하악 전치부에서 발생한 선양치성종양의 증례보고

원광대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *구강악안면외과학교실,
**을지대학교 의과대학 병리학교실
이병도 · 이 완 · 권경환* · 팽준영* · 손현진**

A case report of Adenomatoid Odontogenic Tumor in the mandibular anterior region

Byung-Do Lee, Wan Lee, Kyung-Hwan Kwon*, Jun-Young Paeng*, Hyun-Jin Son**
*Department of Oral & Maxillofacial Radiology, *Oral & Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Wonkwang University, **Department of Pathology, Eulji University, School of Medicine*

ABSTRACT

Adenomatoid odontogenic tumor (AOT) is a tumor of odontogenic epithelium with varying degrees of inductive changes in the connective tissue. The common radiographic appearance of AOT is a unilocular radiolucency associated with an unerupted tooth. Detectable radiopacities have been reported in many cases. We present a case of AOT in a 9-year old-female patient. Cystic lesion with numerous, punctuate radiopaque foci was observed on the anterior region of the mandible. These radiopacities were situated mostly on the buccal side of impacted tooth on the multiplanar images of cone beam computed tomograph. Characteristic duct like structures and amyloid like material were observed on histopathologic finding. (***Korean J Oral Maxillofac Radiol 2009; 39 : 99-102***)

KEY WORDS : Tumor, Odontogenic; Mandible

선양치성종양(adenomatoid odontogenic tumor, AOT)은 서서히 성장하는 혼합성의 치성종양으로서,[1] 동의어로는 "Epithelioma adamantinum",[2] "adeno-ameloblastoma"[3] 등이 사용되었다. 발생빈도가 비교적 드문 종양으로서 치성 종양의 약 3%를 차지하며,[4] 과오종으로 취급되기도 한다.[5] 미맹출치와 관련되는 경우에는 방사선사진상에서 함치성낭과 유사한 양상을 보이지만, 많은 증례에서 낭성 병소 내에 석회화 물질이 산재되어 보이기 때문에 석회화치성낭(Calcifying odontogenic cyst, COC) 법랑모섬유치아종(ameloblastic fibro-odontoma) 등과 유사하게 관찰되며, 방사선학적 감별이 어려운 경우가 많다. 미맹출치 주변의 석회화 물질의 특징적인 방사선학적 소견에 대한 연구들이 비교적 미미하게 보고되었기 때문에 감별이 어려운 경우가 많으며 석회화 물질의 근원(origin)에 대한 많은 고찰이 필요하다고 생각한다.

최근 임상에서 사용빈도가 증가하고 있는 콘빔 방식의 전산화단층영상(cone beam CT, CBCT)을 이용하면 재구성 영상을 통해 시상면, 절단면상 등을 얻을 수 있으므로 악골 병소의 3차원적 위치 파악 및 선명한 방사선사진상을 기술할 수 있는 장점이 있다.[6]

본 증례보고에서는 9세의 여아 하악 전치부에서 발생된

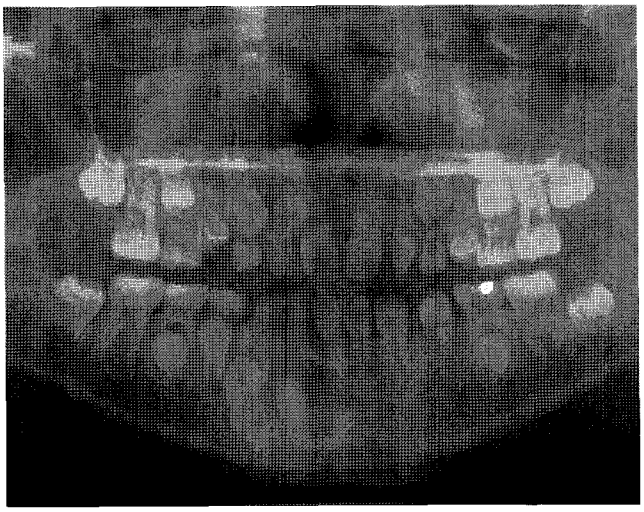

Fig. 1. Panoramic radiograph showed cystic lesion around impacted right mandibular central incisor and increased follicular space.

접수일 (2009년 4월 2일), 수정일 (2009년 4월 21일), 채택일 (2009년 4월 28일)
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

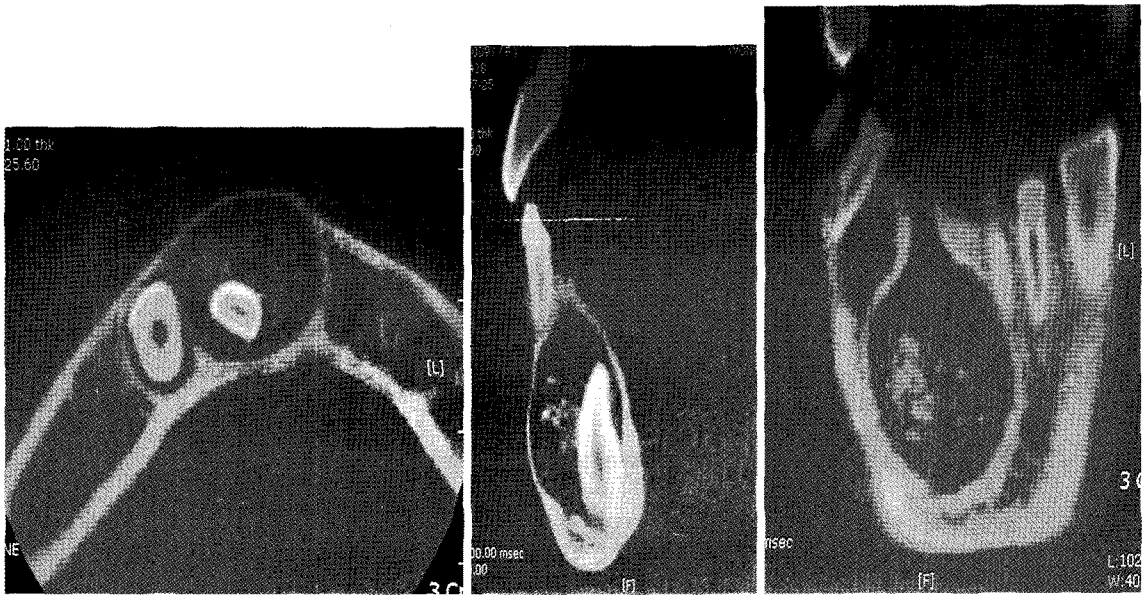

Fig. 2. CBCT showed multiple scattered calcified materials in the cystic lesion. These small calcified material were found on the labial aspect of impacted tooth.

선양치성종양이 파노라마 방사선사진과 CBCT상에서 특징적인 방사선 소견을 보였으므로 문헌 고찰과 함께 이에 보고하는 바이다.

증 례

9세의 여아가 개인치과의원에서 하악 전치부의 낭성 병소로 원광대 대전치과병원에 의뢰되었다. 구강검사시 하악 좌측의 영구 전치들은 맹출되어 있었으나 우측 전치부에는 유치들이 잔존되어 보였으며, 유측절치는 결손되어 있었다. 파노라마 방사선사진상에서 경계가 명확한 낭성 병소가 미맹출된 하악 우측중절치 치관을 중심으로 관찰되었고 매복 견치의 여포 간극(follicular space)이 증가되어 보였다(Fig. 1). CBCT상에서는 석회화 물질이 매복 치관의 협측에 산재되어 있었으며 그 크기는 작고 숫자가 많아 보였다. 협측 피질골은 약간 비박, 팽융된 상을 보였으며(Fig. 2), 병소 적출시 염주알(bead) 모양의 수 많은 알갱이들이 연조직 덩어리와 액체 속에 존재하고 있음을 확인할 수 있었다(Fig. 3). 병리조직학적으로 종양은 방추형 세포가 결절 형태로 배열되어 있었고 방추형 세포 사이로 특징적인 관 구조물(ductal structure)이 흩어져 관찰되어 있었으며 관 구조물은 원주형 세포가 둥글게 배열되어 있었다. 종양세포간 균질성의 호산성 침착물은 Congo red 염색에 양성반응을 보이고 편광현미경(polarizing microscope)에서 이중굴절(birefringence)을 보여 아밀로이드로 확인하였으며 이러한 부분에 석회화가 동반되었다(Fig. 4).

환자의 병소는 적출되었으며 그 예후를 추적 관찰중이다.

Fig. 3. These calcified materials were bead-shape embedded in the soft tissue and fluid of the lesion.

고 찰

선양치성종양(AOT)은 관(duct-like) 모양의 구조를 가진 상피성분과 다양한 유도 능력(inductive)이 있는 결체 조직으로 구성된 질환이며, 부분적으로 낭종 부위(cystic)와 종괴(mass)부분으로 구성되어 있다.[7] 10대에서 호발하며 남성보다는 여성에서 발생 빈도가 높으나, 술 후 재발율은

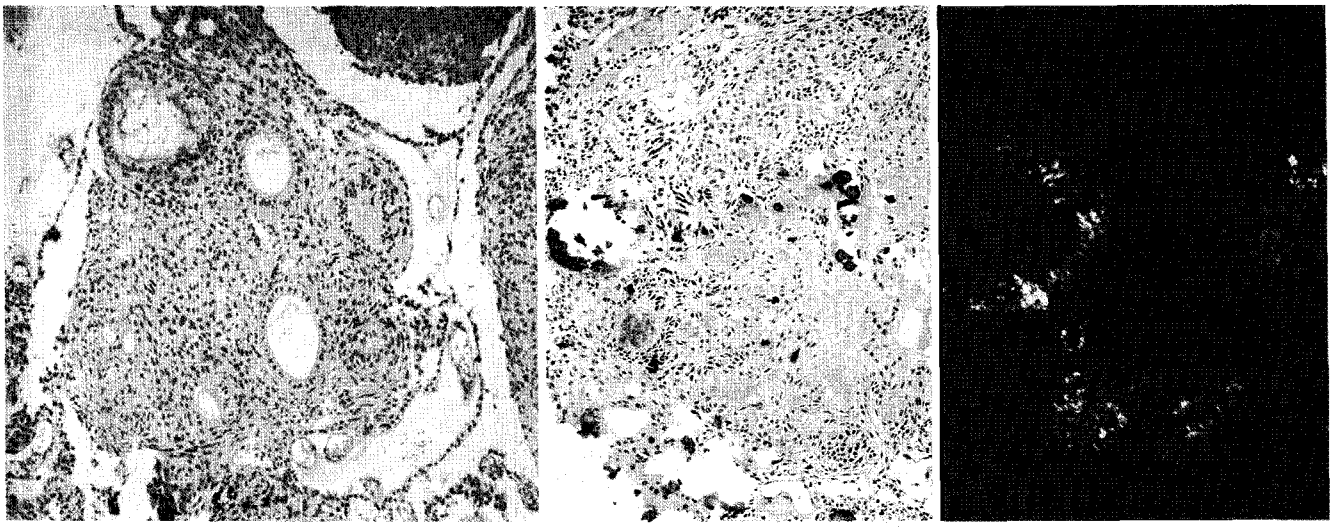

Fig. 4. Microscopically, the tumor reveals the nodular proliferation of spindled epithelial cells, ductal structure, and a focal area of calcification (Left). Congo red stain reveals homogeneous pink-red deposits of amyloid and yellow-green birefringence of the deposits when observed by polarizing microscope (Right).

매우 낮다. 매복치와 관련되지 않는 경우(extrafollicular)나 주변성(peripheral, extraosseous) 병소가 관찰되기도 하지만 매복치 관련 증례가 많이 보고되고 있으며, 호발 부위는 전치부 그 중에서도 상악 견치부가 호발 부위이다.[8] 병소 내 석회화 물질이 관찰되지 않는 경우에는 함치성낭과 혼돈되기 쉬운데, 함치성낭의 경우 방사선사진상에서 백악법랑경계부 상방 부위에 낭성 병소가 존재한다.

AOT는 치판(dental lamina)[9] 혹은 법랑기(enamel organ)[10]에서 기원되는 것으로 알려져 있으며 방사선사진상에서 주위 건강골과의 경계가 명확하고, 병소가 매복치 치관의 하방으로 연장되거나 치아를 둘러싸는 모습을 보인다. 낭성 병소 내에는 종종 석회화 물질이 관찰되는데[8,11] 이 경우 석회화치성낭(COC), 법랑모섬유치아종 등과의 감별이 필요하다.[1]

법랑모섬유치아종은 법랑질, 상아질, 백악질 등의 치아 성분이 방사선사진상에서 특징적으로 표현될 수 있으므로 AOT와의 감별이 비교적 쉬우나, COC의 경우에는 다양한 방사선학적 소견을 보이므로 방사선학적 감별이 어려운 경우가 많다.

COC는 조직병리학적 소견에서 유령세포(ghost cell)가,[12] AOT의 경우 관상 구조(duct like structure)가 특징적으로 존재한다. 그러나 방사선사진에서 낭성 병소 내에 석회화 물질들이 관찰되는 경우, 두 질환간의 감별이 용이하지 않다. 석회화 물질의 정체는 COC의 경우 유령세포(ghost cell) 석회화[12]와 관계있으며, AOT의 석회화 물질의 정체는 상아질상(dentinoid), 백악질(cementum), 미성숙된 법랑질 등이며, 이러한 물질들이 다양한 크기의 덩어리 형태로 관찰된다고 보고되었다.[3,13]

AOT 방사선불투과상 물질의 형태는 점상 형태도 보고된 바 있으며,[4,11] 본 증례도 크기가 작고 숫자가 많은 점상 형태를 보였다. 앞으로 AOT의 방사선불투과상 물질의 형태 연구에서는 점상 혹은 크기가 보다 큰 덩어리(mass) 모양의 발생 빈도에 관해 조사를 진행해보는 것도 의의가 있으리라고 사료된다.

AOT와 COC가 병발된 증례도 보고되었으며,[8,14] 이는 치아형성 과정이 길고 복잡하기 때문에 여러 가지 형태의 치성 종양이나 낭종이 혼합된 병소들이 관찰되기 때문이라고 생각된다.[14,15]

AOT와 석회화상피성치성종양(calcifying epithelial odontogenic tumor,CEOT)이 병발된 증례들이 종종 보고되고 있으며,[10,16-20] CEOT의 경우에는 amyloid 석회화에 대한 보고가 이루어지고 있다.[21]

AOT 단독 병소에서도 amyloid가 관찰된 보고들이 있으며,[22,23] 본 증례에서도 amyloid로 의심되는 부위가 조직병리학적 소견에서 관찰되었다. AOT 내의 amyloid가 방사선사진상의 불투과상으로 표현 가능성에 대한 연구는 앞으로 더욱 진행되는 것이 필요하다고 생각한다.

본 증례는 하악 전치부에 발생된 AOT로서, CBCT상에서 특징적인 점상의 방사선 불투과상을 보였으며, 조직병리학적 소견에서 amyloid소견이 관찰된 증례였다.

참 고 문 헌

1. Korean Council for the Faculty of Oral and Maxillofacial Radiology. Oral and Maxillofacial Radiology. 4th ed. Seoul: Narae Publishing, Inc.; 2008. p. 390-1.
2. Unal T, Cetingul E, Gunbay T. Peripheral adenomatoid odontogenic tumor: birth of a term. J Clin Pediatr Dent 1995; 19 : 139-42.
3. Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumour: facts

and figures. Oral Oncol 1999; 35 : 125-31.
4. Konouchi H, Asaumi J, Yanagi Y, Hisatomi M, Kishi K. Adenomatoid odontogenic tumor: correlation of MRI with histopathological findings. Eur J Radiol 2002; 44 : 19-23.
5. Rick GM. Adenomatoid odontogenic tumor. Oral Maxillofac Surg Clin North Am 2004; 16 : 333-54.
6. Araki M, Kameoka S, Mastumoto N, Komiyama K. Usefulness of cone beam computed tomography for odontogenic myxoma. Dentomaxillofac Radiol 2007; 36 : 423-7.
7. Kramer I, Pindborg J, Shear M. The World Health Organization: histological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. Berlin, Germany: Springer Verlag; 1992. p. 11-3.
8. Zeitoun IM, Dhanrajani PJ, Mosadomi HA. Adenomatoid odontogenic tumor arising in a calcifying odontogenic cyst. J Oral Maxillofac Surg 1996; 54 : 634-7.
9. Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, Wu PC, Reichart PA. Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. J Oral Pathol Med 1992; 21 : 348-52.
10. Miyake M, Nagahata S, Nishihara J, Ohbayashi Y. Combined adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of case and ultrastructural study. J Oral Maxillofac Surg 1996; 54 : 788-93.
11. Toida M, Hyodo I, Okuda T, Tatematsu N. Adenomatoid odontogenic tumor: report of two cases and survey of 126 cases in Japan. J Oral Maxillofac Surg 1990; 48 : 404-8.
12. Li TJ, Yu SF. Clinicopathologic spectrum of the so-called calcifying odontogenic cysts: a study of 21 intraosseous cases with reconsideration of the terminology and classification. Am J Surg Pathol 2003; 27 : 372-84.
13. Khan MY, Kwee H, Schneider LC, Saber I. Adenomatoid odontogenic tumor resembling a globulomaxillary cyst: light and electron microscopic studies. J Oral Surg 1977; 35 : 739-42.
14. Weiping Zhanga YC, Ning Genga, Dongmei Baoa, Mingzhong Yang. A case report of a hybrid odontogenic tumour: Ameloblastoma and adenomatoid odontogenic tumour in calcifying cystic odontogenic tumour. Oral Oncol Extra 2006; 42 : 287-90.
15. Kwon HR, Han JW, Lee JH, Choi HM, Park IW, Lee SK. Ameloblastic fibro-odontoma with a change of calcifying odontogenic cyst. Korean J Oral Maxillofac Radiol 2001; 31 : 181-4.
16. Damm DD, White DK, Drummond JF, Poindexter JB, Henry BB. Combined epithelial odontogenic tumor: adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1983; 55 : 487-96.
17. Bingham RA, Adrian JC. Combined epithelial odontogenic tumor-adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of a case. J Oral Maxillofac Surg 1986; 44 : 574-7.
18. Takeda Y, Kudo K. Adenomatoid odontogenic tumor associated with calcifying epithelial odontogenic tumor. Int J Oral Maxillofac Surg 1986; 15 : 469-73.
19. Okada Y, Mochizuki K, Sugimura M, Noda Y, Mori M. Odontogenic tumor with combined characteristics of adenomatoid odontogenic and calcifying epithelial odontogenic tumors. Pathol Res Pract 1987; 182 : 647-57.
20. Chong Huat Siar, Kok Han N. Combined calcifying epithelial odontogenic tumor and adenomatoid odontogenic tumor. Int J Oral Maxillofac Surg 1987; 16 : 214-6.
21. Vickers RA, Dahlin DC, Gorlin RJ. Amyloid-containing odontogenic tumors. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1965; 20 : 476-80.
22. Lee KW. A light and electron microscopic study of the adenomatoid odontogenic tumor. Int J Oral Surg 1974; 3 : 183-93.
23. Smith RR, Olson JL, Hutchins GM, Crawley WA, Levin LS. Adenomatoid odontogenic tumor: ultrastructural demonstration of two cell types and amyloid. Cancer 1979; 43 : 505-11.