

상악동에 발생한 골화성 섬유종 : 증례보고

문철웅 · 김수관 · 김학균 · 김문수 · 하정완 · 최동국 · 김영종 · 윤정훈*

조선대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, *구강병리학교실, BK 21 Project

Abstract

OSSIFYING FIBROMA OF THE MAXILLARY SINUS : A CASE REPORT

Chul-Woong Moon, Su-Gwan Kim, Hak-Kyun Kim, Moon-Soo Kim,
Jeong-Wan Ha, Dong-Kook Choi, Young-Jong Kim, Jung-Hoon Yoon*

*Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, *Oral Pathology, BK 21 Project, College of Dentistry, Chosun University*

Ossifying fibroma is a rare, benign, fibro-osseous tumor of mesenchymal origin. It develops mainly in the mandible, where it is usually slow growing and asymptomatic, whereas in the maxilla and paranasal sinus, it is more aggressive. The vast majority are located in the posterior region of the mandible; however, ossifying fibroma involving the maxillary sinus is uncommon. It may reach a very large size and cause facial asymmetry. It shows a female predilection, and most cases are seen in the third and fourth decades of life. Radiographically, ossifying fibroma is radiolucent or radiopaque depending on the amount of calcification. Histologically, the tumor consists of a cementum-like or bony mass. Ossifying fibroma shares many histopathologic features with fibrous dysplasia. Their radiographic features may help to separate these entities when pathological differentiation is uncertain. It is important to differentiate ossifying fibroma from fibrous dysplasia. The treatment of ossifying fibroma involves its complete removal using curettage, enucleation, excision, or en bloc resection.

This case report presents an unusual case of ossifying fibroma of the maxillary sinus. We describe a Caldwell-Luc operation with a lateral window approach for excision of an ossifying fibroma of the maxillary sinus.

Key words : Ossifying fibroma, Maxillary sinus, Caldwell-Luc operation

I. 서 론

골화성 섬유종(ossifying fibroma)은 정상적인 골조직이 골양조직 또는 백악질양 조직으로 대체되며 천천히 성장하는 간엽기원의 드문 양성 섬유-골성(fibrous-osseous) 병소이다. 골화성 섬유종은 하악에 호발하며¹⁾ 대개 무증상이지만, 악골을 팽창시키며 때로 매우 큰 크기로 성장하여 안모의 비대칭을 초래한다. 이 종양은 주로 하악 구치부에 호발하고²⁾ 상악에 발생하는 경우는 드물지만 상악 또는 부비동에 발생하는 경우, 하악에 비해 공격적인 성향을 갖는다³⁾.

섬유-골성 병소에 대한 기술은 Miller⁴⁾에 의하면 Menzel이 1872년에 처음으로 언급했다고 보고한 바 있다. 섬유-골성 병소 중에서 골화성(ossifying)이라는 용어가 이때 문

헌에 처음으로 도입되었고, 1927년 Montgomery⁵⁾에 의해 현재와 같은 질병 분류에 포함시켰다. 골화성 섬유종은 섬유성 이형성증(fibrous dysplasia)과 유사한 병리조직학적 소견을 보인다⁵⁾. 그런 이유로 골화성 섬유종은 처음에는 섬유성 이형성증과 비슷한 섬유-골성 병소로 인식되었으나, 현재는 다른 병소로 분류, 감별하고 있다. 조직 소견만으로 골화성 섬유종과 섬유성 이형성증의 감별이 불확실한 경우 방사선 소견이 이 두 질환을 감별하는데 도움이 된다. 골화성 섬유종은 내부에 백악질 또는 골과 비슷한 석회화 물질을 포함하고 있으며 석회화 정도에 따라 방사선 사진에 완전한 방사선 투과상, 방사선 투과상과 불투과상이 혼재된 소견 또는 방사선 투과성 경계 내부에 완전한 방사선 불투과상 등의 다양한 소견을 나타낸다^{6,7)}.

※ 이 논문은 2005년도 두뇌한국 21 사업에 의하여 지원되었음.

상악과 부비동에 발생한 섬유-골성 병소 중에서 골화성 섬유종은 더 공격적인 성향을 가지며 종양의 완전한 제거가 요구되기 때문에 이 종양의 예후 및 치료방법을 확립하기 위해서는 다른 섬유-골성 병소, 특히 섬유성 이형성증과 감별하는 것이 중요하다.

본 증례는 상악동에 발생한 골화성 섬유종을 Caldwell-Luc operation의 방법으로 절제하여 양호한 결과를 얻었기에 보고하는 바이다.

II. 증례보고

26세 여성 환자가 좌측 상악동의 염증 치료를 주소로 내원하였다. 약 1년 반전부터 종창과 경결감 및 비강내로의 삼출물 유입 등의 임상 증상이 나타난 상태였으나 증상 발현 당시 임신 4개월로 적절한 치료는 이루어지지 않았다. 최근 1개월 전 동통이 발현되어 타병원 구강악안면외과에서 상악 좌측 제2소구치 및 상악 좌측 제1대구치 협착 치은 부에 배농술을 시행하고 drain으로 배농로를 유지한 상태



Fig. 1. Panoramic radiograph demonstrating the ground glass appearance of left upper posterior areas and root resorption of left upper second molar.

로 본원에 내원하였다. 환자는 좌측 협부에 미약한 부종이 존재하였고 파노라마 사진에 상악 좌측 제1 대구치는 결손된 상태로, 좌측 상악동을 포함하여 상악 좌측 제2 소구치와 상악 좌측 제2 대구치 사이에 간유리 모양(ground glass appearance)의 경계가 잘된 팽창성 병소가 관찰되었고 또한 상악 좌측 제2 소구치의 치근 흡수가 관찰되었다(Fig. 1).

Water 영상에서 좌측 상악동 부위에 증가된 방사선 불투과상을 나타내었고, 상악동 좌측 측벽 부위의 피질골 파괴양상이 관찰되어 정확한 진단을 위해 전산화 단층촬영을 시행하였다. Axial CT 소견에 좌측 상악동 내에 팽창성 병소가 관찰되었고 내측으로 비강까지 천공 양상을 보이며, 전방으로 상악동 전벽의 비박, 병소 경계부에서 피질골의 반응성 비후가 관찰되었다(Fig. 2). Coronal CT에서는 좌측 상악골과 상악동내에 병소가 관찰되며 상악 협착 피질골을 파괴된 양상을 보였다(Fig. 3).

병소 내부에 석회화 물질은 보이지 않았으며 임상적으로 골화성 섬유종으로 잠정진단하고, 전신마취 하에 Caldwell-Luc operation을 이용한 중물 적출술을 시행하기로 계획하였다. 비기관 삽관을 통한 전신마취를 시행한 후, 상악 좌측 구치부의 협착 치조골에 lateral window를 형성한 후 이를 통해 적출술 및 소파술을 시행하였다. 좌측의 하비갑개를 통한 비강 절개술(lateral rhinotomy) 후 혈액 및 삼출물 배출을 위한 nasal foley catheter를 상악동 내로 연결하고 vaseline gauze를 좌측 비공에 packing하였다. 환자는 수술 직후 폐부종(pulmonary edema)의 합병증이 발생하였으나 곧 호전되었고, 수술 12일 후 퇴원하였다.

병리조직학적으로 종양은 소용돌이 형태의 배열을 나타내는 방추형 세포들의 증식이 관찰되었고, 세포성 결합조직의 배경하에 골세포를 포함하는 다양한 형태의 불규칙한 모양의 석회화 물질과 골양조직이 서로 섞여 있었다(Fig. 4). 새



Fig. 2. Axial CT image of left maxillary sinus shows erosion into nasal cavity and thinning of the anterior wall of maxillary sinus and thickening of the posterior wall of cortical bone.



Fig. 3. Coronal CT image shows destruction of maxillary buccal bone, thinning and expansion of cortical bone into the nasal cavity and maxillary sinus.

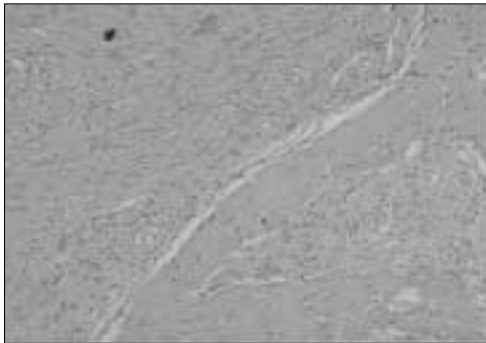


Fig. 4. Cellular bony trabeculae are present with in a background of cellular fibrous connective tissue (H-E, ×100).

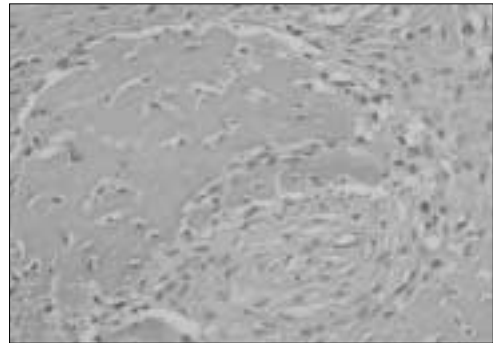


Fig. 5. Peripheral osteoid and osteoblastic rimming can be seen in the bony trabeculae (H-E, ×200).

로이 형성된 골 소주 주위로 골모세포들이 배열하는 osteoblastic rimming이 관찰되었다(Fig. 5). 이러한 조직학적 소견을 근거로 골화성 섬유종으로 진단하였다. 현재까지 수술 후 6개월의 추적 검사를 시행하는 동안 특이할만한 합병증이나 재발의 소견은 관찰되지 않는다.

Ⅲ. 고 찰

골화성 섬유종은 악골에 드물게 발생하는 양성 섬유-골성 병소이다. 이 종양은 하악에 호발(75%)하고 상악(10~20%)에는 낮은 빈도로 발생하며, 드물게 비강과 장골에서도 발생한다^{1,2,8)}. 골화성 섬유종은 모든 연령층에서 발생이 가능하지만 30, 40대(평균 연령 30세) 여성에서 호발하며, 성비는 Wenig 등⁹⁾은 5:1, Eversole 등²⁾은 1.5:1로 보고하였지만, Waldron¹⁰⁾은 여성에서 훨씬 호발한다고 하였다. 골화성 섬유종은 대개 무증상으로 완만하게 성장하며, 피질골을 팽창시켜 때로 안모의 비대칭을 초래한다. 하악에서 피질골의 팽창과 비박으로 인해 특징적으로 하악 하연의 하방으로의 "bowing" 현상이 발생하며 하악관의 변위가 관찰된다¹¹⁾. 흔히 인접치의 치근을 흡수하지 않으면서 인접치를 변위시키지만, Eversole 등⁷⁾은 인접치의 치근 흡수와 변위가 11% 정도로 흔하지 않다고 보고하였다. 잘 경계된 변연을 보이고 내부에 골양 조직 또는 백악질양 조직, 석회화 물질을 함유하며 이 석회화 물질의 포함 정도에 따라 다양한 방사선학적 소견을 보인다^{6,7)}. 이 중례에서도 방사선 소견이 단방성의 방사선 투과상으로 내부에 석회화 물질은 관찰되지 않았고, 치근흡수의 소견이 관찰되었다. 골화성 섬유종이 상악에 발생하는 경우, 하악에 비해 공격적인 성향을 갖는데 상악동의 골화성 섬유종은 피질골의 팽창 뿐만 아니라 안와, 상악동벽 등 주위 구조물을 침식시켜 방사선학적으로 피질골의 반응성 비후와 침식의 소견이 동시에 관찰되기도 하며, 임상적으로 비강의 폐쇄, 안구 돌출, 시각

장애등의 증상을 초래하기도 한다³⁾. 골화성 섬유종은 섬유성 이형성증과 비슷한 소견을 갖기 때문에 여러 문헌에서 이 두 질환을 감별하기 위한 감별 기준으로 병소의 경계, 조직 성분의 다양성, 골 성숙도의 차이, 골소주 주위의 osteoblastic rimming, 병소의 골소주의 형태 등 여러 기준을 제시하고 있다^{10,12~17)}. 병소의 경계는 골화성 섬유종을 감별하는 데 가장 신뢰할만한 기준이 될 수 있다. 골화성 섬유종은 병소와 인접 정상골이 잘 경계되어 있지만, 섬유성 이형성증은 인접 정상 골조직과 병소가 융합되어 있어서 미만성의 경계를 보인다^{10,15)}. 또한 골화성 섬유종에서는 석회화 물질의 정도에 따라 다양한 정도의 방사선 흑화도를 보이지만 섬유성 이형성증은 비교적 균일한 양상을 보인다. 골화성 섬유종은 양성 종양의 특징을 유지하며 지속적으로 천천히 성장하지만 섬유성 이형성증은 골격 성숙 정도에 따라 자기 제한적인 성장을 보인다^{16,18)}. 조직학적으로 조직 성분(골과 섬유조직의 비율, 광화의 정도)의 다양성 또한 골화성 섬유종을 진단하는 데 도움이 된다¹⁶⁾. 아울러 균일한 골-섬유조직 비율을 보이는 경우 섬유성 이형성증의 가능성이 높다. 섬유성 이형성증에서는 골소주의 osteoblastic rimming이 결여되어 있는 반면 골화성 섬유종에서는 많은 골모세포(osteoblast)에 의해 둘러싸인 소견을 흔히 관찰할 수 있다^{16,19)}. 골소주의 형태 또한 감별 기준이 된다. 섬유성 이형성증에서는 불규칙하고 C-shaped 또는 fish-hook-shaped 골소주가 관찰되며 골화성 섬유종에서는 작고 구형 또는 타원형의 골소주가 흔히 관찰된다¹³⁾. 골화성 섬유종과 섬유성 이형성증을 감별하기 위해 위와 같은 감별 기준이 제시되지만, 조직 소견 또는 방사선 소견 단독으로는 질환을 감별하기 어려운 경우가 있으며, 정확한 감별을 위해서는 조직, 방사선 소견, 절제된 조직의 전반적인 외형 등을 충분히 고려해야 한다. 골화성 섬유종의 전반적인 외형은 건조하고, 무혈관성이며, 노란색 또는 흰색을 띠며, 부드럽고 연한 성질, 치즈양 소견 또는

자갈이 섞인 모래와 같은 소견을 보인다²⁰⁾.

골화성 섬유종의 치료 방법은 외과적 절제이다. 병소의 크기가 작은 경우 적출술 또는 소파술을 통한 보존적 절제가 추천되며⁷⁾, 하악에서 적출술 후 재발율은 0%에서 28%로 보고된다^{2,12)}. 적출술 후 재발된 경우나 병소의 크기가 큰 경우, 특히 상악에서처럼 공격적이거나 빠른 성장을 보이는 경우에는 근치적 외과적 절제가 추천되며 병소의 재발율을 최소화하기 위해서는 en bloc resection 또는 partial resection이 수행되어야 한다^{21,22)}. 상악동에 발생한 골화성 섬유종의 수술 방법은 종양의 위치에 따라 달리 기술되기도 하는데, 종양이 상악동저에 위치하는 경우 변연골 절제를 동반한 Caldwell-Luc curettage¹⁷⁾, 종양이 상악동의 내측 벽에 위치하는 경우 내측 상악골 절제술을 동반한 lateral rhinotomy²³⁾, 재발된 상악 종양의 경우 total maxillectomy, 재발된 ethmoid tumor에서는 external ethmoidectomy가 추천되고, 경우에 따라 endoscopic resection을 시행한 증례도 있다^{3,24)}.

본 증례에서는 Caldwell-Luc operation을 이용하여 상악동에 발생한 골화성 섬유종을 적출술로 제거하였으며, 술 후 현재까지 추적 검사를 시행하는 동안 특이할만한 합병증이나 재발의 소견은 보이지 않고 있다. 현재 상악동내에 발생한 골화성 섬유종의 증례는 드물기 때문에 아직 상악에서의 재발율이나 예후에 대해서는 자료가 불충분하지만 상악에 발생하는 경우 주위 구조물과의 관계, 하악에 비해 공격적인 성향, 재발의 가능성이 있음을 염두에 두고 조기에 발견하여 적극적인 치료를 시행하고 주의 깊은 추적 검사를 시행한다면 좋은 결과를 얻을 수 있을 것으로 생각된다.

참고문헌

1. Bradley ES, Leeke D : Ossifying fibroma involving the maxilla and mandible. *Oral Surg* 26 : 605, 1968.
2. Eversole LR, Leider AS, Nelson K : Ossifying fibroma: a clinicopathologic study of 64 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 60 : 505, 1985.
3. Post G, Kountakis SE : Endoscopic resection of large sinonasal ossifying fibroma. *Am J Otolaryngol* 26 : 54, 2005.
4. Miller SI : Resident's page, pathologic quiz. *Arch Otolaryngol* 105 : 742, 1979.
5. Montgomery AH : Ossifying fibroma of the jaw. *Arch Surg* 15 : 30, 1927.
6. Su L, Weathers DR, Waldron CA : Distinguishing features of focal cemento-osseous dysplasia and cemento-ossifying

- fibromas: a clinical and radiologic spectrum of 316 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 85 : 540, 1997.
7. Eversole LR, Merrell PW, Strub D : Radiographic characteristics of central ossifying fibroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 59 : 522, 1985.
8. Choi YC, Jeon E, Park YS : Ossifying fibroma arising in the ethmoid sinus and nasal cavity. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 54 : 159, 2000.
9. Wenig BL, Sciubba JJ, Goldsterin MN, et al : A destructive maxillary cemento-ossifying fibroma following maxillofacial trauma. *Laryngoscope* 94 : 805, 1984.
10. Waldron CA : Fibro-osseous lesions of the jaw. *J Oral Surg* 28 : 58, 1970.
11. Yih WY, Pederson GT, Bartley MH Jr : Multiple familial ossifying fibromas: relationship to other osseous lesions of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 68 : 754, 1989.
12. Neville BW, Damm DD, Allen CM, et al : *Oral and Maxillofacial Pathology*. Philadelphia, WB Sanders, 1995, pp. 460-472.
13. Voytek TM, Ro JY, Edeiken J, et al : Fibrous dysplasia and cemento-ossifying fibroma: a histologic spectrum. *Am J Surg Pathol* 19 : 775, 1995.
14. Koury ME, Regezi JA, Perrot DH, et al : Atypical fibro-osseous lesions: diagnostic challenges and treatment concepts. *Int J Oral Maxillofac Surg* 24 : 162, 1995.
15. Slootweg PJ, Panders AK, Nikkels PGJ : Juvenile ossifying fibroma. An analysis of 33 cases with emphasis on histopathological aspects. *J Oral Maxillofac Surg* 24 : 162, 1995.
16. Slootweg PJ, Muller H : Differential diagnosis of fibro-osseous jaw lesions: a histological investigation on 30 cases. *J Craniomaxillofac Surg* 18 : 210, 1990.
17. Chong VFH, Tan LHC : Maxillary sinus ossifying fibroma. *Am J Otolaryngol* 18 : 419, 1997.
18. Slootweg PJ, Muller H : Juvenile ossifying fibroma: report of 4 cases. *J Craniomaxillofac Surg* 18 : 125, 1990.
19. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear J : *Histologic typing of odontogenic tumors*. World Health Organization, 2nd ed. Berlin Germany, Springer-Verlag, 1992.
20. Johnson LC, Yousefi M, Vihn TN, et al : Juvenile active ossifying fibroma: its nature, dynamics and origin. *Acta Otolaryngol Suppl (Stockh)* 488 : 1, 1991.
21. Kreutziger KL, Weiss LS : Ossifying fibroma: resection of recurrent mandibular lesion with microsurgical preservation of inferior alveolar nerve and immediate reconstruction. *South Med J* 87 : 653, 1994.
22. Sweet RM, Bryarly RC, Kornblut AD, et al : Recurrent ossifying fibroma of the jaws. *Laryngoscope* 91 : 1137, 1981.
23. Marvel JB, Marsh MA, Catlin FI : Ossifying fibroma of the mid-face and paranasal sinuses: diagnostic and therapeutic considerations. *Otolaryngol Head Neck Surg* 104 : 803, 1991.
24. London SD, Schlosser RJ, Gross CW : Endoscopic management of benign sinonasal tumors: a decade of experience. *Am J Rhinol* 16 : 221, 2002.

Reprint Requests

Su-Gwan Kim

Dept. of OMFS, College of Dentistry, Chosun University, 421, Seosuk-Dong, Dong-Gu, Gwangju, 501-825, Korea
Tel: 82-62-220-3815 Fax: 82-62-228-7316
E-mail: SGCKIM@mail.chosun.ac.kr

저자 연락처

우편번호 501-825
광주광역시 동구 서석동 421번지
조선대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
김수관

원고 접수일 2005년 3월 16일
게재 확정일 2005년 7월 4일

Paper received 16 March 2005
Paper accepted 4 July 2005