

하악골에서의 치성각화낭과 편평치성종양의 동시 발현: 증례보고 및 면역조직화학적 연구

김성곤 · 최성석 · 송상훈 · 양병은 · 조병욱 · 박혜림* · 최제용**
한림대학교 의과대학 구강악안면외과학교실, *한림대학교 의과대학 병리학교실
**경북대학교 의과대학 생화학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2005;31:312-315)

SIMULTANEOUS OCCURRENCE OF AN ODONTOGENIC KERATOCYST AND SQUAMOUS ODONTOGENIC TUMOR IN THE MANDIBLE : A CASE REPORT AND IMMUNOHISTOCHEMICAL STUDY

Seong-Gon Kim, Seong-Seok Choi, Sang-Hun Song, Byoung-Eun Yang,
Byoung-Ouck Cho, Hye-Rim Park*, Je-Yong Choi**

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Sacred Heart Hospital, Hallym University, Kyoungkido, Republic of Korea

**Department of Pathology, Sacred Heart Hospital, Hallym University, Kyoungkido, Republic of Korea*

***Department of Biochemistry, School of Medicine, Kyungpook National University, Daegu, Republic of Korea*

A squamous odontogenic tumor (SOT) is rare disease and it is believed to originate from epithelial rests of Malassez of the periodontal membrane. Neither sex nor site predilection in either jaw has been established. Some lesion can be shown in juxtaposition in tooth roots. Although most lesions remain smaller than 2 cm, our cases involved a half of left mandibular ramus. The exact pathogenesis is still unknown. We report a case of SOT including the results of immunohistochemical study of pancytokeratin and p53.

Key words: Squamous odontogenic tumor (SOT), Immunohistochemical, Pancytokeratin, p53

I. 서 론

편평치성종양(squamous odontogenic tumor, 이하 SOT)은 상피 기원의 양성치성종양으로 치근막의 말라세즈 상피잔사 기원이며, 매우 드문 질환이다¹⁾. 성별 및 발현부위에 따른 호발 여부는 아직 정확히 알려진 바 없다. 드물지만 치근부에서 발견된 증례가 보고된 바 있다. 일반적으로 종물의 크기는 2cm 이하이나, 치성 종양과 같이 나타날 경우에 그 크기가 2cm 이상인 증례도 보고된 바 있다²⁾. SOT의 정확한 병인은 아직 알려지지 않았다.

SOT의 희귀성 때문에 pancytokeratin과 p53의 면역화학염색법 결과에 대해서는 거의 알려진 바가 없다. 다만 악성종양으로

변화된 SOT에서 p53 발현이 보고된 바 있어 p53이 진단학적 지표로 고려되어 왔다³⁾.

본 증례는 좌측 하악지에 발생한 intramural type의 SOT로써, 면역조직화학검사 결과를 문헌고찰과 더불어 보고하고자 한다.

II. 증례보고

2001년 12월 11일 하악골의 부종을 주소로 18세 남자 환자가 한림대 성심병원 구강악안면외과로 의뢰되었다. 환자는 내원 3주 전에 구타에 의한 외상으로 상기 주소가 발생하였으며, 개인 병원에서 어떠한 병적 사항도 발견하지 못하여 본원에 내원하였다. 부종은 가라앉지 않았으며, 방사선 사진 검사에서 좌측 하악지의 방사선 투과성 병소와 정중부의 골절이 발견되었다 (Fig. 1). 병소부의 제3대구치는 선천적 결손이었다. 낭종성 병소는 다방성으로 보였기 때문에 임상적으로 범랑아세포종으로 잠정 진단되었다. 수술은 전신마취 하에 통상적인 비기관 삽관을 시행한 후 구강내 절개로 시행되었다. 골절부는 통상적인 방식으로 정복 후 미니플레이트와 스크류를 이용

김 성 곤

431-070 경기도 안양시 동안구 평촌동 896번지
한림대학교 성심병원 구강악안면외과

Seong-Gon Kim

Department of OMFS, Sacred Heart Hospital, Hallym Univ.
#896, Pyungchon-Dong, Dongan-Gu, Anyang-city, Kyungki-do, 431-070, Korea
Tel: +82-31-380-3870 Fax: +82-31-387-2475
E-mail: epker@chollian.net

하여 고정하였다. 하악 좌측부의 낭종성 종물을 제거하기 위하여 하악지 부위에 reciprocating saw를 이용하여 창을 형성하였다. 두꺼운 상피로 이장되어 있었던 종물은 적출되었으며, 형성된 창에 피질골을 재부착하여 미니플레이트와 스크류로 고정하였다. 골절의 재발을 방지하기 위하여 개구제한을 2주간 시행하였다. 35개월의 추적 관찰기간동안에 재발양상은 없었으며, 수술 부위는 완전히 골화되었다. 광학 현미경 상에서 병소는 섬유조직 내 다수의 편평상피 섬으로 구성되어 있었으며, 상피 섬들 중 일부는 미세낭성 퇴화를 보였다(Fig. 2). 몇몇 상피 섬의 크기는 컸으며, 서로 분리되어 있었다. 범랑아세포종에서 일반적으로 보이는 원주세포 등을 발견할 수 없었으며, 석회화된 조직은 발견되지 않았다. 최종 진단은 SOT로 내려졌다. 면역조직화학 검사 시 Pancytokeratin(clones AE1/AE3/PCK26)에 대한 항체는 쥐에서 추출된 단일클론 항체를 사용하였고, 이는 ventana (Tucson, AZ, USA)에서 구매하였다. 그리고



Fig. 1. Radiograph showing a well-defined multi-locular radiolucency without the left mandibular third molar (arrow heads). The fracture line was visible in the parasymphysis area (arrow).

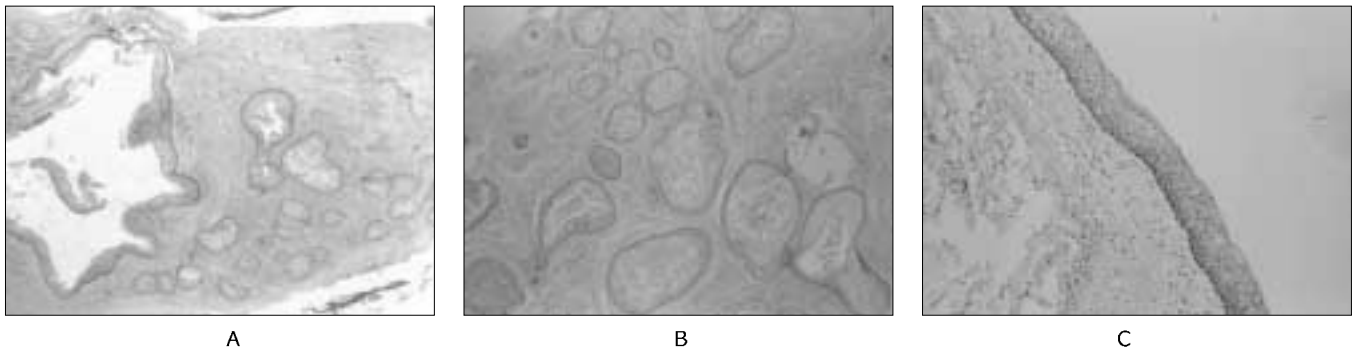


Fig. 2. (a) Simultaneous occurrence of an odontogenic keratocyst (*) and squamous odontogenic tumor (arrow) were observed. (Hematoxylin-eosin stain; original magnification $\times 10$). (b) Epithelial islands showing typical features of the squamous odontogenic tumor. (Hematoxylin-eosin stain; original magnification $\times 40$). (c) Some lining epithelium in large cystic cavity showing even thickness and parakeartization like the odontogenic keartocyst. (Hematoxylin-eosin stain; original magnification $\times 100$).

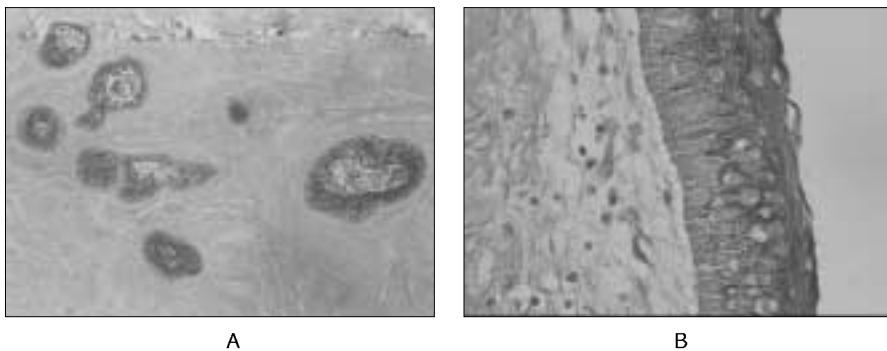


Fig. 3. Immunohistochemical findings to pancytokeratin. (a) All epithelial island showed pancytokeratin positive. (Mayer hematoxylin counterstained; original magnification $\times 40$). (b) The lining epithelium of large cystic cavity also showing the same pattern. (Mayer hematoxylin counterstained; original magnification $\times 400$).

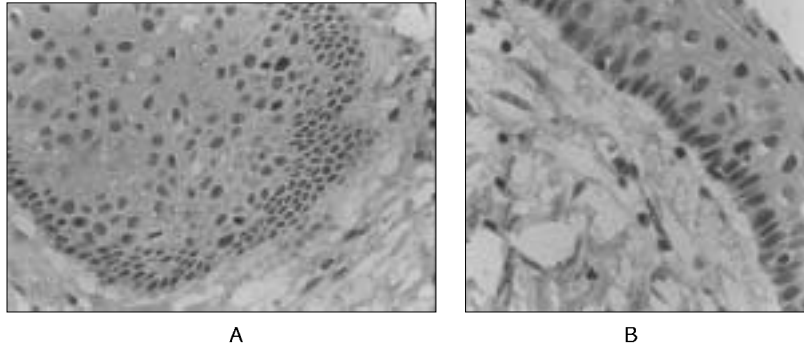


Fig. 4. Immunohistochemical findings to p53. (a) Some epithelial cells have p53 positive nucleus. (Mayer hematoxylin counterstained; original magnification $\times 400$). (b) The immunopositive to p53 was also observed in odontogenic keratocyst-like area. (Mayer hematoxylin counterstained; original magnification $\times 400$).

p53에 대한 항체 역시 단일클론 항체로 zymed(sanfrancisco, CA, USA)에서 구입하였다. 면역 조직화학 염색 기법은 저자 등의 이전 연구에서 사용된 방식으로 시행하였다⁴⁾. Mayer's hematoxylin을 이용하여 조직편을 역염색 하였으며, 모든 상피 구성 성분들은 pancytokeratin에 양성을 보였다 (Fig. 3). 그리고 상피 섬의 상부 기저층에서 매우 많은 양의 p53 양성 세포들이 관찰되었다 (Fig. 4).

III. 고 찰

SOT는 1975년 Pullon 등에 의해 첫 보고 되었으나¹⁾, 양성신생물인지 혹은 과오종인지의 여부를 명확히 밝혀내지는 못했다. 본 증례의 표본에서는 다수의 큰 낭종성 병소와 다발성 상피 섬이 관찰되었으며, 이러한 특성은 SOT의 mural type과 관련이 있다. Mural type의 SOT는 치성 낭의 벽에서 벽제성 성장을 하는 것으로 알려져 있으며, 상피내 SOT가 대표적인 예이다⁵⁾. 또한 몇몇 편평상피의 섬들은 낭성 퇴화를 보였으며, 방사선 사진 상 양성 상피성 치성종양 또는 치성 낭과 유사하게 보였다.

감별 진단으로는 첫째, 치성 낭을 고려할 수 있었다. 그러나 치성 낭은 본 증례 연구에서 관찰된 것과 같은 다발성 상피 섬을 갖지 않는다 (Fig. 1). 치성 낭은 편평상피 섬 같은 세포의 활성을 가질 수 있으나 거의 발현하지 않는다⁶⁾.

둘째, 법랑아세포종을 고려 할 수 있었다. 방사선 사진 상 법랑아세포종과 비슷한 비누거품형태를 보였으나, 다발성 상피 세포 섬이 법랑아세포종에서 보여지는 상피의 표제성 극화의 양상으로는 보여지지 않았다.

셋째, 석회화 상피성 치성종양을 고려할 수 있었다. (이하

CEOT) 대부분의 CEOT는 하악골의 후방에서 발견되고 다방성의 방사선 투과상을 보이나⁷⁾, 본 증례 연구에서는 CEOT에서 보여지는 석회화는 발견할 수 없었다. 감별 진단 될 수 있는 또 다른 질환으로는 선양치성종양, 각화성법랑아세포종, 상피화 치성 유령세포 종양, 법랑아세포 섬유종 등이 고려 될 수 있다.

Slootweg는 p53에 대한 면역 양성이 법랑아세포종, 치성각화 낭 그리고 치성암종에서 발견된다고 보고하였다⁷⁾. 그러나 Carvalhais 등은 치성종양과 낭에서는 p53에 대한 면역양성이 발견되지 않는다고 보고 하였다⁸⁾. 그러므로 치성종양에 대한 p53의 면역 양성은 아직까지 논란의 여지가 있다. Cytokeratin은 중배엽 기원의 종양으로부터 상피 기원의 종양을 감별진단 하기 위해 사용되어 왔으며, 특이성 있는 cyokeratin의 발현은 치성 종양의 감별에 도움을 준다. Cytokeratin 13은 법랑아세포종에 양성이며, cytokeratin 14는 선양치성종양에서 양성이나, CEOT의 상피성분은 vimentin에 양성이다⁹⁾.

SOT의 주된 치료법은 병소만 외과적으로 절제이며 재발은 드문 편이다²⁵⁾. 그러나 드문 경우에서 공격적인 진행양상을 보이기도 하며, 골내 편평세포암종으로 진행되는 SOT의 증례도 보고된 바 있다³⁾. 그 증례에서 p53은 치성 암종의 진단학적 지표로 이용되었다³⁾. 본 증례에서도 p53의 면역양성이 관찰 되었다 (Fig. 4). 많은 반응성 병소에서 p53의 발현은 유전자 변이의 결과라 볼 수 없다¹⁰⁾. 그것의 대부분은 생리적 표현형을 가리키는 것이다¹¹⁾. 본 증례에서는 아직까지 재발이 일어나지 않았으며, 악성으로의 전환은 일어나지 않았다. 그러므로 이번 증례에서 p53의 양성 발현은 치성 암종으로의 전환에 대해서 진단학적 유의성이 없을 수도 있다. SOT에서 p53의 발현을 관찰한 이전 연구가 미비하였기 때문에 본 증례 연구는 그 시발점이

될 수 있으며 보다 치밀한 추적 관찰과 더 많은 연구가 필요 할 것으로 사료된다.

참고문헌

1. Pullon PA, Shafer WG, Elzay RP, Kerr DA, Corio RL: Squamous odontogenic tumor. *Oral Surg* 1975;40:616-630.
2. Melrose RJ: Benign epithelial odontogenic tumors. *Semin Diag Pathol* 1999;16:271-287.
3. Ide F, Shimoyama T, Horie N, Shimizu S: Intraosseous squamous cell carcinoma arising in association with a squamous odontogenic tumour of the mandible. *Oral Oncol* 1999;35:431-434.
4. Rotaru H, Choi JY, Hong SP, Lee YC, Yun KI, Kim SG: Transforming growth factor- α and oral fibroma: immunohistochemical and in situ hybridization study. *J Oral Maxillofac Surg* 2003;61:1449-1454.
5. Wright JM: Squamous odontogenic tumorlike proliferation in odontogenic cysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1979;47:354-358.
6. Regezi JA, Sciubba JJ: Cysts of the oral region. In: Regezi JA, Sciubba JJ, editors. *Oral pathology. Clinical-pathologic correlations*. Philadelphia, PA: Saunders 1989:313-317.
7. Slootweg PJ: p53 protein and Ki-67 reactivity in epithelial odontogenic lesions. An immunohistochemical study. *J Oral Pathol Med* 1995;24:393-397.
8. Carvalhais J, Aguiar M, Araujo V, Araujo N, Gomez R: p53 and MDM2 expression in odontogenic cysts and tumours. *Oral Dis* 1999; 5:218-222.
9. Crivelini MM, de Araujo VC, de Sousa SO, de Araujo NS: Cytokeratins in epithelia of odontogenic neoplasms. *Oral Dis* 2003;9: 1-6.
10. Lombardi T, Odell EW, Morgan PR: p53 immunohistochemistry of odontogenic keratocysts in relation to recurrence, basal cell budding and basal-cell naevus syndrome. *Archs Oral Biol* 1995;40:1081-1084.
11. Hall PA, Lane DP: p53 in tumour pathology: Can we trust immunohistochemistry? Revisited! *J Pathol* 1994;172:1-4.