

하악에 발생한 법랑모세포 암종

경희대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *구강병리학교실
김근민 · 황의환 · 조재오* · 이상래

Ameloblastic carcinoma of the mandible

Keun-Min Kim, Eui-Hwan Hwang, Jae-O Cho*, Sang-Rae Lee

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, *Department of Oral Pathology, College of Dentistry, Kyung-Hee University

ABSTRACT

The ameloblastic carcinoma is an extremely rare, aggressive odontogenic neoplasm of the jaws. It is described as an ameloblastoma in which there is histologic evidence of malignancy in the primary or recurrent tumors, regardless of whether it has metastasized. We report an aggressive case of ameloblastic carcinoma of the mandible. A 68-year-old man with the complaint of the left facial swelling and intermittent pain was referred to our hospital. Serial images of panoramic radiograph, computed tomograph, and magnetic resonance imaging showed an ill-defined destructive radiolucent lesion of the left mandible. The lesion had typically aggressive behavior with extensive local destruction of bone and extended to the adjacent soft tissues. Bone scan revealed increased uptakes in the left mandibular body and ramus regions. Histological features were generally resembled with those of an ameloblastoma but with cytologic features of epithelial malignancy. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2001; 31 : 109-15)

KEY WORDS : carcinoma, squamous cell; ameloblastoma; mandible

법랑모세포종으로부터 유래되는 암종은 악성 법랑모세포종 (malignant ameloblastoma),¹⁻³ 법랑모세포 암종 (ameloblastic carcinoma),⁴ 전이성 법랑모세포종 (metastatic ameloblastoma),^{5,6} 원발성 치조골내 표피양 암종 (primary intra-alveolar epidermoid carcinoma)⁷ 등으로 다양하게 불리어져 왔으며, 특히 과거에는 공격적인 성장 양상이나 전이를 보이는 법랑모세포종을 조직학적 소견의 차이에도 불구하고 모두 악성 법랑모세포종이나 원발성 골내 암종 (primary intraosseous carcinoma)의 범주에 포함시켰었다.^{1,2,8}

그러나 최근에는 악성 법랑모세포종은 조직학적으로 종양 세포가 양성 소견을 보이지만 전이를 보이는 법랑모세포종을, 법랑모세포 암종은 병소의 전이 여부와는 상관없이 조직학적으로 종양 세포가 악성 소견을 보이는 법랑모세포종을 말한다.⁹⁻¹²

법랑모세포 암종은 치제 잔사로부터 유래된 종양이나 치성 낭,⁴ 또는 법랑질 형성단계 이전에 발육이 정지된 배

아기 치아의 상피 성분으로부터 유래되는 것으로 알려져 있으며,¹³ 대부분 악골 내에서 중심성으로 발생되지만 간혹 구강 점막으로부터 변연성으로 발생되기도 한다.¹⁴

임상적으로 법랑모세포 암종은 악골에 발생하는 매우 드문 악성 종양으로서, 하악의 구치부에서 호발되고, 안면 종창과 병소 부위의 동통이 가장 흔한 임상 증상이다. 방사선학적으로 피질골의 파괴를 동반한 광범위한 골 파괴를 보이며, 조직학적으로는 대체로 법랑모세포종과 유사하지만 악성도를 반영하는 종양 세포의 다양한 이형성 소견을 보인다.

법랑모세포 암종에 관하여서는 Corio 등,⁹ Ueda 등,¹⁰ Nagai 등,¹¹ Philips 등¹²이 상, 하악에 중심성으로 발생한 증례를, McClatchey 등¹⁴이 구강 점막에서 변연성으로 발생한 증례를 보고한 바 있으나, 이의 진단이나 조직학적 분류, 치료와 예후에 대하여서는 현재까지 논란이 많은 실정이다.

저자들은 최근 임상적, 진단영상학적 및 조직병리학적 소견으로부터 68세된 남성의 하악에 발생한 매우 드문 법랑모세포 암종 1증례를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

접수일 : 2001년 4월 3일 채택일 : 2001년 4월 25일
Correspondence to : Prof. Eui-Hwan Hwang
Department of Oral and Maxillofacial Radiology College of Dentistry, Kyung Hee University #1 Hoegi-dong, Dongdaemun-gu, Seoul, KOREA
Tel) 82-2-958-9405, FAX) 82-2-965-1256
E-mail) hehan@khu.ac.kr

증례 보고

1. 임상 소견

간헐적인 동통을 동반한 좌측 안면부 종창을 보이는 68세 된 남성 환자가 본원에 의뢰되었다. 환자는 약 4개월 전에 좌측 하악 대구치부의 극심한 동통과 안면 종창이 발생되어 인근 보건소에 내원하여 조직학적으로 범람모세포 암종으로 진단받았던 기왕력을 가지고 있었으며, 이 외에 특기할만한 치과적, 내과적인 과거 병력은 없었다.

임상검사에서 좌측 하악우각부와 악하선부위에 종창이 관찰되었는데 (Fig. 1), 촉진시 경결감을 보이면서 압통을 호소하였고, 좌측 악하선부위 및 경부 림프절에 대한 촉진시 림프절병증의 소견은 뚜렷하지 않았다. 구강검사에서는 좌측 하악 대구치부의 치은 종창과 함께 구강전정부가 편

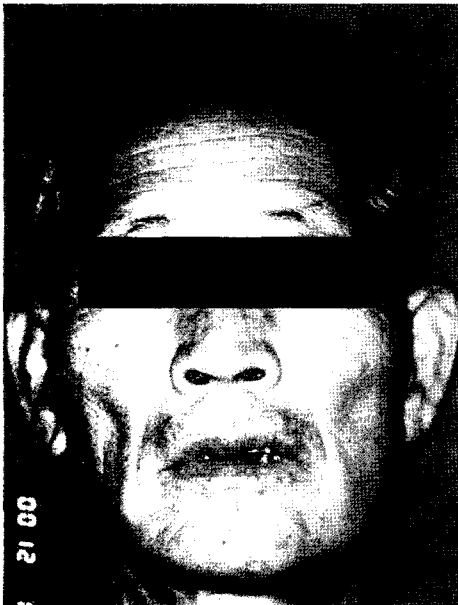


Fig. 1. A facial photograph shows the left facial swelling.

평화되어 있었으나, 염증 소견은 관찰할 수 없었으며, 구강 위생 상태의 불량으로 인하여 심한 악취가 있었다.

2. 진단영상 소견

파노라마 방사선사진에서 좌측 하악 대구치부에 경계가 불명확한 방사선투과성 병소가 관찰되었다. 병소의 변연은 불규칙하였고, 병소의 내부는 비교적 불균일한 방사선투과성을 보였다. 또한 병소 부위의 무치악 치조정, 하악관 및 하악하연의 피질골이 파괴되어 있었으며, 종괴의 연조직상도 함께 관찰되었다 (Fig. 2).

전산화 단층사진에서 병소는 좌측 하악우각부와 악하선부위에서 약 4×5 cm 크기의 매우 공격적이면서 팽윤성 성장 양상을 보이는 연조직 종괴로 관찰되었다. 종괴는 힘, 설측 피질골을 포함하여 하악골을 불규칙하게 파괴하면서 인접 연조직으로 성장하고 있었으며, 하방으로는 악하선부위까지 확장되어 있었다 (Fig. 3A). 조영증강 전산화 단층사진에서는 종괴의 내부가 불균일한 조영증강 소견을 보였으나, 석회화 소견은 관찰되지 않았다. 종괴로 인하여 악하선이 후하방으로 변위되어 있었으나, 악하부 림프절로의 전이 소견은 명확하지 않았다 (Fig. 3B).

자기공명영상에서 병소는 좌측 하악우각부와 악하선부위에서 경계가 불명확한 종괴로 관찰되었다. 종괴의 내부는 T1 강조영상에서 불균일한 중등도의 신호강도를, T2 강조영상에서는 불균일한 높은 신호강도를, Gadolinium 조영증강영상에서도 불균일한 조영증강 상을 보였으며, 종괴의 중앙 부위에서는 공통적으로 낮은 신호강도를 보이는 괴사 부위가 관찰되었다 (Fig. 4A, B, C). 종괴로 인하여 좌측 악하선과 인접 근육이 변위되어 있었으나, 병소의 침윤 여부는 명확하지 않았다 (Fig. 4D).

^{99m}Tc-MDP를 이용한 골스캔 영상에서 좌측 하악체부와 하악지부에서 방사성동위원소의 집적이 증가되어 있었다. 그러나, 그 외의 전신 골격에서는 정상적인 방사성동위원소의 집적이 대칭적으로 관찰되었으며, 병소의 전이를 의



Fig. 2. A panoramic radiograph shows a large, ill-defined, destructive radiolucent lesion of left mandibular body. There are destructions of the alveolar crestal ridge, left mandibular canal, and inferior cortical border by the aggressive lesion.

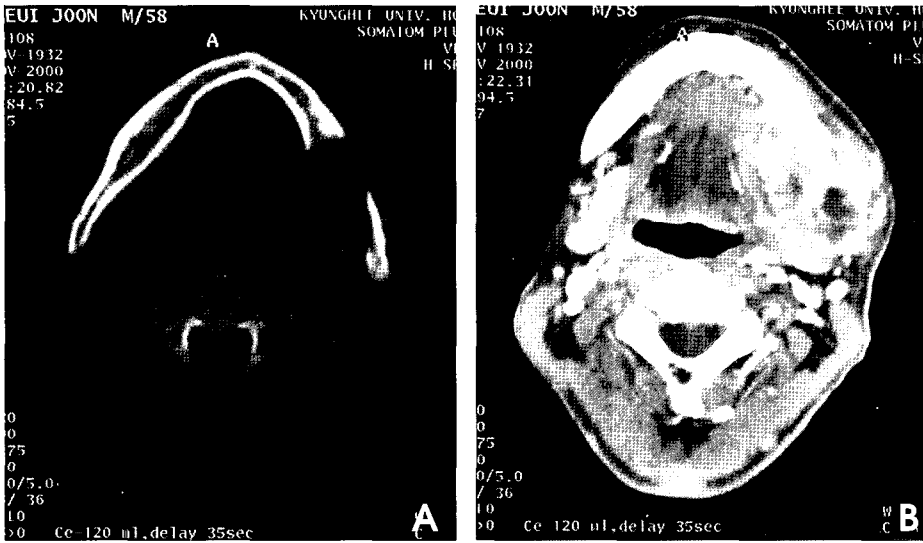


Fig. 3. A. A bone-window axial CT scan shows an expansile bony destructive mass lesion, about 4 × 5 cm in size, of the left mandibular body. B. An axial enhanced CT scan shows the mass of soft tissue density, being expanded to the left submandibular gland, which is displaced.

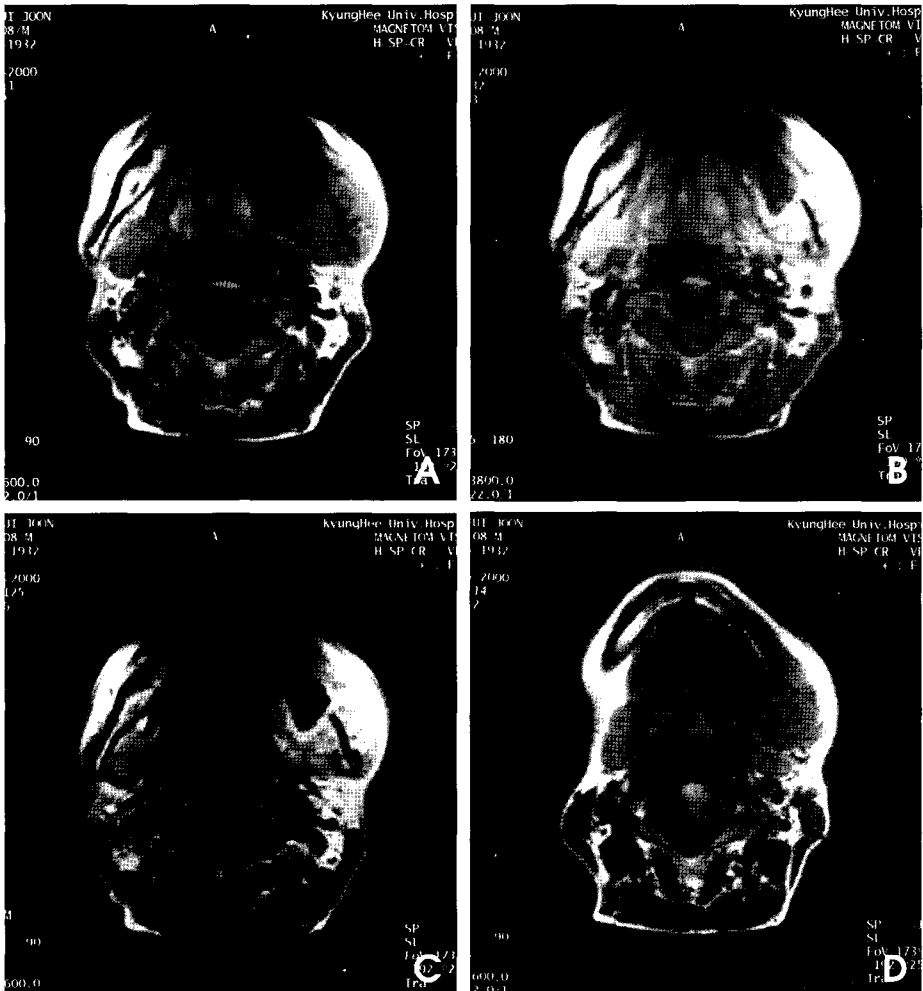


Fig. 4. A, B, C. MR scans show an ill-defined mass lesion of the left mandibular body. The mass lesion shows heterogeneous intermediate signal intensity on T1-weighted image, heterogeneous high signal intensity on T2-weighted image, and heterogeneous enhancement, containing central non-enhanced area that is likely to represent a necrotic portion. D. The left submandibular gland is displaced to the medial and posterior side, but there is no definite evidence of infiltrative tumor growth.

심할만한 방사성동위원소의 집적 증가는 없었다 (Fig. 5A, B).

3. 조직병리학적 소견

좌측 악하선과 경부 림프절을 포함하는 광범위한 하악

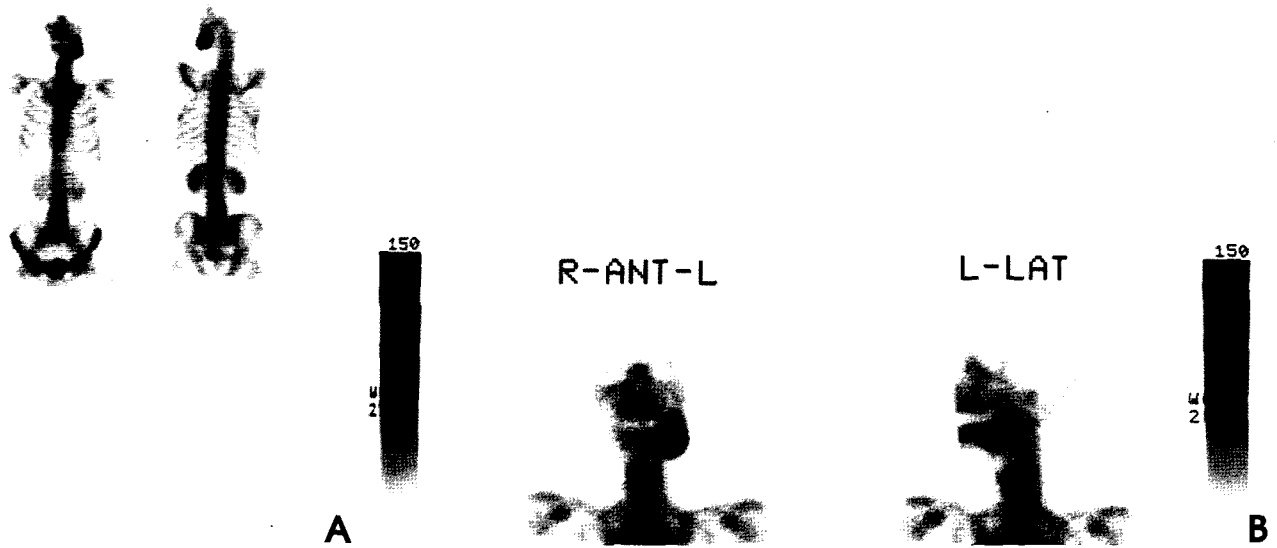


Fig. 5. A, B. ^{99m}Tc-MDP bone scans show increased uptakes on the left mandibular body and ramus regions.

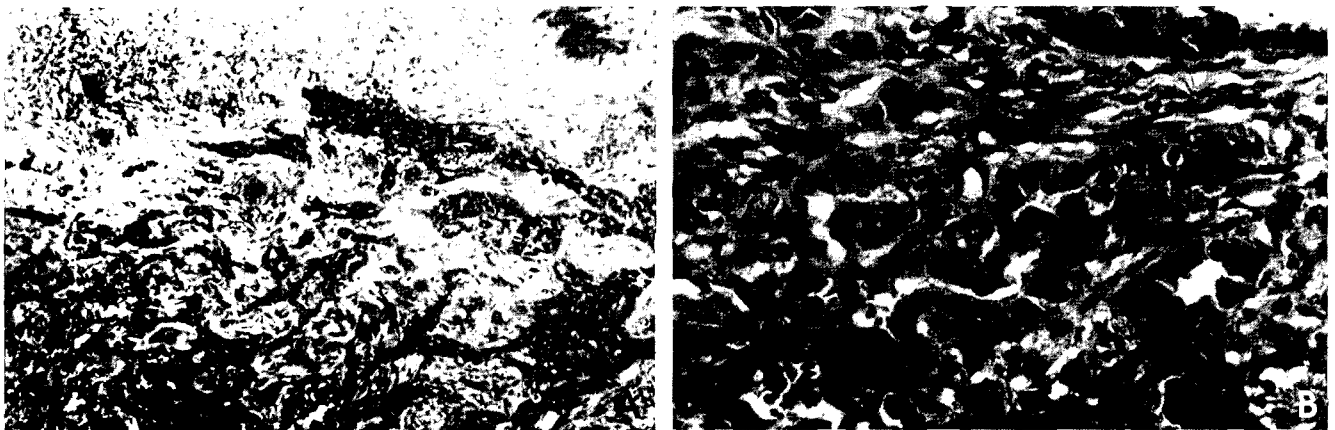


Fig. 6. A. Microscopic sections show long ovoid epithelial cells forming nest and infiltrative growth to underlying connective and osseous tissues (H-E stain, $\times 100$). B. The epithelial cells reveal cellular atypism, such as cellular pleomorphism, increased abnormal mitotic figures, loss of polaritic appearances and prominent nucleoli (H-E stain, $\times 200$).

골 절제술을 시행한 후의 조직학적 검사에서 낮은 염색도를 보이는 법랑모세포와 유사한 상피세포가 상피소 (epithelial nest)를 형성하고 있었으며, 결합조직과 골 조직으로 상피세포의 침윤적인 성장 양상이 관찰되었다. 종양 세포들에서는 세포다형성 (cellular pleomorphism), 비정상적인 유사분열상의 증가, 극성 상실, 현저한 핵소체 등 세포이형성 (cellular atypism) 소견을 관찰할 수 있었으며 (Fig. 6A, B), 면역병리학적 염색에서 cytokeratin에 양성반응, desmin에 음성반응을 나타내었다. 림프절과 악하선에서 종양 세포의 침윤 및 전이 소견은 발견되지 않았다.

고 찰

치성 암종은 치성 기관 (odontogenic apparatus)으로부터 기원하는 악골의 악성 상피성 종양으로서, 1972년 WHO 분류¹⁵에서는 치성 암종을 악성 법랑모세포종, 원발성 골내 암종 및 치성 낭을 포함하여 치성 상피로부터 유래되는 암종으로 분류한 바 있다. 이 분류에서는 악성 법랑모세포종을 악골에 원발성으로 발생되어 전이를 보이는 법랑모세포종으로, 원발성 골내 암종을 법랑모세포종이나 치성 낭과 무관하게 악골에서 발생하는 원발성 암종으로 정의하였으며, 법랑모세포 암종에 관하여서는 언급한 바 없다.

그러나 이러한 분류는 전이를 일으키기 이전에 조직학적으로 악성도를 보이는 법랑모세포종 및 이와 유사한 병소들을 분류하기 어려울 뿐만 아니라, 그 분류 기준이 명확하지 않기 때문에 이러한 분류 방법을 수정한 다양한 분류 방법들이 제안되었다. Shafer 등⁴은 악성 법랑모세포종과 법랑모세포 암종을 처음으로 구분하였는데, 이들의 분류에 의하면 악성 법랑모세포종은 전이를 보이면서 병소의 원발부위와 전이부위 모두에서 조직학적으로 양성 소견을 보이는 법랑모세포종을, 법랑모세포 암종은 조직학적으로 악성을 보이는 원발성 법랑모세포종으로서, 전이를 보이는 경우에는 전이부위의 병소가 원발부위의 병소와 조직학적으로 서로 다른 소견을 보이는 법랑모세포종이라고 하였다. Elzay 등¹⁶은 법랑모세포 암종은 악성 법랑모세포종과는 달리 세포의 분화도가 매우 낮은 법랑모세포종으로서, 법랑모세포종과 편평세포 암종의 소견을 동시에 보이는 악성 종양이라고 하였으며, Sloomweg와 Müller⁵는 법랑모세포 암종은 원발 병소, 또는 원발 병소와 전이 병소 모두에서 법랑모세포종의 소견과 낮은 분화도를 보이는 암종의 소견이 혼재되어 나타나는 종양이라고 한 바 있다. 이러한 분류의 다소간의 차이는 조직발생학적 관점의 차이에 의한 것으로서,²¹ 현재에는 조직학적으로 종양 세포가 양성 소견을 보이지만 전이를 보이는 법랑모세포종을 악성 법랑모세포종, 병소의 전이 여부와는 상관없이 조직학적으로 종양 세포가 악성 소견을 보이는 법랑모세포종을 법랑모세포 암종이라고 하는 견해가 널리 인정되고 있다.^{13, 17, 22}

임상적으로 법랑모세포 암종은 법랑세포종과 마찬가지로 상악에 비하여 하악, 특히 구치부에서 호발되고, 성별에 따른 발생률의 차이는 없는 것으로 알려져 있으며, 이 종양의 가장 흔한 임상 증상은 안면 종창과 병소부위의 동통이다.^{9-13, 17, 20, 21} Bruce와 Jackson¹⁷은 23증례의 법랑모세포 암종을 연구한 결과, 19:4의 비율로 상악에 비하여 하악에서, 13:10의 비율로 여성에 비하여 남성에서 발생률이 높았으며, 환자는 4-75세의 연령분포를 보이면서 평균 발생연령이 33.5세이었다고 보고하였다. Nagai 등¹¹은 문헌에 보고된 69증례의 악성 법랑모세포종과 법랑모세포 암종을 Sloomweg와 Müller⁵의 분류기준에 따라 재분류하여 분석한 바, 평균 발생연령은 법랑모세포 암종이 34세, 악성 법랑모세포종이 40세로 법랑모세포 암종이 악성 법랑모세포종에 비하여 평균 발생연령이 낮았고, 성별에 따른 발생률은 법랑모세포 암종의 62%가 남성에서 나타났으나, 악성 법랑모세포종은 성별에 따른 발생률의 차이를 보이지 않았다고 보고한 바 있다. Corio 등⁹은 8증례의 법랑모세포 암종을 연구한 결과, 환자의 성별 차이는 없었으며, 평균 발생연령은 30.1세이었고, 7:1의 비율로 하악의 구치부에서 호발되었다고 하였다. 또한 가장 일반적인 임상 증상으로 안면 종창이 나타났고, 이외에 급속한 병소의 성장을 동반한

동통, 개구장애, 발음장애 등의 임상 증상도 나타났다고 하였다. 본 증례는 68세된 남성 환자로써, 법랑모세포종과 Corio 등⁹이 보고한 법랑모세포 암종의 평균 발생연령에 비하여서는 비교적 높은 연령의 환자이었다. 또한 본 증례의 경우 하악의 극심한 동통과 안면 종창이 발현된 기왕력을 가지고 있었는데, 이는 대개의 경우 동통을 보이지 않는 법랑모세포종과 구별되는 임상 소견이었다.

방사선학적으로 법랑모세포 암종은 대부분의 경우 국소적으로 방사선불투과성 부위를 동반한 방사선투과상을 보이며, 병소의 경계는 불명확하다. 또한 병소에 인접한 치아의 치근 흡수와 협, 설측 피질골의 천공을 유발하며, 병소의 성장 양상은 매우 공격적이어서 인접 연조직을 침범하여 종양이 주위로 확장되기도 한다. Corio 등⁹은 법랑모세포 암종은 방사선학적 소견이 법랑모세포종과 유사하였지만, 대부분의 증례에서 병소의 경계가 불명확한 방사선투과상으로 나타나며, 간혹 방사선투과성 병소 내에 국소적으로 방사선불투과성 부위가 관찰되는데, 이러한 방사선불투과성 부위는 이형성 석회화 부위를 나타낸다고 하였다. 또한 법랑모세포 암종은 법랑모세포종에 비하여 보다 공격적인 성장 양상을 보이는데, 병소로 인한 치근 흡수와 협, 설측 피질골의 천공, 구강저와 주위 연조직으로의 병소 확장, 상악동의 폐쇄, 다수의 재발이 나타났으며, 한 증례에서는 경부 림프절로의 전이를 보였으나, 원격 전이는 관찰되지 않았다고 하였다. Bruce와 Jackson¹⁷은 상악에 발생한 법랑모세포 암종에서도 방사선투과성 병소 내에 산재되어 나타나는 방사선불투과성 부위가 관찰되는데, 이는 이형성 석회화 부위로서, 법랑모세포종에서는 관찰되지 않는 중요한 소견이라고 보고한 바 있다. 본 증례에서는 파노라마방사선사진에서 좌측 하악체와 하악우각부에 경계가 불명료한 광범위한 방사선투과성 병소가 관찰되었고, 치조정 및 하악관과 하악하연이 파괴되어 병적 골절의 소견을 보였다. 전산화 단층사진과 자기공명영상에서도 좌측 하악골의 협, 설측 피질골이 파괴되어 있었으며, 병소의 성장으로 인해 악하선이 변위되어 있어 매우 공격적인 양상의 악성 종양임을 시사하고 있었다. 자기공명영상의 T1 및 T2 강조영상과 조영증강영상에서 병소의 일부가 공통적으로 모두 낮은 신호강도를 보이면서 조영증강이 되지 않았으며, 전산화 단층사진의 조영증강 상에서도 조영증강이 되지 않았다. 따라서 이 부위는 병소 내의 광범위한 괴사부위로 생각할 수 있었으며, Bruce와 Jackson,¹⁷ Corio 등⁹이 강조한 법랑모세포 암종의 특징적 소견인 병소 내의 이형성 석회화 부위는 관찰되지 않았다.

법랑모세포 암종의 전이에 관하여, Sloomweg와 Müller⁵는 폐와 흉막 및 림프절로 전이를 일으킨다고 하였으며, Donner 등¹⁸은 폐로 원격전이된 증례를 보고한 바 있는데, 이러한 전이 소견은 장기간의 주기적인 검사를 통하여 확인할 수 있다고 하였다. 본 증례에서는 전산화 단층사진과

자기공명영상에서 병소가 국소적인 골 파괴를 동반하는 공격적인 양상을 나타내었지만 경부 림프절로의 전이는 명확하지 않았으며, 골 스캔에서도 원격전이의 증거가 나타나지 않았다.

한편 악골의 중심성 암종으로 진단하기 위해서는 암종이 구강, 비강, 부비동의 점막과 관련성이 없어야 하며, 전이 병소가 배제되어야 한다.^{5,9} 본 증례에서는 구강검사시 구강 점막의 궤양 등 연조직 병소를 관찰할 수 없었고, 파노라마 방사선사진에서 병소 중심부의 최대 직경이 골 파괴된 치조정과 하악하연의 직경보다 더 길었다. 또한 전산화 단층사진 및 자기공명영상에서도 구강, 비강, 부비동의 점막 및 타액선의 악성 병소를 관찰할 수 없었으며, 골 스캔에서 병소가 원격부위로부터 전이된 증거가 발견되지 않았는 바, 임상적 및 방사선학적으로 병소가 골 중심성으로 발생되었음을 알 수 있었다.

조직학적으로 법랑모세포 암종은 대체로 법랑모세포종과 유사하지만 중앙 세포가 악성 소견을 보이는데, 개개의 세포에서 종종 증가된 핵/세포질의 비율, 핵의 과염색증(hyperchromatism), 비정상적으로 증가된 유사분열 등의 이형성 소견을 보인다. 또한 부가적으로 개개 세포의 각화와 케라틴 진주(keratin pearl)의 형성도 관찰되는데, 상피소들의 중앙부에서 관찰되는 이형성 석회화와 괴사는 법랑모세포종에서는 관찰되지 않는 중요한 소견이다. Gardner¹⁹는 법랑모세포 암종의 진단을 위한 조직학적 기준을 제시하였는데, 세포의 이형성 소견과 함께 현저한 유사분열이 나타나면 대체로 법랑모세포가 악성을 나타내는 것이라고 하였다. 본 증례에서는 병소에서 이형성 석회화 부위는 관찰되지 않았으나, 법랑모세포종과 유사한 상피가 상피소를 이루고 있었으며, 주위 조직으로의 침윤적 성장 양상이 관찰되었을 뿐만 아니라, 개개의 상피세포에서 세포의 다형성, 증가된 유사분열, 뚜렷한 핵소체와 같은 중앙 세포의 악성도를 반영하는 이형성 소견이 관찰되어 법랑모세포 암종으로 진단되었다.

법랑모세포 암종과 조직학적으로 감별해야 할 질환으로는 악골에 전이된 전이성 암종, 타액선 종양으로부터 악골 내로 전이되거나 악골에서 중심성으로 발생하는 타액선 종양, 구강 점막이나 치성 낭에서 유래된 편평세포 암종, 원발성 골내 암종, 극세포형 법랑모세포종, 석회화 상피성 치성 종양 등이 있는데, 특히 법랑모세포 암종과 원발성 골내 암종의 조직학적 감별은 어려운 것으로 알려져 있다.

법랑모세포 암종의 치료는 광범위한 국소적 절제술이 가장 선호되는 치료법이며, 국소적인 림프절 절제를 선택적으로 시행하기도 한다.¹⁷ 방사선치료는 종양의 확산을 제한하기 위한 고식적(palliative) 치료의 목적으로, 또는 연조직이나 골로 광범위하게 확장된 병소의 경우에만 제한적으로 이용되고 있다.²⁰ 일반적으로 법랑모세포 암종은 방사선 치료에 민감하지 않은 것으로 알려져 있으며, 화학요법

의 치료 효과에 대하여서는 현재까지 완전히 정립되어 있지 않다.¹⁷

법랑모세포 암종은 종양의 광범위한 확장에 따른 경부 림프절로의 전이, 폐 등으로의 원격전이^{18, 20-22}가 보고된 바 있으므로 수술 후에도 장기간 동안 면밀한 주기적 재평가가 요구된다. 본 증례의 경우 병소가 공격적인 양상을 가지고 있음을 고려하여 좌측 경부 광청술과 함께 좌측 악하선을 포함하는 광범위한 하악골 절제술을 시행하였으며, 수술 후 6개월 간의 주기적 검사를 통해서 재발이나 원격전이의 증거는 나타나지 않았으나, 이의 가능성을 배제할 수 없으므로 장기간의 주기적 검사가 필요할 것으로 사료된다.

참 고 문 헌

1. Carr RF, Halperin V. Malignant ameloblastoma from 1953 to 1966. Review of the literature and report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1968; 26: 514-22.
2. Sugimura M, Yamauchi T, Yashikawa K, Takeda N, Sakita M, Miyazaki T. Malignant ameloblastoma with metastasis to the lumbar vertebrae: report of case. *J Oral Surg* 1969; 27: 350-6.
3. Herceg SJ, Harding RL. Malignant ameloblastoma with pulmonary metastasis. *Plast Reconstr Surg* 1972; 49: 456.
4. Shafer WG, Hine MK, Levy BM. A textbook of oral pathology. 4th ed. Philadelphia: W.B.Saunders Company; 1983. p. 280-1.
5. Slootweg PJ, Müller H. Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984; 57: 168-79.
6. Takéuchi S, Kobayashi K, Minakawa T, Azumi T, Fukushima M. Metastatic ameloblastoma of the skull. *Surg Neurol* 1981; 15: 182-5.
7. Shear M. Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 1969; 97: 645-51.
8. Small IA, Waldron CA. Ameloblastoma of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1955; 8: 281-97.
9. Corio RL, Goldblatt LI, Edwards PA, Hartman KS. Ameloblastic carcinoma: a clinicopathologic study and assessment of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 64: 570-6.
10. Ueda M, Kaneda T, Imaizumi M, Ave T. Mandibular ameloblastoma with metastasis to the lungs and lymph nodes: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1989; 47: 623-8.
11. Nagai N, Takeshita N, Nagatsuka H, et al. Ameloblastic carcinoma: case report and review. *J Oral Pathol Med* 1991; 20: 460-3.
12. Phillips SD, Russell RL, Brem H, Mattox D. Ameloblastoma of the mandible with intracranial metastasis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 118: 861-3.
13. Lolachi CM, Madan SK, Jacobs JR. Ameloblastic carcinoma of the maxilla. *J Laryngol Otol* 1995; 109: 1019-22.
14. McClatchey KD, Sullivan MJ, Paugh DR. Peripheral ameloblastic carcinoma: a case report of a rare neoplasm. *J Otolaryngol* 1989; 18: 109-11.
15. Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H. Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts and allied lesions. Geneva: World Health Organization; 1972. p. 35-6.
16. Elzay RP. Primary intraosseous carcinoma of the jaws: review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1982; 54: 299-303.
17. Bruce RA, Jackson IT. Ameloblastic carcinoma: report of an aggres-

- sive case and review of the literature. *J Craniomaxillofac Surg* 1991; 19: 267-71.
18. Dorner L, Sear AJ, Smith GT. A case of ameloblastic carcinoma with pulmonary metastases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1988; 26: 503-10.
19. Gardner DG. Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1996; 82: 660-9.
20. Andersen E, Bang G. Ameloblastic carcinoma of the maxilla. A case report. *J Craniomaxillofac Surg* 1986; 14: 338-40.
21. Lee L, Maxymiw WG, Wood RE. Ameloblastic carcinoma of the maxilla metastatic to the mandible. case report. *J Craniomaxillofac Surg* 1990; 18: 247-50.
22. Gandy SR, Keller EE, Unni KK. Ameloblastic carcinoma : report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50: 1097-102.