

심유성 골이형성증을 동반한 벼랑아세포종의 외과적 치험례*

개명대학교 의과대학 치과학교실

이용오 · 문선혜 · 김경돈

--Abstract--

A case report of the surgical treatment of the ameloblastoma accompanying fibrous dysplasia

Yong Oh Lee, DDS; Seon Hye Moon, DDS; Kyeung Don Kim, DDS

Department of Dentistry, Keimyung University
School of Medicine, Taegu, Korea

The ameloblastoma is a slowly growing, locally invasive, benign epithelial tumor of odontogenic origin. This is a case of 16-year-old Korean male with the mural ameloblastoma of the right mandible accompanying fibrous dysplasia. Chief complaint of the patient was severe swelling of the right mandible and facial asymmetry. Enucleation of the cyst and contouring of expanded cortical plate was done via submandibular approach. Genioplasty was done on the chin for improvement of asymmetry via intraoral approach. Diagnosis was established by histologic examination after enucleation of the lesion. Follow-up progress is good and more long-term observation is required. A brief review of related literature was made.

서 론

벼랑아세포종은 악골에 생기는 전체 낭종, 종양의 1%정도를 차지하는 비교적 드물은 종양이다¹⁾. 전체 합치성 낭종의 5~6%에서 낭종의 내면이나 결합조직벽이 벼랑아세포종으로 증식을 보이며 이 병변이 벼랑아세포종의 전구물질이 된다²⁾. 그러므로 악골내의 낭종은 생검을 하여 벼랑아세포종을 배제하여야 한다. 본 증례는 우측 하악골에 발생한 합치성 낭종에서 이행된 벼재성 벼랑아세포종이 심유성 골이형성증을 동반한 1례를 경험, 치료하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자: 진 ○심, 16세, 남자.

초진일: 1985년 9월 26일.

주소: 우측 하악부위의 심한 종창 및 안모의 비대칭.

현병력: 1년 전부터 우측 하악부위의 종창이 계속되었다.

과거력, 전신적소견, 이학적검사소견: 특이 사항



그림 1 초진시 정면사진

* 이 논문은 1987년도 개명대학교 융·종연구미 및 동신의료원 조사연구미로 이루어졌다.



그림 2 수술전(좌) 수술후(우)의 방사선사진



그림 3 악하절개에 의한 하악골의 노출사진

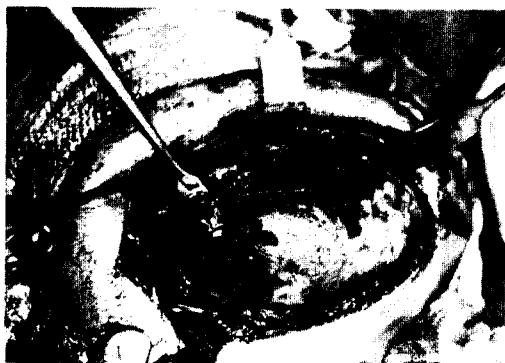


그림 4 하치조 선경을 분리시키는 사진



그림 5 적출물의 사진

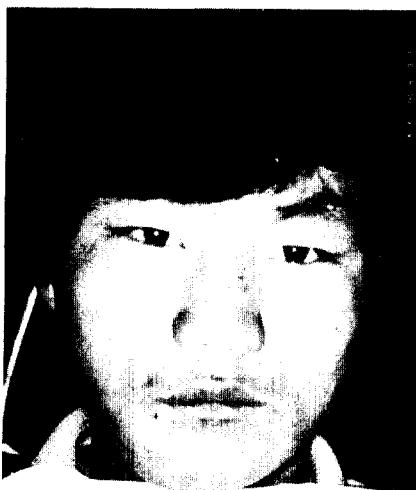


그림 6 수술후 정면사진

이 없었다.

방사선 소견 : 후두—전두위, 하악사위, 카노라마 사전등에서 치근형성이 불완전한 우측 하악 제3대 구치는 하악지부위로 전위되어 있고 제2대구치는

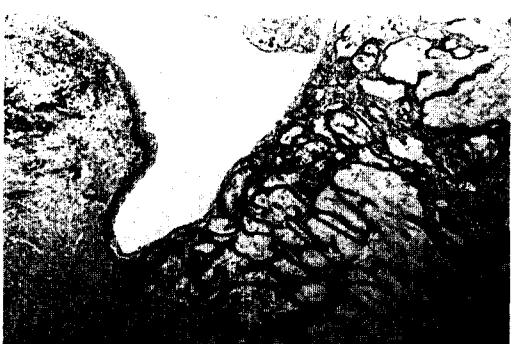


그림 7 범랑아세포종과 핵치성낭종이 같이 판찰되는 조직소견사진(100배).

제1대구치 하방의 골체부에 전위되어 있다. 우측 하악부위의 골체부에서 하악지까지 다방성 낭종성 공통이 있고 피질골은 얇어지면서 외측으로 팽창되어 비늘 세포 모양을 나타내고 있다. 구내 표준 활영 사진에서 우측 하악 제1, 제2소구치, 제1대구치의 치근흡수를 보인다.

구강내소견 : 우측 하악 제2, 제3대구치가 매복되어 있고 견치에서 제1대구치까지는 설축경사되어 있다.

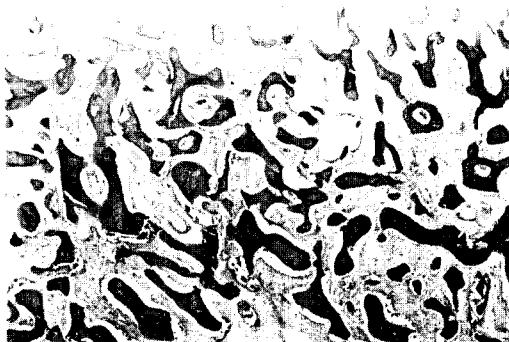


그림 8 섬유성 골이형 성증을 보이는 조직소견
사진(100배)

임상적 진단: 핵치성 낭종, R/O 범랑아 세포종.

처치 및 경과: 1985년 10월 2일 우측 하악건치, 제1, 2소구치, 제1대구치의 밤거 및 조매술을 시행한 후 전색자리를 착용하여 크기의 감소를 기대하였다. 1986년 4월 8일 제2대구치를 밤거하면서 그 주위 조직을 절개생검하여 낭종으로 확인되었다. 1986년 7월 8일 낭종적 출술과 팽창골의 성형술을 시행하였다. 출식은 먼저 환자를 양외위로 눕힌 후 전선마취 하에 우측 하악우각부에서 결합부까지 15cm정도의 피부절개를 하였다. 피하조직, 흰경근, 교관근을 통해 골막까지 이단을 시켰고 이단중에 우측 인민통맥, 경맥, 이동맥은 절단하였다. 하치조 신경 및 혈관을 살리기 위해 골감자와 외파용 비(bur)를 사용하여 우측 하악관을 하악공에서부터 이공까지 노출시켰다. 팽창된 혐축 피질골은 제거하였고 골감자와 외파용 비로 외형을 주었다. 중시된 낭종벽을 골막박리기와 큐렛(curette)으로 분리시키고 구강내측으로는 낭종벽 주위에 절개하여 전제 낭종을 적출하였다. 적출된 낭종내벽의 일부에서 범랑아세포성 종식을 의심케하는 용종모양(polyoid)의 용어리가 관찰되었다. 우측 악하부위에는 종별로 봉합을 하였고 구강쪽은 요오도포름가제를 넣고 부문적으로 침막을 봉합하였다. 10일 후에 발사하였고 9일 후에 정상퇴원 하였으며 술후 55일까지 요오도포름가제를 계속 잘 아주었다. 적출된 낭종과 제거된 피질골을 생김한 결과 범랑아세포종, 핵치성 낭종, 섬유성 골이형성증이 동시에 나타났다.

1987년 4월 21일 안보의 개선을 위하여 구내염에 의해 우측 하악이부의 팽창된 피질골에 성형술을 시행하였으며 제거된 골조직은 생검결과 정상골조직으로 판명되었다. 현재까지 제발의 증상은 없으며 교관이 삽이나 하악관의 전위는 판란되지 않으며 저작기능 향상을 위하여 국부의치를 할 예정으로 있다.

병리학적 소견 :

GROSS DESCRIPTION: The gross specimen consists of several pieces of irregular, hyperemic, focally thickened cystic wall with a tooth, measuring 12.5×5.0×1.3cm in size of the largest one. Also noted is a gray-brownish, polypoid mass, measuring 1.5cm in diameter, in the cystic wall. Also submitted are numerous irregular, hyperemic bone pieces, measuring 2.0×1.1×0.4cm in size of the largest one.

MICROSCOPIC: Section of the cystic wall from right mandible shows a cystic wall composed of fibrous connective tissue lined with nonkeratinizing stratified squamous epithelium and moderate to severe infiltration of lymphocytes and plasma cells in the wall. Section of the polypoid mass from the cystic wall shows cords or nests of ameloblastic epithelium lying in a dense connective tissue stroma. The nests of ameloblastic epithelium are composed of peripheral cuboidal or columnar cells and a central stellate reticulum. Section of the bone tissue from right mandible shows irregular, C-shaped, or Chinese figurelike trabeculae of woven bone within a proliferating fibroblastic stroma.

DIAGNOSIS: Bone, mandible, right, enucleation and curettage:

Ameloblastoma

Dentigerous cyst

Fibrous dysplasia

고 찰

범랑아세포종은 발생중의 치원조직으로부터 생기는 범랑질형성 임재력 있는 상피성 종양으로서 주로 하악골에 호발하며 때로 상악골에도 생긴다³⁾. 그물제 경골, 이하수체에서의 발생도 기술되었다. 1868년 Broca⁴⁾에 의해 최초로 기술되었으며 1885년 Mallasz⁵⁾가 adamantinoma라고 한 후 adaman-toblastoma, epithelial odontoma, multilocular cyst로 불리어지며 ameloblastoma라는 명칭은 1930년 Ivy 와 Churchill⁶⁾이 사용한 후 가장 널리 사용되고 있다. 범랑아세포종으로 분화하는 종양성 상피세포의 발생은 다른 치계낭종보다 핵치성 낭종에서 가장

많다⁷⁾. 합치성 낭종의 벽에 법랑아세포종이 발생한 것의 최초기록은 1925년 Morlet & Morlet⁸⁾에 의하여 1931년 Schroff, 1933년 Cahn 등이 보고한 후 Carpenter & Thoma⁹⁾, Thoma & Proctor¹⁰⁾, Hauenstein¹¹⁾, Axhausen¹²⁾, Sheinmann¹³⁾, Cameron¹⁴⁾, Hewer¹⁵⁾, Quinn and Fournet¹⁶⁾등이 각각 보고하고 있다. Bernier와 Tiecke¹⁷⁾는 88례의 법랑아세포종의 33%가 여포낭종에서 기원했다고 보고하였으며 Stanley와 Diehl은 641례의 법랑아세포종에서 108례가 배복치 또는 여포낭종과 연관이 있다고 하였다. 그러나 벽재성 법란아세포종이 바로 해서 항상 배복치를 동반하는 것은 아니다¹⁸⁾. Paul, Fay, Stamps¹⁸⁾등에 의하면 전체 여포낭종의 82%가 결합조직 벽에 치원상피를 가지고 있으며 보통은 활성이 없으나 자극을 받아서 법랑아세포종이 된다고 하며 Bhaskar¹⁹⁾는 전체 합치성 낭종의 5~6%에서 낭종의 내측면이나 결합조직벽이 법랑아세포성 종식을 하며 이 병변이 법랑아세포종의 전구물이라고 했다. Stanley, Krogh, Pannkuk 등²⁰⁾은 세3대구치 여포의 70례를 보고하면서 26세 이후에는 낭종의 내면과 법랑세포간유물에서 치원상피가 완전히 소진되는 것을 발견하였다. 그들은 법란조직형성이 완성된 후 법랑아세포종이 서서히 되화되어 결국 평평상피로 대체되므로 30세 이후에는 법랑아세포종의 발병이 감소한다고 하였다. 많은 여포성, 합치성 낭종에 법랑아세포성 상피의 부위가 있으므로 낭종의 작은 부분을 절단할 때 법랑아세포종으로 오진할 가능성이 있고 역으로 벽재성 법랑아세포종의 경우에 절단을 작게하여 진행중인 법랑아세포종을 포함하지 못할 수가 있다²¹⁾. 주로 20~30대에 발생하며 남녀차이는 거의 없으며 하악률에서도 50%이상이 구치부, 하악자부위에 발생하지만 대부분 골내에서 서서히 성장하므로 초기진단이 어렵다^{22~24)}. 임상적 증상으로는 지각이상, 치아의 통증등이 있을 수 있으며 EverSOLE²⁵⁾등은 특별한 증상이 없는 증상을 일으키고 구강내 방사선 촬영에서 발견된다고 하였다. 방사선 소견으로는 하악골에서 다량성 낭종성 공통을 보여서 멀집 또는 비누거품 모양을 나타내며 때로는 잘 구별된 단방성 공통을 보이기도 하며 50%에서 배복치와 연관되어 나타나며 상악에서는 대개 단방성 공통을 보이지만 방사선으로는 진단이 불가능하다^{22,23)}. 종양내에서의 낭종형성 정도는 다양하며 낭종간의 구분은 대부분 일한 결합조직으로 이루어 지지만 골인 경우도 있다²²⁾. 법랑아세포종은 해면골을 국소적으로 침범하고 과정골을 팽창시키

면서 성장하지만 진행이 많이 되기전까지는 연조직을 침범하지 않는다^{23,26~28)}. 혈마경 소견에서는 진단의 가장중요한 핵심은 여포섬의 중앙부위에서 관찰되는 성장당상체인데 이것은 법랑기와의 유사성때문에 중요하다²⁹⁾. 입방세포, 원주세포의 전형적인 말초세포도 진단에 중요한 부분이다. 많은 학자들은 다양한 조직학적 분류와 임상적 양상사이에 적절적인 연관성이 없다고 보고있다^{22,30~33)}.

법랑아세포종은 보통 외과적으로 처치하며 방사선치료에 저항하는 것으로 생각되어지지만 다른 치치법이 없는 경우 사용되어졌다. 전이되는 경우는 거의 없다³⁴⁾. 외과적 치치의 방법으로는 1. 소파술-내용물의 제거를 위하여 연조직이나 골내의 공통의 내벽을 끊어냄³⁵⁾. 2. 적출술-병변을 손상되지 않게 들어냄. 3. 변연절제술-종물을 손상되지 않게 외과적으로 제거하면서 주위의 정상률도 제거함, 하악골 하연의 연속성을 유지시키는 경우인²²⁾. 4. 분할술-제술-골의 연속성을 유지시키지 않으면서 악골의 일부를 외과적으로 제거함. 5. 반절제술-악골의 편측을 외과적으로 제거함. 수술방법의 선택은 임상적 양상, 악골내의 위치와 크기, 환자의 나이, 계속관찰 가능성을 고려하여야 한다. 법랑아세포종의 진단이 되었다고 즉시 악골을 절제해서는 안되며 가능하면 종양의 완전제거와 동시에 악골의 하연을 보존하여야 한다³⁶⁾. 낭종의 대술을 시행할 때는 입구를 크게 하여 조직검사표본이 충분히 그도록 함과 동시에 벽의 종식, 불규칙부위를 쉽게 발견할 수 있도록 해야 한다³⁷⁾. Gardner³⁸⁾등은 28례의 벽재성 법란아세포종을 적출한 후 3례의 재발을 보고하였는데 이것은 전체 법랑아세포종의 55~90%의 재발율과 비교해서 매우 낮으며 Robinson과 Martinez의³⁹⁾ 보고와도 매우 유사하다^{30,34,40,41)}. Shteyer, Lustmann, Lenin-Epstein⁴⁰⁾등도 적출후의 재발율이 10%이하라고 보고하였다. 재발율이 낮으므로 실질형의 법랑아 세포종에서 요구되는 변연절제술 또는 분할술 절제술보다는 적출술에 의해 치료되어야 하며 특히 나이가 어릴때는 파다한 외과적 치치를 피해야 한다^{42,43)}. 보존적 치치후 재발은 실패를 의미하는 것이 아니며 보통 풀의 재생이 상당히 일어나고 재발되는 부위도 보존적으로 수술할 수 있을 정도의 작은 부위에 한정된다^{22~24,26~28,44~46)}. 낭종의 관강내로 종식되거나 결합조직내로 피상적으로 종식된 경우에는 적출술을 시행한 후 더 이상의 치료없이 10년 간격으로 정기적인 계속관찰을 해야 한다. 그러나 결합조직벽의 변연을 침범한

경우, 고기에 따라 면연질제 혹은 분할골 절제술을 시행해야 한다⁴⁷⁾. 범랑아세포종은 방사선치료에는 효과가 없으며 Becker와 Pertl⁴⁸⁾은 방사선 조사후 벌육종, 방사선성 류괴사의 위험성을 보고하였다. 한명수술을 이용한 것은 1971년 하악에 재발된 범랑아세포종의 치치에 소파술과 동시에 Emmings^{49~51)} 등이 사용하였는데 정상적으로 보이는 주위의 골을 재활시키므로 소파술이나 제한적인 의파적 치치후에 잔존 종양물을 피할 수 있고 절제된 골은 종물은 제거한 후 다시 자가이식할 수 있다는 장점이 있으며 상악골 후방부위에서는 중요조직과 근접되어 있으므로 사용이 불가능한 단점도 있다.

요 약

저자들은 우측 하악부위의 심한 종창과 안로의 비대칭을 주소로 동신의료원 치과로 내원한 16세 남자의 악골에 발생한 합치성 낭종을 악화절개에 의한 겹근법으로 치출하고 팽창된 피질골에 대해 성형술을 시행하였다. 치출물과 제거된 골을 생검한 결과 합치성 낭종에서 진행된 벽재성 범랑아세포종이 섬유성 골이형성종을 동반한 것이었다. 의파적 치치후 10개월간의 계속적인 관찰결과 재발의 증상이 보이지 않고 심미적, 기능적 회복이 양호한 것으로 보인다. 1개병변에서 범랑아세포종과 섬유성 골이형성종이 같이 나타난 것은 아직 문헌상에 보고된 적이 없는 바 계속적인 관찰이 요망되어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. David V Castner Jr Captain(DC) USN, Albert C McCully Lieutenant Colonel USAF (DC), William R Hiatt Commander(DC) USN: Intracystic ameloblastoma in the young patient. *Oral Surg* 1967; 23: 127.
2. Richard M Generson DMD, John M Porter DDS, George T Stratigos DDS MSD, Bronx NY: Mural odontogenic epithelial proliferations within the wall of a dentigerous cyst. *J Oral Surg* 1976; 34: 717~719.
3. Robin M Rankow MD, Maurice J Hickey MD, New York NY: Adamantinoma of the mandible; analysis of surgical treatment. *Surgery* 1954; 36: 713~719.
4. Broca P: Gaz hebdoméd de Bordeaux 1868; 25 : 70.
5. Malassez ML: Sur le rôle des débris epithéliaux paradentaires. *Arch Physiol* 1885; 5 : 309, 6 : 379.
6. Ivy RH, Churchill HR: The need of a standardized surgical and pathological classification of the tumors and anomalies of dental origin. *Tr Am A Dent Schools* 1930; 7 : 240.
7. Charles E Hutton DDS, Indianapolis, Ind: Occurrence of ameloblastoma within a dentigerous cyst. *Oral Surg* 1967; 24 : 147~150.
8. Morlet A, Morlet JB: Kystes dentifères et adomantinome à dents embryonnaires. *Press Med* 1925; 33 : 677.
9. Carpenter LS, Thoma KH: Adamantinoma developing from radicular cyst. *Dental Items Int* 1933; 55 : 716.
10. Thoma KH, Proctor CH: Adamantinoma developing from odontogenic cyst. *Am J Orthodont* 1937; 23 : 307~311.
11. Hauenstein K: Zur Wertung und Diagnostik der adamantinomartigen Kiefertumoren. *Deutsch Zahn Mund Kieferheilk* 1937; 4 : 387~406.
12. Axhausen G: Die Kieferzysten als Quelle von Kiefergeschwülsten. *Samml Meusser* 1938; 33 : 71~87.
13. Sheinmann K: Odontogenic cyst with ameloblastic nodules. *Arch Clin Oral Path* 1940; 4 : 50~63.
14. Cameron DA: Adamantinoma: A brief discussion of their pathology with a report of three cases. *Dent J Australia* 1951; 23 : 183~193.
15. Hewer TF: Primary epithelial tumor of the jaw. *J Clin Path* 1952; 5 : 225~233.
16. Quinn JH, Fournet LF: Dentigerous cyst with mural ameloblastoma: report of case. *J Oral Surg* 1969; 27 : 662~664.
17. Bernier JL, Tiecke RW: A compilation of the Material received by the registry of oral pathology. *J Oral Surg* 1951; 9 : 341.
18. Paul JK, Fay Jt, Stamps P: Recurrent dentigerous cyst evidencing ameloblastic

- proliferation: Report of a case. *J Oral Surg* 1969; 27: 211-214.
19. Bhaskar SN: *Synopsis of oral pathology*, St Louis, The CV Mosby Company, 1968.
 20. Stanley H, Krogh H, Pannkuk E: Age changes in the epithelial components of follicles(dental sacs) associated with impacted third molars. *Oral Surg* 1965; 19: 128.
 21. David G Gardner DDS MSD Washington DC, Russell L Corio Captain(DC) USN: The relationship of plexiform unicystic ameloblastoma to conventional ameloblastoma. *Oral Surg* 1983; 56: 54-60.
 22. Mehlish DR, Dahlin DC, Masson JK: Ameloblastoma: A clinicopathologic report. *J Oral Surg* 1972; 30: 9.
 23. Shafer WG, Hine MK, Levy BM: *A textbook of oral pathology*, ed 2. Philadelphia, WB Saunders Co, 1963.
 24. Small IA, Waldron CA: Ameloblastoma of the jaws. *Oral Surg* 1955; 8: 281.
 25. LR Eversole DDS MSD MA, AS Leider DDS MA, D Strub MA DDS, San Francisco, Calif: Radiographic characteristics of cystogenic ameloblastoma. *Oral Surg* 1984; 57: 572-577.
 26. Hinds EC, Plesants JE, Snyder PL: Management of ameloblastomas. *Oral Surg* 1964; 7: 1169.
 27. Kramer IR: Ameloblastoma: A clinicopathological appraisal. *Br J Oral Surg* 1963; 1: 13.
 28. Archer WH: *Oral Surgery*, ed 4. Philadelphia, WB Saunders Co, 1966.
 29. Samuel Shatkin DDS MD, FS Hoffmeister MD DMD FACS, Buffalo NY: Ameloblastoma: A rational approach to therapy. *Oral Surg* 1965; 20: 421.
 30. Cernéa P, Guibert F, Rouchon C, Brocherion C C, Payen J: Les récidives des améloblastomes des maxillaires étude statistique indications thérapeutiques. *Rev Stomatol* 1974; 75: 18-26.
 31. Masson JK, McDonald JR, Figi FA: Adaman tinoma of the jaws. *Plast Reconstr Surg* 1959; 23: 510-525.
 32. Sehdev MK, Huvos AG, Strong EW, Gerold FP, Willis GW: Ameloblastoma of maxilla and mandible. *Cancer* 1974; 33: 324-333.
 33. Smith JF: The controversial ameloblastoma. *Oral Surg* 1968; 26: 45-75.
 34. David G Gardner DDS MSD, Antony MJ Peckak BSC: The treatment of ameloblastoma based on pathologic and anatomic principles. *Cancer* 1980; 46: 2514-2519.
 35. American Society of Oral Surgeons: *Oral and Maxillofacial Surgery Procedural Terminology with Glossary*, ed 1. Chicago, 1975.
 36. Waldron CA: Ameloblastoma in perspective. *J Oral Surg* 1966; 24: 331.
 37. FMS Lee BDS FDS(Eng) FACD, Singapore, Singapore: Ameloblastoma of the maxilla with probable origin in a residual cyst. *J Oral Surg* 1970; 28: 799-805.
 38. Gardner DG, Corio RL: Plexiform unicystic ameloblastoma: A variant of ameloblastoma with a low recurrence rate after enucleation. *Cancer* 1984; 53: 1730-1735.
 39. Robinson L, Martinez MG: Unicystic ameloblastoma: A prognostically distinct entity. *Cancer* 1977; 40: 2278-2285.
 40. Shteyer A, Lustmann J, Lewin-Epstein J: The mural ameloblastoma: A review of the literature. *J Oral Surg* 1978; 36: 866-872.
 41. Young DR, Robinson M: Ameloblastoma in children: Report of a case. *Oral Surg* 1962; 15: 1155.
 42. Stout RA, Lynch JB, Lewis SR: The conservative surgical approach to ameloblastomas of the mandible. *Plast Reconstr Surg* 1963; 31: 554.
 43. Smith JF: Ameloblastoma: Report of 30 cases. *Oral Surg* 1960; 13: 1253.
 44. Seldin HM: Conservative surgical treatment of ameloblastoma of the jaws. *J Oral Surg* 1944; 2: 333.

45. Monks FT: Treatment of adamantinoma by conservative surgery: A review. *J Oral Surg* 1964; 22: 171.
46. Gardner AF: A study of 21 instances of ameloblastoma, a tumor of odontogenic origin. *J Oral Surg* 1963; 21: 230.
47. Blum T, Cohn LR: A plea for conservatism in oral surgery. *Oral Surg* 1951; 4: 825.
48. Becker R, Pertl A: Zur therapie des ameloblastomes. *Dtsch Zahn Mund Kieferheilkd* 1967; 49: 423-436.
49. Emmings FG, Gage AA, Koepf SW: Combined curettage and cryotherapy for recurrent ameloblastoma of the mandible: Report of case. *J Oral Surg* 1971; 29: 41.
50. Bradley PF: Modern trends in cryosurgery of bone in the maxillo-facial region. *Int J Oral Surg* 1978; 7: 405-415.
51. Marciani RD, Trodahl JN, Suckiel MJ, Dubick MN: Cryotherapy in the treatment of ameloblastoma of the mandible: Report of cases. *J Oral Surg* 1977; 35: 289-295.