

전립선에 발생한 전이성 골육종 - 증례 보고 -

서형연 · 이재혁¹ · 박창수¹ · 박진균²
정성택

전남대학교 의과대학 정형외과학교실
¹병리학교실, ²영상의학교실

접 수 : 2008년 12월 12일
게재승인 : 2009년 2월 25일

책임저자 : 정 성 택
우 501-757 광주광역시 동구 학동 8
전남대학교 의과대학 정형외과학교실
전화: 062-227-1640
Fax: 062-225-7794
E-mail: stjung@chonnam.ac.kr

Metastatic Osteosarcoma to the Prostate - A Case Report -

Hyoung-Yeon Seo, Jae-Hyuk Lee¹, Chang-Soo Park¹, Jin-Gyoon Park²
and Sung-Taek Jung

Departments of Orthopaedics, ¹Pathology, and ²Radiology, Chonnam National University Medical School, Gwangju, Korea

The most common site for the metastasis of osteosarcoma is the lung, and other sites of metastases include the bone, lymph node, pleura and liver. Although unusual extrapulmonary metastases have been reported with the improvement of the therapeutic results for the primary lesions, they are exceptionally rare. We report here on a case of prostatic metastasis of an osteosarcoma of the proximal tibia, and this developed seven years after successful resection, and four years after resection of a pulmonary metastasis. Radical prostatectomy was performed, and histological examination demonstrated metastatic osteosarcoma. To the best of our knowledge, this is the first case of prostatic metastasis of osteosarcoma in the medical literature.

Key Words : Metastasis; Osteosarcoma; Prostate

골육종은 성장기에 발생하는 가장 흔한 악성 골종양으로, 원격 전이 장기로는 폐가 가장 흔하며, 그 외에도 원발 병소 이외의 골격 계에 전이가 잘 발생한다. 최근에는 수술적 치료의 발달과 보조 화학 요법 등의 효과로 생존율이 향상되고 있는 반면, 비교적 흔하지 않던 폐 외 부위로의 전이에 대한 보고가 증가하고 있다.¹ 저자들은 전립선으로 전이된 골육종 1예를 경험하였으며, 이는 국내외 문헌에 보고된 바가 없어 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

14세 남자 환자로 3개월 전 발생한 좌 하퇴부의 동통을 주소로 내원하였다. 증상은 좌 하퇴 근위부 연부 조직의 종창 및 압통이 있었으며 이로 인한 슬관절의 운동제한이 있었다. 특이한 과거력이나 가족력은 없었으며, 전신 및 영양 상태는 양호하였다. 단순 방사선촬영에서 좌경골 골간단 부위에 골경화와 골파괴가 혼합된 경계가 불분명한 병변이 관찰되었는데, 자기 공명영상에서 이 병변은 골간 및 골단으로의 파급과 주위 골 외 연부 조직의 종괴 형성을 보였다. 그러나 원격 전이의 여부를 확

인하기 위해 시행한 폐 전산화단층촬영 및 전신 골주사 검사에서는 전이를 의심할 수 있는 소견은 없었다. 수술 전 침생검 조직검사항 골모세포성 골육종으로 진단되었다. 따라서 고용량의 methotrexate를 기본으로 하는 수술 전 화학요법을 3회 시행한 후 좌 근위 경골의 광범위 절제술(wide marginal resection) 및 인공 치환물(tumor prosthesis)을 이용한 사지 구제술(limb salvage)을 시행하였다. 수술 후 조직 검사에서는, 대부분 유골 형성을 보였고 국소적으로만 중앙 세포들이 관찰되어서 선행 화학요법의 효과 판정 기준(modified Huvos) 3등급으로 진단되었으며, 이에 대하여 추가적인 보조 화학요법을 시행하였다.

수술 후 3년째 골육종의 폐 전이가 의심되는 병변이 발생하여, 수술 전 화학요법 후 좌측 폐 췌기 절제술을 시행하였다. 조직 검사상 전이성 골육종으로 진단되었고, 수술 후 보조 화학요법을 시행하였다. 그 후 주기적으로 추적 관찰하던 중 하지 수술 후 7년째에 복부 전산화단층촬영 및 자기공명영상에서 전립선에 전이로 의심되는 종괴가 추가로 발견되었다. 양전자방출단층 촬영(PET CT)에서 전립선 이외의 원격 전이는 없었으며, 경직장 초음파 유도하 전립선 생검상 전이성 골육종으로 진단되어 근치적 전립선 절제술을 시행하였다. 이때 정낭을 포함한 4×4×3 cm의 전립선 종괴를 적출하였는데, 조직학적 검사상

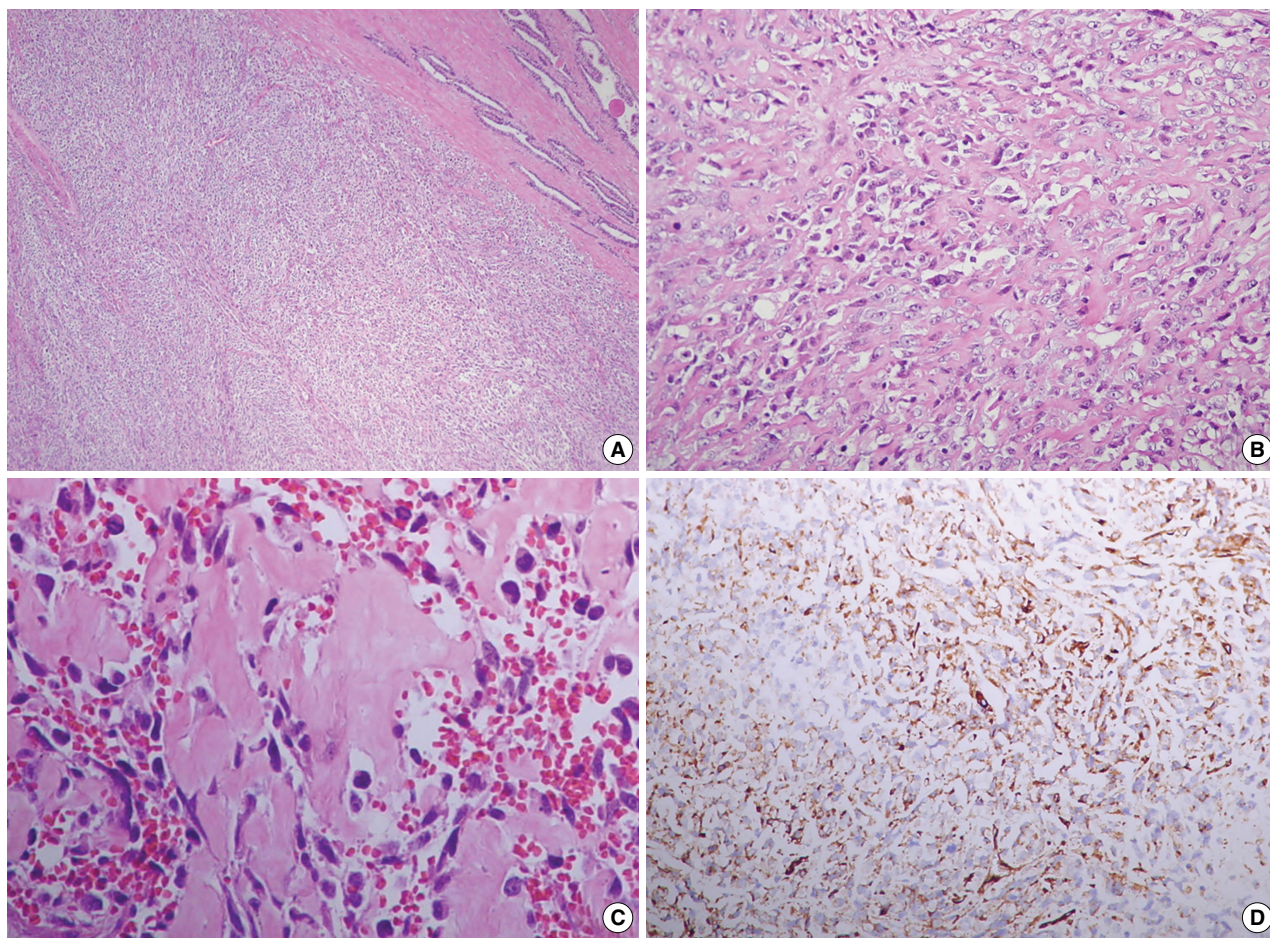


Fig. 1. (A) The tumor is composed of hypercellular tumor and coagulative necrosis. (B) The tumor cells show an oval to spindle shape with vesicular chromatin pattern. (C) Definite osteoid formation is present. (D) Immunohistochemical staining for osteonectin show a strong reaction within tumor cells.

전립선에 전이된 골육종으로 진단되었다(Fig. 1).

고 찰

최근 골육종을 포함한 악성 골종양의 치료는 자기공명영상을 비롯한 진단 기술의 발달로 수술 시 정확한 절제 연을 계획할 수 있고, 무엇보다도 항암 화학요법의 발전으로 인하여 5년 생존율이 약 65-80% 정도로 보고되고 있다.² 따라서 생존 기간이 증가한 만큼 원발 병소의 치료 후 추적 관찰 기간에 원격 전이가 발견될 가능성이 더 증가하였다. 본 증례는 원발 병소에 대해 수술 전 화학요법을 시행하였으며, 수술 후 조직학적 검사에서 골종양에 대한 수술 전 항암 화학요법의 효과를 판단하는 기준으로 흔하게 이용되는 Huvos의 선행 화학요법 판단기준³상 3등급으로 판단되는 양호한 결과를 보여 예후 또한 양호할 것으로 기대하였다. 그 후 골육종이 흔하게 전이가 일어나지 않는 부위인 전립선에 전이가 발견될 때까지 7년간 생존하였는데, 이

는 수술 전후의 화학요법, 원발 병소의 적극적인 수술적 치료, 폐 전이의 신속한 발견 및 적절한 치료 등이 생존율을 향상시키는 데 도움이 되었을 것으로 생각된다.

골육종은 혈행성 전이를 하므로 대부분 진단 당시 이미 미세 전이가 있을 수 있다. 진단 당시에 약 15%에서 폐 전이가, 5%에서 골 전이가 동반된다는 보고가 있으므로,⁴ 성공적인 치료를 위해서는 원발 병소의 수술적 치료와 더불어 보조 화학요법 등이 필수적이라고 할 수 있다. 골육종의 폐 전이 유무에 따른 생존율 연구에서 Aljubran 등⁵은 폐 전이 후 평균 3년 생존율은 30%이지만, 화학요법에 관계없이 폐 전이를 수술적 치료로 하였던 군은 38%, 수술을 시행하지 않은 군은 16%로 큰 차이가 있음을 밝히면서 폐 전이에 대한 적극적인 수술적 치료의 중요성을 강조하였다. 또한 폐 전이 병변의 수와 폐 전이까지의 기간이 중요한 예후 인자임을 밝히며, 3개 이하의 폐 전이 병변, 폐 전이까지 1년 이상일 때 양호한 예후를 보인다고 하였다. 본 증례도 원발 병소 수술 3년 후 폐 전이가 발견되어 폐 췌기 절제술을 시행하였고 양호한 상태를 보이던 중 4년 후 전립선으로

의 원격 전이가 발견되었다.

골육종의 전이 부위는 폐가 가장 흔하지만, 드물게 원발 병소와 다른 골격계, 뇌, 늑막, 근육, 복강 내 장기 등 신체의 다양한 부위로의 전이가 보고되고 있다.⁶⁻⁹ Giuliano 등¹은 원발 골육종에 대해 수술적 치료를 시행한 군과 수술적 치료와 보조 화학요법을 같이 시행한 군의 전이 양상을 비교하는 연구에서 수술적 치료만 시행한 군에서는 폐 전이의 비율이 월등히 높지만, 보조 화학요법을 추가한 군에서는 폐 외 전이의 발생 빈도가 증가하고 있다고 하였다. 이는 수술 기법의 발전과 보조 화학요법 등으로 치료 효과가 향상되고 생존율이 증가한 것과 관련이 있을 것으로 분석하였다.

김 등¹⁰은 골육종의 폐 외 전이의 영상 소견을 보고한 연구에서 134명의 골육종 환자의 영상 진단을 분석한 결과, 13명(9.7%)의 환자에서 폐 외 전이가 있었다고 하였다. 이중 6명은 원발 병소 이외의 다른 골격에 전이가 있었고 4명은 종격동, 서혜부, 췌장 주위의 임파절에 전이가 있었으며, 그 외에는 연부 조직이나 장기로의 다발성 전이 즉 늑막, 간, 췌장, 신장, 소장, 복막, 근육, 피하지방, 폐동맥 등에 전이가 발견되었음을 보고하였다. 이 보고는 영상 진단상의 전이로 조직 검사 소견이나 병의 경과에 대한 고찰은 배제되어 있지만, 골육종의 폐 외 전이 부위로 원발 병소 외의 다른 골격과 임파절이 가장 흔함을 밝혔다는데 그 의의가 있다고 할 수 있다.

한편 Aarvold 등¹¹은 십이지장과 췌장에 전이된 골육종을 보고하면서, 선행 보고된 12예의 소장으로의 골육종 전이를 분석하였는데, 분석 결과 13예 중 11예에서 소장 전이 전에 폐 전이가 있었으며, 이 중 7예에서는 폐 전이를 수술적 혹은 방사선적으로 치료를 하였다.

이처럼 본 증례를 포함하여 원격 전이가 보고된 예에서는 폐 전이가 동반된 경우가 많았는데, 소장 전이 전의 무증상 기간은 0에서 6년(평균 15개월)으로 다양하였다.

본 증례도 폐 전이의 수술적 치료 4년 후에 전립선 전이가 발견되었고, 소장 전이 후에는 장 중첩 등의 치료로 인해 장기 생존의 가능성이 희박한 것으로 보고되고 있다.¹² 한편 Wolf 등⁶은 골육종이 두경부, 후복막강 등에 전이된 증례를 보고하였는데, 이 경우는 폐 전이 없이 다발성으로 원격 전이가 발생한 경우였다.

또한 Hirota 등⁷은 골육종의 희귀한 폐 외 전이 3예를 보고하면서, 생존 기간 증가와 폐 외 전이가 화학요법에 있어 폐보다 덜 민감함을 원인으로 가정하였고, 폐 전이 발견 시점에 폐 외 전이에 대한 검사가 필요하다고 하였다. 그 중 1예는 골반 내 전이이지만, 조직 검사나 더 이상의 치료에 대한 기술이 없어 정확한 부위는 알 수 없으며, 3예 모두 원격 전이 치료 중에 사망하였다.

치골에 발생한 골육종이 전립선 주위의 정맥층으로 국소적으로 침범한 경우와¹³ 전립선에 원발 골형성 육종이 발생한 경우

는 보고되었지만,¹⁴ 본 증례처럼 골육종이 전립선으로 원격 전이된 예는 국내의 문헌에 아직 보고된 바가 없다.

참고문헌

1. Giuliano AE, Feig S, Eilber FR. Changing metastatic patterns of osteosarcoma. *Cancer* 1984; 54: 2160-4.
2. Malawer MM, Sugarbaker PH. *Musculoskeletal cancer surgery*. 1st ed. Washington: Kluwer Academic Publisher, 2001.
3. Dyke JP, Panicek DM, Healey JH, *et al.* Osteogenic and Ewing sarcomas: estimation of necrotic fraction during induction chemotherapy with dynamic contrast-enhanced MR imaging. *Radiology* 2003; 228: 271-8.
4. Weiss L. *Principles of metastasis*, 1st ed. Orlando: Academic Press, 1985.
5. Aljbran AH, Griffin A, Pintilie M, Blackstein M. Osteosarcoma in adolescents and adults: survival analysis with and without lung metastases. *Ann Oncol* 2009; Jan 19: Epub ahead of print.
6. Wolf R, Wolf RF, Hoekstra HJ. Recurrent, multiple, calcified soft tissue metastases from osteogenic sarcoma without pulmonary involvement. *Skeletal Radiol* 1999; 28: 710-3.
7. Hirota T, Konno K, Fujimoto T, Ohta H, Kato S, Hara K. Unusual late extrapulmonary metastasis in osteosarcoma. *Pediatr Hematol Oncol* 1999; 16: 545-9.
8. Damron TA, Morganti C, Yang Y, Hojnowski L, Cherny R. Metastasis of osteosarcoma to soft tissue. A case report. *J Bone Joint Surg Am* 2000; 82A: 1634-8.
9. Strong VE, Shalkow J, Antonescu CR, Meyers P, La Quaglia MP. Osteosarcoma with delayed metastasis to the stomach. *J Pediatr Surg* 2007; 42: 737-9.
10. Kim SJ, Choi JA, Lee SH, Choi JY, Hong SH, Chung HW, Kang HS. Imaging findings of extrapulmonary metastases of osteosarcoma. *Clin Imaging* 2004; 28: 291-300.
11. Aarvold A, Bann S, Giblin V, Wotherspoon A, Mudan SS. Osteosarcoma metastasizing to the duodenum and pancreas. *J Bone Joint Surg Br* 2007; 89: 542-4.
12. Horiuchi A, Watanabe Y, Yoshida M, Yamamoto Y, Kawachi K. Metastatic osteosarcoma in the jejunum with intussusception: report of a case. *Surg Today* 2007; 37: 440-2.
13. Chrouser KL, Sim FH, Lieber MM. Intravascular extension of an osteosarcoma of the pubic bone into periprostatic venous plexus. *Urology* 2005; 65: 1001.
14. Nishima T, Ikarashi T, Terunuma M, Ishizaki S. Osteogenic sarcoma of the prostate. *J Urol* 2001; 8: 199-201.