

## 방골성 골육종의 생존분석

서울대학교 의과대학 정형외과학교실

이상훈 · 이창섭 · 이한구 · 김석준

— Abstract —

### Survival Study of Parosteal Osteosarcoma

Sang-Hoon Lee, M.D., Chang-Seop Lee, M.D., Han-Koo Lee, M.D. and Sug-Jun Kim, M.D.

*Department of Orthopaedic Surgery, College of Medicine, Seoul National University*

The prognosis of parosteal osteosarcoma is better than any other malignant bone tumors, but there are many controversies in its treatment. We tried to evaluate the prognosis and the effectiveness of limb-salvage operation in the treatment of the parosteal osteosarcoma.

We experienced 12 patients of conventional parosteal osteosarcoma(2 males and 10 females) from 1981 to 1991. The limb-salvage operations with wide resection margin were done in 8 patients(5 tumor prosthesis, 2 resection arthrodesis and 1 vascularized fibular transplantation), marginal en-bloc resection and amputation in 2 patients, respectively. The duration of mean follow up was 5 years and 9 months, ranging from 2 year-3 months to 11 years, except of the patient who died with metastasis 1 year 8 months after.

The disease-free survival rate(DFSR) of all patients was 68% and that of the patients treated with limb-salvage operation was 88% at 7 years. The DFSR was 33% with marginal margin(3 cases) and 89% with wide margin(9 cases) at 7 years.

The results were unsatisfactory in the conventional parosteal osteosarcoma treated with marginal resection. The limb-salvage operation with wide surgical margin was thought to be the treatment of choice.

**Key Words** : parosteal osteosarcoma, limb-salvage operation, survival rate

---

※ 통신저자 : 이 상 훈

서울시 종로구 연건동 28번지  
서울대학교 의과대학 정형외과학교실

※ 본 논문의 요지는 1993년도 대한정형외과학회 춘계학술대회에서 발표되었음.

※ 이 연구는 1993년도 서울대학병원 지정진료 연구비의 지원에 의한 결과임.

방골성 골육종은 골외측에서 기원하고 성장이 비교적 느리며, 일반적으로 좋은 예후를 가지기 때문에 전형적인 골육종과 구별되는 하나의 악성 종양으로 취급되고 있다. 원발성 악성 골종양 빈도의 5% 이내의 발병율을 보이고, 전형적인 골육종과는 달리 여성에서 많이 발병하는 것으로 알려져 있으며, 넓은 연령 분포를 보이고 있다.

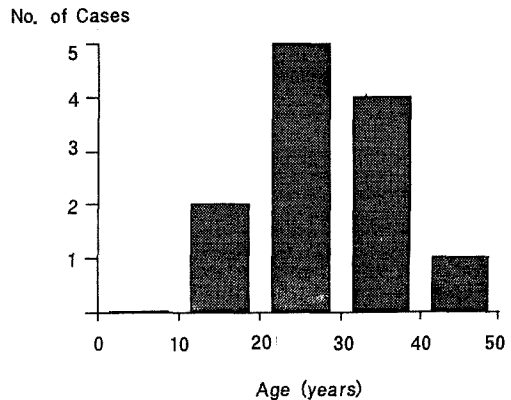
방골성 골육종을 Picci 등<sup>6)</sup>은 방사선 소견상 골외측에서 기원하여 위치하며, 병리 소견상 분화도가 비교적 양호한 병변으로 국소적인 골수 침범이 있을 수도 있다고 정의하였다(Table 1). 최근 표재성 골육종(surface osteosarcoma)을 방골성 골육종, 역분화성(dedifferentiated) 방골성 골육종, 골막성 골육종(periosteal osteosarcoma) 그리고 High-grade 표재성 골육종의 4가지로 분류하는 경향이다<sup>4,8,11)</sup>. 이러한 분류는 그동안 논란이 되어왔던 방골성 골육종내 일부분에 high-grade 육종이 공존하는 경우를 '역분화성 방골성 골육종'으로 별도로 분류한 것으로 치료 및 예후면에서 매우 타당한 방법이라 생각된다. 이러한 표재성 골육종은 각각 다른 치료 방법을 선택해야 하며, 이에 따른 치료 결과의 분석이 필요하다고 생각한다. 특히 방골성 골육종은 사지 보존술(limb-salvage operation)의 좋은 적용증이 되지만 이에 대한 결과 보고가 국내에서는 찾기 어려웠다.

전형적인 방골성 골육종으로, 1981년부터 1991년까지 서울대학병원 정형외과에서 수술적 치료를 받았고, 장기간의 추시가 가능했던 12례를 대상으로 하였다. 이들은 모두 술후 조직 검사상 분화 정도가 좋은 전형적인 방골성 골육종이었다. 수술 당시의 연령은 15세에서 43세로 평균 28.3세이었으며(Fig. 1), 이 중 남자가 2례, 여자가 10례로 여성에서 많았다. 대상으로 한 12명의 내원시 주증상은 종물의 축지가 11례로 가장 많았으며, 이 중 5명은 동통이 없는 종물을 호소하였고, 6명은 동통과 동반되었다. 나머지 1명은 동통만을 호소하였다. 주증상의 시작과 진단까지의 기간은 1개월에서 2년으로 평균 10개월이었으며 5례에서는 1년이상이었다. 추시 기간은 평균 5년 9개월이었으며, 원격 전이로 1년 8개월에 사망한 1례를 제외하고는 2년 3개월에서 11년 사이였다. 종양의 위치는 원위 대퇴골이 9례로 가장 많았고, 근위 상완골과 근위 경골이 각각 2례와 1례씩이었다. 임상적, 방사선적 검사 뿐만 아니라 모든 예에서 술전에 확진을 위한 생검을 시행하였다. 방사선적 검사에서 MRI는 신경 혈관 침범이나 골수 침범 정도를 알기 위하여 시행하였고, 필요한 경우 혈관 조영술을 시행하여 사지 보존술의 적합성 여부를 판정하였다. 병리 소견은 주로 판독지에 의존하였다. 술후 7개월만에 전이가 발견된 1례는 보관된 병리 slide를 재검토하였으나 CT나 MRI는 확인하

**Table 1.** Definition of Parosteal Osteosarcoma(Picci et al, 1987)

1. Radiologically, predominantly extracortical
2. Histologically, well differentiated with/without focal or appreciable BM involvement
3. Focal areas of high-grade osteosarcoma(+)
--> dedifferentiated Parosteal Osteosarcoma

이에 저자들은 표재성 골육종 중 역분화성이 없는 전형적인 방골성 골육종만을 대상으로 하여 치료방법에 따른 무병 생존율(disease-free survival rate)을 구하고자 하였다.



**Fig. 1.** Distribution of age

지 못하였다. 치료 방법으로는 사지 보존술이 8례에서 시행되었고, 사지 절단술과 변연부 절제술(marginal resection)은 각각 2례에서 시행되었다(Table 2). 사지 보존술이 시행된 8례는 종양제거 후 대체삽입물 5례, 절제 관절고정술(resection arthrodesis) 2례, 그리고 생비골 이식술 1례이었다. 모든 예에서 항암 요법이나 방사선 요법은 시행하지 않았다.

**Table 2.** Methods of Operation

Method	No. of cases
Limb-salvage	8
Amputation	2
Maginal resection	2

이들에 대한 주기적인 흉부 엑스선 촬영과 필요한 경우 흉부 CT 촬영이나 골주사 검사를 시행하여 병소의 전이 또는 국소 재발 여부를 추시하였다.

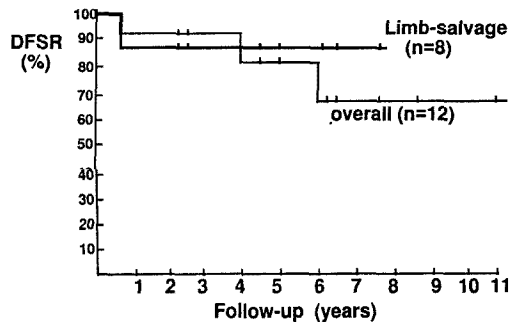
결과에 대한 분석은 Kaplan-Meier 방법으로 무병 생존율을 수술 방법에 따라 구하였고 이들을 비교하였다.

## 결 과

저자들이 대상으로 하였던 12례의 요약은 Table 3과 같았다. 슬관절 상부 절단술을 시행한 7번째는 슬관절 혈관 조영술상 슬와 동맥과 좌골 신경이 종양속에 묻혀 있었기 때문에 사지 보존술이 불가능하였고, 12번째는 종양 조직이 광범위하여 전사반부 절단술을 시행하였으나 변연부 절제 범위에 그쳤다. 8번째

에서는 처음 변연부 절제술후 절제면에 종양 조직이 남아있어 재수술로 광범위 절제술후 사지 보존술을 시행하였다.

저자들이 대상으로 하였던 12례 중, 국소 재발, 원격 전이(6번째), 그리고 국소 재발 및 원격 전이(12번째)가 각각 1례씩에서 있었다. 나머지 9례에서는 전이나 재발이 없었다. 국소 재발은, 원위 대퇴골의 방골성 골육종으로 변연부 절제술을 받은 2례 중 1례에서 술후 6년만에 발견되었고(2번째), 사지 절단술을 환자가 거부해 더 이상의 수술적 치료가 중단되었다. 원격 전이된 1례는 근위 경골부 방골성 골육종으로 사지 보존술 시행후 7개월만에 폐와 다발성 골에 전이가 발견되었고(6번째), 나머지 1례는 변연부 절제 범위에 그친 전사반부 절단술후 3년 11개월만에 국소 재발 및 폐전이 발견되었다(12번째). 이상의 결과로 전체적인 방골성 골육종의 7년 무병 생존율은 68%이었고 사지 구제술을 받은 8례에서는 88%를 보였다(Fig. 2). 또한 절제 범위에



**Fig. 2.** Disease-free survival rate of all cases and those with limb-salvage operation

**Table 3.** Clinical details of 12 patients

No.	Age/Sex	Site	C.C.	Duration of Sx.	Tx.(surgical margin)	F/U	Result or Cx.
1	M/15	dF	Mass	9 mo.	Tumor prosthesis(wide)	5 yr.	Sciatic n. palsy Infection
2	F/26	dF	Mass, Pain	2 yr.	Excision only(marginal)	10 yr.	Local recurrence(6 yr)
3	F/16	dF	Mass, Pain	5 mo.	Tumor prosthesis(wide)	4 <sup>+</sup> yr.	
4	M/34	pH	Mass, Pain	7 mo.	Fibular transpl.(wide)	6 <sup>+</sup> yr.	
5	F/28	dF.	Mass	9 mo.	Tumor prosthesis(wide)	6 <sup>+</sup> yr.	
6	F/35	pT	Mass, Pain	5 mo.	Resection arthrodesis(wide)	1 <sup>+</sup> yr.	Metastasis(7 mo) Infection
7	F/23	dF	Pain	1 mo	Amputation(wide)	8 <sup>+</sup> yr.	
8	F/36	dF	Mass, Pain	1 yr.	Tumor prosthesis(wide)	2 <sup>+</sup> yr.	Peroneal n. palsy
9	F/43	dF	Mass	1 <sup>+</sup> yr.	Resection arthrodesis(wide)	7 <sup>+</sup> yr.	
10	F/27	dF	Mass, Pain	4 mo.	Tumor prosthesis(wide)	2 <sup>+</sup> yr.	
11	F/35	dF	Mass	1 <sup>+</sup> yr.	Excision only(marginal)	11 yr.	
12	F/22	pH	Mass	1 yr.	Amputation(marginal)	4 <sup>+</sup> yr.	Local recurrence(3 <sup>+</sup> yr)

dF : distal femur, pH : proximal humerus, pT : proximal tibia, C.C.:Chief Complant, Sx.:Symptom, Tx.:Treatment, Cx.:Complication, transpl.:transplantatin.

다른 무병 생존율을 비교해 보면, 변연부 절제 범위에 그쳤던 3례중 2례에서는 술후 3년 11개월과 6년에 국소재발 및 국소 재발과 전이가 발생하였으며, 광범위 절제가 가능했던 9례에서는 1례만이 술후 7개월에 폐 전이를 보였다. 따라서 이들에 대한 7년 무병 생존율은 각각 33%와 89%를 보였다(Fig. 3).

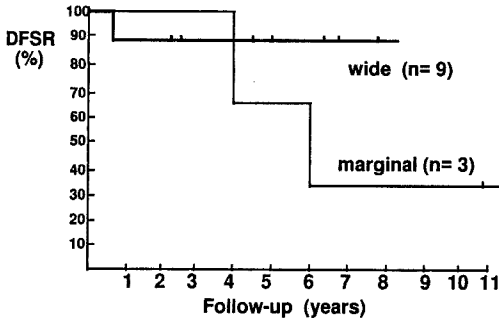


Fig. 3. Disease-free survival rate according to the surgical margin

병리 소견은, 모든 예에서 분화도가 양호하였으며, 분화도가 불량해 악성도가 높은 소견을 보이는 부분을 포함하는 예는 없었다. 12례 중 부분적 골수 침범이 조직 검사상 확인된 예는 6례(2, 5, 6, 7, 10, 12번례)였고, 1례는 직경 1cm 크기였으며, 나머지 5례는 현미경으로만 알 수 있는 미세한 부분이었다. 이들 6례 중 1례는 변연부 절제술만을 시행한후 6년 만에 국소 재발하였고, 다른 2례는 사지 보존술후 7개월과 사지 절단술후 3년 11개월만에 원격 전이된 예이었으며, 골수 침범이 없는 6례에서는 국소 재발이나 전이가 없었다(Table 4). 이러한 결과는 재발이나 전이가 수년후에도 많이 발생하였고, 골수 침범과 재발이나 전이 사이에 연관성이 있을 가능성을 말해주고 있다.

Table 4. Bone Marrow Involvement and Recurrence or Metastasis

BM inv.	No. of Cases	No. of Recurrence or Metastasis
(+)	6	3 (50%)
(-)	7	0 (0%)

합병증으로는 술후 2례에서 각각 비골 신경(8번례)과 좌골 신경 마비(1번례)를 보였고, 2례에서 국소 감염이 있었다. 이들은 모두 사지 보존술후 발생한 것으로, 신경 마비는 마지막 추시 시까지 부분마

비가 지속되었고, 국소 감염은 치유되었다.

## 증례예시

### 증례 1. (5번례)

여자 28세, 우측 대퇴골 원위부의 방골성 골육종으로 종양제거후 대체삽입물을 이용한 사지 보존술을 시행하였다. 술후 6년 7개월간 재발이나 전이 소견 없이 생존하고 있다(Fig. 4).

### 증례 2. (9번례)

여자 43세, 우측 대퇴골 원위부의 방골성 골육종으로 절제 관절고정술을 시행하였다. 술후 7년 7개월간 재발이나 전이 소견 없이 생존하고 있다(Fig. 5).

### 증례 3. (4번례)

남자 34세, 좌측 상완골 근위부의 방골성 골육종으로 생비골 이식술을 이용한 사지 구제술을 시행하였다. 술후 6년 3개월간 재발이나 전이 소견 없이 생존하고 있다(Fig. 6).

## 고 찰

방골성 골육종은 1951년 Geschicker와 Copeland가 처음으로 기술한 이래, 여러 저자에 의해 많은 예가 발표되었고, 전형적인 골육종에 비해 잘 분화된 조직 소견과 좋은 예후를 보이고 있기 때문에, 독립된 골육종의 한 형태로 인정되어 왔다. 그러나, 1980년대 이후 방골성 골육종에서도, 부분적으로 미분화된 조직 소견을 가지며 임상적 경과에서 악성적인 면이 두드러진 것이 기술되면서 전형적인 방골성 골육종과 구분하여 역분화성 방골성 골육종으로 기술하기에 이르렀다<sup>3,4,8,9,11)</sup>. 치료면에서도 전형적인 방골성 골육종은 수술적인 치료만을 권하고 있으나, 역분화성 방골성 골육종은 수술뿐만 아니라 항암요법도 시행해야 한다는 추세이다<sup>8)</sup>. 저자들도 전형적인 방골성 골육종에서 항암 요법을 시행하지 않고 수술 요법만을 시행하였다.

저자들이 대상으로한 12명중 남자 2명, 여자 10명으로 여성에서 5배 많았고, 연령 분포는 15세에서 43세로 평균 28.3세이어서, 기존의 보고들 보다 여성이 더 많았으며 연령 분포는 비슷하였다(Fig. 1).

단순 X-선상, 거의 모든 예에서 진한 골경화상과



**Fig. 4.** Case 1. 28-year-old female, (1) shows radiograph of parosteal osteosarcoma, predominantly extracortical lesion at distal femur. (2) She was treated with limb-salvage operation using tumor prosthesis. after wide resection. (3) and (4) show typical gross and microscop findings of parosteal osteosarcoma.



Fig. 5. Case 2. 42-year-old female, (1) and (2) show preoperative and postoperative radiograph of parosteal osteosarcoma. She was managed with resection arthrodesis after wide margin.

엽상을 나타내었고, 골외측에 넓은 부착면을 보였다. 원위 대퇴골에 위치한 9레중, 6레에서 후면에 종양이 주로 위치하였고, 그밖에 앞내측면에 2레, 외측면에 1레가 각각 위치하였다. MRI 사진이나 판독지는 6레에서 확인할 수 있었으며 이들 모두 종양과 신경 혈관과의 관계를 비교적 명확히 알 수 있었으나, 골수 침범 여부는 1cm 크기의 1레에서만 침범이 있는 것으로 나타났고, 조직 소견상 미세한 침범을 보인 5레에서는 알 수 없었다. 골주사 검사는 7레에서 시행되었고, 절제 범위를 결정하는데 도움이 되었으며, 원격 전이 여부는 술전뿐만 아니라 술후 폐 및 폐와 다발성골전이기가 있었던 2레에서도 진단에 도움이 되었다.

방골성 골육종의 수술 방법으로는, 그동안 변연부 절제술과 사지 절단술을 주로 사용하여 왔다. Lortzon 등<sup>9)</sup>의 경험과 문헌 고찰에 의하면, 방골성 골육종의 재발이 매우 지연되어 나타나기 때문에, 5년 생존율이 73%인 반면 10년 생존률은 36%로 보고하였고, 사지 절단술도 지연성 전이를 줄이지 못한다고 하였다. 변연부 절제술은 절제연이 불확실하여

국소 재발이 많고 때로는 재수술을 해야 하는 경우도 있어 불확실한 방법이라고 생각되었으며, 적어도 광범위 절제가 필요하다고 사료되었고, 기능적인 면을 고려하면 광범위 절제후 사지 보존술이 사지 절단술보다 권장할만한 방법이라고 사료되었다.

사지 보존술은 종양이 침윤 파괴한 골이나 연부 조직을 종양을 포함하여 주변의 정상 조직에 둘러싸인채로 한 덩어리가 되게 광범위 절제후 골결손을 인공골이나 인공 관절 등의 생체 재료, 동종골 혹은 자가골 등으로 보충하는 방법으로<sup>1)</sup> 광범위 절제 범위를 유지하면서 기능을 살릴 수 있는 방법이다. '이' 등<sup>2)</sup>에 의하면 이 수술의 적용 조건으로, 가능하면 성장이 거의 완료된 환자이어야 하고, 골내외 병변이 국한되어 있어야 하며, 중요한 혈관 신경의 침범이 없어야 한다고 하였다. 방골성 골육종은 발병 연령이 대부분 성장이 종료된 후이며, 종양이 침윤적으로 주위 조직에 퍼지는 경우가 드물기 때문에, 술전 MRI나 혈관 조영술 등을 이용하여 중요한 혈관과 신경의 상태를 파악한후 사지 보존술을 시행한다면, 많은 예에서 그 적용이 가능하다고 생각한

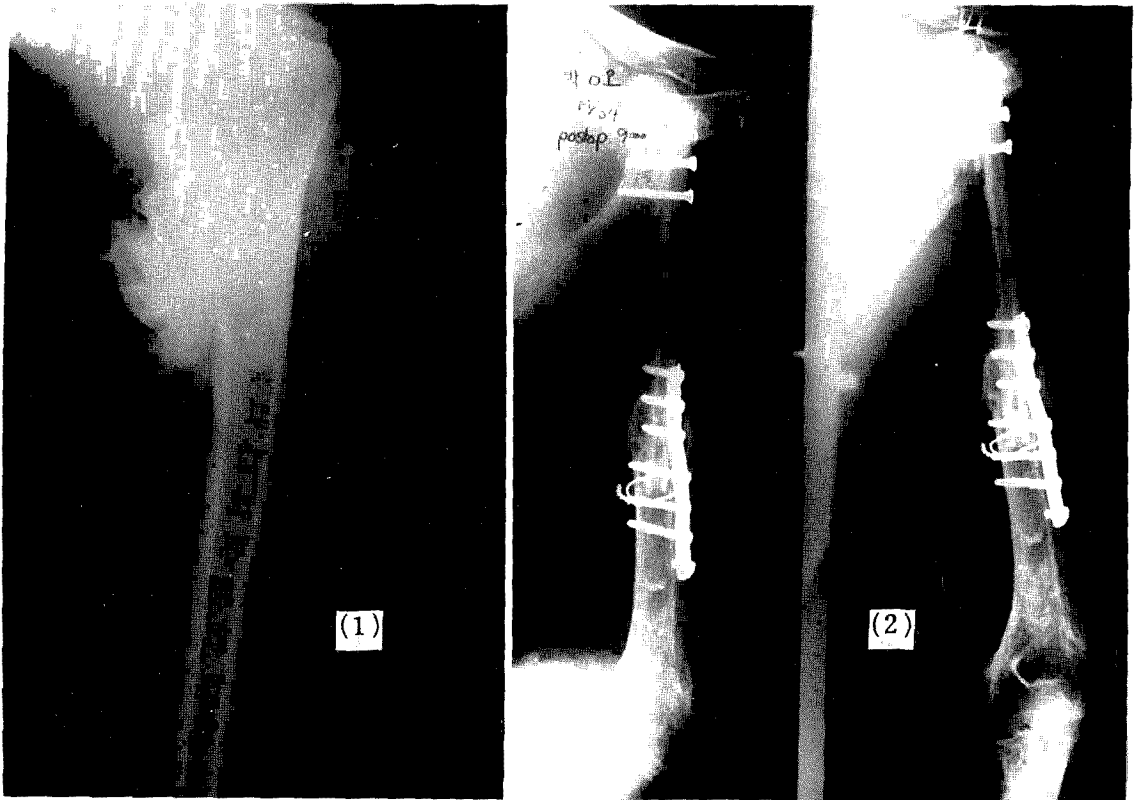


Fig. 6. Case 3. 34-year-old male, (1) shows parosteal osteosarcoma in proximal humerus. (2) He was treated with vascularized fibular transplantation after wide resection.

다. 저자들의 12례 중, 종양의 혈관 및 신경 침범이 있어 사지 절단술을 시행한 2례(7, 12번째)를 제외한 나머지 10례는 사지 구제술이 가능한 예들이었다.

여러 저자들에 의해 방골성 골육종의 5년 생존율이 64-90%로 보고되어 있으나<sup>3,9,11)</sup>, 이들의 보고는 대부분 역분화성 방골성 골육종을 포함하고 있을 뿐만 아니라 불확실한 절제 범위로 시행된 수술 예들을 포함하고 있어, 전형적인 방골성 골육종의 광범위 절제술에 대한 예후를 말해주지는 못한다고 본다. 전형적인 방골성 골육종의 수술에서 방사선적 검사 및 술전 생검등이 정확한 진단으로 역분화성 방골성 골육종과 감별하여 적어도 광범위 절제 범위를 유지할 수 있는 수술이 시행된다면 저자들의 결과와 같이 90%에 가까운 결과를 얻을 수 있다고 생각된다. 또한 방골성 골육종에서 사지 보존술에 대한 연구 결과가 미흡한 상태에서 저자들의 적은 9례 만으로는 그 결과를 판정하기 어렵지만, 광범위 절

제가 가능한 사지 보존술은 방골성 골육종에서 매우 유용한 수술 방법이라고 생각된다.

방골성 골육종에서 골수 침범 정도와 예후에 대해서는 여러 논란이 있어 왔다. Raymond 등<sup>8)</sup> 골수 침범 정도가 장기적인 예후에 영향을 미치지 못하며, 있다하더라도 큰 의의가 없는 정도라고 하였으나, Campanacci 등<sup>3)</sup>은 골수 침범이 있는 예에서는 40%의 전이가 있고, 골수 침범이 없는 예에서는 7%의 전이가 있음을 보고하였고, 골수 침범이 술전 증상 기간과 비례한다고 하였으며, O'Connor 등<sup>5)</sup>도 골수 침범이 예후에 좋지 않은 영향을 준다고 보고하였다. 저자들의 예에서도 재발이나 전이를 보인 3례가 모두 골수 침범을 보이고 있어 이를 뒷바침하고 있으나 좀더 많은 연구가 필요하다고 사료되었다 (Table 4).

## 요약 및 결론

서울대학교 의과대학 정형외과학교실에서 1981년부터 1991년까지 전형적인 방골성 골육종으로 수술적 치료를 받은 12례를 분석한 결과 다음과 같은 결과를 얻었다.

1. 전형적인 방골성 골육종은 치료 방법과 예후가 다른 역분화성 방골성 골육종과 구분해야 된다고 사료되며, 항암요법없이 수술적 제거만으로 68%의 7년 무병 생존율을 얻었다.

2. 절제연에 따른 7년 무병 생존율은, 변연부 절제에 그친 3례에서는 33%를, 광범위 절제연을 가진 9례에서는 89%이었으며 Fisher's exact test에 의해 두 군간의 통계적유의성은 없었다( $P>0.05$ ).

3. 광범위 절제후 사지 보존술을 시행한 8례에서도 7년 무병 생존율이 88%로 우수한 결과를 얻었으며, 좋은 치료 방법으로 권장할만 하다고 사료되었다.

## REFERENCES

- 1) 이수용, 백구현 : 악성 골 연부종양 치료지침, 원자력병원 정형외과, 1991.
- 2) Ahuja SC, Villacin AB, Smith J, Bullough PG, Huvos AG and Marcove RC : Juxtacortical (Parosteal) osteogenic sarcoma. *J Bone Joint Surg* ; 59-A : 632-647, 1977.
- 3) Campanacci M, Picci P, Gherlinzoni F, Guerra A, Bertoni F and Neff JR : Parosteal osteosarcoma. *J Bone Joint Surg* ; 66-B : 313-321, 1984.
- 4) Klein MJ, Kenan S and Lewis MM : Osteosarcoma-clinical and pathological considerations. *Orthop. Clin. of N. America* ; 20-3, 1989.
- 5) O' Connor MI and Sim FH : Salvage of the limb in the treatment of malignant pelvic tumors. *J Bone Joint Surg* ; 71-A : 481-492, 1989.
- 6) Picci P, Campanacci M, Bacci G, Capanna R and Ayala A : Medullary involvement in parosteal osteosarcoma. *J Bone Joint Surg* ; 69-A : 131-136, 1987.
- 7) Quill G, Gitelis S, Norton T and Piacecki P : Complications associated with limb-salvage for extremity sarcomas and their management. *Clin Orthop* ; 260 : 242-250, 1990.
- 8) Raymond AK : Surface Osteosarcoma. *Clin Orthop* ; 270 : 140-148, 1991.
- 9) Rorentzen R, Larsson SE and Boquist L : Parosteal(Juxtacortical) osteosarcoma. *J Bone Joint Surg* ; 62-B : 86-92, 1980.
- 10) Schajowicz F : Current trends in the diagnosis and treatment of malignant bone tumors. *Clin Orthop* ; 180 : 220-252, 1983.
- 11) Schajowicz F, McGuire M, Araujo ES, Muscolo DL and Gitelis S : Osteosarcomas arising on the surfaces of long bones. *J Bone Joint Surg* ; 70-A : 555-564, 1988.
- 12) Van der Heui RO and Von Ronnen JR : Juxtacortical osteosarcoma. *J Bone Joint Surg* ; 49-A : 415-439, 1967.