

## 협부에 전이된 지방육종의 치험례

계명대학교 의과대학 치과학교실  
김우철 · 홍락원\* · 김태훈\* · 문선희\* · 박노부 · 이용오

### METASTASIZED LIPOSARCOMA IN THE CHEEK : A CASE REPORT

Woo-Cheol Kim, D. D. S., Lak-Won Hong, D. D. S\*., Tae-Hoon Kim, D. D. S\*.,  
Seon-Hye Moon D. D. S\*., No-Boo Park, D. D. S., Yong-Oh Lee, D. D. S., M. S. D., Ph. D.  
*Department of Dentistry Oral and Maxillofacial Surgery Keimyung University,  
School of Medicine*

*Liposarcoma is one of the most common malignant mesenchymal neoplasm, comprising approximately 15% of all soft tissue sarcoma.*

*This is a tumor with an incidence peak between age 40 and 60 years, and is slightly more common in men than women.*

*Although all body region may be involved, the most frequent sites are lower extremities and retroperitoneum but rare in the head and neck region.*

*Liposarcoma can be classified to four subtypes ; myxoid, well-differentiated, round-cell, pleomorphic.*

*The myxoid type is the most common and accounts for almost one half of all liposarcoma.*

*Wide surgical excision with or without radiation therapy has been used to manage this lesion.*

*We report a case of 50-year old man with soft tissue swelling on the left cheek, previously diagnosed as myxoid liposarcoma in the left lower extremity.*

*After radiologic and ultrasonic study and surgical excision with biopsy, the lesion of cheek was diagnosed as myxoid liposarcoma with round cell differentiation.*

*Key words : liposarcoma, metastasis*

### · I . 서 론

지방육종은 미분화간엽세포에서 기원된 강한 분화력을 가진 악성의 지방 모세포로 구성되는 악성종양으로서 성인에서 가장 흔하게 병발되는 연조직 육종의 하나이다.

신체의 어느곳에서나 발생할 수 있으나 호

발부위는 하지(lower extremities)와 후복막강(retroperitoneum)이고, 주로 위장관계, 폐 등으로 잘 전이되며 구강 및 악안면영역에서 발병하거나 전이되는 경우는 아주 드문 질환이다.

임상적 증상으로는 종물의 크기와 위치에 따라 다양할 수 있으며 대개 심부 연조직에 무통성의 종창 혹은 덩이(mass)로 시작되어

\* private officer at present

아주 느린속도로 성장하게 되나 매우 거대한 크기로 성장하는 증례도 보고 되었다.

치료는 외과적 절제술과 방사선 치료 혹은 화학요법을 동반하여 시행하는 것이 효과적이라고 알려져 있고, 예후는 구성세포들의 조직학적 특성 및 치료방법에 따라 다양하다.

저자들은 수년전 좌측하지에서 병발하여 좌측협부로 전이된 것으로 생각되어지는 지방육종의 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## II. 증례보고

- 환 자 : 윤○○, 50세 남자
- 초진일 : 1993년 4월 21일
- 주 소 : 좌측 협부의 종창으로 인한 개구

장애 및 안모 변형

• 병력 및 현증 : 1989년 12월경, 좌측하지에 연조직 종창이 발생하여 외과적 절제 및 조직생검 결과 지방육종으로 진단내려진 후, 1991년 좌측 대퇴부에 재발하여 좌측 하지 상단부 절단술을 행하고 같은 해 11월까지 4회에 걸쳐 화학요법을 시행해오다 환자의 개인적인 사정으로 중단되었다. 1993년 4월 20일, 우측 하지에 발생한 종창으로 본원 정형외과로 입원하였고, 1일후 상기 주소로 인하여 본과에 의뢰되었으며 동통이나 이상감각등은 보이지 않았고 조직심부에 단단한 mass를 촉진할 수 있었으며 임파절은 촉진되지 않았다(그림1).

- 이화학적 검사 소견 : 정상 범주내
- 방사선 및 초음파 검사소견 : 방사선 소견상 골조직에의 침범 및 골파괴 양상은 관찰되지 않았고 초음파 검사소견으로 피하 좌측 교근의 전내방에 35×37×17mm 크기의 잘 구획된 저반향(hypoechoic)의 연조직 구역이 관찰되었다(그림2).

• 처치 및 경과 : 1993년 5월 6일 구강삽관을 통한 전신마취하에 통법에 따른 안면부 소독후 좌측 이개 전방에서 하악 하방으로 연장되는 절개를 가하고 피부 및 피하조직을 거상하고 안면신경의 분지들을 노출시킨후 교근의 전내



그림1. 술전 환자의 안모사진.

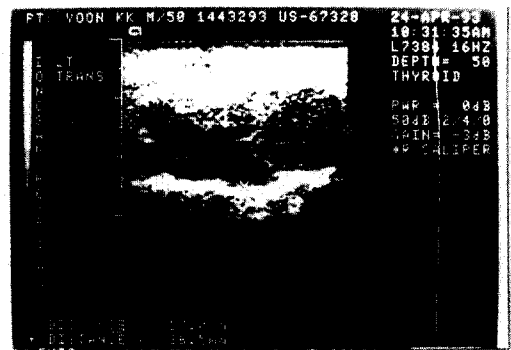


그림2. 초음파 검사소견.



그림3. 수술장면.

방에 경계가 분명한 종물을 확인한 다음(그림 3), 조심스럽게 제거하였다. 종물의 잔존유무

### III. 총괄 및 고찰

지방육종은 1856년 Virchow<sup>1)</sup>에 의해 처음으로 언급되었고 1858년 Senteleben<sup>2)</sup>이 안면부에 발생한 증례를 보고하였다.

지방육종의 발생빈도는 전체 연조직육종의 약 15%를 차지하고<sup>3)</sup> 주된 호발부위는 하지, 후복막강, 상지등의 순이며<sup>4,5)</sup>, 연령분포를 보면 대개 40-60대에 발생하고 평균적으로 50대 초반에 가장 빈발하나<sup>4,6)</sup> 생후 6개월의 유아와<sup>7)</sup> 90세의 노인에서도<sup>8)</sup> 발생한 례가 보고된 바 있으며, 성별로는 여자보다 남자(55%)에게서 약간 더 많이 발생한다<sup>4,9)</sup>.

두경부 영역에서는 전체의 약 5.6%로 아주 드물게 발생하며<sup>10)</sup>, 구강악안면영역에서의 빈발부위는 협부, 구강저등의 순으로 발생하고<sup>11)</sup> 상순<sup>8)</sup>, 치은<sup>12)</sup>, 이하선<sup>13)</sup>에서 발생한 례도 보고되었다.

1910년 Wolgemuth이후 지방종으로부터 이행된 증례들이 보고되었으나<sup>14)</sup> 대부분 일차적으로(*de novo*) 발생한다고 알려지고 있으며<sup>6,7,15,16)</sup>, 병인론으로 외상, 바이러스성 매개체등이 제안되었으나 다른 육종에서와 마찬가지로 명확하게 밝혀진 바는 없다<sup>16,17)</sup>.

지방육종은 조직학적인 소견에 의해 많은 분류가 시도되었으나, 그들의 조직학적인 구조는 매우 다양하고 균일성(*homogeneity*)이 부족하여 Enzinger등은 지방육종의 분류들의 사실성에 의문을 제시하기도 하였다<sup>10)</sup>. 1944년 Stout등은 Well-differentiated myxoid, Poorly differentiated myxoid, Round cell, Mixed 등의 4형태로 분류하였고<sup>4)</sup>, Enterline등은 adult fat cell이 저명한 lipoma-like type을 부가하였으며<sup>6)</sup>, Enzinger등은<sup>5)</sup> 다시 Myxoid type, Well-differentiated type, Round cell type, Pleomorphic type등의 4형태로 분류하고 1975년 Kindblom은<sup>18)</sup> pleomorphic or round cell areas를 보이는 well differentiated liposarcoma와 myxoid liposarcoma의 subtype을 부가하였다.

임상적으로 대개 연조직의 무통성의 종창 혹은 덩이로 시작하여 천천히 그리고 지속적으로 성장하고<sup>18)</sup> 병소의 크기와 발생위치에 따라

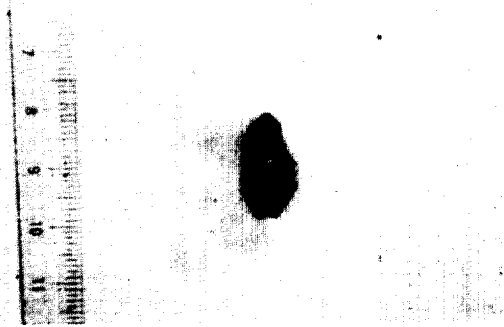


그림4. 적출된 종물의 사진.

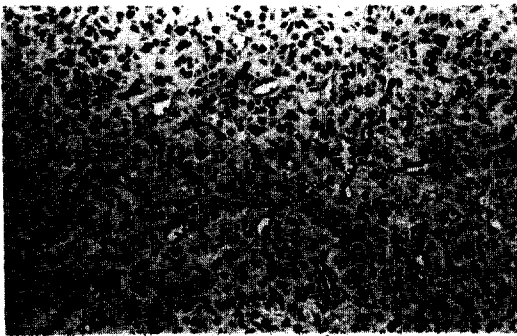


그림5. 종물의 조직학적 소견.

를 확인하고 견인하였던 안면신경의 분지들을 재위치하고 피부봉합술을 시행하였다.

술후에는 통상적인 항생제요법을 시행하였고 수술부위는 감염없이 잘 치유되었으며, 환자는 본원 내과로 의뢰하여 항암요법을 실시하였다.

• 적출물의 육안적 소견 : 적출된 종물은 3.5×2.5×2.0cm 정도의 크기와 약 10gm의 연한 분홍색의 피막형성을 가지는 연조직덩이로 외막은 국소적으로 불규칙하고 고르지 못한 부분이 관찰되며 절단면은 흰색 내지는 밝은 황색을 띠고 율혈된 부분도 보여졌다(그림4).

• 병리조직학적 소견 : 망상구조와 다량의 점액성 물질에 다양한 형태의 종양세포들이 관찰되었고 이 세포들은 간헐적으로 분열상을 보이는 hyperchromatic하고 다형성적인 핵을 지니고 signet-ring형태의 지방모세포들이 관찰되었으며 부분적으로 round-cell type으로 전이되는 양상을 띠고 있었다(그림5).

인접신경압박에 의한 이상감각, 개구, 연하, 발음등의 기능장애와 외모의 변형을 주소로 하는 경우가 많으며<sup>14, 17, 19</sup>, 대부분이 단일병소로 발생하나 다발성으로 발생하는 증례도 보고되고 있으므로<sup>20</sup> 단일병소로부터 전이된 증례들과의 감별을 요한다. Hajdu등은 일반적으로 다발성 병소는 지방육종이 흔히 발생하는 해부학적 부위에서 발생하고, 전이가 일어나는 부위에는 종물이 없어야 하며, 장기간의 추적을 통하여 종물의 산재된 전이성의 파급의 증거가 없어야 한다고 하였다<sup>14</sup>.

종물의 육안적 소견으로는 단단하고 잘 부서지지 않으며 지방종보다 인접조직에 더욱 잘 고정되는 경향을 가지며 대부분이 타원형을 띠며 대개 그들의 장축은 인접근조직과 평행하게 놓여진다. 아주 크게 성장하여 179pounds에 이르는 경우도 보고되었으나<sup>21</sup>, 두경부에서 발생하는 증례들에서는 제거될 당시 대개 상대적으로 적은 크기를 보이는데 이는 다른 부위의 종물보다 조기에 발견 되기 때문인 것으로 여겨진다<sup>3, 22</sup>. 종물의 표면은 비록 잘 구획되어 있다하더라도 피막형성(encapsulation)이 없는 경우가 많으며 일반의 지방조직보다 다소 진한 황색을 띠고 소엽형성(lobulation)이 더 저명하며 더 단단하다. 종물의 단면은 단단하고 윤택이 있으며 부분적으로 회색이나 갈색을 띠는 영역이 존재하고 잘 으개어진다<sup>14</sup>.

조직학적 소견을 보게 되면 myxoid type은 다양한 분화단계의 지방아세포와 미세한 망상 구조들사이에 점액양의 기질을 가지며 구성세포들은 방추형, 별모양 혹은 signet-ring 형태를 띠고 많은 공포(vacuole)를 함유하기도 한다. 이는 가장 혼한 형태이며 지방육종의 거의 절반을 차지하게 된다<sup>5</sup>. Round cell type은 myxoid type과 거의 유사하나 균일하게 등근 형태를 지니는 세포들이 저명하며 세포간 기질과 지방형성의 양이 적다. Well-differentiated type은 잘 성숙된 지방세포로 이루어지며 이는 지방종과의 감별진단을 어렵게 한다. pleomorphic type은 가장 드물게 발병하는 형태로 고도의 세포 다형태성(pleomorphism)을 보이고 많은 기괴한 형태의 거대세포들과 불규칙한

성장양상을 보인다.

Well-differentiated type등 지방을 많이 함유하는 경우는 방사선투과상으로 보여질 수 있으나 대부분은 불투과상으로 보인다<sup>14, 23</sup>. 특히 myxoid type의 경우 잘 발달된 혈관계(vascularity)를 이용하여 혈관조영술을 통해 진단 내릴 수도 있으며<sup>24</sup> Nessi등은<sup>25</sup> 지방육종은 항상 방사선 불투과상을 보이며 투과상으로 보이는 것은 양성종양이라고 하였다.

감별진단하여야할 질환으로서 지방종, 혼합종, 악성 섬유성 황색종, 악성 간엽세포종, 다형성 근육종등이 있으며, 대부분 정확한 조직소견의 관찰을 통해 잘 감별될 수 있다<sup>16, 20</sup>.

지방육종의 치료방법으로는 다양하게 소개되고 있으나 광범위한 외과적 절제술과 술전 혹은 술후 방사선요법을 병행하여 시행하는 것이 가장 예후가 좋은 것으로 보고되고 있다<sup>16, 19, 26, 27, 28</sup>.

Pack과 Pierson은<sup>27</sup> 상기 혼합치료시 5년간의 환자생존율이 87.5%에 이를 수 있다고 하였고, Spittle등은<sup>28</sup> 64% 정도라고 하였고, Evans등은<sup>29</sup> 외과적 수술후 5000-6000rad의 방사선조사를 병행하는 것이 수술요법만 시행하였을 경우보다 재발율이 현저히 줄어든다고 하였다. 재발율은 종물의 크기와 직접적인 관계가 있으며 종물의 크기가 클수록 더욱 공격적인 양상을 보이며 예후가 불량하다<sup>6, 23</sup>. 피막형성이 분명하지 않은 종물의 제거는 재발할 가능성이 많으므로 주위의 정상조직까지의 보다 광범위한 절제가 요구되며 종물의 적출 및 술후 방사선 조사가 여의치 못하다고 판단되는 경우에는 인접 근부(muscle compartment)를 포함시켜 절제하거나, 사지의 절단(amputation)이 바람직하다<sup>23, 27</sup>.

지방육종은 방사선에 민감하며 외과적 절제술과 방사선치료의 병행시 가장 좋은 예후를 가질수 있고 방사선 치료만으로도 좋은 치료 효과를 기대할 수 있으며<sup>30</sup> 조직학적인 분화도가 높을수록 방사선치료에 더욱 민감하다<sup>6, 31, 32</sup>.

지방육종에 대한 화학적 요법의 효과에 대해서는 명백하게 밝혀진 바 없으나<sup>17, 23, 33</sup> 두경부영역에 국한된 악성종양에 효과적으로 사용

되고 있다<sup>34)</sup>.

조직학적으로는 well-differentiated 및 myxoid type이 round-cell 및 pleomorphic type 보다 예후가 좋다고 하였다<sup>5, 6, 23)</sup>(Table1).

지방육종은 원발부위(primary site)에 잘 재발하며(약 78.4%<sup>33)</sup>, 50%<sup>35)</sup>), 혈관을 통한 국소적 및 다른 장기로(distant) 전이가 흔하게 일어나며<sup>35)</sup> 주된 전이부위로는 폐, 위·장관 및 간장이고<sup>6, 14)</sup> 임파절에 파급되는 경우는 극히 드물지만<sup>36)</sup>, 약10%에서 임파절에의 전이된 증례도 보고하였다<sup>6, 37)</sup>.

Table 1. Recurrence and Survival Rate

Type	Recurrence Rate(%)	Five YSR(%)
Well-differentiated	54	85
Myxoid	53	77
Pleomorphic	73	21
Round-cell	85	18

by Enzinger and Winslow

#### IV. 요 약

지방육종은 주로 근간 간엽조직으로부터 발생되어지며, 중년이상의 남성에서 호발하고 주된 발병부위는 하지 및 후복막강이고 구강 주위조직에 이환되는 경우는 극히 드문 악성 종양이며, 본 증례에서는 4년 전 좌측 하지에서 발생되어 우측 하지 및 좌측 협부에 전이된 것으로 생각되어지는 점액양의 지방육종으로 종물의 외과적 절제술 및 화학요법을 시행하였고 장기적인 관찰이 요구된다.

#### 참고문헌

1. Virchow R. : Ein Fall von bosartigen, zum Theil, in der Form des Neuroms auftretenden Fettgeschwulst, *Virchow Arch Patho 1 Anat* 11 : 281-288, 1957.
2. Sentleben H. : Zur Casuistik Seltner Ge-

schwulste : (1) Myxoma Lipomatodes, (2) Cancroides Hodencystoid mit Verschiedenartigen Gewebstypen, *Virchow Arch Patho 1 Anat* 15 : 336, 1858.

3. Saunders J. R., et al : Liposarcomas of Head and Neck-A Review of Literature and Addition of Four Cases, *Cancer* 43 : 162-168, 1979.
4. Stout A. P. : Liposarcoma-The malignant tumor of lipoblast, *Ann Surg* 119 : 86-107, 1944.
5. Enzinger F. M. Winslow D. J. : Liposarcomas-A Study of 103 Cases, *Virchow Arch Pathol Anat* 355 : 367-388, 1962.
6. Enterline H. T., et al : Liposarcoma-a clinical and pathological study of 53cases, *Cancer* 13 : 932-950, 1960.
7. Suzuki H., et al. : Liposarcoma of the Cheek in an Infant, *J Oral Maxillofac Surg* 42 : 180-184, 1984.
8. Sauk J. J. : Liposarcomas of Head and Neck, *J Oral Surg* 29 : 38-40, 1971.
9. Reszel P. A., Soule E. H., Loventry M. D. : Liposarcomas of the Extremities and Limb Girdles-a study of 222 cases, *J of Bone and Joint Surg* 48(A) : 229-244, 1966.
10. Enzinger F. M., Weiss S. W. : Soft Tissue Tumor, St. Louis Mosby 1983 P242-279.
11. Dominguez F. V., et al-Myxoid liposarcoma of the cheek, *J Oral Maxillofac Surg* 48 : 395-397, 1990.
12. Adkins W. Y., et al : Liposarcoma of Maxilla, *Otolaryngology* 86 : 710-713, 1978.
13. Jones J. K., Baker H. W. : Liposarcoma of Parotid Gland-Report of a case, *Arch otolaryngology* 110 : 497-499, 1980.
14. Hajdu S. I. : Pathology of Soft Tissue Tumors, Lea & Febiger USA 1979.
15. Amarjit S., et al : Liposarcoma of Cheek, *J Oral Surg* 36 : 811-813, 1978.

16. Dahl E. C., Hammond H., Sequeira E. : Liposarcomas of head and neck, *J Oral Maxillofac Surg* 40 : 674-677, 1982.
17. Eidiger G., et al : Liposarcoma-Report of a Case and Review of Literature, *J Oral Maxillofac Surg*. 48 : 984-988, 1990.
18. Kindblom L. G., Aagervall L., Jarlstedt J. : Liposarcoma of the Neck-A Clinicopathological Study of 4 Cases, *Cancer* 42 : 774-780, 1978.
19. Baden E., Neuman R. : Liposarcoma of oropharyngeal region-Review of the Literature and Report of two cases, *Oral Surg* 44(6) : 889-902 1977.
20. Alho A., Larsen T. E. : A case of Multifocal Liposarcoma ? , *Acta Ortho Scand* 63 : 98-99, 1992.
21. Delamater : Mammoth tumor, *Cleveland Med Gaz* 1 : 31, 1859.
22. Hudson C. J., Cove P, Adekeye E. O. : Liposarcoma of Head and Neck-Report of a Case and Review of literature, *J Oral Surg* 36 : 380-383, 1978.
23. Reitan J. B., et al : Prognostic Factors in Liposarcoma, *Cancer* 55 : 2482-2490, 1985.
24. Lester J., et al : Angiography in Tumors of the Extremity, *Acta Orthop Scand* 42 : 152-1971.
25. Nessi R., et al : Lipoblastic Tumors of Somatic Soft Tissue- Xeroradiographic Evaluation of 67 Cases. *Skelet Radio* 15 : 137-143, 1980.
26. Charnock D. R., et al : Liposarcomas arising in the cheek-Report of a Case and Review of literature, *J Oral Maxillofac Surg* 49 : 298-300, 1991.
27. Pack G. T., Pierson J. C. : Lipsarcoma-a study of 105 cases, *Surgery* 36 : 687-712, 1954.
28. Spittle M. F., Newton K. A., Meckenzie D. H. : Liposarcoma-a review of 60 case, *Br J of Cancer* 24 : 696-704, 1970.
29. Evans H. L., et al : Liposarcoma-A Study of 55 Cases with Reassessment of its classification, *Am J Surg Patho* 13 : 507-523, 1979.
30. McNeer G. P., et al : Effectiveness of Radiation Therapy in the Management of Sarcoma of the Soft Somatic Tissue, *Cancer* 22 : 391-397, 1968.
31. Friedman N., Egan J. W. : Irradiation of Liposarcoma, *Acta Radiology* 54 : 225-239 : 1960.
32. Edland R. W. : Liposarcoma-A Retrospective Study of 15 Cases-A Review of the Literature and Discussion of Radiosensitivity, *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 103 : 778, 1968.
33. Celik C., et al : Liposarcoma-Prognosis and Management, *J Surg Oncol* 14 : 245-249, 1980.
34. Jussawalla D. J., Shetty P. A. : Experience with Intra-arterial Chemotherapy for Head and Neck Cancer, *J Surg Oncol* 10 : 33-37, 1978.
35. Vezeridis M. P., Moore R., Karakousis C. P. : Metastatic pattern in Soft-Tissue sarcomas, *Arch Surg* 118 : 915-918, 1983.
36. 양성익, 등 : 협부를 침범한 지방육종의 치험례, *대한구강외과학회지* 10 : 47-54, 1984.
37. Brasfield R. D., DasGupta T. K. : Liposarcoma, *Cancer* 20 : 3-12, 1970.