

장골내 평활근종:1예 보고¹

김 화 영 · 이 선 화 · 한 운 섭²

12세 여아의 우측장골에 발생한 골내 평활근종을 보고하고자 한다. 단순 X선촬영상 얇은 경화성 외연에 둘러싸인 경계가 분명한 팽창성 골융해성 병변이며 CT상 장골피질을 팽창시키는 주위근육과 유사한 연부조직음영의 종괴로 경화성 외연 및 격막이 있었다. MRI상 종괴는 Proton강조영상에서 opposite ilium의 골수와 동등신호강도이며 T2강조영상에서는 다소의 불균질한 고신호강도를 가진 골수와 동등신호강도를 보였고 저신호강도의 외연 및 격막이 있었으며, 불균질하나 강한 조영증강을 보였다. 혈관조영술상 과혈관성의 병변이었다. 수술적 절제후 얻은 병리소견상 방추형세포로 이루어진 증양으로 면역화학적검사상 평활근종으로 확진되었다.

서 론

평활근종은 간질세포종양중 가장 흔한 것으로 자궁, 소화기계, 호흡기계, 비뇨생식기계, 후복부등 체내 평활근 세포가 분포하는 곳이면 어디나 발생할 수 있다(1-3). 골내 평활근종(intraosseus leiomyoma)은 매우 희귀하며 세계적으로 10예이내로 보고되어 있다(2-4). 저자들은 우측 장골내에 발생한 평활근종을 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례 보 고

12세 여자환자가 약 3개월간의 우측 고관절의 통증과 파행을 주소로 내원하였다. 과거력상 2년전 체육시간에 땀을 하다가 염좌를 입은 적 있었다. 이학적 검사상 동통에 의한 운동범위의 제한이 있었고 임상병리검사소견상 알칼라인 포스파타제가 618u/L, 무기인산이 5.2mg/dL로 증가되어 있었고 그 외 특이소견은 없었다.

골반 단순 X선촬영상 경계가 뚜렷한 골피질을 팽창시키는 얇은 경화성 외연의 골융해성 병변이 우측 장골에 국한되어 있었고 병변의 내부에는 여러 격막에 의해 나뉘져 있었다. 팽창성병변으로 인해 골피질은 얇아져 있었다(Fig. 1). CT상 우측 장골피질을 팽대시키는 연부조직 음영의 종괴로서 내부에 약간의 저음영을 보였고 골피질의 파괴 소견은 보이지 않았고, 얇은 경화성 외연 및 격막이 관찰되었다

(Fig. 2). 골내 팽창성병변과 얇은 경화성 외연 및 변연의 격막으로 인해 동맥류성 골낭(Aneurysmal bone cyst)의 가능성을 먼저 고려하였다. MRI Proton강조영상에서는 근육보다 높은 신호강도이며 전측장골의 적골수(red marrow)와 같은정도의 동등신호강도로, T2강조영상에서는 대부분이 적골수와 동등신호강도이나 내부에 불균질한 점상의 고신호강도를 보였다. Gd 조영증강시 불균질하나 강한 조영증강이 관찰되었다. 인접정상부분과의 경계는 분명했고 얇은 저신호강도의 외연 및 격막을 갖고 있고 주위 조직으로의 침범은 없었다(Fig. 3a, b). T1강조영상은 얻지 못하여 그소견은 평가할 수 없었다. 장골 혈관조영상 우측 상부 둔부동맥(Right superior gluteal a.)과 내음부

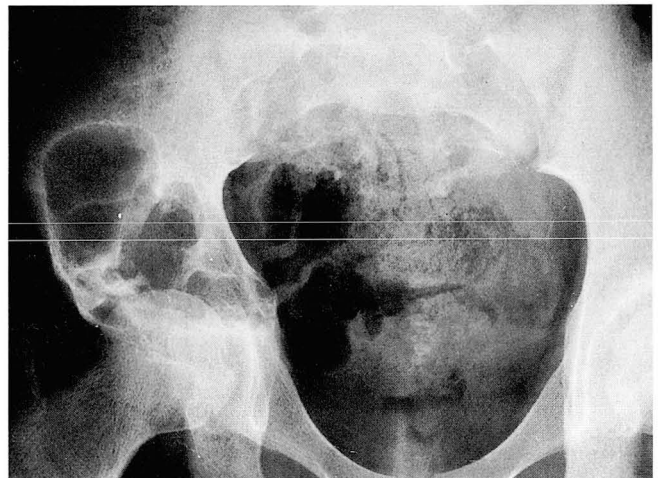


Fig. 1. Pelvis AP view shows a well-defined osteolytic lesion in the right ilium with partial septation and a thin sclerotic rim.

¹이화여자대학교 부속병원 진단방사선과학교실

²이화여자대학교 부속병원 병리학교실

이 논문은 1996년 2월 8일 접수하여 1996년 6월 13일에 채택되었음

동맥(internal pudendal a.)에서 기원하는 다발성의 신생혈관이 공급하는 과혈관성 병소로 종양염색(tumor staining)의 소견은 있었으나 조기 정맥배류(early venous drainage)의 소견은 없었다.

MRI 및 혈관 조영소견으로 동맥류성 골낭의 가능성은 낮아졌고 비전형적인 과혈관성 간질세포성 기원의 양성골종양이라는 잠정적인 진단하에 장골병소의 절제와 소파술을 시행하였다. 병변은 육안상 피포성의 종괴로 표면은 매끄럽고 윤이 나는 피질로 덮여 있었고 단면상 균일한 연갈색을 띄고 있었다. 병리학적검사에서 호산성핵을 가진 방추형세포다발로 구성되어있었고 염증성세포가 간질 사이에 있었다. 유핵세포분열의 소견은 거의 관찰되지않았다.

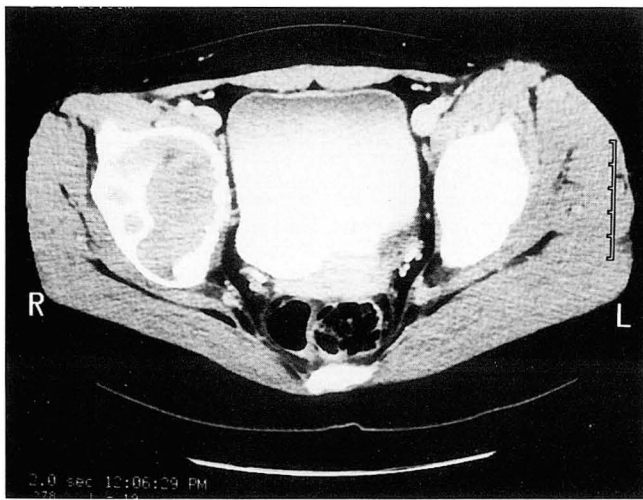


Fig. 2. CT scan demonstrates a well-defined soft tissue mass lesion in the right ilium which shows similar density to that of the adjacent muscles. The mass contains inner small irregular low density and thin septae.

면역화학적검사에서 근육성세포를 나타내는 actin, HHF5 염색에 강한 반응을 보여 양성평활근종으로 확진하였다.

고 찰

평활근종은 간질세포종양의 70-80%를 차지하는 것으로 발생부위는 체내에서 평활근세포가 분포하는 곳과 일치한다(2). 자궁이 가장 많은 빈도를 차지하고 소화기계, 비뇨생식기계의 순으로 발생하며 골내 발생은 매우 드물다(1, 2). 골내평활근종은 발생학적으로는 골내 혈관의 비형문근에서 기원하는것으로 추정되고 있다(3, 4). 현재까지 문헌에 보고된 골내평활근종은 하악골에 4예, 경골및 대퇴골에 각 1예씩 보고되어 있는 반면(2-4), 골내 악성평활근육종의 예는 약 50예가량이 보고된 바 있다. Braun 등(2)이 보고한 대퇴골에 발생한 예는 호르몬주입후 발생한 파종성 평활근종증(disseminated leiomyomatosis)의 일환으로 나타난 골내종양인 데 비해 본 예는 우측장골에 국한된 원발성종양이었다.

골내평활근종에 대한 CT나 MRI소견에 대한 보고는 매우 적어 평활근종중 그 소견이 널리 알려진 자궁내 평활근종의 경우를 보면 CT소견상 연부조직과 같은 음영의 견고한 종괴로 보이며 석회화를 동반할 수 있다. 유리질(hyaline), 점액구성(myxomatous), 지방변성, 점액성(mucinous), 악성(malignant)등의 퇴행성 변화가 동반될 수 있는데 이때는 불규칙한 저밀도 음영이 종괴 내부에 보인다. 조영증강은 균질하게 잘 된다(5). MRI소견을 보면 모든 신호강도영상에 저신호강도로 나타나나, 퇴행성변화동반시 T2강조영상에서 불균질한 고신호강도로 나타날 수 있다. Gd조영증강시 균질한 조영증강을 보이나, 퇴행성변화가 있을때에 그 부분에 조영증강이 안되어 부분적인 조영증강이 되는 불균질성을 볼 수 있다(6). 골내 평활근종에



Fig. 3. T2W axial image of the pelvis(a) reveals a well-defined, expansile lesion in the right ilium with thin low signal rim and septae. The signal intensity of the lesion is heterogeneous and higher than that of muscle and similar to that of red marrow of the opposite ilium. Irregularly patchy or mottled high signals are also noted in the lesion. Inhomogeneous intense enhancement of the mass is seen on Gd-enhanced fat suppressed T1WI(b).

대한 전형적 MRI소견은 널리 보고된바 없으나, Tomoda 등(3)이 보고한 경골내 발생한 angioleiomyoma의 경우 T1강조영상에서 근육조직과 유사한 저신호강도를, T2강조영상에서 중심부에 석회화에 의한 저신호강도를 포함한 고신호강도를 보였으나, 저자들의 증례의 경우 MRI T2강조영상에서 장골의 적골수와 같은 신호강도를 보였고 혈관조영술 및 단순X선 촬영소견은 본 증례와 유사한 소견을 보였다.

저자들의 예에서 단순 X선 촬영과 CT에서 보인 팽창성 골융해병변과 격막으로 인해 동맥류성 골낭(aneurysmal bone cyst)과 단순골낭 및 섬유성 이형성증(fibrous dysplasia)등과의 감별진단을 요했다. 동맥류성 골낭일 경우 MRI상 T1강조영상에서 저신호강도이나 T2강조영상에서 고신호강도의 종괴로서 저신호강도의 외연에 의해 명확히 경계지어지고 내부에 출혈이나 염증으로 인한 fluid-fluid level이 동반될 경우 다양한 신호강도로 관찰되는 것이 특징적이다(7). 혈관 조영술상 대개 저혈관성이나 국소적으로 과혈관성 부위가 있을 수 있다. 단순골낭은 T1강조영상에서 저신호강도, T2강조영상에서 고신호강도이며, 경미하게 외연만 조영증강이 되는 저혈관성 낭종이다. 섬유성 이형성증에서는 골융해성 병변으로 나타날 수 있지만 대개 간유리모양(ground-glass appearance)를 동반하고 MRI에서 포함된 섬유성 성분에 따라 다르나 대개 T1강조영상에서 저신호강도를, T2강조영상에서 고신호강도를 관찰할 수 있다(8). 저자들의 증례경우 MRI및 혈관조영술소견의 후향적분석시 T1강조영상은 없으나, T2강조영상및 조영증강소견등은 이상의 감별을 요하는 종양들 보다는 평활근종의 소견에 더 부합된것을 알 수 있다.

간질성 세포종양은 병리학적으로 평활근 세포성과, 드물지만 신경초종(neurinoma), 신경섬유종(neurofibroma)등의 다른 신경세포성 기원의 종양으로 구별되며 이러한 감별진단에는 면역화학적 검사가 도움이 된다(2, 3). 악

성종양의 진단기준인 유핵세포분열은 발생부위에따라 그 기준이 다른 데 본 예의 경우 유핵세포분열은 거의 보이지 않아 양성 평활근종으로 확진할 수 있었다.

골내 평활근종에 대한 치료는 절제와 소파술의 수술적 방법이 있고 재발은 거의 하지않아 예후가 좋다. 본 예의 경우 수술후 1년동안 특이 소견없이 잘지내고 있다.

결론적으로 경계가 분명한 경화성 외연의 팽창성 골융해성 병변이 있고, MRI Proton및 T2강조영상에서 불균질성의 적골수와 비슷한 신호강도의 종괴로 조영증강이 잘되는 과혈관성 종양인 경우 골내 평활근종의 가능성도 고려하여야 한다.

참 고 문 헌

1. Smith JW, Danon A, Padgett D, Johanson N. Leiomyoma of the lower extremity. *Orthopedics* **1991**;14:504-6
2. Braun W, Kotter A, Kundel K, Wiedemann M, Wagner T. A case report: Intraosseusleiomyoma of the neck of the femur. *Int Orthop* **1994**;18:47-9
3. Tomoda K and Lyama KI. A case of intraosseus angioleiomyoma. *Acta orthop Scand* **1992**;63:568-70
4. MacLeod SPR, Mitchell DA, Miller ID. Intraosseus leiomyoma of the mandible: Report of a case. *Br J Oral & Maxillofacial Surg* **1993**;31:187-89
5. Moss AA, Gamsu G, Genant HK. Computed tomography of the body. *Saunders* **1992**;657, 1233-35
6. Yamashita Y, Torashima M, Takahashi M, et al. Hyperintense uterine leiomyoma at T2-weighted MR imaging: Differentiation with Dynamic enhanced MR imaging and Clinical implications. *Radiology* **1993**;189:721-5
7. Beltran J, Simon DC, Levy M, Herman L, Weis L, Mueller CF. Aneurysmal bone cyst: MR imaging at 1.5T. *Radiology* **1986**;158:689-690
8. Utz JA, Kransdorf M, Jelinek JS, Moser RP, Berrey BH. MR appearance of Fibrous dysplasia. *J Comput Assist Tomogr* **1989**;13:845-51

Intraosseus leiomyoma: A Case Report¹

Hwa Young Kim, M.D., Sun Wha Lee, M.D., Woon Sub Han, M.D.²

¹ Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Ewha Womans University

² Department of Pathology, College of Medicine, Ewha Womans University

We report a rare case of expansile leiomyoma arising from the ilium of a 12-year-old girl. A plain radiograph and CT both showed a lesion consisting of a well-defined area of expansile soft tissue mass with a thin sclerotic rim and septae, surrounded by thin overlying cortex. MRI revealed a well-defined area of inhomogeneously higher signal intensity than that of surrounding muscle but of similar signal intensity than that of the red marrow of the opposite ilium on proton and T2WI. Inhomogeneous but intense enhancement was noted on Gd-enhanced T1WI. Angiography revealed hypervascularity and tumor staining. Microscopic examination on immunochemical staining with actin revealed a spindle cell tumor supporting the smooth muscle cell origin of the mass.

Index Words: Bone, CT
Bone, MR
Bone, neoplasms

Address reprint requests to: Hwa Young Kim, M.D., Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Ewha Womans University, # 911-1 Mok-dong, Yang cheon-Ku, Seoul Korea.
Tel. 82-2-650-5173, 4 Fax. 82-2-644-3362