

## 하악골에 발생한 Low grade 골육종 : 증례보고

김호성 · 정종철 · 성대경 · 이계혁 · 최재욱 · 김성범 · 서지훈 · 조현이\*

가천의과대학교 부속 길병원 구강악안면외과, 해부병리과\*

### Abstract

#### LOW GRADE OSTEOSARCOMA ON THE MANDIBLE : A CASE REPORT

Ho-Sung Kim, Jong-Cheol Jeong, Dae-Kyung Sung, Gye-Hyeok Lee, Jae-Uk Choi,  
Sung-Beom Kim, Ji-Hoon Seo, Hyun-Yi Cho\*

*Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Dept. of Pathology\*, Gachon Medical School Gil Medical Center*

Osteosarcoma is a primary malignant tumor arising most often in the long bone, but rare in jaw bone. Especially osteogenic sarcoma of the mandible is a rare tumor, comprising less than 0.5% of all head and neck tumors.

Osteosarcoma occurs chiefly in young persons, and presenting very low survival rates. Histopathologically this tumor can be classified three types, osteoblastic, fibroblastic, chondroblastic and classified from low grade to high grade by anaplasia or mitosis of the tumor cells.

Sometimes, the exact diagnosis of osteosarcoma is difficult especially in low grade osteosarcoma, even if clinical or radiographical findings suggest to osteosarcoma. So suspicious to malignant bone tumor in clinical or radiological findings, biopsy should be taken from deep portion and multiple area, and sharing the patient history and radiographs with pathologist will assist in the development of the diagnosis.

We report a case of low grade osteosarcoma on the mandible initially difficulty in accurate diagnosis. The patient visited our hospital for routine dental treatment but radiographic findings displayed ill-defined radiolucency with osteoid formation on the mandible. Final diagnosis was difficulty in initial biopsy but subsequent biopsy taken from deep portion presented infiltrative growth and mitosis of the tumor cell in some area with small osteoid bone formation, so we could reach final diagnosis as low grade sarcoma. We treated this patient with bloc resection of the mandible and immediate reconstruction with iliac corticocancellous block.

**Key word** : Low grade osteosarcoma, Bloc resection

### I. 서 론

골육종은 골에 발생하는 악성 골종양으로 주로 장골에서 호발하며 악골에서는 상대적으로 드물게 발생한다. 악골에서 발생하는 골육종은 주로 30~40대 사이의 연령에서 발생하며 여성보다는 남성에서 좀 더 호발하는 것으로 보고되고 있다<sup>1-3)</sup>.

임상적으로 무통성의 종창이 가장 흔한 증상이나 그 외에

동통, 지각이상, 치아의 전위나 치근의 흡수 등이 나타날 수 있으며 방사선 소견상 골파괴 또는 골의 침착을 보이는 다양한 형태로 나타난다<sup>2,4,5)</sup>.

조직병리학적으로 흔히 osteoblastic, fibroblastic, chondroblastic의 3가지 type으로 분류될 수 있으며 또한 간질세포의 anaplasia 등에 따라 grade별로 구분되기도 한다. 특히 low grade 골육종은 때로 골에 발생하는 비전형적인 섬유-골성 병소(atypical fibro-osseous lesion)와 조직

학적으로 감별에 어려움이 있을 수 있으며 잘못된 진단에 의하여 환자의 생존율에 영향을 미칠 수 있으므로 주의가 필요하다. 그러므로 임상 및 방사선 검사상 골육종이 의심되는 경우에는 의심되는 병소의 여러 부위에서 조직을 채취하여 정확한 조직검사를 시행하여야 하며 환자의 임상소견과 방사선 소견을 병리의사와 공유함으로써 좀더 정확한 진단이 가능하다<sup>6,7)</sup>. 치료는 주로 외과적인 광범위 절제술이 이용되며 항암요법이나 방사선치료가 혼용될 수 있으나 5년 생존율은 20~40%로 매우 불량한 것으로 알려지고 있다<sup>8-11)</sup>.

저자 등은 통상적인 치과진료를 위하여 내원한 35세 남자 환자에서 방사선 소견상 하악골에 골파괴 및 부분적인 골침착을 보이는 병소를 발견하고 조직검사를 시행하였다.

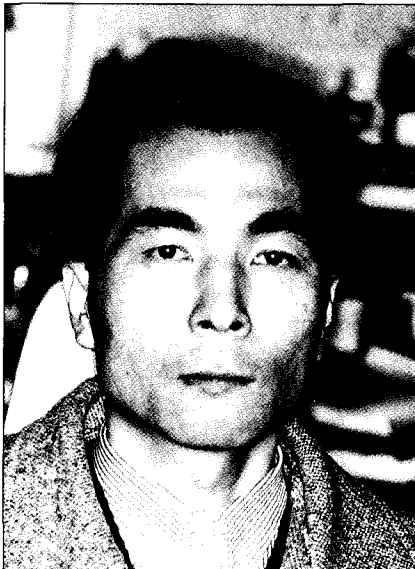


Fig. 1. The patient at the time of initial diagnosis has a nonseptic extra-oral findings

초기 조직검사 소견상 종양성 병변이 의심되었으나 확진이 어려워 병소의 여러 부위에서 다시 시행된 조직검사상 low grade 골육종으로 진단되어 하악골의 절제 및 장골이식을 이용한 즉시 재건술을 시행한 증례에 대하여 보고하는 바이다.

## II. 증례보고

환 자 : 김 ○ ○ (35세, 남자)

초 진 : 1997년 11월 5일

주 소 : 하악 우측 제1대구치의 동통 및 하악 좌측 제1대구치의 잔존 치근의 발거

임상소견 : 구강의 소견으로는 특이소견이 없었으며(Fig. 1) 구강내 소견으로는 하악 좌측 제1, 2소구치의 치아가 소실되어 있었고 하악골 좌측에 치조골이 약간 팽윤된 양상을 보였다(Fig. 2).

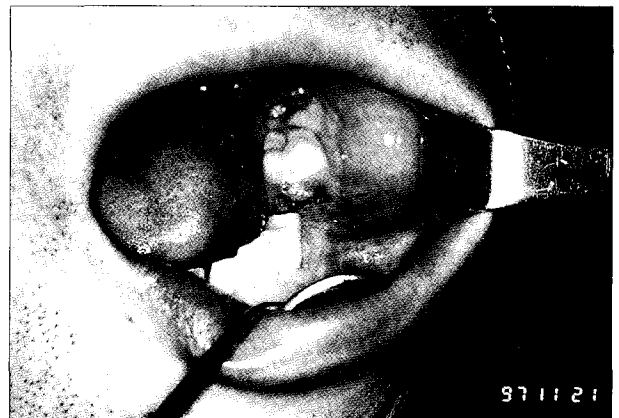


Fig. 2. Intraoral photography at the time of initial diagnosis reveals only slightly swelling of the left mandibular area



Fig. 3. Preoperative panoramic radiogram shows ill-defined radiolucence and multiple bone resorptions on symphysis and left mandibular body area.

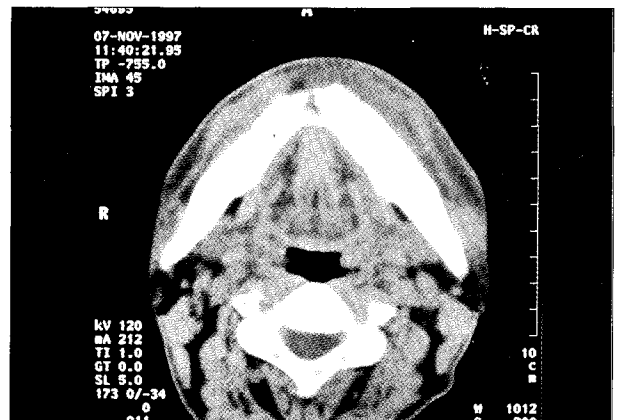


Fig. 4. CT scan demonstrates ill defined radiolucence and bone resorptions in mandibular body and symphysis area.

병력 : 타 병원에서 10년전 하악 우측 제1, 2소구치의 발거 및 소파술을 시행하였으나 이에 대한 자세한 원인 및 상태는 알 수 없었다.

방사선 소견 : Panorama 상에서 하악 좌측 제1소구치에서 하악 우측 중절치 사이에 골파괴 양상과 부분적인 골침착을 보이는 경계가 불명확한 병소를 보였으며 치근이 전위된 소견을 보였다(Fig. 3). 술전 CT 소견상 역시 골흡수 소견을 보이는 경계가 불명확한 병소를 관찰할 수 있었다(Fig. 4).

이화학적 소견 : 특이 사항은 관찰되지 않음

치료 및 경과 : 1997년 11월 5일 초진시 환자에게 하악골에 발생된 병소를 설명하고 방사선 소견상 골 흡수 양상을 보이는 부위에서 부분마취하에서 조직을 채취 하였다. 조직 검사시 피질골의 천공은 관찰되지 않았으며 병소의 골이 흡수된 내부는 육아조직이 관찰되었고 하악골은 골밀도가 많이 저하된 상태로 비교적 쉽게 기구에 의하여 소파되어지는

양상을 보였다. 조직학적 소견상 방추형 세포의 증식이 관찰되었으며 세포학적 비전형성은 미미하였으나 유사분열이 드물게 관찰되어 종양성 병변이 의심되었으며 산재된 odontogenic epithelium이 관찰되어 치원성 종양의 가능성을 생각하게 하였으나 생검된 조직의 양이 적어 정확한 조직학적 진단을 내릴수는 없었다. 또한 cytokeratin, desmin, actin, s-100 protein에 대한 면역조직화학적 염색을 시행하였으나 방추형 종양세포들은 모두 음성반응을 보였으며 확진을 위하여 재생검이 요구되었다. 초기 조직검사 15일 이후에 부분마취하에서 의심되는 여러 부위에서 다시 조직검사를 시행하였다. 재생검된 조직의 현미경 소견상 역시 종양세포의 비전형성은 미미하였으나 침윤성 성장과 유사분열이 관찰되어 저악성 종양으로 생각되었으며 미량의 미성숙 골기질이 관찰되어 low grade 골육종으로 최종 진단되었다.

하악골에서의 병소의 크기를 확인하고 전신적인 상태를

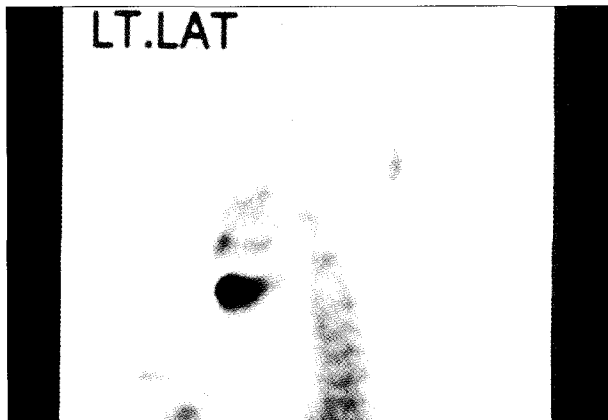


Fig. 5. Bone scintigram reveals hot uptake on the left mandible.

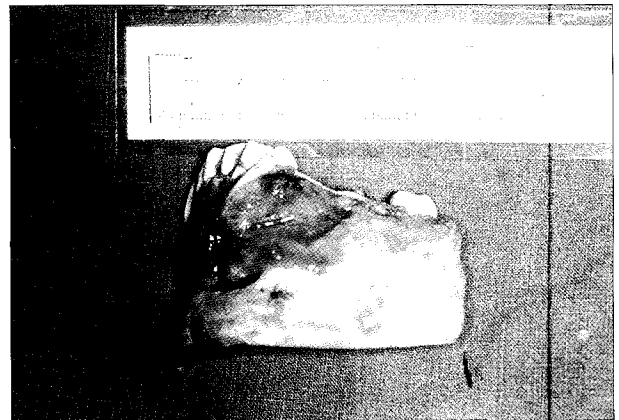


Fig. 6. Resected mandibular bone

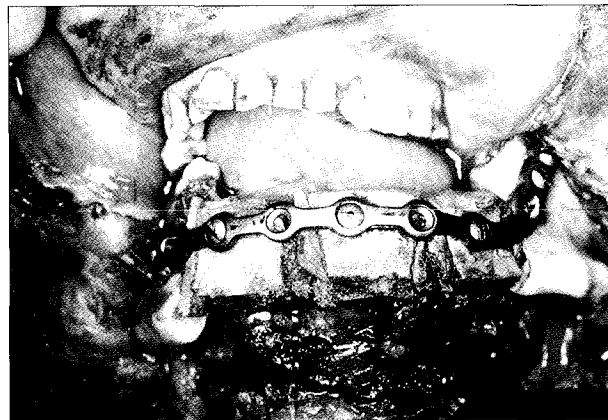


Fig. 7. The mandible was reconstructed with autogenous cortico-cancellous iliac bone and A-O plate fixation.

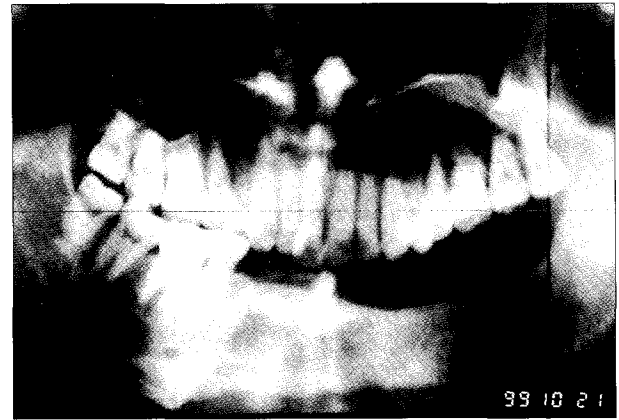
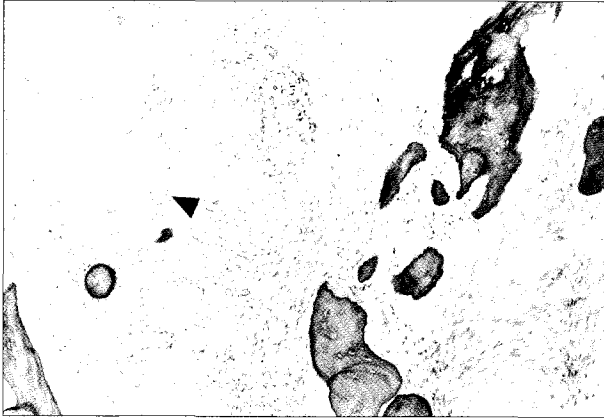
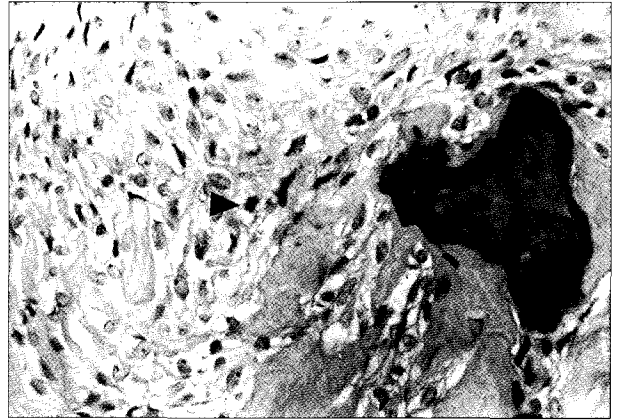


Fig. 8. Postoperative radiography shows well maintained grafted bone



**Fig. 9.** Well formed trabeculae of mineralized bone and more immature osteoid lie within a fibroblastic stroma (H&E, X100)



**Fig. 10.** The fibroblastic cells have minimal cytologic atypia and mitotic figures are rarely seen(H&E, X400).

확인하기 위하여 CT 촬영 및 핵의학을 이용한 Bone Scan을 촬영하였다. Bone Scan상에서는 하악골의 좌측에 두드러진 uptake를 보이고 있었으나 전신적인 전이의 상태는 관찰되지 않았다(Fig. 5).

치료는 환자의 사회적인 활동과 강력한 요구로 종양의 외과적 절제 및 장골을 이용한 하악골의 즉시 재건술을 시행하기로 하였다. 1998년 1월 23일 비기관 삼관에 의한 전신 마취하에 구강내 및 구강외 절개를 통하여 하악골의 외과적인 절제를 시행하였다. 외과적 절제는 방사선 상에서 추정된 병소의 가장자리에서 약 1cm의 안정역을 포함하여 하악골을 절제하였으며 의심되는 주위의 연조직을 동시에 절제하였다. Frozen Biopsy를 시행하여 주위 연조직에서의 종양의 유무를 확인한 후 자가장골을 이용하여 즉시 재건술을 시행하였다(Fig. 6, 7).

술후 특이한 합병증은 보이지 않았으며 항암치료는 환자의 거부로 시행하지 않았다. 약 1년 후 고정판(A-O plate)을 제거하였고 이때 이식골의 잘 융합된 상태를 관찰할수 있었다(Fig. 8). 고정판의 제거시 의심되는 주위의 연조직에서 조직검사를 시행하였으나 조직검사상 별다른 재발소견은 보이지 않았으며 현재 주기적인 예후 관찰중이다.

조직병리학적 소견 : 종양은 주변 골 실질로 침윤성 성장을 보였으며 경한 세포학적 비전형성을 보이는 방추형 세포들의 증식과 함께 미성숙 골 기질 및 비교적 잘 형성된 골소주들이 관찰되었다. 유사분열은 드물게 관찰되었다(Fig. 9, 10).

### III. 총괄 및 고찰

골육종은 골의 미분화 결합조직에서 발생하는 악성 골종양으로 주로 장골에서 호발하여 악골에서는 전체 골육종의 6~7% 정도로 드물게 발생되며 특히 하악골에서는 전체 두경부 종양의 0.5% 이하로 아주 드물게 발생하는 것으로 보

고되고 있다<sup>1-3)</sup>.

악골에서의 골육종은 30~40대에 주로 호발하며 남성에서 약간 더 호발하고 연령이 증가함에 따라 감소하는 경향이 있으나 고 연령에서 발생하는 경우 더욱 예후가 불량한 것으로 알려져 있다. 임상적으로는 무통성의 종창이 가장 흔하며 그 외에 동통이나 지각이상, 압통, 궤양, 치아 동요나 흡수 등이 발생할 수 있는데, 지각이상은 불량한 예후와 관계 있는 것으로 알려지고 있다<sup>2,4-5)</sup>. 이러한 골육종의 병인으로는 아직까지 정확하지는 않으나 이온화 방사선의 노출, 여러 양성 병소, 외상 그리고 호르몬의 영향 등이 생각되고 있다<sup>5,6,12-14)</sup>.

골육종의 조직학적 소견으로는 악성의 미분화 간질조직과 신생 골기질이나 골조직이 관찰되며 간질조직에는 높은 세포밀도, 다형성, 그리고 비전형적인 세포학적 소견을 보인다. 조직학적인 특징에 따라 osteoblastic, chondroblastic, fibroblastic type으로 분류될 수 있으며 기질성분의 상대적 anaplasia 정도 등에 따라 grade별로 분류되기도 한다. 또한 low grade의 골육종은 high grade의 골육종보다 더욱 양호한 예후가 보고되기도 하나 조직학적인 type에 따른 예후는 차이가 없는 것으로 보고 되고 있다<sup>5,15,16)</sup>.

방사선 소견상 골육종은 불명확한 경계를 가지는 osteolytic, sclerotic, mixed pattern을 보일 수 있으며 그 외에 치주인대의 비후나 하악관의 비후 등이 관찰될 수 있다. 또한 CT는 종양의 석회화 정도나 피질골의 천공 여부 그리고 인접 연조직의 침범 등을 진단하는데 유용하며 MRI는 연조직이나 골수강 내로 침범된 종양의 범위를 파악하는데 유리하다<sup>17)</sup>.

골육종과 감별해야 할 질환으로 섬유성 이형성증, 백악질 형성 섬유종, 화골성 섬유종, 치근단 백악질 이형성증, 개화성 골이형성증 등의 섬유-골성(fibro-osseous)병소가 있다. 특히 low-grade 골육종은 conventional osteosarcoma에

서 보이는 cellular pleomorphism이 없기 때문에 양성 병변으로 underdiagnosis되기 쉽다. Ellis 등<sup>18)</sup>은 자신들이 경험한 low grade sarcoma 8례중 3례의 초기진단이 양성 병변이었으나 방사선학적 소견상 8례 모두 악성의 소견을 보였다고 하였다. 그러므로 골육종과 여러 섬유-골성 병소와의 정확한 감별진단을 위하여는 병소의 의심되는 여러 부위에서 조직을 채취하여 조직검사를 시행하여야 하며 임상적 방사선학적 소견 등을 병리의사와 공유함으로써 좀더 정확한 진단이 가능하다<sup>6,8)</sup>. 본 증례 환자 역시 특이한 임상증상 없이 통상적인 치과진료를 위하여 내원하였으며 초진시 환자의 방사선 소견상 우측 하악골에 골괴괴 양상을 보이는 병소가 발견되어 조직검사를 시행하였다. 초진시 병소가 이환된 부위에 감각이상 등이 관찰되지 않았고 구강내의 소견상 악성 질환을 의심할만한 특이한 임상소견을 관찰할 수 없었다. 또한 조직검사시 육안소견상 피질골의 천공은 관찰되지 않았으며 파괴된 골내에 섬유조직이 관찰되어 골내에 발생한 섬유성 또는 골성 양성종양이 의심되었다. 그러나 조직학적으로 방추형 세포의 증식을 보였으며 드물게 유사분열이 관찰되어 종양성 병변이 의심되었지만 생검된 조직의 양이 적어 확진이 어려웠고, 방사선 소견상 악성종양이 의심되어 병소의 심부 여러부위에서 재생검을 시행하였으며 이때 침윤성 성장과 함께 대량의 미성숙 골기질이 관찰되어 Low grade의 골육종으로 진단되었다.

골육종은 아직까지 최적의 치료방법은 없으나 광범위한 외과적인 완전절제가 원칙이며 여기에 부가적으로 항암요법이나 방사선치료가 이용되기도 한다. 특히 술전 항암치료는 종양의 크기를 감소시켜 수술을 용이하게 할 수 있으며 임상적으로나 방사선소견으로 진단되지 않은 전이된 종양의 제거가 가능하다는 장점으로 인하여 선호되기도 한다<sup>8-10)</sup>. 그러나 골육종의 예후는 불량하여 5년 생존율이 23~35% 정도로 낮게 보고되고 있다. 통상 악골에서는 외과적인 수술이 비교적 용이하고 조기에 발견이 쉬운 하악골의 정중부에서 예후가 더욱 양호하고 상악동에서 발생한 골육종의 예후가 가장 좋지 않은 것으로 보고되고 있으며 이는 상악골에서는 골육종의 진행이 빠르고 조기 진단이 어려우며 수술시의 접근이 어렵기 때문으로 생각되고 있다<sup>9,11,19)</sup>. 본 증례는 하악골의 정중부와 좌측 골체부에 발생한 low-grade 골육종으로 외과적인 광범위 절제술을 시행하였으며 술전 항암요법은 환자의 거부와 초기 조직검사시의 협착이나 설측으로의 피질골판의 천공은 보이지 않아 시행하지 않았으며 환자의 사회적인 활동을 고려하여 장골이식을 이용한 즉시 재건술을 시행하였다.

#### IV. 요 약

하악골에서 low grade 골육종은 매우 드물게 보고되고 있

으며 조직검사상 conventional osteosarcoma와는 달리 pleomorphism을 보이지 않기 때문에 양성종양으로 underdiagnosis되기 쉽다. 그러나 정확한 환자의 진단은 적절한 치료와 환자의 예후에 영향을 큰 영향을 미친다. 그러므로 조기에 정확한 진단을 위하여는 의심되는 여러부위에서 조직검사를 시행하고 임상소견과 방사선소견 등을 병리의사와 공유하여야 한다.

이에 저자들은 조기에 진단이 어려웠던 하악골에 발생한 low grade 골육종을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

#### 참 고 문 헌

1. Vege DS, Borges AM, Aggrawal K, et al. : Osteosarcoma of the Craniofacial Bones. *J Craniomaxillofac Surg* 19:90, 1991.
2. Tanzawa H, Uchiyama S, Sato K : Statistical observation of osteosarcoma of the maxillofacial region in Japan: analysis of 114 Japanese cases reported between 1930 and 1989. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 72:444, 1991.
3. 신용길, 방석준, 이창진 등 : 하악골에 발생한 골육종. *대한구강악안면학회지* 25:54, 1999.
4. Forteza G, Colmenero B, Lopez-Barea F : Osteogenic sarcoma of the maxilla and mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 62:179, 1986.
5. Garrington GE, Scofield HH, Cornyn J, Hooker SP : Osteosarcoma of the jaws : Analysis of 56 cases. *Cancer* 20:377, 1967.
6. Koury ME, Regezi JA, Perrott PH, Kaban LB : "Atypical" fibrous lesions : diagnostic challenges and treatment concepts. *Int. J. Oral Maxillofac Surg* 24:162, 1995.
7. Carlson ER : Osteosarcoma of the mandible initially diagnosed as atypical fibro-osseous lesion. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 9:701, 1997.
8. Caron AS, Jander SI, Strong EW : Osteogenic sarcoma of the facial and cranial bones : a review of 43 cases. *Am J Surg* 122:719, 1971.
9. de Fries HO, Van Tassel P, Leibel SA, et al. : Treatment of osteogenic sarcoma of the mandible. *Arch Otolaryngol* 105:358, 1979.
10. Jaffe N : Recent advances in the chemotherapy of metastatic osteogenic sarcoma. *Cancer* 30:1672, 1972.
11. Chambers RG, Mahoney WD : Osteogenic sarcoma of the mandible : current management. *Am. Surg* 30:463, 1970.
12. Delgado R, Maafs E, Alfeiran A, et al. : Osteosarcoma of the jaw. *Head Neck Surg* 16:246, 1994.
13. Arlen M, Hinginbotham NL, Huvos AG, et al. : Radiation-induced sarcoma of bone. *Cancer* 28:1087, 1991.
14. Huvos AG, Woodard HQ, Cahan WG, et al. : Postirradiation osteogenic sarcoma of bone and soft tissue. A clinicopathologic study of 66 patients. *Cancer* 55:1244, 1985.
15. Mark RJ, Sercarz JA, Tran L, Dodd LG, et al. : Osteogenic sarcoma of the head and neck : The UCLA experience. *Arch Otolaryngol Head Neck Strug* 117:761, 1991.
16. Roca AN, Smith JL, Jing BS : Osteosarcoma and parosteal osteogenic sarcoma of the maxilla and mandible : study of 20 cases. *Am J Clin Pathol* 54:625, 1970.
17. Lee YY, Pamela VT, Nauert C : craniofacial osteosarcoma : Plain film, CT, and MRI findings in 46 cases. *Am J Neuro Radiol* 9:379, 1988.

18. Ellis JH, Siegel CL, Martel W, et al. : Radiologic features of well-differentiated osteosarcoma. Am J Roentgenol 151:739, 1988.

19. Clark JL, Unni KK, Dahlin DC, et al. : Osteosarcoma of the jaw. Cancer 51:2311, 1983.

**저자연락처**

우편번호 405-760  
인천광역시 남동구 구월동 1198  
가천의과대학교부속 길병원  
김 호 성

원고 접수일 1999년 10월 20일  
게재 확정일 1999년 11월 15일

**Reprint requests**

**Ho-Sung Kim**  
Dept. of OMFS, Gachon Medical School Gil Medical Center  
#1198, Kuwol-Dong, Namdong-Ku, Inchon, 405-760, KOREA  
Tel. 82-32-460-3114 Fax. 82-32-467-9302

Paper received 20 October 1999  
Paper accepted 15 November 1999