

늑골에 발생한 원발성 양성종양

— 3 치험례 —

이 남 수* · 백 인 기** · 손 광 현*

— Abstract —

Primary Benign Rib Tumors

— 3 Cases —

Lee, Nam Soo, M.D.,* Paik, In Ki, M.D.,** and Sohn, Kwang Hyun, M.D.*

From Aug. 1975 to Aug. 1981, 3 patients with primary benign rib tumors have been treated at the department of thoracic surgery, Paik Hospital, Seoul, Korea. Of these, one was aneurysmal bone cyst and two were fibrous dysplasia. Complete excision of the benign tumor including rib resection was performed in all patients and resulted in long term cure.

서 론

원발성 흉벽종양은 비교적 드문 질환이며, 그 중에서도 양성종양은 더욱 희귀한 것 중의 하나로 아직 국내에서는 보고례가 아주 적다. 1778년 Osias Aimar가 흉벽종양 제거후 처음으로 원발성 흉벽종양이란 용어를 기술하였고, 1898년 New Orleans의 F. W. Parham이 자신이 경험한 2예를 포함하여 그 이전에 산발적으로 발표되었던 원발성 흉벽종양 78예를 대상으로 처음 임상적 고찰을 실시하여 보고하였다¹²⁾. 이들 원발성 흉벽종양증 纖維性 異狀成腫 (fibrous dysplasia)이란 용어는 1937년 Albright⁷⁾에 의해 動脈瘤性 骨囊腫(aneurysmal bone cyst)은 1942년 Jaffe 및 Lichtenstein¹⁴⁾

에 의해 처음 기술되었다.

저자들은 1975년 8월부터 1981년 8월 현재까지 본 병원 흉부외과에서 늑골에 발생한 섬유성 이상성종 2예 및 동맥류성 골낭종 1예를 각각 수술 치험하였기에 문헌고찰과 더불어 보고하는 바이다.

증 례

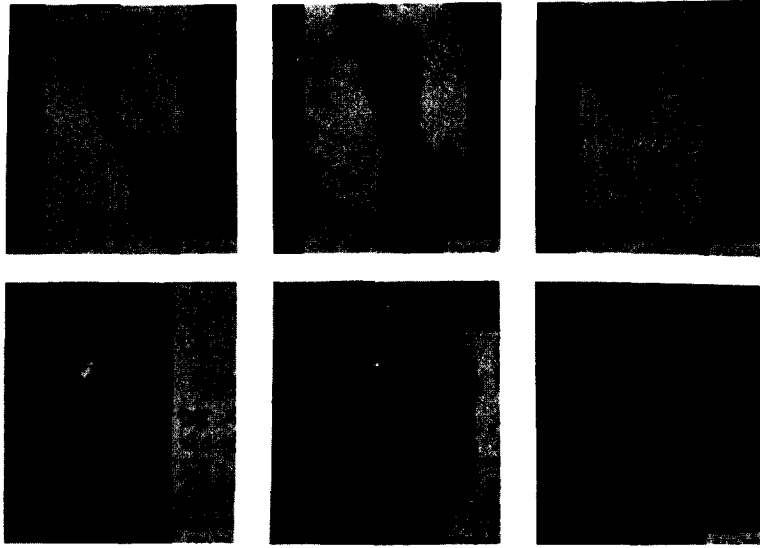
증례 1. 남자. 21세. 입원 1년전 정기 신체검사도중 흉부 단순촬영에서 제4 늑골부위에 종양이 발견되었으며, 입원당시까지 12개월간 자각증상은 없었다. 이학적 검사에서 좌측 전흉부에 제란 크기의 딱딱한 종괴가 촉지되었으며, 약간의 압통을 호소하였다. 입원당시 혈액학적검사, 뇨검사, 간기능검사, 출혈반응검사를 실시하였으나 모두 정상 범위였다. 흉부 X-선 소견에서 방추형의 늑골 종양이 좌측 전흉부의 제4번 늑골에서 발견되었다(Fig 1-1, 1-2). 1977년 10월 18일 전신마취하에 해당 늑골 절제술을 실시하였으며, 암적색의 종괴는 주위 늑막과 약간 유착되어 비후된 골막에 잘 피복되어 있었으며, 크기는 16×6×5cm이었다(Fig 1-4).

*인제의대 백병원 흉부외과

**인제의대 백병원 임상병리과

* Department of Thoracic Surgery, Inje Medical College, Seoul, Korea

** Department of Clinical Pathology, Inje Medical College, Seoul, Korea



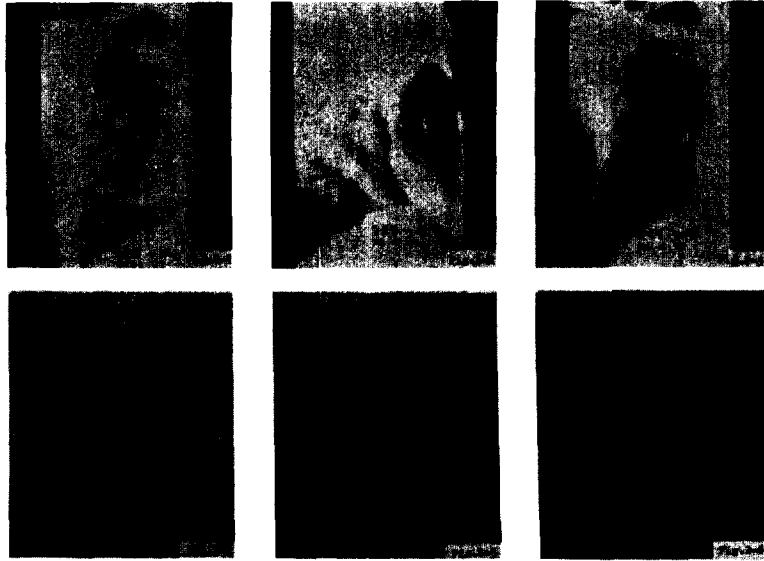
Case 1.: Fig. 1-1,2, Shows spindle shaped bone tumor of the left 4th rib. Fig. 1-4,5, Showing external view and sponge like cut surface of the resected tumor. Fig. 1-6, Revealed a typical pictures of the aneurysmal bone cyst with giant cells, osteoid, hemosiderin pigments, and chronic inflammatory cells.

골단면은 해면상의 여러가지 다양한 크기의 낭포로 형성되어 있었고 그안에는 암적갈색의 혈액성분이 함유되어 있었다(Fig 1-5). 현미경 소견상(Fig 1-6) 낭포벽은 농축된 섬유조직으로 피복되었으며, 그 결체지 내에는 만성 염증성세포, 혈철소 침착 및 많은 거대세포들이 산재되어 있어 동맥류성 골낭종(Aneurysmal Bone Cyst)으로 진단되었다. 환자는 수술 12일만에 경과 양호하여 퇴원하였으며(Fig 1-3), 보고 현재까지 추월검사상 이상소견 없다.

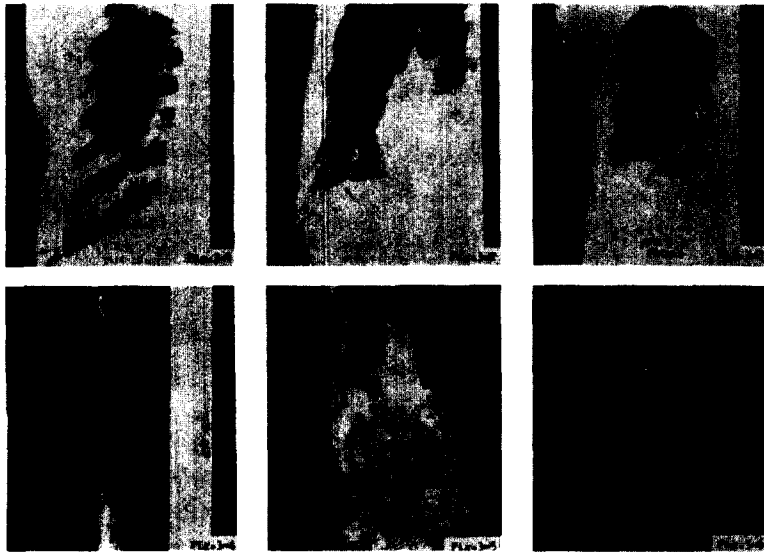
증례 2. 남자. 32세. 입원 6개월전 교통사고로 모 개인병원에 입원, 검진도중 우측 제3늑골부위의 종양이 발견되었다. 입원 7일전부터 우측 흉부에 동통이 발생하기 시작하였다. 이학적 검사상 우측 전흉부 제3늑골부에 압통을 호소하였으며, 호두알 크기의 종괴를 촉지할 수 있었다. 입원당시 혈액학적 검사, 뇨검사, 간기능검사등은 정상범위였다. 흉부 X-선 소견상 우측 제3늑골의 늑연골부에서 골흡수 현상과 동시 골피질이 팽대된 늑골을 발견하였다(Fig 2-1, 2-2). 1977년 12월 21일 전신마취하에 해당 늑골절제술을 실시하였으며, 적출된 종괴는 주위 늑막과 심하게 유착되어 있었고, 그 크기는 21×4×3cm으로 팽대된 종괴가 Fig 2-4에서와 같이 두 부분으로 돌출되어 있었다. 골단면은 방추형으로 그안에는 섬유조직으로 매치된 팽대된 회황색

의 골수를 보여 주었다(Fig 2-5). 현미경 소견상(Fig 2-6) 농축된 섬유조직내에 신생골형성 즉 여러모양의 fiber bone들이 산재해 있어 섬유성 이상성종(Fibrous Dysplasia)으로 진단되었다. 수술 17일째 퇴원하였으며 외래 추월검사 12개월째 검진된 흉부 X-선상 경과 양호하다(Fig 2-3).

증례 3. 여자. 32세. 입원 3년전에 정기 신검도중 우측 제7번 늑골부위에서 종양을 발견하였으며, 입원당시까지 자각 증상은 없었다. 이학적 검사상 우측 흉부 측면에 방추상의 종괴를 촉지할 수 있었으나 압통은 없었다. 입원당시 각종 검사소견은 정상이었다. 흉부 X-선상 우측 7번늑골 중간부위에서 방추형의 종양이 발견되었다(Fig 3-1, 3-2). 1981년 3월 25일 해당 늑골절제술을 실시하였으며, 종괴크기는 10×3.5×2.0cm이었고(Fig 3-4, 3-5), 절단면은 증례 2에서와 비슷하여 골수와 피질이 회황색의 단단한 섬유조직에 의해 거의 매치되어 있었다. 현미경 소견상(Fig 3-6) C-형의 fiber bone들이 농축된 섬유조직 사이에서 보이며, 군데군데 거대세포, 염증세포 및 혈철소색소가 보이고 있어 섬유성 이상성종으로 진단되었다. 경과 양호하여 수술 9일째 퇴원하였다(Fig 3-3).



Case 2.: Fig. 2-1,2, Shows a spindle shaped, osteolytic expansion and cortical out bulging of 3rd rib. Fig. 2-4,5, Showing resected specimen characterizing fusiform, homogeneous, central expanding tumor of the rib. Fig. 2-6, Microscopically, misshaped fiber bones are scattered in the dense fibrous tissue suggestive of typical fibrous dysplasia.



Case 3.: Fig. 3-1,2, Shows a spindle shaped rib tumor of the right 7th rib. Fig. 3-5, Cut surface of the specimen showing homogenous, yellow-gray, gritty consistency. Fig. 3-6, Microscopic views of misshaped or C-shaped fiber bones (trabeculae) in the dense fibrous tissue.

고 안

흉벽종양은 연부조직 종양과 골조직 종양으로 레별할 수 있으나, 흉부외과의 관심을 모을 수 있는 것은 골조

직에 발생한 종양이라고 하겠으며, 이를 다시 양성종양과 원발성 악성종양 및 전이성 악성종양으로 구분할 수 있겠다.

늑골 양성종양의 발생 빈도는 매우 낮은 편으로 Tei-

telbaum(1972)¹⁹의 보고에 의하면 Barnes Hosp.에서 20년간 몸 전체의 골조직에 발생한 종양 750예중 61예(8%)만이 흥벽에 발생하였고, 이 흥벽종양중 27예가 늑골에 발생한 양성종양이었다. 이들 양성늑골종양중 chondroma가 제일 많았으며, 그 다음이 osteochondroma, fibrous dysplasia, eosinophilic granuloma 등의 순이며, aneurysmal bone cyst는 경험하지 못하였다고 한다. Ochsner 등(1966)¹⁶은 흥벽종양 134예를 분석한바, 양성 48예, 악성 36예, 나머지 50예는 전이성 종양이었으며, 양성 48예중 섬유성 이상성종이 9예, 동맥류성 골낭종은 3예로 보고하였다. 국내 문헌중에서 섬유성 이상성종은 이선희 등(1975)⁴¹이 3예, 이지원 등(1980)⁵ 및 마중성 등(1974)³³이 각각 1예를 보고하였고, 동맥류성 골낭종은 이선희 등(1975)⁴¹, 김명옥 등(1973)¹¹, 김주현 등(1977)²¹이 각각 1예씩 보고하였다.

연령분포는 섬유성 이상성종의 경우 25예중 20세 미만인 13예, 20세 이상이 12예이었고, 최연소 5세, 최고령 70세까지 경험하였으며¹⁸, 동맥류성 골낭종의 경우는 95예중 80% 이상이 20세 미만의 젊은 층에서 발생되었고, 최연소 18세, 최고 60세까지 경험하였다 한다²⁰. 남녀비는 문헌에 따라 각각 달라 성별의 차이는 통계적 의미가 없는 것으로 판단되었다^{17,18,20}. 본 보고에서는 섬유성 이상성종 2예의 경우, 32세 남자와 32세 여자였으며, 동맥류성 골낭종은 21세 남자이었다.

발생부위는 동맥류성 골낭종의 경우 사지의 장골이 제일 빈번한 장소이며, 그 외에, 척추, 쇄골, 늑골, 두개골등의 순으로 골격부에는 어느 곳이나 발생할 수 있으며²⁰, 섬유성 이상성종의 경우는 두개골에 제일 호발하며, 그 다음이 대퇴골, 늑골의 순이고¹⁸, 늑골에 생기는 양성 종양중 가장 흔하다¹⁷.

동맥류성 골낭종의 병인론은 아직 불확실하며, 사춘기에서 사지장골중 골중간부위에서 잘 발생하는 것으로 보아 enchondral bone formation의 결여와 관계 있는 질병으로 추측되고 있으며, 종양부위의 외적인 손상과 관련 여부를 고려하였으나 이것 역시 애매하며^{11,20}, 동맥류성 골낭종 26예중 12예에서 술전 외상병력이 있었다¹¹. 섬유성 이상성종의 경우 Bennett⁸에 의해 다음과 같은 3가지 비정상적인 특징들이 알려졌다. 즉 ① 다발성 병변(polyostotic bone lesions)인 경우는 그 분포가 편측으로만 발생하는 경향이 있고, ② 골종양의 같은 쪽에 nonelevated areas of brown pigmentation of skin (café-au-lait spots) 즉 갈색피부반점이 생기며 이는 특히 다발성 병변에서 발견되며, ③ 성장에 영향을 미치는 내분비의 장애로 젊은 여성에서 조숙한 사춘기를

유발시킨다. 그러나 이러한 특징들로 섬유성 이상성종의 병인론을 설명하기에는 아직 미흡하며, 종양부위의 외상의 병력은 25예중 3예에서 있었다¹⁸.

임상적인 증상은 종양이 발생하는 부위에 따라 나타나는 증상에 차이가 있으나 동통과 부종이 주증상이며, 그 이외에 운동장애, 압통등을 호소하나 동통의 정도는 심하지 않다. 술전 임상 증상의 기간은 1주에서 부터 39개월까지 경험하였다고 한다^{11,20}. 저자들의 경우, 증례 1은 정기 신검도중 우연히 발견되었고, 증례 2는 입원 6개월전에 우연히 발견되어 입원 7일전부터 동통이 발생되었으며, 증례 3은 3년전에 정기 신검시 발견되었으나 입원 당시까지 자각증상은 없이 부종만 촉진되었다.

X-선 소견은 동맥류성 골낭종의 경우, 부위 및 시기에 따라 다양하나 늑골의 경우 대칭형 또는 비대칭형으로 울퉁불퉁하게 팽창된 늑골을 보여주며, 골외면은 얇은 조개껍질 모양의 신생 골피질 또는 골막에 의해 덮여 있으면서 골수 내부에는 골연화 또는 파괴현상으로 인한 크고작은 공동형성으로 경계 불분명한 soap-bubble 또는 honey combed appearance를 나타내며^{11,20}, 젊은 연령에서 특히 늑연골부에 인접한 골체부에 위치함이 특징적이다^{11,20}. 섬유성 이상성종은 늑골의 경우 방추상의 팽대된 종괴를 형성하며, 골피질이 얇아져 있으면서 주위 건장부위와 명확한 경계를 이루며 골내막으로 골피질이 부채꼴 모양으로 다엽상으로 보인다⁶.

육안적인 골단면은, 섬유성 이상성종의 경우 골피막이 얇아져 있으면서 팽대되어 있고 골내부에는 회황색의 섬유조직에 모래가 섞여있는 양상의 결체적으로 골수가 대치되어 있고⁶, 동맥류성 골낭종의 경우는 용기된 골피질내에 여러 크기의 수많은 해면상의 공간을 볼 수 있으며 각기 결체조직 중격으로 분할되어 그 안에는 혈액이 차 있다.

현미경 소견은 동맥류성 골낭종의 경우 주된 소견은 여러개의 다양한 크기의 공동이 있고 이들 공동은 섬유성 결체조직 중격으로 분리되어 있으며 이 결체조직내에는 다핵세포들과 함께 신생 골조직의 fiber bone들이 들어 있다¹¹. 섬유성 이상성종의 경우는 좁고 굵은 여러가지 형상의 신생 골조직군(fiber bone)들이 능축된 섬유조직 사이에서 보이며 이 fiber bone의 주위에서 조골세포를 발견할 수 없음이 특징이다⁶.

동맥류성 골낭종의 감별 진단으로는 unicameral cyst, giant cell tumor, osteogenic sarcoma 등과 감별이 필요하며²⁰, 섬유성 이상성종의 경우는 ossifying fibroma, unicameral bone cyst, osteitis fibrosa-

cystica generalisata 등과 감별이 필요하다.

이들 양성능골종양의 치료시에는 재발을 고려하여 종괴가 위치하고 있는 해당 능골을 광범위 절제함이 바람직하며, 불충분한 절제로 잔여 병소가 남아있을시 악성화될 가능성도 고려하여야 한다¹⁵⁾. 절제술이 불가능한 경우, 차선의 방법들로는 철저한 소파술후 골편으로 전색을 하거나 방사선 치료로 좋은 효과를 가져 오기도 한다^{9,20)}. 방사선 치료는 수술이 불가능하거나 재발에 의한 이차수술을 실시 한후 사용되는 경우가 많으나 악성종양화의 위험을 염두에 두어 2000R 이상의 방사선 조사는 삼가 하여야 한다^{9,20)}. Tillman 등(1968)²⁰⁾의 경우 수술 가료한 동맥류성 골낭종 62예를 2년 내지 그 이상 추월검사 결과 재발율이 21%였으며, 이 중 대부분이 더 이상의 치료를 필요로 하지 않았으며 추가 처치가 가해질 경우도 좋은 예후를 보여주었다고 한다.

결 론

저자들은 1975년 8월부터 1981년 8월까지 만 6년간에 본 백병원 흉부외과에서 능골에 발생한 원발성 양성종양 중 그 발생빈도가 극히 드문 동맥류성 골낭종(Aneurysmal Bone Cyst) 1예와 발생빈도가 비교적 희유한 섬유성 이상성종(Fibrous Dysplasia) 2예를 각각 수술치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

1. 김명옥, 조범구, 홍승록, 이광길, 최인준: 능골에 발생한 동맥류성 골낭종 - 1 치험례, 대한흉외지, 6: 175, 1973.
2. 김주현, 홍기우, 김영태: 동맥류성 골낭종 1례 보고, 대한흉외지, 10:226, 1977.
3. 마중성, 최병우, 유희성: 원발성 흉벽종양, 대한흉외지, 7:61, 1974.
4. 이선희, 김세화, 이홍균: 흉벽에 발생한 종양-흉벽재건술 4례, 대한흉외지, 8:29, 1975.
5. 이지원, 한균인, 이영: 흉벽종양 16예의 임상적 고찰, 대한흉외지, 13: 486, 1980.
6. Ackerman, L.V., and Rosai, J.: *Surgical Pathology*, pp. 1072-1076, 5th ed, St. Louis, C.V. Mosby Co., 1974.
7. Albright, F., Butler, A.M., Hampton, A.O., and Smith, P.: *Syndrome Characterized by Osteitis Fibrosa Disseminata, Area of Pigmentation and Endocrine Dysfunction with Precocious Puberty in Female*, *New Engl. J. Med.* 216:727-746, 1937 (Cited by Reed, R.J., 1963).
8. Bennett, G.: *Pathology*, Ed. 4, Edited by W.A.D. Anderson, St. Luis, C.V. Mosby Co., 1961 (Cited by Reed, R.J., 1963).
9. Buraczewski, J., and Dabska, M.: *Pathogenesis of aneurysmal bone cyst; relationship between the aneurysmal bone cyst and fibrous dysplasia of bone*, *Cancer* 28:596-604, 1971.
10. Burnard, R.J., Martini, N., and Beattie, E.J. Jr.: *The value of resection in tumors involving the chest wall*. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 68:530, 1974.
11. Dahlin, D.C., Besse, B.E., Pugh, P.G., and Ghomley, R.K.: *Aneurysmal bone cyst*, *Radiology* 64:56, 1955.
12. Dineen, J.P., Boltax, R.S.: *Problems in the management of chest wall tumor*. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 52:588, 1966.
13. Edling, N.P.G.: *Is the aneurysmal bone cyst a true pathologic entity?* *Cancer* 18:1127, 1965.
14. Jaffe, H.L., and Lichtenstein, L.: *Solitary Unicameral Bone Cyst, with Emphasis on the Roentgen Picture, the pathologic Appearance, and the Pathogenesis*. *Arch. Surg.* 44:1004-1025, June 1942. (Cited by Dahlin, D.C. et al., 1955).
15. Moykopf, V., and Krumhaar, D.: *Management of primary rib tumors*. *Surg. Gyn. Obst.* 125:1239, 1967.
16. Ochsner, A. Jr., Lucas, G.L., and McFarland, G.B. Jr.: *Tumors of the thoracic skeleton - Review of 134 cases*. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 52: 311, 1966.
17. Pascuzzi, C.A., Dahlin, D.C., and Clagett, O.T.: *Primary tumors of the ribs and sternum*. *Surg. Gyn. Obst.* 104:390, 1957.
18. Reed, R.J.: *Fibrous dysplasia of bone; a review of 25 cases*. *Arch. Pathol.* 75:480-495, 1963.
19. Teitelbaum, S.L.: *Twenty years' experience with intrinsic tumors of the bony thorax at a large institution*. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* 63:776, 1972.
20. Tillman, B.P., Dahlin, D.C., Lipscomb, P.R., and Stewart, J.R.: *Aneurysmal bone cyst - An analysis of ninety five cases*. *Mayo Clin. Proc.* 43:478, 1968.