

## 악성 골아세포종 -증례 보고-

고려대학교 의과대학 \*정형외과학교실 · \*\*병리학교실

박상원 · 황성준 · 김인선

=Abstract=

### Malignant Osteoblastoma -A Case Report-

\*Sang Won Park, M.D., \*Sung Jun Hwang, M.D. and \*\*In Sun Kim, M.D.

*\*Department of Orthopedic Surgery and \*\*Department of Pathology, College of Medicine,  
Korea University, Seoul, Korea*

Malignant osteoblastoma is very rare tumor which shows histological findings of an aggressive pattern and benign clinico-radiological features, and also called as aggressive or pseudomalignant osteoblastoma.

The authors experienced one case of malignant osteoblastoma involving diaphysis of left humerus in 22-year old man.

The patient is healthy and maintains his normal activity without recurrence over five years after complete excision of cystic mass, curettage and bone graft.

**Key Words :** Malignant osteoblastoma, No-recurrence.

## 서 론

골아세포종은 매우 드문 양성 종양으로서 방사선 소견이 다양하여 골양골종, 거대세포종, 정맥류성 골낭종등과 감별진단이 어렵고, 또한 조직학적 소견은 골양골종, 골육종과의 감별진단이 어려운 경우가 많다<sup>2~5,7,9,14,16,19</sup>. 골아세포종 중에서 임상소견 및 방사선 소견은 본래의 골아세포종과 유사하나 병리 조직학적 소견은 오히려 골육종과 비슷하나 골육종과는 다르게 탄 부위로의 전이는 일으키지 않는 아주 드문 골아세포종이 전 세계적으로 약 20~30례가 보고되고 있다. 이것은 학자에 따라 malignant osteoblastoma, aggressive osteoblastoma 또는 pseudomalignant osteoblastoma등으로 명명되고 있다<sup>5,6,8,17,20</sup>.

저자는 22세 남자에서 좌측 상박골 간부에 발

\*본 논문의 요지는 제 268차 정형외과 월례 집담회에서 구연되었음.

생한 malignant osteoblastoma 1례를 치료하고 만 5년이상 경과한 현재까지 재발없이 건강하게 잘지내고 있는 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

박 ○태, 22세, 남자

**주소 및 병력 :** 비교적 건강하던 환자는 본원에 내원하기 1년전부터 무거운 물건을 들어올릴 때 좌측 상박부에 경미한 통증을 느꼈으나 별치료를 없이 지내다가 내원 5개월전부터 통증이 심해지고 종류(mass)가 촉진되어 개인 의원에서 방사선 촬영결과 좌측 상박골에 골낭종(Fig. 1)의 진단하에 대중요법의 치료를 시행하였으나 호전 없이 종류가 커지고 동통이 약간 더 심해지고 좌측 주관절의 운동장애를 주소로 내원 하였음.

**가족력 :** 특이 소견 없음.

**검사소견 :** 일반 혈액 검사와 소변 검사는 정

**Fig. 1.** Radiograph of left humerus taken Feb. 1982 which shows expansile cyst like lesion with smooth border of a thin shell of periosteal new bone and areas of lysis and sclerosis in the center of lesion with irregular cortex.

**Fig. 2.** Radiograph taken July, 1982 showing similar findings except mild increase of cystic mass.

**Fig. 3.** Arteriograph of left humerus showing anterior displacement of brachial artery and vascular infiltration into the cystic mass.

**Fig. 4.** Mineralized trabeculae of bone formation and poorly organized osteoid are present in a moderately cellular fibrous stroma (H and E,  $\times 100$ ).

상범위 이었다. 또한 혈청 칼슘치는 9.5mg%, 인산치는 4.5 mg%로 정상 범위이었으나, 혈청 알칼리성 인산분리 효소는 236B.U.로 현저한 증가를 나타냈다.

**방사선 소견 :** 좌측 상박골 전면 및 측면사진 상에서 상박골 중간부위에서 원위간부에 걸쳐서 편재성으로 위치하고 경계가 명확한 얇은 막으로 쌓여져 있는 팽대된 12.5cm $\times$ 5cm 크기의 미

**Fig. 5.** Large osteoblasts have abundant cytoplasm. Nuclei are round to oval with prominent nucleoli. Irregular osteoid is intermixed in center(H and E,  $\times 250$ ).

**Fig. 6.** Hypercellularity and atypism of the stromal cells with mitotic figure(arrows) are present. Multinucleated giant cells are seen(H and E,  $\times 250$ ).

**Fig. 7.** Radiograph after post-operative 1 week which shows disappearance of the lesion.

**Fig. 8.** Radiograph taken 8 weeks after operation, showing rather sclerosis in the medullary cavity of left humerus.

세한 골소주 형성을 보이는 낭성소견을 나타내고 상박골 원위간부는 골경화 및 골연화가 혼합된 양상과 골피질은 불규칙적이나 파괴는 없었다. Fig. 1.(10cm $\times$ 4cm)과 비교하여 낭성종류가 좀더 커져있는 것을 볼 수 있었다(Fig. 2).

또한 혈관 촬영을 한 측면상에서 상박 동맥이 낭성종류에 의해서 전방으로 전위되고 적은 혈

관들이 낭성 종류내로 침윤된 것을 볼 수 있었다(Fig. 3).

흉부 X-선 소견은 정상이었다.

**수술방법 및 소견 :** 전신마취하에 환자를 앙와위로 눕히고 좌측 상박부 후방도달법을 이용하여 약 15cm정도의 피부절개를 시행하고 삼완삼두근을 박리하여 병소에 도달하였다. 병소는 팽

**Fig. 9.** Radiograph taken 1 year after operation(July 1983), showing almost obliteration in the medullary cavity of left humerus.

대되어 있었고 경계가 명확하여 절제하기가 용이하였다. 또한 상박골 간부의 후방 골피질을 일부 절제하여 관찰한 결과 황갈색의 조직으로 충만되고 손가락으로 촉진시 모래알같은 과립을 감지할 수 있었다.

골소파술과 동시에 좌측 장골로부터 망상골 이식을 시행하였다.

#### 육안 및 현미경적 소견

**육안적 소견 :** 절제된 조직은 14cm장경에 직경 8cm크기였으며 외면은 비교적 잘 경계 지워져 있었고 절단면에서 종괴는 옅은 황갈색으로 균질성이고 약간 단단하였다. 변연에는 골피질이 매우 얇아져 있었으나 파괴는 없었다.

**현미경적 소견 :** 종양은 아주 풍부한 방추상 또는 타원형 세포의 증식으로 구성되고 이들 사이에는 mineralized trabeculated bone과 혼한 불규칙성의 유골조직이 관찰되었다(Fig. 4). 종양 세포들은 작으면서 둥글거나 타원형인 세포 핵을 갖고 있고 하나의 뚜렷한 핵소체를 갖고 있었다. 유골조직 주위에서 이들 세포는 풍부한 세포질을 갖고있어 상피양 세포의 모양을 띄고 있었다(Fig. 5). 세포들의 이형성은 그리 심하

**Fig. 10.** Radiograph taken 5 years after operation(July, 1987) which shows complete obliteration and sclerosis of medullary cavity and no-recurrence of the lesion.

지 않았으나 세포분열이 가끔 관찰되었고 파골 세포와 포말형의 거대세포가 산재하고 있었다(Fig. 6). 주위의 골조직은 osteosclerotic하였으나 골파괴는 없었다.

**추후 관찰 및 경과 :** 수술후 8주에 촬영한 방사선 소견은 수술직후(Fig. 7)보다 골수강내 및 골 피질이 보다 더 경화된 소견을 보이고 있다(Fig. 8). 그후 6개월 간격으로 관찰하였으며 수술후 1년 및 5년에 촬영한 좌측 상박골의 방사선 소견은 시일이 경과함에 따라 병소가 있었던 골수강내가 완전히 골로 채워지고 골피질의 파괴나 연부조직으로의 전위등은 관찰할 수 없었고(Fig. 9, 10), 흉부 X-선 소견도 정상이었다. 혈액 검사 및 뇨검사도 정상범위 이었다.

만 5년이상 경과한 현재 환자의 전신 상태는 양호하며 건강하게 직장생활을 영위하고 있으며 좌측 상박부의 경도의 근위축 및 약 10도의 신전운동 제한을 보이고 있다.

#### 고 찰

골아세포종은 매우 드문 양성 종양으로서 0.5~1%의 발생 빈도를 나타내고 어느 연령에서도 생길 수 있으나 30세 이전에 호발하며 주로 척추, 장관골 간부, 골반, 두개골 등에 호발하나 어느 부위에서도 발생할 수 있다<sup>3,4,7,9,10,14,19</sup>. 방사선 소견은 다양하여 특징적인 소견을 관찰할 수 없으나 병소 부위는 팽대되어 있고 얇은 골피질로 쌓여있는 낭상을 보이고 병소의 중심부는 골융해, 골경화 또는 혼합된 양상과 간혹 석회침착을 보이며 크기는 다양하나 10cm 정도 크기도 보고되고 있다<sup>4,7,9,12,14,19</sup>. 조직학적 소견은 골아세포종의 증식을 특징으로 하고 있으며 섬유골과 혈관이 풍부한 간질을 보이나 세포의 이형성이나 분열상은 볼 수 없다<sup>3,4,9,19,20</sup>. 그러나 본래의 골아세포종과는 다르게 골소파술 후 재발을 잘 일으키고 국소적으로 주변의 골조직과 연부조직을 침범하며 조직학적으로는 유골양조직을 형성하나 상피양세포의 모양을 띠는 비전형적인 골아세포를 보이고 세포질은 풍부하고, 핵은 과염색상을 나타내고, 크고 불규칙하며, 파골형의 거대세포를 볼 수 있고 간혹 핵분열을 나타내는 골아세포종이 보고되고 있다.

1976년 Schajowich와 Lemos<sup>17</sup>는 방사선 소견이 양성이고 유사한 조직학적 소견을 보이는 8례를 보고하고 이들 예에서 과세포종이나 다형증, 비전형적인 핵 분열상을 볼 수 없고 연골조직을 포함하지 않으므로 골육종과는 다르다 하고 이들을 malignant osteoblastoma라고 명명하였다. 그러나 1976년 Mirra등<sup>15</sup>은 17세된 흑인 남자에서 좌측 비골 근위간부에 발생한 골아세포종 1례에서 조직학적 소견은 악성을 나타내나 4년반 동안 관찰한 임상소견 및 X-선 소견이 양성이고 단 부위로의 전이가 없는 것으로 보아 pseudomalignant osteoblastoma라고 부르는 것이 타당하다고 주장하였다.

1980년 Dorfman<sup>5</sup>, 1982년 Tonai등<sup>20</sup>과 1985년 Kenan등<sup>8</sup>은 조직학적 소견은 악성과 비슷한 소견을 나타내고 장기간 관찰시 국소 주위조직은 침범하나 원거리 전이를 일으키지 않으므로 aggressive osteoblastoma가 더 적당하다고 하였다. 특히 Tonai등<sup>20</sup>은 aggressive osteoblastoma의 기준이 되는 조건으로서 ① 골피질의 파괴를 나타내는 방사선 소견 ② 크고 뚱뚱한 골아세포가 풍부하게 증식을 나타내는 조직학적 소견 ③ 골소파술 후 바로 재발되는 임상소견을 나타내야하나 단 부위로의 전이는 없어야 한다

고 하였다. 국내에서도 1985년 박등<sup>11</sup>이 17세 소녀의 우측 대퇴골 원위부에 발생한 악성 골아세포종 1례를 보고한바 있으나 수술후 여러번 재발을 일으키고 근치술로 생각되는 우측 고관절 이단술후 40개월의 관찰에서 좌측 골반골과 폐에 전이를 일으킨점으로 보아 진정한 의미의 malignant 또는 aggressive osteoblastoma보다는 여러저자들<sup>4,6,11,13,18</sup>이 보고한 바와같이 양성 골아세포종이 골육종으로 변화한 예이거나 또는 처음부터 골육종이었지 않나 생각된다.

이들 malignant 또는 aggressive osteoblastoma가 골육종과 다른점은 Kenan등<sup>8</sup>은 ① 전이가 없고 ② 장기간 관찰하여 병소가 완전히 분해되고 ③ 조직학적으로 부정형의 핵분열이 없고, 연골세포를 볼 수 없고 골아세포종과 숙주의 충만골과의 경계가 명확하다고 하였고 Schajowich 및 Lemos<sup>17</sup>와 Campbell<sup>3</sup>은 광범위한 과세포종, 다형증, 부정형의 핵분열, 광범위한 출혈성 괴사, 연골조직 형성 및 종양성 거대세포를 볼 수 없다고 하였으며 특히 부정형의 핵분열을 볼 수 없는 것이 가장 중요한 소견이라고 하였다.

악성 골아세포종의 치료는 병소의 완전 절제술이며, 완전 절제후에는 장기간 관찰시 재발을 일으키지 않으나, 불완전 절제후에는 재발을 잘 일으키며, 그 재발율을 5~9.8%이고 5년이상 경과하여 재발을 일으킬때는 악성으로 변화할 가능성이 많다고 하였다<sup>6,15</sup>.

저자의 증례에서는 좌측 상방골 X-선상에서 편재성으로 위치하고 경계가 명확하고 얇은 막으로 쌓여져 있는 팽대된 낭성종류를 나타내고 피질골은 불규칙하나 파괴가 없는 양성 골아세포종을 보이며 조직학적 소견은 작으면서 둥글거나 타원형인 세포핵과 하나의 뚜렷한 핵소체를 보이고 유골조직 주위에서 이들 세포는 풍부한 세포질을 갖고 있고 상피양 세포의 모양을 띄고 있었으며 세포들의 이형성과 간혹 세포분열이 관찰되었고 파골세포를 볼 수 있었으며 치료로서 낭성종류의 완전한 절제 및 골소파술과 골 이식술을 시행 후 5년이상 경과한 현재까지 재발없이 건강하게 잘 지내고 있으며 국소 주위조직이나 폐 등 타장기로의 전이가 없는 것으로 보아 Schajowich와 Lemos<sup>17</sup>등이 주장한 malignant osteoblastoma에 해당한다고 사료된다.

## 결 론

22세 남자에서 좌측 상박골 간부에 발생한 아주 드문 악성 골아세포종 1례에서 병소의 완전 절제 골소과 및 골이식술을 시행하고 5년이상 관찰한 현재까지 재발없이 건강하게 잘 지내는 중례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) 박종수, 윤석웅, 김용주, 신미경, 원남희 : 악성 골아세포종 1례보고. 대한정형외과학회지, 20권 6호 : 1217-1221, 1985.
- 2) Byers, P.D. : Solitary benign osteoblastic lesion of bone, osteoid osteoma and osteoblastoma. *Cancer*, 22 : 43-57, 1968.
- 3) Campbell, C.J. : Cited from Everts, C.M. : *Surgery of the musculoskeletal system. Osteoblastoma and osteoid osteoma. Vol 4. 11 : 177-188, New York, Edinburgh, London and Melbourne. Churchill livingstone, 1983.*
- 4) Dahlin, D.C. : *Bone tumors. 3rd ed. p86-Springfield, IL. Charles C Thomas, 1978.*
- 5) Dorfman, H.D. : Case records of the Massachusetts General Hospital, Case #40, *New Engl. J. Med.* 303 : 866-872, 1980.
- 6) Jackson, R.P. : Recurrent osteoblastoma. A review. *Clin. Orthop.*, 131 : 229-233, 1978.
- 7) Jaffe, H.L. : *Tumors and tumorous conditions of the bone and joints. p107, Philadelphia, Lea and Febiger, 1958.*
- 8) Kenan, S., Floman, Y., Robin, G.C. and Lauffer, A. : Aggressive osteoblastoma. A case report and review of the literature. *Clin. Orthop.*, 195 : 294-298, 1985.
- 9) Lichtenstein, L. : *Bone tumors. 4th ed. p103-St. Louis, C.V. Mosby Co., 1972.*
- 10) Marsch, B.W., Bonfiglio, M., Brady, L.P. and Enneking, W.F. : Benign osteoblastoma. Range of manifestations. *J. Bone Joint Surg.*, 57-A : 1, 1975.
- 11) Mayer, L. : Malignant degeneration of so called benign osteoblastoma. *Bull. Hosp. Joint Dis.* 28 : 4, 1967.
- 12) McLeod, R.A., Dahlin, D.C. and Beabout, J.W. : The spectrum of osteoblastoma. *Am. J. Roentgenol.* 126 : 321, 1976.
- 13) Merryweather, R., Middlemiss, J.H. and Sanerkin, N.G. : Malignant transformation of osteoblastoma. *J. Bone Joint Surg.*, 62-B : 381, 1980.
- 14) Mirra, J.M. : *Bone tumors. Diagnosis and treatment. p108-113, Philadelphia. Toronto. J.B. Lippincott Company, 1980.*
- 15) Mirra, J.M., Kendrick, R.A. and Kendrick, R.E. : Pseudomalignant osteoblastoma versus arrested osteosarcoma. A case report. *Cancer* 37 : 2005-2014, 1976.
- 16) Schajowich, F. and Lemos, C. : Osteoid osteoma and osteoblastoma. *Acta Orthop. Scand.*, 41 : 272-291, 1976.
- 17) Schajowich, F. and Lemos, C. : Malignant osteoblastoma. *J. Bone Joint Surg.*, 58-B, No. 2 : 202-211, 1976.
- 18) Seki, T., Fukuda, H., Ishii, Y., Hanaoka, H., Yatabe, S., Takano, M. and Koide, O. : Malignant transformation of benign osteoblastoma. A case report. *J. Bone Joint Surg.*, 57-A : 424, 1975.
- 19) Spjut, H.J., Dorfman, H.D., Fechner, R.E. and Ackerman, L.V. : *Tumors of bone and cartilage. p120, Armed Forces Institute of Pathology, Washington, D.C. 1971.*
- 20) Tonai, M., Campbell, C.J., Ahn, C.H., Schiller, A.L. and Mankin, H.J. : Osteoblastoma. Classification and report of sixteen patients. *Clin. Orthop.* 167 : 222-235, 1982.