

A 20-year Retrospective Study of Pediatric Oral Lesion Biopsy

Sang Hyun Park, Hyuntae Kim, Ji-Soo Song, Hong-Keun Hyun, Young-Jae Kim, Jung-Wook Kim, Ki-Taeg Jang, Teo Jeon Shin

Department of Pediatric Dentistry, School of Dentistry, Seoul National University

Abstract

The aim of this study was to provide pathological information of pediatric oral lesions by retrospectively analyzing oral biopsy results from pediatric patients at the Seoul National University Dental Hospital.

Biopsy results of all oral lesions from pediatric patients, aged 0 - 16 years, were collected from the files of the Department of Oral Pathology, Seoul National University Dental Hospital from January 2000 to April 2020. The patients were divided into 3 age groups: 0 - 5, 6 - 11 and 12 - 16 years. All oral lesions were classified into three main categories: inflammatory and reactive, tumor or tumor-like and cystic lesions.

Among the total of 2928 biopsy specimens, tumor or tumor-like lesions(35.66%) were the most common, followed by inflammatory and reactive lesions(34.29%) and cystic lesions(30.05%). Regardless of the categories used in this study, odontoma was the most frequently found lesion, mucocele and dentigerous cyst being the next common. This study was the first retrospective review of pediatric oral pathology in Korea, and the results from this study may assist in providing informative insight into the pediatric oral pathology for pediatric dentists.

Key words : Oral lesion, Biopsy, Pediatric oral pathology

I. 서 론

소아는 성인과 전혀 다른 신체 환경을 가지고 있으며, 구강 병소의 조직학적 환경 또한 다양하고 특징적이다. 랑게르한스세포 조직구증가증이나 혈관종과 같이 소아 청소년에서만 주로 발생하는 특정 질환이 있는 반면, 흑색종과 같이 20대 이전에는 그 유병률이 현저히 낮은 질환도 존재한다[1]. 소아 청소년의 구강 병소에 관한 기존의 연구들은 대부분 종양을 비롯한 특정 질환에만 초점을 두고 있으며[2-4], 전반적인 구강 병소의 생검 결과를 보고한 연구는 많지 않다. 북미[5-8], 남미[9-15], 유럽[16-18], 아프리카[19,20], 호주와 뉴질랜드 등 전 세계 각 지역에서 소아 청소년 환자의 구강 병소 생검 결과를 후향적으로 분석하

였으며[21-23], 아시아에서는 태국[24-26], 인도[27], 사우디아라비아[28], 이란[29], 대만에서 주로 연구되었다[30-32]. 국내에서는 치성 종양에 한정하여 전 연령대에서 시행된 생검 결과에 관한 연구는 보고된 바 있으나[33], 소아 청소년 영역에 특정하여 전반적인 구강 병소의 생검 결과를 보고한 연구는 아직까지 전무하다. 이에 따라 국내에서 시행된 소아 청소년의 구강 병소 생검 결과를 분석하고 이를 다른 나라의 선행 연구와 비교하여 어떠한 차이가 있는지 살펴볼 필요가 있다. 이 연구는 최근 20년간 서울대학교치과병원 구강병리과에서 시행한 만 16세 이하 환자의 구강 병소 생검 결과를 후향적으로 분석하여 대한민국 소아 청소년의 구강 질환에 관한 병리학적 자료를 제공하고자 한다.

Corresponding author : Teo Jeon Shin

Department of Pediatric Dentistry, School of Dentistry, Seoul National University, 101 Daehak-ro, Jongno-gu, Seoul, 03080, Korea

Tel: +82-2-2072-2607 / Fax: +82-2-744-3599 / E-mail: snmc94@snu.ac.kr

Received May 16, 2021 / Revised August 9, 2021 / Accepted August 4, 2021

※ The authors declare that there is no conflict of interest.

II. 연구 재료 및 방법

1. 연구 대상

서울대학교 치의학대학원 의학연구윤리심의위원회 승인을 받은 후 (IRB File No. : S-D20200038) 연구를 수행하였다.

2000년 1월 1일부터 2020년 4월 30일까지 20년간 서울대학교 치과병원 구강병리과에서 조직 생검을 시행한 만 16세 이하의 환자를 대상으로 연구를 진행하였다. 연구 대상은 다음과 같은 기준으로 선정되었다: 1) 만 16세 이하의 환자로 인구 집단에서 소아 혹은 청소년으로 분류될 수 있는 환자; 2) 생검 조직이 조직 병리학적으로 확정 진단된 경우; 3) 생검 시행 위치가 구강 내(상악동 포함)인 경우(구강 외 조직인 피부나 다른 신체부위는 제외함); 4) 생검 부위와 진단명에 대한 정보가 의무기록상에 누락없이 온전히 보존되어 있는 경우.

2. 연구 방법

자료 수집을 위해 구강병리과에서 작성된 의무기록을 후향적으로 분석하였다. 구강병리시스템(Seoul National University Hospital Pathology Examination, SPX) 프로그램을 이용하여 원본 자료를 Excel(Microsoft, Washington, USA) 형식으로 추출 후 증례번호(익명성 보장을 위해 진료번호에서 연구용 증례번호로 변환됨), 나이, 성별, 의뢰과, 의뢰일자, 생검 시행 부위, 진단명을 포함한 자료만을 수집하였다. 연구 대상의 나이는 치열의 단계를 고려하고 선행 연구의 연구 설계를 참고하여 세 집단으로 나누었다: 1) 0 - 5세(유치열기); 2) 6 - 11세(혼합치열기); 3) 12 - 16세(영구치열기)[6,8,14,18,19,24,26].

병소의 진단결과 조직병리학적 이상소견이 없는 경우, 혹은 치낭이나 치아와 같은 정상 해부학적 구조물인 경우 정상으로 분류하였다. 과잉치는 조직병리학적으로 정상 치아와 구분할 수 없으므로 정상으로 분류하였다. 정상을 제외한 병소의 진단명은 세 개의 카테고리로 크게 분류하였는데, 1) 염증성 및 반응성 병소; 2) 종양 및 종양성 병소; 3) 낭성 병소로 분류하였으며 이는 선행 논문의 연구 설계를 참고하였다[5,7,14,19,24,26,29-32]. 종양 및 종양성 병소는 양성과 악성으로 다시 세분화하였다. 의무기록상에서 본질적으로 같은 것을 나타내는 비슷한 이름의 진단명은 하나로 통일하였는데, 예를 들어 점액종(mucocele), 하마종(ranula), 점액유출현상(mucous extravasation phenomenon)은 모두 점액종으로 통일하였고, 백악-골화 섬유종(cemento-ossifying fibroma), 백악화 섬유종(cementifying fibroma), 주변성 골화 섬유종(peripheral ossifying fibroma), 유년성 골화 섬유

종(juvenile ossifying fibroma), 골화 섬유종(ossifying fibroma)은 모두 골화 섬유종으로 통일하였다. 구강 내 지속적인 마찰성 자극에 의한 섬유성 연조직 비대를 뜻하는 섬유성 과증식(fibrous hyperplasia), 염증성 섬유성 증식(inflammatory fibrous hyperplasia), 섬유상피성 용종(fibroepithelial polyps), 섬유종(fibroma), 마찰성 섬유종(irritation fibroma)은 모두 (마찰성) 섬유종으로 통일하였다.

생검 시행 위치는 상악골, 하악골, 협점막, 구강저, 치은, 입술, 구개, 상악동, 혀, 턱관절로 구분하였다. 한 환자에 대해, 두 가지 다른 부위에서 생검을 시행한 결과가 각각 다를 경우, 둘을 분리하여 증례 번호를 부여하고 자료를 구성하였다. 반면 다른 두 부위에서 생검 결과가 같은 경우, 이를 하나로 계산하고 시행 위치는 '다수 부위'로 분류한 후 그 위치를 명시하였다. 예를 들어 한 환자에서 상악골과 하악골의 다수 부위에서 생검 시행한 결과 모두 치성각화낭(odontogenic keratocyst)으로 진단될 경우 하나의 증례로 계산하고 생검 시행부위는 다수 부위(상악골과 하악골)로 하였다. 반면 한 환자에서 다수의 부위를 생검하였으나 상악골에서 시행한 생검 결과는 비구개관낭(nasopalatine duct cyst)이며 입술에서 시행한 생검 결과는 점액종인 경우 두 가지를 따로 분리하여 각각에 증례 번호를 부여하였다. 한 생검 위치에서 두 가지 다른 진단학적 결과가 관찰된 경우도 있었는데, 이 경우 둘을 따로 분리하였다. 단, 두 진단명 중 하나가 정상 혹은 단순 염증(inflammation, nonspecific)인 경우에는 다른 하나의 진단명만이 가치가 있다고 판단하여 이 진단명만을 연구에 포함하였다. 병소가 재발한 경우이거나, 외래로 생검 시행 후 수술실에서 병소 절제 및 재생검을 시행한 경우 등 한 환자에 대해 한 부위에서 같은 진단명으로 여러 번 생검을 시행한 경우에는 가장 어린 나이에 시행한 한 증례만 연구에 포함하였다.

Microsoft Excel 스프레드시트 프로그램을 이용하여 각 카테고리별로 나이 및 성별에 따른 검체 수를 계산하고 각각의 비율과 분포를 조사하였다. 각각의 카테고리에서 검체 수를 기준으로 진단명을 정렬하여 어떤 병소가 가장 높은 빈도로 나타났는지 조사하였고 선행 연구와 비교하였다. 카테고리과 상관없이 검체 수를 기준으로 상위 10개의 진단명을 추출하여 선행 연구와 비교하였다.

III. 연구 성적

1. 검체의 수 및 전반적인 분포

2000년 1월 1일부터 2020년 4월 30일까지 20년간 만 16세 이하를 대상으로 시행한 조직 생검은 총 3827개였으며, 이 중 정

상을 제외한 병소는 총 2928개로 나타났고 이 중 남자는 1544명, 여자는 1384명이었다(Table 1). 정상으로 분류된 899개의 진단 결과 중 치낭(tooth follicle)이 727개로 가장 많았으며, 과잉치가 22개, 정상 치아가 14개였고 기타 조직병리학적 이상 없음이 136개로 나타났다. 진단된 검체는 시행 연령이 증가할수록 그 수가 점점 증가하는 양상을 보였다(Fig. 1). 연령대 별로 살펴보면, 12 - 16세(영구치열기)에서 병소 검체가 1348개로 가장 많았으며, 6 - 11세(혼합치열기)는 1318개였고, 0 - 5세(유치열기)는 262개로 가장 적었다. 의뢰 과를 기준으로 살펴보면 구강악안면외과가 2307개(78.79%)로 가장 많았으며, 외부 일차의원의 수탁 의뢰가 312개(10.66%), 소아치과가 228개(7.79%)로 그 뒤를 이었다(Fig. 2).

2. 각 카테고리별 분포

Table 1에서 볼 수 있듯이 가장 많은 수를 차지한 카테고리는 종양 및 종양성 병소로, 총 1044개(35.66%)로 나타났으며, 염증성 및 반응성 병소가 1004개(34.29%), 남성 병소가 880개(30.05%)로 그 뒤를 이었다. 성별 간 비율은 남자 : 여자를 기준으로 염증성 및 반응성 병소의 경우 0.99 : 1, 종양 및 종양성 병소의 경우 1.07 : 1, 남성 병소의 경우 1.32 : 1로 나타났다.

카테고리와 상관없이 검체 수를 기준으로 상위10개의 진단명은 치아종(n=448, 15.30%); 점액종(n=376, 12.84%); 함치성낭(n=364, 12.43%); 치근단낭(n=200, 6.83%); 치성각화낭(n=180, 6.15%); 단순 염증(n=137, 4.68%); 법랑모세포종(n=109, 3.72%);

Table 1. Distribution of lesions with respect to age and sex

Lesions	Age (year)									Total			%
	0 - 5			6 - 11			12 - 16			M	F	Total	
	M	F	Total	M	F	Total	M	F	Total				
Inflammatory and reactive	56	69	125	209	222	431	236	212	448	501	503	1004	34.29
Tumor or tumor-like	55	65	120	254	237	491	232	201	433	541	503	1044	35.66
Cystic	13	4	17	230	166	396	259	208	467	502	378	880	30.05
Total	124	138	262	693	625	1318	727	621	1348	1544	1384	2928	100

Values are given as *n*.
M = Male, F = Female.

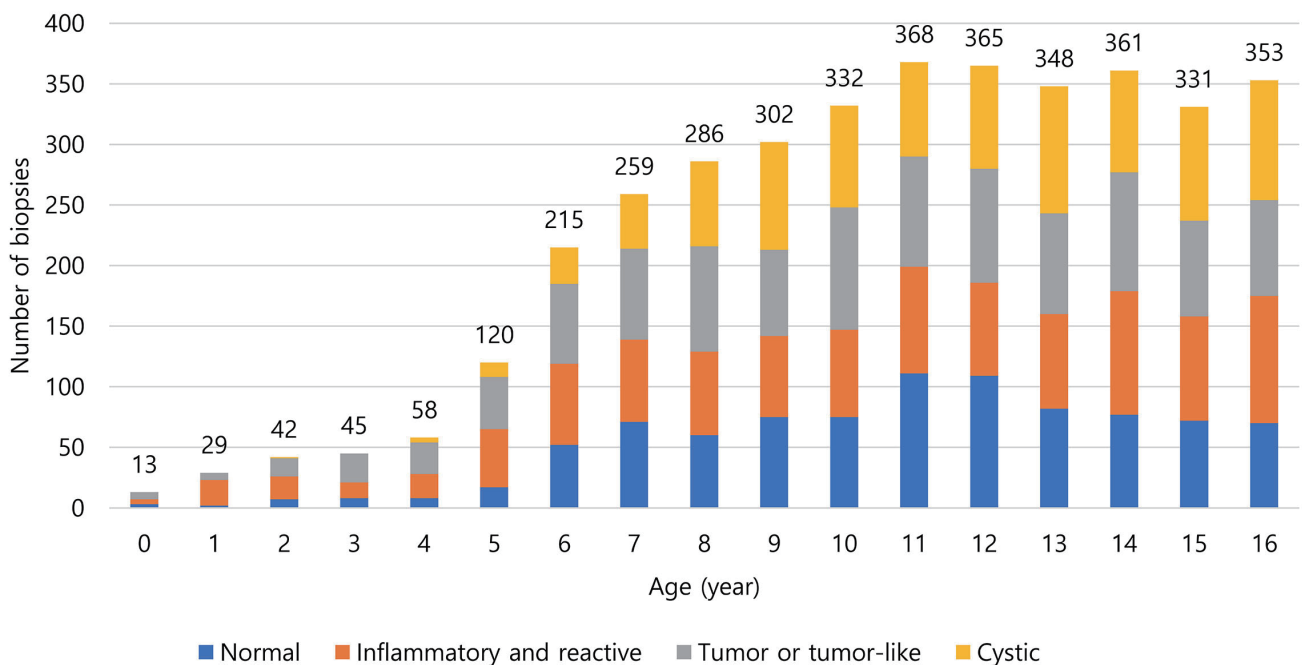
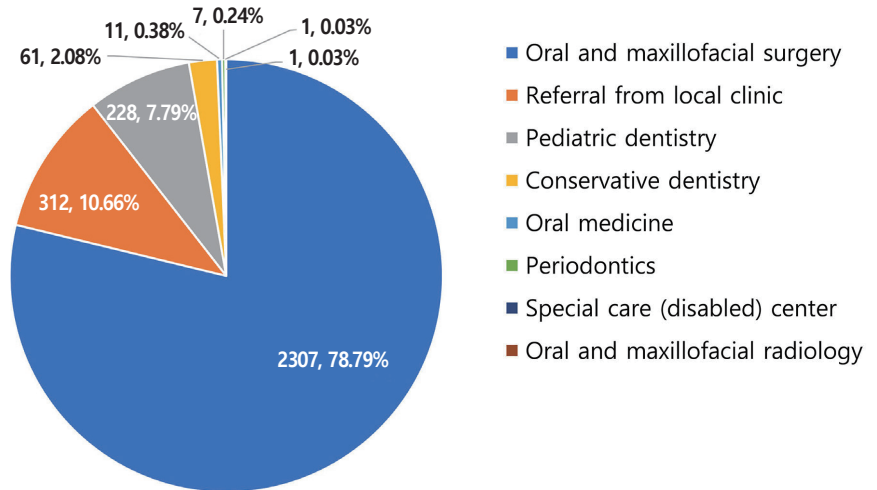


Fig. 1. Distribution of biopsies in relation to age.

Fig. 2. Distribution of biopsies in relation to referring department.



치근단육아종(n=105, 3.59%); (마찰성) 섬유종(n=79, 2.70%); 육아조직(n=72, 2.46%)이었으며, 이들은 전체 검체 수의 70.69%를 차지하였다.

수를 차지하였으며, 전체의 12.84%를 차지하였다(Table 2). 또한 단순 염증(n=137, 4.68%), 치근단육아종(n=105, 3.59%), (마찰성) 섬유종(n=79, 2.70%)이 그 뒤를 이었다. 연령대별로 살펴보면 12 - 16세 사이가 448명(44.62%)으로 가장 많았으며, 6 - 11세가 431명(42.93%), 0 - 5세가 125명(12.45%)이었다.

1) 염증성 및 반응성 병소

염증성 및 반응성 병소 중에서, 점액종이 376개로 가장 많은

Table 2. Age distribution of patients with inflammatory and reactive oral lesions

Pathological diagnosis	Age (year)			Total	%
	0 - 5	6 - 11	12 - 16		
Mucocele	58	195	123	376	12.84
Inflammation, nonspecific	17	70	50	137	4.68
Periapical granuloma	0	20	85	105	3.59
(Irritation) fibroma	24	32	23	79	2.70
Granulation tissue	3	33	36	72	2.46
Scar tissue	4	14	27	45	1.54
Ulceration	2	22	10	34	1.16
Pyogenic granuloma	4	10	11	25	0.85
Osteomyelitis	3	9	10	22	0.75
Abscess	6	5	7	18	0.61
Chronic maxillary sinusitis	0	1	17	18	0.61
Foreign body reaction	1	4	10	15	0.51
Sialadenitis	1	5	9	15	0.51
Pericoronitis	0	1	11	12	0.41
Hyperkeratosis	0	2	7	9	0.31
Necrotic tissue	1	1	4	6	0.20
Sequestrum	0	3	3	6	0.20
Sialolith	0	3	3	6	0.20
Other rare inflammatory and reactive lesions*	1	1	2	4	0.14
Total	125	431	448	1004	34.29

Values are given as *n*.

* included lichen planus with two lesions; congenital epulis and nodular fasciitis, each with one lesion.

2) 종양 및 종양성 병소
 종양 및 종양성 병소에서, 양성 병소가 1008개(96.55%)로 대부분이었으며, 악성 병소는 36개(3.45%)에 불과하였다. 양성 병

소는 치성 기원과 비치성 기원으로 나눌 수 있었는데, 치성 양성 병소 중에서 치아종이 448개로 가장 많았으며, 전체의 15.30%를 차지하였다(Table 3). 법랑모세포종이 109개(3.72%)로 그 뒤

Table 3. Age distribution of patients with benign tumor or tumor-like oral lesions

Pathological diagnosis	Age (year)			Total	%
	0 - 5	6 - 11	12 - 16		
Odontogenic					
Odontoma	44	247	157	448	15.30
Ameloblastoma	6	26	77	109	3.72
Ameloblastic fibro-odontoma	6	25	7	38	1.30
Ameloblastic fibroma	1	15	7	23	0.79
Adenomatoid odontogenic tumor	0	11	10	21	0.72
Calcifying odontogenic cyst	0	8	10	18	0.61
Calcifying epithelial odontogenic tumor	0	2	2	4	0.14
Odontogenic myxoma	2	1	1	4	0.14
Cementoblastoma	0	1	2	3	0.10
Central odontogenic fibroma	0	3	0	3	0.10
Peripheral odontogenic fibroma	1	2	0	3	0.10
Other rare tumor or tumor-like lesions*	2	2	0	4	0.14
Total	62	343	273	678	23.16
Non-odontogenic					
Ossifying fibroma	2	23	30	5	1.88
Hemangioma	8	24	8	40	1.37
Lymphangioma	9	14	13	36	1.23
Squamous papilloma	7	14	9	30	1.02
Fibrous dysplasia	0	9	19	28	0.96
Langerhans cell histiocytosis	7	4	2	13	0.44
Melanotic macule	3	6	2	11	0.38
Vascular malformation	0	5	6	11	0.38
Nevus	4	4	2	10	0.34
Cemento-osseous dysplasia	1	2	5	8	0.27
Osteoma	0	3	5	8	0.27
Pleomorphic adenoma	1	3	4	8	0.27
Giant cell fibroma	0	5	2	7	0.24
Lipoma	2	2	3	7	0.24
Benign fibro-osseous lesion, unspecified	1	0	4	5	0.17
Neurilemoma	0	1	4	5	0.17
Desmoplastic fibroma	2	1	1	4	0.14
Granular cell tumor	0	0	4	4	0.14
Leiomyoma	1	2	1	4	0.14
Myofibroma	1	2	1	4	0.14
Subepithelial bleeding / hematoma	1	2	1	4	0.14
Ameloblastic fibro-dentinoma	1	1	1	3	0.10
Aneurysmal bone cyst	1	0	2	3	0.10
Cherubism	0	1	2	3	0.10
Other rare tumor or tumor-like lesions**	6	8	5	19	0.65
Total	58	136	136	330	11.27
Total (Odontogenic + Non-odontogenic)	120	479	409	1008	34.43

Values are given as *n*.

* included familial gigantiform cementoma with two lesions; central epithelial odontogenic hamartoma and dentinogenic ghost cell tumor, each with one lesion.

** included central giant cell granuloma, neurofibroma, osseous choristoma, osteoblastoma, traumatic neuroma and verruca vulgaris, each with two lesions; basal cell carcinoma, focal epithelial hyperplasia(Heck's disease), hamartoma, melanotic neuroectodermal tumor of infancy and teratoma, each with one lesion.

를 이었다. 비치성 양성 병소 중에서는 골화 섬유종이 55개(1.88%)로 가장 많았으며 혈관종이 40개(1.37%)로 그 뒤를 이었다. 치성 양성 병소는 6 - 11세(혼합치열기)에서 343명(50.58%)으로 가장 많았던 반면, 비치성 양성 병소에서는 6 - 11세(혼합치열기)와 12 - 16세(영구치열기)가 136명(41.21%)으로 같았다. 악성 병소 중에서는 골육종이 9개로 가장 많았으며 전체의 0.31%를 차지하였고, 횡문근육종이 6개(0.20%)로 그 뒤를 이었다(Table 4). 악성 병소의 경우 12 - 16세(영구치열기)에서 24명(66.67%)으로 대부분이었으며, 6 - 11세(혼합치열기)에서는 12

명(33.33%)이었고 0 - 5세(유치열기)에서는 없었다.

3) 남성 병소

남성 병소는 치성 병소와 비치성 병소로 나눌 수 있다. 치성 남성 병소 중 함치성낭이 364개로 가장 많았으며, 전체의 12.43%를 차지하였다(Table 5). 치근단낭(n=200, 6.83%)과 치성 각화낭(n=180, 6.15%)이 그 뒤를 이었다. 비치성 남성 병소 중에서는 단순골낭이 71개(2.42%)로 가장 많았으며 비구개관낭이 24개(0.82%)로 그 뒤를 이었다.

Table 4. Age distribution of patients with malignant tumor or tumor-like oral lesions

Pathological diagnosis	Age (year)			Total	%
	0 - 5	6 - 11	12 - 16		
Osteosarcoma	0	3	6	9	0.31
Rhabdomyosarcoma	0	2	4	6	0.20
Mucoepidermoid carcinoma	0	3	2	5	0.17
Squamous cell carcinoma	0	1	2	3	0.10
Burkitt's lymphoma	0	1	1	2	0.07
Mammary analogue secretory carcinoma	0	0	2	2	0.07
Other rare tumor or tumor-like lesions*	0	2	7	9	0.31
Total	0	12	24	36	1.23

Values are given as *n*.

* included adenocarcinoma, chondrosarcoma, clear cell carcinoma, Ewing sarcoma, hemangiopericytoma, leiomyosarcoma, neuroblastoma, non-Hodgkin lymphoma and primary intraosseous carcinoma, each with one lesion.

Table 5. Age distribution of patients with cystic lesions

Pathological diagnosis	Age (year)			Total	%
	0 - 5	6 - 11	12 - 16		
Odontogenic					
Dentigerous cyst	12	226	126	364	12.43
Periapical cyst	2	90	108	200	6.83
Odontogenic keratocyst	1	47	132	180	6.15
Cyst, unspecified	0	7	12	19	0.65
Residual cyst	0	1	5	6	0.20
Buccal bifurcation cyst	0	4	1	5	0.17
Lateral periodontal cyst	0	0	3	3	0.10
Other rare odontogenic cyst*	0	1	0	1	0.03
Total	15	376	387	778	26.57
Non-odontogenic					
Simple bone cyst	0	15	56	71	2.42
Nasopalatine duct cyst	2	4	18	24	0.82
Antral pseudocyst	0	0	3	3	0.10
Other rare non-odontogenic cyst**	0	1	3	4	0.14
Total	2	20	80	102	3.48
Total (Odontogenic + Non-odontogenic)	17	396	467	880	30.05

Values are given as *n*.

* included primordial cyst, with one lesion.

** included dermoid cyst with two lesions; epidermoid cyst and globulomaxillary cyst, each with one lesion.

3. 생검 부위에 따른 분포

생검 부위 별 검체의 수를 나타낸 표는 Table 6과 같다. 염증성 및 반응성 병소가 발생한 위치는 입술(30.78%), 하악골(17.83%), 치은(15.24%), 상악골(11.2%), 혀(10.16%) 등의 순서로 나타났는데, 비교적 다양한 위치에서 고르게 분포하였다. 반면, 종양 및 종양성 병소는 하악골(47.61%)과 상악골(30.84%)에서 대부분 발생하였으며, 낭성 병소 또한 하악골(62.16%)과 상악골(34.55%)에서 대부분 발생하였다.

IV. 총괄 및 고찰

Fig. 2에서 나타난 생검의 분포를 살펴보면 서울대학교치과병원 내 구강악안면외과와 소아치과를 포함한 진료과의 의뢰가 대부분이나, 외부 수탁의뢰도 10.66%를 차지한다. 이러한 점에서 이 연구는 공공 및 민간 부문을 포괄할 수 있는 결과라고 할 수

있다. 또한 이와 유사한 연구가 전 세계 각지에서 진행되었지만, 국내에서는 이 연구가 소아 청소년의 구강 병소의 생검 비율을 평가한 최초의 연구라는 점에서 대한민국 소아 청소년의 구강 병소에 관한 생검 기반의 추가적인 정보를 제공할 수 있다고 생각된다.

여러 선행 연구에서 염증성 및 반응성 병소가 가장 흔한 카테고리임을 보고하였다[5,7,14,26,29-32]. 그러나 본 연구에서는 Lawoyin[19]의 연구에서와 같이 종양 및 종양성 병소가 가장 많은 수를 차지하였다. 한편 Dhanuthai 등[24]과 Maia 등[12]은 낭성 병소가 가장 흔함을 보고하였다. 본 연구에서 종양 및 종양성 병소는 1044개(35.7%)로, 1004개(34.3%)인 염증성 및 반응성 병소에 비해 약간 많았다. 선행연구와 다르게 나타난 종양 및 종양성 병소의 높은 수치는 인종적, 지리적인 차이뿐만 아니라 시행된 기관의 유형 차이도 영향을 미친 것으로 생각된다. Fig. 2에서 볼 수 있듯이 연구 대상이 되는 검체 중 대부분은 서울대학교치과병원 구강악안면외과에서 시행되었으며, 해당 병원은 일반 치

Table 6. Site distribution of lesions

Lesions	Biopsy site											Total
	Maxilla	Mandible	Buccal mucosa	Oral floor	Gingiva	Lip	Palate	Sinus	Tongue	TMJ	Multiple	
Inflammatory and reactive	112 (11.16)	179 (17.83)	61 (6.08)	52 (5.18)	153 (15.24)	309 (30.78)	23 (2.29)	6 (0.60)	102 (10.16)	4 (0.40)	3 (0.30)	1004
Tumor or tumor-like	322 (30.84)	497 (47.61)	48 (4.60)	1 (0.10)	67 (6.42)	24 (2.30)	29 (2.78)	1 (0.10)	46 (4.41)	3 (0.29)	6 (0.57)	1044
Cystic	304 (34.55)	547 (62.16)	0 (0.00)	2 (0.23)	0 (0.00)	2 (0.23)	0 (0.00)	3 (0.34)	0 (0.00)	0 (0.00)	22 (2.50)	880
Total	738 (25.20)	1223 (41.77)	109 (3.72)	55 (1.88)	220 (7.51)	335 (11.44)	52 (1.78)	10 (0.34)	148 (5.05)	7 (0.24)	31 (1.06)	2928
The 10 most frequently found lesions												
Odontoma	230	218										448
Mucocele	2		13	37		267			56		1	376
Dentigerous cyst	153	209									2	364
Periapical cyst	75	124									1	200
Odontogenic keratocyst	47	115									18	180
Inflammation, nonspecific	10	34	11		54	5	9		11	3		137
Ameloblastoma	4	105										109
Periapical granuloma	56	49										105
(Irritation) fibroma			16	1	40	7	6		8		1	79
Granulation tissue	13	26	2	1	12	9	1		8			72

Values are given as n (%).
For readability, 0 was omitted in the table for the 10 most frequently found lesions.

Table 7. Comparison of pediatric oral pathology from different countries

Authors (year)	Country	Cases	Age (y)	Period (y)	Most common cases		
					1 st	2 nd	3 rd
Skinner <i>et al.</i> (1986)	USA	1525	0 - 19	14	Mucocele	(Irritation) fibroma*	Inflammation, nonspecific
Das and Das (1993)	USA	2370	0 - 20	11	Mucocele**	Periapical granuloma	Periapical cyst
Chen <i>et al.</i> (1998)	Taiwan	534	0 - 15	12	Mucocele**	Dentigerous cyst	Odontoma
Lawoyin <i>et al.</i> (2000)	Nigeria	561	0 - 16	10	Ameloblastoma	Periapical cyst	Burkitt's lymphoma
Sousa <i>et al.</i> (2002)	Brazil	2356	0 - 14	15	Mucocele	Dentigerous cyst	(Irritation) fibroma*
Gultelkin <i>et al.</i> (2003)	Turkey	472	0 - 15	8	Peripheral giant cell granuloma	Hemangioma	Inflammation, nonspecific
Jones and Franklin (2006)	UK	4406	0 - 16	30	Mucocele**	Periapical granuloma	Periapical cyst
Dhanuthai <i>et al.</i> (2007)	Thailand	1251	0 - 16	15	Dentigerous cyst	Mucocele	Pyogenic granuloma
Shah <i>et al.</i> (2009)	USA	5457	0 - 16	16	Dentigerous cyst	Mucocele	Odontoma
Zuniga <i>et al.</i> (2013)	Chile	542	0 - 16	15	Mucocele	Pyogenic granuloma	(Irritation) fibroma
Kwok <i>et al.</i> (2015)	USA	4554	0 - 16	13	Mucocele	Dentigerous cyst	(Irritation) fibroma
Patil <i>et al.</i> (2017)	India	359	0 - 17	10	Mucocele	Odontoma	Periapical cyst
Taweevisit <i>et al.</i> (2018)	Thailand	230	0 - 16	15	Mucocele	Hemangioma	Nevus
Yu <i>et al.</i> (2020)	New Zealand	1139	0 - 15	10	Mucocele	(Irritation) fibroma***	Dentigerous cyst
Park <i>et al.</i> (present study)	South Korea	2928	0 - 16	20	Odontoma	Mucocele	Dentigerous cyst

* referred to in the original publication as 'fibrous hyperplasia'
 ** referred to in the original publication as 'mucus extravasation phenomenon'
 *** referred to in the original publication as 'mucosal hyperplasia'

과의원에서 종양 등이 의심되는 경우 의뢰하는 상급의료기관이라는 점에서 종양 및 종양성 병소의 생검 비율이 특징적으로 높을 것이다. 이러한 이유로 종양 및 종양성 병소가 가장 많은 수를 차지한 것으로 보이며 이러한 결과는 실제 인구에서 나타나는 빈도를 정확하게 반영하지 못한다는 점을 알아야 할 것이다.

Table 7과 같이 대부분의 선행 연구들은 본 연구와 비슷한 연령 대와 연령 간격에서 조사되었다. 본 연구에서 소아 청소년의 구강 병소는 영구치열기(46.04%)에서 혼합치열기(45.01%)보다 높았는데 이는 대부분의 선행 연구들과 비슷하였다[5-8,23,26,32]. 반면 Zuniga 등[14], Gultelkin 등[17], Dhanuthai 등[24]은 혼합치열기 연령대에서 가장 많은 생검이 시행되었다. 이는 연구에 포함된 환자 연령대의 차이, 생검을 시행하는 의료기관의 진료 특성의 차이, 인구 밀도 및 소아 청소년 인구 비율에 관한 국가 간 차이 등이 기인한 것으로 생각된다. 본 연구는 선행 연구들과 마찬가지로 두 성별 간에 거의 동일한 분포(M : F = 1.11 : 1)를 보여주었다[5,14,18,23,32].

각 선행 연구들이 보고한 가장 많은 세 가지 주요 병소를 Table 7에 정리하였다. 그 결과 본 연구에서 나타난 상위 10개 병소 중 7개 병소가 이 주요 병소 내에 포함되는 것을 알 수 있었다. 또한 남은 세 가지 병소(치성각화양, 법랑모세포종, 육아

조직) 또한 Wang 등[31], Shah 등[6], Yu 등[23], Jones 와 Franklin[18]이 보고한 상위 15개의 구강 병소 내에 포함되는 것을 알 수 있었다.

염증성 및 반응성 병소 카테고리에서는 점액종이 가장 많은 수를 차지하였다. Gultelkin 등[17]의 연구를 제외한 거의 모든 연구에서 본 연구와 마찬가지로 점액종이 가장 흔한 병소로 나타났다[5,7,8,13,14,18,23,26,27,32]. Gultelkin 등[17]의 연구에서는 염증성 및 반응성 병소 중 주변성 거대세포 육아종이 가장 흔하였는데, 이 질환의 주요 연관 인자 중 하나가 구강 위생상태라는 점에서 위 결과는 터키 어린이의 낮은 구강위생수준과 교육 수준이 반영된 결과로 보인다[1,34].

종양 및 종양성 병소에서 양성은 96.55%를 차지하였다. 이는 선행 연구들에서 보고한 수치(84 - 99.9%)와 비슷하였다[3,4,7,9]. 양성 병소 중 치성 병소에서는 치아종이 가장 흔하였으며 대부분의 선행 연구들도 이와 같았다[5,7,13,18,32]. 그러나 Lawoyin[19]과 Dhanuthai 등[24]의 연구에서는 법랑모세포종이 치아종보다 많은 수를 차지하였다. 치아종은 유병률을 기준으로 모든 치성 종양의 약 70%를 차지할 정도로 흔한 질환이다[1]. Lawoyin[19]과 Dhanuthai 등[24]의 연구에서 보고된 치아종의 낮은 수치는 대부분의 치아종이 무증상이며, 나이지리아나 태국

과 같은 개발 도상국의 대다수 사람들은 임상적 증상이 없는 한 정기적인 방사선 검사를 받지 않는다는 사실에 기인한 것으로 보인다[24,35].

양성 종양 및 증양성 병소 중 비치성 병소에서는 골화 섬유종이 가장 흔하였는데, 이는 Dhanuthai 등[24]이 보고한 것과 같았다. 그러나 북미에서 시행된 Das와 Das[5], Skinner 등[7]의 연구, 그리고 남미에서 시행된 Sousa 등[13]의 연구에서는 편평유두종이 가장 흔하였다. 편평유두종의 원인 인자에는 사람 유두종 바이러스(Human papillomavirus, HPV)의 구강 내 감염, 흡연, 국소 물리적 자극 등이 있는데, 이러한 원인 인자의 기여 정도가 국가별 문화 및 생활 습관의 차이로 인해 다르기 때문에 이와 같은 결과가 나온 것으로 보인다[1,35]. 한편 Gultekin 등[17]과 Taweevisit 등[26]의 연구에서는 혈관종이 가장 흔하게 나타났다. 두 선행 연구 모두 검체 수가 현저히 적어 편향된 결과의 가능성을 배제하지 못할 것으로 생각된다. 또한 혈관종의 경우 일반적으로 소아 청소년기에서는 자발적 퇴축을 기대하며 외과적 개입을 하지 않기 때문에, 본 병원에서 시행한 생검 비율은 실제로 임상에서 발견되는 비율과 차이가 있을 것으로 생각된다.

악성은 종양 및 증양성 병소 중 3.4%를 차지하였으며, 이는 선행 연구에서 보고한 범위(0.1 - 4%)에 해당한다[7,9,14,24,26]. 편평세포암종은 구강에서 가장 흔한 악성종양으로 모든 구강암의 약 90%를 차지하며, 대부분 40세 이후에 발생한다[1]. 소아 청소년에서는 모든 구강 악성 종양의 2% 미만을 차지하는 것으로 보고되고 있는데[36], 이 연구에서는 10세, 13세, 16세에서 3개의 검체가 보고되었다. Sidell 등[37]은 6세 남아에서 발생한 편평세포암종을 보고한 바 있다. 이렇듯 편평세포암종은 소아에서는 매우 드문 질환이나, 성인보다 공격적인 양상을 가지기 때문에 예후가 더 나쁘다고 알려져 있다[36]. 이러한 이유로 소아 청소년에서 편평세포암종이 의심되는 경우 이를 간과하지 않고 이른 시기에 생검을 통한 감별진단이 필요할 것으로 생각된다.

낭성 병소 중에서는 함치성낭이 가장 많은 수를 차지하였으며 치근단낭이 그 뒤를 이었다. 이는 대부분의 선행연구와 일치하는 결과였으나[6,8,13,23,24,32], 일부 연구에서는 치근단낭이 함치성낭보다 많았다[5,14,19]. 치근단낭은 치아우식이 주요 원인이며, 치근단수술을 시행하지 않는 한 생검을 시행하는 비율은 낮다는 점에서 이러한 결과는 국가별 치아 우식 유병률의 차이와 치료 방식의 차이로 인한 결과로 해석된다.

이 연구에서는 몇 가지 한계점이 존재하는데, 먼저 실제 유병률과 생검 비율 간의 차이를 들 수 있다. 육아조직이나 궤양과 같이 특정 병소의 경우 임상에서 마주하더라도 그 실체가 비교적 명확하거나 진단학적 가치가 낮기 때문에 생검을 시행하지 않기도 하며, 임상가의 진료 철학이나 판단 하에 생검 여부를

결정하기도 한다. 뿐만 아니라 혈관종과 같이 생검 자체의 침습적 특성으로 인해 특정 병소 혹은 고위험군의 환자에서는 시행하지 않는 경우도 있으며, 임상에서 병소를 놓치는 경우 및 환자가 원치 않거나 협조도 부족으로 시행하지 않는 경우도 존재한다. 임상에서 시행되는 생검은 대부분 악성이 의심되는 병소를 수술 전에 조직학적으로 확정 진단하기 위해 시행하는 절개 생검(incisional biopsy)이거나, 치료의 일환으로서 외과적 절제 시 떼어낸 조직에 대한 평가를 위해 시행하는 절제 생검(excisional biopsy)이다[38]. 그러나 악성이 의심되거나 절제가 필요한 모든 구강 병소에 대해 시행하기보다는, 앞서 언급한 것과 같이 술자의 주관적인 판단 및 환자의 동의 여부 등을 종합적으로 고려하여 시행하고 있으며 이는 서울대학교치과병원에서 또한 마찬가지이다. 따라서 이는 유병률뿐만 아니라 병원 내 발생률과도 차이가 있다는 점을 알아야 한다.

두 번째로 표집 편중(Sampling bias), 즉 본 연구 결과가 대한민국의 소아 청소년의 구강 병소 생검으로서의 대표성이 부족하다는 점이다. 서울대학교치과병원 구강병리과는 대한민국의 주요 구강 병리 의뢰 센터이나, 국내 소아 청소년에서 시행되는 모든 구강 생검을 반영하지는 못한다. 또한 조직학적으로 최종 진단명이 불명확하거나, 의무기록상에서 일부 정보가 누락되어 선정기준에서 배제된 증례가 존재하기 때문에 이로 인한 차이도 존재한다. 마지막으로 진단 준비 및 진단을 시행하는 병리학자 및 임상병리사의 능력, 그리고 진단 과정에서 발생하는 실수 등으로 인한 오류가 생길 수 있다는 한계점도 존재한다.

V. 결 론

이 연구에서는 최근 20년간 서울대학교치과병원 구강병리과에서 시행한 만 16세 이하 환자의 구강 병소의 생검 결과를 후향적으로 분석하였다. 총 2928개의 병소 중 가장 흔한 유형은 종양 및 증양성 병소였으며, 카테고리에 상관없이 가장 흔한 진단명은 치아종, 점액종, 함치성낭 순이었다. 이 연구는 대한민국에서 시행된 소아 구강 병리에 대한 최초의 후향적 연구로, 구강 병소에 관해 조직학적으로 진단된 병소의 빈도를 제시하고 있다. 이 연구는 소아 청소년의 구강 병소를 진단하고 치료하는 소아치과 의사에게 유익한 통찰력을 제공할 수 있을 것으로 기대된다.

Authors' Information

Sang Hyun Park <https://orcid.org/0000-0003-4930-1229>

Hyuntae Kim <https://orcid.org/0000-0003-2915-8584>

Ji-Soo Song <https://orcid.org/0000-0002-4469-5903>
Hong-Keun Hyun <https://orcid.org/0000-0003-3478-3210>
Young-Jae Kim <https://orcid.org/0000-0003-4916-6223>
Jung-Wook Kim <https://orcid.org/0000-0002-9399-2197>
Ki-Taeg Jang <https://orcid.org/0000-0002-4060-9713>
Teo Jeon Shin <https://orcid.org/0000-0003-4499-8813>

References

1. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Chi AC : Oral and Maxillofacial Pathology, 4th ed. Elsevier, 381-675, 2015.
2. Maaaita JK : Oral tumors in children: a review. *J Clin Pediatr Dent*, 24:133, 2000.
3. Trobs RB, Mader E, Friedrich T, Bennek J : Oral tumors and tumor-like lesions in infants and children. *Pediatric Surg Int*, 19:639-645, 2003.
4. Choi JY, Lee SH, Yoon HJ : Use of corticosteroids in the treatment of localized langerhans cell histiocytosis of the mandible: case report. *Maxillofac Plast Reconstr Surg*, 31: 249-253, 2009.
5. Das S, Das A : A review of pediatric oral biopsies from a surgical pathology service in a dental school. *Pediatr Dent*, 15:208-211, 1993.
6. Shah SK, Le MC, Carpenter WM : Retrospective review of pediatric oral lesions from a dental school biopsy service. *Pediatr Dent*, 31:14-19, 2009.
7. Skinner RL, Davenport Jr W, Weir J, Carr R : A survey of biopsied oral lesions in pediatric dental patients. *Pediatr Dent*, 8:163-167, 1986.
8. Kwok EY, Dovigi EA, Eversole LR, Dovigi AJ : Pediatric oral pathology: a retrospective survey of 4,554 biopsies. *Pediatr Dent*, 37:546-549, 2015.
9. Keszler A, Guglielmotti M, Dominguez F : Oral pathology in children. Frequency, distribution and clinical significance. *Acta Odontol Latinoam*, 5:39-48, 1990.
10. Cavalcante R, Turatti E, Chen Z, et al. : Retrospective review of oral and maxillofacial pathology in a Brazilian paediatric population. *Eur Arch Paediatr Dent*, 17:115-122, 2016.
11. Lima GS, Fontes ST, Gomes APN, et al. : A survey of oral and maxillofacial biopsies in children: a single-center retrospective study of 20 years in Pelotas-Brazil. *J Appl Oral Sci*, 16:397-402, 2008.
12. Maia DMF, Merly F, Castro WH, Gomez RS : A survey of oral biopsies in Brazilian pediatric patients. *J Dent Child*, 67:128-131, 2000.
13. Sousa FB, Etges A, Soares de Araujo N, et al. : Pediatric oral lesions: a 15-year review from Sao Paulo, Brazil. *J Clin Pediatr Dent*, 26:413-418, 2002.
14. Zuniga MD, Mendez CR, Kauterich RR, Paniagua DC : Paediatric oral pathology in a Chilean population: a 15-year review. *Int J Paediatr Dent*, 23:346-351, 2013.
15. Martins-Filho PRS, Santos TS, Andrade ESS, et al. : A multi-center retrospective cohort study on pediatric oral lesions. *J Dent Child*, 82:84-90, 2015.
16. Sklavounou-Andrikopoulou A, Piperi E, Papanikolaou V, Karakoulakis I : Oral soft tissue lesions in Greek children and adolescents: a retrospective analysis over a 32-year period. *J Clin Pediatr Dent*, 29:175-178, 2005.
17. Gultelkin SE, Tokman B, Turkseven MR : A review of paediatric oral biopsies in Turkey. *Int Dent J*, 53:26-32, 2003.
18. Jones A, Franklin C : An analysis of oral and maxillofacial pathology found in children over a 30-year period. *Int J Paediatr Dent*, 16:19-30, 2006.
19. Lawoyin J : Paediatric oral surgical pathology service in an African population group: a 10 year review. *Odontostomatol Trop*, 23:27-30, 2000.
20. Munsamy C, Mahomed F, Rikhotso E : A 20-year retrospective study of oral and maxillofacial histopathology in a South African paediatric population sample: scientific. *S Afr Dent J*, 66:268-271, 2011.
21. Ha W, Kelloway E, Dost F, Farah C : A retrospective analysis of oral and maxillofacial pathology in an Australian paediatric population. *Aust Dent J*, 59:221-225, 2014.
22. Huang G, Moore L, Logan RM, Gue S : Retrospective analysis of South Australian pediatric oral and maxillofacial pathology over a 16-year period. *J Investig Clin Dent*, 10: e12410, 2019.
23. Yu Z, Seo B, Rich AM, et al. : The relative frequency of paediatric oral and maxillofacial pathology in New Zealand: A 10-year review of a national specialist centre. *Int J Paediatr Dent*, 30:209-215, 2020.
24. Dhanuthai K, Banrai M, Limpanaputtajak S : A retrospective study of paediatric oral lesions from Thailand. *Int J Paediatr Dent*, 17:248-253, 2007.
25. Puangwan Laphthanasupkul D, Juengsomjit R, Sopee Poomsawat D, et al. : Oral and maxillofacial lesions in a Thai pediatric population: a retrospective review from two dental schools. *J Med Assoc Thai*, 98:291-297, 2015.
26. Taweewisit M, Tantidolthanes W, Keelawat S, Thorner PS :

- Paediatric oral pathology in Thailand: a 15-year retrospective review from a medical teaching hospital. *Int Dent J*, 68: 227-234, 2018.
27. Patil S, Kontham U, Kontham R, Chowdhery A : Retrospective evaluation of paediatric oral biopsies over a 10-year period in Western India. *Eur Arch Paediatr Dent*, 18:171-178, 2017.
 28. Qannam A : The pattern of diagnosis of oral soft tissue biopsies in Saudi Arabian children and adolescents. *J Pak Dent Assoc*, 24:93-99, 2015.
 29. Siadati S, Seyedmajidi M, Sharbatdaran M : Frequency of different oral lesions in children and adolescents in Babol, Northern Iran. *Caspian J Intern Med*, 4:773-776, 2013.
 30. Lei F, Chen JY, Chen YK, *et al.* : Retrospective study of biopsied oral and maxillofacial lesions in pediatric patients from Southern Taiwan. *J Dent Sci*, 9:351-358, 2013.
 31. Wang YL, Chang HH, Guo MK, *et al.* : Retrospective survey of biopsied oral lesions in pediatric patients. *J Formos Med Assoc*, 108:862-871, 2009.
 32. Chen YK, Lin LM, Yan YH, *et al.* : A retrospective study of oral and maxillofacial biopsy lesions in a pediatric population from Southern Taiwan. *Pediatr Dent*, 20:404-410, 1998.
 33. Kim GS : Clinicopathological study on odontogenic neoplasms in oral regions. *J Korean Dent Assoc*, 17:885-894, 1979.
 34. Gultekin SE, Saracgil S, Oygur T, Yucel E : A clinical and histopathological evaluation of giant cell lesions of the jaws. *Asian J Oral Maxillofac Surg*, 10:23-31, 1998.
 35. Regezi JA, Sciubba J, Jordan RCK : Oral pathology: clinical pathologic correlations, 7th ed. Elsevier, 228-288, 2016.
 36. Stolk-Liefferink SAH, Dumans AG, Van der Wal KGH, *et al.* : Oral squamous cell carcinoma in children; review of an unusual entity. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 72:127-131, 2008.
 37. Sidell D, Nabili V, Abemayor E, *et al.* : Pediatric squamous cell carcinoma: case report and literature review. *Laryngoscope*, 119:1538-1541, 2009.
 38. Andersson L, Kahnberg KE, Pogrel MA : Oral and maxillofacial surgery, 1st ed. Wiley, 597-699, 2012.

국문초록

소아 청소년 환자에서 시행된 구강 병소 생검 : 20년 간의 후향적 연구

박상현 · 김현태 · 송지수 · 현홍근 · 김영재 · 김정욱 · 장기택 · 신터전

서울대학교 치의학대학원 소아치과학교실

이 연구는 서울대학교치과병원에서 시행된 소아 청소년 환자의 구강 병소 생검 결과를 후향적으로 분석하여, 소아 청소년의 구강 질환에 관한 병리학적 자료를 제시하고자 하였다.

2000년 1월부터 2020년 4월까지 서울대학교치과병원 구강병리과에서 만 16세 이하를 대상으로 시행된 구강 조직 생검 결과에 대한 의무기록을 열람하였다. 환자는 0 - 5세, 6 - 11세, 12 - 16세의 세 집단으로 나누었으며 병소는 염증성 및 반응성 병소, 종양 및 종양성 병소, 낭성 병소의 세 범주로 분류하였다.

총 2928개의 생검 조직 중 종양 및 종양성 병소(35.66%)가 가장 많았으며, 염증성 및 반응성 병소(34.29%), 낭성 병소(30.05%) 순이었다. 카테고리과 상관없이 가장 많은 수를 차지한 병소는 치아종이었으며, 점액종, 함치성낭이 그 뒤를 이었다. 이 연구는 대한민국에서 시행된 소아 구강 병리에 대한 최초의 후향적 연구로, 임상에서 이러한 병변을 마주칠 수 있는 소아치과 의사에게 유익한 식견을 제공할 수 있을 것으로 기대된다.