

하악골에 발생한 범랑아세포암종

류동목 · 전용일* · 이상철 · 김여갑 · 이백수
경희대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2002;28:226-230)

A CASE REPORT OF AMELOBLASTIC CARCINOMA ON THE MANDIBLE

Dong-Mok Ryu, Yong-Il Jeon*, Sang-Chull Lee, Yeo-Gab Kim, Baek-Soo Lee
Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Dental Collage, Kyung-Hee University

Carcinomas derived from ameloblastomas have been designated by a variety of terms, including malignant ameloblastoma, ameloblastic carcinoma, metastatic ameloblastoma, and primary intra-alveolar epidermoid carcinoma. The term of ameloblastic carcinoma is differentiated from the term of malignant amelblastoma and is defined as an ameloblastoma in which there is histologic evidence of malignancy in the primary tumor or the recurrent tumor(or metastasis), regardless of whether it has metastasized.

The well-documented and adequately followed cases are currently lacking and this report described an instance of ameloblastic carcinoma with good result after treatment and review of literature.

Key words : Ameloblastic carcinoma, Malignant ameloblastoma

I. 서 론

상하악골에서 중심성(centrally)으로 발생하는 암종의 특성을 규정짓는 것은 어려운 일이다. 진단과정의 첫 번째 단계에서 전이성 질환이나 인접 연조직 또는 부비동으로 부터의 종양에 의해 골내로 침입된 것들은 제외시켜야 한다. 게다가 신생물의 발생이 범랑아세포종이나 치성낭종 또는 치성상피잔사를 포함한 치성 기원 뿐만아니라 타액선 상피나 embryonic 유합부를 따라 함입된 상피와 같이 서로 다른 다양한 근원으로부터 유래될 수도 있기 때문이다.

범랑아세포종으로부터 유래된 암종은 다양한 용어로서 명명되고 있는데, 여기에는 악성 범랑아세포종^{2,3)}, 범랑아세포암종^{1,4,5)}, 전이성 범랑아세포종^{6,7)} 그리고 원발성 치조내유상피암종⁸⁾이 있다. 많은 저자들이 조직학적 소견에 관계없이 공격적이거나 전이성을 가진 모든 범랑아세포종을 악성 범랑아세포종에 포함시키고 있다. 하지만 일부 학자들은 악성 범랑아세포종과 범랑아세포암종을 구별짓고 있는데, 악성 범랑아세포종은 전이된 질환^{9,10)}이지만 원발부와 전이된 부위 모두에서 잘 분화되었거나 또는 양성의 성격을 지닌 것으로 정의하고 있으며, 범랑아세포암종은

조직학적으로 범랑아세포종의 특징과 편평상피세포암의 세포학적 악성도를 함께 지니고 있는 것으로 구별짓고 있다^{12,4,5,12,13)}.

현재까지는 범랑아세포암종에 대해 장기간에 걸쳐 충분히 재검되어 그 결과가 잘 문서화된 경우가 부족한 상태이며, 따라서 본과에서는 치료후 현재까지 양호한 결과 상태를 보이고 있는 범랑아세포암종의 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

본 환자는 68세 남자로 2000년 11월 20일 하악 좌측 우각부와 악하부의 종창을 주소로 연천의료원으로부터 의뢰되었다. 과거 병력상 2000년 7월경부터 하악 좌측 우각부의 종창과 통증을 인지하기 시작하였으며 이를 주소로 9월경 이비인후과(L/C)에 내원하여 약물치료를 받았으나 증상이 완화되지 않아 10월 31일 연천군 보건소에서 조직검사를 시행 하였다. 조직검사 결과 범랑아세포암종(ameloblastic carcinoma with fibromatous component)으로 진단받고 이의 치료를 위해 본과로 의뢰되었다.

1. 초진시 소견

초진시 구강외 소견으로는 하악 좌측 우각부와 악하부에 안면 종창과 경결감을 보이고 있었고(Fig. 1), 구강내 소견으로는 좌측 하악 구치부의 치은 종창과 biopsy 시행한 부위에 N-F gauze가 충전되어 있는 상태였다(Fig. 2).

류 동 목

130-702, 서울특별시 동대문구 회기동 1
경희대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Dong-Mok Ryu

Dept. of OMFS, Dental Collage, Kyung-Hee University
1, Hoegi-Dang, Dongdaemun-Gu, Seoul, 130-702, Korea
Tel: 82-2-958-9441 Fax: 82-2-966-4572

2. 방사선학적 소견

1) 파노라마

좌측 하악 구치부 부위에 경계가 불명확한 방사선투과성 병변이 관찰되었다. 병소의 중심은 좌측 하악체내에 위치하며 상방으로는 무치악의 치조정을 넘고 하방으로는 좌측 하악관과 하악 하연의 피질골을 파괴시키며 성장하는 양상이었다. 병소의 변연은 sharp하지 않은 ragged margin 소견을 보였으며, 병소내부는 비교적 homogenous한 방사선 투과성을 보이고 있었고 명확한 calcification이나 부골과 같은 소견은 보이지 않았다(Fig. 3).

2) 골스캔상

좌측 하악체와 하악지 부위에 국소적으로 방사능 섭취가 강하게 증가되어있는 소견을 보였고, 또한 우측 천골장골관절(sacroiliac joint)의 상부에 국소적으로 방사능 섭취가 증가된 소견을 보

여 정형외과에 의뢰한 결과 bony metastasis된 것은 아닌 것으로 판명되었다(Fig. 4).

3) CT상

Bone window의 axial image에서 좌측 하악체 부위에 하악골을 파괴시키며 주위조직으로 뺏어나가는 골용해성 병변이 관찰되며 병소로 인해 하악의 협.설측 피질골이 파괴되고 내부의 bony trabecular pattern도 소실되어 있다(Fig. 5-1).

좀 더 하방부의 soft window image에서 좌측 jugulodigastric 부위에 작은 lymph node가 관찰되어 lymphadenopathy 소견이 보이고 또한 병소가 하악 하연 피질골 하방으로까지 연장되어 있으며, 병소로 인해 좌측 악하선이 우측에 비해 후내측으로 전위되어 있으나 병소와 좌측 악하선의 경계는 비교적 명확한 소견을 보이고 있다(Fig. 5-2).

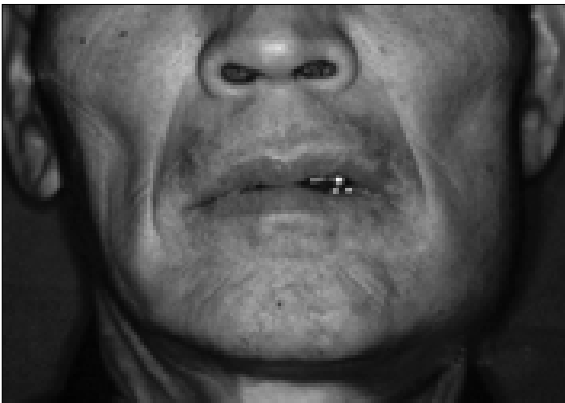


Fig. 1. Preoperative extraoral view showing swelling of Lt. Mn. angle area



Fig. 2. Preoperative intraoral view after biopsy

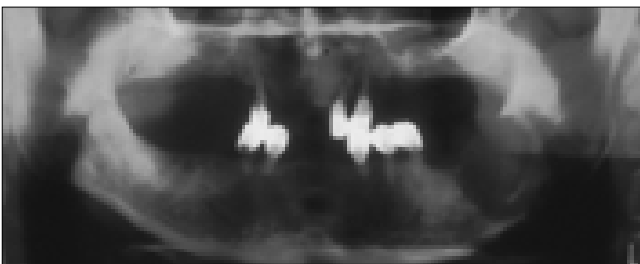


Fig. 3. Panoramic view showing the ill-defined osteolytic lesion on Lt. Mn. molar area

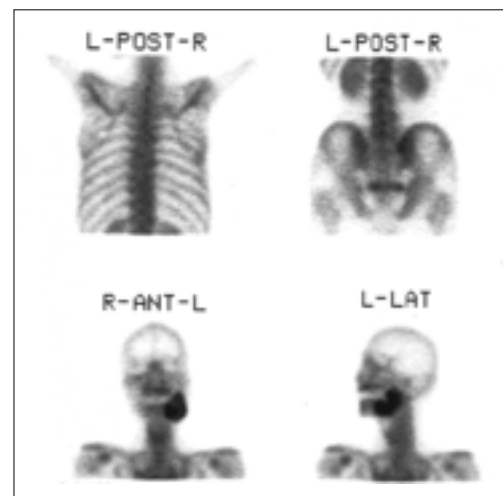


Fig. 4. Bone scan showing increased of radioactivity uptake on Lt. Mn. and Rt. sacroiliac joint

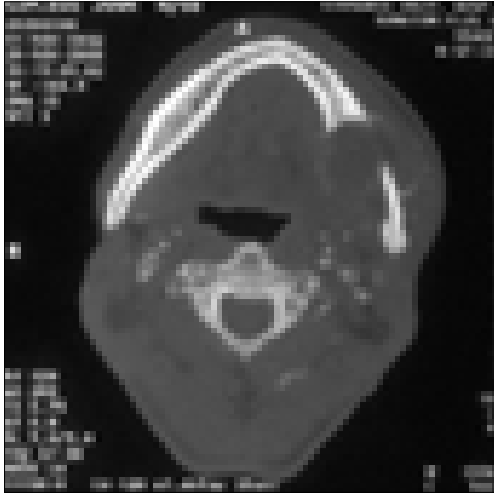
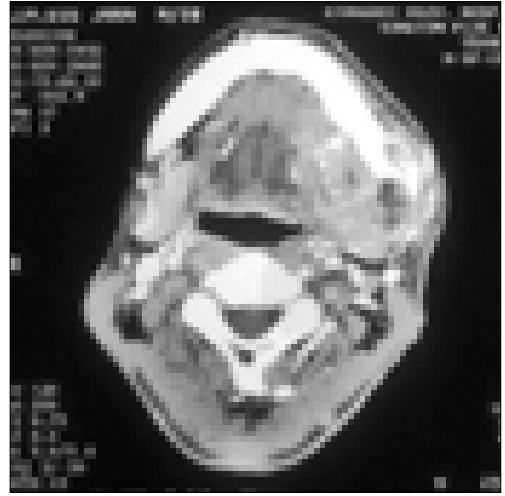


Fig. 5. 1) CT scan showing expansive bony destruction on Lt. Mn. angle area



2) CT scan showing the small Lt. jugulodigastric lymphadenopathy

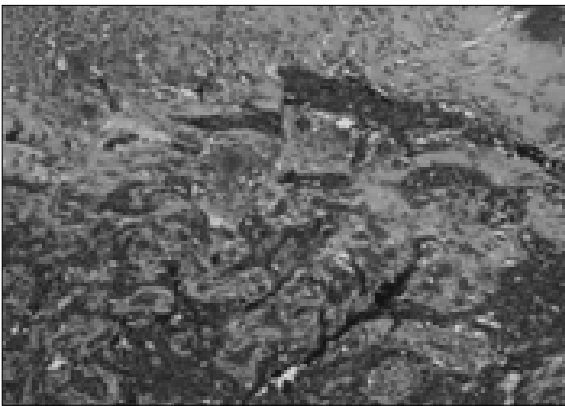
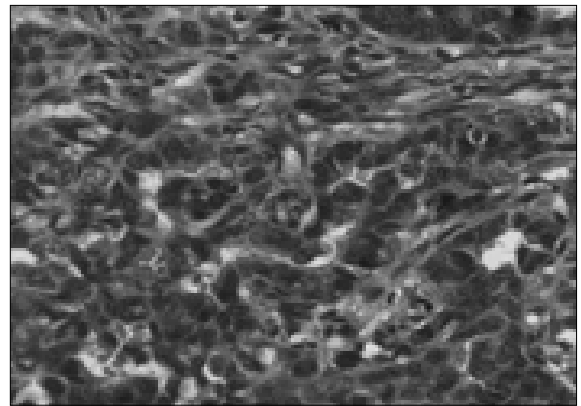


Fig. 6. Histopathologic finding
A. Growth of plexiform pattern (H-E, x100)



B. Cellular atypism (H-E, x400)

3. 조직소견

조직소견의 40배 확대상에서 종양세포가 결체조직내로 infiltrative growth를 보이고 있다. 이러한 종양세포는 결체조직 뿐만 아니라 골내 조직으로도 침입되고 있다. 100배 확대상에서 종양상피세포는 plexiform pattern의 growth를 보이고 있으며(Fig. 6-A), 400배 확대상에서 상피를 이루는 세포는 cellular atypism을 보이고 있다. 즉 세포적 다형증, 증가된 유사분열 양상, 뚜렷한 세포핵, 핵/세포질 비율의 증가 등의 소견이 관찰된다(Fig. 6-B).

4. 치료 및 경과

임상적, 방사선학적 및 수술 생검 결과 범랑아세포암종으로 진단되어 2000년 12월 14일 전신마취하에 좌측에 supraomohyoid

neck dissection을 시행하고, 하방 병소부위에 대해 전방으로는 하악 좌측 제2소구치를 포함하고 후방으로는 sigmoid notch까지 partial mandibulectomy 시행 후 제거된 하악결손부에 대해 bridging plate를 이용한 경조직 재건술과 대흉근 피판 이식술(pectoralis major myocutaneous flap)을 이용한 근피판 이식술을 시행하였다(Fig. 7). 그러나 병소와 함께 절제한 림프절과 좌측 악하선의 조직소견에서는 종양세포의 침윤이 관찰되지 않았다.

술 후 대흉근 피판 이식술을 시행한 좌측 가슴부위에 혈종이 광범위하게 발생되어 12월 18일 전신마취하에 혈종 제거술 시행하였다. 술 후 예방적 항생제를 투여하였으며 이후에 약 10일간 입원 후 특별한 합병증 없이 퇴원하였다. 현재 약 3개월간의 주기적 검진 중이며 술 후 15개월이 경과한 현재 재발 소견은 보이지 않고 있다(Fig. 8, Fig. 9).



Fig. 7. Resected tumor mass



Fig. 8. Postoperative intraoral view showing the well-healed graft site of PMMC flap

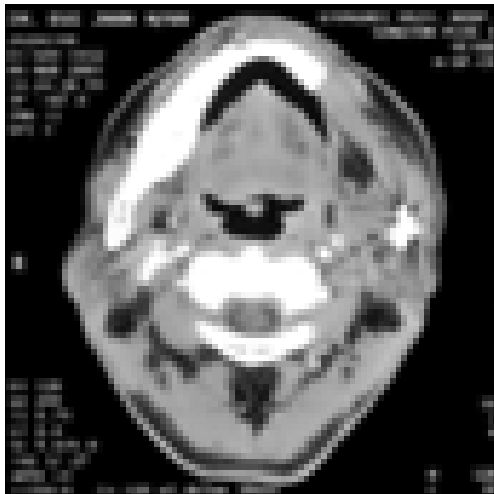


Fig. 9. Follow-up CT scan showing removed state of Lt. Mn. bony destruction and soft tissue lesion and no definitive enlarged lymph node

III. 총괄 및 고찰

범랑아세포종으로부터 유래되는 암종의 다양한 용어로는 악성 범랑아세포종, 범랑아세포암종, 전이성 범랑아세포종, 원발성 골내 유표피 암종 등이 있으며, 1974년 shafer 등에 의하면 이 중 범랑아세포암종은 전이의 유무에 관계없이 원발성 또는 재발성 종양에서 조직학적으로 범랑아세포종의 일부 소견과 함께 상피의 이행성, 핵분열 등 편평상피세포암의 세포학적 악성도를 보이는 질환으로 정의되고 있다. 반면 이와 구분되어야 할 질환으로 악성 범랑아세포종이 있는데, 이는 원발부와 재발부 모두에서 아직까지는 "benign" 또는 전형적인 범랑아세포종의 조직학적 소견을 보이는 전이성 범랑아세포종을 말한다.

범랑아세포암종의 기원은 치관의 잔존상피나 치성낭종 등으로부터 유래되며 이들은 악골내에 중심성으로 생기기도 하며 점막 주위에 말초성 병변으로 위치하기도 한다.

치성 암종에 대한 분류는 다음과 같다. 1971년 WHO에서는 악성 범랑아세포종, 원발성 골내 암종, 치성낭종을 포함하여 치성상피로부터 유래된 그외의 암종으로 분류하였으며, 1982년 Elzay¹⁰에 의한 분류에서는 범랑아세포암종이 범랑아세포종으로부터 유래된 것 중 덜 분화된 type2-B에 속해있다. 1984년 Sloopweg와 Muller에 의한 분류와 1989년 McClatchey¹⁹에 의한 분류에서는 자체적으로 또는 범랑아세포종이나 치성낭종에서 유래된 범랑아세포암종으로 구분하고 type2-B에 분류하고 있다.

범랑아세포암종과 감별진단 해야 할 질환으로는 악골로 전이된 암종, 표면 점막 암종이 골내로 연장된 경우, 중심성 타액선 종양, 원발성 치조내 유표피 암종, 극세포성 범랑아세포종, 각화성 범랑아세포종, 편평 치성 종양 그리고 석회화적 상피성 치성 종양 등이 있다.

1987년 Corio에 의한 범랑아세포암종의 임상적 특징을 보면, 발생연령은 15세에서 84세까지 다양하며 평균 30세 정도이고 성비율의 차이는 없으며 상악보다 하악에서 특히 하악 구치부에서 호발한다. 가장 일반적인 증상으로는 종창을 보이며 통증을 호소하고 개구장애나 발육장애도 나타날 수 있다. 발생 후 급속한 성장을 보이며 광범위한 파괴와 확산을 지닌 aggressive한 성격을 지니고 있어서 협설측 골판이 천공된다. 하악에 발생한 경우 구강저와 인접 연조직으로의 침범을 보이며 상악^{16,18}인 경우 상악동의 침범과 폐쇄를 보인다. 또한 높은 재발율을 보이는 것이 특징이며, 경부 림프절로의 전이를 보이기도 한다.

방사선학적 소견으로는 대부분이 불명확한 경계의 골 파괴적인 방사선투과상을 보이며 간혹 퇴행성 광화를 의미하는 국소적인 방사선투과성을 보이는 점을 제외하고는 범랑아세포종과 유사하다. 협설측 골판의 천공과 치근 흡수를 보이기도 한다.

조직학적 소견으로는 일반적인 범랑아세포종의 조직소견과 유사하다. 세포학적 이행성, 세포분열, 혈관·신경의 침입 등 악성질환의 다양한 세포학적 특성을 지닌다.

이러한 성격을 지닌 범랑아세포암종의 치료로는 외과적 절제술이 가장 이상적인 방법으로 추천되고 있으며 부득이한 경우 방사선 치료나 항암요법이 추가될 수 있으며, 범랑아세포암종은

재발율이 높고 폐^{10,19)}나 국부적 림프절로의 전이가 빈번하므로 짧은 주기의 철저한 검진이 필수적이고, 또한 높은 재발율로 인해 충분한 시간의 관찰 후에 재건술을 고려해야 할 것으로 생각된다.

IV. 결 론

좌측 하악 우각부의 종창과 통증을 주소로 본원에 내원한 68세 남자 환자에 대해 임상적, 방사선학적 소견 및 생검을 통해 범랑아세포암종으로 진단하고 상견갑설골 경부 광경술과 부분적 하악골 절제술을 시행하고 하악 결손부에 대해 bridging plate를 이용한 재건술과 대흉근피판을 이용한 연조직 재건술을 시행하였다.

술 후 약 15개월이 경과된 현재까지 주기적 검진과정에서 재발 소견을 보이지 않고 있어, 이러한 질환에 대한 진단과 치료에 있어 좋은 결과를 얻었기에 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Russell L. Corio : A clinicopathologic study and assessment of eight cases of Ameloblastic carcinoma. *Oral Surg Oral Pathol* 64:570-576, 1987.
2. Slootweg PJ : Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *J Oral Surg. Feb*:168-176, 1984.
3. 조세인, 여환호, 김영균, 이효빈 : 하악골에 발생한 악성범랑아세포종의 치험례. *대한악안면성형재건외과학회지* Vol. 16, No. 3, 303-307, 1994.
4. Stephen R. Gandy, Eugene E. Keller : Report of Two Cases of Ameloblastic Carcinoma. *J Oral & Maxillofacial Surg* 50:1097-1102, 1992.
5. Nagai N, Takeshita N, Nagtsuksa H, Inoue M, Nishijima K, Nojima T, Yamasaki M, Hoh C : Ameloblastic carcinoma: case report and

- review. *J Oral Pathol Med* 20:460-463, 1991.
6. Dorner L, Sear AJ, Smith GT : A Case of Ameloblastic Carcinoma with Pulmonary Metastasis. *Br J Oral Maxillofac Surg* 26:503-510, 1988.
7. Carr RF, Halperin V. : Malignant ameloblastoma from 1953 to 1966. Review of the literature and report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 26:514-522, 1968.
8. Shear M : Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 97:645-651, 1969.
9. Sugimura M, Yamauchi T, Yashikawa K, Takeda N, Sakita M, Miyazaki T : Malignant ameloblastoma with metastasis to the lumbar vertebrae;report of case. *J Oral Surg* 27:350-356, 1969.
10. Herceg SJ, Harding RL : Malignant ameloblastoma with pulmonary metastasis. *Plast Reconstr Surg* 49:456, 1972.
11. Takeuchi S, Kobayashi K, Minakawa T, Azumi T, Fukushima M : Metastatic ameloblastoma of the skull. *Surg Neurol* 15:182-185, 1981.
12. Stephen K. Lau, Henk Tideman, P. C. Wu : Ameloblastic carcinoma of the jaws : A report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 85:78-81, 1998.
13. Darren P. Cox, Susan Muller, Grant Carlson, Douglas Murray : Ameloblastic carcinoma ex ameloblastoma of the mandible with malignancy-associated hypercalcemia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 90:716-722, 2000.
14. Elzay RP : Primary intraosseous carcinoma of the jaws;review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 54:299-303, 1982.
15. McClatchey KD, Sullivan MJ, Paugh DR : Peripheral ameloblastic carcinoma;a case report of a rare neoplasm. *J Otolaryng* 18:109-111, 1989.
16. Lolachi CM, Madan SK, Jacobs JR : Ameloblastic carcinoma of the maxilla. *J Laryngol Otol* 109:1019-1022, 1995.
17. Andersen E, Bang G : Ameloblastic carcinoma of the maxilla;a case report. *J Craniomaxillofac Surg* 14:338-340, 1986.
18. Lee L, Maxymiw WG, Wood RE : Ameloblastic carcinoma of the maxilla metastatic to the mandible;case report. *J Craniomaxillofac Surg* 18:247-250, 1990.
19. Ueda M, Kaneda T, Imaizumi M, Ave T : Mandibular ameloblastoma with metastasis to the lungs and lymph nodes;a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 47:623-628, 1989.