

JUVENILE ACTIVE OSSIFYING FIBROMA 의 치험례

고신대학교 의과대학 치의학교실

최 인

A CASE REPORT OF JUVENILE ACTIVE OSSIFYING FIBROMA

In Choi, D.D.S.

Department of Dentistry, Kosin University, School of Medicine

Ossifying fibroma is a rare benign tumor of the maxilla and the mandible. And its nosology and diagnosis have had many problems. It occurs more common in young adult, especially in female, and there is a predilection for the mandible. The lesion is generally asymptomatic and recurrence is rare after conservative excision. Among ossifying fibroma, juvenile active ossifying fibroma grows rapidly, produces many symptoms, and frequently recurs after conservative excision. Authers experienced a case of juvenile active ossifying fibroma which recurred after two times of conservative surgery, and report is with review of the literatures.

I. 서 론

악골에 드물게 발생하는 양성종양인 ossifying fibroma는 질병의 분류, 진단 등에 있어서 많은 논란의 대상이 되어왔다. 1872년 Menzel이 osteofibroma라는 이름으로 이 질환을 처음으로 설명하였고^{28,32)}, ossifying fibroma라는 용어는 1927년 Montgomery가¹⁷⁾ 처음으로 사용하기 시작하였으며, 현재까지도 문헌 상에 많은 다른 이름으로 언급되고 있다^{3,20)}. 이는 치근막 인대내의 조섬유세포로부터 발생하며, 안모의 종창 및 비대칭성 외에 별다른 증상은 없으며, 병소의 보존적인 제거술 후에 거의 재발하지 않는다^{18,24)}. 이에 반해 juvenile active ossifying fibroma는 저연령층에 빈발하고 주위 조직에 대해 심한 파괴를 일으키며, 보존적 수술 후에는 재발의 가능성이 높다^{8,31)}. 저자들은 12세 소아에 발생한 juvenile active ossifying fibroma가 두차례에 걸친 보존적인 수술 후에도 재발된 예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증 례

환 자 : 최○영(12세 여자)

초진일 : 1986년 12월 30일

주 소 : 하악골 우측 골체부의 무통성 종창
기왕력, 가족력 : 특이 사항 없음

병 력 : 하악골 우측 골체부의 무통성 종창이 수개월에 걸쳐서 서서히 증가하였으며, 약 10일 전부터 우측 안면부의 감각이상을 느꼈다고 함

현 증 : 하악골 우측 골체부의 심한 종창으로 심한 비대칭성의 안모를 보였으며, 병소부 촉진시에 딱딱하였고 열발음이나 동통의 유발은 없었다. 구강내 소견으로서 하악 우측 제1소구치의 설측 전위, 하악 우측 제2소구치의 협측 전위가 관찰되었으며, 그외에는 특이사항 없었음

방사선 소견 : 하악 우측 견치에서 제1대구치에는 이르는, 약 4cm크기의 경계가 뚜렷한 방사선 투과성 병소를 보이며, 피질골이 팽창되고 얇아져 있으며, 하악 우측 제1, 2소구치의 심한 전위를 보였다. 99m Tc bone scan 상에서 하악골 우측 골체부의 심한 증대와 radionuclide의 축적을 보였다.

이화학적 검사 : alkaline phosphatase가 20.6 K. A로 다소 증가됨

경과 : aneurysmal bone cyst 혹은 traumatic bone cyst의 가진단 하에 의래에서 하악 우측 제1대구

치를 hemisection 하였으며, 1987년 1월 7일 성장기 환자의 하악골 연속성을 유지할 목적으로 전신마취하에 구내접근법을 사용하여 적출술 및 변연 절제술을 시행하였으며, 수술시 하치조 신경의 하방 전위를 보였다. 그후 적출물의 생검 결과 ossifying fibroma로 확진 되었다. 술후 관찰중 수술창의 치유 지연과 창상 변연부로 부터 종양물의 증식으로 재발이 확인되어 1987년 2월 26일 국소마취 하에서 창상부위의 소파술을 시행하였고, 생검결과 역시 ossifying fibroma로 나왔다. 그 후 여전히 창상의 치유가 지연되고 종양물의 증식이 있었으며, 방사선 사진 상에서 병소의 크기가 증대되는 등 재발의 증상이 나타나므로, 1987년 6월 2일 전신마취하에서 구외접근법으로 근치적 하악골 절제술 및 자가 장골 이식에 의한 즉시 재건술을 시행하였다. 이식골편은 골간 강선 고정과 연속성이 절단된 하악골의 간격 유지와 이식골 고정을 위해 Webb의 modified biphas appliance에 의한 구외 고정과 좌측 구치부에 약간과정술을 시행하였다. 술 후 32일 째에 구외 고정 장치를 외래에서 제거하고 약간과정술은 58일째에 제거하였다. 현재까지 관찰 중 재발의 증상은 없다.

병리학적 소견: 육안적으로 황백색 낭종과 같은 형태이고, 현미경적으로는 부분적으로 혈관이 풍부한 섬유성 결합조직이며, 여기에 파골세포와 형질세포의 미만성 침윤을 보인다.



사진 1: 내원시의 방사선 사진



사진 2: 적출 후의 방사선 사진

술전보다 병소의 크기가 더 증가된 양상을 보인다.



사진 3: 99m Tc MDP bone scan

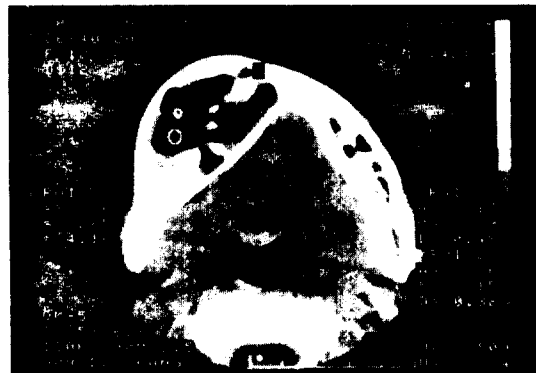


사진 4: 컴퓨터 단층촬영 사진



사진 5:술 후 6개월 후의 방사선 사진



사진 6:적출된 종물

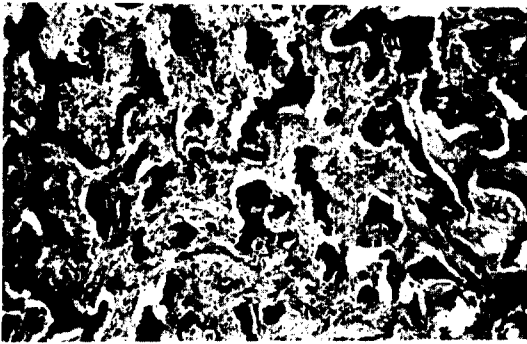


사진 7:현미경 사진

III. 고 찰

Hamner 등은 악골에 발생하는 fibro-osseous lesion 은 치조골, 백악질, 섬유성조직 등을 형성할 수 있는 능력을 가진, 치근막 인대내의 간엽아세포가 어떤 특정한 병리적인 환경 하에서 그러한 조직을 형성함으로써 발생하게 되는 종양이라고 하였다^{7,8)}. 그는 조직학적인 소견에 따라서 몇 가지 형으로 구분하였는데, ossifying fibroma 는 fibro-osseous lesion 249 례 중에서 57 례가 해당되었다고 하였다⁸⁾. 그는 석회화 물질이 편광현미경 하에서 나타내는 birefringence line 의 차이에 의하여 ossifying fibroma, cementifying fibroma, 섬유성 이형성종의 감별이 가능하다고 하였으나⁸⁾ 다른 학자들은 골과 백악질의 구분이 사실상 불가능하고, 임상소견, 방사선 소견 및 치료법이 동일하므로 ossifying fibroma 와 cementifying fibroma 의 구분은 임상적으로나 예후에 있어서 아무런 의미가 없으므로, fibro-osseous lesion 이라는 동일한 질환의 범주 내에 포함 하였다^{2, 12, 15, 16, 23, 31)}. 1938년 Lichtenstein 이 악골의 질환에 섬유성 이형성종이라는 용어를 도입

하여, ossifying fibroma 는 섬유성 이형성종의 monocystic form 이라고 주장하였다^{18, 19, 22, 29)}. 그러나 1948년 Sherman 등은 방사선 소견과 임상소견의 차이를 들어 ossifying fibroma 와 섬유성 이형성종은 서로 다른 질환이라고 주장하였는데, Lichtenstein 도 나중에 이를 인정하게 되었고, 현재까지 서로 다른 질환으로 받아들여지고 있다^{18, 20, 24, 25)}.

ossifying fibroma 는 동통의 유발없이 서서히 성장하는 종양으로서, 젊은 성인 (20-40세), 특히 여성에게서 빈발하고, 상악악 중에서 상악골에 더 호발한다^{8,9, 12, 31)}. 하악골에 발생할 경우에는 구치부에, 상악골 발생시는 전치부에 주로 발생하며, 드물게 악골 이외의 장소에서 발생한 예도 보고된 바 있다^{4, 25, 27, 31)}. 병소는 대개 피질골을 팽창시키면서 성장을 하게되며, 병소의 크기가 작을 때는 무증상이나, 크기가 커짐에 따라 안모의 종창 및 비대칭성을 보이게 되며, 치아의 전위가 초기 증상으로서 관찰될 수도 있다. 발생률에 대한 보고는 아주 다양하며, 임상 소견 상에서 섬유성 이형성종과의 차이는 없다^{10, 15, 26, 31)}.

초기에는 방사선 사진상에 경계가 명확한 원형 혹은 난원형의 방사선 투과성 병소로서 낭종과 유사한 양상을 보이며, 피질골의 팽창을 일으키나 천공은 야기하지 않는다. 그러나 병소가 성숙해짐에 따라 석회화 병소의 수와 크기가 증가하므로 부분적인 방사선 불투과성 병소가 나타나게 되고, 궁극적으로는 이들이 합쳐져서 균일한 방사선 불투과성 병소가 되지만, 골 자체의 방사선 불투과성 보다는 약하다^{4, 5, 24, 25)}. Ossifying fibroma 는 경계가 항상 명확하고 치근 흡수는 거의 야기하지 않으므로 이 점에서 어느 정도 감별할 수 있다³⁰⁾. 99m Tc bone scan 상으로는 radionuclide 의 축적된 양상으로

나타나므로 병소는 고도로 혈관화되어 있고 골질의 급격한 변화가 있음을 보여 주며, 연조직이 이환되었을 경우에는 병소의 범위를 알기 위하여 보조적인 진단법으로 사용되기도 한다^{28,30}.

병소는 대개 피낭형성이 잘 되어 있고¹⁾, 많은 섬세한 교원 섬유가 서로 엇갈리게 짜여진 기본 구조를 가지는데, 여기에 많은 수의 조섬유세포가 산재해 있다. 곳곳에 불규칙한 골소주가 존재하는데, 이는 섬유성 이형성증에서 관찰되는 bizarre Chinese character 와 유사하며, 병소가 성숙함에 따라 골소주의 수와 크기가 증가하면서 마침내는 합쳐져서 궁극적으로는 방사선 사진 상에서 방사선 불투과성 병소로 나타나게 된다^{6,8,14,24}. 조직학적으로는 섬유성 이형성증과의 감별이 사실상 불가능하여 때로는 생검이 섬유성 이형성증으로 잘못 판독되어 치료가 지연되기도 하였는데, Small 등은 이를 방지하기 위하여 생검시에 건강골을 포함할 것과 생검결과가 섬유성 이형성증이라더라도 병소의 크기가 작을 경우에는 초기에 절제할 것을 주장하였다²⁶.

이러한 ossifying fibroma 중에 소위 juvenile active ossifying fibroma 라는 것이 보고되었는데, 이는 명칭에서 알 수 있듯이 유년기에 나타나고, 병소의 성장이 빠르고 인접조직의 심한 파괴를 일으키며 안모의 심한 비대칭성과 압박으로 인한 감각신경의 이상 등을 보이기도 한다. 피질골의 팽창 없이 직접적인 골 파괴를 일으키며 성장하기도 하고, 상악골에 발생하였을 경우에는 코막힘, 유루증, 안구돌출증, 시각장애 등을 보이기도 하며, 병소가 주위의 중요한 구조물로 확장되어 환자가 사망하기도 한다. 조직학적으로는 다른 ossifying fibroma 와 같으며, 섬유성 이형성증과 조직학적 소견과 임상소견이 거의 동일하므로 치료가 지연되는 경우도 있다^{8,9,20,28,31}. Walter³² 등은 alkaline phosphatase 의 증가를 보고하였고, 본 증례에서도 증가하였으나 진단학적인 가치는 의심스럽다. 정확한 진단을 내리기 위하여는 어느 한 가지 방법에 의존하지 말고, 병력, 임상소견, 방사선 사진 소견, 조직학적 소견, 임상병리 검사 등을 서로 연관지어 고찰하여야 하며, 확진이 되면 초기에 병소를 완전 제거하여 주어야 한다^{30,32}. 이는 특히 상악골에 발생하였을 시 치료가 지연되어 병소가 커지면

병소의 완전제거가 곤란한 경우가 있으므로 특히 그러하다.

재발을 방지하기 위하여 병소를 완전히 제거하는 것이 필요한데, 병소는 피막형성이 잘 되어 있으므로 제거가 용이하여 대개는 적출술이나 소파술로 충분하나 병소의 크기가 매우 클 경우에는 절제술을 시행한다^{11,17,27}. 대개는 재발을 하지 않으나, juvenile active ossifying fibroma 의 경우 환자의 나이가 너무 어리거나 수술시에 건강골을 10-12mm 더 절제하지 않으면 흔히 재발 할 수 있다. 방사선 치료는 효과가 없으며, 오히려 방사선 치료 후에 섬유육종과 골육종이 발생한 예도 보고되었다^{11,28}.

IV. 결 론

저자들은 12세 여아에 발생한 juvenile active ossifying fibroma 가 두 차례에 걸친 보존적인 제거술 후에도 재발된 예를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. ossifying fibroma 는 모든 진단 방법을 동원하여 가능한 초기에 다른 질환, 특히 섬유성 이형성증과 감별한 후 병소를 완전 제거하여 주는 것이 중요하며, 만약에 유년기에 발생한 ossifying fibroma 가 인접골을 심하게 파괴하면서 급속히 성장하는 병소이며 감각신경의 이상, 코막힘, 유루증, 안구돌출증, 시각장애 등을 보이거나 보존적인 제거술 후에도 재발을 한다면, 이는 juvenile active ossifying fibroma 일 가능성이 높으므로 근치적 절제술을 고려하는 것이 좋을 것이라고 사료된다. 현재 수술시 장기간 마취관 삽입으로 인한 우측 비강의 형태이상을 제외하고는 가철성 국소의치를 장착하여 정상적인 하악골 운동과 저작기능을 나타내고 있다.

참 고 문 헌

1. Amies, A., and Fleming, W.E. Central ossifying fibroma of the jaws. Oral Surg 15(12):1409-1414, 1962.
2. Dehner, L.P. Tumors of the mandible and maxilla in children. I. Clinicopathologic study of 46 histologically benign lesion. Cancer 31:363, 1973.
3. Eversole, L.R.: Sabes, W.B.: Rovin, J. Fibrous dysplasia: A nosologic problem in diagnosis of fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Pathol

- 1 : 189, 1972.
4. Farman, A.G. : Nortje, C.J. : Grotepass, F.W. Pathological conditions of the mandible. Their effect on the radiographic appearance of the inferior dental.
 5. Gay, I, and others. Ossifying fibroma : report of case. *J Oral Surg* 33(5) : 368 - 371, 1975.
 6. Goaz, W.G., and White, S.C. *Oral radiology*, C.V. Mosby Co., 1982, p525 - 529
 7. Hammer, J.E., and others. Cemento - ossifying fibroma of the maxilla. *Oral Surg* 26(4) : 579 - 587, 1968.
 8. Hmaner, J.E. : Scofield, H.H. : and Cornyn, J. Benign fibro - osseous jaw lesions of periodontal membrane origin. An analysis of 249 cases. *Cancer* 22 : 861 - 878, 1968.
 9. Kenneth, S., and Curran, J.B. Giant cemento - ossifying fibroma. Report of a case. *J Oral Surg* 30 : 513, 1972.
 10. Khanna, S., and Khanna N.N. Primary tumors of the jaws in children. *J Oral Surg* 37 : 77 - 80, 1979.
 11. Kruger, G.O. *Textbook of oral and maxillofacial surgery*, ed6., C.V. Mosby co., 1984, p648 - 649
 12. Langdon, J.D. : Rapidis, A.D. : and Patel, M.F. Ossifying fibroma - one disease of six ? An analysis of 39 fibro - osseous lesions of the jaws. *Br J Oral Surg* 14(1) : 1 - 11, 1976.
 13. Laskin M.D. *Oral and maxillofacial surgery*, C.V. Mosby Co., 1985, p550 - 553.
 14. Lucas, R.B. *Pathology of the oral tissues*, ed3., Churchill Livingstone, 1976, p399
 15. Mallory, T.B. *Medical progress : pathology, disease of bone*. *N Engl J Med* 227 : 955 - 960, 1942.
 16. Martis, C., and Karakasis, D. Cemento - ossifying fibroma of the jaw. *J Oral Surg* 33(5) : 364 - 367, 1975.
 17. Montgomery, A.H. Ossifying fibroma of the jaw. *Arch Surg* 15 : 30 - 44, 1927.
 18. Pepler, W.J. Ossifying fibromas and their relation to fibrous dysplasia and other tumors. *J Pathol* 79 : 408, 1966.
 19. Pizer, M.E. Ossifying fibroma of the maxilla. *JADA* 56(3) : 400 - 401, 1958.
 20. Reed, R.J., and Hagy, D.M. Benign nondontogenic fibro - osseous lesions of the skull. Report of two cases. *Oral Surg* 19 : 214, 1965.
 21. Rogezi, J.A. : Kerr, D. : and Courtney, R.M. Odontogenic tumors : Analysis of 706 cases. *J Oral Surg* 36 : 771, 1978.
 22. Schlumberger, H.G. Fibrous dysplasia (ossifying fibroma) of maxilla and mandible. *Am J Orthod* 32 : 579 - 587, 1946.
 23. Schmaman, A. : Smith, I. : and Ackerman, L.V. Benign fibro - osseous lesions of the mandible and maxilla. *Cancer* 26 : 303, 1970.
 24. Shafer, W.G. : Hine, M.K. : and Levy, B.M. *A textbook of oral pathology*, ed4., W.B. Saunders Co., 1983, p142 - 144
 25. Sherman, R.S., and Sternberg, W.C. The roentgen appearance of ossifying fibroma of bone. *Radiology* 50 : 595 - 609, 1948.
 26. Small, I.A., and Goodman, P.A. Giant cemento - ossifying fibroma of the maxilla : report of case and discussion. *J Oral Surg* 31(2) : 113 - 119, 1973.
 27. Thoma, K.H. *Oral surgery*, ed5., C.V. Mosby Co., 1969, p977 - 978
 28. Thawley, S.E. : Panje, W.R. : Batsakis, J.G. : and Lindberg, R.D. *Comprehensive management of head and neck tumors*, W.B. Saunders Co., 1987, p1511 - 1514
 29. Waldron, C.A. Fibro - osseous lesions of the jaws. *J Oral Surg* 28(1) : 58 - 64, 1970.
 30. Waldron, C.A. Ossifying fibroma of the mandible. *Oral Surg* 6 : 467 - 473, 1953.
 31. Waldron, C.A., and Giansanti, J.S. Benign fibro - osseous lesions of the jaws : a clinical - radiologic - histologic review of sixty five cases. Benign fibro - osseous lesions of periodontal ligament origin. *Oral Surg* 35(3) : 340 - 350, 1973.
 32. Walter, J.M., and et al. Aggressive ossifying fibroma of the maxilla : review of the literature and report of case. *J Oral Surg* 37 : 276 - 286, 1976.