

하악 우측 측절치에 발생한 선양 치성 종양

박미선 · 박호원 · 서현우 · 이주현

강릉원주대학교 치과대학 소아치과학교실 및 구강과학연구소

국문초록

선양 치성 종양(adenomatoid odontogenic tumor)은 악골에 드물게 발생하는 치성 기원의 종양이다. 이전에는 법랑모세 포종(ameloblastoma)의 한 종류로 여겨졌으나 양성이며 재발되는 경우는 극히 드물다. 상악 견치에 호발하며 대개는 무증상이지만 크기가 천천히 커져 무통성 종창을 일으킬 수 있다. 방사선학적으로 합치성 낭종(dentigerous cyst) 및 단방성 법랑모세포종(unicystic ameloblastoma)과 매우 유사하다. 일반적으로 보존적인 소파술(curettage) 및 적출술(enucleation)을 통해 치료한다.

본 증례는 하악 우측 측절치 미맹출을 주소로 내원한 10세 여자 환아에서 방사선 사진 검사를 통해 치아의 매복 및 병소를 확인하고 적출술을 시행하였다. 치아에는 브라켓을 부착하여 교정적 정출을 유도하였다. 조직학적 검사를 통해 선양 치성 종양으로 확진되었으며 양호한 치료 결과를 보였기에 보고하는 바이다.

주요어: 선양 치성 종양, 합치성 낭종, 단방성 법랑모세포종

I. 서론

선양 치성 종양(adenomatoid odontogenic tumor)은 전체 치성 종양의 3~7% 정도의 빈도로 발생하는 비교적 드문 악골 종양이다^{1,2)}. 하악보다 상악에서 발생빈도가 높으며 특히 상악 견치에 호발한다³⁾. 여자의 발생빈도가 남자보다 두 배 정도 높다고 보고되고 있으며 10대에 진단되는 경우가 대부분이다^{3,4)}. 특별한 임상 증상은 없지만 천천히 크기가 커져 종창을 야기하기도 한다⁴⁾. 인접치의 변위나 흡수는 극히 드물다⁵⁾.

1905년 최초로 선양 치성 종양에 대한 보고가 있었다⁶⁾. 하지만 1970년 초반까지 법랑모세포종(ameloblastoma)의 한 종류로 여겨졌으며 adenoameloblastoma, ameloblastic adenomatoid tumor, adamantinoma, epithelioma adamantinum, teratomatous odontoma 등 다양한 용어로 불려졌다⁷⁾. 1969년 Philipsen과 Birn은 처음으로 선양 치성 종양이라는 용어를 제안하였고⁸⁾, 1971년 WHO는 이를 승인하였다. 선양 치성 종양이라는 이름에서 도관같은 구조물이 상피 성분 사이에 퍼져 있는 선 또는 선종양 모양을 보이는 조직학적 특징을

보임을 알 수 있다.

선양 치성 종양은 법랑모세포종과 달리 양성이며, 재발되는 경우는 매우 드물다. 이환된 치아의 발거에 대해서는 이견이 있으나⁹⁻¹¹⁾ 대개 광범위한 수술은 필요하지 않다. 보존적인 소파술이나 적출술이 선택적인 치료 방법이다^{4,10)}.

Philipsen와 Reichart는 임상병리학적으로 intraosseous follicular, intraosseous extrafollicular, peripheral type으로 분류하였다(Fig. 1)¹²⁾. Follicular type은 매복치와 연관이 있으며 합치성 낭종 및 follicular cyst와 매우 유사한 방사선학적 소견을 나타낸다. Extrafollicular type은 매복치와 관련이 없으며 발생 위치에 따라 잔존낭, 측방 치주낭, 치근단낭 등과 방사선학적 소견이 유사하다. Peripheral type은 치은 구조물에 부착되어 있으며 치은 섬유종(gingival fibroma) 또는 치은 종(epulis)과 임상적 형태가 비슷하다.

본 증례는 하악 우측 측절치에 발생한 선양 치성 종양을 외과적으로 적출하고 교정적 견인을 통해 이환된 치아의 양호한 맹출을 얻었기에 보고하는 바이다.

교신저자 : 박 호 원

강원도 강릉시 강릉대학교로 120 / 강릉원주대학교 치과대학 소아치과학교실 및 구강과학연구소 / 033-640-2464 / pedo@gwnu.ac.kr

원고접수일: 2011년 08월 05일 / 원고최종수정일: 2011년 09월 30일 / 원고채택일: 2011년 10월 08일

II. 증례 보고

10세의 여아가 하악 우측 측절치가 나지 않는다는 것을 주소로 내원하였다. 특별한 의학적 병력 및 치과적 병력은 없었다.

임상 검사에서 하악 좌측 측절치는 맹출하였으나 하악 우측 측절치는 관찰되지 않았다(Fig. 2). 방사선 사진 검사에서 하악 우측 측절치의 매복과 방사선 투과상 병소가 관찰되었다(Fig. 3). 병소는 치근면까지 확장되어 있었다. 인접치의 치근 변위나 흡수는 관찰되지 않았다. 치근단 방사선 사진에서 불완전한 방사선투과상을 나타내었다(Fig. 4). 통증 및 종창 등의 임상 증상은 없었다.

술 전 잠정적으로 follicular cyst로 진단하였다. 낭종 적출술

및 치아의 교정적 정출을 시행하기로 하였다. 국소 마취 하에 병소를 제거하고 브라켓을 치아에 부착하였다(Fig. 5). 조직편을 포르말린에 고정 후 조직학적 검사를 시행하였다. 상피 세포들이 도관 구조물을 형성하였으며 원주상의 세포가 2중으로 배열되어 장미 꽃송이 모양을 이루고 있었다(Fig. 6). 호산구와 불규칙한 석회화 물질이 상피 내에 산재되어 있었다(Fig. 7). 조직병리학적으로 선양 치성 종양으로 최종 진단되었다.

창상 치유 후 elastic thread를 교정용 와이어에 연결하여 치아 이동을 시작하였다. 술 후 2개월이 경과되었을 때 치아의 구강 내 맹출이 확인되었다. 술 후 1년이 되었을 때 치아는 정상적인 위치에 배열되었다(Fig. 8, 9). 이후 3년 동안 정기검진을 시행하였으며 재발되지 않았다.

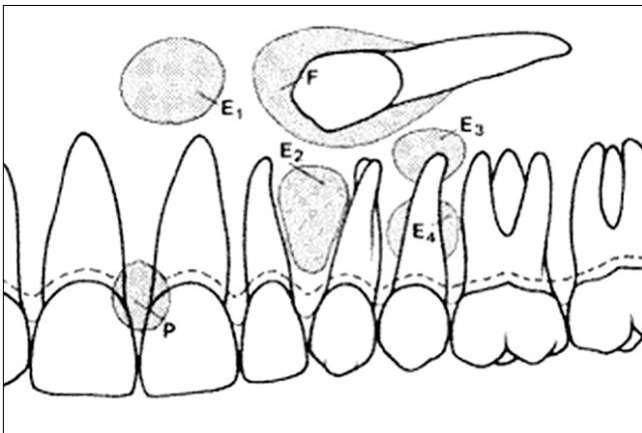


Fig. 1. Clinicopathologic variants of adenomatoid odontogenic tumor. F: Follicular type. E1-E4: Extrafollicular type. P: Peripheral type. The follicular type is associated with an impacted tooth, simulating the image of dentigerous cyst. Extrafollicular type has no relation with an impacted tooth, may be confused residual, radicular or lateral periodontal cyst. Peripheral type is attached to the gingival structures.



Fig. 2. Occlusal view of initial visit.

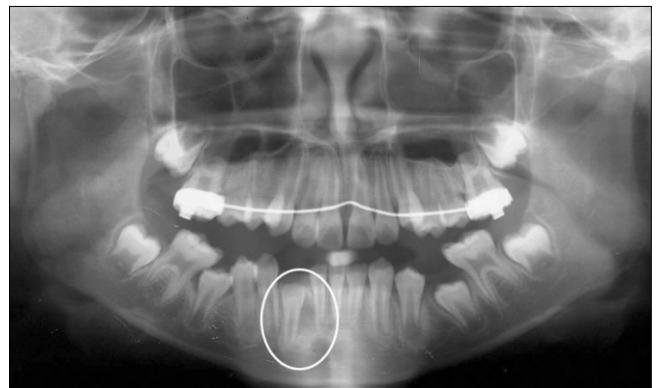


Fig. 3. Panoramic view of initial visit. It is observed impacted mandibular right later incisor.



Fig. 4. Periapical view of initial visit. Radiolucent lesion was seen, extending distally from the crown of the tooth towards the root.

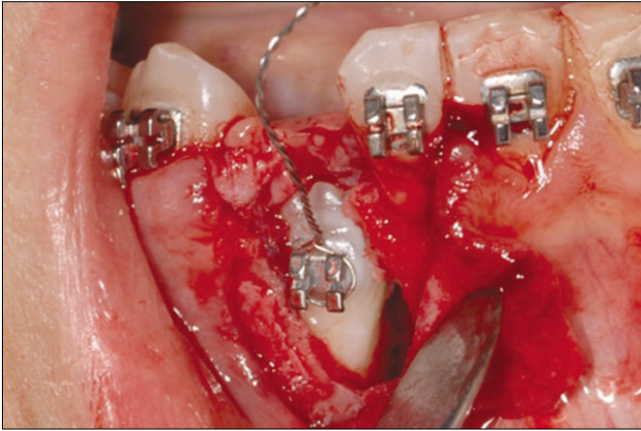


Fig. 5. Surgical enucleation was carried out under local anesthesia, and bracket was attached on mandibular right later incisor.



Fig. 8. Occlusal view of 1 year after surgical operation. Mandibular right lateral incisor was seen in regular position.

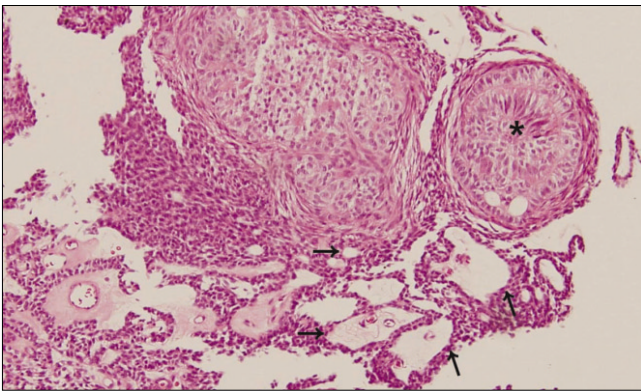


Fig. 6. Epithelial cells forming duct-like structures(→). Columnar cells forming rosetlike structure(*) with minimal stromal connective tissue.

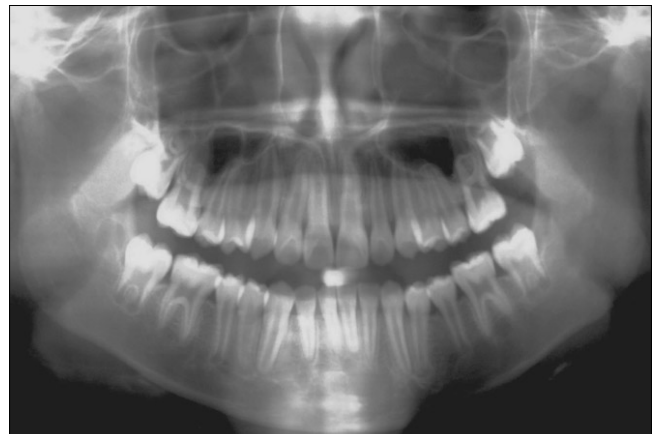


Fig. 9. Panoramic view of 1 year after surgical operation.

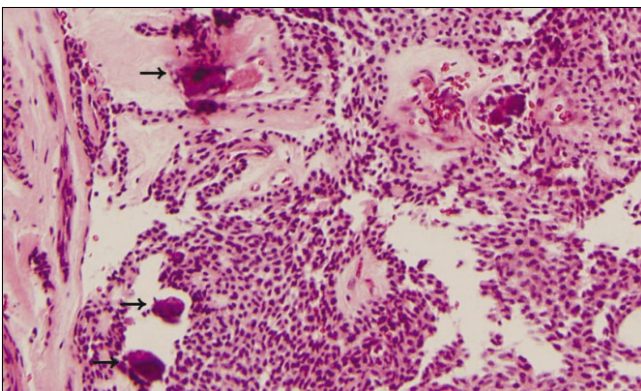


Fig. 7. Dystrophic calcification materials(→) were scattered.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

선양 치성 종양의 기원은 아직 명확하게 밝혀지지 않았으며 type에 따라 기원이 다를 것으로 여겨지고 있다. Follicular type은 치관 주변에 위치하는 임상적 위치를 고려할 때 범랑질

발생시기시 후분비 단계의 퇴축 범랑질 상피에서 기원했을 가능성이 가장 높으며¹³⁾ extrafollicular type은 치주인대 내에 있는 malassez 상피 잔사에서, peripheral type은 치관 잔사에서 기원한 것으로 여겨지고 있다¹⁰⁾. 하지만 세 가지 type 모두 조직학적 특징이 동일하며 치료 방법 또한 동일하다⁴⁾.

선양 치성 종양의 조직학적 특징은 섬유성 결합조직 피막이 상피세포의 결절을 둘러싸는 형태를 취하여 장미꽃송이 모양을 이루며 치성 상피는 도관 구조물을 형성한다¹⁴⁾. 때로는 간질 내에 미만성 초자 물질이나 구형의 석회화 물질이 나타나기도 한다. 종양 조직은 부분적으로 낭성 변화를 보이기도 하며 낭종 내에 고형 병소(solid lesion)가 관찰되기도 한다¹⁵⁾.

본 증례의 선양 치성 종양은 Philipsen와 Reichart의 분류¹²⁾에 따르면 follicular type에 해당한다. 이는 함치성 낭종(dentigerous cyst) 및 follicular cyst와 방사선학적 소견이 매우 유사하다. 하지만 이들과 관련된 방사선투과상은 매복치의 치관 부위에 한정되어 나타난다¹⁶⁾. 반면에 follicular type의 선양 치성 종양은 백악범랑경계부위를 지나 치근 부위까지 연장되어 나타난다. 또한 병소 내부에 눈꽃 모양의 미세한 방사선불

투과상이 나타날 수 있으며 이는 선양 치성 종양의 약 78% 정도에서 나타난다고 보고되고 있다^{17,18)}. 이번 증례의 경우에도 이러한 선양 치성 종양의 방사선학적 특징을 나타내고 있으며 (Fig. 3, 4), 술전에 이러한 점을 숙지하고 있었다면 진단에 도움이 되었을 것이다.

선양 치성 종양은 1970년 초반까지 범랑모세포종으로 분류되었다. 따라서 치료 방법으로 적출술 및 이환된 치아의 발거가 필요하다고 알려져 있으나 최근에는 치아를 보존하는 경향이 증가하고 있다. Motamedi 등¹⁰⁾과 Schirmer와 Reichart¹⁹⁾는 매복된 하악 견치에 발생한 선양 치성 종양에 대한 증례보고에서 이환된 치아를 발거하지 않았으며 수년간의 정기검진 동안 재발하지 않았다고 하였다. 본 증례에서는 술전 follicular cyst로 진단하여 치아 발거를 고려하지 않았다. 하지만 선양 치성 종양으로 진단하였더라도 치아를 보존하는 방법을 고려하였을 것이다.

광범위한 수술 및 치아 발거를 방지하기 위해 범랑모세포종과의 감별 진단이 매우 중요하다. 범랑모세포종의 86% 정도를 차지하는 보통 범랑모세포종(Conventional solid ameloblastoma)은 방사선사진상에서 다방성이면서 비누거품 모양을 나타내며 치근 변위나 흡수가 나타난다^{20,21)}. 선양 치성 종양의 경우는 단방성이며 치근 변위나 흡수는 드물다. 단방성 범랑모세포종의 경우 선양 치성 종양의 follicular type과 유사한 방사선학적 특징을 나타낸다. 하지만 단방성 범랑모세포종은 함치성 낭종과 같이 치관 부위만을 둘러싸는 방사선투과상을 나타낸다²²⁾.

방사선 사진 및 조직 검사에서 나타나는 석회화 물질의 정확한 기원은 밝혀지지 않았으나 범랑질²³⁾, 상아질²⁴⁾, 백악질²⁵⁾ 또는 이들의 혼합^{26,27)}, 이형성 석회화²⁸⁾ 등으로 여겨지고 있으며 정확한 기원은 밝혀지지 않았다. 본 증례에서는 치아 경조직은 관찰되지 않았으며 이형성 석회화 물질만 관찰되었다.

선양 치성 종양은 양성 종양으로 재발되는 경우는 극히 드물다. 하지만 extrafollicular 또는 peripheral type은 종양 적출 이후 골내 결손이 발생할 수 있으며²⁹⁻³¹⁾ 치근단이 노출되어 근관치료가 필요할 수도 있다³²⁾. Follicular type은 치아 맹출 이후 치주낭 형성이 보고된 바 있다²⁴⁾. 본 증례에서는 치아 맹출 후 치주낭이 형성되지 않았으며 정상적인 치주조직을 나타내었다. 또한 종양이 치근단 부위까지 이환되지 않아 치수 생활력을 유지하였다.

IV. 요 약

본 증례는 하악 우측 측절치의 미맹출을 주소로 내원한 10세 여자 환아에서 임상적, 방사선 사진 검사 후 병소를 적출하고 해당 치아에 브라켓을 부착하여 교정적 정출을 유도하였다. 조직 생검을 통해 선양 치성 종양으로 확진되었다.

선양 치성 종양은 함치성 낭종 및 단방성 범랑모세포종과 유사한 방사선학적 특징을 나타낸다. 하지만 선양 치성 종양은 백악범랑경계부위를 지나 치근면까지 방사선투과상이 연장되며 내부에 미세한 석회화 물질을 가지고 있는 경우가 있으므로 이

러한 점을 숙지하고 있으면 진단에 도움이 될 수 있다.

동통 등의 임상 증상이 없으나 크기가 커져 종창을 유발하기도 한다. 종창을 인지할 정도가 되었을 때는 종양의 크기가 커져 적출술 시행 후 치주낭을 야기하거나 근관치료가 필요할 수 있으므로 조기 발견 및 치료가 중요하다.

참고문헌

1. Stroncek GG, Acevedo A, Higa LH : An atypical odontogenic adenomatoid tumor and review of the literature. *J Oral Med*, 6:102-105, 1981.
2. Dayi E, Gurbuz G, Bilge OM, Ciftcioglu MA : Adenomatoid odontogenic tumour(adenameloblastoma). Case report and review of the literature. *Aust Dent J*, 42:315-318, 1997.
3. 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*, 48:404-408, 1990.
4. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, et al. : Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med*, 20:149-158, 1991.
5. Handschel JG, Deprich RA, Zimmermann AC, et al. : Adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: review of the literature and report of a rare case. *Head Face Med*, 1:3, 2005.
6. Steensland HS. : Epithelioma Adamantinum. *J Exp Med*, 6:337-389, 1905.
7. Unal T, Cetingul E, Gunbay T : Peripheral adenomatoid odontogenic tumor: birth of a term. *J Clin Pediatr Dent*, 19:139-142, 1995.
8. Philipsen HP, Birn H : The adenomatoid odontogenic tumour. Ameloblastic adenomatoid tumour or adeno-ameloblastoma. *Acta Pathol Microbiol Scand*, 75:375-398, 1969.
9. R.Eversole L. : Clinical outline of oral pathology diagnosis and treatment. PmpH-USA, Shelton, 258, 2002.
10. Motamedi MH, Shafeie HA, Azizi T : Salvage of an impacted canine associated with a adenomatoid odontogenic tumour: a case report. *Br Dent J*, 199:89-90, 2005.
11. Dilu NJ, Bobe A, Muyembi, Lelo T : Adenomatoid odontogenic tumor and a suborbital premolar. Apropos of a case. *Odontostomatol Trop*, 22:33-37, 1999.
12. Philipsen HP, Reichart PA : Adenomatoid onto-

- genic tumour: facts and figures. *Oral Oncol*, 35:125-131, 1999.
13. 대한구강악안면병리학회 : 최신 구강악안면 병리학. 대한 나래출판사, 서울, 148, 2005.
 14. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and maxillofacial pathology*, Saunders, Philadelphia, 714-715, 2008.
 15. Takeda Y, Kudo K : Adenomatoid odontogenic tumor associated with calcifying epithelial odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 15:469-473, 1986.
 16. 백병주, 김미라, 안수현, 김재곤 : 하악골에 발생한 낭종에 관한 임상적 연구. *대한소아치과학회지*, 24:678-687, 1997.
 17. Reichart PA, Junt G : Benign epithelial odontogenic tumors. *Pathologe*, 29:178-188, 2008.
 18. 이병도, 이완, 권경환 등 : 하악 전치부에 발생한 선양 치성 종양의 증례보고. *대한구강악안면방사선학회지*, 39:99-102, 2009.
 19. Schirmer I, Reichart PA : Adenomatoid odontogenic tumor(AOT) of the mandible: a surgical follow-up. *Mund Kiefer Gesichtschir*, 11:291-294, 2007.
 20. Gardner DG : Critique of the 1995 review by Reichart et al. of the biologic profile of 3677 ameloblastomas. *Oral Oncol*, 35:443-449, 1999.
 21. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM : Relative frequency of central odontogenic tumors: a study of 1,088 cases from Norther California and comparison to studies from other parts of the world. *J Oral Maxillofac Surg*, 64:1343-1352, 2006.
 22. 최서정, 박호원, 김성민 : 단방성 범랑모세포증 환아에 대한 증례 보고. *대한소아치과학회지*, 29:463-468, 2002.
 23. Mori M, Makino M, Imai K : The histochemical nature of homogeneous amorphous materials in odontogenic epithelial tumors. *J Oral Surg*, 38:96-102, 1980.
 24. Yamamoto H, Kozawa Y, Hirai G, et al. : Adenomatoid odontogenic tumor: light and electron microscopic study. *Int J Oral Surg*, 10:272-278, 1981.
 25. Spouge JD : The adenoameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 23:470-482, 1967.
 26. Moro I, Okamura N, Okuda S, et al. : The eosinophilic and amyloid-like materials in adenomatoid odontogenic tumor. *J Oral Pathol*, 11:138-150, 1982.
 27. Nomura M, Tanimoto K, Takata T, Shimosato T : Mandibular adenomatoid odontogenic tumor with unusual clinicopathologic features. *J Oral Maxillofac Surg*, 50:282-285, 1992.
 28. Ishikawa G, Mori K : A histopathological study on the adenomatoid ameloblastoma. Report of four cases. *Acta Odontol Scand*, 20:419-432, 1962.
 29. Blumenthal NM, Mostofi R : Repair of an intrabony defect from an adenomatoid odontogenic tumor. *J Periodontol*, 71:1637-1640, 2000.
 30. de Macedo LG, de Macedo NL, do Socorro Ferreira Monteiro A. Fresh-frozen human bone graft for repair of defect after adenomatoid odontogenic tumour removal. *Cell Tissue Bank*, 10:221-226, 2009
 31. Vitkus R, Meltzer JA : Repair of a defect following the removal of a maxillary adenomatoid odontogenic tumor using guided tissue regeneration. A case report. *J Periodontol*, 67:46-50, 1996.
 32. Yilmaz N, Acikgoz A, Celebi N, et al. : Extrafollicular adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: report of a case. *Eur J Dent*, 3:71-74, 2009.

Abstract

ADENOMATOID ODONTOGENIC TUMOR ASSOCIATED WITH
AN IMPACTED MANDIBULAR RIGHT LATERAL INCISOR

Mi-Seon Park, Ho-Won Park, Ju-Hyun Lee, Hyun-Woo Seo

Department of Pediatric Dentistry, Oral Science Research Center, College of Dentistry, Gangneung-Wonju National University

Adenomatoid odontogenic tumor(AOT) is an infrequent odontogenic tumor which arise in the jaw. It was considered as a variant of ameloblastoma. The adenomatoid odontogenic tumor is clearly benign and, in contrast to the ameloblastoma, present a very low recurrence. It most often appears in the canine region of the maxilla. The adenomatoid odontogenic tumor is frequently asymptomatic, however it may cause painless swelling. The radiological findings of adenomatoid odontogenic tumor frequently share characteristics of dentigerous cyst and unicystic ameloblastoma. Conservative surgical enucleation and curettage are the treatment of choice.

In this case a 10-year-old child was presented with mandibular right lateral incisor in unerupted. Radiographically, the tooth was impacted and a radiolucency was seen in the area. The lesion was enucleated without extraction of the tooth. Bracket was attached on the tooth for orthodontic extrusion installed. Histopathologically adenomatoid odontogenic tumor was revealed.

Key words : Adenomatoid odontogenic tumor, Dentigerous cyst, Unicystic ameloblastoma