

법랑모세포섬유치아종의 한 증례

경북대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
안창현

Ameloblastic fibro-odontoma in the mandible: a case report

Chang-Hyeon An

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyungpook National University

ABSTRACT

Ameloblastic fibro-odontoma is a rare benign mixed odontogenic tumor with histologic characteristics of ameloblastic fibroma and complex odontoma. As with ameloblastic fibroma, it may be asymptomatic or found because of painless swelling and delayed eruption of associated tooth. This report presents a case of ameloblastic fibro-odontoma in the posterior mandible of a 14-year-old girl and analyses its clinical features and radiographic features on plain X-ray film and CT images. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2005; 35 : 55-8)

KEY WORDS : Case Report; Mandible; Fibro-Odontoma, Ameloblastic; Odontoma, Cystic

법랑모세포섬유치아종은 법랑모세포섬유종의 구성 조직으로 형성되어 있으면서 치아종에서 관찰되는 법랑질과 상아질을 함유하고 있는 극히 드문 종양이다.¹⁻³ 이 종양은 남성에서 호발하며, 상악과 하악에서 동일한 비율로 악골의 후방에 호발하고 대부분 20세 이전에 나타난다.⁴⁻⁷ 무통성으로 서서히 증식하며 안면 종창과 안모 비대칭을 야기하기도 하고 보통 미맹출치나 매복치와 연관되어 발견되는데^{1,4-10} 다른 치성 병소에 비하여 인접 치아를 심하게 전위시킨다.¹¹

저자는 14세 여성의 하악에 발생한 법랑모세포섬유치아종을 보고하고자 한다.

증례 보고

14세 여자 환자가 교정 진단을 위한 파노라마 방사선사진상에서 우연히 발견된 이상소견을 주소로 내원하였고 내원 당시 임상 검사에서 좌측 하악체 부위의 종창이 인

지되었다.

파노라마 방사선사진, 후전방 두부 방사선사진 및 교환 방사선사진에서 좌측 하악체에서 하악지에 이르는 방사선투과성 대를 지나는 명확한 경계를 보이는 팽창성·단방성 병소가 관찰되었는데, 내부는 뚜렷하게 방사선투과성 부위와 방사선불투과성 물질이 혼재되어있는 부위로 명확히 구분될 수 있었다. 병소와 인접한 피질골판의 비박·팽윤을 야기하고 하악 좌측 제2소구치와 제2대구치의 매복·전위를 동반하였다(Fig. 1). 전산화단층사진에서 병소 내부에 응집해있는 다수의 방사선불투과성 물질들과, 하악지 부위의 병소 상방에 위치하는 방사선투과성 영역이 잘 관찰되었다(Fig. 2).

복잡 치아종의 임시 진단 하에 전신 마취 후 구외로 접근하여 병소를 적출해내었으며 적출된 병소는 비교적 잘 피막화되어있었다(Fig. 3).

조직병리학적 검사에서는 다수의 세포들이 분포된 태생기 결체조직 내에 모상기의 치성 상피 또는 치판 양상으로 치성 상피세포들이 산재된 법랑모세포섬유종의 소견과 더불어 치아를 구성하는 경조직이 무정형으로 서로 섞여 피를 이룬 복잡 치아종의 소견이 동시에 관찰되었다(Fig. 4).

이번 증례는 상기 소견들을 종합하여 법랑모세포섬유치아종으로 최종 진단되었다.

접수일: 2005년 1월 5일; 심사일: 2004년 1월 6일; 채택일: 2005년 2월 7일
Correspondence to: Prof. Chang-Hyeon An
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyungpook National University, 2-188-1, Samduck-dong, Jung-gu, Daegu 700-412, Korea
Tel) 82-53-420-5971, Fax) 82-53-427-3396, E-mail) chan@knu.ac.kr

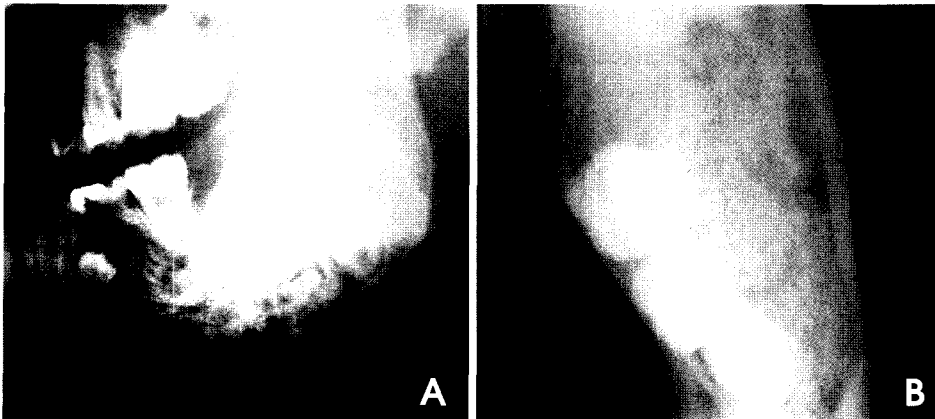


Fig. 1. Panoramic radiograph (A) shows a well-defined, mixed radiolucent-radiopaque lesion in the left body-ramus of the mandible accompanying impacted permanent teeth. Occlusal radiograph (B) shows a radiolucent cystic portion in the posterior part of the lesion.

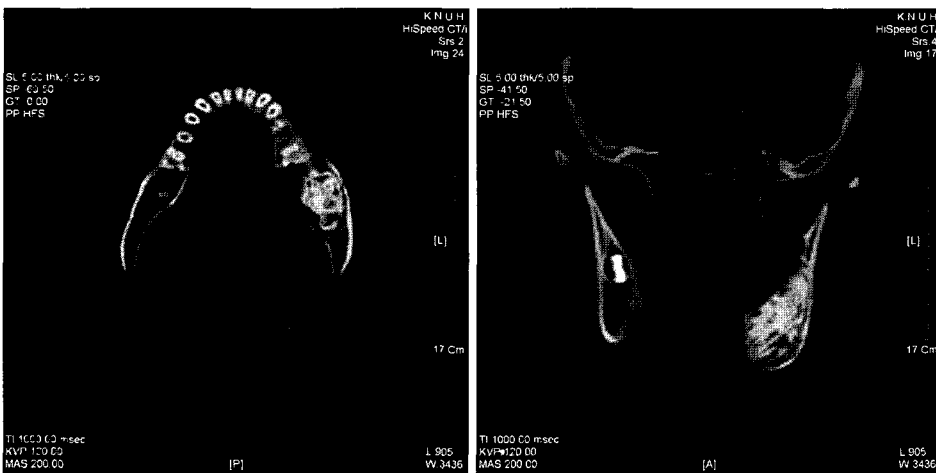


Fig. 2. CT scans show distinct partition of the lesion into radiolucent ameloblastic fibromatous area and radiopaque odontomatous area well.

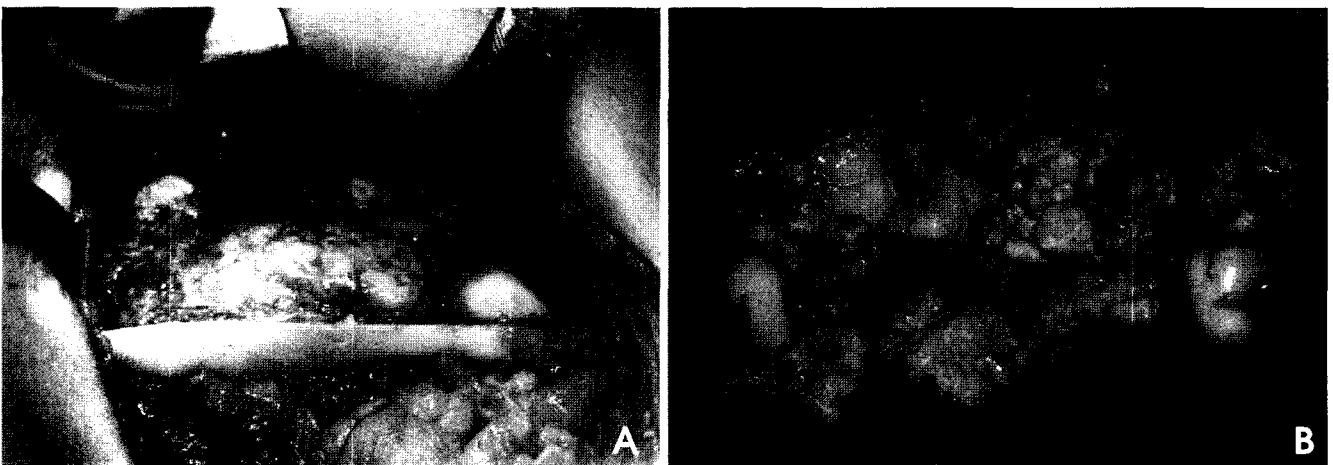


Fig. 3. Intraoperative view (A) shows decorticated mandible, well-delineated tumor mass, and impacted 2nd molar. The resected specimen (B).

고찰

법랑모세포섬유치아종은 치성 기원의 양성 혼합성 종양

으로 분류된다.^{2,12} Hooker¹는 법랑모세포치아종과 법랑모세포섬유치아종을 서로 다른 독립된 병소로 분류하였고, 법랑모세포치아종은 법랑모세포종과 복잡 치아종의 조직



Fig. 4. Photomicrograph of the tumor shows narrow cords and small islands of odontogenic epithelium in a loose connective tissue with enamel matrix and dentin formation (H & E stain, × 20).

학적 결합이며 법랑모세포종의 보다 침습적인 양상을 보인다고 하였다. 반면, 법랑모세포섬유치아종은 법랑모세포섬유종과 복잡 치아종의 조직을 함유하며 법랑모세포섬유종과 같은 양성의 행동양상을 띤다고 보고하였다.^{2,13}

치성 기원의 혼합성 종양의 조직 발생에 관한 논란 또한 없었던 것이 아니다. 몇몇 학자들은 법랑모세포섬유종이 법랑모세포섬유치아종으로 분화·성숙하고 궁극적으로는 복잡 치아종으로 분화·성숙되어간다는 가설을 제시하였다.^{7,8,14} 그러나 이 종양들을 분화의 연속성에서 이해하려는 개념은 현재 거의 받아들여지지 않고 이들은 서로 다른 독립적인 병소로 생각되고 있다.^{6,15}

법랑모세포섬유치아종은 매우 드문 병소로 치성 종양의 1-3%를 차지한다.³ 보통 20세 이전에 발생하는데 평균 발생연령을 Hooker¹는 11.5세, Slootweg⁶는 8.1세로 보고하였고 남성에서 약간 호발하며, 상악과 하악에서 비교적 균등하게 발견되고 주로 악골의 후방부에서 발생한다.^{1,4,7}

가장 흔한 환자의 주소는 종창과 치아의 맹출 장애이고 이번 증례와 같이 증상이 없는 경우에 방사선검사서 우연하게 발견되기도 한다. 보통 양성으로 천천히 성장하는 골내 병소이지만 그렇지 않은 경우도 보고된 적이 있다.^{8,16}

이 종양은 방사선학적으로 중심부의 석회화 물질과 피질골판 사이에 방사선투과성 대를 보이는 경계가 명확한 팽창성 병소로 관찰된다.^{2,6,11} 방사선불투과성 부위가 방사선투과성 병소에서 차지하는 비율은 증례마다 달라서 때로는 치아종과 매우 유사하게 보인다.¹¹ 이번 증례의 파노라마 방사선사진에서도 방사선불투과성 부위가 병소의 대부분을 차지하고 있어 치아종, 또는 법랑모세포섬유치아종으로 판독되었다. 이후 촬영한 전산화단층사진상에서 하악

지 부위의 병소 상방에 위치하는 방사선투과성 영역이 뚜렷이 관찰되어 치아종의 양성 변화를 고려하지 않을 수 없었다. 치아종은 함치성낭의 발생과 연관되어있고 Kaugars 등¹⁷은 치아종의 28%에서 양성 변이가 나타난다고 보고하였다. 또한 Goldberg 등¹⁸은 매복된 하악 제2대구치와 연관된 복잡 치아종이 양성 변이를 보이는 두 증례를 보고하였다.

Sumi 등¹⁹은 전산화단층사진상에서 법랑모세포섬유치아종의 석회화된 소결절들이 산재되어 나타나는 유형과 석회화된 침상체들이 병소의 중심부에서 방사선상을 보이며 마치바퀴 형태를 띠는 유형을 보고하였다. 이번 증례에서 관찰되는 석회화 물질의 양상 또한 하악체 부위에서는 주로 침상 모양이 방사선상으로, 하악지 부위에서는 결절 형태로 산재되어 관찰되었다. 이는 강 등¹⁰이 보고한 증례의 방사선학적 소견과 매우 유사하여 법랑모세포섬유치아종으로 최종 판독하였다.

법랑모세포섬유치아종이 전형적인 나이, 위치, 방사선학적 양상을 보이면 진단은 그리 어렵지 않으나 방사선투과성과 방사선불투과성이 혼재되어 나타나는 석회화상피성 치성종양, 석회화치성낭, 미성숙한 복잡 치아종, 선양치성종양, 백악질골화성섬유종과 감별해야 한다.

법랑모세포섬유치아종은 종괴의 피막화가 잘 되어있고 국소적인 침습을 하지 않아 치료에는 단순한 적출술이 추천되지만 악성변이나²⁰ 치료 후 재발하는 경우도 보고되고 있어^{15,21,22} 술 후 주기적인 검사가 필요하다.

감사의 글

저자는 이번 증례보고에 도움을 주신 최갑식 교수님께 감사드립니다.

참고 문헌

1. Hooker SP. Ameloblastic odontoma, an analysis of 26 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1967; 24 : 375-6.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumours*. 2nd ed. Berlin: Springer Verlag; 1992. p. 14.
3. Daley DT, Wysocki GP, Pringle GA. Relative incidence of odontogenic tumors and oral and jaw cysts in a Canadian population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994; 77 : 276-80.
4. Hutt PH. Ameloblastic fibro-odontoma: report of a case with documented four-year follow-up. *J Oral Maxillofac Surg* 1982; 40 : 45-8.
5. Bernhoft CH, Bang G, Gilhuss-Moe O. Ameloblastic fibroodontoma. *Int J Oral Surg* 1979; 8 : 241-4.
6. 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.
7. Shafer WG, Hine MK, Levy BM. *A textbook of oral pathology*. 4th ed. Philadelphia: W.B. Saunders Co.; 1983. p. 304-13.

법랑모세포섬유치아종의 한 증례

8. Miller AS, Lopez CF, Pullon PA, Elzay RP. Ameloblastic fibro-odontoma: Report of seven cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976; 41 : 354-65.
9. 류정수, 오완수, 최순철, 신홍인, 정철, 남순현. 법랑아 섬유성 치아종의 1 증례. *대한치과의사협회지* 1987; 25 : 1061-8.
10. 강형욱, 황의환, 이상래. 하악에 발생한 법랑모세포섬유치아종. *대한구강악안면방사선학회지* 2003; 33 : 59-62.
11. Langlais RP, Langland OE, Nortje CJ. Diagnostic imaging of the jaws. 1st ed. Malvern: Williams & Wilkins; 1995. p. 315-8.
12. Chang HH, Shimizu MS, Precious DS. Ameloblastic fibro-odontoma: a case report. *J Can Dent Assoc* 2002; 68 : 243-6.
13. Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H. Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. Geneva: World Health Organization 1967.
14. Chan LR, Blum T. Ameloblastic odontoma, case report critically analyzed (Letter). *J Oral Surg* 1952; 10 : 169-70.
15. Philipsen HP, Reichart PA, Pratorius F. Mixed odontogenic tumors and odontomas. Considerations on interrelationship. Review of the literature and presentation of 134 new cases of odontomas. *Oral Oncol* 1997; 33 : 86-99.
16. Baker WR, Swift JQ. Ameloblastic fibro-odontoma in the maxilla. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 76 : 294-7.
17. Kaugars GE, Miller ME, Abbey LM. Odontomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1989; 67 : 172-6.
18. Goldberg H, Schofield IDF, Popwich LD, Wakeham D. Cystic complex composite odontoma. Report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1981; 51 : 16-20.
19. Sumi M, Yonetsu K, Nakamura T. CT of ameloblastic fibroodontoma. *AJR Am J Roentgenol* 1997; 169 : 599-600.
20. Howell RM, Burkes DJ Jr. Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1977; 43 : 391-401.
21. Furst I, Pharoah M, Phillips J. Recurrence of an ameloblastic fibro-odontoma in a 9-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57 : 620-3.
22. Friedrich RE, Siegert J, Donath K, Jakel KT. Recurrent ameloblastic fibro-odontoma in a 10-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 2001; 59 : 1362-6.