연부 조직 육종에 대한 무계획적 절제술: 환자의 임상적 특징 및 치료 결과

Unplanned Excision of Soft Tissue Sarcoma: Patient Profile and Treatment Outcomes

이재후 • 조용진 • 김승현 • 신규호

연세대학교 의과대학 정형외과학교실

목적: 악성 연부조직 좋양이라는 의심 없이 무계획적으로 절제한 후 육종으로 판명되어 전워된 환자에서 임상적 특징과 치료 결과를 알아보 고자 하였다.

대상 및 방법: 양성 연부 종양이라고 파단하고 절제한 후 육종으로 파명되어 본원으로 전원된 환자 31명을 대상으로 연구를 시행하였다. 본 환자들의 연령, 성별, 종양 크기, 위치, 깊이, 최초 수술 전 예상되었던 진단명, 의뢰된 의료기관, 조직학적 진단명, 무계획적 절제술과 재절제 수술의 간격, 최종 추시 시 재발 여부에 대해 조사하였다.

결과: 남자 19명 여자 12명이었으며, 평균 48세(17-75세)였다. 종괴의 위치는 상지가 6예, 하지가 17예, 체간이 8예였으며, 평균 6개월(1-24 개월)의 증상 지속기간을 보였다. 종괴가 천층에 위치한 경우와 깊이 위치한 경우는 각각 8예, 22예였다. 무계획적 절제술과 재절제 술까지 소요 기간은 평균 5주(2주-1년)이었다. 최종 추시 시 국소 재발은 2예에서 발견되었으며, 폐전이를 포함한 타장기 전이는 모든 예에서 발견 되지 않았다.

결론: 무계획적 절제가 종합 병원 급 상급 의료 기관에서도 발생하고 있으며, 심부에 위치한 비교적 큰 종괴에 대해서는 술 전 충분한 영상 검 사 및 조직 검사 후 적절한 치료 계획을 수립해야 할 것이다.

색인단어: 연부 조직 육종, 재절제, 무계획적 절제

서 로

연부 조직 육종은 발생이 매우 드물며 전체 암의 0.8%만을 차지한 다고 보고되어 왔다. 1 연부 조직에서 발견되는 종괴는 임상 의사 들로부터 그 중요성에 있어서 무시되는 경향이 있고 양성 종양으 로 여겨져서 충분한 사전 검사 없이 제거되곤 한다. 수술 후 병리 검사에서 악성으로 보고 되었거나. 수술 후 국소 재발 또는 전이 가 발견된 경우 비로소 환자들은 근골격계 종양 전문의들에게 의 뢰된다.

무계획적 연부 조직 육종의 절제술이란 수술 전 영상 검사를 시행하지 않고 암을 덮고 있는 정상 조직과의 경계를 제거하지 않 은 채 연부 조직 육종의 육안적 제거 수술만을 시행하는 것으로 정의할 수 있다.^{2,3)} 남아 있을 수 있는 잔여 종양을 제거하고 충분 한 절제연를 얻기 위해서 재 절제술은 필요한 것으로 알려져 왔 다.4-6) 이전의 연구에서는 무계획적 절제술의 문제점들을 강조하 며 그 예로 추가적 수술을 한 뒤에도 국소 재발의 높은 발생률을 들고 있다.⁷⁾

본 연구에서는 연부 조직 육종을 치료하는 데 있어서 무계획적 절제 환자의 임상적 특징, 의뢰 형태, 그리고 무계획적 연부 조직 육종의 절제와 관련된 종양학적 결과에 대해서 알아 보고자 한다.

대상 및 방법

2010년 1월부터 2011년 12월까지 다른 병원에서 연부 조직 종괴 에 대해 무계획적 절제술 후 연부 조직 악성 종양으로 진단되었으 며 본원으로 의뢰된 31명의 환자들을 후향적으로 검토하였다. 연 부 조직 육종은 본원의 병리학자에 의해서 다시 검토했으며, 최종 진단을 확인하였다. 환자들은 병변 부위 단순 촬영, 컴퓨터 단층

접수일 2012년 10월 23일 심사수정일 2012년 11월 24일 게재확정일 2012년 11월 26일 교신저자 조용진 서울시 서대문구 성산로 250, 연세대학교 의과대학 정형외과학교실

TEL 02-2228-2202, FAX 02-363-1139

E-mail choisidoru@yuhs.ac

대한골관절종양학회지: 제18권 제2호 2012 Copyrights © 2012 by The Korean Bone and Joint Tumor Society

연부 조직 육종에 대한 무계획적 절제술: 환자의 임상적 특징 및 치료 결과

촬영, 조영 증강 자기 공명 영상을 이용해 영상의학적으로 평가했 다. 또한 흉부 컴퓨터 단층 촬영으로 폐 전이를 확인했다. 치료 방 침에 따라 무계획적 절제술을 받은 뒤 본원에 의뢰된 모든 환자들 은 추가적인 광범위 절제술을 시행하였다. 병변의 반응 섬유성 흉 터 조직, 혈종, 그리고 부종들은 컴퓨터 단층 촬영, 자기 공명 영상 을 이용해 그 범위를 확인하였으며, 추가적 광범위 절제술의 원칙 은 문헌 상에서 언급한 대로 따랐으며 전에 있던 수술 상처보다 3 cm의 광범위 경계를 제거하려고 노력하였다(Fig. 1).89 추가적인 광범위 절제술 후 제거된 조직 경계의 육안적 그리고 조직학적 검 사 소견을 확인하여 잔존 종양의 유무를 확인하였다. 수술적 경계 가 불충분하다고 판단될 경우 수술 후 국소 방사선 치료를 시행하 였으며, 조직학적 진단에 따라 전신적 화학요법 치료를 추가로 시 행하였다. 모든 환자들은 술 후 첫 3개월째 국소 재발 여부를 확인 하기 위하여 이학적 검사를 받았으며, 매 6개월마다 이학적 검사, 해당 부위 조영 증강 MRI 및 흉부 CT 검사를 시행 받았으며, 술 후 5년까지 시행 받을 예정이다.

본 환자들의 연령, 성별, 종양 위치, 종양 크기, 종양 깊이, 최초 수술 전 진단명, 의뢰된 의료기관, 조직학적 진단명, 재절제 술 전 시행한 자기 공명 영상 검사 결과 및 술 후 현미경하에서 잔여 종 양 조직의 존재 유무와의 상관 관계, 무계획적 절제술과 재절제 수술의 간격, 최종 추시 시 재발 여부에 대해 조사하였다.

결 과

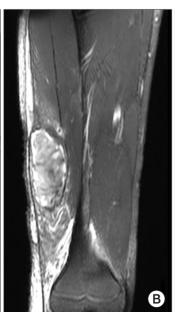
본 병원으로 의뢰되었을 당시 평균 연령은 48세(17-75세)였고, 남자가 19명, 여자가 12명으로 남자가 더 많았다. 종양의 위치에 있어서 17명(54.8%)은 하지에 종양이 있었고, 6명(19.4%)은 상지에 종양이 있었으며, 8명(25.8%)은 몸통에 종양이 있었다. 최소 추적

기간은 9개월(평균 18개월; 9-33개월)이었다. 최초 수술 전 종양 크기는 무계획적 절제의 병리 보고나 영상 자료로 판단했으며 병리 보고에서나 영상 자료에서의 가장 큰 지름으로 정의하였다. 27명(87.1%)의 환자에게는 종양 크기에 대한 정보가 있었으며 평균 종양 크기는 6.5 cm (1-15 cm)이었다. 종양 깊이는 무계획적 절제 당시의 방사선학적 자료나 수술 기록을 통해 조사하였다. 종양 깊이는 표재성 또는 심부성으로 나뉘었으며 표재성 근막 위에 위치한 종양 또는 근막의 침범이 없는 종양은 표재성으로 정의하였다. ¹⁰⁰ 8명(25.8%)의 환자는 표재성 종양이었으며, 22명(71.0%)의 환자는 심부성 종양이었으며, 1명은 알 수 없었다. 나이, 성별, 종양위치, 종양 크기, 위치, 그리고 근막과 비교한 깊이(심부성 vs. 표재성)에 대한 특징들은 Table 1에서 확인할 수 있다(Table 1).

최초 수술을 시행한 병원의 규모를 살펴보면, 개인 클리닉에서 시행한 경우가 6예(19.4%), 정형외과 전문 병원에서 시행한 경우가 5예(16.1%), 종합병원에서 시행한 경우가 20예(64.5%)이었다. 최초 수술 전 진단명은 지방종이 14예(45.2%)로 가장 흔했으며, 혈관종이 5예(16.1%), 기타가 3예(9.7%), 잠정 진단 없이 수술을 시행한 경우도 9예(29.0%)이었다. 가장 흔한 조직학적 진단명은 지방육종(10예, 32.3%)이었고 그 뒤로 활막 육종(5예, 16.1%), 악성 섬유성 조직구종(3예, 9.7%), 섬유육종(3예, 9.7%), 융기성 피부 섬유육종(3예, 9.7%), 평활근육종(2예, 6.5%), 다형성육종(2예, 6.5%), 말초신경의 악성종양(2예, 6.5%), 폐포성연부육종(1예, 3.2%)였다. 조직학적 유형에 따른 환자의 분포는 Table 2에서 확인할수 있다 (Table 2).

이 연구에 포함된 모든 환자들은 광범위 절제술 경계를 얻기 위해 추가적인 광범위 절제술을 시행 받았다. 무계획적 절제와 추 가적인 광범위 절제술 사이의 간격은 2주에서 1년 사이(평균 4주) 였다. 재 절제된 표본은 잔존 종양 존재 여부를 확인하기 위해 검





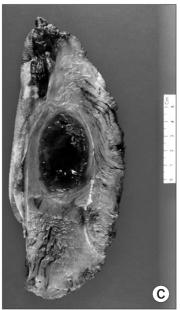


Figure 1. Unplanned excision of thigh mass in a 17-year-old boy who was diagnosed alveolar soft part sarcoma. (A) Clinical photo shows longitudinal skin incision and inappropriate location of drain. (B) MRI which was done before re-excision shows massive hemorrhage. (C) Re-excision was done at 4 weeks later refer to our hospital. Final pathology reports residual alveolar soft part sarcoma, hemorrhage and foreign body type giant cell reaction. Resection margin was free from tumor (safety margin: 2 cm).

이재후 · 조용진 · 김승현 외 1인

Table 1. Characteristics of Patients

	No. of patients (%)
Gender	
Male	19 (61.3 %)
Female	12 (38.7 %)
Age	
Range: - (Mean: years)	17-75 years (48.1 years)
Tumor site	
Lower extremity	17 (54.8 %)
Upper extremity	6 (19.4 %)
Trunk	8 (25.8%)
Location deep versus superficial	
Deep	22 (71.0 %)
Superficial	8 (25.8 %)
Tumor size	
Range: - (Mean: cm)	1-15 cm (6.5 cm)

사하였고, 환자들 중 19명(61.3%)에서 잔존 종양이 발견되었다. 26 명(83.8%)의 환자에서는 수술 경계가 조직학적으로 음성인 결과가 나왔다. 조직학적 진단명, 종양의 잔존 여부, 종양 크기, 수술 경계와 같은 임상적 정보에 근거하여 국소 재발 위험이 높을 것으로 판단된 경우 수술 후 방사선 치료를 시행하였으며, 4명(12.9%)의 환자가 외부 빔 방사선 치료를 받았다. 2명(6.5%)의 환자들은 수술 후 화학 요법 치료를 받았다. 폐 전이는 발견되지 않았으며, 국소 재발은 2예(6.5%)에서 발견되었다.

고 찰

Giuiliano와 Eilber는 '무계획적 절제'이라는 용어를 처음 소개하면 서 이것을 수술 전 영상을 무시하거나 암 조직 주위의 정상 조직 의 경계를 제거하지 않고 연부 조직 육종을 육안적으로 제거하는 것이라고 정의하였다. 이러한 무계획적 절제술을 시행하는 의사 는 연부 조직 육종 진단을 예상하지 못하며 따라서 종양을 제거 할 때 적절한 접근이나 지혈뿐만 아니라 충분한 절제연 확보도 하 지 못한다. 이렇듯 충분한 절제연을 얻지 못하고 악성 연부 조직 종양으로 판명된 경우에는 반드시 추가적인 치료를 필요로 한다. 악성 연부 조직 종양은 원격 전이보다는 국소 재발이 더 흔하기 때문에 국소 조절이 생존과 관련된 예후에 더욱 중요하다고 할 수 있다. 이때 선택할 수 있는 치료는 광범위 절제술이며 이러한 광 범위 절제술 이후에 국소 관리를 위한 방사선 치료를 선택적으로 시행할 수 있다. 11) 추가적인 광범위 절제술을 시행해야 하는 이유 는 처음 무계획적 수술 후 잔존 종양이나 오염된 조직을 제거 함 으로써 충분히 안전하고 광범위한 경계를 얻을 수 있기 때문이다. 추가적 광범위 절제의 필요성에 대해서 Zoling 등은 67증례 중 61

Table 2. Patients' Distribution According to Histological Types

Histology	No. of patients (%)
Liposarcoma	10 (32.3%)
Synovial sarcoma	5 (16.1%)
Fibrosarcoma	3 (9.7%)
Malignant fibrous histiocytoma	3 (9.7%)
Dermatofibrisarcoma protuberans	3 (9.7%)
Leiomyosarcoma	2 (6.5%)
Fibrosarcoma	2 (6.5%)
MPNST	2 (6.5%)
Alveolar soft tissue sarcoma	1 (3.2%)

증례에서 불충분한 경계에 대한 추가적 광범위 절제술 후 생존하였다고 보고하고 있으며, ¹² Sugiura 등과 Masono 등은 추가적 광범위 절제술을 시행한 증례에서 5년 생존률이 각각 84%와 91.3%라고 보고하고 있다. ^{13,14}

연부 조직 육종의 무계획적 절제는 자주 시행되지만 그들이 국소 재발, 전이, 그리고 환자의 생존률에 미치는 영향은 아직도 논란의 여지가 있다. 67.15 추가적 광범의 절제술 견본에서 잔존 종양비율은 보고에 따라 40.4%에서 57.9%까지였다. 12-14 본 연구에서 19명(61.3%)에서 잔존 종양이 발견되었으며, 이것은 기존 연구에비해서 다소 높은 편이나, 병리 조직 검사상 병변의 변연부에서 악성 세포가 발견된 경우도 잔존 종양으로 포함 시켰다는 점에서이 같은 결과를 이해해야 할 것이다. 잔존 종양은 국소 재발과 무병생존의 위험 인자로 알려져 있었지만, Masono 등은 잔존 종양이 국소 재발과 생존률의 독립적 위험 인자라는 것을 보여주는데실패했다. 14 이에 대한 가능한 원인으로는 (1) 개별 기관들에서 조직학적 검사의 질과 방법의 차이, (2) 조직학적 진단명 또는 등급과 같은 독립적 변수의 차이, (3) 보조요법의 차이, (4) 그리고 추가적 광범위 절제술 시술의 질의 차이 등을 생각해 볼 수 있다.

추가적 광범위 절제술에서는 고식적 광범위 절제술에 비해 더 넓은 절제 경계면을 필요로 한다.이것은 연부 조직 재건술의 필요성, 긴 수술 시간, 수술 관련된 합병증, 그리고 기능적 손실 등을 초래 할 수 있다. 이와 관련되어서 이전의 보고에 의하면 24%의상처에 대한 합병증과 18%의 재수술 가능성이 보고되고 있다.¹⁴ 본 연구에서는 추가적인 연부 조직 재건술이 필요한 경우는 없었다. 원위 대퇴부 전외측에서 발생한 점액성 지방육종 환자에서 수술 1년 후 추시 MRI상 국소 재발이 발견되어 추가적으로 광범위절제술을 시행하였으며, 여기에서 조직학적으로 확진 후 방사선치료 시행하였다. 또 다른 증례는 발목 주위에서 발생한 말초 신경의 악성 종양에서 수술 1년 후 추시 MRI상 국소 재발 발견되어추가적 광범위 절제술을 시행했음에도 불구하고 다시 6개월 만에 재발하여 절단술이 시행되었으며, 이 증례의 경우 재발한 종양의 변연부가 사지의 횡단명상 주요 동. 정맥에 근접하고 있어서 사

연부 조직 육종에 대한 무계획적 절제술: 환자의 임상적 특징 및 치료 결과

지 구제술을 시행하지 못하였다. 무계획적 절제술 후 경계면을 결 정하는 것에서 역시 어려움이 있다. 이러한 문제점들 때문에 연부 조직 육종을 처음 치료할 때 잘 계획된 광범위 절제술을 시행함으 로써 무계획적 절제술로 인해 생기는 추가적 광범위 절제술의 가 능성을 감소시켜야 한다는 제안을 하게 되었다. Siegel 등은 연부 조직 종양에 대한 무계획적 수술 후 이송된 54명의 환자에 대한 연구를 통하여, 특히 20-40대 사이의 종괴 직경이 5 cm보다 크고, 외상력이 있으며, 심부에 위치한 경우 종괴가 악성일 가능성이 더 욱 높다고 주장한다. 또한 그들은 골 및 연부조직 종양에 대해 전 문적인 수련이 되지 않은 임상의에 의하여 이러한 무계획적 수술 이 일어난다고 보고하고 있으며, 임상 정보 없이 방사선학적인 소 견 만으로 종괴에 대해 양성이라고 판단하는 것이 위험하다고 주 장하였다.16 따라서 연부 조직 종양의 관리 원칙이 질병의 일차적 치료를 제공하는 임상의들 사이에 널리 알려져 있어야만 한다. 이 와 같은 무계획적 수술을 피하기 위해서 임상의들은 악성 특성을 가지는 종괴의 임상적 징후를 알고 있어야 한다: (1) 최대 크기가 5 cm 이상인 종괴, (2) 빠른 성장 속도, (3) 심부성 근막에 위치한 종괴, (4) 통증이 없던 종괴에서 갑자기 통증이 느껴지는 경우, (5) 종괴의 재발. 앞에서 언급된 특징의 대부분 또는 모두를 보이는 연부 조직 종괴는 증명되기 전까지 악성이라 여겨져야 하며 철저 히 원칙대로 검사 및 처치 되어야만 한다.

최초 검사 및 무계획적 수술을 시행한 병원의 규모에 있어서, 최근 관련 의료 기관의 분포를 고려했을 때 정형외과 전문 병원에서 많이 시행되고 있을 것으로 예상하였으나, 결과에 있어서는 비교적 적은 수(5예, 16.1%)만이 정형외과 전문 병원이었고, 많은 경우에 있어서 대학 병원을 포함한 종합병원에서 시행되었다는 점에 있어서, 근골격계 종양 전문의의 역할이 더욱 요구된다 할수 있겠다. 본 연구에서 폐전이를 포함한 타 장기 전이는 발견되지 않았으며, 국소 재발 역시 2예(6.5%)로 이전의 연구와 비슷한 정도를 보이고 있으나, 비교적 최근의 무계획적 수술의 특징을 보여주기 위하여 연구가 계획된 바 추시 기간이 짧다는 것을 고려해야할 것으로 생각된다.

결 론

연부조직 육종은 매우 드물게 발견되는 종양으로 이에 익숙하지 않은 일반 병, 의원은 물론 종합 병원급 상급 의료 기관에서도 반드시 피해야만 하는 연부조직 육종에 대한 무계획적 절제술이 발생하고 있다. 따라서 심부에 위치한 비교적 큰 종괴에 대해서는 술 전 충분한 영상 검사 및 조직 검사 후 적절한 치료 계획을 수립해야 할 것이다. 비록 무계획적 절제가 시행되었다고 하더라도 병기 조사와 함께 추가적 광범위 절제술을 시행함으로써 국소 재발을 줄을 수 있을 것으로 생각한다.

참고문헌

- 1. Jemal A, Siegel R, Ward E, Murray T, Xu J, Thun MJ. Cancer statistics, 2007. CA Cancer J Clin. 2007;57:43-66.
- Giuliano AE, Eilber FR. The rationale for planned reoperation after unplanned total excision of soft-tissue sarcomas. J Clin Oncol. 1985;3:1344-8.
- 3. Springfield DS, Rosenberg A. Biopsy: complicated and risky. J Bone Joint Surg Am. 1996;78:639-43.
- 4. Chandrasekar CR, Wafa H, Grimer RJ, Carter SR, Tillman RM, Abudu A. The effect of an unplanned excision of a soft-tissue sarcoma on prognosis. J Bone Joint Surg Br. 2008;90:203-8.
- 5. Fiore M, Casali PG, Miceli R, et al. Prognostic effect of re-excision in adult soft tissue sarcoma of the extremity. Ann Surg Oncol. 2006;13:110-7.
- Lewis JJ, Leung D, Espat J, Woodruff JM, Brennan MF. Effect of reresection in extremity soft tissue sarcoma. Ann Surg. 2000;231:655-63.
- Potter BK, Adams SC, Pitcher JD Jr, Temple HT. Local recurrence of disease after unplanned excisions of high-grade soft tissue sarcomas. Clin Orthop Relat Res. 2008;466:3093-100.
- 8. Kawaguchi N, Matumoto S, Manabe J. New method of evaluating the surgical margin and safety margin for musculoskeletal sarcoma, analysed on the basis of 457 surgical cases. J Cancer Res Clin Oncol. 1995;121:555-63.
- 9. Kawaguchi N, Ahmed AR, Matsumoto S, Manabe J, Matsushita Y. The concept of curative margin in surgery for bone and soft tissue sarcoma. Clin Orthop Relat Res. 2004;(419):165-72.
- Greene FL, American Joint Committee on Cancer, American Cancer Society. AJCC Cancer Staging Manual. New York, NY: Springer-Verlag; 2002.
- 11. Kepka L, Suit HD, Goldberg SI, et al. Results of radiation therapy performed after unplanned surgery (without re-excision) for soft tissue sarcomas. J Surg Oncol. 2005;92:39-45.
- Zornig C, Peiper M, Schröder S. Re-excision of soft tissue sarcoma after inadequate initial operation. Br J Surg. 1995;82:278-9.
- 13. Sugiura H, Takahashi M, Katagiri H, et al. Additional wide resection of malignant soft tissue tumors. Clin Orthop Relat Res. 2002;(394):201-10.
- 14. Manoso MW, Frassica DA, Deune EG, Frassica FJ. Outcomes of re-excision after unplanned excisions of soft-tissue sarcomas. J Surg Oncol. 2005;91:153-8.

이재후 · 조용진 · 김승현 외 1인

- 15. Rougraff BT, Davis K, Cudahy T. The impact of previous surgical manipulation of subcutaneous sarcoma on oncologic outcome. Clin Orthop Relat Res. 2005;438:85-91.
- Siegel HJ, Brown O, Lopez-Ben R, Siegal GP. Unplanned surgical excision of extremity soft tissue sarcomas: patient profile and referral patterns. J Surg Orthop Adv. 2009;18:93-8.

Unplanned Excision of Soft Tissue Sarcoma: Patient Profile and Treatment Outcomes

Jae Hoo Lee, Yong Jin Cho, Seung Hyun Kim, and Kyoo Ho Shin Department of Orthopedic Surgery, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Purpose: Unplanned excision of a soft tissue sarcoma is defined as the operation performed for gross removal of a soft tissue sarcoma without regard for preoperative imaging or the necessity to removal a margin of normal tissue covering the cancer. We report our experience of treating primary soft tissue sarcoma after an unplanned excision.

Materials and Methods: We retrospectively reviewed 31 patients referred to our hospital after unplanned excision at other hospitals for treatment of a STS. The clinical information was reviewed with a focus on the patient's age, gender, tumor location, tumor size, tumor depth, presumptive diagnoses at the previous surgery, refer hospital, definitive diagnosis, interval between the initial and additional surgery and local recurrence.

Results: There were 19 males and 12 females with a median age of 48 years (range, 17-75 years) at the time of referral. Seventeen patients (54.8%) had tumors in their lower limb, 6 (19.4%) had tumors in their upper limb, and 8 (25.8%) had tumors in their trunk. Tumor depth could be determined for 8 patients (25.8%), with superficial and 22 deep tumors (71%). The medial interval between unplanned excision to re-excision ranged from 2 weeks to 1 year (median, 5 weeks). Local recurrence was detected in 2 patients. All patients were alive without metastasis at last follow up.

Conclusion: Even in upper class general hospital, many unplanned excision had been performed, which is considered to be avoided. When the relatively huge mass located in deeper layer it requires enough preoperative imaging studies and biopsy.

Key words: soft tissue sarcoma, re-excision, unplanned excision

Received October 23, 2012 Revised November 24, 2012 Accepted November 26, 2012

Correspondence to: Yong Jin Cho

Department of Orthopaedic Surgery, Yonsei University College of Medicine, 250, Seongsan-ro (134 Sinchon-dong), Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea

TEL: +82-2-2228-2202 **FAX:** +82-2-363-1139 **E-mail:** choisidoru@yuhs.ac