

# 석회화치성낭양 변화를 동반한 법랑모세포섬유치아종

강릉대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, \*구강병리학교실  
권혁록 · 한진우 · 이진호 · 최항문 · 박인우 · 이석근\*

## Ameloblastic fibro-odontoma with a change of calcifying odontogenic cyst

Hyuk-Rok Kwon, Jin-Woo Han, Jin-Ho Lee, Hang-Moon Choi, In-Woo Park, Suk-Keun Lee\*

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

### ABSTRACT

Thirteen-year-old girl complaining of the swelling and pain on the left midface visited our dental hospital. On the radiographic examination, well-defined radiolucent lesion with hyperostotic border was found in the left maxilla accompanying with the external root resorption of the involved teeth and the displaced second molar. CT showed calcified bodies, thinning of hard palate, inferior orbital wall and lateral wall of nasal fossa, and thinning and perforation of the buccal plate of the maxilla. Enucleation and curettage of the lesion and nasoantrotomy was carried out and histopathologic examination mainly showed a solid tumor tissue composed of odontogenic epithelium and pulp tissues admixed with dentin and enamel formation. And some part of reduced follicular epithelium of tooth germ showed a change mimicking calcifying odontogenic cyst. Taken together, we concluded the lesion is an ameloblastic fibro-odontoma with a change of calcifying odontogenic cyst. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2001; 31 : 181-4)

**KEY WORDS** : odontogenic tumors; odontoma; odontogenic cyst, calcifying

### 서 론

법랑모세포섬유치아종은 드문 치성종양으로 Philipsen 등의 보고에 의하면 치성종양중 1-3.1% 정도 발생하며, 대부분의 경우(98.8%)에서 20세 이전에 발생하고 평균 연령은 9세 가량이다. 남녀 비율은 1.4:1 정도이며 54% 가량이 하악 구치부에서 발견되었다. 보통 무통성의 느린성장을 보이며 83%에서 매복치와 관련된다고 하였다.<sup>1</sup> 방사선학적으로는 경계가 명확하며 보통 과골성 변연으로 둘러싸여 있다. 단방성 혹은 다방성으로 나타날 수 있으며 대부분에서 방사선투과성-불투과성 혼합 병소로 관찰된다.<sup>2</sup> WHO의 분류에 따르면 이 종양은 “법랑모세포섬유종과 유사하지만 상아질과 법랑질 생성을 유도하는 변화를 보이는 병소”로 정의되고 있다.<sup>3</sup> 치료법으로는 보통 보존적인 적출술을 시행하며 재발율은 낮은 것으로 보고되고 있다.<sup>4</sup> 그

러나 아주 드물긴 하지만 소파술 후 법랑모세포섬유종으로의 악성 변화가 보고된 바도 있다.<sup>5</sup>

법랑모세포섬유치아종을 독립적인 진성종양으로 볼 것인지 치아종으로의 진행과정으로 볼 것인지에 대해서는 여러 가지 주장이 있다. 법랑모세포섬유치아종을 법랑모세포섬유종에서 치아종으로 진행되는 중간과정이라는 견해,<sup>7</sup> 법랑모세포섬유종은 진성종양으로 분류하고 법랑모세포섬유치아종은 치아종으로 성숙해가는 전 단계라는 견해,<sup>8</sup> 법랑모세포섬유종은 진성종양이지만 법랑모세포섬유종과 같은 병리조직소견을 보이는 일부 증례는 치아종 발생의 초기 단계일 수 있으며 역시 법랑모세포섬유치아종은 중간과정의 과오종으로 간주하는 견해,<sup>2</sup> 그리고 법랑모세포섬유종과 법랑모세포섬유치아종은 진성종양이지만 이들과 같은 병리조직소견을 보이는 일부 증례는 치아종 발생의 중간과정의 과오종으로 간주하는 견해<sup>9</sup> 등 많은 주장이 있다.

상악구치부에 발생하였으며 방사선불투과성 부분이 거의 관찰되지 않고 조직병리학적으로 일부분에서 석회화치성낭양 변화를 보인 증례가 있어 이를 보고하고자 한다.

접수일: 2001년 6월 18일      채택일: 2001년 7월 20일  
Correspondence to: Prof. Hang-Moon Choi  
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kangnung National University, 123 Chibyun-dong, Kangnung-City, Kangwon-Do, Korea, 210-702  
Tel) 82-33-640-3135, Fax) 82-33-640-3113  
E-mail) imagchoi@kangnung.ac.kr

### 증례 보고

13세 여자 환자가 좌측 중앙면부의 종창을 주소로 내원하였다. 약 3개월 전 종창과 통증이 있었으나 치료하지 않은 기왕력이 있었으며 구내 검사에서 좌측 상악 협측 구강전정 부위의 부드러운 파동성 종창이 인지되었다.

방사선검사시 좌측 상악전치 치근단부에서 좌측 익돌상악열에 이르는 명확한 경계와 과골성 변연을 가지는 방사선투과성 병소가 관찰되었다. 좌측 상악 제1 소구치, 제2 소구치, 제1 대구치의 치근외흡수와 제2 대구치의 후외상방으로의 변위가 관찰되었다. 일반방사선상에서 석회화 물질이 관찰되지 않았으나 전산화단층상에서는 석회화 물질이 매복치의 내측에서 관찰되었다. 병소에 의하여 좌측 경구개, 좌측 안와저, 비와의 좌측 측벽, 좌측 상악동 협측벽이 압박팽창되어 있었으며 좌측 협측벽 피질골의 하방부에서 천공이 관찰되었다. 좌측 비와의 하방부는 병소에 의하여 부분적으로 폐쇄되어 있었으며 좌측 상악동은 완전히 폐쇄되어 있었다(Fig. 1).

전신 마취하에서 절제 및 소파, 좌측 상악 제1 대구치, 제2 대구치의 발거, 그리고 비상악동절개술을 시행하였다. 제거된 병소는 하나의 회색조를 띤 난원형 흰색 덩어리로 크기는 약 3×4.5×6cm이며 잘 피막화되어 있었다(Fig. 2).

조직병리학적 검사에서 병소 대부분은 치성상피와 치수세포로 구성된 섬유 및 상피성 종양 조직이었으며 상피성 종양조직 세포들은 미분화된 치성중배엽성 조직내로 침윤 증식되어 상피대 또는 상피구를 형성하기도 했으며 미성숙한 법랑모세포층을 형성하면서 치배조직을 만들기도 하였다. 치배조직 내부에는 조상아세포층의 분화가 관찰되었다(Fig. 3A). 한편, 종양세포는 낮은 활성의 상아질과 법랑질 형성을 보이면서 비정상적 형태의 치배구조를 형성하고 있었다(Fig. 3B). 병소의 치배낭 부위에서 낭성 변화를 보이면서 그 내강벽의 일부에서는 이형성석회화(dystrophic calcification)가 관찰되는 석회화치성낭양 병소와 유사한 소견이 관찰되었다(Fig. 3C). 그러나 이러한 석회화치성낭양 변화는 치배낭 주위에서 국소적으로 분포되었으며 종양조직의 대부분은 단단한 섬유성 종양증식상을 보였다.

본 증례는 상기 소견을 종합하여 석회화치성낭양 변화를 동반한 법랑모세포섬유치아종으로 진단되었다.

### 고 찰

이번 증례의 임상소견이나 방사선소견은 법랑모세포섬유치아종의 임상소견, 방사선소견과 특별히 불일치하는 부분은 발견되지 않았으며 일반방사선상에서는 석회화 물질이

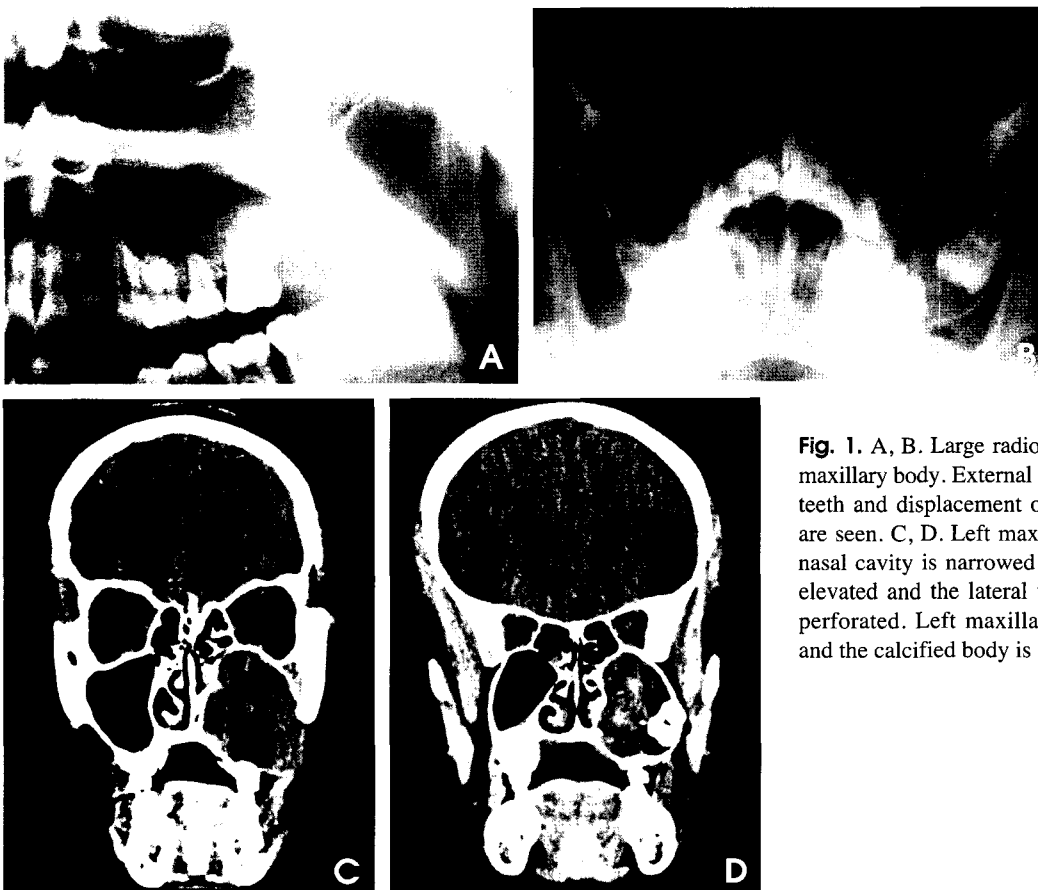


Fig. 1. A, B. Large radiolucent lesion is located on left maxillary body. External root resorption of the involved teeth and displacement of left maxillary second molar are seen. C, D. Left maxillary sinus is obstructed. Left nasal cavity is narrowed by the lesion. Orbital floor is elevated and the lateral wall of left maxillary sinus is perforated. Left maxillary second molar is displaced and the calcified body is seen.



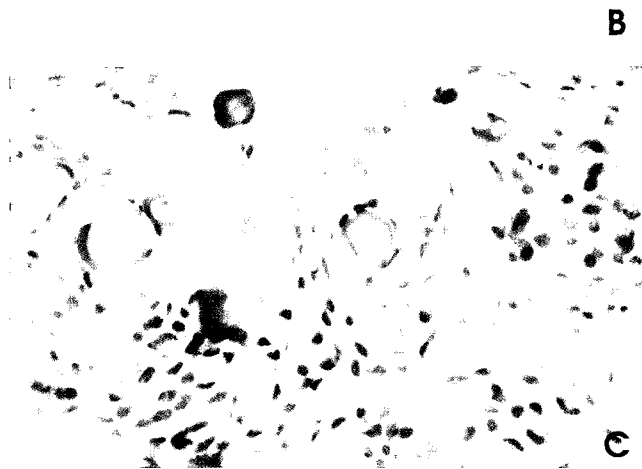
A

Fig. 2. Enucleated mass is grayish white and well encapsulated.

관찰되지 않았으나 전산화단층상에서 관찰되었다는 것은 석회화 물질을 형성하는 질환이 의심될 때 전산화단층상이 유용하리라는 것을 시사하는 것이라 할 수 있겠다.

조직병리학적 검사에서는 대부분의 종양조직에서 법랑모세포섬유종의 소견을 보였으며 일부분에서 석회화치성낭양 변화를 보인 부분이 관찰되었다. 조직학적으로 법랑모세포섬유종의 세포분화가 상당히 잘 진행되었으며 일부에서 뚜렷한 치배조직의 형성이 관찰되었고 종양상피세포의 증식도는 비교적 미약하였으며, 치성중배엽성 조직의 증식과 분화는 종양조직내에 광범위하게 분포하였다.

석회화치성낭은 치아종과 관련된 예가 보고된 바가 자주 있으며,<sup>10-13</sup> 법랑모세포섬유치아종과 연관된 증례도 보고된 바 있다.<sup>14</sup> 그러나 석회화치성낭에서 법랑모세포섬유종이나 치아종이 생성되는 것인지 그 반대의 경로인지에 대해서는 명확하지 않다. Praetorius 등은 석회화치성낭에서 치아종이 생성된다는 견해를 보였으나,<sup>6</sup> 홍 등은 이와 다소 상반된 견해로 치아종에서 함치성낭이 발생하는 것과 같은 방식으로 치아종에서 석회화치성낭이 발생한다고 제안한 바 있다.<sup>10</sup> 법랑모세포섬유치아종이 치아종 발생의 한 단계로 볼 수 있다는 것에 대해서는 대체로 일치하므로<sup>2,7-9</sup> 치아종에서 석회화치성낭이 발생하는 것과 유사하게 법랑모세포섬유치아종에서도 석회화치성낭이 발생할 가능성이 있음을 추측하여 볼 수 있다. 본 증례의 경우 대부분의 병소가 법랑모세포섬유치아종의 소견을 보이고 치배를 형성한 후 퇴축되어지는 치배낭의 법랑상피(reduced enamel epithelium)에서 국소적으로 낭성 변화를 보이면서 낭상피 주위 결체조직에 이형성석회화(dystrophic calcification)에 의한 다발성 석회화가 관찰되었으나 고배율의 광학현미경 상에서도 유령세포(ghost cell)로 여겨지는 특징적인 각화되고 석회화된 상피세포(keratinized and calcified epithelial cell)는 발견되지 않았다. 그러나 석회화치성낭에서도 낭상피 주위의 결체조직에 유사한 이형성석회화가 다발성으로



B

C

Fig. 3. A. Epithelial cords or islands are embedded in odontogenic ectomesenchyme (H & E, × 100). B. Immature tooth germ showed tall columnar ameloblast layer and primitive dental pulp (H & E, × 100). C. Epithelium is changed like that of calcifying odontogenic cyst (H & E, × 400).

나타나므로 본 증례의 낭성 석회화 변화는 석회화치성낭의 양상과 유사하다고 생각한다. 따라서 본 증례에서 석회화치성낭양 변화를 보였다는 점이 법랑모세포섬유치아종에서도 석회화치성낭이 발생할 가능성을 뒷받침해 주리라 생각된다.

본 증례는 임상적, 방사선학적, 그리고 조직병리학적 소견을 종합하여 볼 때 석회화치성낭양의 변화를 동반한 법

랑모세포섬유치아종으로 진단되었다. 또한 조직병리학적 양상으로 보아 법랑모세포섬유치아종에서 석회화치성낭이 발생할 수 있는 가능성을 보여주는 적절한 증례로 여겨진다.

### 참 고 문 헌

1. Philipsen HP, Reichart PA, Praetorius F. Mixed odontogenic tumours and odontomas. Considerations on interrelationship. Review of the literature and presentation of 134 new cases of odontomas. *Oral Oncol* 1997; 33 : 86-99.
2. Ozer E, Pabuccuoglu U, Gunbay U, Sarioglu S, Aktas S. Ameloblastic fibro-odontoma of the maxilla: case report. *J Clin Pediatr Dent* 1997; 21 : 329-31.
3. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. Berlin: Springer-Verlag; 1992. p. 16-21.
4. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquitt JE. Oral and maxillofacial pathology. 1st ed. Philadelphia: W.B. Saunders company; 1995. p. 527-8.
5. Howell RM, Burks EJ Jr., Hill C. Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. *Oral Surg* 1977; 43 : 391-401.
6. Langlais RP, Langland OE, Nortje CJ. Diagnostic imaging of the jaws. 1st ed. Malvern: Williams & Wilkins; 1995. p. 305-8.
7. Chan LR, Blum T. Ameloblastic odontoma, case report critically analyzed (Letter). *J Oral Surg* 1952; 10 : 169-70.
8. Slootweg PJ. An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors: ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and the odontomas. *Oral Surg* 1981; 51 : 266-76.
9. Takeda Y. Ameloblastic fibroma and related lesions : current pathologic concept, *Oral Oncol* 1999; 35 : 535-40.
10. Hong SP, Ellis GL, Hartman KS. Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72 : 56-64.
11. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: a possible separate entity (odontocalcifying odontogenic cyst). *J Oral Maxillofac Surg* 1994; 52 : 555-8.
12. Toida M, Ishimaru J, Tatematsu N. Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1990; 48 : 77-81.
13. Keszler A, Guglielmotti MB. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1987; 45 : 457-9.
14. Farman AG, Smith SN, Nortje CJ, Grottepass FWJ. Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibro-odontome: one lesion or two? *Oral Pathol* 1978; 7 : 19-27.