

## 상악 전치부에 발생한 고립성 형질세포 골수종

정지아 · 서고은 · 송준호 · 박상준

인제대학교 부산백병원 의과대학 구강악안면외과학교실

### Abstract

#### SOLITARY PLASMA CELL MYELOMA ON ANTERIOR MAXILLA: A CASE REPORT

Ji-A Jeong, Go-Eun Seo, Jun-Ho Song, Sang-Jun Park

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, School of Medical, Pusan Paik Hospital, Inje University

Plasma cell myeloma is malignant disease of plasma cell in the bone marrow. Myeloma accounts for about 1% of all cancers. The solitary plasma cell myeloma is rare tumors and account for less than 10% of plasma cell neoplasm. It is often progress to multiple myeloma at 30-40% despite successful local treatment with surgery and radiation therapy. We are reporting a case of solitary plasma cell myeloma on anterior maxillary region that developed after kidney transplantation and immunosuppressive therapy.

**Key words:** Solitary plasma cell myeloma, Maxilla, Kidney transplantation

### I. 서 론

형질세포 골수종은 골수에 발생하는 형질세포의 악성 질환이다. 이것은 단핵 면역글로불린이 혈청이나 소변에서 배출되는 것이 특징으로 종종 골의 통증, 빈혈, 신부전이 발생된다. 형질세포 골수종은 전체 암의 1%를 차지하고 이중에서도 고립성 형질세포 골수종은 형질세포 골수종 중에서도 10%를 차지하는 희귀한 질환이다.<sup>1)</sup> 그러나 이것은 종종 성공적인 수술이나 방사선 치료와 함께 국소적인 치료를 해도 30-40%는 다발성 골수종으로 진화되는 경우도 있다.<sup>2)</sup> 우리는 신장이식후 면역억제제를 복용하면서 상악전치부에 발생한 고립성 형질세포 골수종이 발생한 환자를 국소적인 절제와 방사선 치료를 시행하였고 이를 문헌과 함께 고찰하는 바이다.

### II. 증례 보고

본 증례는 인제대학교 부산 백병원 구강악안면외과에 내원한 39살의 남자 환자로서 내원 1개월전 상악 좌측 중절치 부위에 치은 종창을 주소로 내원하였다. 환자는 2007년 1

월경 신장이식후로 줄곧 면역억제제의 일종인 cyclosporine 과 스테로이드 제제인 prednisolon을 복용중이었다. 내원 당시 임상검사상 환자는 상악 좌측 중절치 치근단 부위에 등근 형태로 약 1 cm크기의 파동성 종창을 보였고 방사선 사진상 상악 우측 견치에서 좌측 견치까지 이르는 방사선 투과성의 종양 소견을 보였으며 이로 인해 치아의 부분적인 변위를 볼 수 있었으며 CT상에도 단순 협축, 구개측의 피질 골의 팽창과 골흡수소견을 관찰 할 수 있었다 (Fig. 1).

2007년 3월 임상 및 방사선 검사상 치근단 낭종으로 가 진단을 내리고 CT 판독상에서도 동일진단을 얻었으므로 따로 흡입검사는 시행하지 않고 전신마취하에 낭종 제거술 및 조직검사 시행하였다.

조직 검사상 환자는 형질 세포종으로 진단 받았다. 다른 곳으로 전이를 확인하기 위해 골수조직에 needle biopsy 시행하였고 결과는 정상이었으며 환자는 다발성 골수종 환자들이 일반적으로 가지고 있는 다른 골 부위의 질환이나 신부전, 빈혈, 감염등의 소견<sup>3)</sup>은 보이지 않았고, 다른곳으로 전이되지 않았음을 확인 할 수 있었다 (Fig. 2).

특히 방사선 소견상 skull 부위가 정상적인 골양상을 보이며, 다발성 골수종 환자들의 일반적인 특징인 두개골 방

사선 사진상의 punch-out appearance 은 관찰되지 않았다 (Fig. 3).

환자는 25번동안 45 Gy의 방사선 치료가 계획되었고 일

주일에 5일, 하루에 한번 2.33 Gy로 치료하기로 하였고 지속적인 방사선 치료와 함께 본원에서 경과 관찰 중이다.

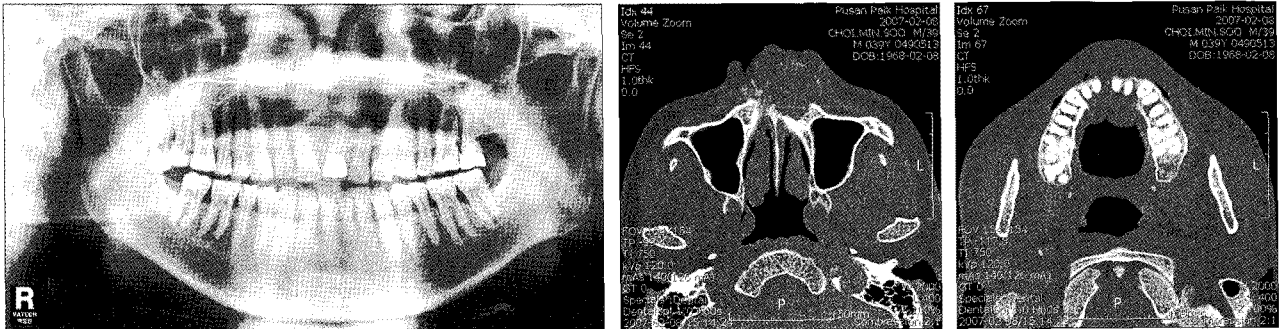


Fig. 1-A. Pre-op panorama & CT (#13-#23 apical site radiolucency and cortical bone expansion).

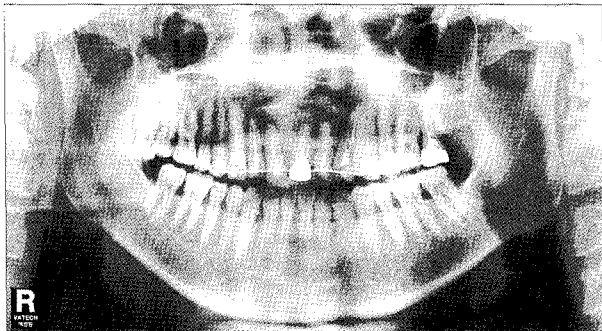


Fig. 1-B. Post-op panorama after cyst enucleation & apicoectomy.

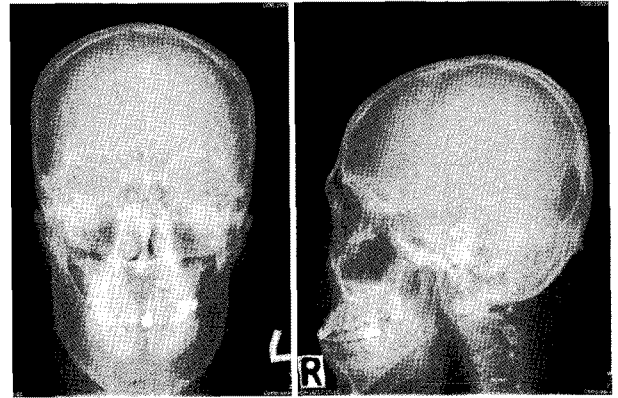


Fig. 3. Skull-series (normal bone pattern, non punch-out appearance).

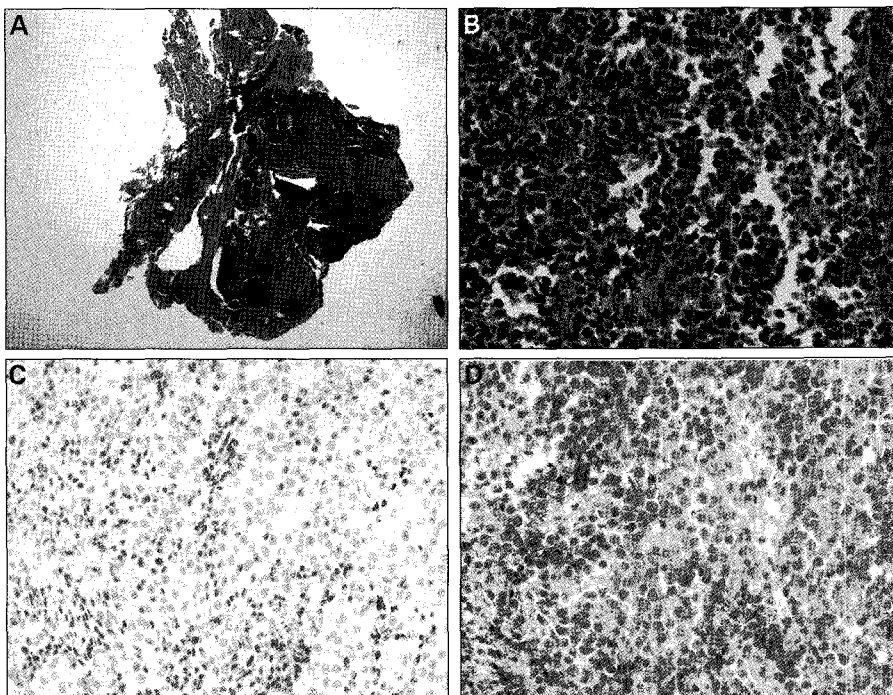


Fig. 2. A. A discrete plasma cell mass displaces normal bone and soft tissue (H&E X10). B. The nuclear chromatin is dispersed and nearly every nucleus contains a prominent centrally located brightly eosinophilic nucleolus (H&E x400). C,D. Cytoplasmic kappa light chain positivity and absence of lambda light chain expression.

### III. 고 찰

골수종 세포와 골수 간질 세포는 밀접한 연관성이 있다. 골수종 세포는 골수 간질 세포를 interleukin-6 (골수종 세포의 가장 중요한 성장과 생존 요소)과 RANK-L (골과괴적인 골 흡수의 가장 중요한 중개자)로 유도한다. Interleukin-6는 다양한 세포의 성장 및 분화, 면역반응, 급성기 반응, 조혈작용등을 조절하는 여러 기능을 가진 사이토카인이다. 이러한 여러기능을 가진 interleukin-6의 생산조절이 잘못되면 류마티스 관절염, 간염, 다발성 골수종등 여러가지 자가면역 질환과 관련지어지는 것으로 알려져 있다.<sup>13)</sup> 한편, 다발성 골수종의 경우 여러조직에서 이것이 높은 수준으로 검출되어 지는 것이 특징이다.

RANK-L은 골대에 중요한 분자로서 골화세포를 활성화 시키고 골 흡수와 연관이 있다.

따라서 이것의 과증식시 과과성 골 질환이 나타날 수 있는데, 예를 들어 류마티스 관절염이 발병할 수 있다.<sup>14)</sup>

간질세포로의 부착은 골수종 세포에의한 혈관 내피 성장요소의 분비를 억제 시키며 새로운 혈관의 형성을 촉진하는데 이것은 종양의 성장에 중요한 요인이 된다. 남은 정상 B 세포는 억제 되고 다핵 면역글로불린의 감소를 촉진하며 감염에 대한 감수성을 증가시킨다 (Fig. 4).<sup>5)</sup>

그래서 환자는 여러가지 특징을 보이는데 대표적으로 가장 흔히 나타나는 것이 골의 질환이다. 특히 통증은 이환 환자의 60%에서 나타나고 방사선 사진상 골용해성의 모습이나 병적 골절소견을 보이기도 하고 골다공증처럼 나타나기도 한다. 이것은 hypercalcemia의 증가로 발생된 두번째 특징은 신부전으로써 이환 환자의 25-30%에서 발생한다. 발생하는 원인은 hypercalcemia나 간염, 탈수, 비 스테로이드성 염증억제 약등이 원인이 될수 있다.

세번째 특징은 빈혈로써 이것은 cytokine이나 interleukin-1에 의해 중재되어 나타난다.

마지막 특징은 감염으로써 골수종 환자는 주로 불완전한 체액성 면역세포를 가짐으로써 박테리아나 바이러스에 대한 감수성 증가를 초래하게 된다.<sup>9)</sup>

고립성 형질세포 골수종은 매우 드문 악성 질환으로써 주로 두경부에서 발생한다. 대부분의 환자는 중량의 방사선 치료로 치료 되며 이중 일부 환자는 외과적 개입이 필요하다. 방사선 치료는 일반적으로 3-4주의 기간을 두고 15-20일동안 35 GY로 시행된다.<sup>6)</sup>

보조적인 항암치료는 일반적으로 추천되지 않고 있다. 재발의 가장 흔한 형태는 전신적으로 나타나는 것으로 수외성 형질세포 골수종 보다 골에서 발생한 고립성 형질세포 골수종 치료후 더 자주 발생하게 된다.<sup>6)</sup>

골 괴사성 질환이 대량의 스테로이드를 사용하는 교원성 혈관질환, 신장이식, 림프구증식증 환자에서 발생의 위험이

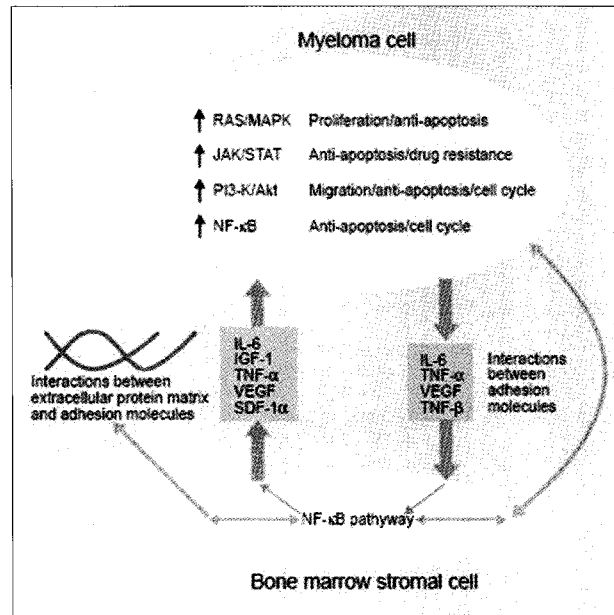


Fig. 4. Interactions between myeloma cells and the bone marrow micro-environment (from Medscape).

높다는 사실은 일반적으로 알려져 있다.

그러나 신장이식 환자들에 있어서 골수종의 발생은 거의 알려져 있지 않다.<sup>10)</sup> 미국신장이식 센터에서 신장이식 환자들을 1991년에서 2000년까지 조사했을 때 1169명의 환자 중에서 60명 (약 0.1%)의 환자에서 형질세포 골수종을 발견할 수 있었다.<sup>11)</sup>

C. Shustik은 10년전 신장이식한 14세의 소녀에서 신장에 발생한 고립성 형질세포종에 대해서 보고한 적이 있는데 그 외에도 Cincinnati Transplant Tumor Registry에 등록된 7393명의 환자 중에서도 44명이 형질세포 골수종을 보였고 이중 고립성 형질세포 골수종은 오직 5명의 환자에서 보였다.<sup>12)</sup> 따라서 신장 이식 환자에 있어서 높지는 않으나 형질세포골수종의 발병율을 무시할 수는 없을 것 같다.

우리 환자의 경우 신장 이식후 cyclosporine과 prednisolon을 복용중이었다. Cyclosporine은 T세포의 활성을 억제 함으로써 면역억제 효과를 가진다. 그래서 골에 대한 독성과 악성 종양을 활성화 시킨다고 보고되고 있다. Prednisolon 은 대식세포의 interleukin-1의 분비를 억제하는 효과가 있다.<sup>7)</sup> 따라서 이 환자의 경우 다른 환자에 비해 형질세포 골수종에 대한 발병 가능성이 높지 않았는지 추정해 볼 수 있다. 일반적으로 고립성 형질 세포종의 5년 생존율이 60%인데 반해 다발성으로 진행될 경우 생존율은 5.7% 밖에 되지 않는다. 따라서 장기적인 관찰이 필수적이며 우리의 보고는 제한적인 경우로 더 많은 연구와 관심이 필요할 것으로 생각된다.

## References

1. Anderson KC, Saughnessy JD, Barlogie B : Multiple myeloma. *Hematology*: 214, 2002.
2. Pei Lin MD : Plasma cell myeloma. *Hematology Oncology Clinics of North America Volume 23 : Issue 4 August, 2009*.
3. International Myeloma Working Group. Criteria for the classification of monoclonal gammopathies, multiple myeloma and related disorders : a report of the International Myeloma Working Group. *Br. J. Haematol*: 74, 2003.
4. Richard Ravel : *Clinical laboratory Medicine*, Philadelphia, Mosby : 349, 1995.  
Peter H, John M, Janice P *et al* : *Neoplastic Diseases of the Blood*, 4th ed. Cambridge, Press Syndicate of the University of Cambridge : 482, 2003.
5. Attal M, Harousseau J L, Stoppa A M : Autologous bone marrow transplantation versus conventional chemotherapy in multiple myeloma. A prospective, randomized trial. *N Engl Med.* : 22591, 1997.
6. Cavenagh J D, Oakervee H : thalidomide in multiple myeloma. Current status and future prospects. *Br J Haematol* : 120, 2003.
7. *Int. J. Radiation Oncology Biol. Phys.* : Vol.50: 113, 2007.
8. Oral surgery, oral medicine, oral pathology and endodontology : 103, 2007.
9. D.Taheri, A.Chehrei, M.Fesharakizadeh *et al* : *Transplantation Proceedings*, Vol.39, Issue 4, May : 1063, 2007.
10. Caillard, Sophie I, Agodoa, Lawrence Y *et al* : *Transplantation*. 81(6):888-895, March 27, 2006
11. Bergsagel, D.E.: Plasma cell myeloma: biology and treatment. *Annual Review of Medicine*: 42, 1991.
12. Smith KA, Lachman LB, Oppenheim JJ *et al* : The functional relationship of the interleukins. *J. Exp. Med.* : 1551, 1980.
13. Boyce BF, Xing L : Biology of RANK, RANKL, and osteoprotegerin.. *Arthritis Res. Ther.* 9:2007.

### 저자 연락처

우편번호 614-735  
부산광역시 부산진구 개금동 633-165  
인제대학교 부산백병원 의과대학 구강악안면외과학교실  
정지아

원고 접수일 2009년 10월 29일  
게재 확정일 2010년 01월 13일

### Reprint Requests

Ji-A Jeong  
Department of Oral & Maxillofacial Surgery,  
School of Medical, Pusan Paik Hospital, Inje University  
633-165 GaeGum Dong, PusanJinGu, Pusan, 614-735, Korea  
Tel: 82-51-890-6366  
E-mail: daegimansung@hanmail.net

Paper received 29 October 2009  
Paper accepted 13 January 2010