

## 폐로 전이한 악성 에나멜모세포종의 세침흡인 세포학적 소견

- 1예 보고 -

서울대학교 의과대학 병리학교실 및 치과대학 구강병리학교실\*

강윤경·박인애·임창윤\*·함의근·이상국

= Abstract =

### Fine Needle Aspiration Cytology of Malignant Ameloblastoma Metastasized to the Lung

- A Case Report -

Yun Kyung Kang, M.D., In Ae Park, M.D., Chang Yun Lim\*, D.D.,  
Eui Keun Ham, M.D., and Sang Kook Lee, M.D.,

*Department of Pathology, Seoul National University College of Medicine and  
Department of Oral Pathology, Seoul National University College of Dentistry\**

We describe the cytologic features of metastatic ameloblastoma which presented as multiple bilateral lung nodules. The patient was a 22-year-old male who had recurrent ameloblastoma of the mandible 7 years after the diagnosis of primary lesion.

Fine needle aspiration of one of the pulmonary nodules revealed patchy arrangement of cell clusters with outer palisading columnar cells and inner irregular loose polygonal cells. Most of tumor cells had plenty cytoplasm and ovoid nuclei which lacked either pleomorphism or hyperchromatism.

The cytologic findings corresponded with histologic features of the primary site which was also benign looking ameloblastoma.

---

**Key words:** Ameloblastoma, Metastasis, Lung, Fine needle aspiration cytology

서 론

에나멜(법랑)모세포종은 상피 치성종양 중 가장 흔하지만 악골에서 발생하는 모든 종양 및 낭종의 1% 정도를 차지하는 흔치 않은 종양이다. 이는 치성낭의 피복상피, 치근막내의 법랑상피의 잔사, 그리고 구강점막의 기저층으로부터 발생할 수 있으며, 비교적 젊은 나이인 20~40대에서 호발하고 약 80%가 하악골에서 발생된다<sup>1,4)</sup> 대부분의 경우 천천히 자라는 국소침윤성 종양으로서 양성의 경과를 취하므로 국소절제로 완치가 가능하다. 그러나 국소재발을 하는 수가 있으며 아주 드물게는 주변 림프절이나 타장기로 전이될 수 있어서 이런 악성 잠재성을 가진 종양으로 생각되어져 왔다<sup>5,7)</sup>. 1928년 Simmons<sup>8)</sup>가 처음으로 에나멜모세포종의 전이를 기술한 이래 약 30여의 보고가 있다.

저자들은 22세 환자에서 하악골 접합 주위에 생긴 에나멜모세포종의 외과적 적출 후 세 번의 국소재발과 양측 폐로 다발성 결절성 전이를 보인 증례를 보고하고자 한다.

증 례

22세 남자환자가 경미한 흉통과 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 과거력상 7년전에 좌측 하악골 접합부 주위에 생긴 종괴에 대한 절제를 시행하였고 에나멜모세포종으로 진단받았다. 그 후 6개월과 4년 후에 재발되어 그 때마다 종괴를 절제하였다. 종괴는 처음과 재발했을 때 모두 방사선학적 소견상 소엽상의 방사선투과성 종괴였다(Fig. 1). 입원 후의 단순흉부방사선 검사에서 직경 3cm에서 0.9cm까지의 크기를 갖는 4개 이상의 결절들이 양측 폐야에서 발견되었고, 전산화 단층촬영에서 우상엽, 우하엽과 좌하엽에 결절들이 분포하고 있었다(Fig. 2). 우하엽의 결절에서 경피세침흡인세포검사를 하였다. 환자는 하악골의 방사선 검사에서도 1.5cm크기의 방사

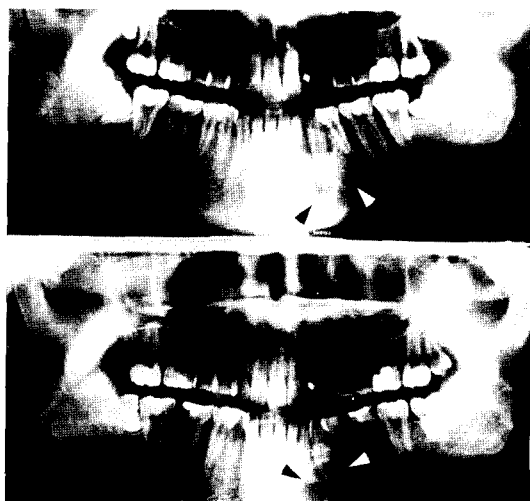


Fig. 1. Both radiographs show a well demarcated radiolucent lesion with sclerotic rim on the left parasymphyseal area of the mandible(arrowheads). The lower one is taken at the time of second recurrence while the upper is the primary one.



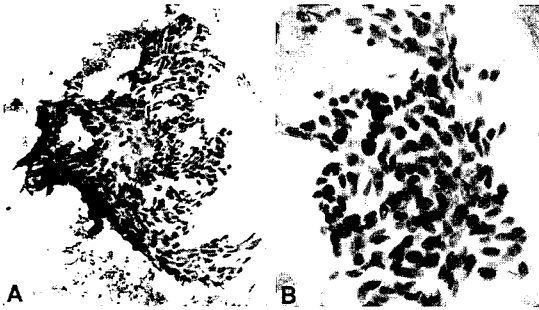
Fig. 2. Computed tomography of the chest reveals two nodular lesions in bilateral lung fields (asterisks).

선 투과성 종괴가 발견되어 세번째 재발된 것으로 판정받았다.

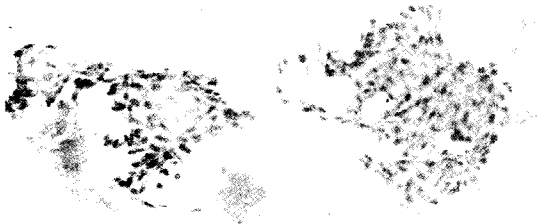
1. 세포학적 소견

폐결절의 세침흡인검체의 도말표본에서 신선 혈액의 배경에 판상배열을 하는 세포군들이 관찰되었다. 사슴뿔처럼 가지를 치는 변연부를 갖

는 관상세포군의 바깥쪽 세포들은 규칙적으로 책상배열을 하고 있었고, 안쪽 세포들은 불규칙한 방향성의 소성배열을 하고 있었다(Fig. 3A). 세포들은 난원형 혹은 방추형의 핵과 풍부한 세포질을 가지며, 약간씩 중첩하는 양상이었으나, 핵의 과염색성이나 비정형성은 관찰되지 않았고 핵소체도 뚜렷하지 않아 세포학적으로 악성종양을 의심할 만한 소견은 없었다(Fig. 3B). 세포들은 간혹 편평상피형 상실배(morule)를 형성하기도 하였고 미세낭성 변화를 하기도 하였다(Fig. 4).



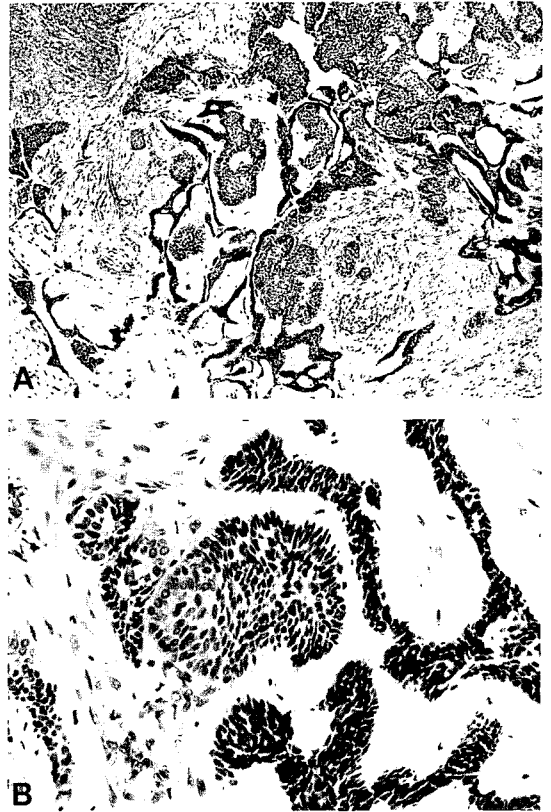
**Fig. 3.** Features of fine needle aspiration smear. **A:** Patchy arrangement of cells with irregular branchings. The outermost cells reveal palisading pattern while the inner cells show loose arrangement (Papanicolaou, x200). **B:** The cells have ovoid nuclei which lack any atypical appearance(Papanicolaou, x400).



**Fig. 4.** Fine needle aspiration smear shows squamous morule(left) and microcystic change(right) (Papanicolaou, x200).

## 2. 조직학적 소견

폐결절에 대한 생검을 시행하지 않았고 과거 3차례에 걸쳐 에나멜모세포종으로 진단된 과거력이 있어 그 절제된 조직표본을 재검하여 흡인 세포소견과 비교하였다. 종괴는 낭성변화를 보이는 곳과 그 내부로 유두상 성장을 한 종양실질 및 소성 섬유점액성 기질을 가지는 고형성 부분으로 되어 있었다(Fig. 5A). 종양세포들이 불규칙한 가지를 치는 세포군을 형성하고, 가장 바깥쪽에는 책상배열을 하는 에나멜모세포를 닮은 원



**Fig. 5. A:** Histology of mandibular lesion shows areas of cystic change with papillary growth of tumor cells and loose myxoid stroma(H-E, x40). **B:** Plexiform arrangement with palisading outer cells and loose inner cells is almost identical to that of cytologic appearance(H-E, x200).

주세포의 층이 있으며 안쪽으로는 다각형의 세포들이 망상배열을 하고 일부에서 세포질의 공포화, 편평화생, 미세낭성 변화들이 관찰되어 열기상형(plexiform)의 에나멜모세포종의 소견이었고, 이는 폐결절 흡인검체의 세포학적 소견과 일치하였다(Fig. 5B). 이러한 소견은 처음 절제시와 재발했을 때의 절제조직 모두 동일하였고, 어느 경우에도 악성을 시사하는 소견은 관찰되지 않았다.

조직학적 검사상 관찰된 세포들의 모양이 폐결절 흡인세포검사에서 관찰된 세포들의 모양과 일치하여 폐결절이 전이성 에나멜모세포종에 합당한 것으로 진단하였다. 환자는 cytoxan, adriamycin, C-DDP의 항암화학요법을 시행하였으며, 추적검사에서 폐결절의 크기 및 수는 별다른 변화를 보이지 않고 있다.

## 고 찰

에나멜모세포종의 전이율은 2~5%로 거의 예외없이 외과적 처치 후나 몇 차례의 국소재발 후에 원격전이가 생긴다<sup>9)</sup>. 가장 흔히 전이되는 곳은 폐로서 전이된 예의 75.9~88%로 보고되었으며, 약 1/4에서 주변림프절로 전이되고, 그 외 흉막, 척추, 두개골, 간, 신 및 횡경막 등으로 전이된 증례들이 보고되어 있다<sup>5-7, 10-12)</sup>. 1985년 Kunze등<sup>10)</sup>이 26증례를 모아 보고한 바에 의하면 전이한 에나멜모세포종의 조직학적 아형은 열기상형이 비교적 다수를 점유하였으나, 전이한 군과 전이하지 않은 군의 조직학적 및 세포학적 소견이 차이를 보이지 않을 뿐더러 전이한 군에서도 악성을 시사하는 소견이 관찰되지 않기 때문에 조직학적 소견이 에나멜모세포종의 전이여부를 예상하는 데 도움을 줄 수 없다고 하였다.

1978년 Larsson등<sup>11)</sup>은 에나멜모세포종의 조직학적 아형이 예후에 영향을 미치지 않는다고 하였으며, 만일 전이의 유무가 악성 에나멜모세포종을 진단하는 유일한 조건이라면, 원발종괴

의 발견시 전이소가 함께 발견되지 않는다면 후향적으로 밖에는 진단할 수 없는 문제점을 제기하였다.

1984년 Slootweg등<sup>11)</sup>은 악성 에나멜모세포종을 “원발소 및 전이소 모두에서 에나멜모세포종의 소견을 보이는 경우”로 정의한 WHO(1972)<sup>13)</sup>의 결정에 대해 명확한 조직학적 설명이 없음을 지적하였다. 그들은 악성 에나멜모세포종으로 보고되었던 증례들을 4군으로 나누었는데 제 1군은 원발소와 전이소 모두에서 분화가 좋은 에나멜모세포종의 조직소견을 보이는 경우, 제 2군은 원발소에서 분화가 좋은 에나멜모세포종의 소견을 보이는 반면 전이소에서는 덜 분화된 조직소견을 보이는 경우, 제 3군은 원발소와 전이소 모두에서 덜 분화된 조직소견을 보이는 경우, 그리고 제 4군은 원발소에서 분화가 나쁜 조직소견을 보이면서 주위조직을 파괴하는 성장을 하지만 전이소가 증명되지는 않은 경우로 하였다. WHO의 정의<sup>13)</sup>에 의해 분류하면 4군을 제외한 1, 2, 3군이 악성 에나멜모세포종에 속하지만 이는 조직학적으로 나쁜 분화를 보이는 2, 3군을 분화가 좋은 1군과 같이 분류하게 되어 적당치 않으며, 전이여부와 관계없이 조직학적으로 분화가 나쁜 에나멜모세포종은 에나멜암종으로 분류하여야 한다고 주장하였다. 즉, 1군만을 악성 에나멜모세포종으로 분류하고 2, 3, 4군은 에나멜암종으로 분류한 것이다. 이는 조직학적 소견을 반영한 분류로서 타당성이 있다. 이에 의하면 본 증례는 원발소와 전이소 모두에서 분화가 좋은 에나멜모세포종의 소견을 보이므로 1군에 속하며 악성 에나멜모세포종으로 분류할 수 있다.

에나멜모세포종의 전이경로는 혈행성으로 알려져 있으며 미만성으로 전이되는 경향 및 혈관 내에서 종양세포의 색전이 발견되는 점이 이를 뒷받침한다<sup>10)</sup>.

Kunze등<sup>10)</sup>의 조사에 의하면 원발병소 발견 이후 전이소가 발견되는 평균기간은 11.1년으로서 매우 오랜기간이 경과한다. 이에 대해 그들은 2

가지 가능성을 제시하였다. 첫째, 에나멜모세포종이 여러번의 재발에 의한 자극을 통해 점차 악성화하여 결국 전이를 하게 된다는 것이고, 둘째, 전이된 종양세포들이 낮은 증식능을 가지고 천천히 자라므로 그 것이 임상적으로 발견될 때까지는 오랜기간이 걸리기 때문이다. 본 증례는 원발병소 발견 후 7년만에 전이소가 발견되었으며, 폐 이외의 타장기로의 전이는 의심하지 않고 있다.

폐로의 전이가 발견된 경우 전이소의 국소절제 또는 폐엽절제를 하는 것이 환자의 생존기간을 연장시키고, 특히 고립성 전이의 경우는 치유도 기대할 수 있기에 권유되고 있다. 본 증례는 양측 폐야에 다발성으로 전이소가 있어서 절제를 하지않고 항암화학요법만을 하였으나 별다른 호전없이 경과를 추적 중이다.

## 결 론

저자들은 양측 폐로 전이한 악성 에나멜모세포종 1예를 경피세침흡인검사를 통해 경험하였다. 이는 문헌상 30예 정도 보고되어 있는 드문 증례이며, 국내 문헌에는 아직 보고된 바 없는 첫 증례이기에 문헌고찰과 함께 세포학적 소견을 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. Larsson Å, Almeñen H: Ameloblastoma of the jaws. *Acta Pathol Microbiol Scand [A]* 86:337-349, 1978
2. Gardner DG: Peripheral ameloblastoma. A study of 21 cases, including 5 reported as basal cell carcinoma of the gingiva. *Cancer* 39:1625-1633, 1977
3. Richardson JF, Greer RO: Ameloblastoma of mucosal origin. *Arch Otolaryngol* 100:174-175, 1974
4. Vickers RA, Gorlin RJ: Ameloblastoma. Delineation of early histopathologic features of neoplasia. *Cancer* 26:699-710, 1970
5. Hoke HF Jr, Harrelson AB: Granular cell ameloblastomas with metastases to cervical vertebrae. *Cancer* 20:991-4999, 1967
6. Ikemura K, Tashiro H, Fujino H, Ohbu D, Nakajima K: Ameloblastoma of the mandible with metastasis to the lungs and lymph nodes. *Cancer* 29:930-4940, 1972
7. Madio G, Choi H, Klinman JG: Ameloblastoma of the maxilla with distant metastases and hypercalcemia. *Am J Clin Pathol* 75:585-591, 1981
8. Simmons CC: Adamantinoma. *Ann Surg* 88:693-704, 1928
9. Masson JK, McDonald JR, Figi FA: Adamantinoma of the jaws: A clinicopathologic study of 101 histologically proven cases. *Plast Reconstr Surg* 23:510-525, 1959
10. Kunze E, Donath K, Luhr HG, Engelhardt W, De Vivie R: Biology of metastasizing ameloblastoma. *Pathol Res Pract* 180:526-535, 1985
11. Slootweg PJ, Müller HG: Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 57:168-176, 1984
12. Levine SE, Mossler JA, Johnston WW: The cytologic appearance of metastatic ameloblastoma. *Acta Cytol* 25:295-298, 1981
13. Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H: *Histologic Typing of Odontogenic Tumours, Jaw Cysts and Allied Lesions*. Geneva, World Health Organization, 1972, pp 35-6