

동맥류성 골낭종 1예 보고

김 주 현* · 홍 기 우* · 김 영 태*

= Abstract =

Aneurysmal Bone Cyst of Rib

—A Case Report—

Joo Hyun Kim, M.D., Kie Woo Hong, M.D., Young Tae Kim, M.D.

Here represents a case of aneurysmal bone cyst which is very rare non neoplastic bone tumor especially in rib.

The aneurysmal bone cyst usually arises from long bones of the upper and lower extremities and the spine, which together account for 60 to 70 per cent of cases.

In this case the tumor is found in right ninth rib on routine chest X-ray.

It is resected successfully and the result is excellent.

序 論

동맥류성 골낭종은 척추골이나 사지의 長骨의 骨端中 節에 발생하는 흔하지 않는 질환으로 거세포종(Giant cell tumor)이나 혈관종(Hemangioma) 등과 감별해야 하고 특히 늑골에 발생한 것은 드문 것으로 알려져 있다.

1942년 Jaffe와 Lichtenstein이 처음 기술한 이래 1950年代 많은 학자들이 병인론에 대해 활발한 논의를 했으나 아직까지 확실한 病因은 밝혀지지 않고 있다.^{1,2,4)}

본 국군수도통합병원 흉부외과학교실에서는 44세된 남자 환자에서 우측 제9번 늑골에서 발생한 동맥류성 골낭종을 늑골의 부분절제에 완치된 1예를 經驗하였기에 간단한 문헌고찰과 아울러 보고하는 바이다.

경 례

환 자 : 하 ○○, 44세, 군인

* 국군수도통합병원 흉부외과

* Department of Thoracic Surgery, Capital Army Force General Hospital

환자는 44세된 건강한 체격의 남자 환자로 아무런 자각증상 없이 정기 신체검사시에 촬영한 단순 흉부 X-선에서 종양이 발견되어 국군수도 통합병원 흉부외과에 입원하였다.

입원당시 이학적 검사에서 우측 제 9번 늑골 측부에 호두알 크기의 딱딱한 종괴가 촉지된 이외는 아무런 이상소견이 없었다. 종괴는 동통이나 압통이 없었다. 입원시 노검사, 혈액학적검사, 간기능 검사를 시행하였으나 정상범위였다(Table 1).

X-선 소견(Fig. 1 & 2) : 우측 제 9번 늑골의 측부 하연에 국한된 골흡수된 병변이 방추형으로 나타나 보이고 근처에 경한 골경화가 있으며 골막 외피의 파괴 흔적은 보이지 않았다.

수술소견 : 제 9번 늑골상부에 피부 절개를 하고 종괴를 노출시켰다. 종괴는 주위 늑막과 유착이 없었고 골막에 잘피복되어 있으며 크기는 3×2×2cm였다. 색깔은 주위 정상늑골과 구별되게 연한 암적색을 나타내었다. 정상늑골의 일부를 포함하여 골막과 함께 늑골의 부분절제를 쉽게 시행하였다.

병리소견 : 종괴의 전단시 현애과 같은 적갈색의 액체

Table 1.

Laboratory findings

CBC: WBC 10370

Hb 16.0

Hct 50

ESR 16/21

UA: WNL

LFT: Cholesterol 145

Protein 7.6

Albumin 4.7

Globulin 2.9

TTT 2.1

Bilirubin Direct 0.3

Indirect 0.4

SGOT 21

Al. phosphatase 2.3

가 스며나오고 한개의 큰 낭포를 형성하고 있었다.

현미경 소견으로 한개의 큰 낭포외에도 여러가지 다양한 크기의 작은 낭포가 주위에 산재되어 있음을 볼수 있고 (Fig. 3) 각 낭포는 퇴화된 내막 세포들이 둘러싸고 있었다. 낭포내에는 적혈구들이 들어 있고 골조직이 증격을 이루어 낭포들을 둘러싸고 있으며 (Fig. 4) 많은 황색종 세포, 혈철소 (Hemosiderin) 침착이 많이 있어

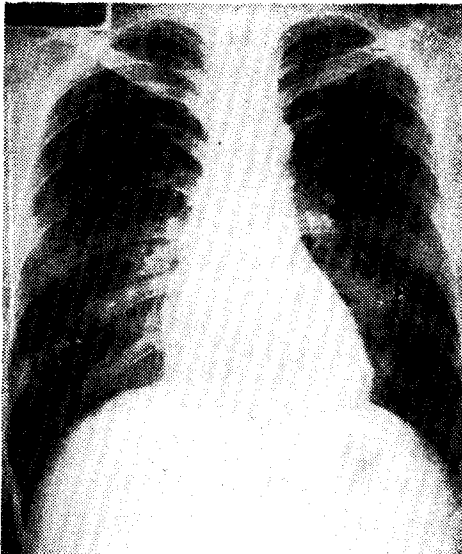


Fig. 1. Preoperative chest PA view; It shows a localized area of rarefaction with some sclerosis in inferior margin of right ninth rib.

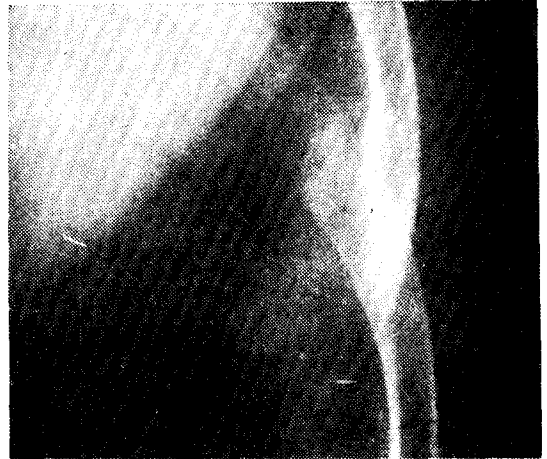


Fig. 2. Close up view of ninth rib area.



Fig. 3. Full size of cut surface; various size of cysts surrounding large main syst are seen.



Fig. 4. It shows the presence of multiple large and small cavities of various sizes, some swollen and filled with blood, H-E stain $\times 40$.



Fig. 5. Around spacs varying numbers of xanthoma cells and hemosiderin pigments. HE stain, $\times 400$

동맥류성 골낭종으로 진단되었나(Fig. 5).
환자는 수술후 양호한 상태로 퇴원하였다.

고 안

동맥류성 골낭종은 1942年 Jaffe와 Lichtenstein이 처음 기술하기 까지는 독립된 질환으로 취급하지 않고 다만 거세포종의 한변형으로 취급하여 명칭도 Ewing (1940)은 동맥류성 거세포종(Aneurysmal giant cell tumor)으로 또 Coley와 Miler (1942)는 Atypical giant cell tumor로 기술 하였으며⁶⁾ Edling (1965)은 한개의 독립된 질환이라기 보다 dysfibroplasia의 한 형태로서 보는것이 옳다고 주장하나⁴⁾ 대부분의 학자는 완전한 별개의 질환으로 구별하는데 동의하고 있다. 또 거세포종은 新生物 종양(Neoplastic tumor) 동맥류성 골낭종은 非新生物 종양(Nonneoplastic tumor)로 엄격히 구별된다.^{5, 7)}

병인론에 대해선 학자들 간에 많은 논란이 있으나 현재까지 확신하지 않은 것으로⁸⁾ Lichtenstein (1957)은 동맥류성 골낭종은 과거에 생긴 국소적인 발육장애가

있던 자리에 골의 혈관 압력이 갑자기 증가되어 정맥이 확장되고 充血되어서 발생한 것이라고 했고⁹⁾ Buraczewski (1971) 등은 동맥류성 골낭종은 별개의 질환이 아니고 다른 질환 특히 섬유성 異狀成腫(Fibrous dysplasia)의 질병과정에서 退行變態의 한종류로 기존하는 골조직의 병적상태에서 발생하는 非新生物 종양으로 결론짓고 있다.⁶⁾ 동맥류성골낭종은 Pascuzzi 등이 보고한 것을 보면 늑골 및 흉골의 원발성 종양종 약 2.5%를 점하고⁸⁾ Dabska 등이 문헌상 모은 193례의 동맥류성골낭종중 약 2%인 4례가 늑골에 발생한 것으로 보고한 것을 보면⁵⁾ 늑골에 발생한 동맥류성골낭종은 대단히 드문질환임을 알수 있다. 국내에서는 김 (1973) 등의 1예 보고가 있다¹⁰⁾. 남녀의 구별은 없는것 같고 전연령층에서 발생이 가능하나 대개는 20세이전에 발생율이 높다^{3, 7)}. 발생부위는 척추 사지의 장골, 쇄골, 늑골, 후두골, 手根骨, 足根骨, 中足骨, 천골, 무명골, 견갑골 그리고 전흉골등에 발생한다^{3, 7)}.

그중 長骨의 骨端中節(Metaphysis)과 척추골에서 약 70%를 차지한다.⁷⁾ 척추골 중에서도 椎弓, 극상돌기, 횡행돌기에서 빈번히 발생하고 體部에서는 빈도가 낮다 가장 흔한 임상증상은 동통, 부종, 운동장애, 압박통을 주로 호소하나 동통의 정도는 심하지 않고 척추골에 생긴 것은 하지마비등 신경증상을 조래할 수도 있다.⁸⁾ 대개 수주간에 걸친 성장기 동안에 빠른 성장을 하고 그후에 성장 속도가 늦춰지면서 저절로 성장이 중지되거나 때로 퇴화할 수도 있다.⁸⁾

병리소견 : 종양의 크기는 물론 발견의 시기에 따라 다르지만 작은 것으로부터 주먹크기등 다양하다. 육안 소견은 용기된 골막을 가진 기구처럼 보이고 골막하에는 얇은 골조직 층이 있고 그속에 여러가지 크기의 동공이 있으며 동공 속에는 혈액이 차있다. 본례에서도 주된 큰 동공이외에 여러개의 작은 동공이 있으면서 혈액으로 차있는 것을 볼수 있었다.

단면을 보면 수많은 해면상의 공간을 볼수 있고 각기 견체조직 중경으로 분할되어 버짐모양을 하기도하고 또는 동공이 적어 스위스 치즈(Swiss cheese)相을 취하기도 한다.

현미경 소견은 個個의 증례마다 조금씩은 차이가 있을 수 있는데 주된 소견은 여러개의 다양한 크기의 동공이 있고 그속에는 혈액 또는 다핵양 물질이 들어 있고⁶⁾ 공동 주위에 공동을 자극하는 견체조직막 또 다핵세포가 있는 것이 특징이다. 이와같이 혈액이 차있는 공동을 가진 해면상의 병변은 다른 질환에선 찾기 힘들다.⁷⁾ 자극하는 견체조직막은 주로 섬유세포와 一連의

“Fiber bone”이 들어있다.

X-선 소견 : X-선 소견도 다양하다. 골세루가 거칠고 병변주위가 특히 심하여 특징적인 Soap bubble 또는 Honey Combed appearance를 나타낸다. 7)

보통 皮質은 한쪽으로 융기되고 皮質이 병소주위엔 없다. 腓骨이나 늑골에서는 대칭형으로 부풀어 방추형을 이루기도 한다. Dabska(1969) 등은 X-선 소견상 4 期로 구분하고 있다. 6)

1) 初期(Initial phase): 골막은 명백히 융기되고 골변연부는 골파괴가 있는 시기로 진단이 어려운 시기이다.

2) 성장기(The phase of growth): 골조직의 지속적인 파괴가 나타나고 경계가 불분명해진다. 骨外皮와 충격이 명확하지 못할때도 있다. 이시기 만으로는 악성종양과구별이 힘들다.

3) 安定期(The phase of stabilization): 동맥류성 골낭종의 전형적인 형태를 취하는 시기이다. 骨外皮가 불분명해지고 骨중격을 가진 팽창되는 종양이다.

4) 치유기(Healing phase) 종양의 각부분이 骨조직화되고 이 종괴는 점차 骨性종괴화 된다.

감별진단은 거세포종, 섬유성이형성종, Unicameral bone cyst, 骨性化하는 혈종, 骨性化하는 근육엽의 일부, 때론 해면상 혈관종 또 드물게 연골종, 연골성 섬유종등과 감별이 필요하다. 6)

치료는 절제가 가능한 부분은 절제를 하고 절제가 불가능한 곳은 철저한 소파술로 좋은 결과를 보나 때론 방사선 치료가 좋은 효과를 가져오기도 한다. 방사선 치료시엔 악성화의 위험이 있으므로 2000-2500r 이상의 조사는 피해야 된다. 6) 척추골의 종양은 발견되는대로 빨리 소파술을 하고 방사선 치료를 하는것이 좋다.

결 론

본 국군수도통합병원 흉부외과학교실에서 아무런 임상증세 없으 정기 신체검사서에서 발견된 늑골에 발생한 동맥류성 골낭종 1례를 치험하였기에 보고하는 바이다.

(본 증례 보고에서 지도해 주신 국군수도통합병원 흉부외과 전문관인 서울대학병원 흉부외과 이영관 서경필 두 교수님께 감사 드립니다)

REFERENCES

1. Ackerman, Rosai. : *Surgical pathology, 5th ed. St. Louis, Mosby Co., 1974, pp. 1072-pp. 1074.*
2. Lichtensten, L. : *Aneurysmal bone cyst. Obser-*

- vation on Bone Joint Surg. 39:873-882, 1957.*
3. Tillman, B. P., Dahlin, D. C., Lipscomb, P. R., Stewart, J. R. : *Aneurysmal bone cyst: An analysis of ninety fivecases. Mayo clin proc 43: 478-495, 19/68.*
4. Edling, N. P. G. : *Is aneurysmal bone cyst a true entity? Cancer 18:1127-1130, 1965.*
5. Dobska, M., and Buraczewski, J. : *Aneurysmal bone cyst: pathology, clinical course and radiologic appearances. Cancer 23:371-389, 1969.*
6. Buraczewski, J., Dabska, M. : *Pathogenesis of aneurysmal bone cyst: Relationship between the aneurysmal bonecyst and fibrous dysplasia of bone. Cancer 28:597-604, 1971.*
7. Dahlin, D. C., Besse, B. E., Pugh, P. G., and Ghomley, R. K. : *Aneurysmal bone cysts. Radiology 64:56-65, 1955.*
8. Pascuzzi, C. A., Dahlin, D. C., and Clagett, O. T. : *Primary tumors of the ribs and sternum. Surg. Gynec. Obstet. 104:390, 1957.*
9. Donaldson, W. : *Aneurysmal bone cyst. J. Bone Joint Surg. 44:25-29, 1962.*
10. Jaffe, H. L. and Lichtenstein, L. : *Solitary unicameral bone cyst with emphasis on-the roentgen picture, the pathologic appearance and pathogenesis. Surg. 44:1004-1025, 1942.*
11. Jaffe, H. L. : *Aneurysmal bone cyst. Tumors and tumorous conditions of bones and joints. Philadelphia, Lea & Febriger, 1965.*
12. Lichtenstein, L. : *Aneurysmal bone cyst. A pathological entity commonly mistaken for giant cell tumor and occasionally for hemangioma and ostogenic sarcoma. Carcer 3:279-289, 1952.*
13. Jaffe, H. L. : *Discussion on Donaldson's paper. J. Bone Joint Surg. 44:1, 1962.*
14. Lindborn, A., Scderberg, G., Spjut, J., and Sunnquist C. : *Angioraphy of aneurysmal bone cyst. Acta Radiol. 55:12-17, 1861.*
15. Phelan, J. T. : *Aneurysmal bone cyjt. Surg. Gynec. Obstet. 119979 983, 1964.*
16. Blades, B., Paul, J. S. : *Chest wall tumors. Ann. Surg. 131:976, 1950.*
17. Hephblom, C. A. : *Tumors of the bony chest wall. Ann. Surg. 98:528, 1933.*
18. Donorner, R., Marcy, D. : *Primary rib tumors. J. Thorac. Surg. 17:690, 1948.*
19. 김명우, 조범규, 홍승목, 이광길, 최인준 : 늑골에 발생한 동맥류성 골낭종 --1례치례-- . 대한흉부외과학회지 6:175, 1973