

# 결합조직형성 법랑모세포종의 방사선학적 소견: 증례보고 3례

서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실, 치학연구소 및 BK21  
\*인제대학교 의과대학 상계백병원 구강악안면외과

최다혜 · 허경희 · 문제운 · 이원진 · 허민석 · 이삼선 · 최순철 · 박관수\*

## Radiographic features of desmoplastic ameloblastoma: Report of 3 cases

Da-Hye Choi, Kyung-Hoe Huh, Je-Woon Moon, Won-Jin Yi, Min-Suk Heo,  
Sam-Sun Lee, Soon-Chul Choi, Kwan-Soo Park\*

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Dental Research Institute, and BK21, School of Dentistry, Seoul National University  
\*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Sanggye Paik Hospital, College of Medicine, Inje University

### ABSTRACT

Desmoplastic ameloblastoma is a rare histologic variant of ameloblastoma. It shows important differences in anatomic distribution, histologic appearance, and radiographic findings compared with the general type of ameloblastoma. It is histologically characterized by an abundance of densely collagenous stroma and radiographically a mixed radiolucent-radiopaque lesion. We present three cases of desmoplastic ameloblastoma. All the patients complained on buccal swelling with or without pain and the sites of occurrence were the anterior and the premolar region. Plain radiographs showed mixed radiopaque-radiolucent lesion with ill-defined or diffuse sclerotic margin and no external root resorption. Additionally, CT scans revealed buccal expansion and relatively well-defined margin of the lesions. The clinical and radiographic features of the presented cases were compared with those of the desmoplastic ameloblastoma in the previous literatures. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2006; 36 : 63-8)

**KEY WORDS :** Ameloblastoma; Tomography, X-ray Computed; Radiography, Panoramic

법랑모세포종(ameloblastoma)은 치아 발생 시의 상피 성분이 잔존하여 발생하는 양성 종양으로 성별에 따른 차이 없이 30-40대에 하악 구치부 및 구치부 후방에 호발하며 방사선사진에서 경계가 명확한 단방성 혹은 다방성의 투과성 병소를 보인다. 이와 같은 일반적인 법랑모세포종과는 달리, 아형(subtype)의 하나인 결합조직형성 변형(desmoplastic variant)은 독특한 임상적, 병리조직학적, 방사선학적 특징을 보이므로 진단 시 주의를 요한다.

1984년 Eversole 등<sup>1</sup>에 의해 처음으로 보고된 결합조직형성 법랑모세포종은 조직학적으로 조밀한 섬유조직(stromal desmoplastic proliferation)에 의한 상피성분 종양세포들의 압축과 분리로 특징지어지며, 방사선학적으로는 일반적인 법랑모세포종과 달리 상악 및 전방부에 호발하고 경

계가 불명확한 방사선 투과성 병소 내부에 방사선불투과성 물질들이 산재하는 혼합 병소의 소견을 보이는 것으로 보고되고 있으나,<sup>1,4</sup> 보고된 증례의 수가 적어 추가적인 연구와 보고가 계속 필요하다.

이에 저자는 본원에 내원한 환자 중 결합조직형성 법랑모세포종으로 진단된 세 증례의 임상적, 방사선학적 특징을 보고하고자 한다.

### 증례 보고

#### 증례 1

48세의 여자 환자로 3개월 전 좌측 상악 전방부의 동통성 종창을 주소로 개인 병원에 내원하여 좌측 상악 견치의 근관 치료를 받았으나 종창이 가라앉지 않고 동통이 지속되어 본원으로 의뢰되었다. 구강 외 임상검사서 좌측 상악 상방의 경미한 종창이 관찰되었고 구강 내 촉진시 경결감이 있었으나 피개 점막은 정상 소견을 나타내었다.

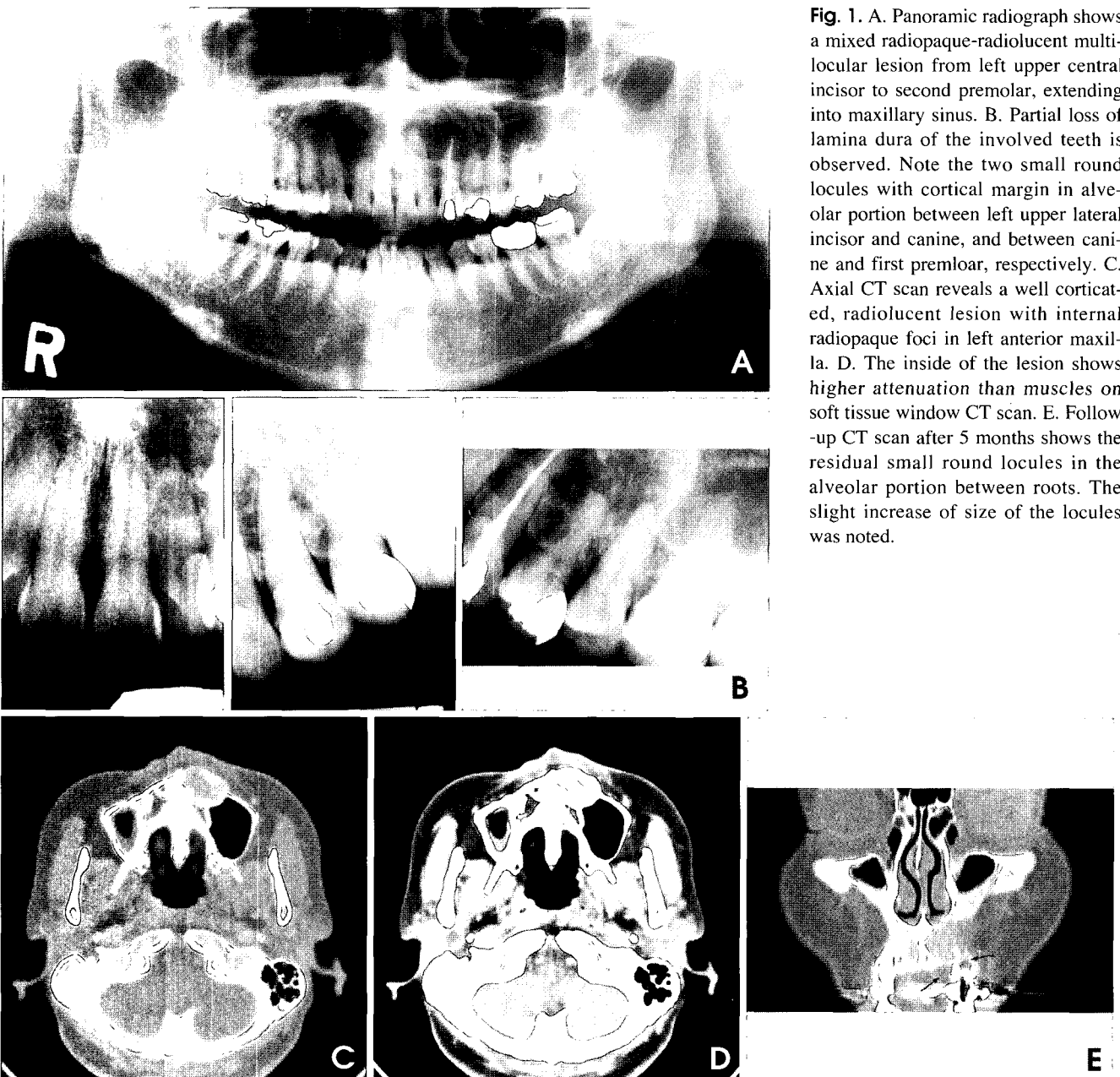
접수일: 2005년 12월 14일; 심사일: 2005년 12월 15일; 채택일: 2006년 2월 3일  
Correspondence to: Prof. Sam-Sun Lee  
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Seoul National University 28, Yeongeong-dong, Jongno-gu, Seoul 110-749, Korea  
Tel) 82-2-2072-3978, Fax) 82-2-744-3919, E-mail) raylee@snu.ac.kr

과노라마 방사선사진에서 좌측 상악 측절치에서 제2소구치에 이르는 둥근 모양의 방사선투과성과 불투과성이 혼재된 병소에 의한 좌측 상악동 전내벽의 후상방 변위가 관찰되었고, 이 병소와 연관된 치아들의 치조백선이 부분적으로 소실되었음이 관찰되었으며, 특히 제1소구치 치근이 약간 짧아져 있는 소견이 관찰되었는데, 이 치근단은 둥근 모양으로 일반적인 범람모세포종에서 관찰되는 치근외흡수와는 다른 소견을 나타내었다(Fig. 1A). 구내방사선 사진에서 병소의 내부는 다수의 방사선불투과성 물질(foci)들이 산재되어 있는 양상이었고, 좌측 상악 측절치와 견치, 그리고 소구치 사이의 치조골에서 주병소와 명확히 경계를 이루면서 피질골 변연을 가지는 둥근 모양의 작은

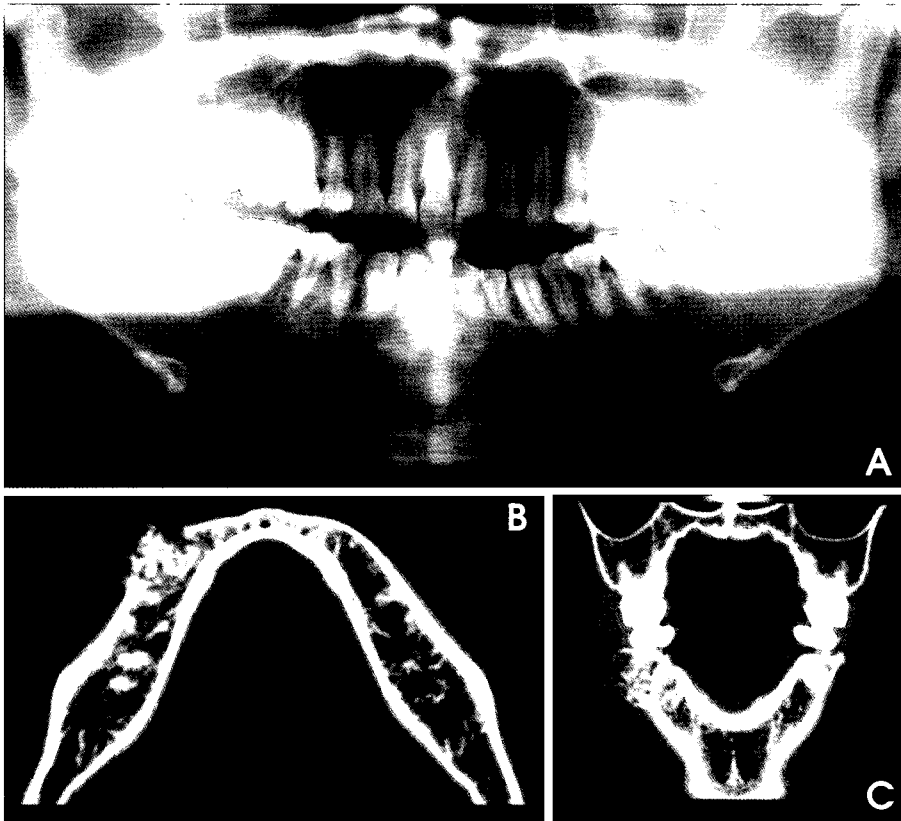
방실(loculus)들이 관찰되었다(Fig. 1B). 전산화단층사진에서는 크기가  $24 \times 20 \times 13 \text{ mm}^3$  정도인 난원형의 방사선 투과성/불투과성 혼합 병소가 관찰되었고(Fig. 1C), 내부는 근육에 비해 높은 방사선불투과성을 보였다(Fig. 1D). 상악 동벽과 상악의 협측 피질골을 팽용시키면서 밀고 있으나 천공의 소견은 뚜렷하지 않았으며, 병소에 포함되어 있는 상악 견치의 치근 주위 치조골과 병소의 경계부에서 둥근 모양의 작은 방실들(loculi)을 확인할 수 있었다.

좌측 상악 측절치, 제1소구치, 제2소구치의 근관 치료 시행 후, 전신마취 하에 약간불합에서 좌측 소구치 부위에 이르는 병소를 소파술로 제거하였다.

수술 5개월 후 follow-up에서 치근 상방의 큰 병소는 제



**Fig. 1.** A. Panoramic radiograph shows a mixed radiopaque-radiolucent multi-locular lesion from left upper central incisor to second premolar, extending into maxillary sinus. B. Partial loss of lamina dura of the involved teeth is observed. Note the two small round locules with cortical margin in alveolar portion between left upper lateral incisor and canine, and between canine and first premolar, respectively. C. Axial CT scan reveals a well corticated, radiolucent lesion with internal radiopaque foci in left anterior maxilla. D. The inside of the lesion shows higher attenuation than muscles on soft tissue window CT scan. E. Follow-up CT scan after 5 months shows the residual small round locules in the alveolar portion between roots. The slight increase of size of the locules was noted.



**Fig. 2.** A. Panoramic radiograph shows a diffuse radiopaque-radiolucent mixed lesion including right lower first premolar and second premolar. Note the slight root divergence of them compared to those of the other side. B. Axial CT scan. C. Coronal CT scan. Buccal expansion and perforation of buccal cortex, with preservation of lingual cortex, are noted on axial (B) and coronal (C) CT scans. And there are numerous high attenuated foci in the lesion.

거되고 골 이식재가 충전되어 있는 소견이 관찰되었으나, 좌측 상악 측절치의 구개측 및 상악 견치와 제1소구치 사이의 치조골에서 이전에 비해 크기가 증가된 잔존 방실들과 이로 인한 해당 부위 협측 및 구개측 피질골의 비박 및 팽윤이 관찰되어 재수술을 고려중이다(Fig. 1E).

### 증례 II

30세의 여자 환자로 3개월 전 발견한 우측 하악의 무통성 종창을 주소로 내원하였다. 구강 내 임상 검사 시 우측 하악의 단단한 무통성 종창이 촉진되었으나 피개 점막은 정상적이었으며 연관된 치아들의 타진 반응 및 동요도는 없었다.

파노라마 방사선사진에서는 경계가 불명확하면서 우측 하악 제1, 제2소구치를 포함하는 방사선투과성/불투과성 혼합 병소가 관찰되었는데, 연관된 치아들은 치근의 외흡수 없이 약간의 치근이개 만을 나타내었다(Fig. 2A). 전산화단층사진에서도 역시 경계가 불명확하였으며 크기는  $21 \times 11 \times 10 \text{ mm}^3$  정도였고 내부에는 석회화 물질들이 다수 산재되어 있었다(Fig. 2B, C). 또한, 이 병소는 협측 피질골을 비박, 팽윤시키면서 천공 소견도 동반하고 있었는데 설측 피질골은 침범되지 않고 건전한 상태였다(Fig. 2B).

이상의 소견으로 골형성섬유종과 같은 골을 형성하는 양성 종양으로 잠정적 진단을 내리고 전신마취 하에서 우

측 하악 측절치에서 제2대구치에 이르는 En bloc resection 이 시행되었으며 이 때 우측 하악 신경이 희생되었다.

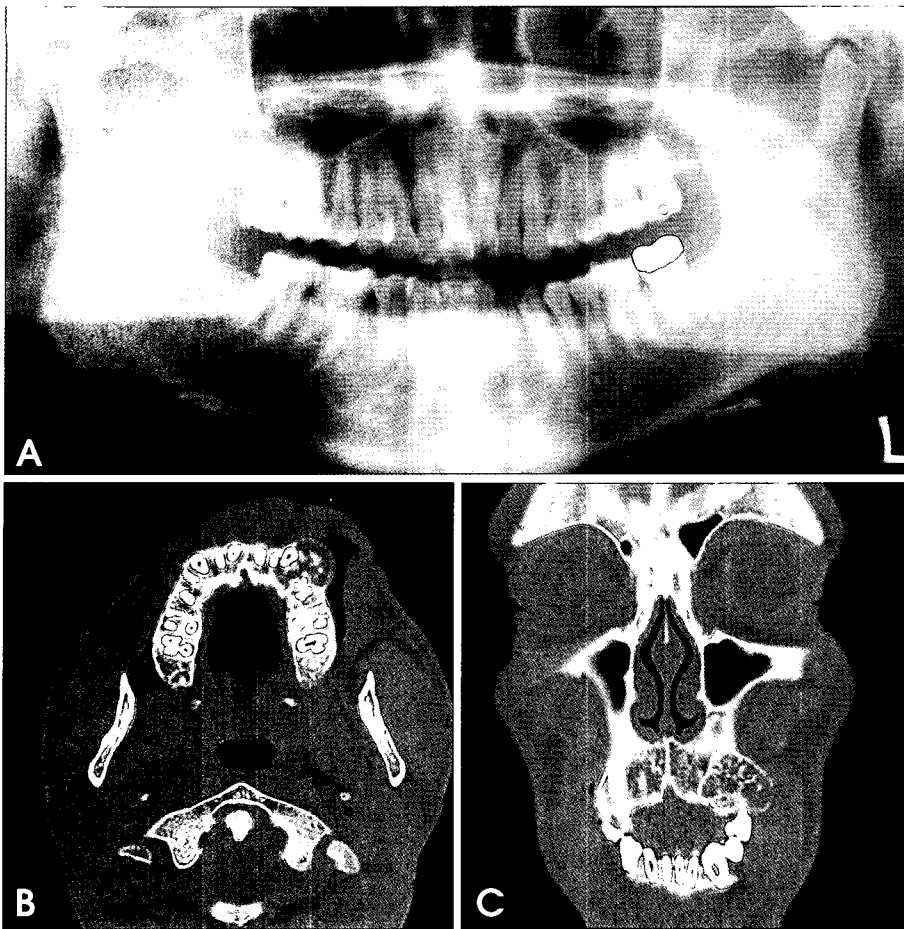
제거된 종괴의 조직병리학적 검사를 통해 범랑모세포종의 결합조직형성 변형으로 최종 진단되었다.

### 증례 III

37세 남자 환자로 7~8년 전에 발생한 좌측 상악 견치 부위의 무통성 종창을 주소로 내원하였다. 구강 내 임상 검사시 좌측 상악 견치에서 제2소구치에 이르는 단단한 종창이 촉진되었으며 압통은 없었다.

파노라마 방사선사진에서 경계가 불명확하면서 좌측 상악 견치와 제1소구치를 포함하는 방사선투과성/불투과성 혼합병소가 관찰되었다(Fig. 3A). 연관된 치아들에서 치근 외흡수는 관찰되지 않았으며, 다만 좌측 상악 제1소구치의 치근이 미약하게 후방으로 변위되어 있었다.

전산화단층사진에서는 파노라마 방사선사진과는 달리 병소의 골내 경계가 비교적 명확한 소견이었으며, 병소 내부에는 다수의 방사선투과성 물질들이 산재되어 있었다(Fig. 3B, C). 크기는  $22 \times 18 \times 18 \text{ mm}^3$  정도로 좌측 상악 견치와 제1소구치 사이에 중심을 두면서 치근을 이개하는 소견을 보였으며, 주로 협측으로 피질골을 심하게 팽윤시키는 반면, 구개측 피질골은 병소에 접촉되어 있으나 대체적으로 건전하였다(Fig. 3B).



**Fig. 3.** A. Panoramic radiograph shows a poorly defined mixed radiopaque-radiolucent lesion. Note the abnormal trabecular bone pattern and root divergence between left upper canine and first premolar. B. Axial CT scan. C. Coronal CT scan. Axial (B) and coronal (C) CT scan reveals a relatively well-defined lesion with multiple high attenuated foci and marked buccal expansion.



**Fig. 4.** Histopathologic photographs showing tumor islands in an abundant densely collagenized stroma. At the periphery of the tumor islands, there are lack of columnar cells and squamous or spindle-shaped cell metaplasia with parakeratinization. Note remnant bone that is correspondent with the radiopaque foci on the radiographs (H-E staining, original magnification  $\times 100$ ).

전신마취 하에 좌측 상악 측절치에서 제1대구치를 포함하는 En bloc resection을 시행하였으며 조직병리소견을 통해 범랑모세포종의 결합조직형성 변형으로 최종 진단되었다(Fig. 4). 그 후 15개월의 follow-up에서 재발은 관찰되지 않았다.

## 고 찰

결합조직형성 범랑모세포종은 일반적인 범랑모세포종과 유사하게 40대에 호발하는 것으로 알려져 있다. 결합조직형성 범랑모세포종의 평균연령은 Waldron과 el-Mofty에 의해 45.5세, Philipsen 등에 의해 43.6세로 보고되었으나 본 증례들의 평균 연령은 38.3세로 다소 낮았다.<sup>2,5</sup>

성별에 따른 발생 비율 또한 결합조직형성 범랑모세포종과 일반적인 범랑모세포종 모두 차이가 거의 없다는 것이 일반적인 견해이나, 일반적인 범랑모세포종이 근소하게 남성 호발 경향을 보이는 것과 달리 결합조직형성 범랑모세포종은 남성 대 여성의 비율이 1:2 정도로 여성 호발 경향이 크다는 보고도 있다.<sup>6</sup> 단지 세 증례에 불과하지만

본 증례에서도 남성 대 여성의 비율이 1:2로 여성 호발의 경향을 보이고 있다.

Kaffe 등<sup>6</sup>은 결합조직형성 법랑모세포종 15증례를 검토하여 일반적인 법랑모세포종의 81%가 하악에 발생하는 것과 달리 결합조직형성 법랑모세포종의 73%는 상악에 발생한다고 보고하였고, Philipsen 등<sup>5</sup>은 결합조직형성 법랑모세포종의 상악 대 하악의 발생 비율이 14:16 정도로 상하악 간에 비슷한 발생률을 나타내고 상하악 모두 소구치부 및 전치부에 대부분 발생하는 경향이 있다고 보고하였으며 이는 결합조직형성 법랑모세포종이 다른 법랑모세포종과는 달리 상악 및 전방부에 호발된다는 다른 보고들과 일치한다.<sup>7-15</sup> 본 증례 I과 증례 III은 상악 전방부에, 증례 II는 하악 소구치부에 병소가 발생되어 이와 같은 보고와 일치하는 경향을 보였다. Mintz와 Velez<sup>16</sup>는 이러한 결합조직형성 법랑모세포의 상악 호발 경향이 보다 공격적인 성향과 관련되어 있다고 보고하였는데 이들에 따르면 상악 전방부에 위치한 병소는 주변 구조물, 특히 상악동과 근접하여 있고 상악의 피질골이 매우 얇으므로 병소의 확산에 취약하여 결과적으로 하악 병소보다 빠르고 쉽게 확산될 수 있으며, 이것은 큰 병소에 대한 잠재력을 의미한다고 한다. 세 증례 모두 협측부의 팽윤을 주소로 내원하였고 구강 내 검사 및 방사선 검사에서 협측 피질골의 비박, 팽윤이 관찰되었으며 증례 II에서는 천공의 소견을 보이기도 하였다. 또한 일반적인 법랑모세포종이 뚜렷한 연관 치아의 치근 흡수를 보이는 것과 달리 결합조직형성 법랑모세포종에서는 치근 흡수가 드물다고 보고되었는데,<sup>6</sup> 본 증례들에서도 연관 치아의 변위는 관찰되나 치근 흡수의 소견은 관찰되지 않았으며 이러한 경향은 결합조직형성 법랑모세포종의 상악 호발 경향에 따른 병소의 급격한 협측 팽창과 관련된 것으로 생각된다.

본 증례들은 모두 방사선투과성 병소 내에 방사선불투과성 병변이 산재되어 있는 양상을 보였으며, 특히 증례 II에서는 증례 I과 증례 III에서 관찰되는 것보다 확연히 많은 방사선불투과성 물질이 관찰되었다. Philipsen 등<sup>5</sup>은 면역조직화학적 연구를 통해 결합조직형성 법랑모세포종에서 결합조직의 형성과 함께 골형성이 관찰된다고 보고하였는데, 병소 내 많은 부위에서 새로운 골조직 형성이 관찰되어지며 이러한 신생골 형성은 내부에서 관찰되는 밀도가 높은 방사선불투과성의 물질들에 대하여 설명해 준다고 주장하였다. 조밀한 섬유조직의 생성은 결합조직형성 법랑모세포종의 가장 뚜렷한 특징이라는 것에 관하여는 모든 보고자들에 있어 공통된 의견이었으나, 방사선사진에서 병소 내 산재하는 방사선불투과성 물질이 신생골에 의한 것인지 잔존된 골에 의한 것인지에 관해서는 의견이 분분하여 보다 많은 연구가 요구된다.

방사선사진에서 결합조직형성 법랑모세포종이 경계가 불명확한 양상을 보인다는 것은 많은 보고에서 동일하게

보고되고 있으나 Kaffe 등<sup>6</sup>은 80%에서 미만성의 혹은 불분명한 경계를 보이지만, 20%에서는 잘 경계 지어진 병소의 양상을 나타낸다고 보고하였다. 본 증례들의 경우 파노라마 방사선사진에서는 모두 경계가 불명확한 혼합병소의 양상으로 관찰되었으나 전산화단층사진에서는 증례 I과 증례 III의 경우 파노라마 사진과는 달리 병소가 다소 뚜렷한 양상을 보였으며, 증례 II는 전산화단층사진에서도 경계가 불명확한 혼재된 병소의 양상을 보여 차이를 나타내었다.

결합조직형성 법랑모세포종의 47%는 방실을 형성하지 않고, 33%는 단방성의 소견을 보이며, 단지 20%에서 다방성의 소견이 관찰된다는 보고가 있었는데<sup>6</sup> 본 증례들 중에서는 증례 I이 파노라마 사진 및 전산화단층사진 모두에서 비교적 뚜렷하게 다방성의 소견을 보이고 있었다.

증례 III은 발생 위치나 방사선학적 소견상 치관의 선양 치성종양과의 감별진단이 요구되며, 또한 모든 증례는 섬유-골화 병소와의 감별진단이 요구된다. 결합조직형성 법랑모세포종의 방사선 소견을 Eversole, Waldron과 El-Mofty 등은 양성 섬유-골화 병소와 유사하다고 보고하였으며,<sup>1,2</sup> 결합조직형성 법랑모세포종에 대한 여러 다른 보고들도 섬유-골화 병소와의 감별진단이 필요하다고 언급하였다.<sup>7-15</sup>

결합조직형성 법랑모세포종은 보고된 증례의 수가 적고, 적절한 follow-up이 시행된 보고가 거의 없어 정확한 수술 재발률을 알 수 없으나, 일반적인 법랑모세포종과 유사할 것으로 여겨진다. 따라서 결합조직형성 법랑모세포종의 재발률은 치료 방법의 영향을 받아 보존적 외과술을 시행할 경우 재발률이 증가되고, 근치적 외과술을 시행할 경우 재발률이 감소할 것으로 추측된다.<sup>17</sup> Pillai 등<sup>18</sup>에 의한 소파술 시행 후 상악에 재발한 결합조직형성 법랑모세포종에 관한 보고가 현재로서는 유일하며, 이는 보존적 치료시 재발률이 증가한다는 견해와 일치하는 양상을 보인다. 본 증례 I은 수술 5개월에 재발의 양상을 보였는데 이는 다방성 병소의 불완전한 제거로 인한 잔존 병소에 기인한 것으로 여겨지며, En bloc resection을 시행한 증례 I, III은 follow-up에서 재발의 소견을 보이지 않았다. 증례 I은 연관 치아를 희생하는 근치적 수술을 시행한 증례 II, III과 달리 다방성의 소견을 보였음에도 연관치아를 보존하는 보존적 수술을 시행하였음에 주목하며, 법랑모세포종의 높은 재발률을 고려, 보다 근치적인 치료법이 추천된다고 할 수 있겠다.

이와 같이 결합조직형성 법랑모세포종은 임상적, 방사선학적 특징에 있어 일반적인 법랑모세포종과는 뚜렷이 구별되는 특징을 나타낸다고 알려져 있다. 그러나 본 보고를 포함하여 결합조직형성 법랑모세포종의 특징들이 많이 보고되고 있으나 아직은 그 수가 적고 이론의 여지가 있으며, 특히 방사선학적 검사는 일차적으로 시행되어 진단의

중요한 자료로 이용되므로 방사선학적 연구를 포함한 보다 많은 보고와 연구가 계속되어야 할 것이다.

### 참 고 문 헌

1. Eversole LR, Leider AS, Hansen LS. Ameloblastomas with pronounced desmoplasia. *J Oral Maxillofac Surg* 1984; 42 : 735-40.
2. Waldron CA, el-Mofty SK. A histopathologic study of 116 ameloblastomas with special reference to the desmoplastic variant. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 63 : 441-51.
3. 손정익, 김동윤, 최갑식. 결체중식성 범람모세포종. *대한구강악안면 방사선학회지* 1995; 25 : 151-8.
4. Nah KS, Cho BH. Desmoplastic ameloblastoma. *Korean J Oral Maxillofac Radiol* 1995; 25 : 555-9.
5. Philipsen HP, Ormiston IW, Reichart PA. The desmo- and osteoplastic ameloblastoma. Histologic variant or clinicopathologic entity? Case reports. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1992; 21 : 352-7.
6. Kaffe I, Buchner A, Taicher S. Radiologic features of desmoplastic variant of ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 76 : 525-9.
7. Yoshimura Y, Saito H. Desmoplastic variant of ameloblastoma: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1990; 48 : 1231-5.
8. Tanimoto K, Takata T, Suei Y, Wada T. A case of desmoplastic variant of a mandibular ameloblastoma. *J Oral Maxillofac Surg* 1991; 49 : 94-7.
9. Ashman SG, Corio RL, Eisele DW, Murphy MT. Desmoplastic ameloblastoma. A case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 75 : 479-82.
10. Durmus E, Kalayci A, Ozturk A, Gunhan O. Desmoplastic ameloblastoma in the mandible. *J Craniofac Surg* 2003; 14 : 873-5.
11. Manuel S, Simon D, Rajendran R, Naik BR. Desmoplastic ameloblastoma: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60 : 1186-8.
12. Beckley ML, Farhood V, Helfend LK, Alijanian A. Desmoplastic ameloblastoma of the mandible: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60 : 194-8.
13. Saran RK, Nijhawan R, Vasishta RK, Rattan V. Desmoplastic ameloblastoma: a case report with fine-needle aspiration cytologic findings. *Diagn Cytopathol* 2000; 23 : 114-7.
14. Kawai T, Kishino M, Hiranuma H, Sasai T, Ishida T. A unique case of desmoplastic ameloblastoma of the mandible: report of a case and brief review of the English language literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999; 87 : 258-63.
15. Fukushima D, Kobayashi H, Takeda I, Yamane G, Tanaka Y. A case of desmoplastic ameloblastoma of the maxilla. *Bull Tokyo Dent Coll* 1997; 38 : 223-7.
16. Mintz S, Velez I. Desmoplastic variant of ameloblastoma: report of two cases and review of the literature. *J Am Dent Assoc* 2002; 133 : 1072-5.
17. 김영미, 장현중, 김진수, 박희경, 신흥인, 김성국. Desmoplastic ameloblastoma의 치험 1례. *대한악안면성형재건외과학회지* 1996; 18 : 144-52.
18. Pillai RS, Ongole R, Ahsan A, Radhakrishnan RA, Pai KM. Recurrent desmoplastic ameloblastoma of the maxilla: a case report. *J Can Dent Assoc* 2004; 70 : 100-4.