

하악에 발생한 법랑모세포섬유치아종

경희대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
강형욱 · 황의환 · 이상래

Ameloblastic fibro-odontoma of the mandible

Hyung-Wuk Kang, Eui-Hwan Hwang, Sang-Rae Lee

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyung Hee University

ABSTRACT

Ameloblastic fibro-odontoma is an extremely rare odontogenic tumor composed of proliferating ectodermal and mesenchymal components of odontogenic tissue, containing hard tooth structure. It occurs predominantly in children and young adults. The mandibular molar-ramus area is the most frequently observed location, presenting radiographically as a well-circumscribed and radiolucent-radiopaque tumor. A case involving a 24-year-old woman presenting with a large ameloblastic fibro-odontoma of the posterior mandible is reported. This case is of radiologic interest because two distinct calcification patterns were observed. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2003; 33 : 59-62)

KEY WORDS : jaw neoplasms; odontogenic tumors; fibro-odontoma, ameloblastic

법랑모세포섬유치아종은 외배엽성 간엽조직으로부터 유래되는 매우 드문 혼합성 치성 종양으로, 조직학적으로는 법랑모세포섬유종과 유사하나 종양조직 내에 법랑질이나 상아질을 형성하며, 법랑모세포치아종에 비해서는 좀 더 공격적인 성장양상과 높은 재발률을 보인다.^{1,3}

이 종양은 임상적으로 주로 20세 이전에, 여성보다는 남성에서, 상악보다는 하악에서, 특히 소 대구치 부위에서 호발하며,^{4,5} 대개 병소의 초기에는 임상증상을 보이지 않지만 이후 서서히 성장하여 안면 종창 등을 야기한다. 이 종양은 대개 경계가 명확한 단방성, 혹은 다방성의 방사선투과성 병소 내에 다양한 크기와 모양의 방사선불투과성 물질들이 산재되어 있는 방사선사진 소견을 보인다.^{2,5} 간혹 이 종양은 미맹출치나 매복치와 연관되어 발생되기도 하는데, 병소 내에 방사선불투과성 물질들이 관찰되지 않는 경우에는 합치성낭과 유사한 방사선사진 소견을 보이기도 한다.⁶ 조직병리학적으로는 발생 초기의 치수와 유사한 미성숙 섬유모세포로 이루어진 결합조직 성분, 치성 상피도를 보이는 외배엽성 성분, 그리고 불규칙적인 구조를 보이는 광화물 성분의 세 가지 요소로 구성되어 있다.⁷

저자들은 우측의 하악지와 하악체에 걸쳐서 발생되어 임상적, 진단영상학적 및 조직병리학적 소견으로부터 법랑모세포섬유치아종으로 진단된 증례를 경험하였기에 이를 보고한다.

증례보고

1. 임상 소견

24세 여성 환자가 우측 안면 종창을 주소로 본 병원에 내원하였다(Fig. 1). 수개월 전에 하악 우측 제2대구치의 통증으로 인한 치아 발거의 병력을 가지고 있었으며, 약 한 달 전부터는 하악 우측 대구치부위에 간헐적인 맥박성 동통과 치은 종창이 있었다고 한다. 구강 내 검사에서 하악 우측 대구치부위의 치은 종창과 함께 촉진시 압통과 국소적인 발열 증상이 있었으며, 정도의 개구장애를 보였다.

2. 진단영상 소견

파노라마 방사선사진 및 후전방 두부 방사선사진에서 우측 하악체로부터 하악절흔 하방 부위에 이르는 경계가 비교적 명료한 단방성의 병소가 관찰되었는데, 병소 내에는 상당히 많은 양의 방사선불투과성 물질이 산재되어 있었다. 이환측 하악 하연의 일부와 하악지의 협측 피질골판

접수일 : 2002년 11월 20일; 심사일 : 2002년 11월 21일; 채택일 : 2003년 1월 3일
Correspondence to : Prof. Sang-Rae Lee
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyung Hee University 1 Hoigi-dong, Dongdaemun-gu, Seoul 130-701, Korea
Tel) 82-2-958-9404, Fax) 82-2-965-1256
E-mail) sangrae@khu.ac.kr

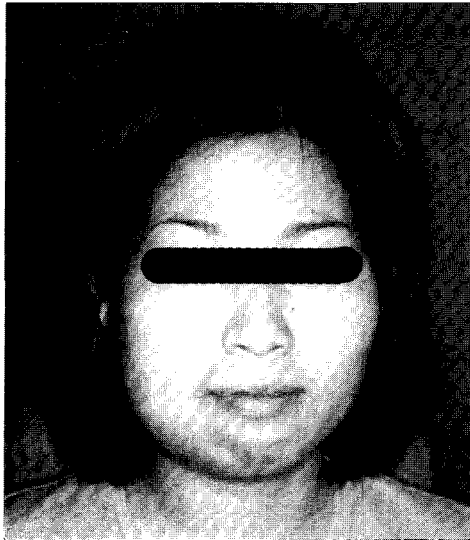


Fig. 1. A facial photograph shows the right facial swelling.

이 비박·팽윤되어 있었으며, 병소 인접부위에서는 하악 우측 제1대구치가 매복되어 있었다(Fig. 2). 전산화 단층사진에서는 이환측 하악체 부위의 병소 내에 침상의 방사선 불투과성 물질들이 방사상으로, 하악지 부위의 병소 내에서는 결절 형태의 방사선불투과성 물질들이 산재되어 나타났으며, 병소에 의한 협·설측 피질골판의 비박·팽윤 소견도 뚜렷하게 관찰되었다. 한편 병소와 매복 하악 제1대구치는 잘 분리되어 있었다(Fig. 3).

3. 조직병리학적 소견

조직병리학적 검사에서는, 전반적인 만성 염증세포의 침윤 소견과 함께 편평상피세포로 이장된 섬유결합조직 내에 여러 개의 치성 상피도가 국좌(rosette), 혹은 띠 모양으로 관찰되었으며, 다량의 과세포성 섬유결합조직 내에서도 치성 상피도가 형성되어 있었다(Fig. 4). 탈회 표본에서는 불규칙한 형태의 유사아질조직 내에 치수조직과 유사한

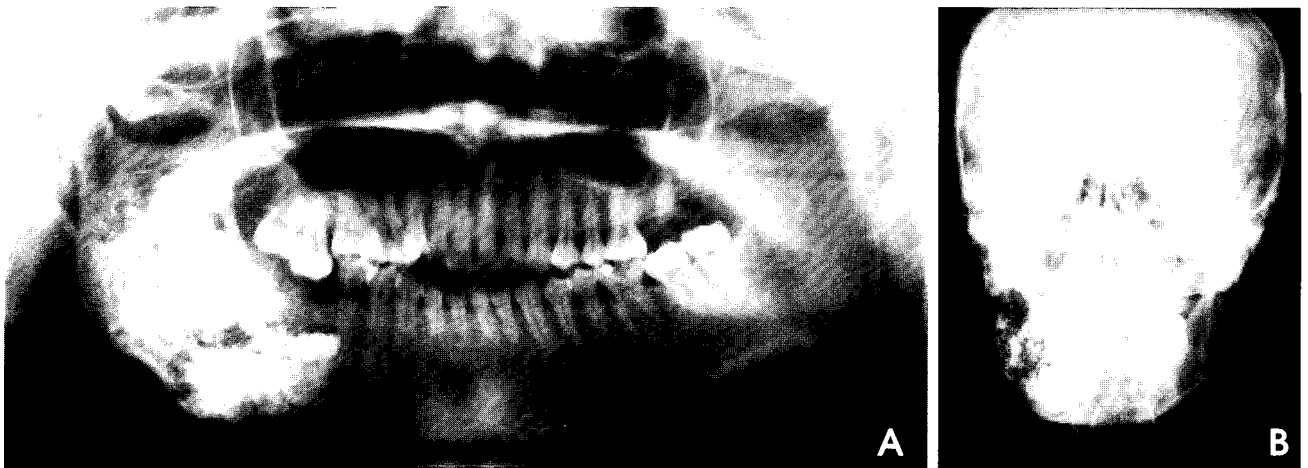


Fig. 2. Panoramic (A) and skull P-A (B) views show a large, well-defined, mixed radiopaque-radiolucent lesion on the right mandibular body and ramus. The first molar is impacted.

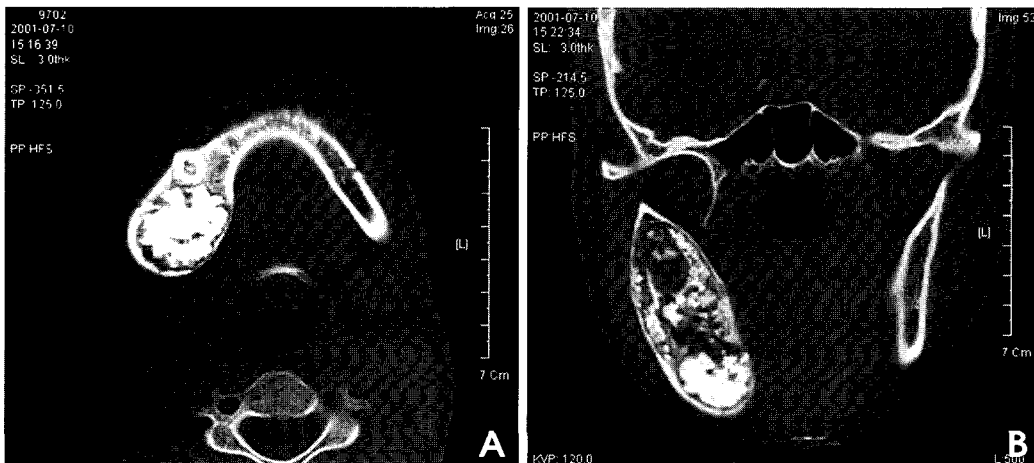


Fig. 3. Axial (A) and coronal (B) CT scans show high density nodules scattered in the lesion on the right mandibular ramus and high-density spicules radiating from center to periphery of lesion on the right mandibular body. Buccolingual expansion and thinning of cortex are evident.

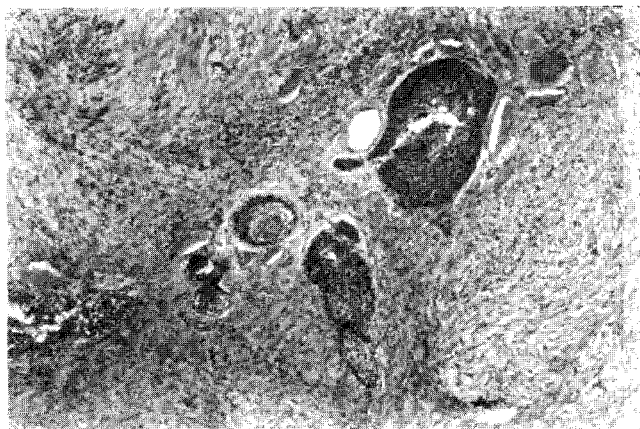


Fig. 4. A photomicrograph of the lesion shows hypercellular fibrous connective tissue containing stratified squamous epithelial islands (H&E stain, ×40).

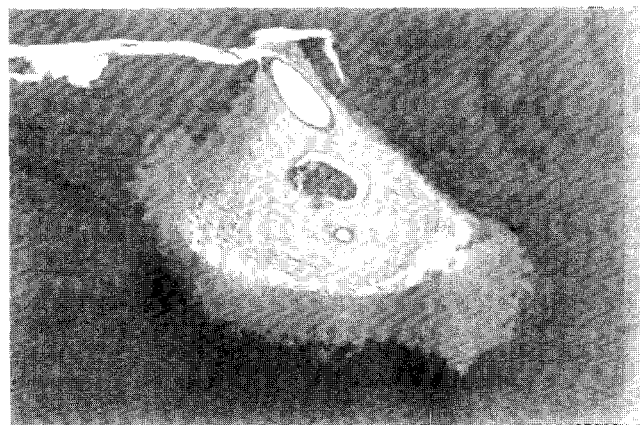


Fig. 5. A photomicrograph of the lesion shows irregular calcified dentinoid tissue containing fibrous connective marrow (H&E stain, ×100).

성긴 결합조직이 포함된 소견이 보였다 (Fig. 5).

고 찰

법랑모세포섬유치아종에 대하여, Evesole 등⁸은 법랑모세포섬유종, 법랑모세포섬유치아종, 그리고 복잡 및 복합치아종은 단지 이들 종양의 발육단계에 따른 조직학적 소견의 차이를 보이는 동일한 병소라고 보고한 바 있으나, Slootweg⁹는 이들 종양의 발생연령, 성별, 호발부위 등을 분석한 결과, 법랑모세포섬유치아종은 법랑모세포섬유종에 비해서는 평균 발생연령이 낮고 호발부위가 상이하지만, 복잡치아종과는 발생연령과 호발부위가 연관성을 보인다고 하였다. 따라서 Slootweg⁹는 법랑모세포섬유치아종은 신생물의 특성을 가지는 법랑모세포섬유종으로부터 분화될 수 없는

독립된 하나의 잘 분화된 치성 종양으로서, 이 종양은 파오종의 특성을 보인다고 하였는데, 1992년 WHO 분류²에서도 법랑모세포섬유치아종을 법랑모세포섬유종과는 다른 독립된 병소로 분류하고 있다.

법랑모세포섬유치아종의 평균 발생연령은 약 8.1세이며,⁹ 가장 흔한 임상 징후는 안면 종창과 치아의 맹출장애로 보고되고 있다.⁵ 본 증례에서도 우측 안면의 종창을 주소로 환자가 내원하였으며, 파노라마 방사선사진에서 맥복하악 우측 제1대구치가 관찰되었는데, 이는 병소에 의한 맹출장애로 추정된다. 그리고 경도의 개구장애와 함께 치은 종창과 간헐적인 맥박성 동통이 발현되었던 것은 발치와의 감염이 원인인 것으로 생각된다.

이 종양은 방사선사진에서 방사선불투과성의 명료한 변연으로 주위 건강조직과 경계를 이루는 단방성, 혹은 다방성의 방사선투과성 부위로 관찰되며, 대개 병소의 중심부에 다양한 양의 방사선불투과성 물질들이 산재되어 나타난다.^{2,5,9,10} Barnes¹¹는 석회화 물질의 존재 여부가 법랑모세포섬유치아종을 방사선학적으로 진단하는데 있어 특징적인 소견이며, 석회화 물질의 크기가 매우 작아 방사선사진 상에서 이들이 관찰이 되지 않는 경우에는 법랑모세포섬유종 등과의 감별진단이 매우 어렵다고 하였다. 본 증례는 비교적 경계가 명료한 방사선투과성 부위 내에 상당히 많은 양의 방사선불투과성 물질들의 산재를 보이는 파노라마 및 후전방 두부 방사선사진 소견과, 환자의 연령 등의 임상 소견으로 미루어 법랑모세포섬유치아종, 또는 석회화상피성치성종양으로 판독되었다. 이후 시행된 전산화 단층사진에서도 병소에 의한 협·설측 피질골판의 뚜렷한 비박·팽윤 소견과 함께 상당히 많은 양의 방사선불투과성 물질들이 관찰되었는데, 특징적으로 하악체 부위에서는 침상의 방사선불투과성 물질들이 방사선상으로, 하악지 부위에서는 결절 형태의 방사선불투과성 물질들이 산재되어 나타났다. Sumi 등¹²은 10-17세 사이의 어린이에서 발생한 4 증례의 법랑모세포섬유치아종의 전산화 단층사진에서 석회화 물질의 분포양상을 관찰하여, 석회화된 소결절들이 병소의 중심부나 주변부에 산재되어 나타나는 유형과 석회화된 침상체들이 병소의 중심부로부터 주변부로 방사선을 이루면서 마차바퀴 형태를 보이는 유형으로 각각 나타나는데, 이들 두 가지 유형은 종양의 발생 초기부터 각각 개별적으로 형성되는 것으로 생각된다고 보고한 바 있다. 또한 Dare 등¹³은 방사선학적으로 법랑모세포섬유치아종과 감별해야 할 주된 병소로는 선양치성종양, 석회화상피성치성종양, 석회화치성낭 등이 있으며, 이들 병소들은 전산화 단층방사선사진에서 다양한 형태의 석회화 물질들이 병소의 경계를 따라서, 또는 병소와 연관된 치아 주위에 산재되어 관찰되는데, 이러한 소견이 법랑모세포섬유치아종과 뚜렷이 구분되는 감별점이라고 하였다. 본 증례의 경우에도 Dare 등¹³이 보고한 선양치성종양, 석회화상피성치성종

양, 석회화치성낭 등에서의 석회화 물질의 분포양상과는 상이한 분포양상을 보였는 바, 이들 석회화물질의 병소 내에서의 분포양상은 법랑모세포섬유치아종과 이들 질환과의 중요한 방사선학적 감별점의 하나로 생각된다.

조직병리학적으로 법랑모세포섬유치아종은 법랑모세포섬유종의 특징적인 섬유결합조직과 복잡치아종에서 관찰되는 석회화 치성 조직으로 이루어진 치성 종양으로서,¹⁴ 본 증례에서도 법랑모세포섬유종에서 관찰되는 것과 유사한 섬유결합조직 내에서 다수의 치성 상피도가 관찰되었고, 탈회 표본에서도 불규칙한 형태의 유상아질조직 내에서 치수조직과 유사한 성긴 결합조직이 관찰되어 법랑모세포섬유치아종으로 최종 진단되었다.

법랑모세포섬유치아종의 경우 법랑모세포섬유종으로의 악성 변형이 보고된 바 있으나,³ 치료 후 재발이나 국소적인 침습을 보이지 않는 것으로 보고되고 있다.^{1,4} 본 증례의 치료로는 매복된 하악 우측 제1대구치의 발거와 함께 병소의 적출술이 시행되었으며, 술 후 6개월 동안 재발의 소견은 없었다.

참 고 문 헌

1. Hoffman S, Jacoway JR, Krolls SO. Intraosseous and parosteal tumors of the jaws. Bethesda: Armed Forces Institute of Pathology; 1987. p. 116-9.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. Berlin: Springer Verlag; 1992. p. 14.
3. Van der Waal I. Diseases of the jaws: diagnosis and treatment. Copenhagen: Munksgaard; 1991. p. 193.
4. Hooker SP. Ameloblastic odontoma, an analysis of 26 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1967; 24: 375-6.
5. Hansen LS, Ficarra G. Mixed odontogenic tumors: analysis of 23 new cases. Head Neck Surg 1988; 10: 330-43.
6. Sanders DW, Kolodny SC, Jacoby JK. Ameloblastic fibro-odontoma: report of case. J Oral Surg 1974; 32: 281-5.
7. Hawkins PL, Sadeghi EM. Ameloblastic fibro-odontoma: report of a case. J Oral Maxillofac Surg 1986; 44: 1014-9.
8. Evesole LR, Tomich CE, Cherrick HM. Histogenesis of odontogenic tumors. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1971; 32: 569-81.
9. Slootweg PJ. An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors: ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and the odontomas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1981; 51: 266-76.
10. Gardner DG. The mixed odontogenic tumors. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1984; 58: 166-8.
11. Barnes L. Surgical pathology of the head and neck. New York: Marcel Dekker; 1985. p. 1381-4.
12. Sumi M, Yonetsu K, Nakamura T. CT of ameloblastic fibroodontoma. AJR Am J Roentgenol 1997; 169: 599-600.
13. Dare A, Yamaguchi A, Yoshiki S, Okano T. Limitation of panoramic radiography in diagnosing adenomatoid odontogenic tumors. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1994; 77: 662-8.
14. 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.