

선천성 Epulis : 증례보고

전북대학교 치과대학 구강악안면외과학 교실 및 구강생체과학 연구소
홍진호, 이환수, 신효근

ABSTRACT

Congenital Epulis : A case Report

Jin-Ho Hong, Hwan-Soo Lee, Hyo-Keun Shin.
Dept. of Oral & Maxillofacial surgery, School of Dentistry
Institute of Oral Bio-Science, Chonbuk National University

Congenital epulis, 105 kinds of cases have been reported since 1871 when the first case had reported by Neumann, is a rare benign tumor of young children. It occurs eight times more in female than in male. And its shape is circular peduncle and its color is pink similar to a normal gingiva. In general, it causes to a meal ingestion and respiratory disturbance according to the size. Surgical resection is commended and recurrence are very rare. Histologically it seems like Granular cell tumor and it has been classified Granular cell lesion. However, the differential diagnosis can be possible by age and immune staining.

This study reported a case of typical congenital epulis arised in female child at four days. Solid peduncular tissue was observed in alveolar ridge of canine site and it resected under general anesthesia. Tissue examination was executed and observed by means of the light microscope. For the differential diagnosis, we executed immunochemical staining with S-100 protein and CD 68. After the operation the patient was evaluated normal and went back home after eight days. The operative region was well.

This study reports to help to diagnosis and cure of this disease through the case report.

Key Words : Congenital epulis, Granular cell tumor.

1. 서론

선천성 치은종 (Congenital Epulis)은 1871년 Neumann¹⁾에 의해 처음 보고된 이래로 100년간 195 증례가 보고되어진 유아기의 드문 양성종양으로 상악의 견치위치에 있는 치조정(alveolar ridge)에서 주로 발생한다²⁾. 여자에서 남자보다 약 8배정도 호발하

는 것으로 알려져 있고³⁾ 크기는 수 mm에서 수 cm 까지 다양하다⁴⁾. 모양은 둥근 유경형태이며 하나 또는 여러개의 분엽을 갖기도 하고⁵⁾ 치은조직과 비슷한 약간 붉은색을 띤다. 일반적으로 크기에 따라서 음식섭취 및 호흡상에 문제를 유발⁶⁾하기도 하며 외과적 절제술이 추천되어지고 있고 재발은 거의 없다. 이는 조직학적으로 과립 세포종(Granular cell

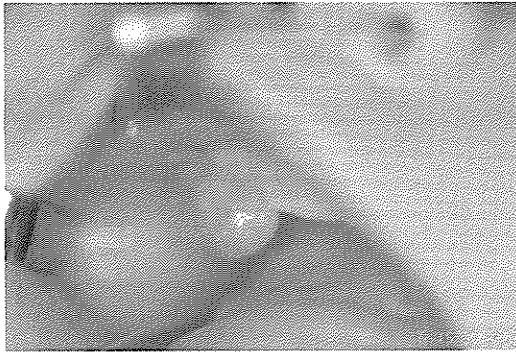


그림 1. 구강내 소견

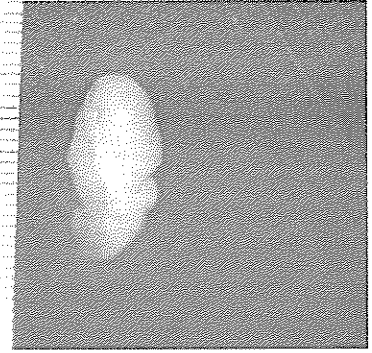


그림 2. 절제된 병소

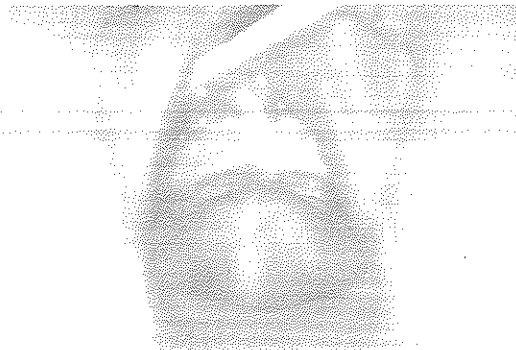


그림 3. 술 후 1개월 구강 내 소견

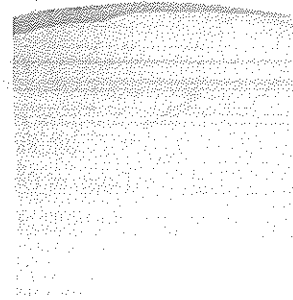


그림 4. 저배율 소견(×25)

tumor)과 유사하여 과립 세포병소로 분류되고 있으나 발생연령 및 위치 면역염색 등에 의해 감별 진단이 가능하다⁷⁾.

전북대학교 치과대학 구강악안면외과에 내원한 생후 4일된 여자아에서 발견된 전형적인 선천성 치은종의 치험 1례를 문헌고찰과 함께 보고함으로써 진단·치료하는 데 도움이 되고자 한다.

II. 증례보고

1. 증례

생후 4일된 여자아으로 태어날 때부터 상악 우측 치조정 부위에 발생한 조직을 주소로 2000년 6월 13일 본원 구강악안면외과에 내원하였다. 임상검사에서 상악 우측 견치부위 치조정에 딱딱하고 유경의 조직

이 관찰되었으며 색은 주변 치조정부위보다 약간 더 붉은색을 띠고 있었으나 큰 차이는 보이지 않았다. 크기는 약 10×5mm이었다(그림 1).

술후 전신소견상으로 신생아 황달증세 외에 정상소견을 보이고 있었으며 혈액검사결과는 Total - Bilirubin수치가 13.37mg/dL로 높은 것 외에는 정상범주에 속하였다. 6월 15일 전신마취하에 절제 생검을 시행하였으며 술 후 수술부위에 감염소견은 보이지 않은 상태로 술 후 8일째 퇴원하였다(그림 2). 7월 26일 1달째까지 재발소견은 보이지 않았다(그림 3).

2 조직학적소견

1) 광학현미경 소견 : H-E stain

저배율 소견상 위측된 상피와 하방의 충실성 증피

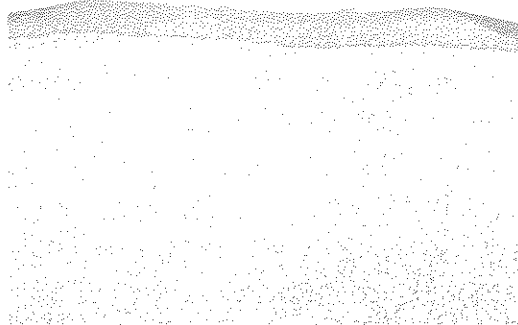


그림 5. 고배율 소견(×100)

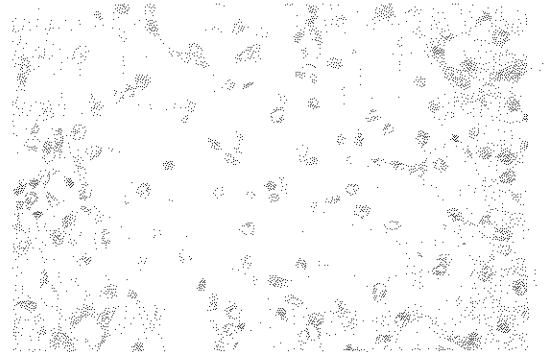


그림 6. 고배율 소견(×450)

를 관찰할 수 있으며 100배로 관찰한 경우 중층편평 상피에서는 rete peg의 소실이 관찰되며 과립세포종(Granular cell tumor)과는 다르게 pseudohyperplasia는 보이지 않으며 일정한 형태의 과립세포로 이루어진 종괴가 관찰되며 병소 본체와 주변의 섬유조직은 비교적 경계를 잘 이루고 있으며 일부 종양잔사들이 관찰된다. 또한, 병소 본체와 경계부분에서도 다수의 혈관들을 관찰할 수 있다(그림 4, 그림 5).

고배율소견(×450)에서 종양세포들은 크고, 원형세포로 구성되었으며 세포질은 과립성 및 호산성이며 핵은 둥글거나 타원형을 보여 전형적인 과립세포로 생각할 수 있으며, 세포들은 autophagic vacuole을 포함하기도 한다(그림 6).

2)면역화학 염색 소견 (그림7)

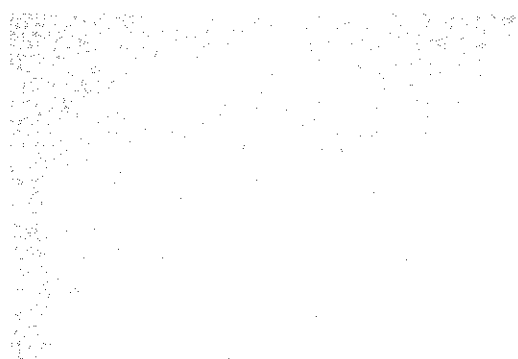


그림7. S-100 stain(-)

S-100 protein과 CD 68에 negative를 나타낸다.

III. 총괄 및 고찰

선천성 치은종은 드문질환으로 여자에서 약 80%를 차지하고 있으며 상악에 위치하는 경우가 약 65%가량으로 더 많다²⁾. 구강내에서 상·하악중 한곳에서 1개 또는 그 이상으로 발생하기도 하며 상·하악 모두에서 나타나기도 한다. 본 환자에서는 상악에서 단발성으로 발생하였다⁶⁾.

많은 저자들이 선천성 치은종을 과립세포종으로 착각하는 데 이는 조직소견상 과립세포의 많은 존재 때문이다. 이러한 특징 때문에 선천성 치은종은 과립세포종(GCT), 조직구종(Histiocytoma), 동면선종(Hibernoma) 등과 함께 과립세포병소에 포함되어진다⁸⁾.

그러나, 선천성 치은종은 과립세포종과는 다음과 같은 차이점이 있다⁹⁾.

1. 조직소견상 구조에서 규칙성이 있다.
2. 신경조직 구조물(Neural components)를 포함하지 않는다.
3. 혈관조직 구조물이 있다.
4. 신생아에서 발생한다.
5. 주로 상·하악의 측절치와 견치위치에 존재하고 과립세포종은 주로 혀에 발생한다.
6. 여자에서 8배 많이 발생한다.

또한, 면역염색시 선천성 치은종은 S-100과 AAT(alpha-1-antitrypsin)에 negative이고, Vimentin에는 positive이나 과립세포종은 이와는 달리 S-100, AAT, Vimentin 모두에 반응하여 감별진단이 가능하다⁹⁾.

선천성 치은종의 조직 소견은 유두모양이 없는 중층편평상피(Non-papillated stratified squamous epithelium)이고 균일한 두께를 갖는다. 종양내부에는 과립성 호산성 원형질(granular eosinophilic cytoplasm)을 갖고 있는 다각형세포(polygonal cells)로 구성이 되어 있으며 핵은 극성을 보이고 있다. 다수의 혈관성 결합조직(vascularized CT mass)이 과립세포들 사이에서 관찰된다¹⁰⁾.

비록, 양성이라 할지라도 크고 다발성인 경우에는 음식섭취시나 호흡장애를 유발할 수도 있기 때문에 외과적 절제를 원칙으로 한다. 크기가 커서 호흡장애 등을 유발할 수 있는 경우는 태아기에 초음파상으로 진단이 가능하여 태어날 때 이에 대한 적절한 대비를 할 수 있다¹¹⁾. 선천성 치은종은 치아와 관련이 없는 것으로 알려져 있으나 간혹 치아의 치배와 연결이 되어 있는 경우도 보고되었다. 그러나, 치배 기원이라는 조직학적인 증거는 발견되지 않았다¹²⁾. 불완전한 제거시 조차도 재발이나 악성으로의 전환도 현재까지는 보고된 적이 없다.

원인 및 기원에 대해서 아직까지 알려지지 않았다. 1931년에 Abrikossoff는 embryonal muscle cells에서 기

원한다고 하였으며 1950년 Parse는 fibroblast origin으로 생각하였으며, 1953년 Custer & Fust는 신경조직에서 존재하는 Schwann cells을 기원으로 생각하였다. 이외에 histiocyte(Leroux & Delare 1939), 또는 odontogenic (Campel, 1955)으로 생각하는 이론도 있다⁹⁾.

현재는 미분화된 간엽 세포(mesenchymal cells)기원으로 고려되고 있는 데 이는 면역염색시 선천성 치은종이 S-100 단백질에 반응하지 않거나 초음파소견상 actophagic vacuoles의 존재 때문이다^{2),8)}.

IV. 요 약

상악 치조정에 발생한 선천성 치은종은 증례에 있어서 가장 전형적인 경우로 임상적으로 크기에 따라서 음식섭취장애나 호흡장애를 유발할 수 있다. 이 때문에 외과적 절제를 원칙으로 하고 이러한 합병증을 유발할 수 있는 경우에는 태아기에 초음파 등을 조기 진단을 할 수 있다. 과립세포종으로 오진될 수 있는 경우는 환자의 나이나 위치 및 전술한 조직소견 등을 고려하면 감소되어질 수 있다.

참 고 문 헌

1. Neumann E.: Elin Fall von congenitaler Epulis, Arch Heilk, 12 : 189, 1871
2. Zuker R.M., buenechea R.B.; Congenital epulis: Review of the Literature and case report, JOMS, 51 : 1040-43, 1993
3. Fuhr A.H. & Krogn P.H.J.: Congenital epulis in the newborn: Contennia review of the literature and case report, J Oral surg, 30 : 30, 1972
4. Chami RG, Wang HS: Large epulis of the newborn, J pediatri surg, 21 : 929, 1986
5. Bernhort CH, Gilhuus-Moe O, Bang G, et al: Congenital epulis in the newborn, Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 13 : 25, 1987
6. Uglesic V, Bantlin M.: Congenital Epulis ; A case report, British J Oral Maxillofac surg, 26, 237-40, 1988
7. Kaiserling E, Ruck E, Jia-Cheng Xiao: Congenital epulis and granular cell tumor ; A histologic & immunohisto-chemical study, Oral surg oral med oral path oral rad endo, 80, 687-97, 1995
8. Rohrer M.D., Young S.K.: Congenital epulis (gingival granular cell tumor) ; Ultrastructural evidence of origin from pericytes, Oral surg Oral med Oral path, 53 : 56-63, 1982
9. Mirchandani R, Sciubba J.J. Mir R.R.: Granular cell lesions of the jaw and oral cavity ; A clinicopathologic, immunohistochemical, and ultrastructural Study, JOMS, 47 : 1248-55, 1989
10. Damm D.D., Cibull M.L, Geissler R.H.: Investigation into histogenesis of congenital epulis of the newborn, Oral surg Oral med Oral path, 76 : 205-12, 1993
11. McMahon M.G., Mintz S.: In Utero Diagnosis of a congenital gingival granular cell tumor and immediate postnatalsurgical management , JOMS, 52 : 496-498, 1994
12. Michiyo S., Yoshinori H., Hiroko K., Takeshi M., Masamichi O., A case of congenital epulis associated with an impacte supernumerary tooth germ, 日本口腔外科 學會雜誌, 46, 5, 313-315, 2000