

연골육종

서울대학교 의과대학 정형외과학교실·병리학교실*

이한구·이덕용·석세일·김영민·정문상·성상철·최인호
황규엽·서병호·안궁환*·박인애*·송형근*

= Abstract =

Chondrosarcoma

Han Koo Lee, M.D., Duk Yong Lee, M.D., Se Il Suk, M.D., Young Min Kim, M.D.,
Moon Sang Chung, M.D., Sang Chul Sung, M.D., In Ho Choi, M.D., Kyu Yub Hwang, M.D.,
Byung Ho Seo, M.D., Geung Hwan Ahn, M.D.* In Ae Park, M.D.* and Hyung Geun Song, M.D.*

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Seoul National University

* Department of Pathology, College of Medicine, Seoul National University

A clinicopathologic study was done on 23 cases of chondrosarcoma and its variants, which were in the files of Department of Pathology, College of Medicine, Seoul National University during a period of 16 years beginning from January 1968 to December 1984.

These tumors consisted of 17 cases(73.9%) of chondrosarcoma, 13 primary and 4 secondary, 4 cases(17.4%) of mesenchymal chondrosarcoma, 1 case (4.3%) of dedifferentiated chondrosarcoma and 1 case (4.3%) of clear cell chondrosarcoma. The chondrosarcomas were prevalent on the 5th-7th decades of life, especially in the 5th decade. The secondary chondrosarcoma appeared in the younger age group than the primary chondrosarcoma. The male to female sex ratio was 11 to 12.

The chief complaints were palpable mass (59.1%) or pain(40.9%) for a relatively long period of time, most frequently for a period of 2-10 year (39.1%).

The predilection sites were innominate bones, sacrum, femur and tibia.

Radiologically the tumor presented destructive lesion with patchy or ring-like calcification.

The gross appearance of the chondrosarcoma presented central(10 cases) and peripheral(7 cases) types. The histologic grades seemed to be correlated with death rate: no patient with grade I chondrosarcoma died of tumor but 1 of 3 patients with grade II chondrosarcoma died of recurrent tumor. Recurrence was frequent in the pelvis, sacrum, sternum, rib and scapula in comparison with bones of the extremity and seemed to be frequent after inadequate surgery.

Key Words: Chondrosarcoma.

서 론

연골육종은 분엽상의 초자양연골을 형성하는 악성 종양으로서 골수종을 제외하면 원발성 골악성 종양 중 골육종 다음으로 흐발하는 악성종양이다^{10,11,14}. 골육종은 대개 20세 이전의 짧은 연령층에서 장골(long tubular bone) 특히 대퇴하단 및 경골상단에 흐

* 본 논문은 1985년도 서울대학교병원 임상연구
비보조로 이루어졌다.

발하는 치사율이 높은 종양임에 반해 연골육종은 40-60세의 장 노년층에서 골반골 및 장골에 빈발하는 양상을 보이는 예후가 골육종에 비해 비교적 양호한 악성종양이다¹⁴. 선행 병변 없이 발생하는 연골육종을 원발성 연골육종(primary chondrosarcoma), 골의 표면부의 고립성 혹은 다발성 골연골종(osteochondroma), 골 내부의 연골종(enchondroma) 혹은 다발성 연골종에서 발생하는 연골육종을 이차성 연골육종(secondary chondrosarcoma)이라고 한다¹⁴. 최근에 이르러 이러한 성숙된 초자양 연골을 형성

하는 전형적 연골육종이외에 몇가지 연골육종의 유형내지 변형이 기술되었다^{14,15,22,23)}. 연골육종의 예후는 중앙의 분화도와 종양조직 절제면과의 사이에 있는 정상조직의 양, 즉 외과적 치료방법에 좌우된다고 알려져 있다^{16,20,22,23)}.

우리나라에서는 연골육종의 산발적 증례보고 및 종양 전반에 걸친 발생양상 내지 임상적 고찰에 관한 보고는 있으나 예후인자에 관한 분석보고는 태무한 형편이며 새로운 유형에 관해서는 단편 적인 증례보고가 있을뿐, 추시 기타 그 질병경과에 관한 종합적 보고는 없다¹⁻¹¹⁾. 이에 저자들은 비교적 다수의 증례를 토대로 우리나라 사람에서의 연골육종의 성상, 예후에 미치는 인자, 치료방법 및 새로이 기술된 연골육종의 유형에 관해 검토하고자 다음과 같은 연구에 착수하였다.

연구 재료 및 연구 방법

본 연구에 사용된 증례는 1968년부터 1984년까지 서울대학교병원에 입원하여 치료를 받은 환자의 골종양증례를 재검색하여 병리학적으로 연골육종으로 확인된 예를 대상으로 하였다. 저자들의 연고육종의 병리학적 진단기준은 Lichtenstein 및 Jaffe(1984)와 Dahlin(1979)¹⁴⁾의 진단 기준에 준하였다. 즉 1) 현미경적으로 많은 종양세포가 통통한(plump) 핵을 가지며, 2) 비교적 자주 통통한 핵을 두 개 가진 연골소강이 관찰되고, 3) 큰 단일핵 혹은 다핵을 가진 거대연골세포나 염색질 덩어리를 가진 거대연골세포가 관찰되는 경우이다. 추가로 외부병원에서 수술을 받고 본 대학 병리학 교실에서 병리학적으로 연골육종으로 진단된 예도 연구대상에 포함시켰다. 본 검색과정중 대부분의 육안적 기록은 외과병리학적 기록에 의존하였고, 병리조직표본은 현

미경하에서 재검정 판독하였다. 임상적 소견은 임상기록 및 전화 혹은 서신에 의한 추시에 의존하였다.

연구성적

1) 병리조직학적 분류

연골육종의 분류는 Dahlin(1978)의 분류를 사용하였으며 그 분류에 따라 정리한 바 Table 1과 같다.

총23예의 연골육종중 전형적 연골육종은 17예였으며 17예중 13예는 원발성, 4예는 이차성 연골육종이었다, 간엽성 연골육종(mesenchymal chondrosarcoma)은 4예가 있었으며 분화소실성 연골육종(de-differentiated chondrosarcoma) 1예, 투명세포 연골육종(clear cell chondrosarcoma) 1예의 빈도였다.

2) 연령 및 성별분포

연골육종의 연령 및 성별분포는 Table 2와 같다. 연골육종은 일반적으로 41-50세 연령군에 가장 호발하고 이어서 61-70세, 51-60세 및 31-40세 연령군의 빈도 순이었다. 이차성 연골육종이 전형적인 원발성 연골육종에 비해 다소 젊은 연령층에 발행하는 양상을 보여서 4예중 2예가 31-40세 사

Table 1. Types of chondrosarcoma

Histologic types	Cases(%)
Chondrosarcoma	
Primary	13 (56.5%)
Secondary	4 (17.4%)
Mesenchymal chondrosarcoma	4 (17.4%)
Dedifferentiated chondrosarcoma	1 (4.3%)
Clear cell chondrosarcoma	1 (4.3%)
Total	23 (99.9%)

Table 2. Age and sex distribution of chondrosarcoma

Histologic types	-10	-20	-30	-40	-50	-60	-70	Total	M : F
Chondrosarcoma									
Primary			1	1	5	2	4	13	7 : 6
Secondary					2		1	4	2 : 2
Mesenchymal		2		1		1		4	2 : 2
Chondrosarcoma								1	1
Dedifferentiated							1		
Chondrosarcoma								1	1
Clear cell								1	1
Chondrosarcoma								1	1
Total	2	2	3	8	3	5	23	11 : 12	

Table 3. Site distribution of chondrosarcoma

Histology	Innominate	Sacrum	Femur	Humerus	Tibia	Radius	Rib	Vertebra	Maxilla	Mandible	Sternum	Scapula	Total
Chondrosarcoma													
Primary	3	3	1	3	2	1							13
Secondary	2												5*
Mesenchymal													
Chondrosarcoma													4
Dedifferentiated													1
Chondrosarcoma													1
Clear cell													
Chondrosarcoma													1
Total	5	3	3	2	1	1	1	1	1	1	2	1	24

* 1 case has two chondrosarcomas

이에 발생하였다. 간엽성 연골육종은 11-20세 사이에 4예 중 2예가 발생하였다. 남여비는 11:12로 뚜렷한 성별 발생양상의 차이가 없었다.

3) 발생부위

연골육종의 부위별 발생상황은 Table 3과 같다. 무명골이 5예로 가장 많았고 이어서 천추, 대퇴골 및 경골이 각각 3예였으며 상완골에는 2예가 발생하였다. 68세된 남자에서는 흉골 및 견갑골에 동시에 연골육종이 발생하였다.

4) 일상주소 및 병력기간

임상주소는 주로 종피 혹은 종창(59.1%)과 통증(40.9%)이었으며 양측마비와 골절을 주소로 내원한 예도 각 1예씩 있었으며 1예는 전강진단 목적으로 흉부 활영시 종피가 관찰되어 내원하였다. 병력 기간은 2-10년간의 긴 병력을 가진 경우가 9예(39.1%)로 가장 많았고 최단 3일에서 최장 30년 이었다. 이차성 연골육종의 경우 병력기간이 가장 길어서 최단 9년 최장 30년 이었으나 2예에서 종피가 최근 빨리 자라기 시작한 기간은 각각 2년 및 3년이었다. 간엽성 연골육종의 경우 병력기간이 비교적 짧았다(Table 4).

5) 수반된 선행질환

이차성 연골육종에서 그에는 다발성 골연골종 2예는 고립성 연골종에서 연골종이 발생하였으며 연골종(enchondroma)이 수반 혹은 선형된 예는 없었다. 의상의 병력은 2예에서 있었으며 2예 중 1예는 전형적 연골육종으로 병적골절이 있었다.

6) 방사선학적 소견

방사선학적으로 전형적 연골육종의 특징은 골파괴 소견과 반상의 석회화가 주소견이었다. X-선 필름의 재검토가 가능한 전예에서 불규칙하게 얼룩진 석회화가 관찰되었다. 장골의 중심성 연골육종에서는 골간의 방추형 팽대, 골 연화성 병변 특히 피골(cortical bone)의 파괴가 보였다. 분화가 나쁜 연골육종에서는 일반적으로 골 연화성 병소가 비교적 광범하였으며 국소적으로 석회화가 보였고 분화가 좋은 연골육종에서는 원(ring) 모양의 석회화 음영이 보였다(Fig. 1). 간엽성 연골육종은 주로 불규칙한 골연화성 병변이었다. 요골에 생긴 간엽성 연골육종은 골 연화성 및 골 경화성 병변이 혼합되고 골막신생골 형성이 현저하였으며 국소적으로 석회화가 관찰되었다(Fig 2). 분화소실성 연골육종은 골 연화성 병변으로 부분적으로는 골 경화성의 뚜렷한

Table 4. Duration of symptoms

Histologic types	- 1 M	2 - 4 M	5 - 12M	2 - 10yrs	11-30yrs	Unknown
Chondrosarcoma						
Primary		2	4	6		1
Secondary				2	2	
Mesenehymal	2	1		1		
Condrosarcoma						
Dedifferentiated		1				
Chondrosarcoma						
Clear cell		1				
Chondrosarcoma						
Total	3	4	4	9	2	1

Fig. 1. Chondrosarcoma of tibia in 45 year-old woman. Note fluffy or ring-like calcifications.

경계를 가지고 있었다(Fig. 3). 투명세포 연골육종은 불규칙한 골 연화성 병변이 대퇴골두 및 대퇴경부에 있었으며 대퇴경부 및 전자간골절이 수반되어 있었다(Fig. 4).

7) 병리학적 소견

육안적 소견

전형적 연골육종은 육안적으로 중심성 연골육종 (central chondrosarcoma)이 10예, 말초성 연골육종 (peripheral chondrosarcom)이 7 예였다. 중심성 및 말초성 연골육종의 구분은 장골에서는 용이하였으나 골반골에서는 구분이 곤란하였다. 말초성 연골육종의 경우 종양이 기원한 부위를 정확히 정하기 어려웠으나 1 예는 30년간 종괴가 있었던 병력, 2 예는 잔여 골연골종이 있고, 1 예는 타부위에 다발성 외골증이 있는 점으로 보아 이차성 연골육종으로 생각되었고 나머지 3 예의 말초성 연골육종은 원발성 연골육종으로 간주하였다. 중심성 연골육종은 기존의 연골종의 증좌가 없는 점으로 보아 원발성 연골육종으로 생각되었다.

Fig. 2. Mesenchymal chondrosarcoma in a 22-year-old woman. Note mixed osteolytic lesion with distinct periosteal reaction.

절제된 표본은 회백색 혹은 약간 푸른색을 띠며 색의 염상의 단단한 조직으로 활면에서 비투파성 황색 석회화 혹은 골화된 부위가 불규칙하게 혹은 원 모양으로 나타나 있었다(Fig. 5). 분화가 나쁜 종괴 혹은 부위는 회황색 혹은 회백색 점액양 혹은 점질의 양상을 띠고 국소적으로 출혈이 동반되어 있었다. 간엽성 연골육종은 육안적으로 회백색의 견고한 조직으로 국소적으로 석회화, 혹은 출혈 및 피사가 관찰되었다. 분화소실성 연골육종은 회백색의 작은 생검조직으로 국소적으로 초자양 연골로 생각되는 조직이 섞여 있었다. 투명세포 연골육종은 담갈색의 충실성 조직으로 여러부위에 낭성변화가 보였다(Fig. 6).

현미경적 소견

전형적 연골육종은 분화가 좋은 연골육종은 통통한 핵을 가진 연골세포 및 두개의 핵을 가진 연골강이 자주 보였으며 분화도가 낮아질수록 점차 세포성이 증가되고 점액상을 띠었다. 분화가 나쁜 경우 거대연골세포 및 다형화가 심한 연골세포가 출현하

Fig. 3. Dedifferentiated chondrosarcoma of femur, showing osteolytic lesion with focal calcification.

Fig. 5. Gross appearance of chondrosarcoma of tibia
Huge lobulated hyaline cartilaginous mass with patchy calcification is noted.

였다(Fig. 7-A, B, C).

분화도는 Broder의 분류를 다소 변형하여 세포 이상의 진행 정도를 나타내는 기준인 핵의 다형화, 과색소증, 다발성 핵을 가진 세포수의 증가를 기준으로 경미한 이상을 보여서 종양세포가 통통한 핵을 가지고 2개 혹은 그 이상의 핵을 가진 연골소강이 나타나면 grade I, 세포성이 현저히 높고, 유사분열도 자주 나타나며 기질은 거의 없거나 적고

Fig. 4. Clear cell chondrosarcoma of proximal end of femur, showing osteolytic lesion in femur head and neck. Pathologic fracture is also noted.

Fig. 6. Gross appearance of the resected femur head, showing solid tumor tissue with focal cystic areas containing blood in the subchondral area (Reproduced from Kodachrome slide).

다형화가 강해서 거대세포 출현등 뚜렷한 퇴행성(anaplasia)이 있으면 grade III로 분류하고 그 중간은 grade II로 분류하였다.

간엽성 연골육종은 비교적 작고 세포질이 거의 없는 퇴행성 종양세포가 전형적으로 혈관 외피종과 유사한 배열을 보이면서 국소적으로 혹은 현저한 연골조직이 섬모양으로 나타나 있는 양상을 보였다

Fig. 7. Microscopic appearance of fig. 5. Note plump nuclei of the chondrocyte and double nucleated lacunae (grade I) H&E $\times 100$.

Fig. 7-B. Grade II chondrosarcoma. Note myxoid appearance and increased cellularity H&E $\times 100$.

Fig. 7-C. Grade III chondrosarcoma with definitely anaplastic chondrocyte H&E $\times 200$.

(Fig. 8 A, B). 분화소실성 연골육종은 국소적으로 grade I 연골육종의 소견을 보이면서 타부위는 전형적 골육종(osteosarcoma)의 양상을 보였다(Fig. 9 A, B). 투명세포 연골육종은 다량의 투명한 세포질을 가진 연골세포가 엽상으로 배열하고 엽상배열을 한 종양세포 사이사이에 유골침착이 나타나며 양성 거

Fig. 8-A. Biphasic pattern of mesenchymal chondrosarcoma. Note chondroid island in the small undifferentiated tumor cells in hemangiopericytomatosus pattern. H&E $\times 100$.

Fig. 8-B. Hemangiopericytomatosus pattern of small round tumor cells in mesenchymal chondrosarcoma H&E $\times 200$.

대세포도 균질성으로 나타났다. 국소적으로 grade I의 연골육종 부위가 관찰되었다(Fig. 10 A, B, C, D).

8) 생존율 및 재발율

총 23예의 연골육종중 7예에서 최단 6개월사이에서 최장 10년까지 추시가 가능하였다. 전 7예중 1예(14.3%)가 사망하였으며 나머지 6예중 5예(83.5%)는 수술후 1~3번 재발하였다.

9) 연골육종의 분화도와 사망율과의 상관

전형적 연골육종의 발생부위별 분화도는 Table 5와 같다.

Grade I이 10예로 가장 많았으며 사지골과 골반골, 흉추, 척추, 늑골, 견갑골사이에 분화도의 차이는 없었다. 분화도와 부위에 따른 재발율은 Table 6과 같다. 추시가 가능한 7예중 3예는 grade I, 3예는 grade II, 1예는 투명세포 연골육종이었

Fig. 9-A. Microscopic appearance of fig. 3, showing low grade chondrosarcoma H&E \times 100.

Fig. 9-B. Photomicrograph of fig. 3, showing anaplastic spindle cell element with osteoid deposition H & E \times 100.

Fig. 10-A. Scanning power view of clear cell chondrosarcoma. Pseudelobular pattern is noted H&E \times 40.

Fig. 10-B. Low power view of fig. 10-A, showing osteoid deposition and giant cells of osteoclastic type. H&E \times 100.

Fig. 10-C. High power view of fig. 10-B, showing large tumor cells with clear cytoplasm. H&E \times 200.

Fig. 10-D. Area of low grade chondrosarcoma in clear cell chondrosarcoma H&E \times 200.

으며 2년간 재발이 없었다. grade I 연골육종은 1~3번 재발하였으나 사망에는 없었고 grade II 3례 중 1례가 하지 절단 2개월후 사망하였다. 부위별로는 사지골에 비해 골반골등 골간의 골에서 증례

수가 많았다.

10) 치료방법과 사망 및 재발율과의 상관관계

연골육종의 치료방법에 따른 예후는 Table 7과

Table 5.Histologic grade of chondrosarcoma

Site	Grade			Total
	I	II	III	
Femur, humerus, tibia	3	2	1	6
Pelvis, sacrum, sternum, rib scapula	7(3)	3(1)	1	11(4)

() : Secondary chondrosarcoma

Table 6. Recurrence rate of chondrosarcoma according to the histologic grade and site

Site	Grade			Total
	I	II	III	
Tibia				1/1(100%)
Pelvis, sacrum, sternum, rib, scapula	3/3(100%)			2*/2(100%)

* One patient died of recurrent tumor

Table 7. Prognosis of chondrosarcoma according to the mode of therapy

Mode of therapy	No.of patients	recurrence %	death %
Excision	4	100	0
En bloc resection	2	50	0
Amputation	1	100	100

같다.

추시가 가능한 7예 중 하지절단을 한 우측 치골의 grade II 연골육종은 수술후 21개월에 사망하였다. En bloc resection을 한 2예 중 1예는 6개월 후 재발하였으나 2예 모두 생존하고 있으며 종양을 절제(excision) 한 4예는 모두 7개월 내지 10년간 1~3번 재발하였으나 사망에는 없었다.

고 안

연골육종에 관한 기술은 19세기 후반에 나타나고 있으나 연골육종을 골에서 기원한 다른 골육종과 구분하지 않고 있다가 20세기 초 Keiller²¹⁾ 가 처음으로 연골육종을 하나의 병리학적 질병 단위로 간주하였다. 그러나 연골육종이 형태학적으로나 방사선학적으로 특이한 소견을 나타내고 질병경과가 골육종(osteosarcoma)보다 훨씬 길며 예후도 한결 좋다는 점을 처음으로 강조한 사람은 Phemister²²⁾이다. 그 후에 연골육종은 많은 학자들의 업적에 힘입어 골에서 발생하는 악성종양중 특이한 종양으로 부각되기에 이르렀다^{12, 14, 20, 21)}. 골종양환자를 담당하는 의사의 입장에서 문제점은 연골육종을 진단하-

는 것과 그 병변의 악성도를 결정하는 일이다. 악성도를 정확히 평가하여야 외과적 치료방법을 결정하여 과정으로 정상조직의 소실이 생기거나 재발이나 원격전이의 위험없이 적절한 치료를 하여 양호한 성적을 얻을 수 있다. 연골육종은 때에 따라서는 다른 양성 연골종양 즉 연골종, 골연골종, 율리어병(Ollier's disease)이나 마푸지 증후군(Maffucci's syndrome) 때의 연골종증, 연골아세포종 및 연골유점액성유점 및 방피골 연골종(juxtacortical chondroma)과 감별이 어려운 경우가 드물지 않다. 본 검색대상에서는 제외 되었으나 과거에 연골육종으로 진단되었던 예 중에는, 3예의 골육종(osteosarcoma) 및 1예의 연골유점액성유점이 있었다. 골육종의 경우는 2예는 연골아세포형이고 1예는 부분적으로 연골아세포형이 혼합된 섬유아세포형 골육종이었다. 진단과 관련하여 경험 많은 병리학자나 정형외과의사에게도 때에 따라서 연골육종의 방사선 소견이나 병리조직학적 소견에 근거하여 연골육종자의 병 경과를 예측하기가 어려운 때가 있다^{13, 14, 18, 22, 23, 24, 25, 26, 28, 30, 32, 34)}. 더구나 그 빈도가 적어 어떤 개인이 경험할 수 있는 중례수에 제한이 있다. 다른 어느 종양에 못지 않게 연골육종은 예측할 수 없는 경과를 나타내어 병리조직학적으로 양성 소견을 보이는 연골종양이 악성 경과를 밟거나 현저한 악성 소견을 보이는 연골육종이 제한된 진행상을 보이는 예는 드물지 않다^{13, 14, 22, 32, 33)}.

우리나라에서 골종양에 관한 보고로는 1964년 문⁹⁾의 골종양에 전반에 걸친 임상적 고찰을 필두로 해서 여러보고^{1-4, 6-11)} 가 있으나 그 유형에 관한 기술은 함등¹⁰⁾ 의 보고 이외에는 없으며 단순히 "연골육종"으로 분석 보고하고 있으며 최등⁹⁾ 의 보고에서는 단 1예의 연골육종도 없었다. 본 검색에서 나타난 연골육종의 각 조직학적 유형별 빈도를 Dahlin¹⁴⁾ 의 통계치와 비교하면 이차성 연골육종 및 간엽성 연골육종의 빈도는 비교적 높은 편인데 반해 분화소실성 연골육종의 수는 비교적 적은 듯하다.

전형적 연골육종의 연령별 분포는 Dahlin¹⁴⁾, Evans 등²⁰⁾, O'Neal 및 Ackerman¹¹⁾, Sanerkin 및 Gallagher²³⁾ 의 보고와 유사하나 Gitelis 등¹¹⁾ 의 보고와는 다소 다르며 후자의 경우 30~40세 연령군에 가장 호발하였다. 본 검색에서 성별발생빈도는 남자에 9:8로 약간 호발하였으며 이는 외국의 보고들^{20, 22, 31)}과 유사하다.

이차성 연골육종은 Dahlin¹⁴⁾의 보고와 비슷하게 원발성 연골육종에 비해 다소 깊은 연령층에 발생하였고 무명골에 가장 빈발하였다. 골연골종에서 생기는 악성종양으로는 연골육종이 가장 흔하나 골육

종도 생길 수 있다. 우리나라에서는 김 및 한¹⁾ 이 1 예의 다발성 외골증에서 발생한 연골육종을 보고한 바 있으며 고등¹⁾은 고립성 연골종에서 생긴 골육종(osteosarcoma) 2 예를 기술 보고한 바 있다.

간엽성 연골육종은 비교적 젊은 연령층에서 발생하고 4 예 중 2 예는 상하악에 발생하여 Dahlin¹⁴⁾의 경험과 유사한 양상이다. 간엽성 연골육종은 1959년 Lichtenstein과 Bernstein¹⁵⁾에 의해 처음 기술된 종양으로 형태학적으로 두가지 현저히 다른 양상을 가진 즉 유윙육종을 맴은 작은 원형 혹은 난원형 세포가 특징적으로 혈관외피세포종과 비슷한 배열을 보이고 다른 부위는 연골조직분화가 보이는 종양이다. 일반적으로 이 암은 예측기 어려운 불규칙한 경과를 맴는 것으로 알려져 있으며 약 1/3 정도는 골 이외의 연부조직에서 발생하였다¹⁴⁾.

분화소실성 연골육종은 대퇴골에 4 개월간 통증 및 종창을 주소로 내원했던 46세의 여자환자에서 대퇴하단에 발생하였으며 생검후 수술을 거부하여 절단술은 시행치 못하였다. 이 종양은 Dahlin 및 Beabout¹⁶⁾에 의하면 전 연골육종의 10%를 차지하며 분화가 좋은 grade I 연골육종이 섬유육종, 골육종, 혹은 분화가 나쁜 다형성 육종으로 분화하는 양상을 보이며 본 증례는 골육종으로의 변화를 보였다.

투명세포 연골육종은 46세 여자의 대퇴골두 및 대퇴경부에 발생하였으며 이 환자는 입원 8 일전 의사에서 떨어져 심한 통증을 느끼고 좌측 하지를 움직일 수 없었다고 한다. 입원 4년전 대퇴경부의 골절을 당했으나 경제적 사정으로 치료를 받지 못하였다. 좌측 대퇴경부 및 대퇴전자간 불유합골절이라는 진단하에 대퇴골두절제 및 고관절전치환성형술을 시행한 증례였다. 수술후 2년간 재발의 증좌가 없었다. 투명세포 연골육종은 최근 Unni 등¹⁷⁾에 의해 처음 기술 보고되었으며 Bjornsson 등¹⁸⁾이 47예를 정리 보고하였다. 이 종양은 장골의 끝 특히 대퇴골 끝에 발생하며 21~40세 연령층에서 남자에 2.6 : 1로 호발하는 종양이다¹⁹⁾. 병리학적으로는 투명한 세포가 다소 불분명한 염상배열을 하며 다른 양성 혹은 악성골종양의 양상을 띠우기도 하여 진단에 어려움을 줄 때도 있다. 이 암으로 인한 사망율은 15%였으며 en bloc resection이 적절한 치료방법으로 알려져 있다¹⁹⁾.

진단목적으로 침생검 혹은 절개후 생검을 시행할 때에는 과거문헌¹⁰⁾이나 저자들의 경험에 비추어보아 생검에 의한 연골육종의 이식을 방지하기위해 침생검 혹은 절개부위가 최종 절제부위에 포함되도록 하여야 한다.

치료와 관련하여 총 23예의 연골육종중 7 예에서

만 추시가 가능하였으며 추시기간도 짧아서 치료성적을 평가하기는 어려우나 추시가 된 7 예 중 4 예에서 단순종양절제(excision)를 시행하여 4 예 모두 재발한 점은 이들 증례에서 연골육종을 너무 가볍게 치료한 결과이다. 이들 증례는 초기에 적절한 치료로 완치될 가능성이 있었던 예가 완치불능예가 된 듯하다. En bloc resection을 시행한 2 예 중 1 예는 재발의 증좌가 없었다. 그러나 Hindquarter amputation을 받은 1 예는 수술후 21개월후 사지마비가 병발된 후 사망하였다.

본 검색에서 추시 예수가 적어 결론을 얻기에는 미흡하나 grade II 3 예 중 1 예가 사망하고 grade I에서는 사망예가 없는 점으로 미루어 보아 연골육종의 분화도가 예후에 관여하는 듯하고 재발율과 관련하여 단순절제된 예에서 모두 재발하였으나 en bloc resection에는 50%에서 재발한 점으로 미루어 보아 치료방법이 예후를 좌우하는 것으로 생각되었다.

사지골에서 1 예 골반골 기타 체간의 골에서 연골육종이 생긴 경우 5 예가 재발하였으나 발생부위에 따른 재발빈도가 차이가 있는지 비교가 어렵다. 사지골 연골육종의 경우 절단술이 많이 시행되었고 골반골 기타 체간의 골에서 생긴 연골육종의 경우 단순절제가 많이 시행된 점으로 미루어보아 재발은 해부학적 부위보다는 치료방법이 더 문제가 되리라 추정된다.

앞에서 논의하였듯이 심한 인구의 이동과 환자가 병원을 자주 찾기는 병폐등으로 많은 예에서 추시가 불가능하여 치료성적, 예후에 미치는 인자 등을 정확히 파악하기 어려운 점에 비추어 전국적인 골종양 등록사업 등을 통해서 좀 더 많은 증례의 축적과 더불어 철저한 치료후 추적조사를 통해서 한국인의 골종양 제반에 관한 파악이 이루어져야 하리라 생각된다.

치료방침도 Enneking 등¹⁷⁾이 제시한 system 혹은 이에 상응하는 staging system에 따라 개개 연골육종을 평가하여 개개 증례의 해당 stage에 합당한 치료를 하도록 유도되어야 하리라 생각된다.

결 론

1968년부터 1984년까지 서울대학교병원 병리과 및 병리학 교실에서 검색된 원발성 골종양을 재검색하여 연골육종 및 그 변형 23예를 임상 및 병리학적으로 재분석한 바 다음과 같은 결론을 얻었다.

1. 총 23예의 연골육종은 병리조직학적으로 전형적 연골육종이 17예 (73.9%)로 가장 많았으며 17

예중 13예는 원발성 4예는 이차성 연골육종이었다. 이어서 간엽성 연골육종 4예(17.4%), 분화소실성 연골육종 1예(4.3%), 투명세포 연골육종 1예(4.3%)의 빈도였다.

2. 연골육종은 41~70세 연령군 특히 41~50세 연령군에 가장 호발하였으며 이차성 연골육종은 원발성 연골육종에 비해 젊은 연령층에 발생하였다. 남녀비는 11:12로 뚜렷한 성별발생양상의 차이가 없었다.

3. 임상 주소는 주로 종괴 혹은 종창(59.1%)과 통증(40.9%)이었으며 2~10년간의 긴 병력을 가진 경우(39.1%)가 가장 많았으며 무명풀이 가장 빈번한 호발 부위였다. 선행질환으로 다발성 골연골종 2예, 고립성 골연골종 2예가 있었다.

4. 육안적으로 전형적 연골육종은 중심성 연골육종이 10예, 말초성 연골육종 7예였다. 전형적 연골육종에서 종양의 분화도와 사망율과는 상관관계가 있는 듯하며 수술후 재발은 무명골동 체간의 골에서 주로 나타났다. 수술후 재발에는 적절한 치료 시행여부가 가장 중요한 인자였다.

REFERENCES

- 1) 고경혁 · 안궁환 · 이상국 · 김영민 · 석세일 · 이덕용 · 이한구 : 골육종의 병리학적 연구. 대한병리학회지 18: 228-241, 1984.
- 2) 김용주 · 한두진 : 다발성 외골종이 악성화한 1예. 대한정형외과학회지 1: 45-48, 1966.
- 3) 김정만 · 박성길 · 김인 : 연골육종의 치험례—2예보고—. 대한정형외과학회지 6: 405-410, 1971.
- 4) 노권재 · 김남현 · 신정순 · 정인희 : 골종양에 대한 임상적고찰. 대한정형외과학회지 12: 601-618, 1977.
- 5) 문정상 : 골종양의 임상적고찰. 대한외과학회지 6: 85-99, 1964.
- 6) 박영희 · 이주희 · 김희경 · 지현숙 · 양문호 · 이재구 : 골종양의 병리조직학적 검색. 대한병리학회지 13: 425-436, 1979.
- 7) 이용실 · 이민 · 박경송 · 안궁환 : Clear cell chondrosarcoma. —1례보고—. 대한정형외과학회지 18: 419-421, 1983.
- 8) 정인희 · 신성순 · 김남현 : 골종양에 대한 임상적고찰. 최신의학 9: 825-844, 1966.
- 9) 최기홍 · 강충남 · 왕진만 · 김충봉 : 골종양의 통제적 고찰, 대한정형외과학회지 14: 241-247, 1978.
- 10) 함의근 · 안궁환 · 이윤성 : 원발성 골종양의 병리조직학적 검색. 서울의대학술지 22: 181-188, 1981.
- 11) 허양옥 : 한국인 골종양과 유종양 병소에 대한 임상 및 병리조직학적 연구. 대한병리학회지 10: 73-90, 1976.
- 12) Barnes, R. and Catto, M.: Chondrosarcoma of Bone. J. Bone and Joint Surg., 48-B: 729-764, 1966.
- 13) Bjornsson, J., Beabout, J.W., Unni, K.K., Sim, F.H. and Dahlin, D.C.: Clear cell Chondrosarcoma of Bone Observation in 47 Cases. Am. J. Surg Pathol. 8: 223-230, 1984.
- 14) Dahlin, D.C. : Bone Tumors. General Aspects and Data on 6, 221 Cases 3rd ed. Charles C Thomas, 1978, pp 7, 26-27, 190-225.
- 15) Dahlin, D.C. and Beabout, J.W. : Dedifferentiation of Low-Grade Chondrosarcomas. Cancer, 28: 461-466, 1971.
- 16) Dahlin, D.C. and Henderson, E.D.: Chondrosarcoma, a Surgical and Pathological Problem. J. Bone and Joint Surg., 28-A: 1025 - 1125, 1956.
- 17) Enneking, W.F., Spanier, S.S. and Goodman, M.A.: The Surgical Staging of Musculoskeletal Sarcoma. Current Concepts Review. J. Bone and Joint Surg., 62-A: 1027-1030, 1980.
- 18) Erlandson, R.A. and Huvos, A.G.: Chondrosarcoma: A light and Electron Microscopic Study. Cancer 34: 1642-1652, 1974.
- 19) Eriksson, A.I., Schiller, A. and Mankin, H.J.: The Management of Chondrosarcoma of Bone Clin. Orthop., 153: 44-66, 1980.
- 20) Evans, H.L., Ayala, A.G. and Romsdahl, M.M.: Prognostic Factors in Chondrosarcoma of Bone. A Clinicopathologic Analysis with Emphasis on Histologic Grading. Cancer 40: 818, 1977.
- 21) Gittelis, S., Bertoni, F., Picci, P. and Campanacci, M.: Chondrosarcoma of Bone. The Experience at the Instituto Ortopedico Rizzoli. J. Bone and Joint Surg., 63-A: 1248-1257, 1981.
- 22) Henderson, E.D. and Dahlin, D.C.: Chondrosarcoma of Bone-a Study of Two Hundred and Eighty-eight Cases. J. Bone and Joint Surg., 45-A: 1450-1458, 1963.
- 23) Kahn, L.B.: Chondrosarcoma with Dedifferen-

- tiated Foci. A Comparative and Ultrastructural Study. *Cancer* 37: 1365-1375, 1976.
- 24) Keiller, V.H. : Cartilaginous Tumors of Bone. *Surg. Gynecol. Obstet.* 40: 510-521, 1925.
- 25) Lichtenstein, L. and Bernstein, D. : Unusual Benign and Malignant Chondroid Tumors of Bone. *Cancer*, 12: 1142-1157, 1959.
- 26) Lichtenstein, L. and Jaffe, H.L.: Chondrosarcoma of Bone. *Am. J. Pathol.* 19: 553-589, 1943.
- 27) Mankin, H.J., Cantley, K.P., Lippiello, L., Sohiller, A.L. and Campbell, C.J. : The Biology of Human Chondrosarcoma I. Description of the Cases, Grading, and Biochemical Analyses. *J. Bone and Joint Surg.*, 62-A: 160-176, 1980.
- 28) Mankin, H.J., Cantley, K.P., Schiller, A. L. and Lippiello, L.: The Biology of Human Chondrosarcoma. II. Variations in Chemical Composition Among Types and Subtypes of Benign and Malignant Cartilage Tumors. *J. Bone and Joint Surg.*, 62-A: 176-188, 1980.
- 29) Marcove, R.C., Mike, V., Hutter, R.V.P., Huvos, A.G., Shoji, H., Miller, T.R. and Kosloff, R.: Chondrosarcoma of the Pelvis and Upper end of the Femur. *J. Bone Joint Surg.*, 54-A: 561-572, 1972.
- 30) O'Neal, L.W. and Ackerman, L.V.: Chondrosarcoma of Bone. *Cancer* 5: 551-577, 1952.
- 31) Phemister, P.B.: Chondrosarcoma of Bone. *Surg. Gynec. and Obst.* 50: 216-233, 1930.
- 32) Sanerkin, N.G. and Gallagher, P. : A Review of the Behavior of Chondrosarcoma of Bone. *J. Bone and Joint Surg.*, 61-B: 395-400, 1979.
- 33) Schajowicz, F., Cabrini, R.L., Simes, R.J. and Klein-Szanto, A.J.P. : Ultrastructure of Chondrosarcoma. *Clin. Orthop.* 100: 378-386, 1974.
- 34) Unni, K.K., Dahlin, D.C., Beabout, J.W. and Sim, J.H. : Chondrosarcoma : Clear-cell Variant: A Report of Sixteen Cases. *J. Bone and Joint Surg.*, 58-A: 676-683, 1976.