대 한 골 관 절 종 양 학 회 지
J. of Korean Bone & Joint Tumor Soc.
Volume 7, Number 2, June, 2001

13세 환자의 종골에 발생한 연골육종
- 증례 보고 -

서울위생병원 정형외과, 서울위생병원 해부병리과*

홍기도 · 하성식 · 박영근 · 이효진* · 차현종

연골육종이 소아의 종골에 발생한 경우는 매우 드물다. 13세 환자가 수개월간 지속된 우측 종골 부위의 통증으로 내원하여 시행한 방사선 검사상 우측 종골의 골밀도의 증가 및 석회화와 피질골 파괴, 그리고 종골 주위 조직의 석회화 침범 소견이 관찰되었고, 조직검사상 원발성 연골육종으로 진단되어 슬하부 절단술 및 술후 항암요법을 시행하였으며 12개월째 경과 관찰중이며 재발이나 원격전이는 발견되지 않았다.

색인 단어 : 종골, 연골육종

연골육종은 원발성 골 종양으로는 골육종 다음으로 흔한 악성 골종양으로 원발성 골종양 중 17~22% 정도의 발생 빈도를 보이며, 20대 이하에서는 드물고 중년층 이상의 성인에서 호발하며 또한 골반골, 대퇴골 등에 주로 발생하고 수부나 족부에서의 발생은 드물다.

저자들은 13세 남자 환자의 우측 종골에 발생한 연골육종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

13세 남자 환자가 약 3달전부터 발생한 우측 발뒤꿈치 부위의 동통과 종창을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이 소견은 없었고, 이학적 소견상 우측 발뒤꿈치 부위의 전반적인 종창과 촉진상 압통과 딱딱한 종괴 소견 이외에 특징적인 소견은 없었다. 단순 방사선 촬영상, 우측 종골의 피질골의 파괴와 전체 골밀도의 증가 및 석회화와 종골 하방과 상방으로 주위 연부 조직으로의 석회화 침범 소견이 관찰되었으며(Fig 1). 전신 골주사 동위원소 검사상 우측 종골의 동위원소의 흡수가 현저히 증가되는 소견이 보였다(Fig 2). 조직 검사 결과, 저배율(×40)에서 전체적으로 연골성 종양의 양상이었으며, 정상 골소주의 파괴와 함께 종양 조직의 침윤과 주위 연부 조직으로의 침범소견을 보이며, 고배율에서(×100) 세포가 다형의 핵과 다핵 세포의 양상을 보이며, 여러 군데에서 골괴사와 석회화가 관찰되어 Grade II의 원발성 연골육종에 해당되는 소견이 보였다(Fig. 3A, B). 흉부나 기타 다른 부위로의 전이는 없었으며, Ennecking system에 의한 분류상 stage IIB에 해당되었다.

환자는 현재 우측 슬하부 절단술을 시행하였으며, 수술후 항암요법으로 bleomycin과 ifosfamide를 2

※통신저자 : 차 현 종
서울위생병원 정형외과
서울특별시 동대문구 휘경 2동 29-1
Tel : 02) 2210-3486, Fax : 02) 2217-1897, E-mail : shs0828@yahoo.co.kr

Fig. 1. Initial lateral radiography of righr ankle. The lesion showed an increased density and calcification on entire calcaneus and the calcific lesion was seen on peripheral soft tissues.

cycle, cisplatine과 adriamycin 1 cycle로 모두 3 cycle을 시행 하였으며, 12개월째 경과관찰중이나 재발이나 원격 전이는 보이지 않고 있다.

고 찰

연골육종은 주로 성인의 골반골이나 사지의 장골의 골간단부에 발생하며 수부나 족부의 골에서는 드물게 발생한다. 전체 연골육종 중 수부와 족부에서의 발생율은 정확히 발표된 바는 없지만 Akira 등[3]의 Mayo clinic에서의 연구결과, 전체 893례의 연골육종중 2.9%인 22례에서, 그리고 Lee 등[6]에 의한 Massachausetts General Hospital에서의 전체 227례 중 3.5%인 8례에서 수부와 족부에서 발생되었음을 볼 수 있으며, Ferrandez 등과 Gabriella 등[4,5]에 의한 증례 보고 형식으로 보고된 바 있다. 남여의 발생율 차이는 볼 수 없었고 주요 발병연령도 14세에서 95세로 14세 이하의 어린 나이에서는 발생되지 않았다. 또한 이 등[1,2]의 보고에서 1985년, 1995년 전체 45례에서, 발생 부위는 대부분 골반골, 대퇴골 등이며, 수부와 족부에서는 발견되지 않았으며 주요 발병 연령층은 41세에서 50세로 15세 미만에서는 발생하지 않았다. Akira 등[3]에 의하면 수부와 족부에서 연골육종이 흔히 발생되는 장소는 수부에서는 근위지골 특히 4번째 수지에서, 족부에서는 종골에서 가장 많고 거골, 첫번째 중족지골, 제 1족지의 원위지골도 흔히 발생되는 장소이다.

수부와 족부골에 발생하는 연골성 종양중 대부분을 차지하고 있는 양성 종양인 내연골종에서도 다핵세포의 증가와 핵의 확대 경향을 볼 수 있어 이와 저등급의 연골육종의 감별이 중요한데[5-7], 감별점으로는 Mirra 등[7]에 의하면, 내연골종의 경우 보통 증상이 없으면서 전이가 일어나지 않고 발생 부위는 수부의 단관골에서 가장 흔하고 보통 직경 5cm 이하의 작은 연골성 병변으로 피질골의 파괴나 주위 연부 조직으로의 확장 소견 없이 골수강내의 석회화를 동반하며[7-9] 발생 연령도 연골육종은 70대와 80대의 노인에 많고 15세 이하는 드문 반면, 내연골종은 60대이상에서는 보기 드물다[7,8].

연골육종의 병리조직학적 진단은 연골 세포수의 과다한 증가, 이중화 및 다핵화 핵세포의 수, 골기질의 혼합성 변화, 구조물의 침습과 세포의 이형화에 따라 결정되며[3,7], Grade는 종양의 세포수와 세포의 이형화의 정도에 따라 주로 결정된다[3,7,8]. Rex 등8)에 의하면 Grade II의 연골육종은 Grade I에 비해 세포수의 증가와, 세포질의 점액성 및 낭종성 변화 및 연골 소엽의 감소가 심하며, Grade I과 II 연골육종은 서서히 진행되며, 국소 재발과 전이도 늦게 일으켜 Grade III보다 예후가 좋다[3,7-9].

대부분의 족부에 발생한 연골육종에 있어서 치료는 대부분 수술적 치료로써 절제술 및 절단술을 실시하며[2,8,9], 절제술의 경우 Enneking의 절제연에 따르면 병소내 절제연, 변연부 절제연, 광범위 절제연, 근치적 절제연으로 나누어 실시 할수 있으며[9], Gabriella 등[5]에 의하면 족부에 발생한 Grade II의

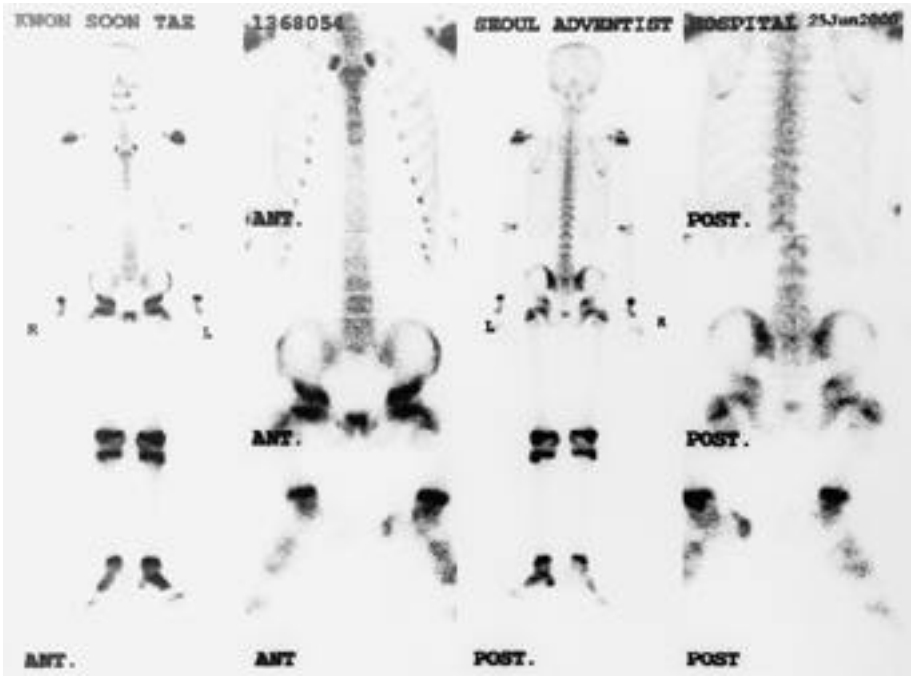

Fig. 2. whole body bone scan. Apparent decreased uptake of isotope on right calcaneus.

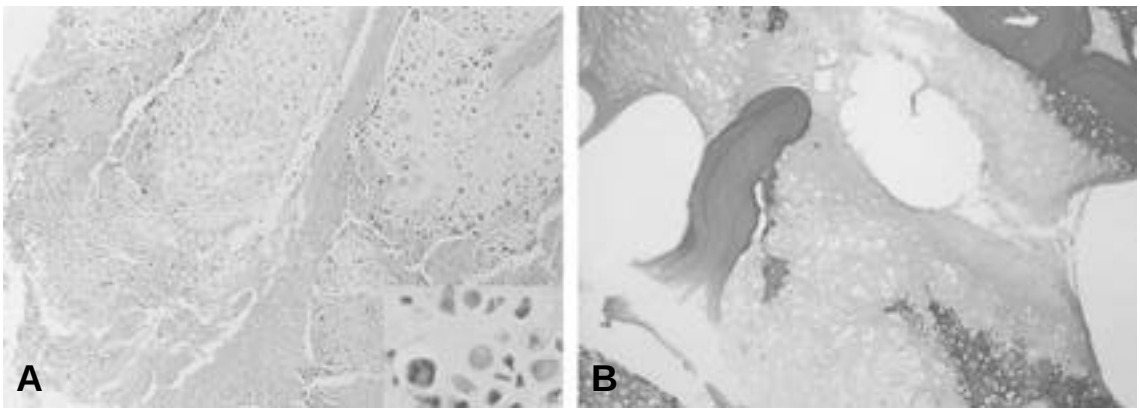

Fig. 3. A. H-E stain(×40). The tumor is chondrosarcoma which is more cellular than grade I chondrosarcoma, showing pleomorphism of nuclei, frequent binucleation or multinucleation(inlet), invading into the surrounding soft tissue. **B.** H-E stain after decalcification(×100). The tumor shows destruction of bony trabeculae.

연골육종에 있어, 근치적 절제술을 시행하는 것이 광범위 절제보다 재발의 위험이 적어 결과가 좋았다고 하며, 이때 안전한 절제연을 위해 종양의 변연과 최소 5mm의 여유를 둘 필요가 있고 종양의 크기와 주위 조직으로의 침투정도에 대한 정확한 정보가 있어야 한다고 하였다[5,6,8]. 그리고 절단술은, Rex[9]에 의하면 근골격계의 종양에서 신경혈관 조직들이 종양과 밀접하게 연관된 경우나 절제연이 부적절하여 재발의 위험이 높을 때, Gabriella 등[5]은 족부의 연골육종에서 진단이 지연되어 주위 연부조직으로 침투한 다소 공격적인 종양의 경우에 실시할수 있다고 하였다. 여러 저자들이 절단술에 비해 절제술을 시행한 경우 재발율이 높음을 보고한 바 있다[1,6,8]. 보조적 화학요법이나 방사선요법은 재발율이나 원격

전이에 영향을 끼치지 않는 것 같지만 이 등[2]에 의하면 변연절제나 병소내 절제등의 불완전 절제나 수술시 미세전이가 있는경우 보조요법으로 사용할수 있다고 하였다[2,8,9]. 본 증례의 경우, 피질골의 파괴와 주위 연부조직을 침범한 Stage IIB의 다소 공격적인 연골육종으로 진단되어 슬하 절단술을 시행하였으며 또한 국소전이나 재발의 가능성을 고려하여 수술후 항암요법을 실시하였으며, 12개월째 추시 중으로 재발이나 원격 전이는 발생하지 않았다.

또한 Akira 등[3]에 의하면 종골과 거골에 일차적으로 발생한 연골육종의 경우, 다른 부위로 전이되는 경향이 있으므로 더 철저한 치료가 필요하다고 하였으며, 연골육종이 다른 부위로 부터 수부나 족부로 전이되어 온 경우는 드물지만, 수부에 주로 발생되며 이때 수지골이나 중수지골에 균등하게 발생되는 경향이 있다고 하였다[6,8]. 여러 저자들에 의하면[4,6,8-10], 전이와 연골육종에 의한 사망률은 여러 인자 즉, 국소 재발이 많을수록, 원발성 종양이 골반내에 발생한 경우, 종양의 크기가 10cm이 넘을수록, 핵의 다형성과 과염색성이 높을수록, 조직학적 Grade III 이상인 경우, 미분화성의 연골육종의 경우 높게 나타났다고 하였다.

REFERENCES

1) **Lee HK, Lee TY, Seok SI, Kim YM, Jung MS, Sung SC, Choi IH** : Chondrosarcoma. *J of Korean Orthop Assoc* 28-5:840-850, 1985.

2) **Lee SH, Park SE, Lee HK** : Chondrosarcoma. *J of Korean Orthop Assoc* 30-2:574-579, 1995.

3) **Akira O, K. Krishnan Unni, Ronald GS, Gregory KM, Charles MR and Franklin HS** : Chondrosarcoma of small bones of the hands and feet. *Cancer* 80-1:50-59, 1997.

4) **Ferrandez L, Ramos L, Usabiaga J, No L, and Fores T** : Low grade chondrosarcoma occuring in unusual sites. *Int Orthop* 16:392-397, 1992.

5) **Gabriella AH, LynneSS, James OJ, Cornelis VK and Harry KG** : Chondrsarcoma of the foot: imaging, surgical and pathological correlation of three new cases. *Skeletal Radiol* 28:153-158, 1999.

6) **Lee FY, Mankin HJ, Fondren G, et al** : Chondrosarcoma of bone: An assessment of outcome. *J Bone Joint Surg Am* 81:326-338, 1999.

7) **Mirra JM, Gold R, Downs J and Eckardt JJ** : A new histologic approach to the differentation of enchondroma and chondrosarcoma of the bone: A clinicopathologic analysis of 51 cases. *Clin Orthop* 201:214-237, 1985.

8) **Rex AWM, Steven G, Gregory TB and John HH** : Cartilage tumors: evaluation and treatment. *J Am Acad of Orthop Surg* 8-5:292-304, 2000.

9) **Robert JZ** : Treatment option for orthopaedic oncologic entities. *Instr Course Lect* 48:591-602, 1999.

10) **Rosenthal DI, Schiller AL, Mankin HJ** : chondrosarcoma: correlation of radiological and histological grade. *Radiology* 150:21-26, 1984.

Abstract

Chondrosarcoma of the Calcaneus in 13 year old Aged Patient – A Case Report –

Ki-Do Hong, M.D., Sung-Sik Ha, M.D., Young-Keun Park, M.D.
Hyo-Jin Lee, M.D.* and Hyun-Jong Cha, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Seoul Advantist Hospital, Seoul, Korea
*Department of Anatomical Pathology, Seoul Advantist Hospital, Seoul, Korea**

Chondosarcoma of the calcaneus in young child is extremely rare. A thirteen-year old male patient has suffered from right heel pain for several months before. Dominant gross feature was hard mass and swelling on one entire right heel, and increased density and calcification on entire calcaneus with cortical destruction, and calcific densities on soft tissues around calcaneus were seen on roentgenogram of right ankle. It was diagnosed to be chondrosarcoma by bone biopsy. It was treated by below knee amputation and chemotherapy, and no recur and distant metastsis during 12 months after operation

Key Words : Calcaneus, Chondrosarcoma

Address reprint requests to
Hyun-Jong Cha, M.D.
Department of Orthopaedic Surgery, Seoul Advantist Hospital,
#29-1 Hwigyong-dong, Dongdaemun-gu, Seoul 130-092, Korea
Tel : 82-2-2210-3486, Fax : 82-2-2217-1897, E-mail : shs0828@yahoo.co.kr