

선양치성낭 (Glandular odontogenic cyst) 3예

오민성 · 윤정훈* · 김형준 · 차인호

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실 및 구강병리학교실*, 구강종양연구소

Abstract

GLANDULAR ODONTOGENIC CYST : REPORT OF THREE CASES

Min-Sung Oh, Jung-Hoon Yoon*, Hyung-Jun Kim, In-Ho Cha

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery & Oral Pathology**,

Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University

Glandular odontogenic cyst(GOC) is a rare cyst of odontogenic origin, first described in 1988 by Gardner et al. Three glandular odontogenic cysts are presented which were experienced in the Dept. of Oral and Maxillofacial surgery, Yonsei University.

The clinical characteristics, radiologic and histopathologic features, and method of treatment are discussed. One occurred in the anterior maxilla, others in the mandible body area. One in the anterior maxilla showed swelling and tenderness, others not. All the lesion presented radiographically unilocular radiolucent lesion.

Histopathologically, those were lined by nonkeratinizing stratified squamous epithelium of varying thickness showing plaque-like or spherical thickening. Partially, eosinophilic cuboidal cells lined the intraepithelial microcysts. Also, ciliated cuboidal cells and mucinous cells were observed. The cysts were treated by enucleation.

Key words : Glandular odontogenic cyst, Sialo-odontogenic cyst, Mucoepidermoid tumor.

I. 서 론

선양 치성낭(glandular odontogenic cyst, GOC)은 80년대 후반에 새로이 인정된 낭¹⁾으로 World Health Organization에 의한 치성낭의 분류에서 선양 치성낭 또는 타액치성낭(sialo-odontogenic cyst)²⁾으로 명명하고 있다. 1987년 Padayachee, Van Wyk 등³⁾이 포상 치성낭(botryoid odontogenic cyst) 및 중심성 점액표피종(central mucoepidermoid tumor)과 비슷한 병리조직학적 소견을 보이는 낭에 대해 기술한 이후, 1988년 Gardner 등⁴⁾이 선양 치성낭이라는 용어를 사용하여 새로운 낭으로 정의하였다.

선양 치성낭은 보고된 예가 많지 않아 분명히 정립되어 있지는 않지만, 하악 전치부에 호발하고 주로 다방성으로 나타나지만, 단방성으로도 발생할 수 있으며⁵⁾, 남성에서 조금 더 호발하고⁶⁾ 대부분 중년이후에 나타나는 것으로 보고되고 있다.

병리조직학적으로 다양한 두께의 중층편평상피로 피복되며, 점액세포가 상피층에서 많이 관찰되며, 상피의 유두상 증식이 특징이다^{1,2,6)}.

저자들은 악골에 생긴 선양 치성낭 3예를 경험하여, 이의 임상 병리학적 특징 및 감별진단에 대해 고찰하고자 한다.

II. 증례보고

1. 증례 1

37세 남자가 상악 전치부의 종창과 통증을 주소로 내원하였다. 환자는 1년전 치은종창으로 치은 연하 소파술을 시행받고 호전된 과거력 이외에 특이할만한 전신적 질환은 없었다. 구강내 검사에서 구개부위의 종창이 관찰되고, #12 치아만 전기치수 검사와 냉검사에 음성이었고, 흡인시 갈색의 장액성 용액이 배출되었다.

최근단 방사선 사진과 교합사진 소견에서 비교적 경계가 좋은 둥근 모양의 방사선 투과성 병소가 상악 우측 중절치와 측절치 사이에서 관찰되었다. 전산화 단층 촬영사진에서 2×3cm 크기의 난원형의 골결손이 경구개의 전방부에서 관찰되었고 이차적인 골팽창 결손이 상악중격 비중격 및 치조골에서 관찰되었다(Fig. 1). 임상적으로 비구개관낭으로 추정하고 적출술을 시행하였다.

조직은 육안소견상 직경 2cm 정도되는 황회색의 둥근낭으로, 저배율소견에서 조직은 피복상피, 결체조직, 낭강으로 구성된 낭 구조로, 커다란 낭 이외에 결체조직 하방으로 딸낭들이 여러 군데서 관찰되었다. 피복상피는 다양한 두께의 중층편평상피로 구성되어 있었고 일부는 2-3층의 편평상피로 구성된 부분도 있

차 인 호

120-752 서울특별시 서대문구 신촌동 134
연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

In-Ho Cha

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Dental College, Yonsei University
134 Shinchon-Dong, Seodaemoon-Gu, Seoul, 120-752, Korea
Tel : 82-2-361-8764/8774 Fax : 82-2-364-0992
E-mail : cha8764@yumc.yonsei.ac.kr

었고, 부분적으로 상피들이 밀집되어 성장하는 부위가 있으며, 또 일부에서는 상피가 유두상 증식을 보이는 곳도 있었다. 피복 상피의 일부에서는 분비물이 모여 있었고 호산성 입방세포로 피

복되어 선 구조를 형성하거나 점액세포로 분화된 부분도 존재하였다. 이들은 mucicamin염색에 적색으로 양성반응을 보여 점액 물질임을 확인하였다(Fig. 2).

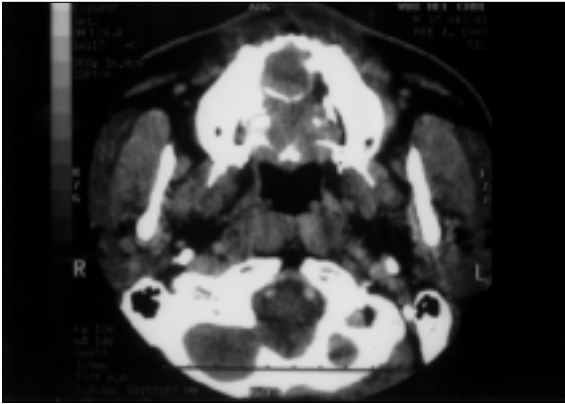


Fig. 1. Computed tomogram showing low density cystic lesion in the anterior maxilla which expands into the palatal side and partially erodes the palate.

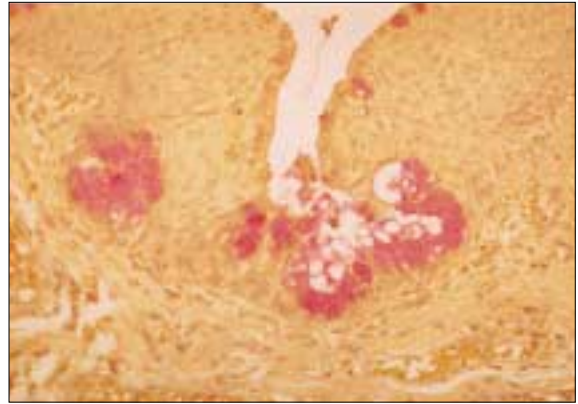


Fig. 2. Photomicrograph showing the mucous cells and mucin stained by mucicarmine (Mucicarmine stain, $\times 200$).



Fig. 3. Well-defined unilocular radiolucent lesion at the #46 area seen in the panoramic radiograph.

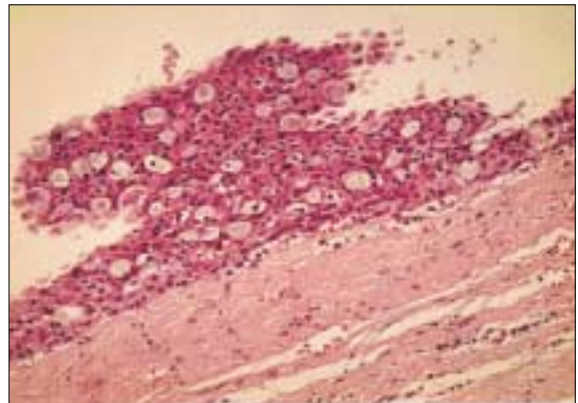


Fig. 4. The lining epithelium showing papillary growth composed of ciliated columnar epithelium and mucous cells (H-E, $\times 100$).



Fig. 5. Panoramic radiograph showing well-defined unilocular radiolucency in the left mandible body.

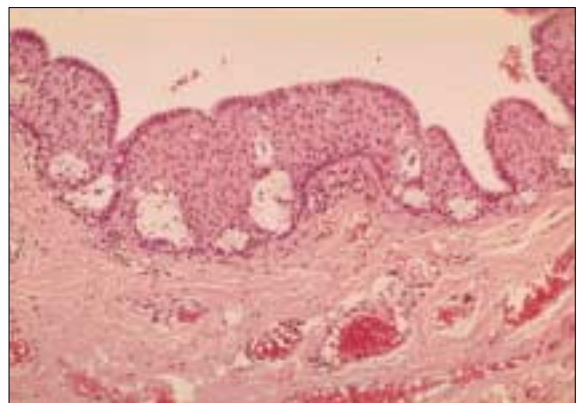


Fig. 6. The lining epithelium showing plaque-like or spherical thickening. Partially, mucous cells show ductal differentiation (H-E, $\times 100$).

2. 증례 2

40세 남자가 #46 무치악 부위 하방에 있는 방사선 투과성 병소의 치료를 위해 개인 치과 의원에서 의뢰되었다. #46 잇몸부위의 종창이나 발적은 없었으며, 압통도 없었다. 주위치아는 타진에 민감하지 않았으며, 동요도도 없었다. 파노라마 방사선 사진에서 지름 1cm 크기의 비교적 경계가 좋은 과골성 경계를 갖는 단방성 방사선 투과성 병소가 관찰되었다(Fig. 3). 잔존낭으로 생각하고 적출술을 시행하였다.

육안소견으로는 직경 0.7cm의 등근 회색 또는 푸른색의 낭성 조직이었으며, 바깥 표면은 매끄러웠다. 조직학적으로는 중층 편평상피로 피복되어 있었고, 여러층이 밀집되어 있는 곳과 유두상 증식을 하는 부분도 관찰되었다. 피복상피 곳곳에 섬모가 있는 원주세포 및 점액세포 등이 관찰되었다(Fig. 4).

3. 증례 3

71세 남자가 #35, 36, 37 하방에 있는 방사선 투과성 병소의 치료를 위해 개인 치과의원에서 의뢰되었다. 과거력상 35년전에 #36 치아를 발치하였고, 6년전 고정성 보철물을 이 부위에 제작한 것 이외에는 특이한 병력은 없었다. 협측으로 종창이 있었고, 발적이나 압통은 없었으며, 흡인시에 어두운 갈색의 용액이 배출되었다. #35 치아만 타진에 민감하였고 동요도는 없었다. 파노라마 방사선 사진에서 지름 4cm 크기의 비교적 경계가 명확한 단방성 방사선 투과성 병소가 관찰되었다(Fig. 5). 잔존낭으로 생각하고 조직검사를 시행하였다.

낭 상피는 원주 및 입방세포로 이루어져 있고, 유두상 증식과 부분적으로 여러층이 밀집되어 있는 것이 특징이었다. 간혹 점액세포들이 보이며 선 구조를 형성하였다(Fig. 6).

Ⅲ. 고 찰

이 병소는 타액 치성낭 또는 선양 치성낭 등 여러 이름으로 불리고 있지만 Gardner 등¹⁾은 타액 치성낭이라고 명명한 것은 부적절하다고 주장하고 있다. 그 이유로 mucous pool과 mucin pool은 다른 여러 치성낭에도 존재할 수 있기 때문에 이것이 있다고 해서 타액선 기원으로 이해해서는 안 된다고 강조하고 있다. 또한 Shear 등²⁾은 점액표피낭(mucoepidermoid cyst)이라고 명명하였지만 이 용어도 이미 Hodson 등³⁾에 의해 피복상피의 화생(metaplasia)이 일어나고 있는 치근단낭, 잔존낭, 함치성낭 등에 이미 사용하고 있기 때문에 적절한 용어로 받아들여지지 않고 있다. Gardner 등¹⁾은 이러한 선양 치성낭의 병리조직학적 특징을 다음과 같이 기술하고 있다.

1. 이 낭은 중층편평상피에 의해 다양한 두께로 둘러싸여 있으며 하방의 결합조직과 편평한 경계를 이루고 있다. 특징적으로 결합조직에 염증세포의 침윤은 관찰되지 않는다.
2. 상피의 표층은 호산성 입방세포로 구성되어 있으며, 불규칙한 표면은 유두상 증식을 보이고 있다. 또한 섬모가 존재할

수도 있다.

3. 상피내에 mucicarmine 양성 물질의 pool이 특징적으로 존재하며, 이 pool은 상피의 표층에서 보이는 호산성 입방세포로 피복되어 있다⁴⁾.
4. 점액세포가 뚜렷하게 나타날 수도 있다. 이것이 나타나지 않을 때에는 호산성 입방세포가 이것을 대체한다.
5. 기저세포는 과염색화되고 공포화될 수도 있다. 때로는 극세포층도 공포화된다.
6. 특징적으로 epithelial sphere를 관찰할 수 있다.
7. 때로 불규칙한 석회화물질이 결합조직 하방에서 관찰된다. 저자들이 보고한 증례들도 이러한 병리조직학적 특성에 합당한 소견을 보여 선양 치성낭으로 진단할 수 있었다.

한편, Gardner 등¹⁾은 선양 치성낭이 포상 치성낭(botryoid odontogenic cyst)과 유사한 병소로 언급하고 있다. 그 이유로 하악 전치부에 호발하고 다방성의 방사선학적 소견을 보이며, epithelial sphere가 존재한다는 점이 유사하다는 것이다.

Panagiota 등¹⁰⁾은 병소의 상피가 낭벽(cyst wall) 내부로 하방 증식하는 것을 관찰하고 이것이 선양 치성낭의 종양 잠재력(neoplastic potential)을 나타내는 증거라고 생각하였고 중심성 점액표피암종(central mucoepidermoid carcinoma)과 유사한 점이라고 지적하였다. 선양 치성낭은 저급의 점액표피암종과 감별해야 한다. 저급의 점액표피암종은 한층의 점액형성세포에 의해 피복된 낭성구조(cystic space), 표피양세포(epidermoid cell), 점액세포(mucous cell)의 혼합형태로 이루어진 것이 특징이다. 중급(intermediate type)의 점액표피암종은 더욱 세포 충실도가 높고 고형의 세포피(solid cell nest) 등이 나타나며, 고도(high grade type)는 역형성(anaplasia), 과염색소성(hyperchromatism)을 보이며, 세포 분열을 흔히 볼 수 있다. 이러한 특징들은 Gardner 등¹⁾이 지적하였던 선양 치성낭의 병리조직학적 특징에는 포함되지 않고 있어 점액표피암종과 감별할 수 있는 점이라고 생각이 되며 본 증례에서도 세포의 악성도를 관찰할 수 없어 감별할 수 있었다.

대부분의 보고에서 선양 치성낭은 치성기원^{13,5)}으로 생각하고 있다. 그 이유로 측방 치주낭과 선양 치성종양(adenomatoid odontogenic tumor)에서 흔히 볼 수 있는 intraepithelial plaque 또는 spherical thickening⁶⁾이 존재하며, 법랑모세포종과 연관되어 이 낭이 발생한다는 점¹¹⁾, 치성낭에서 흔히 볼 수 있는 피막 석회화(capsular calcification)를 관찰할 수 있다는 점이다. 더욱기 상피내 미세낭(intraepithelial microcyst)이 잘 관찰되는 점이 치성기원이라는 사실을 더욱 더 뒷받침하고 있다고 생각할 수 있다.

선양 치성낭은 약간 공격적인 성향(aggressive behavior)¹²⁾을 보이는 것으로 보고되고 있어, 적출술(enucleation) 보다는 en bloc excision이 추천되고 있다. Panagiota 등¹⁰⁾에 의하면 3년 추적관찰 결과 약 27%의 재발율을 보이고 있으며, 다른 보고에서도 이와 비슷한 재발율을 보이고 있다. 본 증례에서는 환자가 재내원하지 않아 추적검사 결과를 확인할 수는 없었지만 이렇게 보고된 재발율의 근거로 하여보면 선양 치성낭으로 진단된 환자는 세심한 관찰이 요하리라 생각이 된다.

IV. 결 론

GOC는 치성기원의 드문 낭종으로, 본 연구에서는 연세대학교 치과병원 구강악안면외과에서 경험한 3예의 GOC에 대한 임상적, 방사선학적, 병리학적 특징을 알아보았다. 임상적으로 상악 전치부에 발생한 경우를 제외하고는, 두 증례에서 증상이 없었다. 방사선학적으로 모두 단방성의 방사선 투과성 병소를 나타냈으며, 상악 전치부의 증례에서 병소에 의한 골결손이 관찰되었다. 병리조직학적으로 이 병소는 비각화성 중층편평상피로 피복되어 있으며, 상피의 일부에서는 분비물이 모여 있었고 호산성의 입방세포로 피복되어 선 구조를 형성하거나 점액세포로 분화된 부분도 존재하였다. 부분적으로 상피들이 밀집되어 성장하는 부위가 있으며, 또 일부에서는 상피가 유두상 증식을 하는 경우도 관찰되었다. 치료는 모두 적출술을 시행하였다.

참고문헌

1. Gardner DG, Kessler HP, Morency R, Schaffner DL: The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 17:359-66,1988.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: The WHO histological typing of

- odontogenic tumors. *Cancer* 70:2988,1992.
3. Padayachee A, Van Wyk CW: Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumor: sialo-odontogenic cyst. *J Oral Pathol* 16:499-504,1987.
4. Yasmin R, Antonino K, Luiz A: Glandular odontogenic cyst : a case report. *Quintessence Int* 25:351-354,1994.
5. Mercedes P, Cesar C, Javier L: Glandular odontogenic cyst: Clinicopathologic analysis of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 72:71-74,1991.
6. Koppang HS, Johannessen S, Haugen LK: Glandular odontogenic cyst(sialo-odontogenic cyst):report of two cases and literature review of 45 previously reported cases. *J Oral Pathol Med* 27:455-462,1998.
7. Shear M: Cysts of the jaws. *J Oral Pathol* 14:43-59,1985.
8. Hodson JJ: Muco-epidermoid odontogenic cysts of the jaws with special reference to those in mandible. *Proc R Soc Med* 49:637,1956.
9. G. Ficarra, L. Chou, E. Panzoni: Glandular odontogenic cyst(sialo-odontogenic cyst). A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 19:331-333,1990.
10. Panagiota E, Anna P:Glandular odontogenic cyst of the maxilla: report of case. *J Oral Maxillofac Surg* 53:834-837,1995.
11. 홍삼표 외 : 악골에 발생한 선치성낭. *대한구강병리학회지* 21:63-69,1997.
12. Spomenka M, Jaksa G, Goran K: Glandular odontogenic cyst: a case report and clinicopathologic analysis of the relationship to central mucoepidermoid carcinoma. *Head and Neck* 19:227-231,1997.