

# 상악 구치부에 발생한 Central Granular Cell Odontogenic Tumor(CGCOT)의 치험례

김진욱 · 박인숙 · 변기정\* · 김진수

경북대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, \*울산대학교병원 치과학교실

**Abstract** (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2006;32:374-379)

## CENTRAL GRANULAR CELL ODONTOGENIC TUMOR(CGCOT): A CASE REPORT INCLUDING LIGHT MICROSCOPY, IMMUNOHISTOCHEMISTRY AND LITERATURE REVIEW

Jin-Wook Kim, In-Suk Park, Gi-Jeong Byeon\*, Chin-Soo Kim

*Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Kyung-Pook National University*

*\*Dept. of Dentistry, Ulsan University Hospital*

Central granular cell odontogenic tumor(CGCOT) is a very rare lesion that consists of densely packed granular cells with numerous scattered strands of odontogenic epithelium interspersed throughout the tissue. CGCOT was initially reported in 1962 by Cough et al as central granular cell ameloblastic fibroma. But, recently, this term is inappropriate because of histologic and chronologic differences.

CGCOT is usually present as painless swellings. Radiographs show a well-demarcated radiolucent or mixed radiopaque-radiolucent lesion. The average age on presentation of CGCOT is 47.3 and women are 75% more likely to develop this lesion than men. The tumor only occur in tooth bearing areas of the jaw with 88% of cases occurring in the mandible and 12% involving the maxilla, usually in an equal distribution between the canine-premolar-molar areas. This tumor is benign, and care is effected by localized surgical excision.

We report an additional case of CGCOT that occurred in the Rt. Maxillar premolar/molar region of a 32-year old man with literature review.

**Key words:** Central granular cell odontogenic tumor

### I. 서 론

CGCOT는 호산성 육아세포들과 비활성의 치성상피세포들로 이루어진 매우 드문 양성치성종양이다. Werthemann(1950)에 의해 sponginocytic adamantinoma<sup>1)</sup>라는 이름으로 처음 보고되었다. 그 이후 현재까지 31개의 증례보고가 있었다. CGCOT는 granulacell ameloblastic fibroma(Cough, 1962), Central granular cell tumor(White, 1978), central granular cell odontogenic fibroma(Vincent, 1987), central granular cell tumor(Chen, 1991)<sup>2)</sup>의 다양한 이름으로 불려왔으나 1995년 이후 WHO<sup>3)</sup>에서 CGCOT로 명명되었다<sup>4)</sup>.

CGCOT의 임상적 특징을 살펴보면, 남성에서보다 여성에서 호발하며(여성 75%) 평균발생연령은 46세로 주로 40대에서 70대에서 호발한다. 악골부위별 호발부위를 보면 하악대 상악비

가 3:1정도이며 주로 소구치와 구치부에서 빈발한다고 보고되고 있다. 대부분의 병소가 무통성의 종창을 나타내며, 국소적인 피질골 팽창과 주의 구조물에 의한 자극으로 궤양을 동반하기도 한다. 상악에 발생하는 경우 상악동을 침범하기도 하며 하악의 경우에는 하악관의 변위 및 관련치아의 변위를 동반하기도 한다<sup>2,5,7)</sup>.

방사선 소견은 대부분 경화성 경계를 가진 방사선 투과성 병소로 나타나나 때때로 방사선 투과성과 불투과성 부분적으로 혼재되어 나타나기도 한다<sup>5,7)</sup>.

병리조직학적소견으로는 거대 호산성 육아세포들이 판상 혹은 섬의 형태를 이루며 이들 사이에 치성상피세포들이 산재되어있다<sup>5,7,8)</sup>. 이 치성상피세포들은 때로는 유리화<sup>2,7)</sup>되어 있는 소견을 나타내기도 한다. 또한 특이적으로 병소 내 석회화된 부위를 관찰할 수 있다<sup>2)</sup>.

이 종양의 치료방법으로는 병소의 완전한 적출술 혹은 소파술 등이 소개되고 있으며 치료 후 재발은 극히 드물며 현재까지 1증례가 재발된 것으로 보고<sup>2)</sup>되고 있다.

이러한 임상병리학적 특징을 갖는 CGCOT는 국외에서는 31증례가 보고되었으나 국내에서는 보고된바가 없을 정도로 드문 종양이므로 문헌고찰과 함께 1증례를 보고하는 바이다.

#### 김진욱

700-721 대구광역시 중구 삼덕2가50

경북대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

#### Jin-Wook Kim

Dept. of OMFS, School of Dentistry, Kyungpook National University

50 Samduk 2-ga, Jung-gu, Daegu, 700-721, Korea

Tel: 82-53-420-5911 Fax: 82-53-426-5365

E-mail: vocaleo@hanafos.com

## II. 증례보고

- \* 환자: 김○환, 33세 남자
- \* 초진일 : 2003년 10월 25일
- \* 주소 : 상악 우측 제 2소구치, 제 1대구치부위의 협착 증창 (Fig. 1)
- \* 병력 : 본원에 내원하기 6년 전 처음 발견되었으며 처음 2년 정도 크기 변화없다가 4년 전부터 서서히 크기가 증가하여 현재의 상태에 이름.
- \* 임상소견 : 상악 우측 제 1,2소구치, 제 1대구치 협착으로 단단한 종괴가 촉진됨.
- \* 가족력 : 특이사항 없음.
- \* 파노라마 소견 : 상악 우측 제 2소구치, 제 1대구치 치간부 치조골의 흡수성 소견을 보임(Fig. 2)
- \* CT 소견 : 상악 제 2소구치, 제 1대구치사이 협착 피질골의

팽창을 보이는 양성병소관찰되며 내부에 방사선 불투과성의 foci 관찰됨(Fig. 3, 4).

- \* 처치 및 경과 : 2003년 11월 5일 조직검사를 시행하고 결과상 양성치성종양으로 일차진단되었고 임상 및 방사선학적 소견으로도 양성종양으로 판단되어 2003년 12월 26일 국소마취하에 상악 우측 제 2소구치, 제 1대구치 발치와 함께 병소를 적출하였다. 병소는 인접조직과 용이하게 분리되었으며 적출물의 크기는 18×19×21mm였다(Fig. 5, 6). 적출 후 지혈을 시행하고 바셀린 거즈로 드레싱하여 상피재생을 유도하였다. 2004년 1월 10일 조직검사결과 CGCOT로 진단되었으며 술 후 6개월이 지난 후에 적출부의 전정성형술을 시행하였다.
- 현재 약 1년간의 정기적 관찰을 시행한 결과 재발은 나타나고 있지 않다.
- \* 조직학적 소견 : 호산성 육아세포들이 판상을 이루고 있으



Fig. 1. Intraoral photograph, Rt. upper 1,2 premolar and 1 molar buccal area swelling.



Fig. 2. Panoramic view reveals alveolar bone resorption between Rt. upper second premolar and first molar.



Fig. 3. Axial CT scan, Rt. upper maxillary buccal side lesion with thin bony wall and inner calcified material.

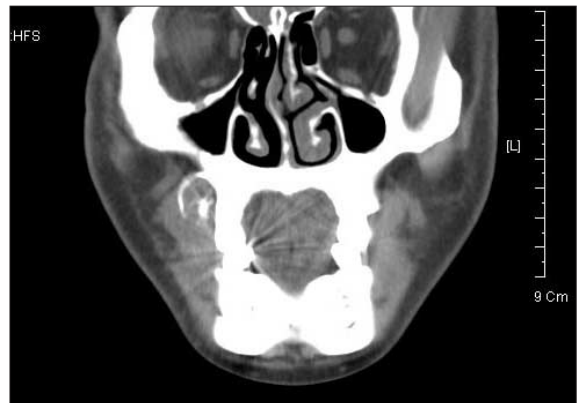


Fig. 4. Coronal CT scan.



Fig. 5. Conservative excisional margin.

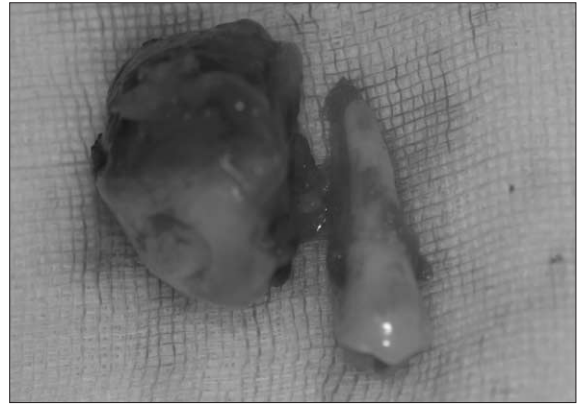


Fig. 6. Specimen, continued with second premolar.

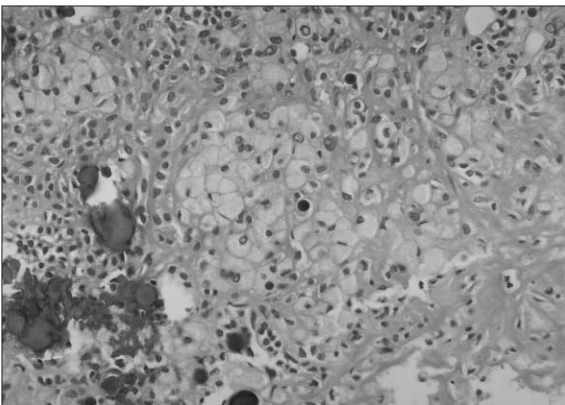


Fig. 7. Tumor is composed of sheets of eosinophilic granular cells, and islands of odontogenic epithelium interspersed among the granular cells. There are foci of small calcifications.



Fig. 8. CK (+, odontogenic epithelium, perimembranous staining pattern).

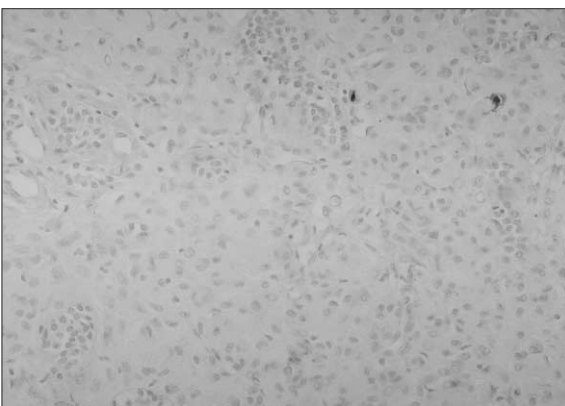


Fig. 9. S-100 (-, differentiates this case from granular cell tumor of soft tissue, which shows positive reaction for S-100 protein).

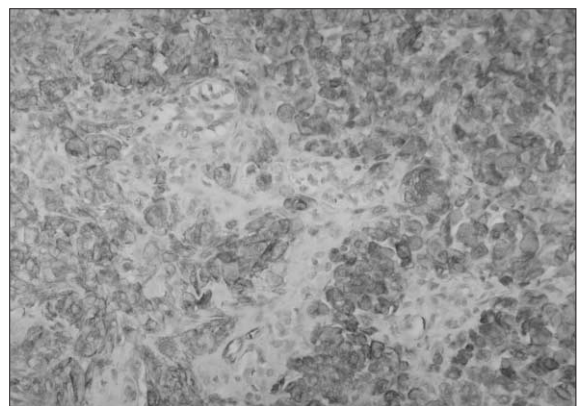


Fig. 10. Vimentin (+, granular cell, cytoplasmic staining pattern).

며, 치성상피세포들이 섬모양으로 육아세포들 사이 산재되어 있었다. 작은 석회화된 조직도 발견되었다(Fig. 7).

\* 면역조직화학적 소견 : Cytokeratin이 치성상피세포에 침착되

고 Vimentin이 육아세포의 세포질에 침착됨이 관찰되었다. S-100단백은 육아세포에 음성반응을 보였다(Fig. 8-10).

**Table 1.** Cenentral granular cell odontogenic tumors

Authors	Age	Sex	Race	Site	Signs and symptoms	Radiographic features	Treatment	Follow-up
Werthemann	39	M	NS	NS	NS	NS	NS	NS
Couch et al	55	F	B	Left mandibular molar area	Expansile, asymptomatic, tender × 2days	Radiolucent with loculated borders	Extracted tooth and conservative\ tumor removal	8 mo NED
*Couch et al	59	F	B	Left mandibular cuspid area	Duration × 2y	Loculated radiolucency with focal densities	NS	NS
*Waldron et al	60	F	B	Left mandibular cuspid area	Expansion	2.0cm Radiolucent indistinct borders with foci of calcifications	excision with enbloc margin surrounding bone	29 mo NED
**Waldron et al	53	F	B	Left mandibular molar area	duration × 19y, expansile, asymptomatic	2.0 × 3.0cm cystic radiolucency displacing teeth	Extracted teeth and tumor removal	3 mo NED
Dalfomo and Donna	57	NS	NS	Left mandibular molar area	NS	NS	Curettage	6 mo NED
Gorlin and Goldman	50	F	B	Molar region mandible	NS	NS	Curettage	NS
Regezi et al	29	F	NS	Maxilla	NS	NS	NS	NS
Regezi et al	16	M	NS	Mandible	NS	NS	NS	NS
† White et al	50	F	W	Mandibular canine area	NS	Radiolucency	Curettage	6 mo NED
**White et al	50	F	B	Posterior mandible	NS	Radiolucency	Curettage	84 mo NED
**White et al	55	F	W	Premolar area maxilla	NS	Radiolucency	Excision	36 mo NED
**White et al	65	F	W	Premolar/molar area mandible	NS	Radiolucency	Excision	24 mo NED
Vincent et al	51	F	W	Posterior body, right mandible with mandibula canal displaced inferiorly	No expansion	4 × 2cm radiolucency with sclerotic border	Curettage	48 mo NED
**Vincent et al	27	M	NS	Alveolar bone between right first molar and second premolar mandible	Buccal expansion	1.5cm unicystic radiolucency with sclerotic borders	Surgical excision	24 mo NED
Ruhl and Akuamo Boateng	22	M	NS	Left maxilla 26/27 area and partly occupies maxillary sinus	NS	4.5 cm with slight displacement of teeth 26/27	Enbloc resection	NS
Mirchandani and Sciubba	33	F	NS	Mandible	NS	Radiolucency	NS	NS
Shiro et al	45	F	W	Left mandible between premolars	Asymptomatic	0.7 × 0.4 cm unicystic radiolucency	Surgical removal	48 mo NED

**Table 2.** continued

Authors	Age	Sex	Race	Site	Signs and symptoms	Radiographic features	Treatment	Follow-up
† Chen	50	F	W	Right mandible canine area	NS	1.0×0.8 cm radiolucency	NS	NS
Chen	45	F	W	Left mandible	NS	5.0×3.0 cm radiolucency	NS	NS
Chen	64	F	W	Left mandible	NS	3.0×2.0 cm radiolucency	NS	NS
Chen	77	F	W	Left mandible	NS	0.5×0.5 cm radiolucency	NS	NS
Yih et al	66	F	W	Second premolar area left mandible	No expansion, asymptomatic, tooth vital	0.5×0.5 cm unilocular radiolucency with sclerotic border	Surgical removal	6 mo NED
Gesek et al	62	F	B	Edentulous area distal to second premolar left mandible	No expansion, asymptomatic well-defined sclerotic border	Multilocular with radiopacities and	Curettage	12 mo NED
Machado de Sousa et al	19	F	W	Premolar/molar region right maxilla	Buccal and palatal expansion with facial swelling × 5mo	Well-delineated multilocular radiolucency	Surgical excision	24 mo NED
Machado de Sousa et al	25	M	B	Premolar/molar region right maxilla	Painful ulcer of alveolar ridge and palate	8.0 cm radiopaque lesion	Surgical excision	120 mo NED
Ardekian et al	63	M	NS	First primolar -second molar, right mandible	Expansile, swelling in vestibule	Well-defined radiolucency with sclerotic border	Teeth extracted with curettage	48 mo NED
AFIP/LSUSD/UOP	36	F	NS	Canine-second molar area mandible	NS	NS	NS	NS
AFIP/LSUSD/UOP	50	F	B	Jaw, NOS	Perforation of cortical bone	NS	NS	NS
AFIP/LSUSD/UOP	32	F	W	Canine-second molar area tight mandible	Expansile, asymptomatic, duration × 8 mo	Multilocular radiolucency with sclerotic border	Teeth extracted with surgical excision	180 mo NED
AFIP/LSUSD/UOP	19	F	W	Distal first premolar-asymptomatic mesial first molar left maxilla	Expansile,	Unicyclic radiolucency enveloping roots of second premolar	Curettage without extracting teeth	Recurrence at 156 mo
AFIP/LSUSD/UOP	48	M	NS	Right maxilla	Expansile	NS	NS	NS
Kim JW and Kim CS	33	M	Y	Right maxilla premolar-molar area	Expansile asymptomatic	alveolar bone resorption of second premolar-first molar	Teeth extracted with surgical excision	23 mo NED

\*same patient

\*\*AFIP accessioned cases

† same patient

NS, not stated

NED, no evidence of disease

NOS, not otherwise specific

AFIP: Armed Forced Institute of Pathology, Washinton, DC

LSU: Louisiana State University School of Dentistry, New Orleans

UOP: University of Pacific School of Dentistry, San Francisco”

### III. 총괄 및 고찰

Werthemann<sup>1)</sup>에 의해 spongicyclic adamantinoma란 이름으로 처음 보고된 이후 현재의 CGCOT란 이름으로 정착되기 까지 그 임상병리학적 소견으로 인해 이 질환을 명명하는데 있어 많은 혼란이 있었다. 그 대표적인 명칭이 granular cell odontogenic fibroma<sup>9)</sup>와 악골의 "granular cell tumor"<sup>10)</sup>이다.

Odontogenic fibroma, ameloblastic fibroma와 CGCOT와의 감별되는 점은 이 종양은 대부분이 mesenchymal origin이라는 점에서 다르다. Odontogenic fibroma와 임상적으로 유사한 연령대에서 발생하고, stellate reticulum lend가 없는 상피세포를 가진다는 점에서 CGCOT는 odontogenic fibroma의 한 변종이라 생각되어졌다. 그리고 granular cell tumor와는 달리 백악질과 유사한 석회화조직이 나타난다는 점에서 central granular cell odontogenic fibroma라 불려졌다<sup>2)</sup>. 그러나 Gardner<sup>11)</sup>는 odontogenic fibroma의 특징은 cell rich fibroblastic stroma에 있다고 하며 CGCOT에는 이러한 특징이 없는 것을 들며 이 두 가지는 구별되는 병변이라고 주장하였다<sup>7)</sup>.

White 등<sup>10)</sup>은 granular cell의 origin은 mesenchym이라 하였다. 이들은 육아세포의 세포질에서 다수의 lysosomal like granule을 발견하였다. Chen 등<sup>12)</sup> primary lysosome과 autophagic vacuole들을 발견하였고 granular cell이 Langerhans cell의 antimarker인 OKT6(CD1) antigen에 양성반응을 보이는 것을 근거로 하고 Langerhans cell origin일 것이라 보고하였다. 그러나 Chen은 Langerhans cell의 ultrastructural marker인 Birbeck granule을 언급하지 못했다<sup>2)</sup>.

면역조직화학적 연구가 계속되면서 육아세포가 mesenchymal nature를 가지는 세포에 특이성을 보이는 vimentin에 양성반응<sup>9)</sup>을 보이며, epithelial differentiation cell 의 marking에 사용되는 cytokeratin에 음성반응<sup>8)</sup>을 보임이 확인되어 CGCOT의 육아세포는 mesenchymal origin임을 알게 되었다. 또한 Cytokeratin은 치성상피에는 양성반응을 보이고, 보통의 육아세포 종양에서 양성반응을 보이는 S-100 단백질<sup>5,8,13)</sup>에는 음성반응을 나타내어 CGCOT는 odontogenic origin<sup>9)</sup>으로 받아들여지고 있다. 이와 같은 면역조직화학적 검사는 CGCOT의 진단에 중요한 근거가 된다. Lysosomal granule들은 육아세포내부의 다양한 변화 형태라고 생각되고 있으며, phagocytic activity는 종양세포가 histocytic cell line에서 유래된 것임을 뒷받침한다<sup>7)</sup>.

CGCOT는 그 임상적, 조직학적 소견상 odontogenic tumor이며 granular cell은 histocytic cell lineage를 가지는 mesenchymal origin으로 생각된다.

CGCOT는 현재까지 재발은 극히 드물며 그 경과가 매우 좋은 것으로 보고되고 있어 보존적인 절제술이 추천된다.

### IV. 결 론

경북대학교 구강악안면외과에 상악 우측 제 2소구치, 제 1대 구치부위의 무통성 종창을 주소로 내원한 33세 남자 환자에서 관련치아의 발치를 포함한 병소의 절제술을 시행하였다. 조직검사결과 치밀하게 응집된 판상의 거대 호산성 육아세포들 사이에 섬상의 치성상피세포가 산재되어있고 백악질과 유사한 석회화된 조직들이 관찰되었다. 면역조직화학적 검사 결과 치성상피는 CK에 양성반응을 보였고, 육아세포는 vimentin에 양성, CK와 S-100단백에 음성반응을 보여 CGCOT로 진단되었다.

술 후 정기적 관찰을 시행한 결과 현재까지 재발 등의 합병증은 없었으며 결손치의 보철적 수복계획에 있다.

### 참고문헌

1. Werthemann A: Uber spongiozytares Adamantinom. *Oncologia* 1950;3:193-207.
2. Brannon RB, Goode RK, Eversole LR, et al.: The central granular cell odontogenic tumor: Report of 5 new cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:614-21.
3. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: *Histological typing of odontogenic tumors*(ed2). Heidelberg, Germany, Springer-verlag 19924. Machado de Sousa SO, Soares de Araujo N, Melhado RM, Cavalcanti de Araujo V. Central odontogenic granular cell tumor: immunohistochemical study of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:787-91.
5. Gesek DJ JR, Adrian JC, Reid EN: Central odontogenic granular cell tumor : a case report including light microscopy, immunohistochemistry, and literature review. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53:945-9.
6. Ardekian L, Manor R, Gaspar R, Laufer D: Central granular cell odontogenic tumor: case report and review of literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:1343-5.
7. Meer S, Altini M, Coleman H, Daya N: Central granular cell odontogenic tumor: Immunohistochemistry and ultrastructure. *Am J Otolaryngol* 2004;25:73-8.
8. Yih WY, Thompson C, Meshul CK, Bartley MH: Central odontogenic granular cell tumor of the jaw: report of case and immunohistochemical and electron microscopic study. *J Oral Maxillofac Surg* 1995;53:453-9.
9. Vincent SD, Hammond HL, Ellis GL, Juhlin JP: Central granular cell odontogenic fibroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987;63:715-21.
10. White DK, Chen SY, Hartman KS, Miller AS, Gomez LF: Central granular cell odontogenic tumor of the jaw(the so-called granular cell ameloblastic fibroma). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1978;45:396-405.
11. Gardner DG: Central odontogenic fibroma current concepts. *J Oral Pathol Med* 1989;25:556-61.
12. Chen SY: Central granular cell tumor of the jaw. An electron microscopic and immunohistochemical study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991;72:75-81.
13. Ruhl GH, Akuamo-Boateng E: Granular cells in odontogenic and non odontogenic fibroma. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol* 1989;415:403-9.