

# 상악골에 발생한 원발성 골내암종

강릉대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실\*  
서울대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실\*\*

박인우\* · 최순철\*\* · 이영호\*\* · 박태원\*\* · 유동수\*\*

## 목 차

- I. 서 론
- II. 증 례
- III. 고 찰
- IV. 결 론

참고문헌

영문초록

사진부도 및 설명

## I. 서 론

유럽과 미국에서 구강암은 신체에 발생하는 전체 악성종양의 2-5%정도를 차지하는 것으로 알려져 있으며, 미국에선 그 중 90%가 편평세포암종이라고 한다<sup>1,2,3</sup>. 이에 비해 우리나라의 구강암 발생빈도는 4-5%로 알려져 있고<sup>4</sup> 이중 70-80% 정도가 편평세포암종으로 알려져 있다<sup>5,6</sup>. 이중 원발성으로 골내에서 발생하는 편평세포암종은 매우 드물게 보고되고 있는데<sup>7-31</sup>, Morrison과 Deeley<sup>9</sup>에 의하면 1913년 Loos<sup>32</sup>가 악골에 생기는 중심성 상피성암종(central epidermoid carcinoma of the jaws)이라는 명칭으로 처음 기술하였다고 하였다. 1948년 Willis<sup>33</sup>는 치조골내 상피성암종(intra-alveolar epidermoid carcinoma)이란 용어를 제안하였다. 1969년 Shear<sup>11</sup>는 원발성 치조골내 상피성암종(primary intra-alveolar epidermoid carcinoma)이라고 명명하면

서 전이성 암종, 표피성 기원의 암종, 상악동 기원의 암종과는 감별해야 한다고 하였다. 1971년 Pindborg 등<sup>34</sup>은 WHO분류기준의 원발성 골내암종(primary intraosseous carcinoma)을 '치성 상피잔사에서 발생한 것으로 추측되어지는 것으로 구강점막에서 시작되지 않은 골내에 발생한 편평세포암종'이라 정의내렸다. 1982년 Elzay<sup>35</sup>는 문헌고찰을 통해 12 증례를 보고하면서 WHO의 치성 암종의 분류를 변형시켜 type 1은 치성낭에서 기원한 것, type 2는 법랑모세포종에서 기원한 것으로 subtype A는 다른부위의 전이만을 일으킨 것 subtype B는 악성세포 성향을 띄는 것, type 3은 원발성(de novo)으로 생긴 암종으로 나누었다. 1994년 Suei 등<sup>36</sup>은 39 증례의 원발성 골내암종을 고찰하여 임상적, 방사선학적, 병리학적 소견을 정리하였다.

저자들은 최근 상악 좌측 구치부의 치은성 출혈을 주소로 서울대학교병원 치과병원에 내원하여 일반 방사선사진, CT, 핵의학검사, 병리조직학적 검사 등을 시행하여 원발성 골내암종으로 진단받은 환자가 있어 이를 보고하고자 한다.

## II. 증 례

### 임상 소견

환자는 51세 여성으로 상악 좌측 구치부위의 치은성 출혈을 주소로 내원하였다. 출혈은 한달

전부터 상악 좌측 제 2소구치와 제 1대구치 부위에서 시작되었으며 점점 빈도가 증가하였으나 통증은 없었다. 환자는 수년전에 심혈관계에 이상을 호소하였으나 내과진료를 받아 큰 문제를 나타내지는 않았다.

구외소견으로는 왼쪽 상악동부위에 약한 정도의 종창을 관찰할 수 있었으며 구내소견에서는 위생상태가 불량하여 전체적으로 치아 주위에 치석이 많이 존재하였고, 특히 상악 좌측 제 1,2 소구치, 제 1대구치 치은부위의 염증소견이 관찰되었으며 세 치아 모두 타진 반응에 양성반응을 나타냈으며 상악 좌측 제 1,2소구치는 중등도의 동요도를 보였다(Fig. 1). 목 부위의 임파선은 촉진시 인지되지 않았다.

### 일반 방사선학적 소견

파노라마 방사선사진에서 전반적인 치조골 흡수 양상을 보이는 만성치주염 양상을 보이고 상악 좌측 견치의 내측에서 상악 좌측 제 1대구치 내측까지 이어지는 비교적 명확한 경계를 갖고 있는 단방성 방사선투과성 병소를 보였다. 이 병소는 제 2소구치와 제 1대구치를 이개시켰으며 상악동저를 상방으로 변이시켰으나(Fig. 2) Waters 방사선사진에서는 양쪽 상악동 모두에서 뚜렷한 병적 변화를 인지할 수 없었다(Fig. 3). 치근단 방사선사진에서 병소의 경계는 비교적 명확하였으나 과골성 경계를 보이지는 않았다. 상악 좌측 견치, 제 1,2소구치의 치근단 부위의 치근백선 소실과 치근 흡수 소견을 보였으며 상악 좌측 제 1대구치의 내측 치조백선도 소실되어 있었다(Fig. 4,5).

### CT 소견

bone setting상에서 상악 좌측 치조골부위를 팽창시키고 있는 골내 병소가 관찰되었다. 이 병소는 상악동쪽으로 팽창되어 있었으나 상악동과는 과골성 경계로 분리되어 있었다(Fig. 6,7). soft tissue setting상에서 팽창된 좌측 상악골의 외측으로 지방조직 평면(fatty tissue plane)이

건전하고 연조직 침투소견은 관찰되지 않았으며 임파선 전이소견도 관찰되지 않았다(Fig. 8).

### 핵의학 검사 소견

<sup>99m</sup>Tc methylene-diphosphonate를 이용한 골스캔(bone scan)에서 환자의 좌측 상악골부위에 집적 정도가 증가(increased uptake)된 소견을 보였으나(Fig. 9) 다른 부위에선 정상소견을 보였다(Fig. 10).

### 초음파 검사 및 흉부방사선사진 소견

경부 초음파 검사시 특별한 이상소견은 발견하지 못했고 흉부방사선사진도 정상 소견이었다.

### 조직병리학적 소견

종물은 육안상 6.0 × 6.0 × 5.2 cm 의 크기였고, 단면에서 관찰시 정상조직에 의해 잘 둘러싸여진 연조직 고형성 종괴이었다. 광학현미경 관찰시 종양도(tumor islands)들이 포도상(alveolar type)으로 증식되어 있었으며 종양세포의 핵은 둥글거나 타원형의 다양한 크기를 보였고 진하게 염색(hyperchromatic)되었고 비전형적인 세포분열양상들이 많이 관찰되는 악성소견을 보였다(Fig. 11). 주위 골을 침습(infiltration)하는 종양도가 관찰되었으며 종양도의 중심부에는 괴사소견이 보였다(Fig. 12). 저배율로 전체 단면 관찰시 구강 점막과 상악동 점막은 정상이었으며 점막 하방골에 종양침습이 관찰되었는데 그 방향은 골내에서 점막쪽으로 진행되는 양상을 보였다.

### 치료 및 예후

이상의 소견으로 본 병소는 원발성 골내암종으로 진단되었고 환자는 상악 우측 측절치에서부터 상악 좌측 전체를 포함하는 부분적 상악 절제술을 시행하였다. 구강내 골의 노출부위는 표피 이식을 시켜주고 폐쇄기(obturator)로 기능을

회복시켜 주었다. 6개월마다 정기적인 검사를 하였으나 5년 3개월이 지나서도 재발과 전이소견은 보이지 않았다.

### III. 고 찰

원발성 골내암종은 Malassez 상피잔사와 같은 치성 상피잔사나 배돌기(embryonic process)의 융합선부위의 포입상피(enclaved epithelium) 등에서 곧바로 발생되는 것으로 여겨지고 있다<sup>9,38</sup>.

1971년 Pindborg 등은 WHO 분류 기준을 설정하는 과정에서 원발성 골내암종을 치성암종의 subtype B로 제안했다<sup>34</sup>. 치성암종의 type A는 악골에 생긴 범람모세포종이 다른 부위에서 세포의 조직학적 변화없이 전이되어 생기는 경우이며 type C는 치성낭을 포함한 치성상피에서 기원한 암종을 지칭함으로써 원발성 골내암종은 원발성(de novo)으로 생긴 암종만을 말하고 있다.

원발성 골내암종을 진단내리기란 어려운데 다른 부위에서 전이된 종양, 표면에서부터 골내로 침습한 암종, 상악동 기원의 종양, 그리고 악성 범람모세포종과 감별해야 되기 때문이다<sup>11,17,35</sup>.

원발성 골내암종의 주증상은 종창, 통증, 감각 이상, 인접치아의 동요 등이며<sup>11,36</sup> 구강내 다른 부위의 편평세포암종에서와 같이 여성에 비해 남성에서 호발된다<sup>36,37</sup>.

발생 연령은 4세부터 76세까지 다양하며 평균 연령은 51세이고 환자의 88%가 30대 이후에 발생된다<sup>36</sup>.

호발 부위는 하악이며 특히 하악 구치부에서 많이 나타난다<sup>36</sup>. 상악 구치부의 원발성 골내암종은 상악동 기원의 암종과 구별이 어려워 발표된 경우가 드물다고 하였으나<sup>31,36</sup> 이번 증례에서는 CT상과 Waters 방사선사진상에서 병소와 상악동이 분명히 분리되어 있었음은 물론 조직병리학적 소견에서도 병소의 상방경계와 상악동 점막과 구분이 되어 있었다.

병소주위의 치은 상태를 조사한 Swei 등<sup>34</sup>은 39 증례중 병소에 의한 궤양 형성은 발견되지 않

았다고 한바 있으며 이번 증례에서도 역시 다소의 염증소견은 보였으나 병소부위의 점막과 치은에서 궤양소견은 관찰되지 않았다. 이러한 소견은 원발성 골내암종을 구강점막 기원의 편평세포암종 세포암종과 구분하는 중요한 역할을 한다<sup>29,34</sup>.

방사선학적인 소견을 보면 특징적인 양상을 보이지 않는 골파괴 병소로서 병소의 크기, 모양, 경계부의 형태에 있어서 다양한 양상을 보인다. 서서히 증식하는 경우에는 경계가 명확하고 평탄하지만 빨리 증식하는 경우는 희미하고 울퉁불퉁한 양상을 보이게 된다. 또한 치아 이개나 치근 흡수 양상도 보일 수 있다<sup>14</sup>.

주위 골에 둘러 싸여진 병소는 골내 기원임을 확증해 주는데 이번 경우 역시 여기에 속하는 비교적 경계가 명확한 단방성 방사선투과성 병소로 나타났다.

Swei 등<sup>36</sup>은 33 예중 13 예에서 주위 임파선으로의 전이가 관찰되었다고 하였으나 이 환자의 경우에는 임상검사 및 초음파 검사시 임파선으로의 전이소견은 관찰되지 않았다. Elzay<sup>35</sup>는 전이 여부와 생존기간사이에 특별한 관계가 없다고 하였다.

원발성 골내암종이란 진단을 내리기 전에 고려해야 할 또 다른 요소로는 다른 부위의 원발성 병소로부터의 전이 여부이다. 악골에 발생한 전이성 암종은 주로 유방, 갑상선, 신장, 폐로부터 전이된다<sup>39,40</sup>. To 등<sup>29</sup>은 악골로의 전이에 대한 문헌 고찰을 통해 다른 부위의 원발성 암종을 찾기 위해서는 흉부방사선사진촬영과 적어도 6개월 동안의 정기적인 검사가 따라야 한다고 했다. 본 환자는 흉부방사선사진, 핵의학 검사, 임상 검사 등과 6개월마다 정기적인 검사에 의해 다른 부위의 원발성 병소를 배제할 수 있었다.

원발성 골내암종의 조직병리학적 소견은 특징적이지 않아 다양한 분화도를 가지는 편평세포암종을 보이며 각화(keratinization)정도도 다양하다<sup>11</sup>. 종양세포의 양상은 판상(sheet), 포도상(alveolar), 혹은 망상(plexiform) 형태를 보이며 치성 상피세포의 특징인 울타리모양(palisading pattern)을 보이기도 한다<sup>11</sup>. 핵/세포질 비율증

가, 과색소증(hyperchromatism), 비전형적 세포 분열 등의 악성세포 양상을 보이며 종양도(tumor islands)의 중심부에서 괴사나 변성소견을 보이기도 한다. 낭성구조(cystic component)나 다른 치성종양의 양상은 나타나지 않는다<sup>36)</sup>.

치료로는 초기에 외과적 절제술을 시행하며 필요시에는 경부광청술을 시행하고 재발시에는 방사선 치료와 약물치료를 병행하여 시행하여야 된다<sup>35)</sup>.

예후는 불량하여 2년 이상 생존율이 55% 밖에 이르지 못하여 수술후에도 정기적인 검사가 필요하다<sup>36)</sup>. 본 환자의 경우에는 5년 3개월까지도 재발과 전이 소견을 보이지 않았다.

#### IV. 결 론

저자들은 상악골에 발생한 원발성 골내암종으로 진단된 51세 여자 환자에서 임상, 방사선학적 및 병리학적으로 다음과 같은 소견을 관찰하였다.

1. 환자의 주소는 상악 좌측 구치 부위의 치은성 출혈이었다.
2. 일반 방사선사진상에서 상악 좌측 견치 내측에서 상악 좌측 제 1대구치 내측까지 이어지는 비교적 잘 경계지어진 단방성 방사선투과성 병소가 관찰되었다. 이 병소는 제 2소구치와 제 1대구치를 이개시키고 상악동저를 상방으로 변위시켰으며 상악 좌측 견치와 제 1,2 소구치 치근단 부위의 치근 흡수 소견을 보였다.
3. CT상에서 좌측 상악골의 치조골 부위를 팽창시키는 골성 병소가 관찰되었으며 상악동쪽으로도 팽창 소견을 보였으나 상악동과 뚜렷이 구분되어 있었다.
4. 골 스캔상에서는 병소 부위의 집적정도가 증가되었고 경부 초음파 검사와 흉부방사선사진 검사시 특별한 이상은 관찰되지 않았다.
5. 조직병리학적 소견에서 주위골로 침습하는 종양도(tumor islands)들이 포도상(alveolar type)으로 증식하며 악성세포들로 구성되어 있었고 병소 중앙에서는 괴사 소견을 보였다.

#### 참고문헌

1. Pindborg JJ : Epidermiological studies of oral surgery. *Int Dent J* 27:172-178, 1977.
2. Federele DJ, Jones JA, Niessen LC: Oral cancer screening in elderly. *J Am Geriatr Soc* 39:920-925, 1991.
3. Silverman S, Galante M: Oral cancer. San Francisco, University of California press, 1976.
4. Lee SK, Kim SI, Ham EK, Kim YI, Lim CY, Chi CG, et al: Malignant tumors among Korean-relative frequency study on 19,140 cases during 1978 to 1986. *J Kor Med Sci* 3:1-12, 1988.
5. 조한국: 한국인 구강암의 발생상황에 대한 병용요법. *대한구강악안면외과학회지* 22:1087-1091, 1984.
6. 서기향, 김오한: 구강악안면 부위의 악성종양에 관한 임상적 연구. *대한악안면성형외과학회지* 12:82-95, 1990.
7. Matheson WS: A case of primary carcinoma of the mandible. *Br Dent J* 90:263-264, 1951.
8. Hewer TF: Primary epithelial tumours of the jaw. *J Clin Pathol* 5:225-233, 1952.
9. Morrison R, Deeley TJ: Intra-alveolar carcinoma of the jaw: Treatment by supervoltage radiotherapy. *Br J Radiol* 35:321-326, 1962.
10. Jones JH: Soft tissue oral tumours in children: Their structure, histogenesis and behaviour. *Proc R Soc Med* 59:673-680, 1966.
11. Shear M: Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 97:645-651, 1969.
12. Sirsat MV, Sampat US, Shrikhande SS: Primary intra-alveolar squamous-cell carcinoma of the mandible. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 35:366-371, 1973
13. De Lathouwer C, Verhest A: Malignant primary intraosseous carcinoma of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 37:77-83, 1974.
14. Nolan R, Wood NK: Central squamous cell carcinoma of the mandible: Report of case. *J Oral Surg* 34:260-264, 1976.
15. Totsuka Y, Tomita K, Hamamoto J, et al: Central squamous cell carcinoma of the mandible in child aged 12: Report of a case. *Jpn J Oral Maxillofac Surg* 25:1487, 1979.
16. Coonar HS: Primary intraosseous carcinoma of maxilla. *Br Dent J* 147:47-48, 1979.
17. McGowan RH: Primary intra-alveolar carcinoma. A difficult diagnosis. *Br J Oral Surg* 18:259-265, 1980.

18. Amarjit S, Nagpal BL, Bedi PS: Central squamous cell carcinoma of the mandible. *J Oral Surg* 38:906-907, 1980.
19. Takeda S, Kimura S, Kurashina K, et al: Central epidermoid carcinoma of the mandible: Report of two cases. *Kokubyo Gakkai Zasshi* 30:111, 1981.
20. Saito R, Nakajima T, Shingaki S, Yokobayashi T: Primary intraosseous epidermoid carcinoma of the mandible. *J Oral Surg* 40:41-44, 1982.
21. Anneroth G, Hansen LS: Variations in keratinizing odontogenic cysts and tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 54:530-546, 1982.
22. Ryoike K, Osaki T, Ogawa T, et al: Central squamous cell carcinoma of the mandible: Report of a case and a survey of the literature. *Jpn J Oral Maxillofac Surg* 29:77, 1983.
23. Lukinmaa PL, Hietanen J, Oikarinen VJ, Calonius PEB, Piirto M: Primary intra-osseous carcinoma involving the maxilla. *Br J Oral Maxillofac Surg* 23:450-455, 1985.
24. Petri WH III, Auclair PA, Branham GB, Kelly MJ, Ash HL: Intraosseous tumor of the maxilla. *J Oral Maxillofac Surg* 43:726-734, 1985.
25. Lindqvist C, Teppo L: Primary intraosseous carcinoma of the mandible. *Int J Oral Maxillofac Surg* 15:209-214, 1986.
26. Takagi S, Nagahata S, Sawamori H, et al: Two cases of central carcinoma of the jaw. *Jpn J Oral Maxillofac Surg* 33:2179, 1987.
27. van Wyk CW, Padayachee A, Nortje CJ, Heyden U: Primary intraosseous carcinoma involving the anterior mandible. *Br J Oral Maxillofac Surg* 25:427-432, 1987.
28. Ruskin JD, Cohen DM, Davis LF: Primary intraosseous carcinoma: Report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 46:425-432, 1988.
29. To EHW, Brown JS, Aver BS, Word-Booth RP: Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Three new cases and review of the literature. *Br J Oral Maxillofac Surg* 29:19-25, 1991.
30. Muller S, Waldron CI: Primary intraosseous squamous carcinoma report of two cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 20:362-365, 1991.
31. Ohba T, Sakurai T, Nishyama A, Matsumura C, Fukuama H, Nodai T: Primary intra-osseous carcinoma of the maxilla. *Dentomaxillofac Radiol* 18:39-41, 1989.
32. Loos D: *Dtsch Mschr Zahnheik* 31:308, 1918. (cited from reference 9.)
33. Willis RA: *Pathology of tumors*. St. Louis, pp. 310-316, The CV Mosby Company, 1948.
34. Pindborg JJ, Kramer IRH, Shear M: *World health organization histological typing of odontogenic tumours*. Berlin, Germany, 2nd ed. pp. 24-27, Springer-Verlag, 1992.
35. Elzay RP: Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 54:299-303, 1982.
36. Suei Y, Tamimoto K, Taquchi A, Wada T: Primary intraosseous carcinoma: review of the literature and diagnostic criteria. *J Oral Maxillofac Surg* 52: 580-583, 1994.
37. Young JL, Perry CL, Asire AJ, Berg JW, Cusano MM, Gloeckler LA, et al: *Cancer incidence and mortality in the United States 1973-1977*. publication No.81(2330). National Cancer Institute Monograph No.57, Public Health Service, 1981.
38. Lucas RB: *Pathology of tumors of the oral tissues*, Baltimore, 2nd ed. pp. 137-139, Williams & Wilkins company, 1972.
39. Clausen F, Poulsenm H: Metastatic carcinoma to the jaws. *Acta Pathol et Microbiol Scand*, 57:361, 1963.
40. McDaniel RK, Luna MA, Stimson PG: Metastatic tumors in the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 31:380-386, 1971.

## A CASE REPORT OF PRIMARY INTRA-OSSEOUS CARCINOMA OF THE MAXILLA

In-Woo Park\*, Soon-Chul Choi\*\*, Young-Ho Lee\*\*, Tae-Won Park\*\*, Dong-Soo You\*\*

*Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kangnung National University\**

*Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Seoul National University\*\**

The primary intra-osseous carcinoma (PIOC) is a very rare lesion. PIOC is an odontogenic carcinoma defined as a squamous cell carcinoma arising within a jaw having no initial connection with the oral mucosa, and presumably developing from residues of the odontogenic epithelium. The authors diagnosed a 51-year-old female as primary intra-osseous carcinoma after undergoing clinical, radiological and histological examinations.

The characteristics were as followed :

1. The patient complained of gingival bleeding on the premolar area in the left maxilla
2. The conventional radiograms showed a relatively well-defined unilocular radiolucent lesion from the mesial aspect of the upper left canine to the mesial aspect of the upper left 1st molar. The 2nd premolar was separated from the 1st molar and the floor of the maxillary sinus was elevated by the lesion. There was an external root resorption of the upper left canine, the 1st premolar, and the 2nd premolar.
3. On the computed tomograms, the osteolytic bony lesion expanded the cortical plate of the left maxilla and displaced the margin of the left maxillary sinus upwards. But the bony lesion was separated from the maxillary sinus by a bony septum.
4. Bone scintigram with <sup>99m</sup>Tc demonstrated the increased uptake in the left maxilla. Sonograms in the neck area and chest P-A radiogram didn't show any abnormalities.
5. Histologically, the tumor islands infiltrating into the surrounding bone increased in alveolar pattern, composed of the malignant cells, and there was a necrosis in the center of the tumor islands.

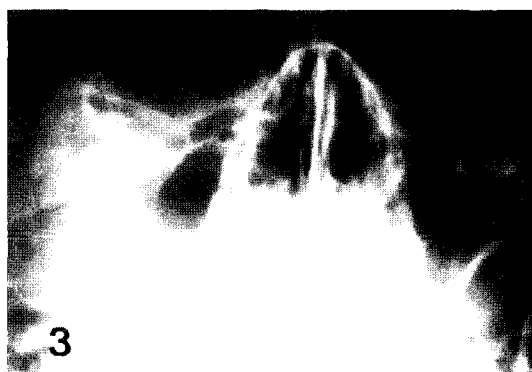
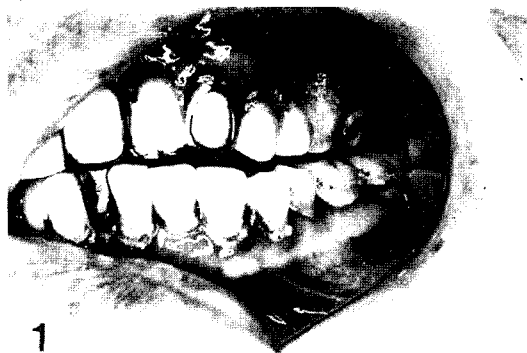
## EXPLANATION OF FIGURES

- Figure 1.** The intraoral photogram shows heavy calculus deposits on the #24, 25, 26 tooth and the clinical signs of chronic periodontitis. But there is no sign of ulcer formation.
- Figure 2.** The panoramic radiogram shows a relatively well-defined unilocular radiolucent lesion from the mesial aspect of the #23 tooth to the mesial aspect of the #26 tooth.
- Figure 3.** There is no significant changes of radiodensities on both maxillary sinus on Waters' projection.
- Figure 4.** The periapical radiogram shows the external root resorption on the root apical area of the #23, 24 and the loss of the lamina dura of the #23, 24 tooth.
- Figure 5.** The root of the #25 tooth is separated from the root of the #26 tooth on the periapical radiogram. There is the loss of lamina dura of the #25, 26 tooth
- Figure 6.** On the computed tomogram, the osteolytic bony lesion expands the cortical plate of the left maxilla buccally and palatally.
- Figure 7.** On the computed tomogram, the lesion displaces the floor of the left maxillary sinus upwards but is separated from the maxillary sinus.
- Figure 8.** On the computed tomogram, there is no sign of infiltrating into the surrounding soft tissues including the obliterating sign of the fatty tissue plane. Also there is no evidence of lymph node metastasis.
- Figure 9.** The bone scintigram reveals the increased uptake on the left maxillary area.
- Figure 10.** The bone scintigram on the whole body demonstrates normal sign in other sites except for the left maxilla.
- Figure 11.** On the photomicrograph of the biopsy specimen(H-E stain, x40), the tumor islands infiltrating into the surrounding bone increase in alveolar pattern, composed of the malignant cells.
- Figure 12.** There is a necrosis in the center of the tumor islands on the photomicrograph(H-E stain, x40).





논문사진부도 ①



논문사진부도 ②

