

# 천골에 발생한 척색종의 치료결과

## Oncologic Outcome of Sacral Chordoma

조상현\* · 이수용 · 전대근 · 송원석 · 공창배 · 이정동 · 조원형

원자력병원 정형외과, \*동남권 원자력의학원 정형외과

**목적:** 천골에 발생한 척색종의 치료결과 분석을 통해 생존율 및 종양의 국소조절과 연관된 예후인자에 대하여 알아보하고자 하였다.

**대상 및 방법:** 1990년 1월부터 2010년 2월까지 본원에서 치료받은 19예를 대상으로 하였다. 평균연령은 56세였으며 남자9예, 여자 10예였다. 15명의 환자에서 후방접근법을 이용한 절제술을 시행하였으며 4명의 환자는 방사선 치료만을 시행하였다. 종양의 위치가 S3 보다 근위부를 침범한 경우가 6예였으며 이중 4예에서 방사선 치료만을 시행하였다. 광범위 절제 6예, 변연부 절제 8예, 병소내 절제 1예였다. 평균 추시 기간은 63개월(25-144개월)이었다.

**결과:** 5년 무병 생존율 및 전체 생존율은 각각 34.7%, 79.7%였다. 재발은 9예, 원격전이는 7예에서 발생하였다. 생존율에 관계된 예후 인자는 종양의 제3천추 상방 침범유무( $p=0.033$ ), 종양의 크기( $p=0.032$ )였다. 수술 후 합병증으로 배뇨 및 배변 장애가 발생한 경우가 9예였으며 이중 2예에서는 자가도뇨 시행이 필요하거나 중증의 요실금이 발생하였다.

**결론:** 종양의 절제 가능성 여부와 더불어 전반적인 환자상태와 수술 후 발생 가능한 합병증을 고려한 치료방법의 선택이 생존율과 함께 삶의 질을 높일 수 있는 방법으로 생각된다.

**색인단어:** 천골, 척색종, 예후인자

## 서 론

척색종은 척삭 잔유물(notochordal remnant)에서 기원하는 드문 원발성 악성종양으로 중축골격계(axial skeleton)에 발생한다. 악성 골종양의 약 1-4%를 차지하며 중축골격계에 발생하는 악성 원발성 종양의 약 17.5%를 차지한다.<sup>1-4</sup> 발생 빈도는 천골, 두개저(skull base), 기타 척추 순이며 척추체에 발생한 경우 수술적 절제의 어려움으로 인해 예후가 좋지 않은 것으로 알려져 있다.<sup>5</sup> 호발 연령이 상대적으로 고령이며 종양의 발견 당시 주 증상은 통증, 배뇨 장애 등의 비특이적인 증상이 많고 천골에 발생한 경우 해부학적 구조에 기인하여 종양의 크기가 커져 천추 신경근 자극증상으로 인한 배뇨 배변장애가 발생한 이후에 진단되는 경우 또한 많다.<sup>6</sup>

항암치료나 방사선 치료의 결과는 아직까지 만족할만한 수준이 아니라는 견해가 많으며 현재까지는 광범위한 수술적 절제술만이 유일한 근치적 치료로 생각되고 있다.<sup>7-9</sup> 하지만 술 후 발생

하는 배뇨, 배변 장애 등 여러 가지 합병증으로 인해 삶의 질의 저하가 문제가 된다.

종양의 발생 빈도가 낮아 척색종의 치료결과에 대한 국내보고는 수편의 증례보고만 있는 상황이다. 이에 저자들은 예후인자를 분석하기에는 부족하지만 단일기관에서 치료한 척색종 환자에 대한 치료결과 분석을 통해 질환의 특성과 관련된 예후인자에 대하여 알아보하고자 하였다.

## 대상 및 방법

본 연구는 1990년 1월부터 2010년 2월까지 본원에서 치료를 시행한 총 23명의 환자를 대상으로 후향적 분석을 시행하였다. 이들의 임상 기록, 단순 방사선 사진 및 전산화 단층촬영, 자기공명영상, 병리슬라이드를 조사하였고, 이중 진단 후 치료를 거부한 2명과 추시 기간이 2년 이하인 2명의 환자를 제외한 19명의 환자를 연구 대상으로 하였다.

환자의 특성과 종양의 해부학적 위치, 종양의 크기, 주요 증상, 진단 전 증상기간, 치료방법, 수술적 절제연과 국소 재발, 원격전이, 수술 후 합병증 여부를 조사하였다.

남자가 9예, 여자가 10예였으며, 평균 연령은 56세(28-75세)였다. 증상 발현 후 본원에서 확진을 받기까지의 기간은 평균 24개

접수일 2012년 10월 23일 심사수정일 2012년 11월 16일

게재확정일 2012년 11월 20일

교신저자 조원형

서울시 노원구 공릉동 215-4, 원자력병원 정형외과

TEL 02-970-1243, FAX 02-970-2403

E-mail chowanda@naver.com

대한골관절종양학회지 : 제18권 제2호 2012 Copyrights © 2012 by The Korean Bone and Joint Tumor Society

"This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited."

천골에 발생한 척색종의 치료결과

월(1-120)이었다. 평균 추시 기간은 63개월(25-144개월)이었다. 15명의 환자에서 후방접근법을 이용한 절제술을 시행하였으며 4명의 환자는 방사선 치료만을 시행하였다. 모든 환자에서 절개 생검술을 시행하였으며 조직검사상 척색종으로 병리 진단되었다. 종양의 위치가 제3천추 보다 근위부를 침범한 경우가 6예였으며 이중 4예에서 방사선 치료만을 시행하였다. 수술적 절제술을 시행한 15예 중 6예에서 광범위 절제연, 8예에서 변연부 절제연, 1예에서 병소내 절제연을 얻을 수 있었다.

5년 무병생존율과 전체 생존율은 Kaplan-Meier method를 사용하여 분석하였으며 예후인자와 생존율과의 관계는 Log-rank test를 사용하여 분석하였다.

## 결 과

5년 무병 생존율 및 전체 생존율은 각각 34.7%, 79.7%였으며(Fig. 1), 생존율에 관계된 예후 인자로는 종양의 제3천추 상방 침범유

무( $p=0.033$ ), 종양의 크기가  $200\text{ cm}^3$  이하인 경우( $p=0.032$ )가 통계적으로 유의한 것으로 나타났다(Fig. 2).

재발은 9예에서 수술 후 평균 2.5년(0.6-4.6)에 발생하였는데 이중 6예는 변연절제술을, 2예는 광범위 절제술을, 1예는 병소내 절제술을 시행하였던 환자였다. 수술적 치료를 시행한 15명의 환자 중 6예에서 광범위절제술을 시행하였으며 이중 2예에서 국소재발이 발생하였으며 변연절제술 또는 병소내 절제술을 시행한 9예 중 7예에서 국소재발이 발생하였다. 재발된 환자 중 5명은 재발부위의 재절제술을 시행하였으며 3명은 방사선 치료를 시행하였고 1명은 경과관찰을 시행하였다. 수술을 시행한 5명 중 3명에서 2차 재발이 발견되어 방사선 치료를 추가로 시행하였다. 최종 추시 상 9명 중 5명은 질환으로 인해 사망하였으며 3명은 질환을 가진 상태로 생존, 1명이 무병생존상태로 확인되었다.

7예의 환자에서 수술 후 평균 4.5년(1.4-10.6)에 원격전이가 발생하였으며 7예 중 6예의 환자는 국소재발 후 원격전이가 발생하였다. 7예 중 골 전이가 발생한 4예에서는 수술적 절제술을 시

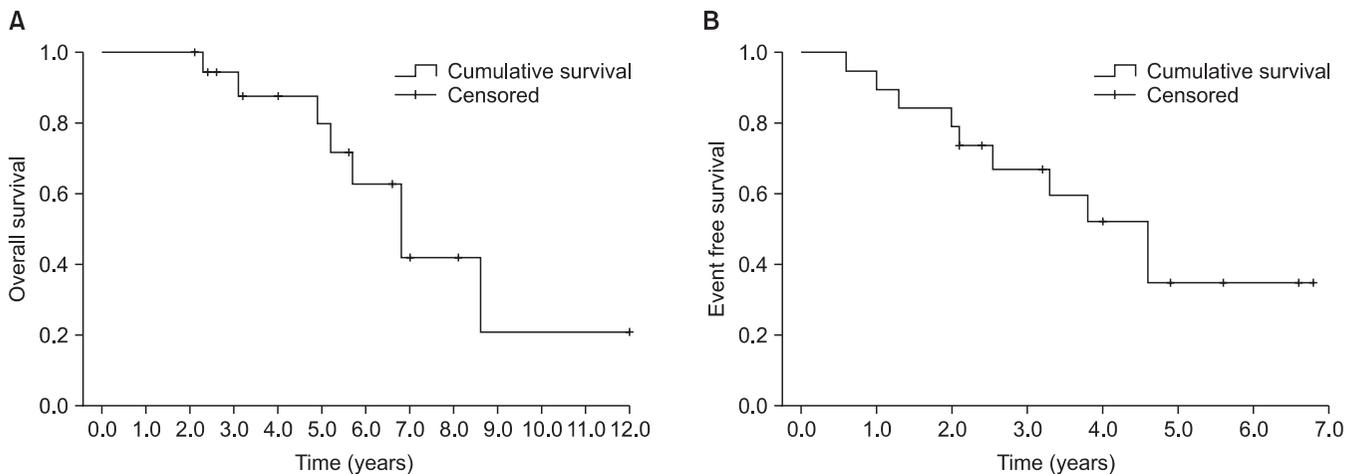


Figure 1. (A) Overall survival of the entire series of 19 chordoma patients. (B) Disease free survival of the entire series of 19 chordoma patients.

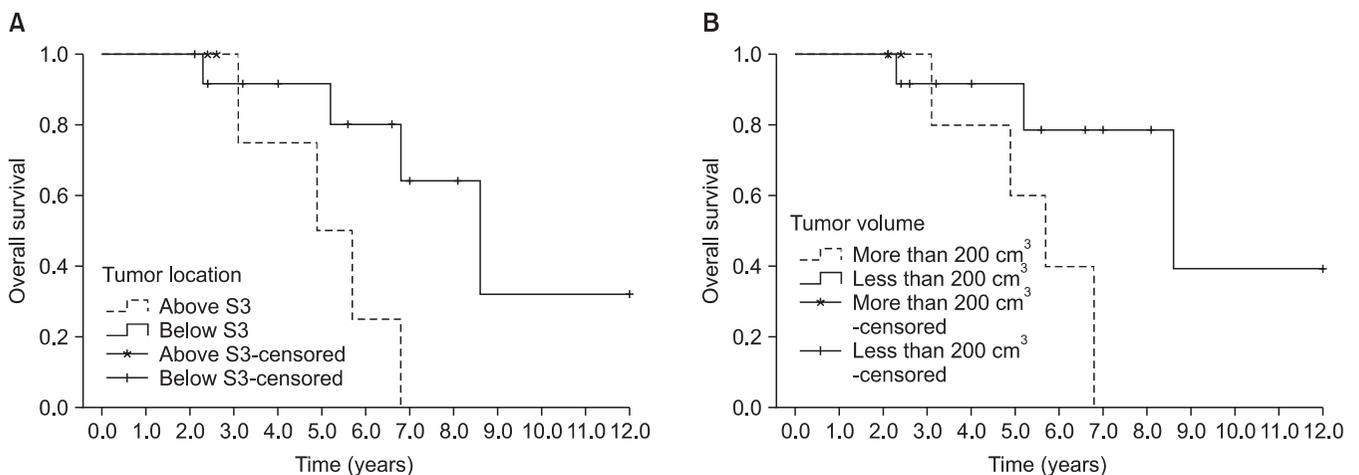


Figure 2. Overall survival by prognostic factors, the differences were significant. (A) Tumor location: below S3 or above S3 ( $p=0.033$ ). (B) Tumor volume: more than  $200\text{ cm}^3$  or less than  $200\text{ cm}^3$  ( $p=0.032$ ).

행하였으며 3명이 질환으로 인해 사망하였으나 1명은 최종추시상 무병생존상태로 확인되었다. 폐전이 발생한 3예에서는 고령으로 인해 경과 관찰만 하였는데 1명이 질환으로 사망하였으며 2명은 최종 추시상 질병을 가진 상태로 생존한 것으로 확인되었다 (Table 1).

제3 천추체보다 근위부를 침범하여 방사선 치료만을 한 4예의 환자는 최종 추시까지 평균 5년을 생존하였다. 이 중 3예는 최종 추시까지 질환의 진행을 보이지 않았으며 1예는 폐전이로 인해 최초 치료 후 6년 3개월에 사망하였다.

수술 후 합병증으로 배뇨 및 배변 장애가 발생한 경우가 총 9예였으며 대부분 경미한 정도의 배뇨곤란 및 변비증상이었으며 신경손상으로 인한 2예에서는 자가도뇨 시행이 필요하거나 중증의 요실금이 발생하였다.

## 고 찰

천골에 발생한 척색종의 근치적 치료를 위해서는 광범위 절제술이 필수적이라 할 수 있으며 수술적 절제연이 국소 재발 및 전이의 발생과 이에 따른 생존율에 영향을 주는 예후 인자로 알려져 있다.<sup>3,10-13</sup> Kaiser 등<sup>14</sup>은 일괄 절제술(en bloc excision)을 시행한 경우와 수술 중 종양의 피막(capsule)이 찢어진 경우에 각각 28%와

64%의 재발율을 보였음을 보고하였고, Fuchs 등<sup>13</sup>은 광범위 절제술을 시행한 경우와 변연절제술 또는 병소내 절제술을 시행한 경우 각각 5%와 71%의 재발율을 보였음을 보고한바 있다. 한편 광범위 절제연을 얻었음에도 불구하고 국소재발이 발생하는 경우는 연구에 따라 5-60%까지 보고되고 있다.<sup>1,8,11-13,15</sup> 본 연구에서도 재발이 발생한 9예 중 7예가 충분한 절제연을 얻지 못한 경우였으며 광범위 절제를 시행한 6예의 환자 중 2예에서 국소 재발이 발생하였다. 천골에 발생한 척색종의 경우 배뇨 및 배변 성기능을 담당하는 천추 신경근을 보존해야 하며 해부학적 특성상 수술 중 출혈의 가능성이 많으며 종양절제 후 결손부위의 복원이 어려워 충분한 절제연을 얻기 어려운 경우가 많다.<sup>12,16,17</sup> 절제연의 확보에만 초점을 둘 경우 주변 신경혈관손상으로 인한 수술 후 합병증을 감수해야 하는 경우가 발생할 수 있다.

고식적 방사선치료(Conventional Radiation Therapy)는 아직까지 수술적 치료와 병행하여 시행하였을 때 생존율을 높일 수 있는 것으로 되어 있으며, 단독치료로서는 한계점이 있는 것으로 알려져 있다.<sup>1,7,8,18,19</sup> 수술적 절제술만을 시행한 경우와 Carbon-ion radiotherapy 만을 시행한 결과를 비교한 연구에서 방사선치료를 시행한 그룹이 더 낮은 국소재발율과 수술 후 합병증 발생을 보였으며 수술적 절제가 불가능한 경우 Carbon-ion radiotherapy가 하나의 치료 대안으로 제시되고 있다.<sup>4</sup>

Table 1. Demographic and Clinoco-pathologic Data

Case	Age	Gender	Involvement of S2 vertebrae	Tumor volume (cc)	Treatment	Surgical margin	Local recurrence (year)	Metastasis (year)	Patient survival
1	61	F	N	301	Surgery	Marginal	4.6	10.6	DOD
2	41	M	N	113	Surgery	Marginal	1.3	1.4	NED
3	75	F	Y	NA	RT				DOD
4	62	F	N	66	Surgery	Marginal	5	4.6	AWD
5	70	F	Y	220	RT				DOD
6	43	M	N	14	Surgery	Wide			CDF
7	61	M	Y	408	RT			3.3	DOD
8	28	F	N	92	Surgery	Wide	0.6		DOD
9	66	F	N	21	Surgery	Wide	3.8	5.2	AWD
10	69	F	N	126	Surgery	Wide			CDF
11	52	M	N	418	Surgery	Marginal			CDF
12	70	M	N	754	Surgery	Wide			CDF
13	56	M	Y	167	RT				PF
14	46	M	N	96	Surgery	Marginal	2		DOD
15	69	F	N	115	Surgery	Marginal	2.1	3.6	DOD
16	40	F	N	103	Surgery	Marginal			CDF
17	71	M	Y	103	Surgery	Intralesional	2.5		AWD
18	62	F	N	155	Surgery	Wide			CDF
19	32	M	Y	272	Surgery	Marginal	1	2.6	DOD

AWD, alive with disease; CDF, continuous disease free; DOD, dead of disease; PF, progression free; NA, not available; RT, radiation therapy.

Table 2. Comparison of Published Results

Authors	Case number	Follow up duration (year)	Local recurrence	Local recurrence with wide margin	Local recurrence with inadequate margin	5-year overall survival rate
Hanna et al <sup>1)</sup>	18	4.4 (0.5-10)	12 (66%)	6/10 (60%)	6/8 (75%)	61%
York et al <sup>9)</sup>	27	3.6 (0.3-34)	18 (66%)	8/15 (53%)	10/12 (83%)	45%
Baratti et al <sup>11)</sup>	28	5.9 (1.2-16.6)	17 (61%)	6/11 (54%)	11/17 (65%)	64%
Hulen et al <sup>12)</sup>	16	5.5 (1.2-14.5)	12 (75%)	9/16 (56%)	7/16 (44%)	63%
Fuchs et al <sup>13)</sup>	52	7.8 (2.1-23)	23 (44%)	1/21 (5%)	22/31 (71%)	64%
Bergh et al <sup>15)</sup>	30	8.1 (0.2-23)	12 (30%)	6/16 (37%)	6/14 (43%)	67%
Yonemoto et al <sup>22)</sup>	13	6.3 (0.5-13.7)	6 (46%)	0/3 (0%)	6/10 (60%)	46%
Current study	19	5.3 (2.1-12)	9 (47%)	2/6 (33%)	7/9 (78%)	79%

생존율에 영향을 주는 예후 인자로는 종양의 크기, 절제연이 알려져 있으며<sup>6,20)</sup> 본 연구에서는 종양의 제3천추 상방 침범유무와 종양의 크기가 예후와 관련이 있는 것으로 나타났다. 수술 후 합병증 중 삶의 질에 가장 큰 영향을 미치는 배뇨 배변장애는 수술 시 제1천추 신경근만을 보존한 경우에는 기능의 회복을 기대하기 어려우며 제2천추 신경근의 양측을 보존한 경우에는 부분적 기능 회복을 약 50%에서 기대할 수 있으며 제3천추신경근의 일측을 보존한 경우에는 대부분에서 배뇨 배변 조절이 가능한 것으로 알려져 있다.<sup>9,16,17,21)</sup> 본 연구에서는 9명의 환자에서 수술 후 배뇨, 배변 장애가 발생하였으며 이중 1예는 자가도뇨가 필요하였으며 1예는 중증의 요실금이 발생하였다. 척색종이 천골의 근위부까지 침범된 경우 고령의 환자가 대부분인 점, 수술적 치료로 인한 신경학적 합병증, 상당한 재발율, 합병증을 줄이는 방사선 치료의 발달 등을 고려할 때 수술적 절제와 방사선 치료 사이에 신중한 접근이 필요하리라 사료된다.

천골에 발생한 척색종의 발생빈도가 매우 낮은 이유로 본 연구의 연구 대상 환자수가 통계적으로 유의한 의미를 부여하기에는 부족하였으나 다른 연구들 역시 같은 이유로 인하여 연구 대상수가 적은 것으로 나타났으며 보고된 연구들의 생존율과 본 연구의 결과를 비교하였을 때 유사한 결과를 얻을 수 있었다(Table 2).<sup>1,8,11-13,15,22)</sup>

## 결 론

척색종의 근치적 치료를 위해서는 광범위 절제술이 필요하지만 종양의 특성과 수술 후 발생할 수 있는 여러 합병증 등을 고려하였을 때 환자의 연령과 전반적인 상태, 수술 후 발생할 수 있는 합병증을 고려한 치료방법의 선택이 생존율과 함께 삶의 질을 높일 수 있는 방법이라 생각된다.

## 참고문헌

1. Hanna SA, Aston WJ, Briggs TW, Cannon SR, Saifuddin A.

Sacral chordoma: can local recurrence after sacrectomy be predicted? *Clin Orthop Relat Res.* 2008;466:2217-23.

- McMaster ML, Goldstein AM, Bromley CM, Ishibe N, Parry DM. Chordoma: incidence and survival patterns in the United States, 1973-1995. *Cancer Causes Control.* 2001;12:1-11.
- Ferraresi V, Nuzzo C, Zoccali C, et al. Chordoma: clinical characteristics, management and prognosis of a case series of 25 patients. *BMC Cancer.* 2010;10:22.
- Nishida Y, Kamada T, Imai R, et al. Clinical outcome of sacral chordoma with carbon ion radiotherapy compared with surgery. *Int J Radiat Oncol Biol Phys.* 2011;79:110-6.
- Mirra JM, Della Rocca C, Nelson SD, Mertens F. Chordoma. In: Fletcher CD, Unni K, Mertens F, ed. *Pathology and genetics of tumours of soft tissue and bone.* Lyon, France: IARC Press; 2002. 316-7.
- Walcott BP, Nahed BV, Mohyeldin A, Coumans JV, Kahle KT, Ferreira MJ. Chordoma: current concepts, management, and future directions. *Lancet Oncol.* 2012;13:e69-76.
- Catton C, O'Sullivan B, Bell R, et al. Chordoma: long-term follow-up after radical photon irradiation. *Radiother Oncol.* 1996;41:67-72.
- York JE, Kaczaraj A, Abi-Said D, et al. Sacral chordoma: 40-year experience at a major cancer center. *Neurosurgery.* 1999;44:74-9.
- Samson IR, Springfield DS, Suit HD, Mankin HJ. Operative treatment of sacrococcygeal chordoma. A review of twenty-one cases. *J Bone Joint Surg Am.* 1993;75:1476-84.
- Wuisman P, Lieshout O, Sugihara S, van Dijk M. Total sacrectomy and reconstruction: oncologic and functional outcome. *Clin Orthop Relat Res.* 2000;(381):192-203.
- Baratti D, Gronchi A, Pennacchioli E, et al. Chordoma: natural history and results in 28 patients treated at a single institution.

- Ann Surg Oncol. 2003;10:291-6.
12. Hulen CA, Temple HT, Fox WP, Sama AA, Green BA, Eismont FJ. Oncologic and functional outcome following sacrectomy for sacral chordoma. *J Bone Joint Surg Am.* 2006;88:1532-9.
  13. Fuchs B, Dickey ID, Yaszemski MJ, Inwards CY, Sim FH. Operative management of sacral chordoma. *J Bone Joint Surg Am.* 2005;87:2211-6.
  14. Kaiser TE, Pritchard DJ, Unni KK. Clinicopathologic study of sacrococcygeal chordoma. *Cancer.* 1984;53:2574-8.
  15. Bergh P, Kindblom LG, Gunterberg B, Remotti F, Ryd W, Meis-Kindblom JM. Prognostic factors in chordoma of the sacrum and mobile spine: a study of 39 patients. *Cancer.* 2000;88:2122-34.
  16. Gunterberg B, Norlén L, Stener B, Sundin T. Neurourologic evaluation after resection of the sacrum. *Invest Urol.* 1975;13:183-8.
  17. Gunterberg B, Kewenter J, Petersén I, Stener B. Anorectal function after major resections of the sacrum with bilateral or unilateral sacrifice of sacral nerves. *Br J Surg.* 1976;63:546-54.
  18. Zabel-du Bois A, Nikoghosyan A, Schwahofer A, et al. Intensity modulated radiotherapy in the management of sacral chordoma in primary versus recurrent disease. *Radiother Oncol.* 2010;97:408-12.
  19. Cheng EY, Ozerdemoglu RA, Transfeldt EE, Thompson RC Jr. Lumbosacral chordoma. Prognostic factors and treatment. *Spine (Phila Pa 1976).* 1999;24:1639-45.
  20. Stacchiotti S, Casali PG, Lo Vullo S, et al. Chordoma of the mobile spine and sacrum: a retrospective analysis of a series of patients surgically treated at two referral centers. *Ann Surg Oncol.* 2010;17:211-9.
  21. Stener B, Gunterberg B. High amputation of the sacrum for extirpation of tumors. Principles and technique. *Spine (Phila Pa 1976).* 1978;3:351-66.
  22. Yonemoto T, Tatezaki S, Takenouchi T, Ishii T, Satoh T, Moriya H. The surgical management of sacrococcygeal chordoma. *Cancer.* 1999;85:878-83.

# Oncologic Outcome of Sacral Chordoma

Sang-Hyun Cho\*, Soo Yong Lee, Dae-Geun Jeon, Won-Seok Song,  
Chang-Bae Kong, Jung-Dong Lee, and Wan-Hyeong Cho

*Department of Orthopedic Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Seoul,*

*\*Department of Orthopedic Surgery, Dongnam Inst. of Radiological & Medial Sciences, Busan, Korea*

**Purpose:** We analyzed treatment result to examine the outcome for patients with sacral chordoma and to determine relevant prognostic factors.

**Materials and Methods:** We retrospectively reviewed 19 patients with sacral chordoma seen at our institution between 1990 and 2010. There were 9 men and 10 women with mean age of 56 years. The average follow up was 63 months (range, 25-144 months). 15 patients received surgical treatment, six of these patients had wide, eight had marginal, one had intralesional margin and 4 patients treated with radiation therapy only.

**Results:** The disease free and overall survival rate for all 19 patients was 34.7% and 79.7% at 5-years, respectively. Statistical analysis using the log-rank test revealed no significant difference between the surgery and radiation therapy groups in overall survival ( $p=0.54$ ). Nine of 19 patients had local recurrence at a median of 2.5 years postoperatively. Seven of these 9 patients had distant metastasis at a median of 4.5 years postoperatively. Among the variables, tumor size ( $p=0.033$ ) and tumor involvement of above S3 ( $p=0.032$ ) were independent prognostic factors for overall survival. Nine of 15 patients who received surgical treatment had postoperative complications such as voiding difficulty and incontinence.

**Conclusion:** Careful consideration of the patient's general condition and predictable complications of the treatment might be the best way to improve patient's survival and quality of life.

**Key words:** sacrum, chordoma, prognostic factor

---

**Received** October 23, 2012 **Revised** November 16, 2012 **Accepted** November 20, 2012

**Correspondence to:** Wan-Hyeong Cho

Department of Orthopedic Surgery, Korea Cancer Center Hospital, 215-4, Gongneung-dong, Nowon-gu, Seoul 139-706, Korea

**TEL:** +82-2-970-1243 **FAX:** +82-2-970-2403 **E-mail:** chowanda@naver.com