었다. 연골모세포종에서 전이가 확인된 환자는 없었으며, 거대세포종에서는 1명에서 폐전이 확인되었다.

결론: 연골모세포종이 상대적으로 비침습적이며 양성종양의 성향이 더 강한 것으로 생각된다. 연골모세포종과 거대세포종 모두 수술적 치료를 시행을 시행하며 보조요법으로의 전기소작술이 도움될 것으로 생각된다.

색인단어: 연골모세포종, 거대세포종, 예후

접수일 2015년 5월 11일 수정일 2015년 7월 31일 게재확정일 2015년 9월 21일

[✉]책임저자 신덕섭

42415, 대구시 남구 현충로 170, 영남대학교의료원 정형외과

TEL 053-620-3640, FAX 053-628-4020, E-mail dukseop@gmail.com