

## 사기질모세포 암종에서 수술 후 방사선치료의 역할: 증례보고

부산대학교 의과대학 방사선종양학교실\*, 구강악안면외과학교실†

김원택\* · 정인교† · 기용간\* · 남지호\* · 권병현\* · 김동원\*

사기질모세포 암종은 악골에 발생하는 치원성 악성 종양으로 매우 드물게 보고되고 있다. 양성질환의 임상양상을 보이기도 하지만 악골 및 주변조직을 침범해 궤양 형태를 보일 수 있으므로 보통은 조직검사를 통해서 진단이 내려진다. 이런 이유로 수술 절제가 충분치 못할 수 있어 국소재발이나 원격전이의 위험에 노출되게 되므로, 수술 후의 보조적 치료 또는 재절제가 중요하다고 할 수 있다. 저자들은, 하악에서 발생한 사기질모세포 암종의 환자에서 일차 수술 후 충분한 절제연을 얻지 못해 재발한 부위에 대해 재수술 후 재발 위험부위에 대한 보조적 방사선치료를 시행한 증례를 토대로, 최근의 문헌고찰을 통해 사기질모세포 암종 환자에서의 수술 후 방사선치료의 역할에 대해서 의견을 제시해 보고자 한다.

**핵심용어:** 사기질모세포 암종, 수술 후 방사선치료

하악에서 발생하는 대부분의 악성 종양은 구강에서 발생한 암종들에 의한 이차적 침범이나 타 장기에서 발생한 악성 종양들에 의한 하악골로의 원격전이에 의한 것이 대부분이다. 원발성 악성 종양은, 치원성(치아형성, odontogenic) 상피 잔유물에서 일차적으로 발생하기도 하지만, 사기질모세포종(ameloblastoma)이나 다른 양성 치원성 종양으로부터 악성세포로의 전환(transformation) 또는 변성(degeneration) 등을 통해서 발생하기도 한다.<sup>1)</sup>

사기질모세포 암종(ameloblastic carcinoma)은 치원성 상피 세포에서 발생하는 악성 종양으로 아주 드물게 보고되고 있다. 과거에는 악성 사기질모세포종(malignant ameloblastoma), 전이성 사기질모세포종(metastatic ameloblastoma), 원발성 치조골 내 표피양 암종(primary intraosseous epidermoid carcinoma) 등과 구분없이 명명되었으나 최근에 임상소견 및 조직검사에 근거해 사기질모세포 암종만을 따로 분류하게 되었다.<sup>2)</sup> 악성 사기질모세포종이 임상적 특징에 의해 분류되는 것에 비해 사기질모세포 암종은 조직학적으로 악성이라고 볼 수 있는 세포이형성(cellular atypia) 소견으로 진단이 가능하다.<sup>2,3)</sup> 이런 이유로 일부에서는 악성 사기질모세포종의 미분화 형태를 사기질모세포 암종으로 분류하기도 하였다.<sup>4)</sup> 사기질모세포 암종 및 악성 사기질모세포

종과 감별해야 하는 치원성 악성 종양들로는, 원발성 골내 암종, 투명세포 치원성 암종(clear cell odontogenic carcinoma), 악성 석회화 상피 치원성 종양(malignant calcifying epithelial odontogenic tumor), 치원성 유령세포 암종(odontogenic ghost cell carcinoma), 치원성 중간엽 기원 종양(tumor of odontogenic mesenchymal origin) 등이다. 그러나 모두가 드물게 발생하는 종양들이고 또한 각각의 조직학적 감별이 쉽지 않기 때문에 진단이 늦어지거나 오진 가능성이 존재하지만, 무엇보다도 원격전이나 타 구강종양의 이차적 침범에 의한 것이 아닌지를 우선 감별하는 것이 가장 중요하다.<sup>1,5)</sup>

전 세계적으로 아직 많은 자료가 갖추어지지 않은 현실 때문에 이 암종의 원인, 진행양상, 예후인자, 치료적 접근 등에 대한 이해가 부족한데, 특별히 종양 절제술 후 적절한 보조치료에 관해서는 아직 명확한 결론이 없다. 저자들은 최근에 하악에 발생한 사기질모세포 암종 1예의 진단 및 치료 경과, 그리고 추적관찰에 대한 보고와 함께, 비교적 최근에 보고된 타 증례 보고들에 대한 문헌고찰을 통하여, 수술 후 재발 위험요인들이 있는 경우에서의 보조적 방사선치료의 필요성에 대한 의견을 제시해 보고자 한다.

### 증례보고

환자는 특별한 과거병력이 없는 56세 남자로서, 3년 전 하악의 우측 앞니 2개에서의 심한 치통으로 발치를 받은

이 논문은 2005년 7월 19일 접수하여 2005년 8월 30일 채택되었음.  
책임저자: 김원택, 부산대학교 의과대학 부산대학교병원  
방사선종양학과  
Tel: 051)240-7383, Fax: 051)248-5747  
E-mail: rokwt@hanmail.net

병력이 있었다. 그 이후 상처회복이 더디고 간헐적인 통증이 지속되어 9개월 뒤 타 대학병원 구강외과를 방문하여 두 차례의 봉합술을 받았다. 증상의 호전이 없어 추가로 시행받은 이학적 검사 및 방사선학적 영상자료 등에서 잇몸 및 하악골에 골 결손을 동반한 궤양성 종괴가 발견되어 이 병변에 대한 절개생검(incisional biopsy)을 받았다. 조직학적 검사에서 하악골에서 발생한 사기질모세포 암종으로 진단되어 추가적인 검사 및 적극적 치료를 위해 전원되었고, 병기결정을 위한 이학적 진찰 및 추가 영상 촬영과 함께 생검자료 및 기존 영상자료들에 대한 재검토가 진행되었다.

이학적 진찰 상 우측 하악골 앞니 발치 부위에 골 결손이 의심되는 궤양성 병변이 보였고, 이 주변으로 압통 및

동통을 호소하였다. 구강 위생 상태가 좋지 못하여 구취가 심했으며, 촉진 시 우측 턱밑샘 부근에서 1 cm 미만의 림프절로 생각되는 종괴가 만져지면서 약간의 압통을 보였다.

하악 부분을 촬영한 X-선 파노라마 영상에서 하악골 결손으로 여겨지는 경계가 불명확한 방사선투과성 병변이 확인되었고(Fig. 1), 컴퓨터 단층촬영 영상에서는 턱끝결합(symphysis menti) 우측으로 하악골 파괴를 동반한 3×2 cm 정도의 연조직 종괴와 함께 우측 턱밑끝 림프절과 턱밑 림프절이 0.4 cm 및 0.6 cm 크기로 측정되었다. 하악골의 연조직 종괴는 구강바닥과의 경계가 명확하지 않았으며 조영증강 영상에서 불균질한 내부 소견을 보였다(Fig. 2). <sup>99m</sup>Tc-MDP를 이용한 전신 골스캔 영상에서 다른 부위에 비해 하악 주변부에 특별히 음영 증가소견은 없었고 관절 부위의 대칭적 음영 증가 외에 특이소견 없었다. 갈륨스캔 영상에서 우측 폐에서 갈륨섭취 증가 소견을 보였으나 흉부 가슴 X-선 촬영 사진과 흉부 컴퓨터 단층촬영에서 국소적인 기관지폐렴으로 판독되었다. 추가적인 정보를 얻기 위해 자기공명 촬영을 권하였으나 환자의 거부로 인해 영상자료를 얻지 못했다.

환자와의 상담에서 근치적 절제술 이전에 신보조 화학요법을 먼저 하기로 하고 두 차례에 걸쳐 Cisplatin(100 mg/m<sup>2</sup>)과 5-Fluorouracil (5-FU, 1,000 mg/m<sup>2</sup>)을 정맥주사하였다. 신보조 화학요법 후 진찰에서 약 20% 정도의 종괴 크기의 감소를 보였고 특별한 부작용은 없었다. 화학요법 1개월

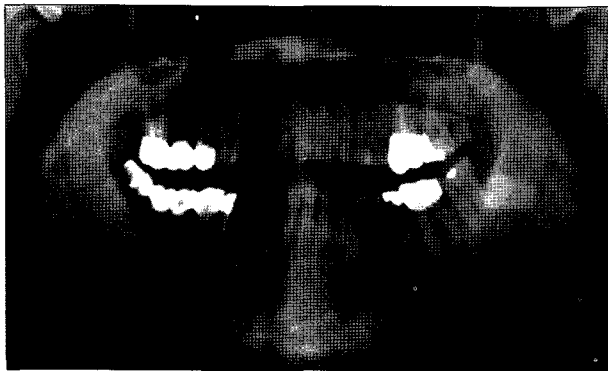


Fig. 1. Panoramic radiograph shows a radiolucent lesion in the right side of the mandible.

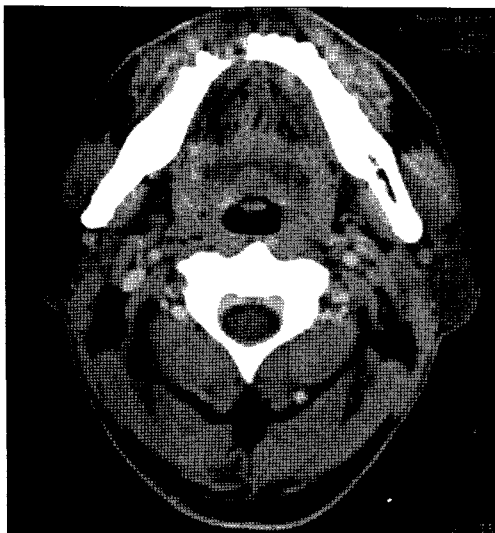


Fig. 2. CT image demonstrates bony destruction by soft tissue mass of the right mandible.

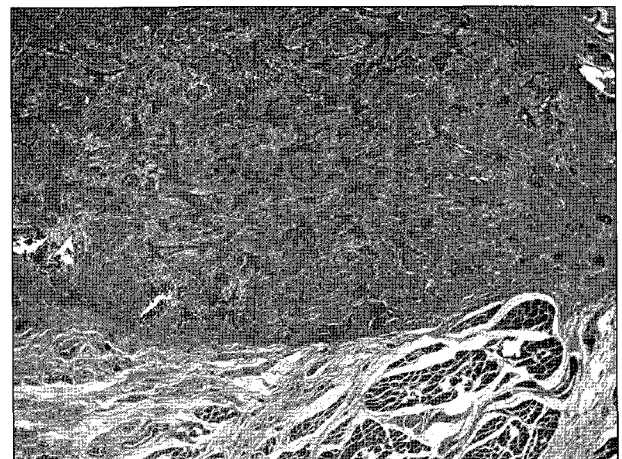


Fig. 3. Microscopic examination shows epithelial nests and cords which were composed of odontogenic-appearing cells and poorly differentiated basaloid cells among the collagenous stroma, and exhibits its extension into adjacent bony trabeculae with skeletal muscle (Hematoxylin and eosin stain, original magnification × 100).

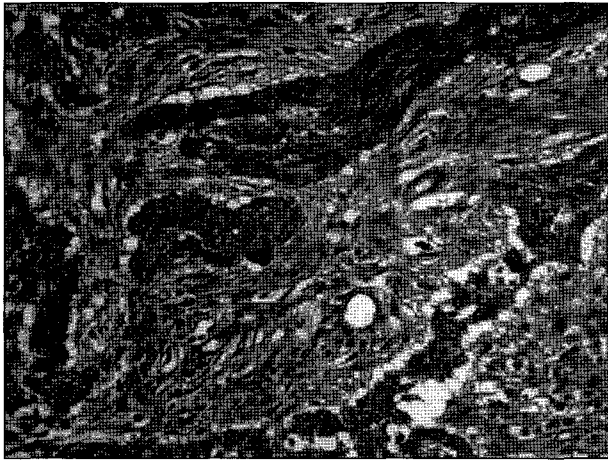


Fig. 4. Higher magnification shows tumor cells exhibiting overt cytologic atypia including pleomorphism, hyperchromatic nuclei, frequent mitotic activity, prominent nucleoli, and high nuclear-to-cytoplasmic ratio (Hematoxylin and eosin stain, original magnification  $\times 400$ ).

후 전신마취 하에서 모서리 하악골절제술(marginal mandibulectomy)과 함께 우측의 어깨목뿔위 목수술(supraomohyoid neck dissection)을 시행하였다.

수술로 절제된 조직의 병리학적 소견은, 갈색과 백색을 띠는 4×3 cm 정도의 연조직 종괴가 하악골과 함께 육안적으로 확인되었으며, 현미경적 소견으로는 사기질모세포를 닮은 상피세포들이 상피소(epithelial nest)를 이루며 주변 조직을 침범하고 있었고(Fig. 3), 각 상피세포들은 고배율에서, 핵/세포질 비율의 증가, 비정상적 유사분열의 증가, 뚜렷한 핵소체, 세포 다형성(cellular pleomorphism), 핵의 과염색증(nuclear hyperchromatism) 등 악성 세포임을 알려주는, 세포 이형성(cytological atypia) 소견을 보였다(Fig. 4). 이런 소견들을 종합하여 환자는 사기질모세포 암종으로 진단되었으며, 이전에 시행한 조직검사의 표본 재검토 결과와도 부합되었다. 목수술에 의해 확인된 4개의 림프절에서는 종양의 전이가 확인되지 않았으며, 신경주위 침범(perineural invasion)이나 림프-혈관 침범(lympho-vascular invasion)도 없었으나, 하악골의 외측 절제연과 병변측 턱밑샘의 외막에 암세포가 침범된 것으로 최종 확인되었다.

환자는 수술 후 약 1개월 뒤에 수술 부위에 낭종으로 생각되는 새로운 병변이 발견되어 생검 결과 점액낭종(mucocele)으로 확인되었다. 생검 확인 뒤 바로 Cisplatin (100 mg/m<sup>2</sup>)과 5-FU (1,000 mg/m<sup>2</sup>)으로 보조 화학요법을 1회 받고 2~3개월 단위로 주기적 진찰 및 대증치료를 받던 중, 1년 뒤에, 이전 수술 받은 하악골의 외측 절제연 부근에서 케양성 병변이 발견되었고 파노라마 사진에서도 우측 큰어



Fig. 5. Postoperative five-field intensity-modulated radiation therapy (IMRT) dose distribution after local excision for the recurrent tumor.

금니 부근의 하악에서의 골 흡수 소견이 확인되었다. 국소 재발이 의심되어 병변과 주변의 일부 하악골을 포함하는 국소 절제술(local excision)을 시행한 결과, 사기질모세포 암종의 재발로 확인되었고 암세포의 구강 쪽 절제연 침범이 있었다. 2개월 간 수술 상치치료 후 방사선치료를 위해 방사선종양학과에 의뢰되었다.

방사선치료에 관해 환자와의 상의 하에, 정상부위의 방사선피폭을 최소화하면서 병변부위와 병변측 경부 림프절 일부를 조사하기로 결정하였고, 정밀한 치료를 위해 세기조절 방사선치료(intensity-modulated radiation therapy, IMRT) 방법을 이용하여 병변부위(수술영역을 포함한)와 반지연골(cricoid cartilage) 상부의 병변측 경부 림프절에 각각 66 Gy (2.0 Gy/1회), 54.12 Gy (1.64 Gy/1회)를 33회에 걸쳐 조사하였다(Fig. 5).

세기조절 방사선치료는 컴퓨터단층촬영-모의치료기(CT-simulator)로 영상 자료를 얻고서, 여기에 임상표적체적(clinical target volume, CTV)과 계획용표적체적(planning target volume, PTV), 그리고 주위의 정상조직(척수, 뇌줄기, 반대편 귀밑샘, 반대편 턱밑샘, 아랫입술 등) 등의 윤곽표시(contouring)를 한 뒤, 표적체적과 정상조직에 적절한 치료선량 및 허용선량을 정하였다. 임상표적체적은 수술영역이 포함된 병변에 1~2 cm 정도의 안전 범위를 확보하였는데, 특히 하악골 가지(ramus) 부근의 경계부위와 구강 및 구강바닥 쪽의 안전범위를 상대적으로 더 넓게 하였다. 임상적

표적체적에서 1~1.5 cm 정도의 범위를 포함하여 계획용 표적체적을 설정하였고 여기에는 반지연골 상부의 병변측 경부 림프절도 포함시켰다. 척수, 뇌줄기, 반대편 귀밑샘 등의 정상조직은 윤곽표시 과정 중에 계획용위험조직체적(planning organ at risk volume, PRV)의 개념으로 1~5 mm 정도의 안전범위를 포함시켰다. 고에너지 선형가속기에서 나오는 6 MV X-선을 사용하기로 하고 빔방향상(beam's eye view, BEV)을 고려하여 모두 5개의 빔방향을 설정하였고, 척수와 뇌줄기 보호에 가장 큰 가중치를 주었고 표적체적의 적정선량 분포에 두 번째 가중치를, 그리고 반대편 침샘을 포함한 주위 정상조직의 보호에 가장 낮은 가중치를 두었다. 표적체적에는 최대선량이 115%가 넘지 않도록 하였으며 최소 95%의 선량이 들어가도록 하였다. 위의 자료들을 역방향방사선치료계획 시스템(inverse radiation therapy planning system)으로 선량계산을 하여 임상표적체적에 66 Gy, 계획용표적체적에 54.12 Gy가 조사되면서 정상조직들에는 허용선량 이하로 조사되도록 선량분포 곡선을 구하였다. 방사선조사는 동적다엽콜리메이터(dynamic multi-leaf collimator, DMLC)를 이용한 sliding window technique이 이용되었다.

환자는 방사선치료 중 약 3주째부터 구강, 구인두 및 입술 내측으로 방사선점막염이 발생하여 국소동통, 연하통, 구강건조감, 기침, 식욕부진 등을 호소하였으나 대증적 치료로 인해 치료 5주째부터 호전을 보였다. 방사선치료 기간은 총 50일이었으며 치료기간 중 치료를 중단할 만한 특별한 일은 없었다. 치료 종결 후 매달 방사선종양학과 또는 구강악안면외과 외래에서 추적관찰하였고, 현재까지 1년 2개월째 무재발 상태로 생존 중이다. 방사선치료 종결 후 3개월, 6개월 및 1년째 재발 확인을 위해 자기공명촬영을 권하였으나 환자의 거부로 인해 컴퓨터단층촬영을 하였고, 관독 상에서 재발 소견은 없었다. 매 진찰 시에는 문진, 이학적 검사와 함께 필요에 따라 파노라마 영상같은 치과용 X-선 촬영을 하였고, 6개월과 1년째에 혈액검사와 소변검사, 그리고 흉부 X-선 촬영 및 간초음파, 전신골스캔 등을 시행하였으나 원격전이와 같은 특별한 소견은 없었다. 방사선치료 종결 후 1개월째 방사선 점막염은 소실되었으며, 6개월째 구강건조증도 상당히 호전되어 말할 때나 식사할 때 불편을 느끼진 않는 정도였으며, 1년째 반대편에 비해 병변측 침 분비에서 좀 차이가 나는 것 같다는 환자의 의견이 있었으나 이에 대한 객관적인 평가는 하지 못했다.

## 고 찰

사기질모세포 암종은 치원성 종양 중에서도 아주 드물게 보고되는데, 이런 이유에서 이 종양의 생물학적 성질에 대해 이해가 부족한 것이 현실이다. 지금까지 알려진 바로는, 상악골보다 하악골에서 빈발하며, 전 연령층에서 발생할 수 있고, 특별히 성별이나 인종에 따른 차이는 없는 것 같다.<sup>6)</sup>

개별적 종양세포들은 현미경 하에서 사기질모세포를 닮았으나 악성 세포들의 특징인 세포 이형성을 보인다. 육안적 양상은 매우 다양하게 보고되고 있는데, 양성질환처럼 보이는 낭종 형태에서부터, 궤양, 골 흡수, 치아동요(tooth mobility) 등을 동반하는 광범위한 연부조직 종괴 형태까지 여러 모습을 보일 수 있다.<sup>1,6,7)</sup> 그러나 임상적 소견은 대부분 공격적이며 주변 조직의 파괴를 동반한 광범위한 침습을 보이고, 림프절 전이나 타 장기로의 원격전이에 대해서도 보고되고 있다.<sup>6-9)</sup>

치료에 관해, 최근까지 보고된 여러 증례들을 살펴보면, 안전범위를 포함한 광범위한 국소 절제술이 필요하다는 것과, 경부 림프절 침범이 의심될 때 치료목적이나 예방목적의 목수술(neck dissection)을 추가하는 것에 대해서는 대체로 이견이 없는데, Datta 등<sup>8)</sup>은 하악골 주변으로 1~2 cm 정도의 안전범위를 포함한 근치적 수술로 국소재발률을 15% 이내로 줄일 수 있다고 하였다. 국내의 한 증례 보고에서는 광범위한 하악 절제술 후 절제연 침범이나 신경주위 또는 림프-혈관 침범 소견이 확인되지 않아 보조치료를 하지 않은 환자에서 추적관찰 기간동안 재발이나 전이를 확인할 수 없었다고 하였고,<sup>10)</sup> Sastre 등<sup>11)</sup>은 상악에 발생한 사기질모세포 암종 환자에서 임상 자료를 근거로 상악부분절제술 및 재건술만을 시행한 후 추가 보조치료 없이 2년간의 추적관찰에서 재발이 없었다고 하였다. 이렇게 광범위 국소 절제술 후 조직검사서 국소재발의 위험이 없다고 판단되는 경우는 보조적인 치료를 추가하지 않더라도 일정 기간 국소제어에 성공하는 것으로 보고되고 있지만, 초기 진단 당시에 주변 조직으로의 광범위한 침윤이 있었던 경우들이나 수술 후 두경부 종양에서의 일반적인 재발 위험인자들이 확인되는 경우들에서는 근치적 치료에도 불구하고 국소재발이나 원격전이로 인한 치료실패를 반드시 고려해야 한다.<sup>1,5,7)</sup>

그러나 현재까지 사기질모세포 암종으로 보고된 증례 수가 많지 않고, 각각의 증례의 치료방법들도 상이하여 재발 및 원격전이의 위험을 내재한 환자들에 대한 수술전후

의 적절한 보조치료에 대해서는 논쟁의 여지가 있는 것이 사실이다. 특히 수술 전 치료에 대한 자료는 아주 부족한데, 저자들의 증례에서 수술 전 신보강 화학요법이 큰 효과를 보지 못한 점을 미루어 볼 때, 근치적 수술이 가능하다고 판단되는 경우들에서는 수술 전 보조치료보다는 수술 후 치료를 고려하는 것이 아직은 타당할 것이다. 수술 후 보조치료의 필요유무를 결정하기 위한 재발 위험인자들로 생각되는 것들은, 다른 두경부 암종들의 경우처럼, 광범위한 주변 조직으로의 침습이 동반된 큰 종양인 경우, 절제연에서 종양세포 침범이 있는 경우나 근접한 경우, 또는 절제연 침범여부를 알 수 없는 경우, 신경주위 침범이나 림프-혈관 침범이 있는 경우, 그리고 여러 개의 경부 림프절 침범이 있는 경우나 림프절 피막외 침습이 있는 경우 등을 들 수 있겠다. 저자들의 증례에서도 일차 절제술 후 절제연에 종양세포의 침범이 확인되었으나 1회의 보조 화학요법 외에 적극적인 추가치료를 하지 않고 추적관찰 중 1년 뒤 절제연 부근에서 재발이 확인되었듯이, 사기질모세포 암종의 일반적인 침습적 임상양상을 고려할 때 근치적 절제술로 완전절제가 힘들 수 있으므로 수술 전후의 자료를 근거로 재발의 위험이 있는 경우에는 방사선치료나 항암화학요법과 같은 적극적인 보조치료를 고려하는 것이 필요하겠다. 그러나 이런 적극적인 보조치료에 대해서 각 증례마다 치료방법에서 차이를 보였고, 치료에 대한 상세 설명이 부족했으며, 특히 보조적 방사선치료에 대해서는 보고자마다 그 의미에 대해서 다른 의견을 제시한 경우가 많았다. 그래도 몇몇 최근의 증례 보고들을 살펴보면, 수술 후 재발 위험인자가 확인되는 경우 보조적 방사선치료를 추가한 환자들에서, 원격전이 위험도를 떠나, 국소재발률이 낮음을 알 수 있었다.

Goldenberg 등<sup>1)</sup>은 2예의 사기질모세포 암종의 수술 후 방사선치료 결과를 보고하였는데, 1예는 부분절제술 후 방사선치료를 하였으나 국소재발 및 뇌전으로 사망하였으나, 다른 한 예에서는 근치절제술 후 조직검사서 신경주위 침범이 확인되어 추가로 방사선치료를 받고서 3년간 재발이나 전이가 없었다고 하였고, Simoko 등<sup>5)</sup>은 우측 하악에서 발생하여 반대편 조직까지 광범위하게 침범한 1예를 보고하였는데, 광범위한 국소 절제술 및 변형 근치목수술(modified radical neck dissection)을 한 뒤, 빠른 성장 및 광범위한 침범 등의 위험요인으로 원발부위와 양측 경부 림프절에 54 Gy의 수술 후 방사선치료를 하였다. 추적관찰 중 국소부위 재발은 없었으나 11개월째 우측 폐 및 종격동에 전이가 발견되었고 이후 연속적으로 양측 폐, 흉벽, 뇌 등에 원격전이가 진행되어 28개월째 사망하였다. 그리

고 하악에서 발생한 사기질모세포종으로 국소 절제술을 받은 12년 뒤 사기질모세포 암종이 다시 발병된 환자에서, 국소 절제술 및 병변측 근치목수술 후 60 Gy의 방사선치료를 받은 뒤 2년간 국소재발 및 원격전이가 없었다는 보고도 있다.<sup>12)</sup>

과거 일부 논문들에서, 전이성 사기질모세포종이나 양성 사기질모세포종에서의 방사선치료 경험을 바탕으로, 또는 아주 공격적인 사기질모세포 암종 환자의 수술 후 방사선치료 성적 등을 토대로, 사기질모세포 암종에서의 방사선치료의 역할에 부정적인 내용들을 이야기하기도 하였으나,<sup>3,10,13)</sup> 이는 적절한 자료를 바탕으로 주장한 내용들이 아니며, 특히 일부 방사선치료를 시행한 증례들은 질병의 진행이 상당히 빨라 국소재발보다는 원격전이로 환자가 사망한 경우들이었으므로 무조건적으로 방사선치료가 효과가 떨어진다고 말할 수는 없다. 사기질모세포종이나 사기질모세포 암종이 방사선저항성을 보인다는 직접적인 실험 연구가 없는 상태이지만, Atkinson 등<sup>14)</sup>은 10명의 사기질모세포종 환자에서 방사선치료 단독 또는 수술과의 병합요법을 시행한 결과 방사선치료 단독군의 1명에서만 재발을 보였고 이 환자도 구제수술로 궁극적 국소제어에 성공하였다고 보고하면서, 사기질모세포종은 유전적 방사선저항성 종양이 아니므로 방사선치료가 중요한 역할을 할 수 있다고 하였으며, 특히 근치적 절제가 어려운(광범위한 침습이 있는 경우나 내과적 질환이 동반된 경우) 환자들에서 일차적 치료로 이용될 수도 있다고 주장하였다. Goldenberg 등<sup>1)</sup>은 악성 치원성 종양에 대한 22년간의 경험을 소개하면서, 신경주위 침범이 있거나 광범위한 연부조직 침범이 있는 경우엔 방사선치료가 유용할 수 있으므로 고려해야 한다고 하였고, Dhir 등<sup>15)</sup>은 상악에서 발생한 사기질모세포 암종의 증례들을 분석한 임상보고에서 절제연 침범이나 신경주위 침범 소견이 보이는 경우 보조적 방사선치료가 도움이 될 것이라고 주장하였다. 사기질모세포 암종 환자의 종괴의 조직에서 상당부분 사기질모세포종 소견이 동반되는 것을 고려한다고 하더라도 사기질모세포종이나 사기질모세포 암종 환자에서의 방사선치료가 의미없다고는 할 수 없을 것이다.

방사선치료 선량에 대해서, Datta 등<sup>8)</sup>은 사기질모세포종에서 합병증과 2차성 암발생 등을 고려하여 30~50 Gy를 권하였고, 사기질모세포 암종의 증례들에서는 54~60 Gy 정도를 수술 후 보조적 치료로 조사하였다. 사기질모세포 암종의 조직 구성상 사기질모세포종과 악성 암종 세포들이 혼재되어 있는 양상을 보이므로 수술 후 방사선치료 선량은 50~60 Gy가 타당할 것으로 생각한다. 특히, 수술 후

조직검사에서 절제연 침범이나 신경주위 침범, 광범위한 주변 조직 침습을 동반한 큰 종양 등에서는 60 Gy 이상의 방사선조사가 필요하지 않을까 추정하며, 경부 림프절의 방사선치료에 대해서는 두경부종양에서의 경부 림프절조사의 일반적 원칙을 따라 선량을 결정하는 것이 좋겠다. 사기질모세포 암종의 경우에 국소재발 자체가 원격전이나 환자의 생존과 직접적인 연관관계가 있는지에 대한 확실한 것이 없으나, 빠른 진단 및 적극적인 보조치료를 염두에 둔 근치적 절제술이 재발률 및 생존율에 긍정적인 결과를 가져오리라는 것은 다른 부위의 암종들의 치료에서 익히 알려져 있으므로, 재발위험이 있는 경우, 보조치료에서 좀 더 공격적인 치료법들을 개발할 필요가 있다고 생각된다.

방사선치료 범위가 구강 부위라서 급만성 합병증을 고려해 고선량의 방사선치료가 힘들 수도 있으나, 최근에 개발된 3차원입체치료나 세기조절방사선치료 설계를 통하여 합병증은 줄이면서도 재발위험이 높은 부위에 많은 양을 조사할 수 있으므로 이를 적극적으로 활용하는 것이 좋겠다. 저자들의 증례에서도 병변부와 경부 림프절의 방사선 치료에 세기조절방사선치료를 이용한 결과 66 Gy의 높은 선량을 조사하면서도 치료 후 특별한 합병증을 확인할 수 없었다. 그러나 발생빈도가 높은 종양이 아니므로 선량-반응 관계(dose-response relationship)를 명확히 알기는 힘들었고, 다만 기존의 두경부 암종 또는 골-연부조직 종양의 방사선치료 자료에 근거해서 선량을 결정하는 것이 현재로서는 가장 타당하겠다.

항암화학요법에 대해선, 과거 사기질모세포종의 치료에 cisplatin, adriamycin, cyclophosphamide 등을 사용해서 효과를 보았다는 보고가 있으나,<sup>16)</sup> 사기질모세포 암종의 보조적 치료로 시도된 경우는 흔하지 않은데, 수술 및 방사선 치료 후 원격전이를 보이는 환자에서 cisplatin, adriamycin, methotrexate, leucovorin 등으로 구제치료를 했으나 좋은 결과를 얻지 못했다는 문헌이 있다.<sup>8)</sup> 저자들의 증례에서도 수술 전 신보강 치료로 cisplatin과 5-FU로 2차례의 항암화학요법 후 20% 정도의 종양감소를 보였을 뿐, 수술 시의 안전범위 확보에 긍정적 영향을 주지 못했으며, 1차례의 수술 후 보조적 화학요법을 시행했으나 이도 국소재발을 막지 못했다. 사기질모세포 암종의 화학요법에 대해 아직 자료가 부족하며, 저자들의 경우에서도 충분한 화학요법이 이루어진 것이 아니라 아직은 명확한 결론을 내기는 어려우나, 국소재발 외에 원격전이의 위험성을 줄이기 위해서라도 화학요법은 필요하다고 생각되며, 적절한 약제종류, 시기, 용법-용량 등에 대해서는 앞으로 좀 더 폭 넓은 연구

가 진행되어야겠다.

여러 증례보고들에서, 각각의 추적관찰 기간의 차이나 상세한 설명부족 때문에 재발이나 원격전이가 나타나게 되는 시점이나 위험인자들에 대한 명확한 의견을 제시하기에는 어려우나, 원발 종양이 주위 조직으로의 광범위한 침범을 보이는 경우들에서 중-장기간의 추적관찰 중 경부 림프절, 폐, 뇌, 뼈 등으로의 전이의 위험도가 증가할 수 있다는 결론을 얻을 수 있으므로<sup>17-9)</sup> 치료 종결 후에도 10년 정도의 진찰 및 영상 검사가 필요하다고 생각되며, 앞으로 좀 더 많은 환자자료의 정리와 함께 분자생물학적, 조직면역학적 연구들이 병행되어야 할 것이다.

저자들의 증례는, 사기질모세포 암종으로 진단 후, 신보조 화학요법을 두 차례 시행하였으나 수술 후 조직검사에서 하악골 외측 절제연에서 종양세포 침범이 확인되었던 경우로, 보조 화학요법 1회 이후 다른 추가치료 없이 추적 관찰하다가 1년 뒤 국소재발이 확인되어 추가 수술하였으나 구강측 절제연에서 종양침범이 확인되었다. 보조치료는 세기조절방사선치료 방법으로 정상조직을 최대한 보호하면서 재발가능 고위험 부위에 66 Gy의 고선량을 주면서 동시에 주변 위험지역에 54 Gy 정도의 방사선을 조사하였는데, 1년 2개월간의 추적관찰기간까지 특별한 만성 합병증이나 재발, 전이 등을 발견할 수 없었다. 저자들의 증례의 추적관찰 기간이 짧아 명확한 결론을 말할 수는 없지만, 과거 발표되었던 증례들의 내용들과 비교해 봤을 때, 사기질모세포 암종의 치료에서는 근치적 절제술이 가장 중요하겠고, 수술 후 국소재발의 위험이 있는 경우에는 보조적 방사선치료를 적극적으로 고려하는 것이 좋겠다. 국소제어에 성공한 경우들에도 추적관찰 과정에서 림프절이나 폐, 뼈, 뇌 등에서의 전이가 발견되므로 장기간의 주기적인 진찰 및 검사가 반드시 필요하겠다.

## 참 고 문 헌

1. Goldenberg D, Sciubba L, Koch W, Tufano RP. Malignant odontogenic tumors: a 22-year experience. *Laryngoscope* 2004;114:1770-1774
2. Slootweg PJ, Muller H. Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg* 1984;57:168-176
3. Gardner DG. Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;82:660-669
4. Elzay RP. Primary intraosseous carcinoma of the jaws: review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1982;54:299-303
5. Simoko EJ, Brannon RB, Eibling DE. Ameloblastic car-

- cinoma of the mandible. *Head Neck* 1998;20:654-659
6. Corio RL, Goldblatt LI, Edwards PI, Hartment KS. Ameloblastic carcinoma: a clinicopathologic study and assessment of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987;64:570-576
  7. Bruce RA, Jackson IT. Ameloblastic carcinoma: report of an aggressive case and review of the literature. *J Cranio-maxillofac Surg* 1991;19:267-271
  8. Datta R, Winston JS, Diaz-Reyes G, et al. Ameloblastic carcinoma: report of an aggressive case with multiple bony metastases. *Am J Otolaryngol* 2003;24:64-69
  9. Dorner L, Sear AJ, Smith GT. A case of ameloblastic carcinoma with pulmonary metastases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1988;26:503-510
  10. Kim KM, Hwang EH, Cho JO, Lee SR. Ameloblastic carcinoma of the mandible. *Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2001; 31:109-115
  11. Sastre J, Munoz M, Naval L, Adrados M. Ameloblastic carcinoma of the maxilla: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60:102-104
  12. Çizmecý O, Aslan A, Önel D, Demiryont M. Ameloblastic carcinoma ex ameloblastoma of the mandible: Case report. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004;130:633-634
  13. Eliasson AH, Moser RJ, Tenholder MF. Diagnosis and treatment of metastatic ameloblastoma. *South Med J* 1989;82:1165-1168
  14. Atkinson CH, Harwood AR, Cummings BJ. Ameloblastoma of the jaw: A reappraisal of the role of megavoltage irradiation. *Cancer* 1984;53:869-873
  15. Dhir K, Sciubba J, Tufano RP. Ameloblastic carcinoma of the maxilla. *Oral Oncol* 2003;39:736-741
  16. Ramadas K, Jose C, Subhashini J, et al. Pulmonary metastasis from ameloblastoma of the mandible treated with cisplatin, adriamycin and cyclophosphamide. *Cancer* 1990;66:1475

---

**Abstract**

## **The Role of Postoperative Radiotherapy for Ameloblastic Carcinoma of the Mandible: Case Report**

Won Taek Kim, M.D.\*, In Kyo Chung, M.D.<sup>†</sup>, Yong Kan Ki, M.D.\*,  
Ji Ho Nam, M.D.\*, Byung Hyun Gwon, M.D.\* and Dong Won Kim, M.D.\*

Departments of \*Radiation Oncology and <sup>†</sup>Oral and Maxillofacial Surgery,  
College of Medicine, Pusan National University, Busan, Korea

An ameloblastic carcinoma is a very rare odontogenic malignant tumor, which sometimes have a benign clinical nature, but typically have aggressive features, with large ulcerative lesion and extensive local destruction. These clinical characteristics make the complete surgical removal of a tumor difficult. As a consequence, a poor prognosis may result due to local recurrence and distant metastasis. For this reason, it is important to consider adjuvant therapies for high-risk ameloblastic carcinoma patients. Here, the case of a recurrent ameloblastic carcinoma that occurred in the mandible after primary surgery is reported. The lesion was treated with further local excision, followed by postoperative radiotherapy. Also, a few remarks on the role of postoperative radiotherapy in patient with ameloblastic carcinoma have been made from a review of the current literatures on the treatment of this type of lesion.

---

**Key Words:** Ameloblastic carcinoma, Postoperative radiotherapy