

만성골수염에서 발생한 편평세포암

— 3예 보고 —

가톨릭의과대학 정형외과학교실

문명상 · 김한주 · 최남용 · 김홍중 · 서은주

= Abstract =

Squamous Cell Carcinoma Arising from Chronic Osteomyelitic Sinus — A Report of Three Cases —

Myung-Sang Moon, M.D., Ph.D., F.A.C.S., Han-Joo Kim, M.D., Nam-Yong Choi, M.D.,
Hong-Joong Kim, M.D. and Eun-Joo Seo, M.D.*

Department of Orthopedic Surgery and Clinical Pathology,* Catholic Medical
College and Center, Seoul

The development of squamous cell carcinoma from the draining sinus of chronic osteomyelitis has long been recognized as a rare and late complication. The mode of development of carcinoma at the site of chronic osteomyelitis is not well understood. This, however, is chiefly a disease of middle aged men, and tibia is the most common site. There are two types in this carcinoma; superficial and deep types. In the superficial type obvious presence of fungating growth makes diagnosis simple and easily confirmed by biopsy. In the deep type the diagnosis is difficult clinically, but the features most frequently described are an increase in pain and discharge with swelling and hemorrhage. Amputation at the adequate level is the treatment of choice. Three cases of the disease involving one left femur, and two left tibiae are reported with review of literature.

Key Words: Osteomyelitis, chronic, squamous cell carcinoma

I. 서 론

만성골수염의 배농누공에서 발생하는 편평세포암은 만기 합병증의 하나이며 그 발생 빈도는 매우 낮다.

이 종양은 배농누공의 편평상피에서 발생하며 악성도는 비교적 낮고, 전이 또한 드문 것으로 알려져 있다.

저자들은 최근 좌 대퇴골 및 좌 경골의 만성골수염으로부터 이차적으로 발생한 편평세포암을 3예 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

증례 1 : 이 ○관, 남자, 45세.

주 소 : 좌 하퇴 근위부 내측에 누공 및 지속적

인 배농과 종괴(mass)형성.

병 력 : 약 30년 전부터 특기할 만한 원인없이 시작된 좌 경골 근위부의 만성골수염으로, 좌 하퇴 근위부에 누공이 형성되고 지속적인 배농이 있어, 창상치치만을 계속하고 만성골수염에 대한 처치를 하지않던 중, 약 3개월 전부터 누공주위에 피부괴사가 생기면서 종괴가 형성되고 그것이 점차 커져서 본원에 내원하였다.

이학적 소견 : 내원 당시 좌 하퇴 근위부 내측에 7×7cm 크기의 불규칙한 모양을 한 cauliflower양 종괴가 있으며 심한 악취를 풍기는 배농이 있었다.

검사 소견 : 입원 당시 혈액검사 소견은 백혈구 증다증은 없었으나(8,100/mm³), 혈침속도는 증가되어 있었다(ESR: 48, cESR: 38mm/hr). 배농을 세균 배양한 결과 배지상에 대장균(E. coli)이 자라고 있었다.

방사선 소견 : 좌 경골 근위부의 골수강이 막혀있

으면서 그 부위의 골수의 일부가 부골화 현상(sequestrum formation)을 보였고 경골의 중간부위까지 불규칙적으로 경화된 피질을 보이고 있었다(Fig. 1).

병리학적 소견: 입원 당시 환부에서 채취한 조직 생검 결과는 편평세포암 소견을 나타내었다. 즉, 피부쪽의 상피층은 심한 증식과 더불어 각질화(hyperkeratosis)와 유두종증(papillomatosis)을 동반하였으며, 증식한 편평상피 세포들은 피(mass)또는 소

(nest)를 이루면서 진피를 불규칙하게 침윤하고 있었고, 농양(abscess)부위와 접하여 종양세포들이 자라는 모습도 관찰되었다(Fig. 2). 수공루(sinus tract) 주변조직에서 종양세포들의 침윤과 함께 사골편(dead bone spicule)이 보이기도 하였고, 심한 만성 염증과 섬유화가 진행되어 있었다(Fig. 3).

종양세포의 분화정도는 좋은 편으로, 세포질의 각질화(keratinization) 및 뚜렷한 세포간교(intercellular bridge)를 흔히 나타내고 있었다.

치 료: 환자에게 생검 결과를 알린 후 입원 3주만에 대퇴부 절단술(A-K amputation)을 시행하였다.

증례 2: 김 ○영, 남자, 30세

주 소: 좌측 서혜부의 종창 및 지속적인 배농

병 력: 23년 전부터 특기할 만한 원인없이 좌 대퇴골 하단부에 만성골수염이 발생하여 10년 전에 다른 병원에서 대퇴부 절단술(A-K amputation)을 시행한 후 보조기를 착용하고 정상 생활을 하였으나, 입원 2개월 전부터 대퇴부 절단단의 동통 및 좌측 서혜부에 누공이 형성되어 개인병원에서 결핵성 고관절염의 진단하에 항결핵요법을 시행하면서 창상처치를 하던 중 본 병원에 내원하였다.

이학적 소견: 입원 당시 좌측 서혜부에 직경 0.5 cm 정도의 누공이 있었으며 이곳에서 심한 악취를 내는 배농이 있었고 누공 주위에는 1×1cm 정도의 피부괴사가 있었다.

검사 소견: 입원 당시 혈액 및 혈청학적 검사 소견은 백혈구 37,700, 혈침속도 17mm/hr, 염기성 포스파타제(alkaline phosphatase)치는 365IU/l이었다. 결핵균 검사에서 결핵균은 발견되지 않았으며 결핵 반응검사도 음성이었다.

Fig. 1. The X-ray film shows chronic osteomyelitis of the Lt. tibia(Case 1). The obstruction of the medullary cavity, sequestrum and irregular cortical thickening are shown.

Fig. 2. Squamous cell carcinoma, well differentiated(Grade II), at left, and abscess sinus of tract right(100×).

Fig. 3. There are entrapped bony spicules adjacent to the nest of tumor cells. The surrounding stroma shows a marked chronic inflammatory reaction and fibrosis(×100).

Fig. 4. The X-ray film shows chronic osteomyelitis of the Lt. femur head and trochanteric area (Case 2). Bony destruction at the trochanteric area and diffuse osteoporosis at the pelvic bone and proximal femur are shown.

Fig. 5. An island of tumor cells in the involved bone marrow(100×).

방사선 소견: 좌 대퇴골두 및 전자간부의 골 소실이 있었으며 비구, 치골 및 대퇴골 원위부에 전반적인 골조종증(osteoporosis) 및 골과괴 현상이 있었고 피질은 얇아져 있었다(Fig. 4).

병리학적 소견: 입원 3일째 좌측 장골 및 누공 주위의 피부에서 생검을 실시하였다.

피부 생검의 광학현미경적 소견은 상피세포가 심하게 증식되어 진피쪽으로 불규칙하게 자라고 있는 편평세포암 이었다. 생검된 골조직에서도 종양소(tumor cell nest)를 관찰할 수 있었다(Fig. 5). 종양세포들은 소(nest), 또는 괴(mass) 양상으로 배열되어 있고 “증례 1”에서와 같이 분화는 매우 좋아서 분명한 세포간교와 상당량의 각질화된 세포질을 많이 관찰할 수 있었다. 종양세포핵은 여러 정도의 다형태성(pleomorphism)과 분열상(mitosis)을 나타

Fig. 6. Tumor cells show distinct intercellular bridges and large amount of eosinophilic glassy cytoplasm, with large pleomorphic nuclei and frequent mitoses(400×).

Fig. 7. Draining sinus is shown at the anterior aspect of proximal leg and foul odor pus was drained from this sinus.

내었다. 또한 종양세포소(tumor cell nest)의 주변 조직에서는 섬유화와 만성염증이 심하였다(Fig. 6).

증례 3: 김 ○곤, 남자, 35세

4세때 좌측 경골 근위부에 골수염이 처음 발생한 후 10회 이상 수술가료를 받았으나 완치되지 않고 재발을 거듭하여 왔다고 하며, 1970년 4월부터 만성누공 형성과 함께 환부에 큰 피부결손이 생겼다고 한다. 배농은 계속되었으며 최근에는 악취를 발한다고 하였다(Fig. 7). 골 환부의 방사선 촬영(Fig. 8)과 환부 조직의 생검을 실시한 바, 만성 누

Fig. 8. X-ray shows extensive of destruction bony structure with characteristic findings of chronic osteomyelitis.

공부위에 발생한 편평세포암 임을 확인하기에 이르렀다. 절단술을 권하였으나 거부하여 광범위한 골 및 연부조직 절제술을 실시하고 임시방편으로 부분 충 유리 식피술을 실시한 결과 식피술에 성공하였다. 현재 경과 관찰 중이나 별다른 이상은 없다.

III. 고 안

만성골수염의 배농루에서 편평상피세포의 증식은 자주 동반되나 대개는 양성증식(benign hyperplastic change) 또는 이소성 변화(metaplastic change)가 대부분이지만 때로는 편평상피의 증식이 심하여 pseudoepitheliomatous hyperplasia로 나타나기도 하지만 편평세포암으로도 변성한다¹²⁾. 이 종양에 대해서는 1835년 Hawkins¹³⁾에 의해 처음 보고되었다. 이 종양의 발생에 대한 원인은 잘 밝혀지지는 않았으나 만성자극(chronic irritation), 염증성 삼출액의 성장 촉진인자(growth promoting factor in inflammatory exudate)¹⁷⁾, 자극인자(initiating factor)와 촉진인자(promoting factor)에 대한 이단계설^{15, 18)} 등이 주장되었으나 정확한 기전은 아직 알려지지 않았다. 본 종양은 중년기의 남자에 호발한다 하였으며^{9, 13, 19)} 발생빈도는 Brown⁷⁾ Eller⁸⁾ 등에 의하면 상지에 발생하는 편평세포암중 2.5%~4.5%가 만성골수염 후에 발생한다고 하였으며, 저자들에 따

라 0.23%에서 1.6%까지 보고하였으며 Sedlin은 평균 0.5%의 발생율을 갖는다고 하였다. 그러나 Gillis와 Lee¹⁰⁾는 정확한 빈도를 알기 위해서는 20년 이상된 만성골수염에 의한 예만을 대상으로 하여야 한다고 하였으며 환자의 나이와 성 보다는 만성골수염의 이환 기간이 더 중요하다고 하였다. Sedlin¹⁰⁾에 의하면 평균 이환 기간은 30.5년이며 Johnson¹¹⁾은 평균 30년, Fitzgerald¹²⁾는 평균 42년을 보고하였다. 본 예에서도 만성골수염의 이환 기간이 각각 23년, 30년, 31년이었다.

호발 부위는 85%이상이 하지에서 발생하며 경골이 50% 정도를 차지하고 대퇴골, 종골, 상지, 골반 순으로 발생한다고 한다¹⁰⁾.

임상 증상은 장기간의 만성골수염을 가진 환자에 있어서 갑자기 통증이 심하게 나타나고 누공에서 악취의 분비물이 나오며 누공 주위에 피부괴사 또는 cauliflower양 종괴를 형성한다. 드물게는 출혈이 있기도 하며 병적 골절이 동반되기도 하는데 이러한 때는 일단 악성 변화를 의심해야 한다¹⁰⁾.

본 종양으로 인해 주위의 임파선 종대를 초래할 수는 있으나 대부분의 경우 만성 염증에 의한 단순 비대이며 악성 전이에 의한 것은 드물다고 하였다. 타 장기로의 전이는 드물지만 Sedlin¹⁰⁾에 의하면 20%, Bereston⁴⁾에 의하면 20%~30%의 전이를 일으킨다고 보고하였으며 전이는 골수강내로 퍼질 수 있으며 피부에 전이를 일으킨 예도 Stewart²⁰⁾에 의해 보고 되었다. 전이가 있는 경우는 대부분 악성 변화후 18개월 이전에 발생하며 악성 변화후 3년 내에 전이가 없을 때는 예후가 좋다고 한다¹⁰⁾.

본 종양은 표재성과 심재성(superficial and deep type)의 2가지 양상으로 발생할 수 있어 생검을 실시할 때는 반드시 배농루 표면에서 심층까지 여러 부위와 골수강까지도 생검을 실시하여야 정확한 진단을 할 수 있다¹⁰⁾.

치료는 조기발견 후 생검을 실시하여 확진이 되면 절단술을 시행하는 것이 가장 좋다고 알려져 있다.

IV. 결 론

저자들은 최근 좌 대퇴골 및 좌 경골의 만성골수염으로부터 이차적으로 발생한 편평세포암을 3예 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

- 1) 이장희: 만성골수염에서의 악성변화 1 예. 최

- 신 의학 제 9권 5 호, 117-120, 1966.
- 2) 전웅백 · 최충신 · 김용주 : 만성 골수염에서 발생한 편평세포암. 대한정형외과학회지, 제 11권 제 3 호, 431-434, 1976.
 - 3) 최장석 · 김명호 · 배대경 · 한문식 : 만성 골수염에서 생긴 편평세포암. 대한정형외과학회지, 제 13권 제 2 호, 219-224, 1978.
 - 4) 편영석 · 김준 · 김익중 : 만성 골수염에서 발생한 편평세포암에 대한 임상적 고찰. 대한정형외과학회지, 제 5권 제 4 호, 167-172, 1970.
 - 5) Benedict, E.B.: *Carcinoma in Osteomyelitis. Surg. Gyne. and Obst.*, 53: 1-11, 1931.
 - 6) Bereston, E. E., and Ney, Charles.: *Squamous cell Carcinoma in a Sinus Tract with Metastasis. Arch. Surg.*, 43: 247-268, 1941.
 - 7) Brown, H.J., Coventry, M.B. and McDonald, J.R.: *Squamous cell Carcinoma of the Extremities. Proc. Staff Meet. Mayo clin.*, 28: 590-598, 1953.
 - 8) Eller, J.J. and Eller, W.D.: *Tumors of the Skin, Benign and Malignant, Ed. 2, p. 423, Philadelphia, Lea and Fibiger, 1951.*
 - 9) Fitzgerald, R.H., Brewer, N.S. and Dahlin, N.C.: *Squamous cell Carcinoma Complicating Osteomyelitis. J. Bone and Joint Surg.*, 58-A: 1146, 1976.
 - 10) Gillis, Leon., and Lee, Stanley.: *Cancer as a Sequel to War Wounds. J. Bone and Joint Surg.*, 33-B: 167-179, 1951.
 - 11) Hawkins, C.: *Cited by Bereston and Ney.*
 - 12) Hobart, M.H. and Miller, D.S.: *Unusal Complications of Osteomyelitis. Amer. J. Surg.*, 45: 53, 1939.
 - 13) Johnson, L.L. and Kempson, R.L.: *Epidermoid Carcinoma in Chronic Osteomyelitis, Diagnostic Problems and Management. J. Bone and Joint Surg.*, 47-A: 133, 1965.
 - 14) Lovell, W.W., King, R.E. and Allredae, Rufus.: *Carcinoma in Skin, Sinuses, and Bone following Chronic Osteomyelitis. South. Med. J.*, 50: 266-271, 1957.
 - 15) Mackenzie, Ian, and Rous, Peyton: *The Experimental Disclosure of Latent Neoplastic Changes in in Tarred Skin. J. Exper. Med.*, 73: 391-415, 1941.
 - 16) McAnally, A.K. and Dockerty, M.B.: *Carcinoma Developing in Chronic Draining Cutaneous Sinuses and Fistulas. Surg. Gyne. and Obst.* 88: 87-96, 1949.
 - 17) Menkin Vally: *Role of Inflammation in Carcinogenesis. Brit. Med. J.*, 1: 1585-1594, 1960.
 - 18) Rous, Peyton, and Kidd, J.G.: *Conditional Neoplasms and Subthreshold Neoplastic states. A Study of Tar Tumors of Rabbits. J. Exper. Med.*, 73: 365-390, 1941.
 - 19) Sedlin, E.D. and Fleming, J.L. : *Epidermoid Carcinoma Arising in Chronic Osteomyelitis Foci. J. Bone and Joint Surg.*, 45-A: 827-838, 1963.
 - 20) Stewart, C.D., Obermayer, M.E. and Woolhandler, Harry.: *Cutaneous Metastatic Carcinoma Originating from Osteomyelitic Cavities. Arch. Dermatol. Syphilol.*, 41: 545-550, 1940.