

섬유성 골 이형성증에서 시행한 골 이식술의 결과 분석

The Result of Bone Grafting for Fibrous Dysplasia

정원주 • 김태성 • 조환성* • 윤종필 • 박일형

경북대학교 의학전문대학원 정형외과학교실, 경북대학교병원 정형외과, *서울대학교 의학전문대학원 정형외과학교실 분당서울대병원 정형외과

목적: 섬유성 골 이형성증은 신호전달 G 단백질의 alpha 소단위체 유전자 변이에 따른 양성 골격계 질환으로 다양한 임상적 양상을 보인다. 기능적 장애, 구조적 변형을 방지하기 위해 제한적으로 수술을 시행하게 되는데 중앙소파술 후 발생한 공동을 메우는 골 이식술이 시행된다. 이 연구에서는 본원에서 시행한 섬유성 골 이형성증 치료로서 자가 해면골 이식술을 시행한 경우와 자가 해면골과 동종골, 동종골만을 사용한 경우를 비교 분석하고자 한다.

대상 및 방법: 1997년 4월부터 2013년 10월까지 본원에서 섬유성 골 이형성증으로 진단된 58명 중 수술 후 1년 이상 추시 관찰이 가능했던 34명을 대상으로 하였다. 수술 시 평균 연령은 26.7세(범위, 2-57세)이었고, 남자는 13명, 여자는 21명이었다. 자가 골이식은 모두 장골에서 채취한 망상골을 이식하였고, 동종골은 골은행에서 기증받은 뼈를 이식용으로 재처리하여 이용하였다. 자가 해면골만 이식한 경우(I군)는 5예, 자가 해면골과 동종골, 혹은 동종골만 이식한 경우(II군)가 29예였다. 재발, 이차적 변성 같은 합병증을 확인하기 위해, 주기적인 단순 방사선 촬영으로 관찰하였으며 각 군을 비교하였다.

결과: 섬유성 골 이형성의 재발이 4예(11.4%) 있었으며, 자가 해면골 이식술 시행한 군(I군; 1예 20%)과 자가해면골과 동종골, 혹은 동종골만을 이식한 경우(II군; 3예, 10.3%) 간의 재발율을 Kaplan-Meier 방법으로 분석한 결과 두군간의 차이가 없었다($p=0.554$). 재발한 경우는 모두 소파술 및 자가골이식술을 다시 시행하였으며 재수술 후 재발은 없었다. 낭종 같은 이차적 변성이 확인된 경우가 1예, 병적 골절을 보인 경우 1예가 있었으나, 악성변화를 일으킨 경우는 없었다.

결론: 섬유성 골 이형성증 환자들에게 골이식을 시행한 경우, 자가 해면골 또는 동종골 이식술을 시행한 양 군에서 재발, 병적 골절 같은 합병증의 결과가 의미 있는 차이를 보이지 않았다. 따라서 종양의 부피가 작고 병변의 위치가 체중이 가하지는 부위가 아닐 경우에는 자가 해면골 이식 또한 좋은 방법으로 사료되며 이에 대한 연구가 필요하다.

색인단어: 섬유성 골 형성증, 자가 해면골 이식, 재발

서 론

섬유성 골 이형성증은 정상 해면골과 골수가 섬유성 조직과 같은 작은 침상형태의 미성숙골로 대체되어 나타나며 임상적으로 다양한 양상을 보인다.^{1,2)} 섬유성 골 이형성증은 1932년 Weil에 의해 처음 보고되었으며, 이후 1942년 Jaffe와 Lichtenstein에 의해 발생학적 장애로 일어나는 양성 골 질환으로 분류되었다.^{3,4)}

1962년 Harris⁵⁾에 의해 섬유성 골 이형성증의 자연 경과가 보고되었는데, 대개 소아기에 시작하며 30세 이하의 연령에서 호발하

고 남자보다 여자에서 많이 발생하는 것으로 알려져 있다. 섬유성 골 이형성증으로 인한 기능적 장애, 구조적 변형을 방지하기 위해 수술적 치료를 시행하게 되는데, 그 중 중앙 소파술 후 그 공동을 충전하기 위해 골 이식술이 많이 시행되고 있다.⁶⁾ 자가골 이식은 골 결손부의 충전이나 골 유합을 얻기 위해 가장 많이 시행되는 방법으로 골 형성 유도 능력이 좋은 장점이 있으나 자가골을 얻기 위해 공여부에 추가적인 수술이 필요하고, 이로 인한 통증, 감염 등의 문제점 및 대량의 골 결손부가 발생한 경우 자가골만으로 결손부를 모두 채우지 못하는 단점이 있다.⁷⁾ 반면 동종골 이식의 경우 대량의 골 결손부를 채우는데 유용한 방법이 될 수 있으나, 숙주의 면역 거부 반응 및 이에 따른 골절, 이식편 용해, 불유합 등의 합병증과 이식편을 통한 감염, 비용-효과 문제 및 윤리적인 문제 등이 동종골 이식의 단점으로 보고 되고 있다. 이에 저자들은 본원에서 시행한 섬유성 골 이형성증 치료로서 자가 해면골 이식술을 시행하였던 증례와 동종골을 사용하였던 증례의 결과를 비교

접수일 2014년 10월 31일 심사수정일 2014년 11월 27일

게재확정일 2014년 11월 28일

교신저자 박일형

대구시 중구 동덕로 200, 경북대학교병원 정형외과

TEL 053-420-5634, FAX 053-420-6605

E-mail ihpark@knu.ac.kr

대한골관절종양학회지 : 제20권 제2호 2014 Copyrights © 2014 by The Korean Bone and Joint Tumor Society

"This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited."

분석하고자 한다.

대상 및 방법

1997년 4월부터 2013년 10월까지 본원에서 섬유성 골 이형성증으로 진단된 58명 중 침범부위 동통을 호소하거나 증상이 없더라도 추시상 병소 크기가 커져 골용해 소견이 뚜렷해지는 경우 수술을 시행하였다. 수술 후 1년이상 추시 관찰이 가능했던 34명을 연구 대상에 포함하였다. 남자는 13명, 여자는 21명이었으며, 평균 연령은 26.7세(범위, 2-57세)이었으며, 결손부를 시멘트를 이용하여 채우거나, 조각골 이외 탈석회골기질 등을 같이 사용한 경우, 단순 조직검사만 시행한 경우는 제외하였다. 평균 추시기간은 2.49년(범위, 1.0-9.14세)였다. 단일 섬유성 골이형증이 30예, 다발성 섬유성 골이형성증 3예, McCune-Albright syndrome (polyostotic fibrous dysplasia, café-au-lait spots, and endocrine dysfunction) 1예 있었다. 다발성 병변을 가진 3예를 제외한 발생 부위는 경골이 10예, 대퇴골이 6예였으며, 그 중 대퇴골 근위부가 6예로 가장 많았다. 이밖에 상완골 4예, 요골 3예, 척골 1예, 골반골 3예, 수근골 및 중족골이 각각 1예였다. 자가 해면골을 이식한 경우(I군) (Fig. 1)는 5예, 자가 해면골과 동종골, 혹은 동종골만을 이식한 경우(II군)가 29예였다. 자가 골이식은 모두 장골에서 채취한 망상골을 이식하였고, 동종골은 골은행에서 기증받은 뼈를 이식용으로 재처리하여 이용하였다.

29예 모두 동종골은 조각골(chip bone, Kyungpook national uni-

versity hospital bone bank, Daegu, Korea)을 이용하였다.

수술 방법은 C-형 투시장치로 병변의 위치를 수술장에서 확인 후 소파술을 하기 위해 충분한 정도의 피질골절개술을 시행하였다. 개방창을 통해 충분히 소파술을 시행하여 종양을 제거 후 가능한 한 피질골에 인접하여 천공기(burr) 및 냉동치료(cryotherapy)를 시행하였다.

그렇게 만들어진 공동에 자가 해면골이나 동종골로 충전술을 시행 후 절개된 피질골의 표면도 천공기를 이용하여 종양을 제거 후 개방창에 채워치 시켰다. 술 후 빠른 재활과 병적 골절의 발생을 막기 위해 II군 29예 중 6예는 잠김압박금속판 또는 골수강 금속정 등을 이용하여 내고정술을 시행하였다(Fig. 2).

본 논문에서는 자가 해면골 이식과 동종골 이식이 같이 이루어진 군을 동종골 이식군으로 간주하여 분석하였다. 이는 종양의 부피가 크고 체중이 부하되는 위치에 발생한 경우, 자가 해면골을 절골술을 시행한 개방창이나 관절면에 가까운 부위의 빠른 골 유합을 유도하기 위해 사용했을 뿐, 대부분 종양의 소파술로 인해 발생한 골 결손부는 동종골의 이식을 통해 충전 하였기 때문이다. 아울러 재발 또는 병적 골절 같은 합병증이 일어난 경우 재발 부위가 이전 자가 해면골 이식을 시행한 부위와는 다른 위치에 발생한 것을 확인하였다. 자가 해면골과 동종골을 사용한 두 군 간의 나이, 성별, 병소 수에 따른 분류, 관찰기간, 술 전 혈청학적 검사 수치에 있어 통계학적 차이가 없었다.

하지만 I군의 종양의 평균 부피 41 cc (20-65 cc)가 II군 평균 부피 130 cc (20-370 cc)보다 통계학적으로 유의하게 차이를 보였으



Figure 1. Fibrous dysplasia of the proximal phalanx in a 10-year-old girl. (A) The radiogram show a radiolucent area on proximal phalanx of index finger. (B) The postoperative radiogram at 1month show internal filling with autogenous bone graft on proximal phalanx of index finger. (C) The postoperative radiogram at 4 years after surgery show a radiolucent area on proximal phalanx of index finger suggesting recurrence. (D)The Radiogram at 4 years after re-operation shows healing with new bone formation.

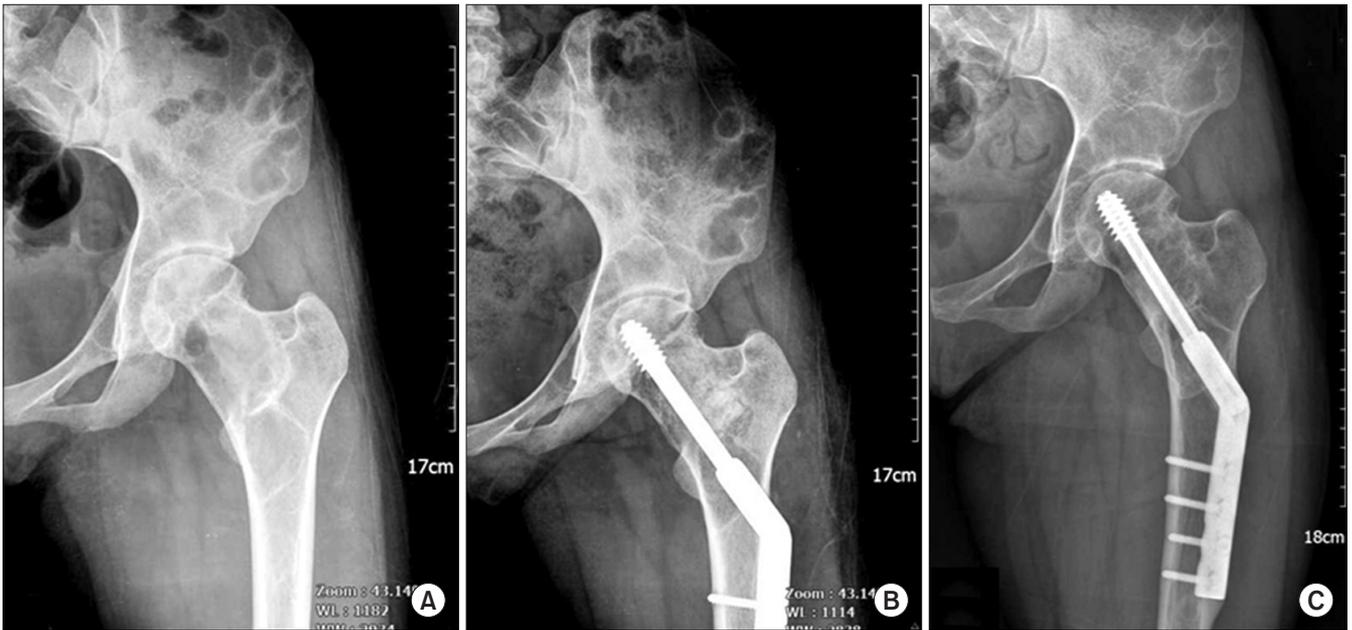


Figure 2. Fibrous dysplasia of the proximal femur in 18-years-old girl. (A) The radiogram shows a large radiolucent area with marginal sclerosis on left proximal femur. (B) The radiogram made 1 month after surgery shows allogenic bone graft and internal fixation with dynamic hip screw on left proximal femur. (C) The postoperative radiogram at 9 years shows healing with new bone formation.

Table 1. Patients treated with bone grafting on fibrous dysplasia

	April 1997 ~ October 2013		p-value
	Auto bone graft (Group I)	Auto/Allo bone graft (Group II)	
Minimum 1 year F/U	5 patients	29 patients	
Age (yr)	27.4 (10–47)	26.4 (2–57)	0.471
Sex (M/F)	1/4	12/17	0.627
Mean follow-up(yr)	2.26 (1.01–4.25)	3.23 (1.0–9.48)	0.472
Preoperative Lab			
ESR	14.2 (7–22)	13.7 (1–29)	0.866
CRP	0.25 (0.02–0.57)	0.29 (0.02–2.81)	0.854
s-ALP	138.2 (65–325)	135.5 (31–413)	0.849
Single/ Multi lesion	5/0	26/3	1.000
Tumor volume (cc)	38 (15–65)	132 (25–340)	<0.001
Location (mech/non-mech)	1/4	20/9	0.050

Table 2. Complications on fibrous dysplasia treated with bone grafting

	April 1997–October 2013		p-value
	Auto bone graft (Group I)	Auto/Allo bone graft (Group II)	
Recurrence	1	3	0.554
Pathologic fracture.	0	1	0.559
Secondary change	0	1	0.510

며($p < 0.001$), 발생한 위치에 있어 체중 부하 위치 아닌 경우가 I군에서 5예 중 4예(80%)로 II군의 29예 중 9예(30%)보다 통계학적으로 의미 있게 많았다($p=0.05$). 재발, 이차적 변성 같은 합병증을 확인하기 위해, 술 후 1, 3, 9개월 간격으로 단순 방사선 촬영을 시행하였으며 이후 1년 간격으로 단순 방사선 촬영을 시행하였다(Table 1). SPSS 18.0버전(Chicago, IL, USA)의 Chi-square test 또는 independent T test를 이용하여 술 전 두 군을 비교 분석하였고 Kaplan-Meier방법을 통해 재발 및 병적 골절 같은 합병증에 대하여 두 군을 비교하였다. 95% 이상 신뢰구간에서 p 값이 0.05 이하일 때 의미 있는 것으로 간주하였다.

결 과

섬유성 골 이형성의 재발이 4예(11.4%)있었으며, 대퇴골 근위부에 2예, 상완골 원위부와 중수골에 각각 1예씩 있었다. 자가 해면골 이식술 시행한 군(I군; 1예, 20%)과 자가 해면골과 동종골, 혹은 동종골만을 이식한 경우(II군; 3예, 10.3%)간의 재발율을 Kaplan-Meier 생존분석법으로 비교한 결과 두군간의 차이가 없었다($p=0.554$). 재발한 경우는 모두 소파술 및 자가골 이식술을 다시 시행하였으며 재수술 후 반복적인 재발은 없었다. 골낭종 같은 이차적 변성이 확인된 경우가 동종골을 이식한 군에서 1예(I군; 0예, II군; 1예, $p=0.510$) 관찰 되었으며, 병적 골절을 보인 경우 1예(I군; 0예, II군; 1예, $p=0.559$)가 있었으나(Table 2) 악성변화를 보이는 경우는 없었다.

고 찰

섬유성 골 이형성증은 골 조직이 섬유성 조직으로 대체되는 약 1%의 빈도를 보이는 흔치 않은 양성 질환이지만 아직도 섬유성 골 이형성증에 대한 정확한 병태생리와 이상적인 치료방법이 정립되지 않고 있다. 섬유성 골 이형성증은 단발성, 다발성, 내분비성(McCune-Albright 증후군)으로 분류되는데, 다발성 섬유성 골 이형성증의 경우 내분비적 이상을 동반하는 경우가 많고 병변이 크고 치료가 어려울 뿐 아니라, 그 결과 역시 예상이 힘든 것으로 알려져 있다.^{1,8)} Schlumberger⁹⁾에 의하면 임상증상은 단발성에 있어서 대부분이 무증상인 경우가 많으나, 일부 국소 종창, 압통 또는 병적 골절을 보이는 경우가 있다고 하였으며, Harris 등¹⁰⁾은 병적 골절이 있더라도 종양 조직에 의해 전이가 잘 안되고, 골절 치유가 정상적으로 일어나므로 보존적 치료를 시도할 수 있고, 진행하는 변형, 불유합, 성인의 대퇴골 간부 골절이나 치료에 반응하지 않는 지속적인 동통이 있을 때만 수술의 대상이 된다고 하였다. 일반적으로 병변부위의 소파술후 골 이식술을 시행하는 방법이 사용되고 있으며, 병적 골절이나 심한 변형에 대하여는 금속물을 이용한 고정을 시행하여 양호한 결과를 얻을 수 있는 것으

로 알려져 있다.¹¹⁾ Bae 등¹²⁾은 소파술과 골이식술로 치료한 23예 중 재발한 5예 모두 자가골 이식을 시행하였다 보고 하였는데, 이는 불충분한 소파술에 의한 것으로 판단하였다. 철저한 소파술을 시행한다면 본 연구에서와 같이 자가골 이식 군의 재발율이 동종골 이식군의 재발율 보다 의미 있게 높지 않음을 알 수 있으며 병적 골절 또는 낭성 변화도 차이가 없음을 알 수 있다. 다만 자가 해면골을 특성상 본 연구에서 같이 종양의 부피가 작을 때만 적용이 되며 구조적 지지가 필요치 않을 경우에 선호된다.

하지만 골유합면에서 자가골 이식군이 동종골 이식군 보다 우수함이 보이므로 본 연구에 있어 자가골 이식술이 좋은 치료 방법 중 하나로 생각된다.

이 논문의 제한점으로는 연구가 후향적으로 이루어진 것과 순수하게 자가 골이식만 시행한 군의 수가 적다는 점, 장기적인 추시관찰이 이루어지지 못한 점이 있어 앞으로 연구가 필요할 부분으로 생각 되어진다.

결 론

수술적 치료로 골이식이 필요한 경우에 자가 해면골 이식을 시행하더라도 재발, 이차적 변성, 악성 변화 등의 합병증이 동종골을 이식하는 것과 의미 있는 차이를 보이지 않는 것으로 나타났다. 비록 자가 해면골만 사용한 경우가 적어 선불리 결론 지을 수는 없지만 섬유성 골 이형성증의 수술적 치료시 자가 해면골을 적절히 이용하는 것도 치료 결과 향상에 도움이 될 것이라 사료되며 이에 대한 연구가 필요하다.

참고문헌

- Stephenson RB, London MD, Hankin FM, Kaufer H. Fibrous dysplasia. An analysis of options for treatment. J Bone Joint Surg Am. 1987;69:400-9.
- DiCaprio MR, Enneking WF. Fibrous dysplasia. Pathophysiology, evaluation, and treatment. J Bone Joint Surg Am. 2005;87:1848-64.
- Lichtenstein L. Polyostotic fibrous dysplasia. Arch Surg. 1938; 36:874-98.
- Jaffe H. Tumors and Tumorlike Conditions of the Bones and Joints. Philadelphia: Lea and Febiger; 1958. 117-42.
- Henry A. Monostotic fibrous dysplasia. J Bone Joint Surg Br. 1969;51:300-6.
- de Boer HH. The history of bone grafts. Clin Orthop Relat Res. 1988;(226):292-8.
- Fowler BL, Dall BE, Rowe DE. Complications associated with harvesting autogenous iliac bone graft. Am J Orthop (Belle

- Mead NJ). 1995;24:895-903.
8. Funk FJ Jr, Wells RE. Hip problems in fibrous dysplasia. Clin Orthop Relat Res. 1973;(90):77-82.
 9. Schlumberger HG. Fibrous dysplasia of single bones (monostotic fibrous dysplasia). Mil Surg. 1946;99:504-27.
 10. Harris WH, Dudley HR Jr, Barry RJ. The natural history of fibrous dysplasia. An orthopaedic, pathological, and roentgenographic study. J Bone Joint Surg Am. 1962;44-A:207-33.
 11. Stewart MJ, Gilmer WS, Edmonson AS. Fibrous dysplasia of bone. J Bone Joint Surg Br. 1962;44-B:302-18.
 12. Bae DK, Rhee YG, Kim SK, Son YL. Clinical analysis of fibrous dysplasia. J Korean Orthop Assoc. 1992;27:1418-25.

The Result of Bone Grafting for Fibrous Dysplasia

Won-ju Jeong, Tae-Seong Kim, Hwan-seong Cho*, Jong-pil Yoon, and Il-hyung Park

Department of Orthopedic Surgery, Kyungpook National University Hospital, Daegu

**Department of Orthopedic Surgery, Seoul National University Hospital, Seoul, Korea*

Purpose: Fibrous dysplasia is related to the mutation of gene encoding the alpha-subunit of a signal-transducing G-protein and has variable clinical course. Operation can be performed to prevent functional disorder or structural deformity. After curettage, autologous bone graft were used to fill the defects after curettage. The aim of this study is to compare the result of autogenous cancellous bone grafting and allogenic bone grafting for fibrous dysplasia.

Materials and Methods: Among the patients who visit our hospital during the period of April, 1997 to October, 2013, we selected 34 patients who diagnosed fibrous dysplasia and visited our clinic over 1 year. There were 13 males and 21 females. Average age was 26.4 (range 2 to 57) years old. Autogenous bone graft (group I) in 5 cases, Non-autogenous bone graft (group II) in 30 cases. Iliac bone is used in all cases of autogenous bone graft. There were no significant difference in age, follow-up period, preoperational laboratory finding between two groups. Radiographic image was done to evaluate the recurrence of fibrous dysplasia or secondary degeneration.

Results: There were four cases in recurrence (group I: 1 case, group II: 3 cases, $p=0.554$). In all recurrent cases, reoperations were done using curettage and autogenous iliac bone graft. There was no re-recurrence after reoperation. One case of secondary aneurysmal bone cyst was confirmed (group II) and 1 cases of pathologic fractures had developed (group I: 0 case, group II: 1 cases, $p=0.559$). No malignant change occurred.

Conclusion: There were no significant difference between autogenous bone graft group and non-autogenous bone graft group. Our result suggested that autogenous bone graft seems to be good method to treat fibrous dysplasia, in the case of small volume of tumor lesion or non-weight bearing portion.

Key words: fibrous dysplasia, autogenous bone graft, recurrence

Received October 31, 2014 **Revised** November 27, 2014 **Accepted** November 28, 2014

Correspondence to: Il-hyung Park

Department of Orthopedic Surgery, Kyungpook National University Hospital, 200 Dongduk-ro, Jung-gu, Daegu 700-721, Korea

TEL: +82-53-420-5634 **FAX:** +82-53-420-6605 **E-mail:** ihpark@knu.ac.kr