

천골미골부에 발생한 연골양 척삭종의
세침흡인 세포학적 소견
- 1에 보고 -

가톨릭대학교 의과대학 임상병리학교실

김 영 실 · 김 경 미 · 김 진 아 · 이 은 정 · 이 안 희 · 심 상 인

= Abstract =

**Fine Needle Aspiration Cytology of
Sacrococcygeal Chondroid Chordoma**
- A Case Report -

Young Sill Kim, M.D., Kyoung Mee Kim, M.D., Jeana Kim, M.D.,
Eun Jung Lee, M.D., An hi Lee, M.D., Sang In Shim, M.D.

Department of Clinical Pathology, Catholic University Medical College

Chordoma is an uncommon neoplasm that accounts for approximately 1% to 4% of all primary bone neoplasms and thought to originate from remnants of the fetal notochordal elements. It usually occurs in adults and has a predilection for the sacrococcygeal and spheno-occipital areas. Chondroid chordoma, first described by Heffelfinger et al, is a rare variant of chordoma; it contains both chordomatous and chondromatous features, and has a considerably better prognosis than either chordoma or chondrosarcoma.

The cytologic findings of fine needle aspiration of sacrococcygeal chondroid chordoma in a 57-year-old man are presented. Aspiration cytology showed many sheets and cords of neoplastic cells in a thick amorphous blue-purple mucinous background. The cells had small to medium sized round nuclei with coarse granular chromatin and abundant eosinophilic or bubbly cytoplasm. Some cells had pleomorphic and hyperchromatic nuclei with prominent nucleoli. Cytologic findings were compared to histologic findings. Histologically, areas of chondroid differentiation were noted which were absent in the cytologic smear. Immunohistochemically, both the chondroid and chordoid areas had an epithelial phenotype and stained for cytokeratin, epithelial membrane antigen and S-100 protein. This is the first case of cytologic findings of chondroid chordoma to our knowledge in literature.

Key words: Chondroid chordoma, Aspiration cytology

서 론

척삭종은 저악성도의 드문 종양으로 원발성 골종양의 1~4%를 차지하며¹⁾ fetal notochord의 잔유물에서 기원하며 척형후두부 및 천골미골부에서 주로 발생한다²⁾. 이 중 연골양 척삭종은 연골양 분화를 함께 보이는 척삭종의 한 아형으로서 두개골의 척형후두부에서 더 잘 발생하나 드물게 천골미골부에도 발생한다³⁾. 일반적인 척삭종의 세침흡인 세포학적 소견에 대한 보고는 외국과 국내에서 많지만⁴⁻⁶⁾, 연골양 척삭종의 세침흡인 세포학적 소견에 대한 보고는 아직 없다.

저자들은 최근에 57세 남자의 천골미골부의 종괴를 세침흡인 후 수술로 확진된 연골양 척삭종 1예를 경험하였기에 보고하는바이다.

증 례

1. 임상 소견

환자는 57세 남자로 3개월전부터 속저시에 동통을 동반하는 천골미골부의 종괴를 주소로 내원하였다. 골반 자기공명영상 촬영검사상 10.0×7.0 cm 크기의 다엽성 연부조직 종괴가 천골의 앞쪽과 뒤쪽에 걸쳐 위치하고 있었으며 주변의 연부조직과 천골내로 자라고 있어서 방사선과적 진단은 악성 종양이었다. 종괴에서의 세침흡인 세포학적 검사 소견상, 연골성 병변을 의심하였으며 분화가 좋은 연골육종과 연골양 척삭종과의 감별이 필요할 것으로 생각하였다. 완전절제가 불가능하여 종괴의 부분 절제술과 천골제거술을 시행하였으며, 조직소견상 연골양 척삭종으로 진단하였다.

2. 세포학적 소견

세침흡인 도말상에서 두껍게 도말된 호시안

성의 점액성 물질을 배경으로 삭 또는 열을 짓거나 합포체를 이루는 세포들이 비교적 높은 세포밀도를 보이며 산재되어 있었다(Fig. 1). 고배율상에서 세포들은 다양한 크기를 갖으며 난원형이었다. 핵은 작거나 중간 정도로 다양하였으며 거친 과립상의 염색질과 불분명한 핵소체를 갖고 있었다. 크기가 작은 세포들은 호산성의 풍부한 세포질을 갖고 있었으며, 크기가 비교적 큰 세포들은 호산성의 풍부한 세포질내에 한 개 또는 여러개의 공포를 갖고 있었다(Fig. 2). 어떤 세포들은 뚜렷한 핵소체를 가지며 과염색성으로 다형성을 보이는 난원형의 핵을 갖고 있었다(Fig. 3). 유사분열상도 간혹 관찰되었다.

3. 병리조직학적 소견

절제된 종괴는 여러개의 조각으로 부분절제되었는데 육안소견상 연노란색을 띠고 염상의 미끈미끈한 점액성 조각들이 일부 불투명한 흰색의 연골양 부위를 포함하고 있었다. 광학현미경 소견상, 종괴는 섬유성 조직으로 경계가 잘 지어지는 다엽성 구조를 하고 있었으며,



Fig. 1. Several clusters and cords of tumor cells in a background of blue-purple amorphous mucoid material(Papanicolaou stain, ×40).

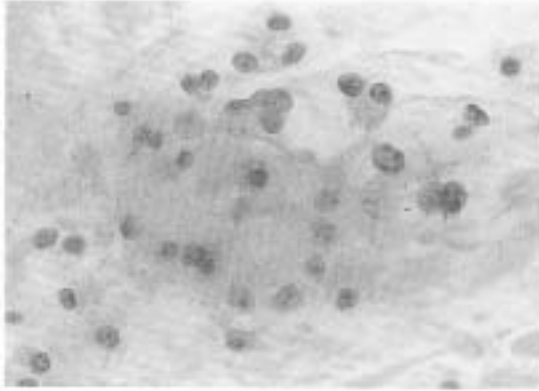


Fig. 2. Cluster of physaliferous cells have vacuolated cytoplasm(Papanicolaou stain, $\times 400$).

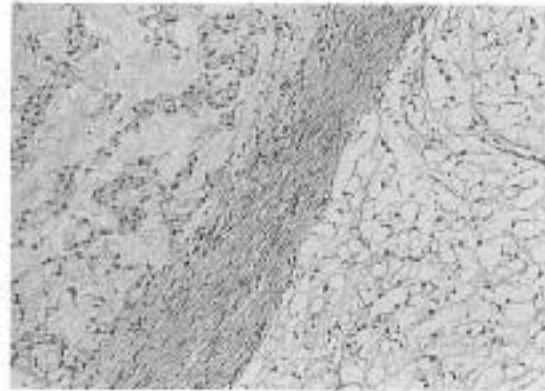


Fig. 4. Histologic section of the chordoid area shows multiple lobules separated by fibrous tissue. The cells on the left are arranged in cords and nests with abundant mucoid matrix. The cells on the right are large and vacuolated(H & E, $\times 40$).

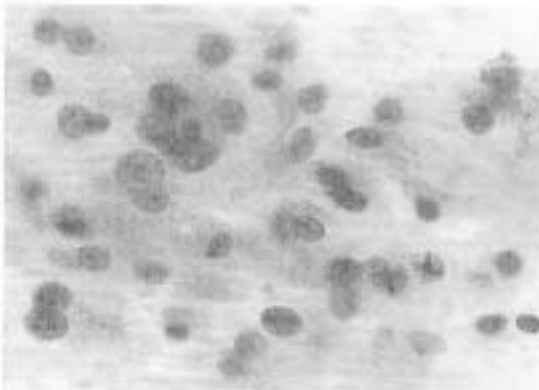


Fig. 3. Some cells show nuclear pleomorphism with prominent nucleoli(Papanicolaou stain, $\times 400$).

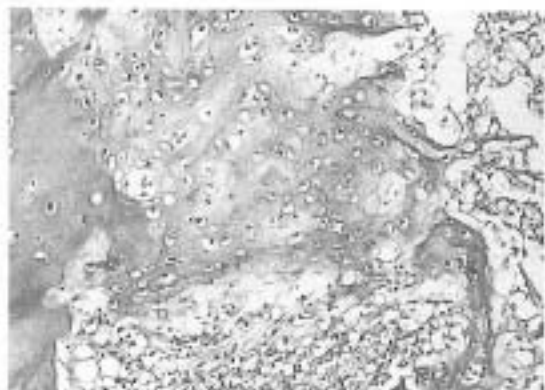


Fig. 5. Histologic section of the chondroid area shows single cells in lacunar spaces surrounded by hyaline type matrix. There is a transition zone between chondroid and chordoid areas(H & E, $\times 40$).

세침흡인 세포도말에서 관찰되었던 세포들이 풍부한 점액성 기질내에 삭 또는 열을 짓거나 함포체를 이루며 다양하게 배열하고 있었다(Fig. 4). 많은 부위에서 점액성 기질이 좀더 호산성의 연골성 분화를 보였다(Fig. 5). 점액성 부위를 이루는 세포들은 호산성의 세포질을 갖거나 세포질내에 한 개 또는 여러개의 공포를 갖고 있으면서 핵은 둥글고 약간의 이형성

이 관찰되었으며, 가끔은 이핵세포들도 관찰되었다. 연골성 부위를 이루는 세포들은 한 개의 일공내에 한 개의 세포가 들어 있었으며 점액성의 최상층 부위에서 이행하는 곳이 많이 관찰되었다. 부분절제된 천골내로 중앙세포들이 천골을 파괴하면서 침윤하고 있었다. 면역조직화학적 염색상 점액성의 최상층 부위와 연골성 분화를 보이는 부위 모두에서 cytokeratin,

epithelial membrane antigen(EMA), S-100 단백 등에 양성이었다.

고 찰

연골양 척삭종은 척삭종의 드문 변형으로, 1973년에 Heffelfinger 등⁷⁾에 의해 유리연골과 유사한 연골성 부위를 포함하는 척삭종으로 처음 정의되었다. 그 후 Brooks 등¹¹⁾과 Walker 등¹²⁾은 연골양 척삭종 12예에서 vimentin과 S-100 단백질에 양성, cytokeratin과 EMA에 음성으로 이 질환이 연골육종의 변형이라고 보고하였다. 1992년에 Rosenberg 등¹³⁾은 연골양 척삭종이 척삭종의 변형이라고 밝혔으며 Brooks 등¹¹⁾과 Walker 등¹²⁾이 연골양 척삭종이라고 진단한 예들이 Heffelfinger 등⁷⁾의 진단 기준에 맞지 않으며 모두 연골육종에 속하는 예라고 밝히며, 12예의 연골양 척삭종에서 모든 예가 연골성 부위와 점액성 척삭종 부위에서 cytokeratin과 S-100 그리고 CEA 등이 양성, 90%에서 EMA가 양성으로 척삭종임을 증명하였다. 그 후 Chu¹⁴⁾는 연골성 분화를 보이는 부위가 연골과 유사하게 보일 뿐이지 사실은 척삭종 유리질화된 것이라고 보고하였다.

연골양 척삭종은 일반적인 척삭종이나 연골육종보다 예후가 좋기 때문에 감별이 중요하다^{13,14)}. 연골양 척삭종은 일반적인 척삭종이 전후미추부에 잘 발생하는 것과 달리 주로 전후후두골에 잘 발생한다¹⁴⁾.

연골양 척삭종의 세포학적 소견에 대한 문헌은 아직 보고가 안되어 있지만 여러개의 공포를 함유한 특징적인 담공포세포 및 풍부한 세포질내에 여러개의 미세공포를 함유한 세포들이 점액성 배경 위에 열, 삭 또는 함포체를 이루고 있는 일반적인 척삭종의 세포학적 소견과 함께 연골이나 연골육종의 세포도발소견에서 보이는 연골유사세포가 관찰된다. 그렇지

만, 연골양 척삭종을 구성하는 연골성 분화를 보이는 부위가 부분적이고 단단하여 세침흡인 시에 연골유사세포가 잘 안나오므로 세포학적으로 연골양 척삭종의 진단이 어려우며 척삭종으로 대부분 진단이 되는 것으로 생각된다. 그리고 도발된 세포들에서 이형성이 관찰되는 경우에는 척삭종 보다 연골육종과 감별을 해야 하므로 세침흡인 소견상으로 연골양 척삭종의 진단이 더욱 더 힘들다.

세포학적으로 감별할 질환으로는 일반적인 척삭종의 소견만을 보이는 경우에는 점액성 지방육종, 점액성 연골육종, 전이성 선암, 점액유두상 상피세포종 등 점액성 배경을 보이는 질환들이 있다¹⁴⁾. 이형성을 보이는 연골유사세포가 관찰되는 경우에는 연골육종을 감별해야 한다¹³⁻¹⁵⁾. 분화가 좋은 연골육종의 경우에는 열공안에 세포가 들어있는 연골유사세포들이 관찰되고 이형성이 약하여 감별이 어렵지만 초자체성 기질이 척삭종에서 보이는 점액성 배경과 성상이 다르므로 감별이 가능하다. 점액성 연골육종의 경우에는 세포들이 열공구조 없이 세포질내에 공포를 갖고 있는 세포들이 점액성 배경위에 있기 때문에 감별이 더 어렵지만, 세포들의 이형성이 심하고 척삭종의 특징적인 담공포성 세포가 없어 감별이 가능하다.

본 예에서는 일반적인 척삭종에서 관찰되는 두꺼운 점액성 배경위에 크거나 작은 세포질내 공포를 함유한 세포들이 없거나 삭 또는 함포체를 이루고 있어 전후 미추부에 호발하는 척삭종을 먼저 생각하였다. 그렇지만, 비록 세포도발상에서는 열공내에 세포가 들어있는 연골유사세포는 관찰되지 않았지만 대부분의 세포들의 핵이 다형성을 보이며 유사분열상이 관찰되고 중등도의 이형성이 있으며 척삭종에서 잘 나타나는 전형적인 담공포세포가 관찰되지 않는 점 등이 연골성 육종의 가능성을 배제할 수 없었다. 수술 후 조직소견상 연골성

분화를 보이는 부위가 많이 관찰되고 cyto-keratin 및 EMA 등에 양성으로 연골육종을 감별할 수 있었다.

연골양 척삭종은 일반적인 척삭종 및 연골육종 보다 예후가 좋으므로 천추 미추부에 발생한 종괴의 세침흡인시에는 여러 곳을 흡인하여 연골성 분화를 보이는 부위를 놓치지 않고 관찰하여 세포학적으로 감별해야 할 것으로 생각된다.

결 론

저자들은 최근에 천추 미추부에서 발생한 종괴의 세침흡인 세포검사에서 연골유사세포가 관찰되지 않고 이형성이 관찰되어 감별이 어려웠던 연골양 척삭종 1예를 경험하였기에 세침흡인도말에 의한 세포학적 소견 및 조직학적 소견 과 함께 감별점 등을 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. 연골양 척삭종의 세포학적 소견에 대한 보고는 아직 없어 문헌 고찰 삼 것 보고로 생각된다.

참 고 문 헌

1. Volpe R, Mazabraud A: A clinicopathologic review of 25 cases of chordoma(a pleomorphic and metastasizing neoplasm). *Am J Surg Pathol* 7:161-170, 1983
2. Chambers PW, Schwinn CP: Chordoma: A clinicopathologic study of metastasis. *Am J Clin Pathol* 72:765-776, 1979
3. Heffelfinger MJ, Dahlin DC, MacCarty CS, Bea-

4. Lefter LG, Rosier RP: The cytology of chordoma. *Acta Cytol* 22:51-53, 1978
5. Clark SA, Bloch T, Edwards MK, Hall PV: Diagnosis of cervical chordoma by fine needle aspiration biopsy. *Acta Cytol* 31:765-768, 1987
6. O'Dowd GJ, Schumann GB: Aspiration cytology and cytochemistry of coccygeal chordoma: A case report and review of the literature. *Acta Cytol* 27:178-183, 1983
7. 장자준, 조정자, 이수용: A case of sacrococcygeal chordoma diagnosed by fine needle aspiration biopsy cytology. *대한병리학회지* 22:356-359, 1988
8. 인수경, 지미경, 강창식, 김병기, 김선우, 신상인: 척삭종의 세침흡인 세포학적 소견. *대한세포병리학회지* 2:133-139, 1993
9. 하승연, 김인선, 박성혜, 박흥래: 흉부에서 발생한 척삭종의 세포학적 및 조직학적 소견 -1례 보고-. *대한세포병리학회지* 6:199-201, 1995
10. 양경무, 조미연, 정순희, 봉정표: 경추에 발생한 척삭종의 세침흡인 세포학적 소견 -1례 보고-. *대한세포병리학회지* 8:93-97, 1997
11. Brooks JJ, LiVolsi VA, Trojanowski JQ: Does chondroid chordoma exist? *Acta Neuropathol* 72:229-235, 1987
12. Walker WP, Landas SK, Bromley CM, Maher Strum MT: Immunohistochemical distinction of classic and chondroid chordomas. *Mod Pathol* 4:661-666, 1991
13. Rosenberg AE, Brown GA, Bhan AK, Lee JM: Chondroid chordoma-A Variant of chordoma. *Am J Clin Pathol* 101:36-41, 1992
14. Chu TA: Chondroid chordoma of the sacrococcygeal region. *Arch Pathol Lab Med* 111:861-864, 1987
15. Jeffrey PB, Biava CG, Davis RL: Chondroid chordoma- A hyalinized chordoma without cartilaginous differentiation. *Am J Clin Pathol* 103:271-279, 1995.