

하악과두에서 발생한 악성 골육종 환자에서 외과적 절제 후 유리장골이식을 이용한 재건

박홍주¹ · 유민기¹ · 국민석¹ · 오희균^{1,2}

¹전남대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실, 치의학연구소,

²전남대학교 치의학전문대학원 2단계 BK21

Abstract

RECONSTRUCTION WITH A VASCULARIZED FREE ILIAC OSTEOMUSCULAR FLAP AFTER HEMIMANDIBULECTOMY FOR OSTEOSARCOMA OF THE MANDIBULAR CONDYLE REGION : A CASE REPORT

Hong-Ju Park¹, Min-Gi Yu¹, Min-Suk Kook¹, Hee-Kyun Oh^{1,2}

¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Dental Science Research Institute,
School of Dentistry, Chonnam National University²2nd stage of Brain Korea 21

Osteosarcoma of the jaw is a rare malignant bone tumor which usually leads to a poor prognosis. It commonly occurs in young patients, especially in male. The tumor can involve mandible or maxilla with same frequency. The swelling in the involved area and facial deformity are common clinical findings. The pain and sensory changes are also complained by the patients. Although radical surgery plays an important role in the management of this tumor, the adjuvant chemotherapy or radiotherapy is used to enhance local control and to prevent distant metastases.

We treated a 22-year-old male patient who had osteosarcoma in the left condylar region. The radical surgery which consisted of hemimandibulectomy and total parotidectomy, was done and an immediate mandibular reconstruction was performed with a vascularized free iliac osteomuscular flap. The obtained results, both esthetic and functional, were satisfactory. The patient was received postoperative chemotherapy. This is a case with reviews of the literatures.

Key words: Osteosarcoma, Iliac osteomuscular flap

I. 서 론

골육종(osteosarcoma)은 골조직에서 기원하는 악성종양으로 악성의 골양조직, 골, 또는 연골 등을 형성하는 악성기질로 구성된 가장 흔한 골 종양이다. 골육종은 주로 장골에서 호발하며 흔히 발병하는 연령은 10대이다. 악골에 발생하는 골육종은 전체 골육종의 5%를 차지한다¹⁾. 장골에서 발생하는 골육종에 비해 발생연령이 높아 30대에 호발하며 상악과 하악에 거의 동일한 빈도로 발생한다²⁾. 조직학적으로도 골양조직의 형성은 매우 적으며 연골성 분화를 많이 하고 세포학적 악성도도 낮다. 또한 장골 골육종보다 분화

가 잘되어 있고 전이를 잘 하지 않아 예후도 더 좋다¹⁾. 그리고 여성보다는 남성에서 좀 더 호발하는 것으로 보고되고 있다. 임상적으로 무통성의 종창이 가장 흔한 증상이나 그 외에 동통, 지각이상, 치아의 전위나 치근의 흡수 등이 나타날 수 있으며 방사선 소견상 골괴괴 또는 골의 침착을 보이는 다양한 형태로 나타난다^{3,4)}.

골육종은 주로 골내에서 발생되지만 골의 표면 그리고 골외에서도 발생되며 발생부위에 따라 방사선학적, 병리학적으로 조직조건도 상이하게 나타난다. 조직병리학적으로 흔히 osteoblastic, fibroblastic, chondroblastic의 3가지 type으로 분류될 수 있으며 또한 간질세포의 anaplasia 등에 따

라 grade별로 구분되기도 한다²⁾. 특히 low grade 골육종은 때로 골에 발생하는 비전형적인 섬유-골성 병소(atypical fibro-osseous lesion)와 조직학적으로 감별에 어려움이 있을 수 있으며 잘못된 진단에 의하여 환자의 생존율에 영향을 미칠 수 있으므로 주의를 요한다. 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 가능하도록 하여야 한다⁶⁻⁷⁾. 치료는 주로 외과적인 광범위 절제술이 이용되며 항암요법이나 방사선치료가 혼용될 수 있으나 5년 생존율은 20~40%로 매우 불량한 것으로 알려지고 있다⁸⁾.

본과에서는 통상적인 치과진료를 위하여 내원한 21세 남자 환자에서 방사선 소견상 하악과두에 골파괴 및 부분적인 골침착을 보이는 병소를 발견하고 조직검사를 시행하였다. 미세침흡입검사(FNA)상 고분화된 악성상피종(malignant epithelial tumor, high grade)으로 진단되어 조직검사 소견상 종양성 병변이 의심되었으나 확진이 어려워 병소의 여러 부위에서 다시 시행된 조직검사상 low grade 골육종으로 진단되었다. 이에 우리는 하악골의 절제 및 유리장골이식을 이용한 즉시 재건술을 시행하여 양호한 결과를 얻었기에 본 증례에 대하여 보고하는 바이다.

II. 증례

환자는 21세 남자로 1개월 전부터의 좌측 전이개부위의 불편감 및 개구장애를 보이다가 1주일 전부터는 종창 및 동통이 발생하여 전남대학교병원 구강악안면외과에 내원하였다.

구강 검사에서 좌측 전이개부위에 6×6 cm 크기의 고정성 종물이 촉진되었고, 종창과 동통이 심하였다. 좌측이하선 개구부의 타액배출은 정상이었으며 좌측 전이개부위의 통증이 있는 후부터 교합은 좋지 못하였다. 촉진시 점막의 궤양, 농 배출은 없었고, 좌측 안면신경이상 소견은 보이지 않았다.

파노라마 촬영사진에서 좌측 과두경부에 피질골의 불규칙한 골파괴 양상이 관찰되었다(Fig. 1). 골수염 또는 골육종으로 추정하고 정확한 검진을 위하여 좌측 과두부위에 대하여 미세침흡입검사를 시행하였다. 조직학적으로 분화가 좋은 다형성을 보이는 간엽세포들이 불규칙하게 배열되어 있었다. 종양내부의 괴사 소견은 관찰되지 않았으며 비정상적인 세포분열이 다수 관찰되었다. 그 결과 고분화된 악성 상피성 종양으로 진단되었다. 이후 시행한 전신 골주사 사진, 흉부 전산화 단층촬영 사진에서 다른 장기로의 원격전이는 관찰되지 않았다(Fig. 2, 3).



Fig. 1. Scanora panorama view and reverse Towne's view ; The neck of left mandibular condyle showed some granular image with indistinct cortical outline, which suggested irregular cortical bone resorption. The radiating bony spicule and resorption of the outer cortical resorption were noted.

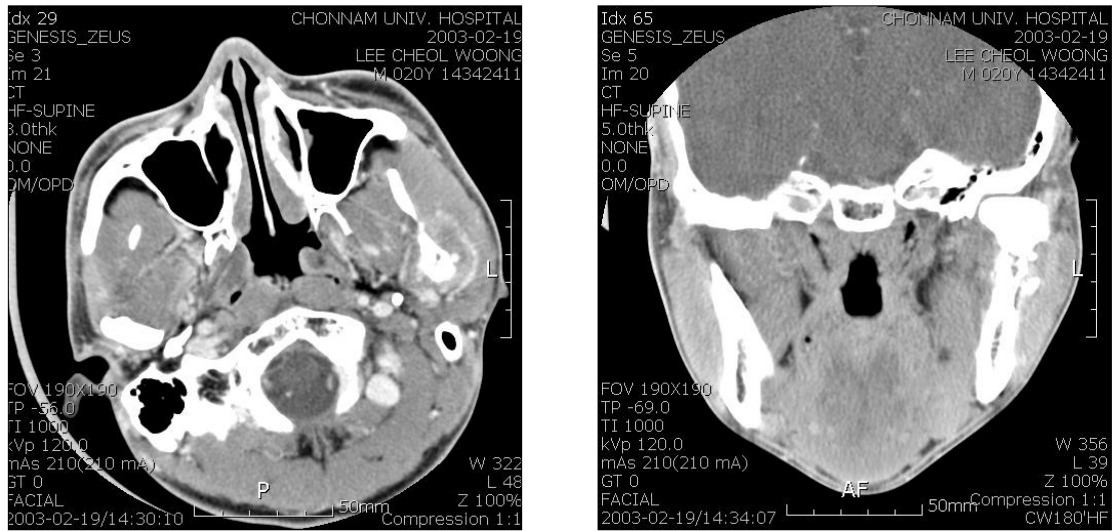


Fig. 2. Facial CT findings ; Bony destructive change on the head and the neck of the left mandibular condyle, peripheral enhancing mass lesion (diameter : about 3 cm) and no enlarged both cervical lymphadenopathy was noted. Our diagnosis was 'Osteomyelitis' with abscess formation or malignant tumor with bone destruction.

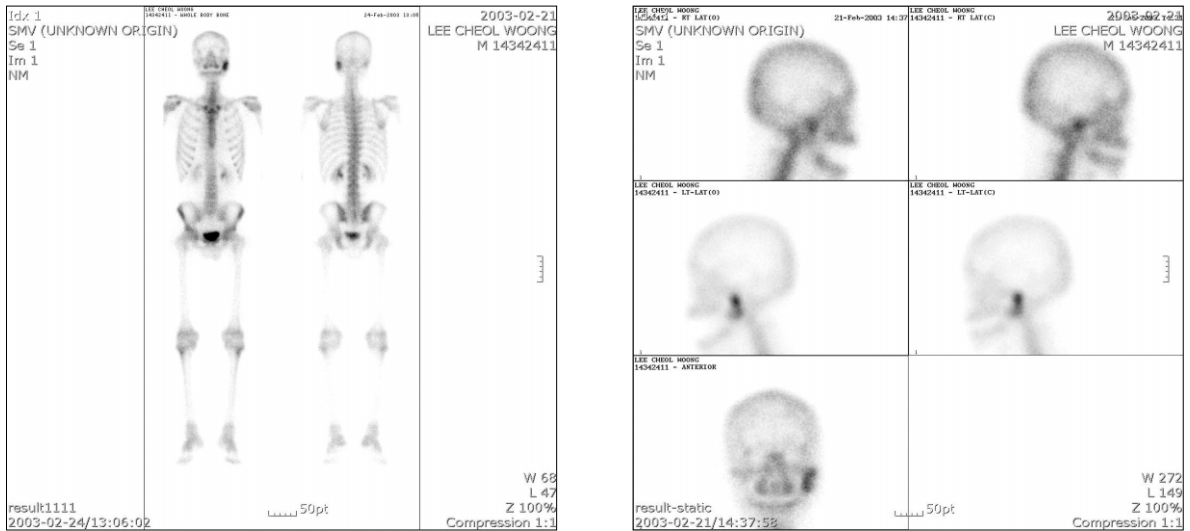


Fig. 3. Bone scan showed intense uptake on left mandibular condyle, and No abnormal area on other skeletal system. We diagnosed: A. No bony distant metastasis, B. Bony tumor in the left mandible.

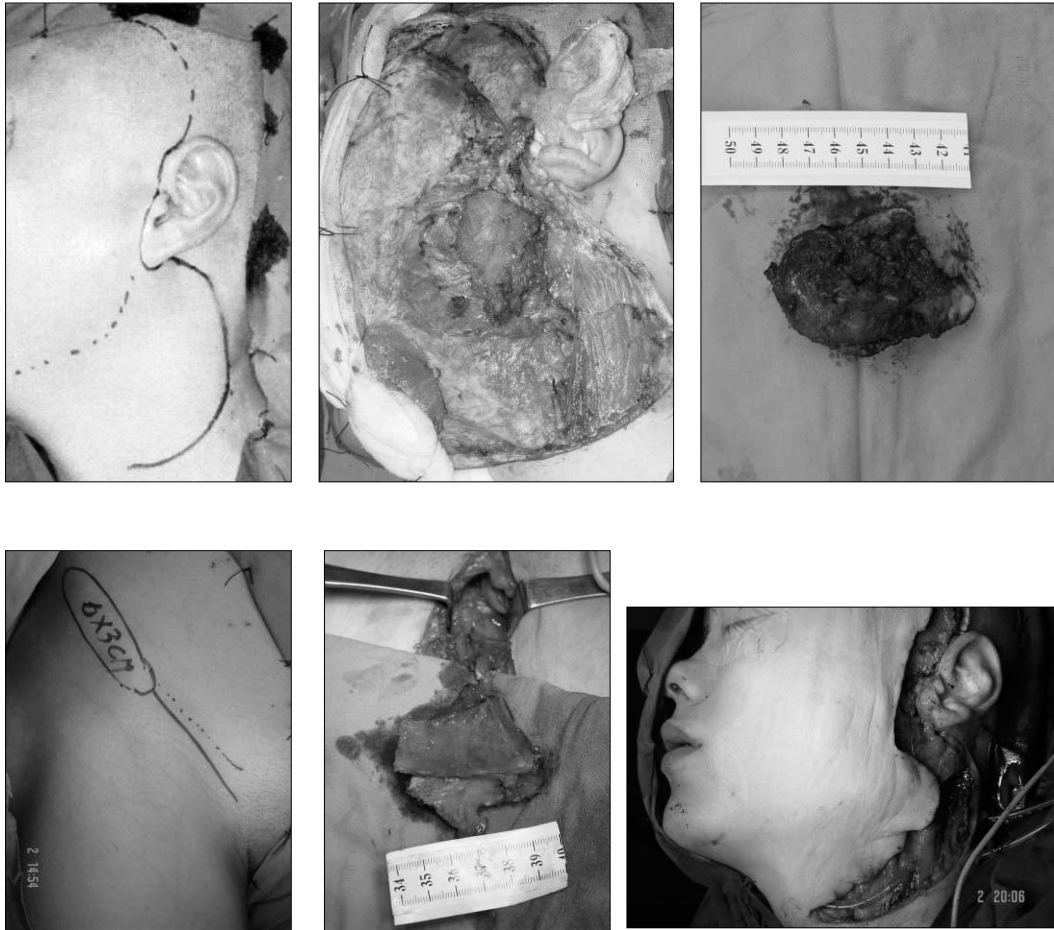


Fig. 4. Intraoperative photographs: Radical resection with total parotidectomy, hemimandibulectomy, left supraomohyoid neck dissection and reconstruction with free iliac osseomuscular flap graft was performed.

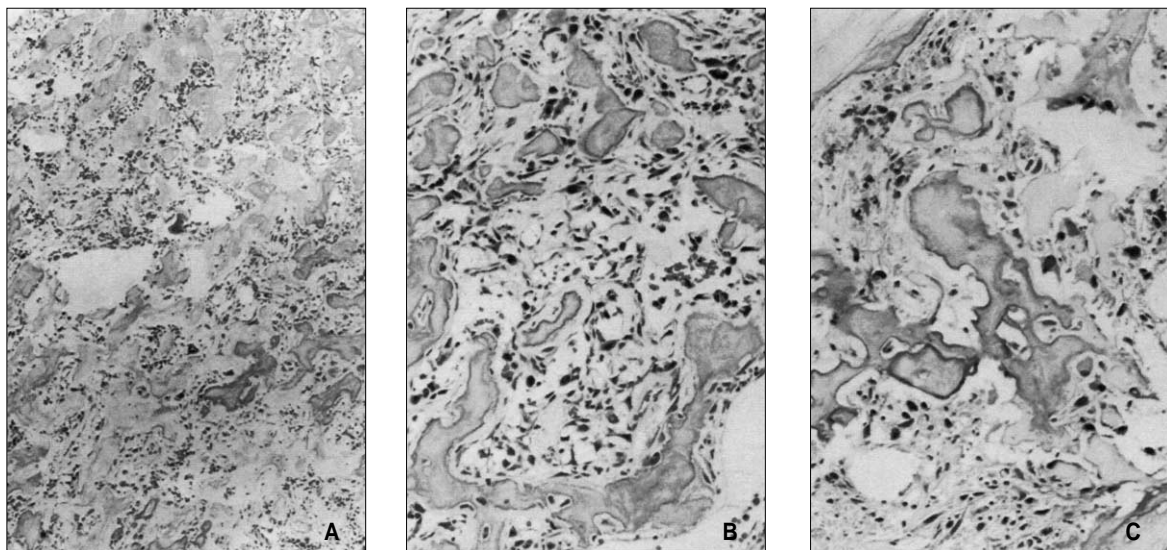


Fig. 5. Histopathologic findings: A. Trabeculae of osteoid and bone are being produced by the malignant cell. B and C. Higher magnification shows cellular details.

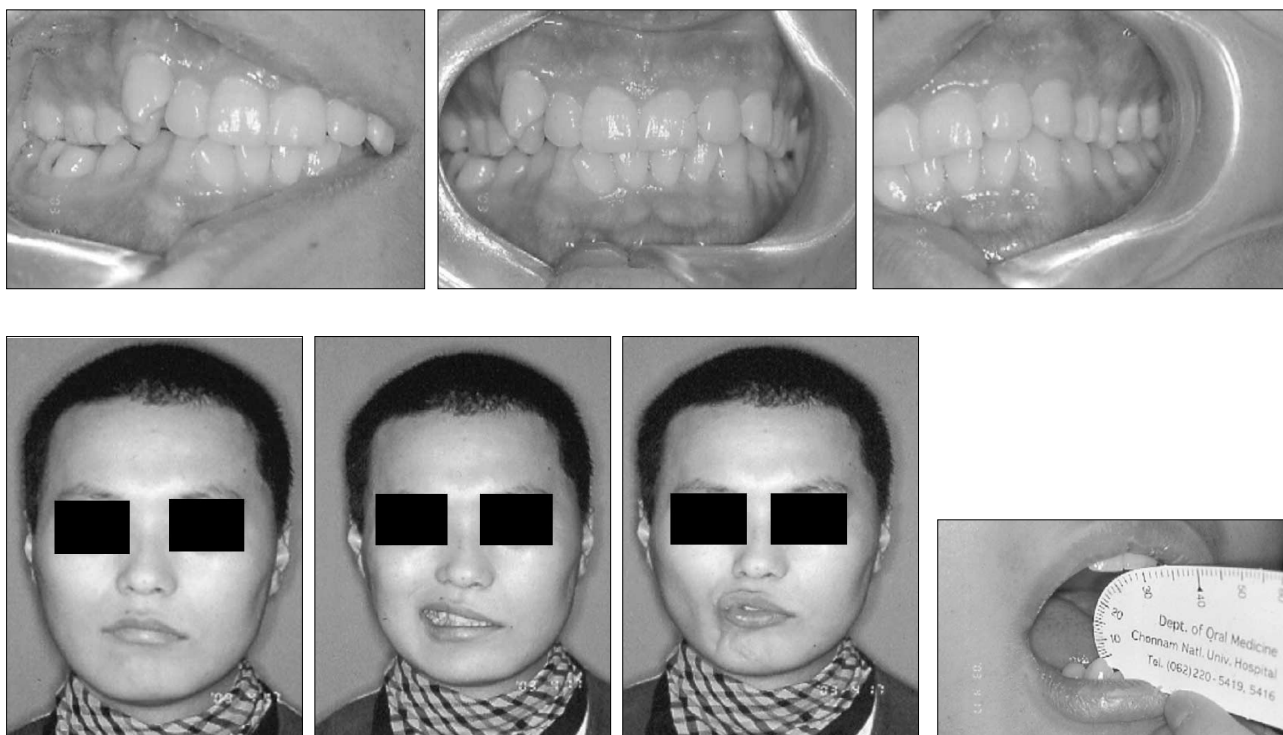


Fig. 6. Postoperative clinical photographs after 1 month.



Fig. 7. Postoperative radiographic findings: Well healed state and reconstruction of left condyle area maintaining vertical dimension. A. S-panorama, B. Reverse Towne's view.

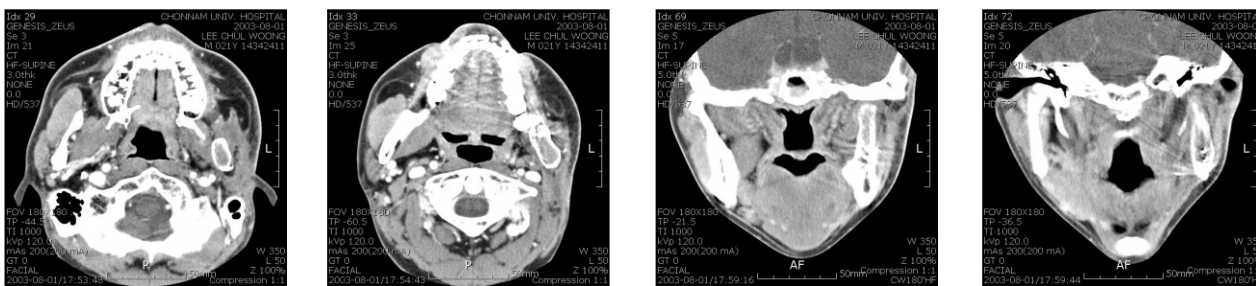


Fig. 8. Postoperative facial CT findings.

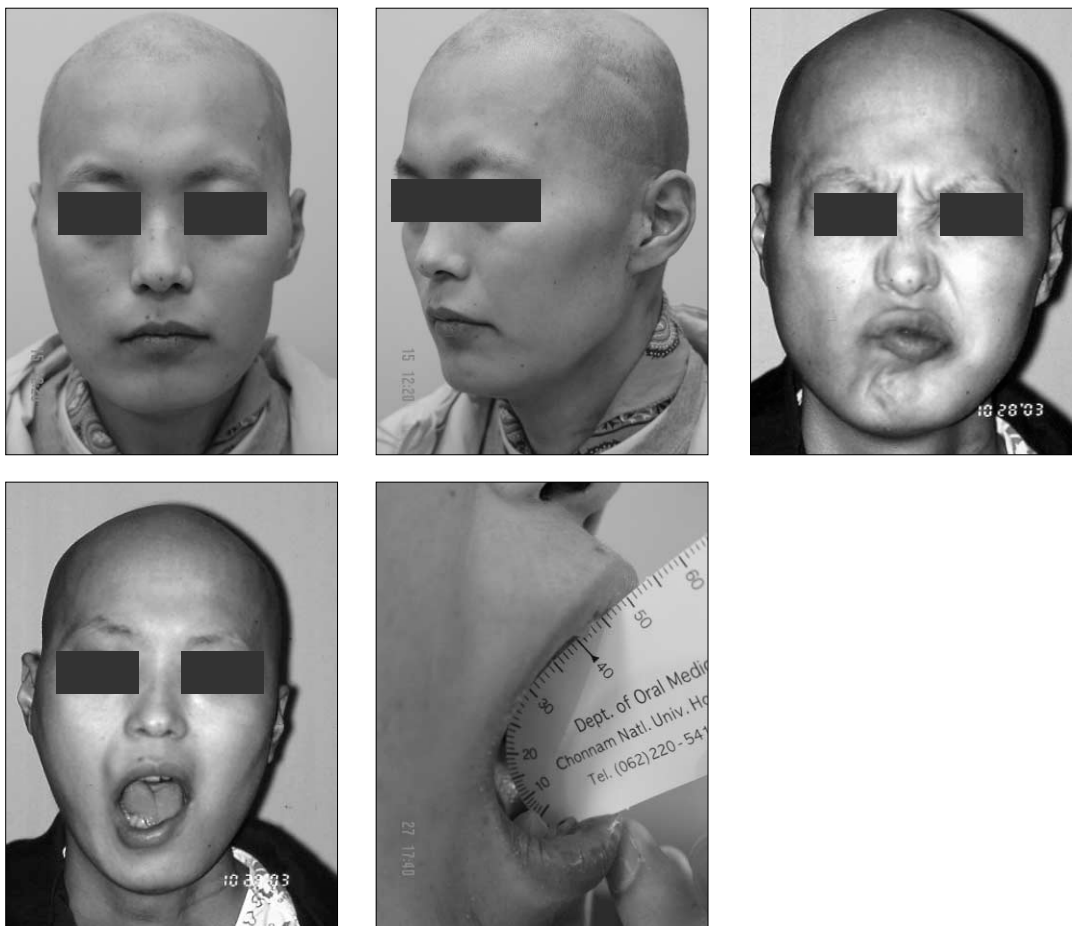


Fig. 9. Postoperative clinical photographs after 7 months.

환자는 좌측 하악각에서 좌측하악과두를 포함하는 하악골 부분 절제술을 통한 병소의 광범위한 절제술 및 좌측 악하선 절제술을 시행 받았다. 좌측 상견갑설골경부척수술과 장골이식술을 이용한 즉시 재건술을 시행하였다(Fig. 4). 술 후 최종 조직검사 결과 골육종으로 확진되었다(Fig. 5). 또한 보조적인 항암 화학요법을 시행하였다. 술 후 재발 및 전이 여부 관찰위해 계속 주기적인 경과추적 중이며 술 후 4년이 지난 현재까지 재발 및 전이의 소견은 보이지 않는다(Fig. 6, 7).

III. 총괄 및 고찰

골육종은 골의 미분화 결합조직에서 발생하는 악성 골종양으로 주로 장골에서 호발하며 악골에서는 전체 골육종의 6.7% 정도로 드물게 발생된다. 특히 하악골에서는 전체 두경부 종양의 0.5% 이하로 아주 드물게 발생하는 것으로 보고 되고 있다. 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^{3,4,8}. 하악골(49%)과 상악골(51%) 모두 거의 유사한 발생율을 보이며, 하악골에서는 보고 된 전체 증례중 2/3가 하악 골체부위에 발생하였고, 나머지 1/3이 하악정중부 및 하악우각부, 하악지, 측두하악관절등의 순서로 발생한다^{2,9}. 악골의 경우 국소적 재발이 흔하며 외과적 절제만 시행한 경우 80%에 이르며 이는 장골의 경우와 대조되는데 장골의 경우 원발부로의 전이가 흔하다. 원발부로의 전이시 폐가 가장 흔하며 뇌, 골로의 전이도 보고 된다. 악골의 경우 대부분의 사망원인은 국소적 재발, 영양실조, 두개내로의 병소의 침범에 의하며, 전신적 전이에 의한 사망은 드물다고 보고되어진다⁴.

임상적으로 안면부 종창으로 인한 안모의 변형과 국소적인 동통이 가장 흔한 임상증상이며, 그 외에도 치아의 동요 및 전위, 하치조신경의 침범으로 인한 감각이상, 상악골에서는 안와하신경의 침범으로 인한 감각이상이나 비출혈, 비강폐쇄증, 안과적 문제등의 여러 증상을 보이나 피부나 점막의 궤양은 대개 나타나지 않는다. 상당수의 환자들에서 이러한 임상적 증후가 오랜 기간동안 지속되었음을 볼 때 악골에 발생한 골육종은 서서히 성장함을 알 수 있다¹⁰.

본 증례의 경우에서도 1개월 전부터의 좌측 전이개부위의 불균감 및 개구장에 보이다가 1주일전부터는 종창 및 동통이 발생하여 전남대학교병원 구강악안면외과에 내원하여 시행된 구강 검사에서 좌측 전이개부위에 6×6 cm 크기의 고정성 종물이 촉진되었고, 종창과 동통이 심하였다. 그러나 궤양이나 피부에서의 병변은 관찰되지 않았다.

이러한 골육종의 병인으로는 현재까지 이온화 방사선의 노출, 여러 양성 병소, 외상 그리고 호르몬의 영향 등이 생각되고 있지만 아직까지 정확한 원인은 알려져 있지 않다^{6,11}. 본 증례의 경우도 내원 전 관절 운동시의 동통이나 교합의 변위, 관절염을 비롯한 턱관절질환의 증상에 대한 기왕력은 없었으며, 특히 외상과 수술에 대한 경험은 없었다. 또한 이러한 병소 이전에 발생한 양성종양 등의 원인도 없었다.

방사선 소견상 골육종은 불명확한 경계를 가지는 osteolytic, osteosclerotic, 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 유리하다¹². 본 증례에서는 파노라마 촬영사진에서 좌측 과두에 피질골의 과립이미지를 보이는 불명확한 골파괴 양상이 관찰되었다. 또한 경부는 불규칙한 피질골의 양상을 보였고, 방사형의 외부 피질골 흡수의 양상을 보였다. 하지만 그 이외에 골육종을 진단할만한 특이한 소견을 발견할 수는 없었다. 추가로 촬영된 CT상으로는 3 cm 크기의 좌측 과두부의 두부와 경부에 골파괴 양상으로 변화된 것을 확인할 수 있었다. 그러나 악성 종양을 감별할만한 경부 림프절 병변은 보이지 않았다.

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 보고 되기도 하나 조직학적인 형태에 따른 예후는 차이가 없는 것으로 보고 되고 있다^{13,14}. 조직학적으로 골육종은 다른 질환과 감별이 될 수 있는 특이한 소견을 가지고 있기에 본 증례에서도 확진을 위하여 미세침흡입검사를 시행하였다. 조직학적으로 분화가 좋은 다형성을 보이는 간엽세포들이 불규칙하게 배열되어 있었다. 종양내부의 괴사 소견은 관찰되지 않았으며 비정상적인 세포분열이 다수 관찰되었다. 그 결과 고분화된 악성 상피성 종양으로 진단되었다.

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 osteosarcoma에서 보이는 cellular pleomorphism이 없기 때문에 양성 병

변으로 오진되기 쉽다¹⁴⁾.

Ellis 등은 자신들이 경험한 low grade sarcoma 8례중 3례의 초기진단이 양성병변이었으나 방사선학적 소견상 8례 모두 악성의 소견을 보였다고 하였다¹⁵⁾. 그러므로 우리의 경우와 마찬가지로 다른 질병과의 정확한 감별진단을 위하여는 병소의 의심되는 여러 부위에서 조직을 채취하여 조직검사를 시행하여야 하며 임상적 방사선학적 검사등을 시행함으로써 정확한 진단을 하여야한다. 본 증례 환자 역시 특이한 임상증상 없이 통상적인 치료과정을 위하여 내원하였으며 초진시 환자의 방사선 소견상 우측 하악골에 골괴괴 양상을 보이는 병소가 발견되어 조직검사를 시행하였다. 그러나 초진시 병소가 이환된 부위에 특이할만한 신경병변이나 감각이상 등이 관찰되지 않았고 구강내의 소견상 악성 질환을 의심할만한 특이한 임상소견을 관찰할 수 없었다. 또한 파괴된 골내에 육아조직이 관찰되어 골내에 발생된 염증이나 낭종 또는 양성종양이 의심되었다. 따라서 악성종양을 감별하기 위하여 미세침흡인검사를 시행하여 고분화 악성종양임을 확인하였다.

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^{8,16,17)}. 그러나 통상 악골에서는 외과적인 수술이 비교적 용이하고 조기에 발견이 쉬우므로 본 증례는 하악골의 좌측 과두부에 발생된 high-grade 골육종으로 외과적인 광범위 절제술을 시행하였으며 이 때 술전 항암요법이나 방사선치료는 시행하지 않았다. 환자의 사회적 활동을 고려하여 장골이식을 이용한 즉시재건술을 시행하였다. 술 후 재발을 방지하기 위하여 항암요법이 추가로 시행되었다. 안모의 심미성과 저작, 발음 및 연하의 기능을 가지는 구강 및 악안면 부위는 개개인의 정서 발현과 인격 형성 및 사회적 적응에 부응하는 가장 중요한 핵심 부위이며, 심리적 배경 면에서도 가장 뚜렷이 자신을 나타내 보이는 부위이다. 또한 심미성과 기능성의 복합 발현부위로서 싫고 좋음과 만족과 불만, 부정과 긍정 및 애정과 증오, 존경과 멸시 등의 심리적 표현의 의사전달 부위이다. 이와 같은 특성을 지닌 구강 및 악안면 부위에서의 악성 종양은 치료도 신체 다른 부위에 비하여 어렵다. 특히 질환자체가 환자의 생명을 위협하므로 일차적으로 암종의 완전한 근절을 치료목표로 하여야하지만, 이차적으로 결손부를 재건하여 심미적 기능적 회복을 통한 환자의 사회로의 복귀를 도모하여야 한다¹⁸⁾. 따라서 악

안면 부위에 있어서 암종을 가진 환자의 확진 후에는 이차적인 결손부의 수복을 고려하여 특히 저연령의 환자의 경우 조기수술이 바람직하다고 생각된다.

Ⅳ. 요 약

하악골에서 고분화 골육종은 매우 드물게 보고되고 있으며 조직검사상 전형적인 골육종과는 달리 다형성(pleomorphism)을 보이지 않기 때문에 양성종양으로 오진(underdiagnosis)되기 쉽다. 그러나 정확한 환자의 진단은 적절한 치료와 환자의 예후에 영향을 큰 영향을 미친다. 그러므로 조기에 정확한 진단을 위하여는 의심되는 여러 부위에서 조직검사를 시행하고 임상소견과 방사선소견 등을 병리의사와 공유하여야 한다. 이에 초기에 진단이 어려웠던 하악골에 발생된 고분화 골육종을 경험하여 환자의 사회적 기능적 회복을 위한 수술을 시행하여 바람직한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Unni KK, Dahlin BC, Beabout JW *et al* : Parosteal osteogenic sarcoma. *Cancer* 37 : 24, 1976.
2. Regezi JA, Sciubba J : *Oral Pathology: Clinico-Pathologic correlation*, 2nd edition, Philadelphia, Saunders, 1993.
3. 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.
4. Sin YG, Pang SJ, Lee CJ *et al* : Case Reports Of Osteosarcoma In Mandible. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 25 : 54, 1999.
5. Bloem JL, Kroon HM : Imaging of bone and soft tissue tumors. *The radiologic clinics of north america* 31 : 261, 1993.
6. Koury ME, Regezi JA, Perrott PH *et al* : "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. De Fries HO, Van Tassel P, Leibel SA *et al* : Treatment of osteogenic sarcoma of the mandible. *Arch Otolaryngol* 105 : 358, 1979.
9. Forteza G, Comenero B, Lopez-Barea F : Osteogenic sarcoma of the maxilla and mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 62 : 179, 1986.
10. Neville, Damm, Allen *et al* : *Oral & Maxillofacial Pathology*, W.B. Saunders Co. p482, 1995.
11. Garrington GE, Scofield HH, Cornyn *et al* : Osteosarcoma of the jaws : Analysis of 56 cases. *Cancer* 20 : 377, 1967.
12. Lee YY, Pamela VT, Nauert C : craniofacial osteosarcoma Plain film, CT, and MRI findings in 46 cases. *Am J Neuro Radiol* 9 : 379, 1988.
13. Mark RJ, Sercarz JA, Tran L *et al* : Osteogenic sarcoma of

- the head and neck : The UCLA experience. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 117 : 761, 1991.
14. 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.
 15. Ellis JH, Siegel CL, Martel W *et al.* : Radiologic features of well-differentiated osteosarcoma. Am J Roentgenol 151 : 739, 1988.
 16. 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.
 17. Jaffe N : Recent advances in the chemotherapy of metastatic osteogenic sarcoma. Cancer 30 : 1672, 1972.
 18. Min JS : Surgery for oral cancer. Yonsei Med J 16 : 69, 1983.

저자 연락처

우편번호 501-757
광주광역시 동구 학동 5번지
전남대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실
오 희 균

원고 접수일 2008년 2월 20일
게재 확정일 2008년 7월 7일

Reprint Requests

Hee-Kyun Oh
Dept. of OMFS, College of Dentistry, Chonnam National Univ.
5 Hak-Dong, Dong-Ku, Gwangju, 501-757, Republic of Korea
Tel: 82-62-220-5439 Fax: 82-62-228-8712
E-mail: hkoh@chonnam.ac.kr

Paper received 20 February 2008
Paper accepted 7 July 2008