

측두하와에 발생한 법랑모세포종 1예

대진의료재단 분당제생병원 이비인후-두경부외과학교실,¹ 병리학교실²

김강현¹ · 이상민¹ · 백소야² · 박영민¹

= Abstract =

A Case of Ameloblastoma in the Infratemporal Fossa

Kang Hyeon Kim, MD¹, Sang Min Lee, MD¹, Soya Paik, MD², Young Min Park, MD, PhD¹

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,¹Department of Pathology, Bundang Jesaeng General Hospital,² Daejin Medical Center, Seongnam, Korea

Ameloblastoma is the most common benign odontogenic tumor, with approximately 80% arising in the mandible and the remainder in the maxilla. However, the infratemporal fossa is a rare site in which ameloblastomas occur. Although malignant transformations or metastasizing processes are extremely rare, tumor recurrence is common, if the tumor is not completely resected. Because reoperation could deteriorate quality of life in the patients and increase surgical morbidity, radical surgery is often recommended to minimize recurrence rates. In this report, we presented our experience of resection of ameloblastoma in the left infratemporal fossa with sufficient safe margin through a lower cheek flap approach and marginal mandibulectomy.

KEY WORDS : Ameloblastoma · Infratemporal fossa.

서 론

법랑모세포종(ameloblastoma)은 가장 흔한 상피 치원성 종양으로 발생 빈도는 악골에서 발생하는 모든 종양 중에서는 1%, 치원성 종양 중에서는 10% 정도로 보고되고 있다.¹⁾ 법랑모세포종은 조직학적으로 양성 종양임에도 불구하고 주위 조직을 침습하고 종양의 주변 조직을 파괴하며 재발을 잘 하는 것으로 알려져 있으며 악성으로의 전환이나 타장기로의 전이는 드문 것으로 보고되고 있다.²⁾ 주로 하악골에서 발생하는데, 특히 하악각과 하악지에 주로 발생하며 상악골에 발생하는 경우는 드문 것으로 알려져 있다.^{3,4)} 저자들은 좌측 치은협 부위 동통을 주소로 내원한 60세 여자 환자에서 측두하와에 발생한 법랑모세포종 1예를 아랫볼피판(lower cheek flap) 접근법을 통해 광범위 절

제하였기에 이를 보고하는 바이다.

증 례

60세 여자 환자가 수년간 간헐적으로 반복되는 좌측 치은협 부위 통증으로 투약하며 경과관찰 하던 중 입벌림 장애가 통증이 심해져 본원 이비인후과에 내원하였다. 환자는 좌측 치은협 부위에서 입천장까지 포함하는 부위에 심한 통증을 호소하는 상태로 구강 섭취에 어려움을 호소하였다. 입벌림 장애 정도는 구강을 최대한 벌렸을 때 위아래 앞니 사이가 약 2.5 cm이었고 기타의 신경학적 증상은 동반되지 않았다.

과거력상 2010년 중국에서 좌측 치은협 부위 종물에 대해 경구강 절제술을 받은 기왕력이 있었으며 이후로 통증이 간헐적으로 반복되었고, 그 외 특이 기저질환은 없었다. 이에 대한 의무기록이 남아 있지를 않아 당시 종양의 정확한 병리학적 진단은 알 수가 없었다.

내원시 진찰상 좌측 어금니뒤삼각 부위의 발적 및 이전 수술의 반흔이 관찰되었고 종물은 관찰되지 않았다. 외래

Received : September 18, 2015 / Revised : October 8, 2015

Accepted : October 16, 2015

교신저자 : 박영민, 경기도 성남시 분당구 서현로 180번길 20

대진의료재단 분당제생병원 이비인후-두경부외과학교실

전화 : 010-4230-3725 · 전송 : (031) 779-0265

E-mail : autumnfe@daum.net

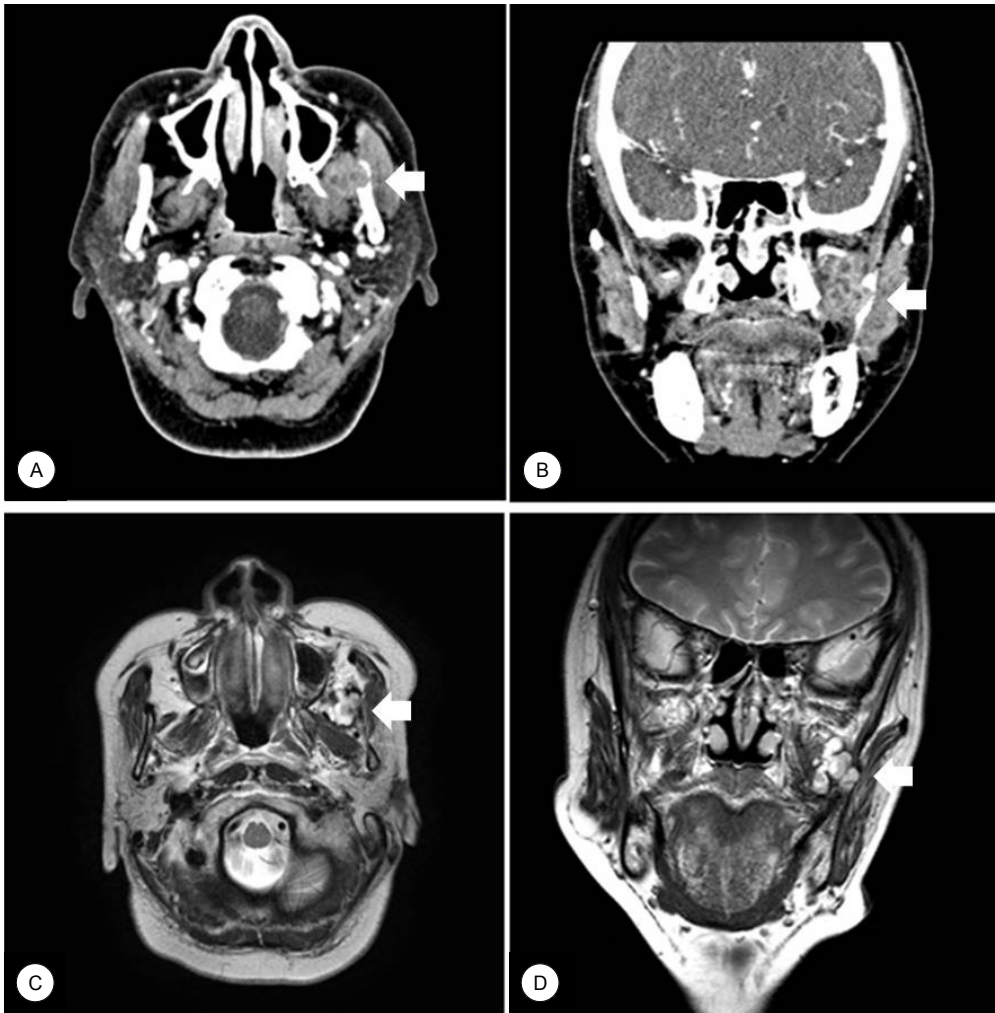


Fig. 1. Radiologic images of preoperative CT scan and MRI . A and B. CT scan shows 2cm sized relatively round enhancing solid mass with multiple cystic change around the left lateral pterygoid muscle with bone remodeling of left mandible ramus(white arrow) . C and D. Magnetic resonance images(T2) shows 2cm sized relatively lobulating enhancing solid cystic mass around the tendon of the left temporalis muscle with bone remodeling of left ramus(white arrow).

에서 시행한 전산화단층촬영에서 좌측 익돌근 주변으로 2.0 cm 크기의 조영 증강이 되면서 비교적 둥글며 고형 성분과 낭성 성분이 혼합된 병변이 관찰되었고 좌측 하악지의 골변화가 동반된 소견이 관찰되었다(Fig. 1A and 1B). 자기공명영상에서는 좌측 측두근 인대 주변으로 조영증강이 되는 2 cm 크기의 분엽된 다낭성 병변이 관찰되며 하악지의 골변화를 동반한 소견이 관찰되었다(Fig. 1C and 1D). 환자의 진찰과 영상학적 소견을 고려할 때 소타액선 종양, 신경원성 종양, 그리고 치원성 종양 등의 가능성을 두고 종물의 수술적 절제를 계획하였다. 수술 전 세침흡입검사를 통한 조직검사를 계획하였으나 종물이 하악지의 내측에 위치하여 경정부 혹은 경구강을 통해 세침이 도달하기 어려워 수술 전 이에 대한 검사를 진행하지 못하였다.

수술은 전신마취 하에 환자의 아랫입술에서 좌측 하악각 하방까지 아랫볼피관 접근을 통해 시행하였다. 좌측 하악지의 상부를 변연하악절제술로 제거하였고 하악지의 근

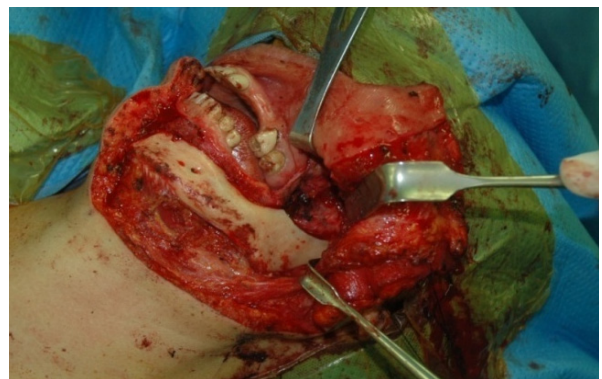


Fig. 2. Operative findings. Intraoperative view after marginal mandibulectomy.

육돌기에 붙은 측두근을 위쪽에서 절제하였으며 이후 종물을 노출시켰다. 좌측 익돌근에 인접하는 2.5 cm 크기의 종물이 확인 되었으며 이전 수술로 인해 구강 점막과의 유착이 심한 소견이었다. 내상악 동맥을 확인하고 이에 대

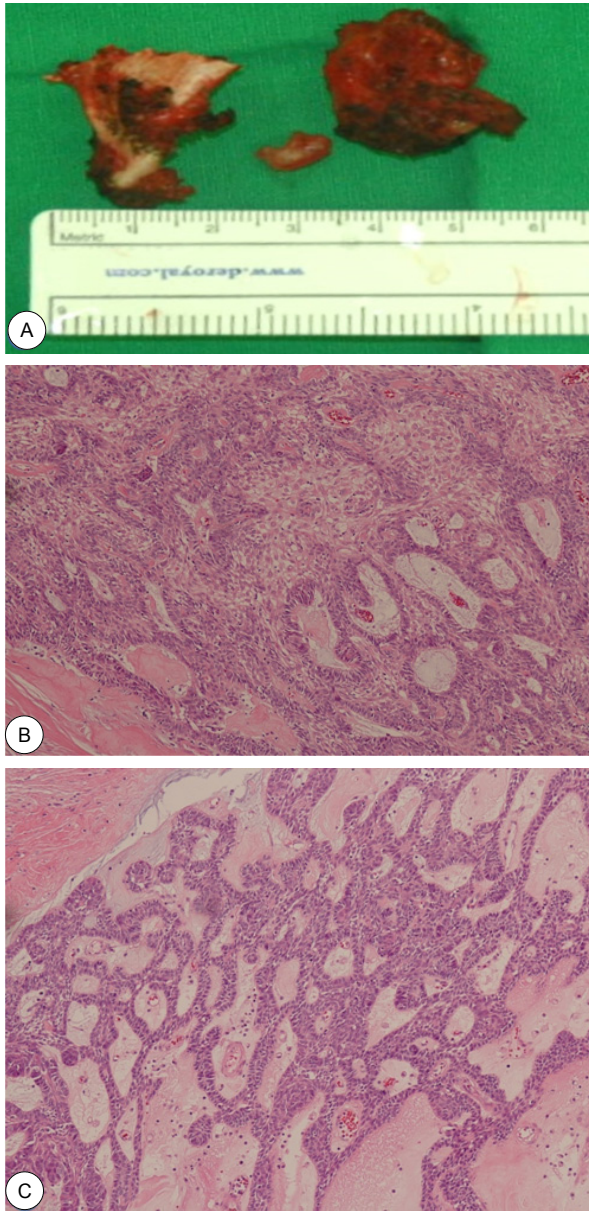


Fig. 3. Histopathological findings. A. Pathologic specimen of coronoid process, tumor, and pterygoid muscle. B. Ameloblastoma showing follicular pattern with tumor nests showing peripheral palisading and central reticulum stellate pattern(H&E x 100). C. Plexiform pattern with anastomosing strands and cords of tumor cells(H&E x 100).

한 손상에 주의하면서 좌측 익돌근 일부와 하악지 상부를 포함하여 종물의 일괄절제를 시행하였으며 볼 점막으로의 침투는 없음을 확인하였다(Fig. 2). 절제된 종물의 육안적 소견은 2.5 × 2.2 cm 크기의 표면이 불규칙한 덩이로 임상적으로 좌측 익돌근에 종양의 중심부가 위치해 있었고(Fig. 3A), 수술 중 시행한 동결절편 조직검사에서 소타액선 기원의 악성 종양 가능성을 배제할 수 없는 소견이었다. 현미경 소견상 종양은 조직학적으로 여포 형태와 망상형 형태가 혼재되어 있는 상태였다. 여포 형태를 보이는 부위

에서는 고형의 종양 세포섬들이 관찰되었고, 종양성 중심부는 느슨하게 배열된 정상세망 모양의 세포로 구성되어 있는 반면, 가장자리는 극성의 핵을 가진 원주세포들에 둘러싸여 있었다(Fig. 3B and 3C). 절제된 하악지 상부에서는 층판뼈(lamellar bone) 조직 및 근육, 연부 조직과 범람모세포종 조직 분절이 발견되었다.

환자는 수술 후 좌측 하악 하방 부분의 불편감과 둔한 감각을 호소 하였으나 증상 호전되어 수술 후 9일째 다른 추가 합병증 없이 퇴원하였다. 수술 후 1개월과 8개월에 추적 관찰한 전산화 단층 촬영상에서 종양의 재발 소견은 보이지 않는 상태로 6~12개월 간격으로 추적 관찰할 예정이다. 환자는 수술 전에 보였던 입벌림 장애는 호전되어 구강을 최대한 벌렸을 때 위아래앞니 사이가 약 4 cm에 이르며 수술 중 삼차신경의 하악 분지 절제로 인한 좌측 하악 부위 감각 저하를 호소하나 기타의 다른 뇌신경 이상은 관찰되지 않았다.

고 찰

범람모세포종은 치아발생낭, 치아관, 구강내 중층편평상피의 발생학적 잔존물에서 기원하는 것으로 알려져 있다.⁵⁾ 환자들은 안면부의 국소적 종창과 동통 및 부정교합 등을 호소할 수 있으나 대부분의 병변이 무증상으로 우연히 발견되는 경우가 많다.⁶⁾ 확진을 위해서는 조직 검사가 필요하나 전산화 단층촬영이 감별에 도움이 된다. 영상 소견으로는 방사선을 투과하는 팽창성의 분엽상 낭성 병변을 보이며 특징적으로 비누거품 형태가 나타난다. 조직학적인 특징으로는 대부분의 범람모세포종이 여포형 또는 망상형 형태를 보이고 경우에 따라 기저양 또는 과립형도 나타날 수 있다. 여포형 형태는 종양 실질이 범람질과 유사한 상피섬을 형성하며 간질에 인접한 상피들은 원주상피로 배열된 형태이고, 망상형 형태는 종양 세포의 배열이 선상 또는 망상으로 불규칙하게 배열 및 서로 연결되면서 망상의 구조를 이룬다.⁷⁾ 일부 연구에서는 여포형 형태는 다낭성 범람모 세포종과 연관이 있고 망상형 형태는 단낭성 범람모세포종과 연관이 있다고 보기도 하는데 본 증례의 환자는 여포형과 망상형 두 가지 조직형이 모두 관찰되었다.⁸⁾ 지금까지는 종양의 조직학적 형태와 종양의 예후 사이에는 연관 관계가 없는 것으로 알려져 있다.⁹⁾

범람모세포종은 영상학적, 조직학적 성격에 따라 말초성, 단낭성 그리고 다낭성의 세 가지 그룹으로 나눌 수 있다.⁶⁾ 말초성 범람모세포종은 잇몸 내 표면 상피에서 발생하고 잇몸과 치조 점막에 국한되어 있으며 침투성이 거의 없어 재발시에도 골막까지 포함한 단순 절제가 치료법이다.^{10,11)} 단낭성 범람모세포종은 종양세포가 낭종벽이나 낭

종내로 증식되어 있는 상태로 전체 범랑모세포종의 약 5%를 차지한다. 병변은 임상적 영상학적으로 반드시 단낭으로 구성되어 있어야 하며 현미경 소견에서도 하나의 낭종 병변임이 증명되어야 한다.¹⁰⁾ 일반 치성 낭종의 치료와 차이는 없으나 인접한 골성 조직에 침윤한 병변은 재발 방지를 위해 적극적인 소파술의 적응증이 된다.¹²⁾ 다낭성 범랑모세포종은 전체 범랑모세포종의 85%를 차지하며 단낭성 병변에 비해 더 재발을 잘한다고 보고된다.¹³⁾ 다낭성 병변은 다른 아형에 비해 재발률이 높기 때문에 정상조직을 포함한 광범위 절제술이 추천되며 보고된 바에 따르면 절제술 후의 재발률은 13~15%, 소파술 후의 재발률은 90~100%로 알려져 있다.¹⁴⁾

범랑모세포종의 치료 후 추적 관찰기간에 대해서는 아직 논의가 진행 중으로 Hertog 등은 재발성 범랑모세포종 환자들에 대해 40년 동안 단일기관 추적연구를 시행하였는데 근치적 절제술을 시행한 12명의 환자군에서 평균 10.5년의 추적기간 동안 재발이 발생하지 않았음을 보고하였다.¹⁵⁾ 따라서 수술 후 최소 10년간의 추적 관찰 기간이 필요할 것으로 생각되며 본 증례의 환자 또한 지속적인 추적관찰을 할 예정이다.

범랑모세포종의 병변이 하악 전반에 광범위하게 분포되어 있는 경우에는 부분 하악절제술 및 골을 포함한 유리피판을 이용한 재건술이 필요할 수 있다. 수술은 구강내 접근법 또는 경경부 접근법을 통해 시행할 수 있는데 구강내 접근법은 미용적인 장점은 있으나 수술 시야가 좁고 재건술을 시행하기에 어려움이 동반될 수 있는 제한점이 있다. 병변의 절제시에는 육안적으로 종양으로부터 1 cm 이상의 정상 조직을 포함한 경계를 절제를 하는 것이 바람직하다고 하며 과도한 절제로 인해 하악골의 골절이 유발되지 않도록 유의해야 한다. 재건술에 사용되는 피판으로 장골 능선 피판은 골의 모양과 길이가 하악각 결손의 재건에 이상적이며, 비골 피판은 하악지까지 포함된 결손의 재건술에 적합한 것으로 알려지고 있다.⁶⁾

범랑모세포종에 대한 방사선 치료에 대해서는 아직 논쟁의 여지가 있다. Gardenr 등은 1980년에 범랑모세포종에 대해 방사선 치료의 역할에 대한 연구를 보고하였는데 범랑모세포종이 방사선 저항성이 있으며 따라서 방사선 치료는 추천하지 말 것을 권고하였다.¹⁶⁾ 그러나 Atkinson 등이 1984년도에 범랑모세포종 10예에 대해 초고압 방사선 치료를 하여 긍정적인 결과를 보인 연구를 보고하였고,¹⁷⁾ 2006년에 Madhup 등은 하악에 발생한 거대 범랑모세포종에 대해 방사선 치료 후 성공적인 결과를 보인 연구를 보고하였다.¹⁸⁾ 아직까지 범랑모세포종에 대한 방사선 치료에 대해 정립되어 있는 것은 없으며 일부 저자들은 수술적 절제가 불가능하거나 수술 후 절단면에 종양이 남아있는

경우 재발 방지의 목적으로 시도할 수 있다고 보고하고 있다.¹⁹⁾

결 론

범랑모세포종은 비록 양성 종양이지만 주변 조직으로 침습하고 재발률이 높으며 드물지만 악성 종양으로 변환될 수 있다. 따라서 환자가 범랑모세포종으로 진단될 경우 환자의 연령, 종양의 위치 및 크기, 영상학적 소견을 고려하여 가능하면 정상조직을 포함한 근치적 절제술을 시행한 뒤 정기적으로 추적관찰을 하여 재발을 조기에 발견하도록 노력해야 한다.

중심 단어 : 범랑모세포종 · 측두하와.

References

- 1) Slootweg PJ, Muller H. *Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1984;57(2):168-176.
- 2) Torres-Lagares D, Serrera-Figallo MA, Romero-Ruiz MM, Infante-Cossio P, Garcia-Calderon M, Gutierrez-Perez JL. *Update on dry socket: a review of the literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2005; 10(1):81-5;77-81.
- 3) Small IA, Waldron CA. *Ameloblastomas of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1955;8(3):281-297.
- 4) Fregnani ER, da Cruz Perez DE, de Almeida OP, Kowalski LP, Soares FA, de Abreu Alves F. *Clinicopathological study and treatment outcomes of 121 cases of ameloblastomas. Int J Oral Maxillofac Surg.* 2010;39(2):145-149.
- 5) Hertog D, Bloemena E, Aartman IH, van-der-Waal I. *Histopathology of ameloblastoma of the jaws; some critical observations based on a 40 years single institution experience. Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2012;17(1):e76-82.
- 6) Bianchi B, Ferri A, Ferrari S, Leporati M, Copelli C, Ferri T, et al. *Mandibular resection and reconstruction in the management of extensive ameloblastoma. J Oral Maxillofac Surg.* 2013;71(3):528-537.
- 7) Thompson L. *World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of head and neck tumours. Ear Nose Throat J.* 2006;85(2):74.
- 8) Ueno S, Nakamura S, Mushimoto K, Shirasu R. *A clinicopathologic study of ameloblastoma. J Oral Maxillofac Surg.* 1986;44(5):361-365.
- 9) Kahn MA. *Ameloblastoma in young persons: a clinicopathologic analysis and etiologic investigation. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1989;67(6):706-715.
- 10) Gardner DG. *Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1996;82(6):660-669.
- 11) Zhong LP, Zhang ZY, Zhu HG, Fu HH, He Y. *Clinical manage-*

- ment of peripheral ameloblastoma. J Craniofac Surg. 2011;22(5):1929-1932.*
- 12) Hertog D, van der Waal I. *Ameloblastoma of the jaws: a critical reappraisal based on a 40-years single institution experience. Oral Oncol. 2010;46(1):61-64.*
 - 13) Lau SL, Samman N. *Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. Int J Oral Maxillofac Surg. 2006;35(8):681-690.*
 - 14) Chapelle KA, Stoelinga PJ, de Wilde PC, Brouns JJ, Voorsmit RA. *Rational approach to diagnosis and treatment of ameloblastomas and odontogenic keratocysts. Br J Oral Maxillofac Surg. 2004;42(5):381-390.*
 - 15) Hertog D, Schulten EA, Leemans CR, Winters HA, Van der Waal I. *Management of recurrent ameloblastoma of the jaws; a 40-year single institution experience. Oral Oncol. 2011;47(2):145-146.*
 - 16) Gardner DG, Pecak AM. *The treatment of ameloblastoma based on pathologic and anatomic principles. Cancer. 1980;46(11):2514-2519.*
 - 17) Atkinson CH, Harwood AR, Cummings BJ. *Ameloblastoma of the jaw. A reappraisal of the role of megavoltage irradiation. Cancer. 1984;53(4):869-873.*
 - 18) Madhup R, Kirti S, Bhatt ML, Srivastava M, Sudhir S, Srivastava AN. *Giant ameloblastoma of jaw successfully treated by radiotherapy. Oral Oncol Extra. 2006;42(1):22-25.*
 - 19) Philip M, Morris CG, Werning JW, Mendenhall WM. *Radiotherapy in the treatment of ameloblastoma and ameloblastic carcinoma. J HK Coll Radiol. 2005;9(4):157-161.*