

재발된 단낭성 법랑아세포종의 증례보고

원광대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *구강악안면외과학교실, **구강악안면병리학교실, 원광치의학연구소

이병도 · 이 완 · 김진화 · 최동훈 · 팽준영* · 김은철**

Recurrent unicystic ameloblastoma in mandibular anterior teeth area

Byung-Do Lee, Wan Lee, Jin-Hoa Kim, Dong-Hoon Choi, Jun-Young Paeng*, Eun-Cheol Kim**

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, *Oral & Maxillofacial Surgery, **Oral & Maxillofacial Pathology, School of Dentistry, Wonkwang University, Wonkwang Dental Research Institute

ABSTRACT

The unicystic ameloblastoma (UA) is a variant of the solid or multicystic ameloblastoma, a less encountered variant of the ameloblastoma. It appears more frequently in the second or third decade with no sexual or racial predilection. It is almost exclusively encountered asymptotically in the posterior mandible. We report a case of a 43-year old patient with UA, who had previously undergone a surgical treatment on the same site about 1 year ago, this lesion recurred and presented as an exophytic gingival lesion in the anterior mandibular region. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2008; 38 : 121-4)

KEY WORDS : Ameloblastoma, Mandible, Tumor

법랑아세포종은 양성 종양이지만 국소적으로 침윤성 성장 양상을 보이는 치성 상피성 종양으로서,¹ 치판 (dental lamina)이나 치성 상피 잔사 등으로부터 유래한다. 동의어로서 adamantinoma 등이 사용되기도 하였지만, 병소의 조직병리학적 특성이 발육중인 치배 모자상기 (cap stage)의 법랑모세포 성분과 유사한 면이 있기 때문에 ameloblastoma²라는 용어가 널리 통용되고 있으며, 병소 내에 치아 경조직이 형성되지 않기 때문에 방사선투과상을 보이는데 대개는 다방성의 투과성 병소로서 관찰된다. 1977년 Robinson과 Martinez³은 법랑아세포종 중 보다 보존적인 방법으로 치료가 가능하고 재발율이 낮은 경향을 보이는 병소들에 대해 처음으로 단낭성 법랑아세포종 (unicystic ameloblastoma)이라는 용어를 사용하였으며 세계보건기구 (1992)⁴의 치성종양 분류법에서도 독립된 병소로 제시된 바 있다.

단낭성 법랑아세포종은 임상적, 방사선학적, 육안적으로는 낭종의 특징을 보이나 병리조직학적으로 낭강의 상피에서 전형적인 법랑아세포종의 특징을 보이는 병소로서

전체 법랑아세포종의 약 5-22%⁵를 차지한다고 보고되고 있다. 임상 증상이 없이 병소가 진행되는 경우가 많기 때문에 방사선학적 검사에서 우연히 발견이 되며 주로 10-20대의 젊은 연령층의 하악 제3대구치, 상행지 등에서 호발되며^{5,6} 특히 매복치와 관련이 있다고 알려져 있다.⁷

본 증례는 특징적으로 43세 남성의 하악골 전치부에서 발생한 단낭성 법랑아세포종의 증례이며 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례보고

43세 남성 환자가 하악전치부의 불편감을 주소로 내원 하였으며 주소가 발현된지는 약 2개월 정도 되었다고 하였다. 약 1년여 전에도 개인치과의원에서 동일부위 낭종 소파술로 추측되는 치료를 시행 받은 병력이 있다고 하였다. 구강 검사시 설측으로 연조직이 증식된 상이 관찰되었다 (Fig. 1). 파노라마 방사선사진에서 하악 좌측 중절치로부터 우측 측절치에 이르는 단방성의 방사선투과성 병소가 관찰되었으며 좌, 우측 중절치는 병소에 의해 이개되어 보였다 (Fig. 2). 전산화단층촬영상에서 주위 건강골과의 경계는 비교적 명료한 편이었고 협측과 설측 피질골은 비박, 팽윤되어 보였으며 부분적으로 천공된 상도 관찰되어 보

접수일 (2008년 4월 9일), 수정일 (2008년 5월 14일), 채택일 (2008년 5월 19일)
Correspondence to : Prof. Byung-Do Lee
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Wonkwang University, 344-2, Shinyong dong, Iksan city, Jeonbuk 570-711, Korea
Tel) 82-63-859-2912, Fax) 82-63-857-4002, E-mail) eebydo@wonkwang.ac.kr

였다(Fig. 3).

이상의 임상적, 방사선학적 소견을 종합한 결과 단낭성의 법랑아세포종, 치성각화낭, 또는 중심성거대세포육아종을 의심하였다.

조직병리학적 소견에서는 기저세포층의 핵이 기저막에서 멀어지는 쪽으로 이동하는 역극성(reverse polarization)을 보이면서 결체조직 방향으로 법랑아세포 조직이 증식되어진 모양이 관찰되고 있었으며 (intramural type)(Fig. 4) 최종적으로 단낭성의 법랑아세포종으로 진단되었다.

저자들은 개인 치과의원에서 시행된 1년반 전의 치료가 불완전하여 병소가 재발한 것으로 판단하였다. 병소 부위는 하악골 부분 절제술을 통해 제거되었으며 그 치유 상태를 관찰중이다.

고 찰

단낭성(unicystic) 법랑아세포종의 경우 방사선학적 혹은

육안적으로 단방성(unilocular)을 보이는 경우가 일반적이다. 그러나 Leider 등⁸은 이러한 단낭성 법랑아세포종의 일부는 방사선학적으로 다방성을 보이며, 조직 현미경 검사에서도 낭종부위가 돌출된 모양(peudopod-like cystic extension)을 보인다고 하였으며 특히 이러한 경우 낭종성 법랑아세포종(cystic ameloblastoma)으로 지칭하였다. 단낭성 법랑아세포종이 아닌 다방성, 주변성의 경우에는(solid or multicystic type, peripheral type) 다방성 형태가 많으나 일부 병소는 단방성을 보인다고 보고되고 있다.⁹

단낭성 법랑아세포종은 방사선 영상에서 매복치와 연관되어 함치성낭과 유사한 경우가 많으나 경우에 따라서는 매복치와 연관이 없는 치성각화낭, 잔류낭(residual cyst) 등과 유사하게 보인다. 단낭성 법랑아세포종의 기원 조직이 이미 존재하는 치성낭 조직에서 유래되는지, 아니면, 병소 자체가 종양성(cystic neoplasm arising de novo)이고 법랑아세포종이 낭종화가 되었는지는 여전히 의문점이라고 알려져 있다.

법랑아세포종은 단낭성 이외에도 보통형/다방성(solid or multicystic), 주변성(peripheral type) 등으로 세분될 수 있으



Fig. 1. Intraoral examination revealed exophytic gingival mass on the lingual side of lower anterior teeth.

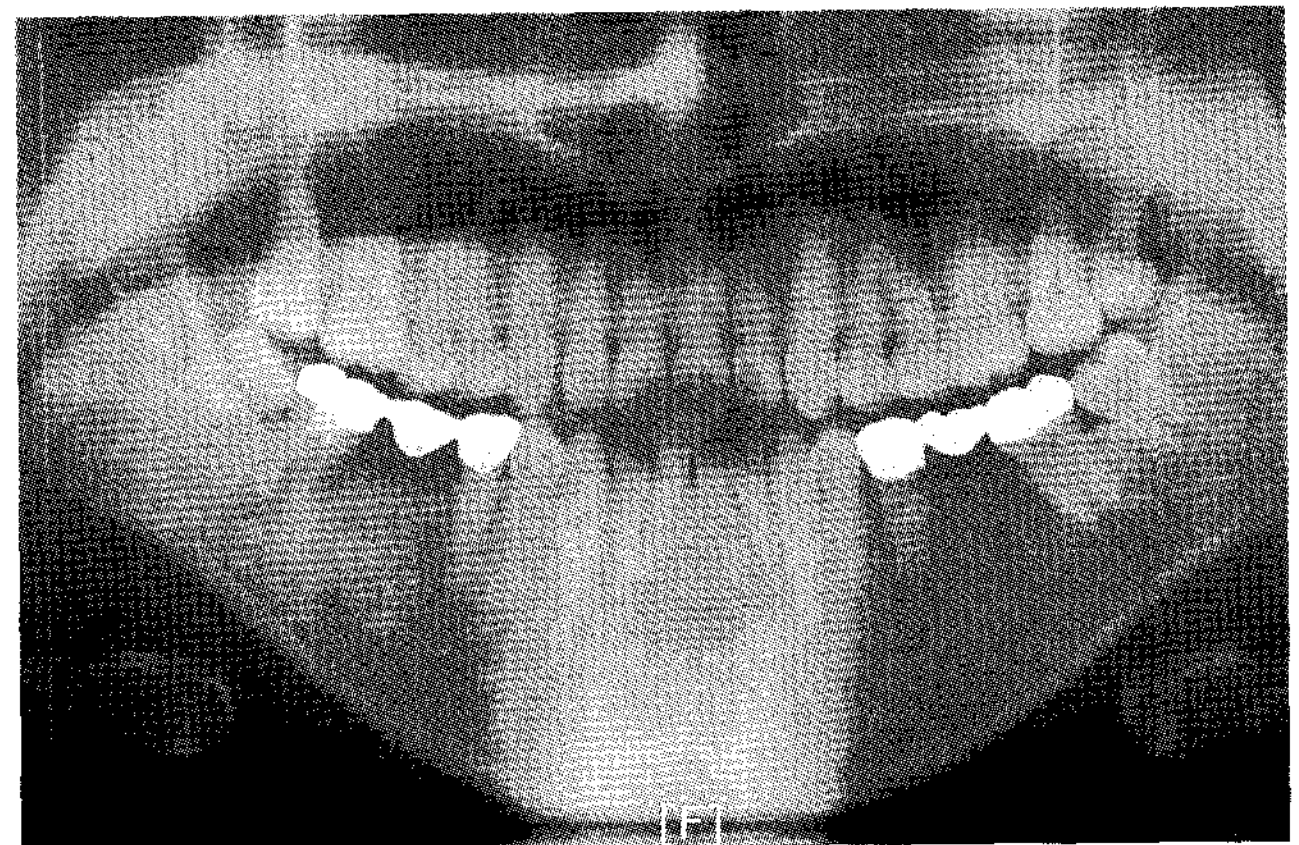


Fig. 2. Panoramic radiograph revealed uni-locular radiolucent lesion on lower anterior teeth. This lesion displaced the adjacent teeth.

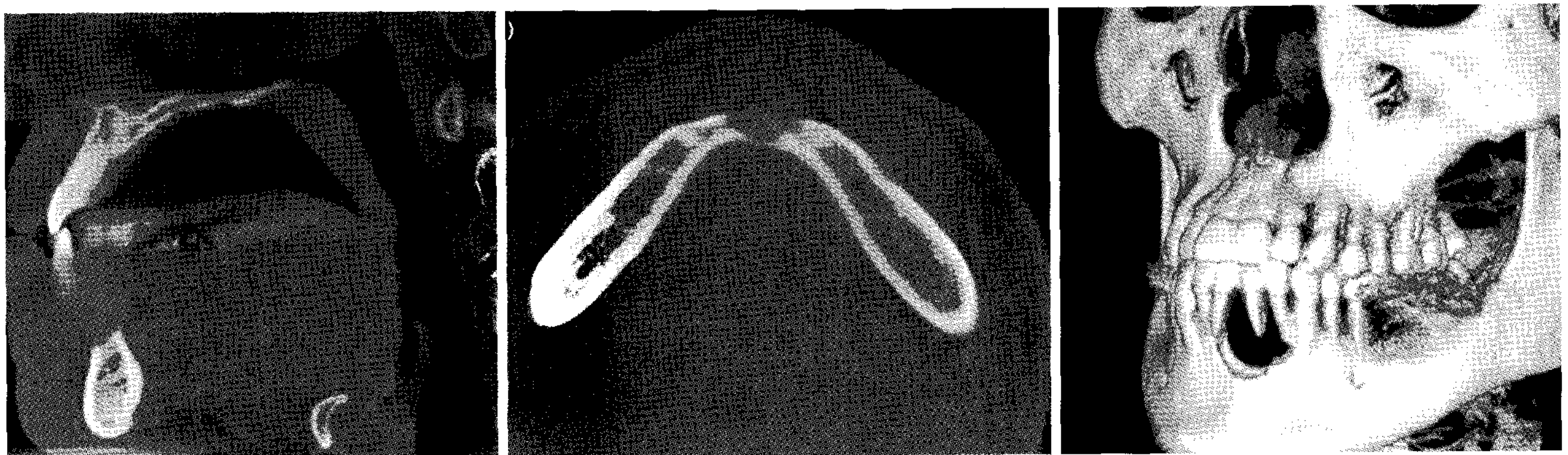


Fig. 3. Computed radiograph shows well demarcated margin, no cortication, bucco-lingual and coronal bone expansion.



Fig. 4. Pathologic findings shows cystic cavity with epithelium, intramural growth of ameloblast tissues (A), classical ameloblastomatous features, such as ameloblast like cells and reverse polarization of nuclei (B) (Hematoxylin-Eosin stain).

며 단낭성 치료법은 보통형에 비해 보다 보존적이다.¹⁰ 단낭성 법랑아세포종의 경우 적출술(enucleation)에 의한 치료 경과의 반응이 좋고 10% 정도의 낮은 재발율을 보이나,^{3,11} 다낭성의 적출술 시행시에는 55-90%¹²⁻¹⁴의 높은 재발율을 보인다고 알려져 있다.

1988년 Ackermann 등¹⁵이 단낭성 법랑아세포종을 현미경적 소견상의 종양조직의 위치에 의해 (1) 외장 상피내 존재, (2) 내강형 (intraluminal), (3) 벽재성 (intramural) 등으로 분류한 바 있다(Fig. 5). 종양이 낭강 내로 확장되거나 (intra-mural) 외장상피에 국한되어 있는 경우 적출술에 의해 완전히 제거될 수 있기 때문에 예후가 비교적 양호하다고 알려져 있다.

Li 등⁷은 단낭성 법랑아세포종 33증례를 15년 동안 추적 분석한 결과 30증례가 하악골에 발생되었고 22증례가 단낭성이었으며 평균 재발기간은 7년이었는데 결합조직 내에 tumor islands가 있는 경우 그 확률이 더욱 높다고 보고

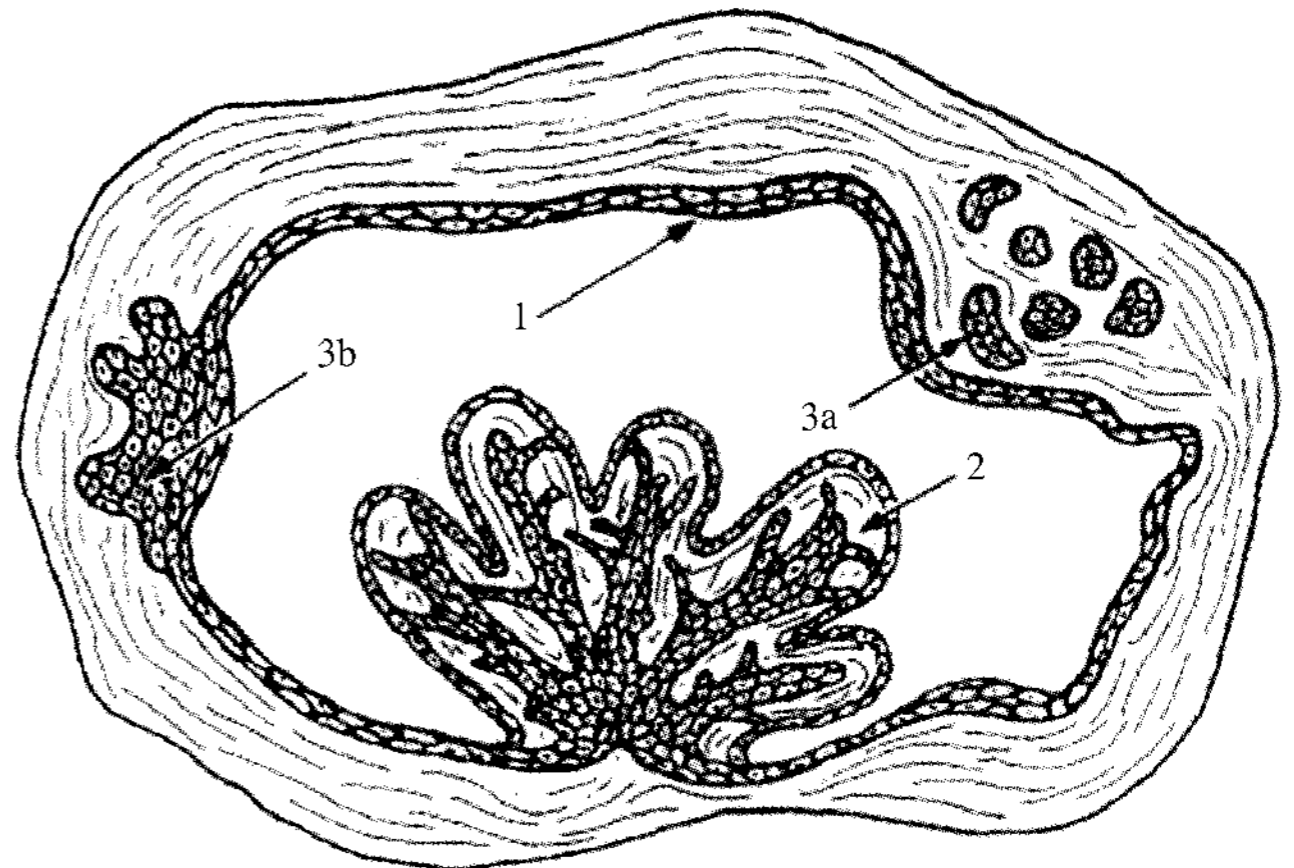


Fig. 5. Histologic subtypes of unicystic ameloblastoma according to Ackermann et al.¹⁵ (1) Fibrous cyst wall lined by ameloblastomatous epithelium. (2) Intraluminal proliferation of ameloblastomatous tissue. (3) Intramural nodule with islands of ameloblastoma tissue (This figure was presented on the article of Philipsen & Reichart⁶).

한 바 있다.

단낭성 법랑아세포종의 방사선학적으로 단방성인 경우가 많으며, 단낭성이면서 단방성인 경우는 젊은 연령층에서 발현빈도가 높다.⁹ 또한 하악 제3대구치 부위나 상행지 부위에서 쉽게 발견이 되며 보다 팽윤 소견을 보이고 치근흡수를 일으키는 경향이 있다.^{16,17}

법랑아세포종은 하악골 중에서도 후방부위에서 호발하는 경향이 있으며 소구치부에서 발생하는 경우는 약 20% 정도라고 보고되었으며¹⁸ Reichart 등⁵은 흑인의 경우 악골 전방부에서 호발되는 경향이 있다고 하였으나 단낭성의 경우 하악전방부에서 보고된 증례는 희귀한 편이다. 본 증례는 발생부위가 후방구치가 아닌 전방부에서 관찰된 소견이 특징적이라고 할 수 있다.

전산화단층영상에서 주위의 건강한 골과의 경계는 비교적 명료한 편이었고 과골화의 소견은 관찰되지 않았다. 또한 협·실측 피질골은 비박 팽윤되어 보였으며 천공된 상도 관찰되었다.

단낭성 법랑아세포종은 10대와 20세 사이에 가장 흔하게 발생한다고 알려져 있다. 드물지만, 병소가 40세 정도까지 발견되기도 한다. 본 증례는 43세의 남성에서 발견되었기 때문에 일반적인 단낭성 법랑아세포종과 달리 발생 연령 또한 매우 특징적인 소견이라고 판단되었다.

방사선 영상에서 단방성의 방사선 투과상으로 관찰되면서 경계가 명료한 경우 낭종성 병소로 진단되는 경우가 많지만 단낭성 법랑아세포종의 가능성을 배제해서는 안 된다. Wang 등¹⁹은 임상적으로 함치성낭으로 진단된 16.3%가 조직학적으로 단낭성 법랑아세포종이었다고 보고한 바 있으며 남성 병소에 대한 생검 결과에 의존하여 치료 술

식을 결정하는 것이 필요하다고 사료된다.

본 증례는 1년여 전 외과적으로 치료 받았으나 재발되어 설측으로 연조직 증식을 보이면서, 특징적으로 43세 남성의 하악골 전치부에서 발생한 단낭성 법랑아세포종이었다.

참 고 문 헌

1. Gardner DG. Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996; 82 : 660-9.
2. Churchill H. Histologic differentiation between certain dentigerous cysts and ameloblastoma. *Dent Cosmos* 1934; 74 : 1173-78.
3. Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer* 1977; 40 : 2278-85.
4. Kramer I, Pindborg J, Shear M. The world health organization: histological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. Berlin, Germany: Springer Verlag; 1992. p. 11-13.
5. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995; 31B : 86-99.
6. Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma. A review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol* 1998; 34 : 317-25.
7. Li TJ, Wu YT, Yu SF, Yu GY. Unicystic ameloblastoma: a clinicopathologic study of 33 Chinese patients. *Am J Surg Pathol* 2000; 24 : 1385-92.
8. Leider AS, Eversole LR, Barkin ME. Cystic ameloblastoma. A clinicopathologic analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1985; 60 : 624-30.
9. MacDonald-Jankowski DS, Yeung R, Lee KM, Li TK. Ameloblastoma in the Hong Kong Chinese. Part 2: systematic review and radiological presentation. *Dentomaxillofac Radiol* 2004; 33 : 141-51.
10. MacDonald-Jankowski DS, Yeung R, Lee KM, Li TK. Ameloblastoma in the Hong Kong Chinese. Part 1: systematic review and clinical presentation. *Dentomaxillofac Radiol* 2004; 33 : 71-82.
11. Gardner DG, Corio RL. Plexiform unicystic ameloblastoma. A variant of ameloblastoma with a low-recurrence rate after enucleation. *Cancer* 1984; 53 : 1730-5.
12. Waldron CA. Ameloblastoma in perspective. *J Oral Surg* 1966; 24 : 331-3.
13. Sehdev MK, Huvos AG, Strong EW, Gerold FP, Willis GW. Proceedings: Ameloblastoma of maxilla and mandible. *Cancer* 1974; 33 : 324-33.
14. Gardner DG, Pecak AM. The treatment of ameloblastoma based on pathologic and anatomic principles. *Cancer* 1980; 46 : 2514-9.
15. Ackermann GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol* 1988; 17 : 541-6.
16. Stoelinga PJ, Bronkhorst FB. The incidence, multiple presentation and recurrence of aggressive cysts of the jaws. *J Craniomaxillofac Surg* 1988; 16 : 184-95.
17. Voorsmit RA. The incredible keratocyst: a new approach to treatment. *Dtsch Zahnarzt Z* 1985; 40 : 641-4.
18. Small IA, Waldron CA. Ameloblastomas of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1955; 8 : 281-97.
19. Wang J. Unicystic Ameloblastoma. *Taiwan Yi Xue Hui Za Zhi* 1985; 1363-70.