

## 상악동에 발생한 골육종 1례

대구 파티마병원 이비인후과  
조은래 · 신상근 · 설기엽 · 강영천 · 이강혁

A Case of Osteogenic Sarcoma originating from the Maxillary Sinus

Eung Rae Cho, M.D., Sang Geun Shin, M.D., Ki Yeob Seol, M.D.,  
Young Chun Kang, M.D., Kang Hyuck Rhee, M.D.  
*Department of Otorhinolaryngology, Fatima Hospital, Tae-Gu*

### = Abstract =

Osteogenic sarcoma is a rare malignant disease that may affect the maxilla. Swelling and pain are the most frequent presenting complaints.

Histologically, osteogenic sarcoma is defined as a malignant tumor characterized by the direct formation of bone or osteoid tissue by the tumor cells.

Treatment results are generally poor, and recurrence rates are generally high. Radical surgery offers the best five-year survival rate.

The authors experienced a case of osteogenic sarcoma originating from the left maxillary sinus of 12 years old female.

**KEY WORDS:** Osteogenic sarcoma. Maxillary sinus.

### 서 론

골육종(osteogenic sarcoma)은 가장 혼한 일차성 악성 골종양이지만 대부분은 장골에 발생하여, 이중 3%가 상악골에 발생하며 대개 30대에서 40대에 생긴다고 한다. 국내에서는 고령의 환자 상악동에서 발생한 2례가 보고된 바 있다<sup>[1,2]</sup>. 저자는 12세 여아의 좌측 상악동에 발생한 골육종 1례를 경험하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례

환자: 어○주, 12세, 여자

초진일: 1989년 11월 24일

주소: 좌측 안면부의 경미한 통통과 종창과거력 및 가족력: 특이사항 없음.

현병력: 환자는 약 1개월전부터 좌측 안면부의 탈감각과 경미한 통통, 간헐적인 전두통, 안구후부의 통증을 호소하다가 최근 상기 증상의 악화로 내원하였다.

이학적소견: 비경검사상 좌측 중비도에 염증성종물과 점액성비루를 볼 수 있었으며 이경, 구강내 특이소견은 없고 안면촉진상 좌측 안면에 경한 압통을 호소하였다. 시야검사상 좌측 주시시 간헐적인 복시가 관찰되었으며

경부종물은 촉진되지 않았다.

임상검사소견 : 혈액학적검사상 alkaline phosphatase가 394IU/l로 증가된 것 이외는 특별한 소견을 보이지 않았으며 소변검사, 간 기능검사 등은 모두 정상이었다.

방사선소견 : 단순 부비동 X-선상 양측 상악동에 균일한 음영증가와 특히 좌측 상악동 내상방에서 불규칙한 골성음영의 증가를 볼 수 있었으며 (Fig. 1), 흉부 X-선 소견은 정상이었다. 부비동 전산화 단층촬영상 좌측 상악동 내측 후상부에 골성결절을 가진 연조직 종괴를 볼 수 있었는데 이 종물을 동측 비강, 사끌동, 접형동, 안구후부로의 침범을 보이며 두개내침범은 보이지 않았다 (Fig. 2, 3). Bone scan상 전이를 의심할만한 소견은 보이지 않았다.

수술소견 : 입원후 2일째 전신마취하에 좌측 상악동 Caldwell-Luc씨 술식으로 수술을 시행하여 좌측 상악동의 내벽, 후상벽의 파괴와 함께 견고하면서도 쉽게 출혈하는 종물을 발견하여 조직 생검을 시행하였다.

조직검사소견 : 섬유성, 육종성기질사이로 수많은 연골조직과 유골조직을 볼 수 있었으며 유골과 연골의 소와에 흩어져 있는 각각의 종양세포는 풍부한 세포질과 매우 기형적이고

비정형적인 핵을 가지고 있으며 때로는 거대 세포도 볼 수 있었다 (Fig. 4, 5).

경과 및 추적 : 술후 5일째 퇴원하였으며, 조직검사상 골육종으로 판명되어 좌측 상악동절제술과 안구적출술후 화학요법의 병용을 권고하였으나, 수술처치를 반대하여 시행치 못하고 2개월뒤 종상이 악화되어 수술적처치를 원했으나 그 당시는 이미 종양이 두개내에 침범되어 수술 불가능한 상태로 고식적인 요법을 시행하였으며 다시 2개월뒤 종양에 의한 인후두폐쇄로 응급기관절제술을 시행하였으며 이 당시 두개내 침범의 증가와 거대한 종물양상을 띠었으며 (Fig. 6) 환자는 2주뒤 사망했다.

## 고 찰

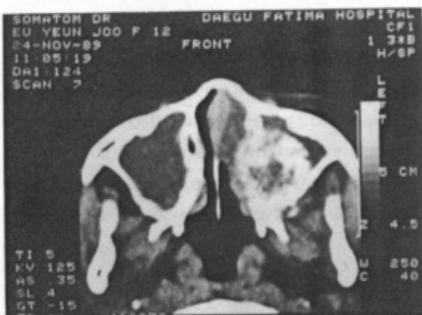


Fig. 2 Axial CT scan : Left maxillary sinus reveals lobulated soft tissue mass with flecks of bony fragments.



Fig. 3 Coronal CT scan : The mass extends into nasal cavity, ethmoid sinus, sphenoid sinus and orbit.

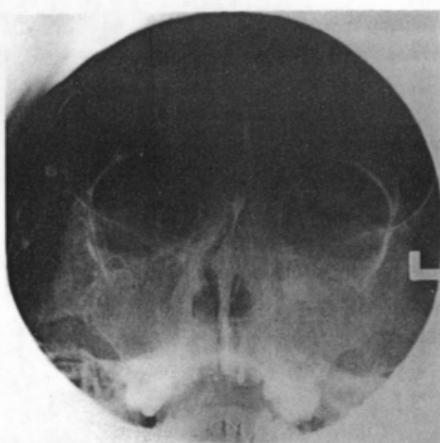


Fig. 1 Water's view : haziness in both maxillary antra and irregular shaped high densities in the left antrum.

골육종은 가장 흔한 일차성 악성 골종양이지만<sup>7</sup> 대부분 장골에서 발생하며 악골을 침범하는 경우는 드문데 Weinfeld와 Dudley는 전체 골육종의 6%가 악골에서 발생한다고 하며<sup>16</sup>, Garrington의 보고에 의하면 년당, 인구 천만명 중 7명의 발생빈도를 갖는다고 한다<sup>9</sup>. 또한 Kahnna가 17년동안 악골에서 생긴 122례의 종양을 고찰해 본 결과 골육종은 1례도 없으며<sup>11</sup>, Greer와 Mierau가 7년동안 191례의 소아 악골종양을 고찰해 본 결과 2례가 골육종으로 모두 하악에서 생겼다<sup>10</sup>.

Clark등은 66명은 악골 골육종 환자를 조사해 본 결과 42명이 남자, 24명이 여자로 남자

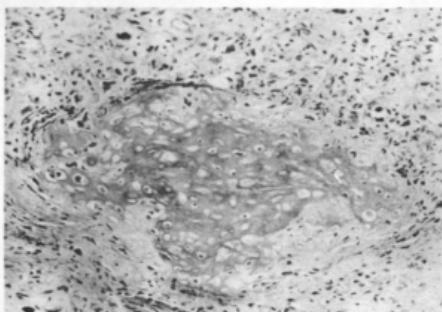


Fig. 4 Osteogenic sarcoma : composed of numerous fibrous and sarcomatous background, cartilagenous tissue and osteoid area(H&E,  $\times 100$ ).

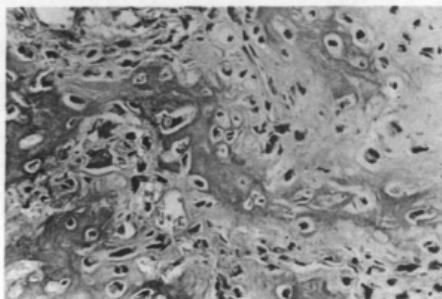


Fig. 5 Osteogenic sarcoma : Tumor cells have highly anaplastic and atypical nuclei with abundant cytoplasm which are scattered in the lacunae of bone and cartilage(H&E,  $\times 400$ ).

가 여자보다 2배 정도 많으며<sup>8</sup> 발생연령은 12세에서 79세까지 보고되고 있으나 주로 30, 40대에서 볼 수 있었으며, 상악에 생긴 경우가 34명(51%), 하악에 생긴 경우가 32명(49%)으로 상악에 생긴 경우 대부분이 alveolar ridge나 antrum에서 생기며 하악에서는 주로 body에서 생긴다<sup>4</sup>.

이러한 골종양의 원인으로는 방사선조사, 양성골병력, 외상, 바이러스 등을 의심할 수 있다.

골육종을 가진 환자에서 가끔 동반된 혹은 이전 질환으로 Paget's 병이나 섬유성 이형성을 볼 수 있다<sup>14</sup>.

상악동에서 생긴 경우 종물, 통통을 가장 많이 호소하며 그외 비폐쇄, 비출혈, 탈갑각, 안구돌출, 치열의 변화등의 증상이 나타나고 진단이 되기까지는 1개월에서 30년까지로 다양하다.

Caron의 보고에 의하면 72명 중 6명에서 serum alkaline phosphatase의 상승을 볼 수 있다고 하나<sup>3</sup> 보통 임상 검사상으로는 특별한 소견을 보이지 않는다.

방사선학적 소견은 매우 다양하며 골생성, 골융해, 혹은 혼합적 양상을 띠며 드물게 sunray appearance를 보이기도 한다<sup>15</sup>. 초기에는 골윤곽의 변화를 초래하지 않으나 진행이 매우 빨라 6~8주면 골윤곽의 변화를 볼 수 있다.

전산화 단층촬영은 가장 좋은 진단시술로서 병의 진단도를 볼 수 있다.

병리조직학적으로 osteoblastic, chondroblas-



Fig. 6 The patient with a huge left cheek mass.

tic, fibroblastic 같은 아형을 가지는데 악물에서 대부분이 osteoblastic 형이며 본 증례에서도 osteoblastic으로 진단되었으며, Broders의 방법에 따라 가장 분화도가 높은 경우를 Grade 1, 가장 분화도가 낮은 경우를 Grade 4로 나눌 수 있으나, 대부분이 Grade 2 혹은 3로 장골에서 생긴 경우보다 분화도는 더 좋다고 한다. 이러한 골육종의 진단을 위해서는 육종성 기질, 악성 결체 조직으로부터의 종양섬유골, 유골조직을 확인해야 한다. 이러한 종양의 결체 조직은 hyperchromatic nuclei를 가진 anaplastic spindle 혹은 oval cell로 구성되어 있다. 그러나 이러한 병리조직학적 소견은 환자의 예후와는 상관이 없다는 보고도 있다<sup>9</sup>.

감별진단해야 할 질환으로는 연골육종, 섬유육종, 악성섬유성조직구종 등이 있다.

치료로는 임상적으로 진단될 때 이미 현미경학적인 전이가 있다는 가정하에<sup>10</sup> 시작해야 하는데 광범위 절제가 필수적이며 화학요법, 방사선요법을 시행하지만 그 효과는 미지수라고 한다.

Garrington의 보고에 의하면 5년 생존율은 35% 정도라고 하며<sup>9</sup> Curtis에 의하면 26% 정도이다<sup>6</sup>. 또한 이러한 생존율은 진단 시 종물의 크기와 역비례한다고 한다<sup>12</sup>.

경부 임파선 전이는 드물며 폐로의 전이를 13%에서 볼 수 있는데 주로 혈류에 의하면 대부분이 국소재발에 의해 사망한다고 한다<sup>14</sup>.

## 결 론

저자는 12세 여아에서 좌측 상악동에서 발생하여 광범위한 골파괴 그리고 유골형성소견을 보이는 골육종 1례를 경험하였기에 임상 병리조직학적 소견에 대한 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## References

- 1) 고영춘: 좌측 상악동에 발생한 골육종 1례. 한의인자 10(4): 103~105, 1967
- 2) 이상도: 상악골의 골육종. 한의인자 20(1): 33~36, 1977
- 3) Caron AS, Hajdu SI, Strong EW: Osteogenic sarcoma of the facial and cranial bones. A review of forty-three cases. Am J Surg 122: 719~725, 1971
- 4) Clark JL, Dahlin DC, Devine KD: Osteosarcoma of the jaw. Cancer 51: 2311~2316, 1983
- 5) Coley B: Neoplasms of Bone. New York, Paul B Hoeber, p298, 1960
- 6) Curtis ML, Elmore JS, Sotereanos GC: Osteosarcoma of jaws. Report of case with review of the literature. J Oral Surg 32: 125, 1974
- 7) Dahlin DC: Bone tumors. General aspects and data on 6221 cases, ed 3. Charles C Thomas, Springfield, Illinois 1978
- 8) Finkelstein JB: Osteosarcoma of the jaw bones. Radiol Clin North Am 8: 425, 1970
- 9) Garrington GE, Scofield HH, Coryn J, et al: Osteosarcoma of the jaws. analysis of 56 cases. Cancer 20: 377~391, 1976
- 10) Greer RO, Mierau GW: Tumors of the oral mucosa and jaws in infants and children. Denver, University of Colorado Medical Center Press, 1890
- 11) Khanna S, Khanna NN: Primary tumors of the jaws in children. J Oral Surg 37: 800, 1979
- 12) Rosen G, Caparros B, Huvos AG, et al: Preoperative chemotherapy for osteogenic sarcoma: selection of postoperative adjuvant chemotherapy based on the response of the primary tumor to preoperative chemotherapy. Cancer 49: 1221~1230, 1982
- 13) Slootweg PJ, Muller H: Osteosarcoma of the Jaw Bones. Analysis of 18 cases. J Max-Fac Surg 13: 158~166, 1985
- 14) Slow IH, Stein D, Friedmann EW: Os-

- teogenic sarcoma arising in a pre-existing fibrous dysplasia. Report of a case. J Oral Surg 29 : 126, 1971
- 15) Uribe-Bootero G, Russel WO, Sutow WW, Martin RG : Primary osteosarcoma of bone. A clinicopathologic investigation of 243 cases with necropsy studies in
54. Am J Clin Pathol 67 : 427~435, 1977
- 16) Weinfeld MS, Dudley HR Jr : Osteogenic sarcoma. A follow-up study of the ninety-four cases observed at the Massachusetts General Hospital from 1920 to 1960. J Bone Joint Surg [Am] 44 : 269~276, 1962