

하악 체부 골절부위에 이환된 백악질 골화성 섬유종: 증례보고

정태영 · 김소현 · 조현주 · 박상준
인제대학교 의과대학 부산백병원 구강악안면외과학교실

Abstract

Cemento-Ossifying Fibroma in the Fracture Area of Mandibular Body: a Case Report

Tae-Young Jung, So-Hyun Kim, Hyun-Joo Jo, Sang-Jun Park

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Busan Paik Hospital, College of Medicine, Inje University, Busan, Korea

Cemento-ossifying fibroma is a true osteogenic neoplasm. It is also called as ossifying fibroma or cementifying fibroma. Small lesions seldom cause any symptoms and are detected only on radiographic examination. Large lesions result in a painless swelling of the involved bone. In radiographic features the lesion most often is well defined and unilocular. It may appear completely radiolucent, or more often varying degrees of radiopacity. It is composed of fibrous tissue that contains a variable mixture of bony trabeculae, cementum-like spherules, or both. Treatment of most lesions generally is enucleation of tumor. However, some lesions which have grown large and destroyed considerable bone, may necessitate surgical resection and bone grafting. This case was the bony lesion that was found by accident in patient with mandibular left body and subcondylar fracture. In radiographic examination, there was a mixed radiolucent and radiopaque lesion in mandibular left body area with fracture line. We treated on mandibular left body and subcondylar fracture and enucleated the lesion on the left body area simultaneously. At surgical exploration, the lesion was well demarcated from the surrounding bone, thus permitting relatively easy separation of the tumor from its bony bed. In histopathologic examination, the lesion contained bony trabeculae and cementum-like spherules within a background of cellular fibrous connective tissue. It finally diagnosed as cemento-ossifying fibroma from the result of biopsy.

Key words: Cemento-ossifying fibroma, Mandibular body fracture

서론

백악질 골화성 섬유종은 골화성 섬유종, 백악질 형성 섬유종 등으로 불리어 지는 양성 섬유골성 병소이다. 임상적으로 원인은 불명확하고, 30, 40대의 젊은 성인에서 많이 발견되며 특히 여성에서 호발하는 경향이 있다. 상악에 비하여 하악에서 호발하고 하악 소구치 및 대구치가 가장 흔히 발생하는 부위이다. 작은 병소의 경우 거의 증상이 없으며 방사선 검사에서 주로 발견된다. 큰 병소의 경우 이환된 악골의 동통 없는 종창을 보인다. 대부분 무통성으로 증식되는 질환이므로 환자들은 주로 안모 불균형이나 치조골의 팽

윤을 주소로 내원하게 된다.¹⁾

방사선 소견상 대부분 단방성을 보이며, 투과상을 보이거나 다양한 정도의 불투과상이 혼재된 양상을 보인다. 병소의 경계는 명확하며 섬유성 피막을 나타내는 방사선투과성대가 나타나며 인접 골에서 경화성 변연이 나타나기도 한다. 병소에 인접한 치아에 있어 치근 이개나 치근의 흡수가 관찰되기도 한다. 병리조직 소견상 잘 경계가 지어지는 섬유성 조직으로 구성되며 다양한 세포의 성숙도와 석회화된 물질을 함유하고 있다. 석회화 된 부분은 다양한 골소주와 등근 백악질 양 물질 등으로 구성되어 있다.¹⁾

본 증례는 외상에 의한 하악골 골절환자에서 방사선 검사

상 조기에 발견된 하악골 골내 병소에 관한 보고이다. 방사선 검사에서 하악 좌측 체부 및 과두 하 골절이 관찰되었으며, 골절 부위와 동일한 하악골 좌측 체부에서 골 내 병소가 관찰되었다. 환자는 골절 부위에 대하여 소형 금속판을 이용한 관혈적 정복술을 시행 받았으며 또한 양성 병소에 대하여 적출술을 동시에 시행 받았다. 수술 후 조직검사 결과 백악질 골화성 섬유종으로 최종 진단되었으며 술 후 양호한 경과를 보였다.

증례보고

2009년 8월 20일 24세 남성 환자가 하악골절 치료를 주소로 본과에 의뢰되었다. 병력검사상 교통사고로 복부, 우측 족배부, 우측 주관절부 등에 열상 및 찰과상을 수상하여 타 병원에서 변연절제술 등의 처치 후 하악골절 치료를 위해 전원 되었다. 전신병력상 특이소견은 관찰되지 않았으며, 임상검사상 하악 좌측 체부 및 과두하 부위의 통증 및

종창 그리고 개구 제한 등의 소견이 관찰되었다. 방사선 검사상 하악 좌측 체부 및 좌측 과두하 부위에 골절 선이 관찰되었으며 또한 하악 좌측 체부에 골절선과 함께 방사선 불투과상과 투과상이 혼재된 골 내 병소가 관찰되었고 병소의 경계는 비교적 명확하였다(Fig. 1). CT 상에서 하악골 좌측 체부 피질골의 팽윤을 보이는 섬유골성 병소가 관찰되었으며 방사선 불투과성과 투과성이 혼재된 양상이 관찰되었다(Fig. 2).

비기관 삽입술을 통한 전신마취를 시행하였으며, 구강 외 절개를 통하여 하악 좌측 과두 하 골절부위에 대한 관혈적 정복술을 시행하였다. 또한 구강 내 절개를 통하여 병소 부위의 접근을 시도하였고, 병소에 대한 적출술 및 하악 좌측 체부 골절 부위에 대한 관혈적 정복술을 시행하였다(Fig. 3). 술 중 병소는 인접 골과 명확한 경계를 보였으며, 인접 골로부터 쉽게 적출이 되었다. 병소는 단단하고 작은 가루들이 뭉쳐져 있는 것 같은 임상양상을 보였다(Fig. 4).

적출된 병소에 대한 병리조직 검사가 시행되었으며, 병리



Fig. 1. Initial panoramic view shows fracture lines on the left body and subcondylar area of mandible and a intra-bony lesion with radiolucency and radiopacity.



Fig. 3. Postoperative panoramic view shows that fracture lines on the left body and subcondylar area of the mandible were treated with miniplates and the intrabony lesion was enucleated.



Fig. 2. Initial axial view of CT shows a intra-bony fibro-osseous lesion with radiolucency and radiopacity and cortical bone expansion on the mandibular left body area.

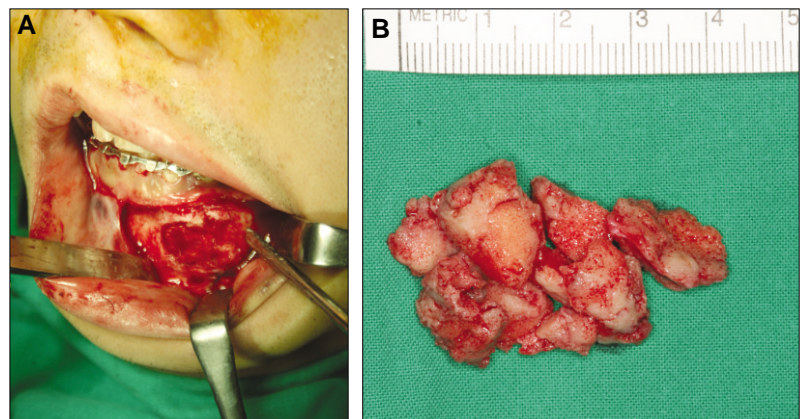


Fig. 4. Intraoperative photographs. A, The lesion was enucleated; B, Enucleated lesion.

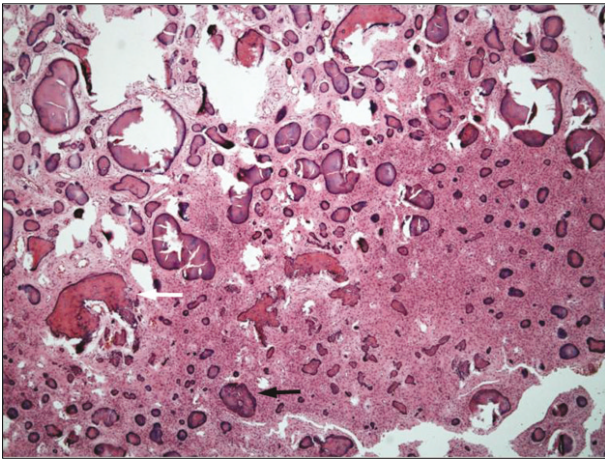


Fig. 5. Photomicrograph shows bony trabeculae (white arrow) and cementum-like spherules (black arrow) within a background of cellular fibrous connective tissue (H&E stain, x 10).

조직소견상 세포성 섬유 결합조직 내에 골세포를 함유한 불규칙한 모양의 골성 석회화 물질과 함께 다양한 크기의 둥근 백악질 양 물질들이 관찰되었으며, 병소는 백악질 골화성 섬유종으로 최종 진단되었다(Fig. 5). 환자의 골절 부위에 대한 정복술 및 병소에 대한 치료가 잘 이루어졌으며 합병증 없이 양호한 경과를 보였다.

고 찰

백악질 골화성 섬유종은 골화성 섬유종, 백악질 형성 섬유종 등으로 불리며 지는 양성 섬유골성 병소이다. Montgomery²⁾가 현재의 "ossifying fibroma"라는 병명을 처음 사용하기 까지 외과의, 방사선학자, 병리학자들간에 병소에 대한 많은 혼돈이 있었다. Waldron 등³⁾은 골화성 섬유종(ossifying fibroma)과 백악질 섬유종(cementifying fibroma) 및 백악질 골화성 섬유종(cemento-ossifying fibroma)의 감별진단은 병소 내에 존재하는 석회화 물질의 형성 정도와 종류에 따라 결정될 뿐, 근본적으로 같은 병소이기 때문에 임상적으로 그 치료방법 및 예후 판정에 큰 의의는 없다고 하였다. 중요한 것은 섬유성 이형성증(fibrous dysplasia)과 백악질 골화성 섬유종의 감별진단이며, 이를 위해서는 정확한 병리조직학적 진단이 매우 중요하다.⁴⁾

Lichtenstein 등⁵⁾이 골화성 섬유종을 단골성 섬유성 이형성증의 조직학적 변형이라고 소개한 이후 병리학자들 사이에서 골화성 섬유종과 섬유성 이형성증의 진단과 분류에 있어서 많은 혼란이 있었다. Waldron 등³⁾의 임상적, 병리조직학적인 연구를 통해 이 두 질환은 서로 별개의 것으로 구분되며, 그 치료방법도 다른 것으로 알려졌다. 악골에 발생

한 섬유성 이형성증과 백악질 골화성 섬유종의 감별 시 Slootweg 등⁶⁾은 병소부와 인접골의 접촉면 양상과 석회화 물질의 병소 내 존재 유무가 중요하다고 보고하였으며, 조직검사 시 표본은 주위조직을 포함해야 함을 주장하였다.

조직학적으로 섬유성 이형성증은 전형적으로 세포성 섬유 결합조직 내에 미성숙된 불규칙한 형태의 골소주를 함유하는 것으로 나타난다. 각 골소주들은 각각 분리되어 존재하고, 작은 구형의 석회화 물질은 드물게 나타난다. 백악질 골화성 섬유종에서는 woven bone과 층판골 및 구형의 조각들의 혼합물들이 존재하는 것과 달리 섬유성 이형성증에서는 균일한 형태의 석회화 물질들이 존재한다. 이처럼 병소 내부에 존재하는 석회화 물질들의 형태의 다양성이 백악질 골화성 섬유종을 섬유성 이형성증과 감별진단 하는 한 특징이 된다. 또한 백악질 골화성 섬유종에서는 병소가 주위 인접골과 잘 경계를 이루고 있어 병소가 인접 골로부터 분리가 잘되며, 일부 백악질 골화성 섬유종 병소에서는 병소 주위로 섬유성 피막이 존재하기도 한다. 이와 달리 섬유성 이형성증에서는 병소 경계부위가 인접 정상 골과 직접적으로 결합되어 있고 병소의 경계부위에 피막이나 경계선이 존재하지 않는다.¹⁾ 본 증례의 경우 병소의 경계가 명확하며 조직학적으로 세포성 섬유 결합조직 내에 골세포를 함유한 불규칙한 모양의 골성 석회화 물질과 함께 다양한 크기의 둥근 백악질 양 물질들이 관찰되었으므로 백악질 골화성 섬유종으로 진단되었다.

임상적으로 백악질 골화성 섬유종은 30-40대의 젊은 성인에서 많이 발견되며 특히 여성에서 호발하는 경향이 있다. 상악에 비하여 하악에서 호발하고 하악 소구치 및 대구치가 가장 흔히 발생하는 부위이다. 작은 병소의 경우 거의 증상이 없으며 방사선 검사에서 주로 발견된다. 큰 병소의 경우 이환된 악골의 동통 없는 종창을 보인다. 대부분 무통성으로 증식되는 질환이므로 환자들은 주로 안모 불균형이나 치조골의 팽윤을 주소로 내원하게 된다.¹⁾ 본 증례에 있어서도 환자는 하악골절에 대한 치료를 주소로 본과에 내원하여 방사선 검사 상에서 하악 좌측 체부의 골절선 주위로 우연히 양성 종양성 병소가 발견되었다. 병력취취상 교통사고 이전에는 병소 부위의 동통이나 안모 불균형의 증상을 호소하지 않았으며 병소의 유무를 인지하지 못하였다. 환자는 하악골절에 대한 방사선 검사를 통하여 백악질 골화성 섬유종 병소에 대한 조기 진단과 치료를 시행 받을 수 있었다.

방사선학적으로 섬유성 이형성증은 방사선불투과성 병소의 경계가 주위 정상 골과 구별할 수 없게 섞여지는 간유리(ground glass) 혹은 오렌지 껍질 모양(orange peel appearance)인 것과 달리 백악질 골화성 섬유종은 대부분 단방성을 보이며, 투과상을 보이거나 다양한 정도의 불투과상이 혼재된 양상을 보인다. 또한 백악질 골화성 섬유종의 경계는 명확하며 섬유성 피막을 나타내는 방사선투과성 대

가 나타나며 인접 골에서 경화성 변연이 나타나기도 한다. 병소에 인접한 치아에 있어 치근 이개나 치근의 흡수가 관찰되기도 한다.¹¹⁾

또한 방사선학적으로 백악질 골화성 섬유종은 치근단 백악질 이형성증(periapical cemental dysplasia)과 감별이 필요하다. 백악질 골화성 섬유종은 단발성인 경우가 많은데 비해 치근단 백악질 이형성증은 다발성으로 발생하는 경우가 많고, 하악 전치부에 호발하고 병소의 경계가 보다 과골화 되어 있는 경우가 많다. 반면에 백악질 골화성 섬유종은 하악소구치와 대구치 부위에 자주 관찰된다. 백악질 골화성 섬유종은 병소 내부에 석회화가 관찰되는 선양치성종양(adenomatoid odontogenic tumor) 및 석회화 상피성 치성종양(calcifying epithelial odontogenic tumor) 등과도 감별해야 한다. 선양치성종양은 어린 환자에서 매복된 상악 견치와 관련되어 나타나는 드문 병소로 경계는 명확하고 병소 내의 석회화로 이 종양을 진단할 수 있다. 석회화 상피성 치성종양은 주로 하악의 하악체 후방과 하악지 부위에서 방사선투과상과 방사선불투과상이 혼합된 소견을 보인다.⁷⁾

백악질 골화성 섬유종의 치료에 대해서는 일반적으로 적출술을 시행한다. Sciubba와 Younai⁸⁾는 백악질 골화성 섬유종의 초기 치료로는 적출술이나 소파술이 선택된다고 보고하였고, Hauser 등⁹⁾은 보존적 적출술을 시행하고 병소가 급격히 성장하는 경우에는 광범위한 절제술을 추천하였다. Marvel 등¹⁰⁾은 골화성 섬유종이 중안면부와 부비동에 발생 시 광범위한 외과적 절제술이 보존적 절제술이나 소파술 보다 이점이 더 많다고 보고하였다. 또한 상악골에 발생한 백악질 골화성 섬유종은 하악골에 비해 보다 공격적이며 재발 경향도 크기 때문에 치료의 초기 단계부터 보다 광범위한 외과적 접근이 필요하다는 보고도 있다.¹¹⁾ 반면 재발된 상악골 병소에 있어서 상악골 절제술 보다는 보존적 절제술이 이환된 부위의 형태와 기능유지에 더 양호한 결과를 나타낸다는 보고도 있다.¹²⁾ 본 증례에서 환자는 좌측 체부 및 좌측 과두하 골절 부위에 대하여 소형 금속판을 이용한 관혈적

정복술을 시행 받았으며, 동시에 좌측 체부 골절부와 동일한 부위에 발생한 양성 병소에 대하여 보존적 적출술을 시행 받았다. 수술 후 조직검사 결과 백악질 골화성 섬유종으로 최종 진단되었으며 술 후 양호한 경과를 보인 증례를 보고하는 바이다.

References

1. Neville BW, Damm DD, Allen CM *et al* : Oral & maxillofacial pathology, 2nd ed. Philadelphia, WB Saunders, 2002, p.556.
2. Montgomery AH : Ossifying fibroma of the jaw. *Archive of Surg* 15 : 30, 1927.
3. Waldron CA, Giansanti JS : Benign fibro-osseous lesions of the jaws : A clinical radiologic-histologic review of sixty five cases. *Oral Surg* 33 : 340, 1973.
4. Harrison DF : Osseous and fibro-osseous conditions affecting the craniofacial bones. *Ann Otol Rhin* 93 : 199, 1984.
5. Lichtenstein L, Jaffe HL : Fibrous dysplasia of bone: a condition affecting one, several, or many bones, the graver cases of which may present abnormal pigmentation of skin, premature sexual development, hyperthyroidism or still other extra skeletal abnormalities. *Arch Pathol* 33 : 777, 1942.
6. Slootweg PJ, Muller H : Differential Diagnosis of Fibro-Osseous Jaw Lesions : A Histological Investigation on 30 Cases. *J Craniomaxillofac Surg* 18 : 210, 1990.
7. Association of Korean professors of oral & maxillofacial radiology : Oral & maxillofacial radiology, 3rd ed. Seoul, Narae Publishing, 2001, p.413.
8. Sciubba JJ, Younai F : Ossifying fibroma of the mandible and maxilla : review of 18 cases. *J Oral Pathol Med* 18 : 315, 1989.
9. Hauser MS, Freije S, Payne RW *et al* : Bilateral ossifying fibroma of the maxillary sinus. *Oral Surg* 68 : 759, 1989.
10. Marvel B, Marsh MA, Catlin FI : Ossifying fibroma of the mid-face and paranasal sinuses : Diagnostic and therapeutic considerations. *Otolaryngol Head Neck Surg* 104 : 803, 1991.
11. Kwon DH, Kim SY, Nam JS *et al* : Cemento-ossifying fibroma extended to maxilla and nasoethmoidal area : a case report. 23 : 553, 2001.
12. Sweet RM, Bryarly RC, Kornblut AD *et al* : Recurrent cementifying fibroma of the jaws. *Laryngoscope* 91 : 1137, 1981.

저자 연락처

우편번호 614-735
 부산광역시 부산진구 개금동 633-165
 인제대학교 의과대학 부산백병원 구강악안면외과학교실
정태영

원고 접수일 2010년 06월 14일
 게재 확정일 2010년 08월 19일

Reprint Requests

Tae-Young Jung

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
 Busan Paik Hospital, College of Medicine, Inje University
 633-165 Gaegeum-dong, Busanjin-gu, Busan, 614-735, Korea
 Tel: +82-51-890-6360 Fax: +82-51-896-6675
 E-mail: dwjty@hanmail.net

Paper received 14 June 2010
 Paper accepted 19 August 2010