

태생 36주에 발견한 선천성 에푸리스(congenital epulis)의 치험례

송우식 · 백경식 · 권오승 · 김인권 · 김가영*
포천중문의대 분당차병원 구강악안면외과, 소아치과*

Abstract

A CASE REPORT OF CONGENITAL EPULIS IN THE FETUS

Woo-Sik Song, Kyeong-Sik Baek, Oh-Seung Kwon, In-Kwun Kim, Ka-young Kim*

*Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Dept. of Pedodontics**

Pundang CHA Hospital, Pocheon CHA Medical College.

The congenital epulis of newborn is a rare benign tumor that occurs on the gingiva of the anterior alveolar ridge of the jaws, also known as a congenital granular cell tumor. Females are affected 8 - 10 times more often than males. The typical location is the alveolar ridge of the maxilla near the canine but the mandibular region can also be involved. The lesion may be sessile or pedunculated with red or normal color. The size of tumor varies from several millimeters to a few centimeters in diameter. Surgical excision is generally indicated and no recurrences have been noticed. Spontaneous regression is rare. It is histologically similar to the granular cell tumor, although pseudoepitheliomatous hyperplasia does not occur in the former lesion. Thus sheets of large, closely packed cells showing fine, granular, eosinophilic cytoplasm comprise the tumor mass. This is a case report of congenital epulis in the fetus. The lesion was detected in ultrasonogram, its size is 3cm in diameter. The infant showed nursing disturbance and respiratory obstruction after birth, so the tumor was surgically excised under local anesthesia.

Key words : Congenital epulis, Granular cell tumor

I. 서 론

에푸리스(epulis)는 치은에 생긴 국한성이면서 유경상 종물을 형성하는 양성 섬유성 증식이나 육아종성, 혈관종성 종물을 총칭하는 이름으로 일반적으로 반응성이나 염증성 증식물, 양성종양 등이 여기에 포함되며 따라서 화농성 육아종(pyogenic granuloma), 주변성 거대세포 육아종(peripheral giant cell granuloma), 주변성 섬유종(peripheral fibroma), 열격성 에푸리스(epulis fissuratum) 등도 에푸리스에 포함시켜 부르기도 한다^{1,2)}.

선천성 에푸리스는 신생아의 치은에 형성된 에푸리스를 말하며 이는 보통의 에푸리스와는 별도로 취급하고 선천성 과립세포종(congenital granular cell tumor), 선천성 과립세포 에푸리스(congenital granular cell epulis)등으로

불리기도 한다. 이는 출생 시부터 존재하며 상악이나 하악 치은에 유경상(pedunculated)의 종물을 보이며 색깔은 정상치은과 비슷하거나 약간 붉은 색을 보이며 크기는 대개 수mm에서 큰 것은 9cm 까지도 보고되고 있다^{3,6)}. 병리조직학적 소견은 과립세포종과 비슷하여 과립상의 호산성 세포질(granular eosinophilic cytoplasm)로 구성되어 있으나 위상피종양증식(pseudoepitheliomatous hyperplasia)은 나타나지 않는다.

본원에서는 임신 36주의 24세 여자 환자에서 자궁 초음파 검사에서 발견한 직경 3cm 정도의 비교적 큰 선천성 에푸리스를 출생 직후 외과적 절제술을 시행하여 양호한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

1998년 9월 18일 임신 36주의 24세 여자 환자가 본원 산부인과에서 초음파 검사를 시행한 결과 태아의 구강과 입술 부위에서 직경 3cm 정도의 크기로 보이는 병소(Fig. 1)가 발견되어 본원 구강악안면외과로 의뢰되었다. 산부인과와 협진한 결과 선천성 에푸리스(congenital epulis)로 잠정 진단내렸으며 출생 후 외과적 절제술을 하기로 결정하였으나 혈관종이나 임파관종의 가능성도 배제하지 않았다. 1998년 10월 8일 병소의 크기가 큰 관계로 정상분만시 신생아의 호흡장애 등이 우려되어 구강악안면외과가 대기한 상태에서 산부인과에 의해 제왕절개에 의한 분만을 시행하여 체중 3.1kg의 여아가 출생하였다. 출생시 육안 관찰에 의해 선천성 에푸리스로 진단하였으며 종물은 하악 치은에 유령상으로 부착되어 있었고 색깔은 인접치은보다 약간 붉은 색을 띄었으며 모양은 둥근 원형에 크기는 초음파 소견과 비슷한 직경 3cm이었으며 표면은 부드러웠다. 종물이 신생아의 구강 전체를 막고 있는 상태였으나 일부 구호흡이 가능하였으며 비호흡은 정상이었다(Fig. 2). 신생아는 신생아 중환자

실로 보내졌으며 소아과에 의한 집중관리를 받았으며 구강 내로 자가 수유가 불가능한 상태여서 비강을 통한 튜브 삽입 후 수유 하였으며 생징후 및 이화학적 검사소견은 정상이었다. 분만 다음날 신생아를 수술실로 다시 옮긴 후 국소 마취로 1 : 100,000 epinephrine이 함유된 2%리도카인 0.5ml를 종물 주위에 주사한 후 수술용 칼과 전기소작기를 이용하여 종물 기저부를 포함하여 완전 절제하였으며 절제된 치은면은 지혈을 목적으로 봉합하였으며(Fig. 3) 심한 출혈이나 다른 합병증 없이 수술은 종결되었다(Fig. 4). 제거된 종물(Fig. 5)은 해부병리과로 보내졌으며 병리조직소견 상에서 종물은 과립상의 산호성 세포질을 가진 세포로 구성되어 있었으나 과립세포종(granular cell tumor)과는 달리 위상피종양증식(pseudoepitheliomatous hyperplasia)은 나타나지 않았으며(Fig. 6), 선천성 에푸리스로 최종 진단되었다. 신생아는 수술후 3일째 즉 출생후 4일째부



Fig. 1. 초음파사진 소견으로 태아의 구강과 입술 부위에서 종물을 관찰할 수 있다.

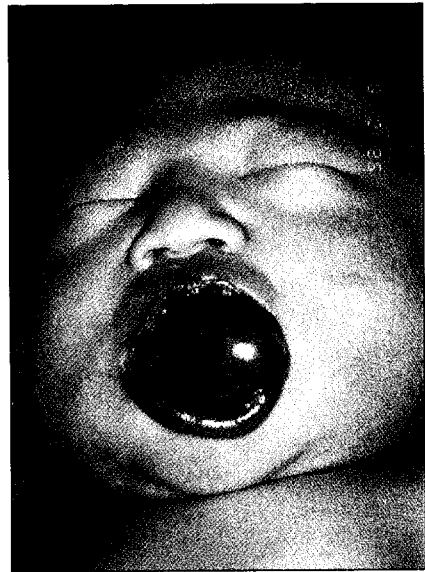


Fig. 2. 출생 직후의 모습으로 둥근 형태의 직경 3cm 정도의 종물이 구강을 막고 있다.



Fig. 3. 출생 2일째 종물 절제술 후 구강내 소견.



Fig. 4. 종물 절제후 신생아의 모습.

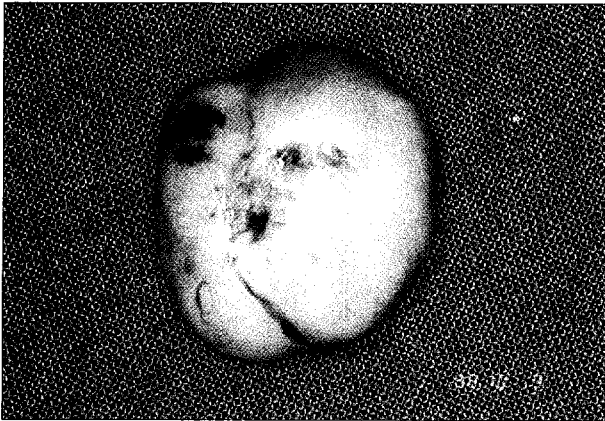


Fig. 5. 제거된 종물의 모습.

터 구강내로 자가수유가 가능하였으며 출생 7일후 산모와 함께 퇴원하였다.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

신생아에 발생하는 선천성 에푸리스(congenital epulis)는 상악이나 하악 전치부의 치은에 발생하는 양성종양으로 1871년 Neuman에 의해 최초로 보고된⁷⁾ 이후 약 200증례 정도만 보고된 드문 질환이다^{3,6)}. 선천성 에푸리스는 표면이 부드럽고 유경성의 종물이며 크기는 수 mm에서 큰 것은 9cm 까지도 보고되고 있으며 태생기에는 종물이 계속 자라지만³⁾ 출생 후에는 종물이 더 자라지는 않는다⁴⁾. 상악이 하악보다 8 - 10배 정도 더 호발하며 다발성인 경우 상악에 동시에 발생하기도 하며 여아가 남아보다 2배 정도 더 발생한다⁸⁻¹¹⁾. 크기가 적을 경우 별다른 증상이 없으나 크기가 크면 수유장애나 호흡장애를 유발하기도 하므로 조기 절제술이 요구된다. 종물의 크기가 적을 경우 별다른 증상이 없어 그냥 둘 경우도 있으나 저절로 없어지는 경우는 드물므로 외과적 절제술을 요한다. 절제술후 재발은 없으며 절제 시 치아의 맹출에 지장을 주지 않을 정도로 유경부에서 절제를 하며 불완전 절제 후에도 재발은 보고되고 있지 않으며 외과적 절제술이 성공하면 다른 합병증은 발생하지 않는다¹²⁻¹⁵⁾. 본 증례에서는 종물의 크기가 비교적 커 신생아가 구강으로 통한 수유가 불가능 하고 다소의 호흡장애가 있어 출생 다음날 외과적 절제를 시행하였으며 절제 시 종물 기저부를 포함하여 완전 절제하였으며 약간의 출혈은 전기소작기와 봉합으로 지혈되었으며 술중, 술후 별다른 합병증이 발생하지 않았다.

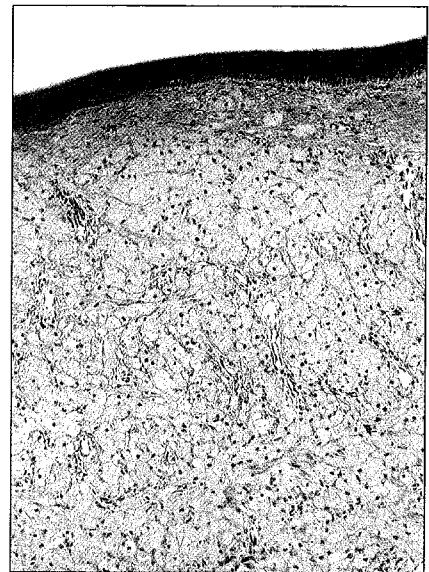


Fig. 6. 종물의 광학현미경 소견으로 과립상의 호산성 세포질로 구성되어 있다.

선천성 에푸리스의 조직발생에 대해서는 명확히 밝혀지지는 않았지만 dental blastema의 변성이나 섬유아세포(fibroblast), 조직구(histocyte), 근원성(myogenetic), 신경원(neurogenic), 간엽세포(mesenchymal cell) 기원인 것으로 생각되어 진다¹⁶⁻¹⁸⁾.

병리조직학적 소견은 과립세포종(granular cell tumor)과 비슷하여 과립상의 호산성 세포질로 구성되어 있지만 과립세포종과는 달리 위상피종양증식(pseudoepitheliomatous hyperplasia)이 나타나지 않으며 과립세포종은 신체 모든 부위의 피부나 점막에 발생하며 발생연령도 다양하지만 선천성 에푸리스는 출생 시에 상악 치은에만 발생한다^{19,20)}. 최근 면역조직화학적 연구에서 과립세포종은 S-100 protein을 함유하지만, 선천성 에푸리스에서는 S-100 protein, epithelial membrane antigen(EMA), 그리고 prekeratin이 나타나지 않는다. 따라서 이것은 선천성 에푸리스는 간엽세포에서 기원했다는 것을 암시하며 과립세포종은 Schwann cell이나 간엽세포 전구물질에서 기원했다는 것을 암시한다^{4,13,19)}.

감별을 요하는 질환으로는 유아 흑색성 신경외배엽종(melanotic neuroectodermal tumor of infancy), 신생아에서 발생되는 치은종(gingival cyst), 혈관종, 섬유종, 육아종 등이 있다^{3,4)}. 본 증례에서 초음파 검사에서 처음 발견 시 혈관종이나 임파관종의 가능성도 배제하지 않았으나 출생 시 육안 관찰에 의해 선천성 에푸리스로 진단할 수 있었다.

Ⅳ. 결 론

본원에서는 임신 36주의 24세 여자 환자에서 자궁 초음파 검사시 태아에서 발견한 직경 3cm의 선천성 에푸리스(congenital epulis)를 출생 직후 신생아의 수유장애와 호흡장애로 인하여 출생 다음날 외과적 절제술을 시행하여 만족할 만한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Bork, Hoede, Korting, Burgdorf, Young : Diseases of the Oral Mucosa and the Lips. 1st edition, W.B.Saunders company, Philadelphia, pp293-298, 1996.
2. 신희근, 임재석, 이희원 역 : 도설 구강외과수술학, 군자출판사, pp472-474, 1995.
3. Kusukawa, Kuhara, Koga, Inoue : Congenital Granular Cell Tumor(Congenital Epulis) in the fetus : A Case Report. J Oral Maxillofac Surg 55:1356-1359, 1997.
4. Zuker RM, Buenechea R : Congenital Epulis: Review of the Literature and Case Report. J Oral Maxillofac Surg 51:1040-1043, 1993.
5. Chami RG, Wang HS: Large congenital epulis of newborn. J Pediatr Surg 21:929-930, 1986.
6. Bernhoft CH, Gilhuus-Moe O, Bang G, et al: Congenital epulis in the newborn. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 13:25-29, 1987.
7. Neumann E: Elin Fall von Congenitaler Epulis. Arch. Heilk 12: 189, 1871.
8. Archer WH: Oral and maxillofacial surgery. fifth edition, W.B.Saunders company, Philadelphia, pp804-805, 1975.
9. George Laskaris: Color atlas of oral disease. 1st edition, Thieme, New York, pp296-297, 1988.

10. Fuhr AH, Krogh PHJ: Congenital epulis of the newborn: Centennial review of the literature and report of a case. J Oral Surg 30:30-35, 1972
11. Dixer CT, Konstat MS, Giunta JL, Schreier E, White GE: Congenital granular-cell tumor of alveolar ridge and tongue. Report of two cases. Ora Surg Oral Med Oral Pathol 40:270-277, 1975.
12. Freedman GL, Hooley JR, Gordon RC, et al: Congenital epulis in the newborn. J Oral Surg 26:61-64, 1968.
13. Mirchandani R, Sciubba JJ, Mir R: Granular cell lesions of the jaws and oral cavity: A clinicopathologic, immunohistochemical, and ultrastructural study. J Oral Maxillofac Surg 47:1248-1255, 1989.
14. Blair AE, Edwards DM: Congenital epulis of the newborn. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 43: 687-691, 1977.
15. Regezzi JA, Batsakis JG, Courtney RM: Granular cell tumors of the head and neck. J Oral Surg 37: 402-406, 1979.
16. Shafer, Hine, Levy: A textbook of oral pathology. fourth edition, W.B. Saunders company. Philadelphia, pp198-199, 1983.
17. Zarbo RJ, Lloyd RV, Beals TF, McClatchey KD: Congenital gingival granular cell tumor with smooth muscle cytodifferentiation. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 56: 512-520, 1983.
18. Lifshitz MS, Flotte TJ, Greco A: Congenital granular cell epulis. Cancer 53:1845-1848, 1984.
19. Monteil R, Loubiere R, Charbit Y, Gillet JY: Gingival granular cell tumor of the newborn: immunoperoxidase investigation with anti-S-100 antiserum. Ora Surg Oral Med Oral Pathol 64:78-81, 1987.
20. Damm DD, Cibull ML, Geissler RH, Neville BW, Bowden CM, Lehmann JE: Investigation into the histogenesis of congenital epulis of the newborn. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 76:205-212, 1993.

저자연락처

우편번호 463-712
경기도 성남시 분당구 야탑동 351
포천중문의대 분당차병원 구강악안면외과
송 우 식

원고 접수일 1999년 2월 1일
게재 확정일 1999년 2월 20일

Reprint requests

Woo-Sik Song
Dept. of OMFS, Pundang CHA Hospital, Pocheon CHA Medical College,
351, Yatap-Dong, Pundang-Gu, Sungnam, Kyunggi-Do, 463-712, Korea
Tel. (0342)780-5472 Fax. (0342)701-5471

Paper received 1 February 1999
Paper accepted 20 February 1999