

합치성 낭종에서 발생한 법랑아세포종: 증례보고

신재명

인제대학교 의과대학 상계백병원 구강악안면외과

Abstract

AMELOBLASTOMA ORIGINATED FROM A DENTIGEROUS CYST: A CASE REPORT

Jae-Myung Shin

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Sanggye Paik Hospital, College of Medicine, Inje University

Much has been written about the possibility that the lining of a dentigerous cyst might undergo neoplastic transformation to an ameloblastoma which is defined as mural ameloblastoma. Mural ameloblastomas are estimated to constitute 5% of all ameloblastomas. 85 % of the mural ameloblastomas were associated with dentigerous cyst, all of which were observed before the age of 30. The frequency of recurrence after simple enucleation of the cyst containing this lesion is considerably lower than that for ameloblastomas in general that are treated in a similar manner. Therefore, further and more extensive surgery is not required for mural ameloblastoma.

We diagnosed a cystic appearance of a 17 year-old female as dentigerous cyst and undergone marsupialization. For 2 years of period, no significant change was observed and therefore enucleation was undergone and diagnosed as ameloblastoma.

We report this case with a review of related literatures.

Key words: Mural, Ameloblastoma, Dentigerous cyst

I. 서 론

합치성 낭종은 미맹출 치아 치관주위의 낭포(follicle)로부터 기원한 낭종으로 정의된다. 병인은 정확히 밝혀져 있지 않지만, 일반적으로 잔존법랑상피의 치관 사이에 액체가 축적됨으로써 발생한다. 예후는 비교적 좋은 편이며, 적출술 후의 재발은 드문 편이다.

법랑아세포종은 법랑기와 유사한 조직양상을 가지는 비교적 드문 상피성 치성 종양으로 1868년 Broca에 의해 최초로 보고되었으며, 1934년 Churchill에 의해 법랑아세포종(ameloblastoma)으로 명명되었다. 법랑아세포종은 법랑기의 세포잔사, Hertwig 상피초, 치판의 잔유물, Malassez의 상피잔사, 치성낭종의 상피등에서 발생하는 치성 종양으로 양성종양으로 분류되나 임상적으로 악성종양의 특성을 일부 보여준다¹⁾.

치성낭종의 상피에서 법랑아세포종성 변화가 발생할 수 있음이 보고되어 왔으며^{2,3)}, Morlet 등은 합치성낭에서 유래된 법랑아세포종을 최초로 보고 하였다⁴⁾. 이는 벽재성 법랑아세포종(Mural ameloblastoma)으로 명명되며 조직학적으로는 낭종 벽의 비후, 결절이 나타나고 법랑아세포성 조직으로 구성되며⁵⁾ 방사선적으로는 전형적인 치성 낭종처럼 보인다. 법랑아세포종이나 치성낭종은 모두 같은 배엽성 조직에서 유래되므로 낭종벽에서 종양성 변화가 생길수 있다⁶⁾. 종양성 변화는 이장상피의 낭종상피 기저층이 낭종의 섬유성 조직으로 증식해 나가거나 이장상피의 직접적인 종양성 변화로 발생할 수 있다⁷⁾. 치료 방법으로는 주로 적출술 및 소파술이 사용되며 재발률은 10% 이하로 매우 낮은 편이다.

본 교실에서는 하악 좌측 우각부의 합치성낭에서 법랑아세포종으로 발달한 17세 여자 환자의 치험례가 있어 보고하는 바이다.

II. 증례보고

17세의 여자 환자가 1999년 7월 좌측 하악 우각부의 종창과 동통을 주소로 인제대학교 부속 상계 백병원 구강악안면외과에 내원하였다. 내원 약 2개월 전부터 치은 열구를 통한 약간의 배농이 있다고 하였고 내원 2일전부터 종창이 심해졌다고 한다. 구강내 소견으로 좌측 하악부의 종창으로 안모의 비대칭소견을 보였으며 종창부의 촉진시 압통을 호소하였다. 구강내 소견으로 하악 좌측 제2 대구치의 협측치은 및 전정부의 종창과 촉진시 압통 소견을 보였으며 치은 열구를 통한 배농이 관찰되었다. 특기할 만한 과거 병력 및 가족력은 없었다.

방사선 파노라마 사진에서 하악 좌측 제 2대구치의 원심에서 하악지의 상방까지 침범한 명확한 경계의 광범위한 방사선 투과성의 병소가 관찰되었다(Fig. 1). 매복된 하악 좌측 제 3대구치를 포함하고 있었으며 인접치아의 치근흡수

나 변위는 관찰되지 않았다.

상기 임상소견 및 방사선사진 소견을 바탕으로 감염된 치성 낭종으로 잠정 진단하고 급성 염증반응 및 종창의 감소를 위하여 내원 당일 절개 및 배농을 시행하고 항생제를 투약 하였다. 한 달 후 급성 염증이 제거된 후 개창술 및 생검을 시행하였다. 생검 조직표본에서 염증으로 인해 증식된 중층 편평 상피의 낭종 이장 상피를 볼 수 있다(Fig. 2). 4개의 조직 절편 생검 결과 합치성 낭종으로 진단되어 병소의 감압을 위해 개창부위를 유지하며 경과 관찰 하였다.

이후 1년 6개월 후에 병소에 특이할 만한 소견은 관찰되지 않았으며, 파노라마 방사선 사진상에서 약간의 병소 크기 감소가 관찰되었으나 유의할 만한 신생골의 침착은 관찰되지 않았다(Fig. 3).

2001년 3월 전신 마취하에 하악 제3 대구치의 발거와 함께 골소파술을 동반한 적출술을 시행하였다(Fig. 4).

조직검사 결과 이장 상피의 낭종벽이 법랑아세포종으로



Fig. 1. Preoperative radiograph.

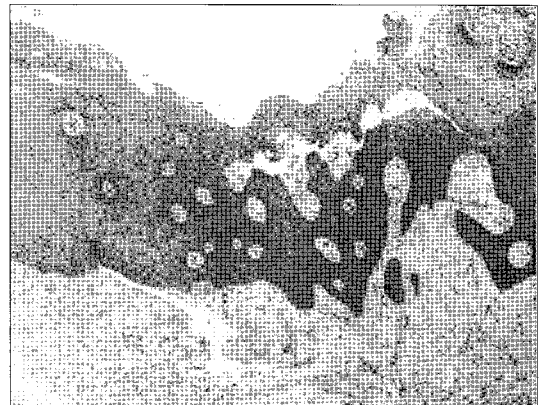


Fig. 2. Histologic view when marsupialization ($\times 100$, H&E stain).



Fig. 3. One and half years postoperative radiograph after marsupialization.

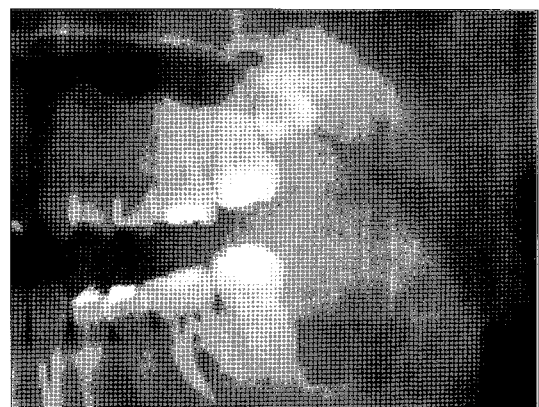


Fig. 4. Postoperative radiograph right after enucleation.

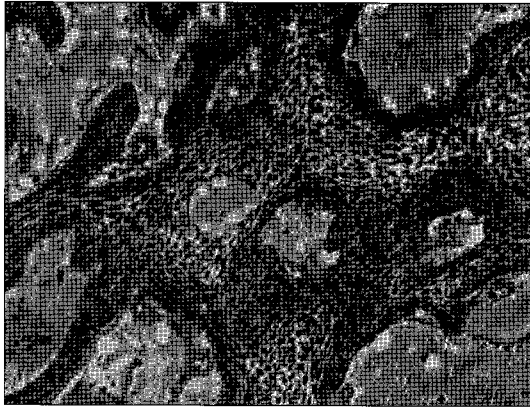


Fig. 5. Histologic view when enucleation($\times 400$, H&E stain).

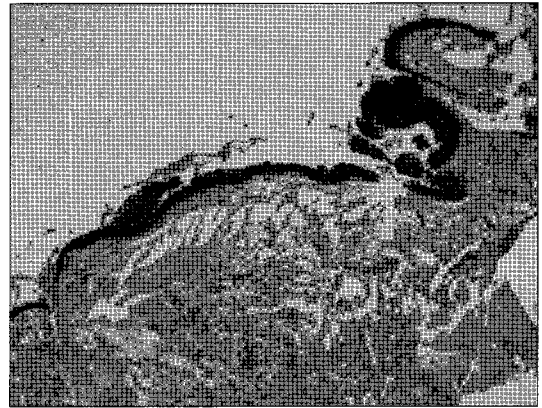


Fig. 6. Histologic view when enucleation($\times 40$, H&E stain).

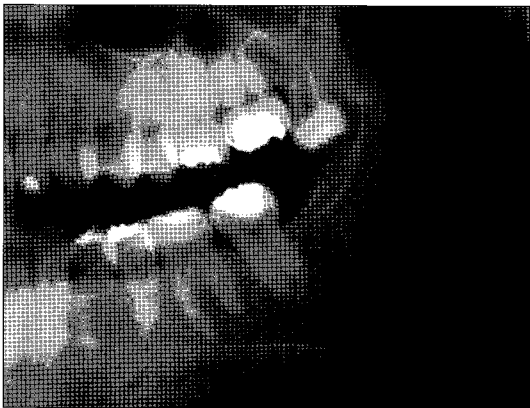


Fig. 7. Four years postoperative radiograph after enucleation.

종양성 변화를 나타내어 최종적으로 범랑아세포종으로 진단되었다. 조직 병리 표본에서 stellate reticulum을 닮은 상피세포 주위로 palisading, reverse polarity를 가진 범랑아세포성 종양 세포가 관찰되었고 범랑아세포종으로 진단되었다(Fig. 5). 병소의 일부에서는 dentigerous cyst의 sin히e lining을 관찰 할 수 있다(Fig. 6).

술 후 4년 후 방사선 파노라마 사진상에서 병소 크기 감소 및 신생골의 침착이 관찰된다(Fig. 7). 병소는 재발 없이 정상적으로 잘 치유되었다.

Ⅲ. 고 찰

합치성 낭종은 미맹출치나 매복치의 치관과 연관되어 발생하며, 하악 제3 대구치에서 호발한다. 별다른 임상증상 없이 인접조직, 인접 피질골을 침식하며 종종 치아의 변위를 일으키기도 하며, 심한경우 부정교합 및 안면의 비대칭을 유발할 수도 있다. 간혹 낭종이 이차 감염되어 인접 구조

물을 파괴하는 경우도 있으며, 드물긴 하지만 낭막에 악성 종양으로의 변이가 발생하여 심각한 문제를 일으킬 수도 있다⁸⁾.

합치성 낭종은 병소의 크기 및 위치, 인접 구조물과의 관계, 병소 내 영구치배의 생활력 유무 등에 따라서 그 치료 방법이 결정되어 진다. 술 후에 별다른 합병증이 예상되지 않는다면 일반적으로 적출술이 행하여진다. 그러나 치아의 심각한 변위나 광범위한 골소실이 예측된 경우에는 감압조대술이 추천된다⁹⁾. 낭종 내부의 감압은 신생골의 형성을 자극하는 것 이외에 미맹출 영구치의 자발적 맹출을 기대할 수 있다^{10,11)}.

범랑아세포종은 범랑기와 유사한 조직양상을 보이는 상피성 치성종양이다. 범랑아세포종의 기원으로 고려되는 것은 (1) 치성낭종의 이장 상피, (2) 범랑기의 치판, (3) 구강 점막의 중층 편평 상피, (4) 변위된 치성 상피의 잔유물 등이다¹²⁾. 이중 치성 낭종에서의 범랑아세포종의 발생은 이미 많은 증례가 보고 되고 있다. Stanley 등¹³⁾은 641증례의 범랑아세포종 중에서 108증례가 매복치 및 합치성 낭종과 관련되어 있다고 보고하였다.

호발하는 평균 연령이 30대에서 40대인 일반적인 범랑아세포종과 달리 합치성낭종과 연관된 범랑아세포종은 보다 젊은 연령대에서 호발하는데, Stanley 등¹³⁾은 환자들의 연령이 6세에서 14세에 발생했고 평균 연령은 21세였다고 보고했다.

합치성낭종의 이장 상피에서는 종종 범랑아세포종으로의 종양성 변화가 발생할 수 있으며, 이는 임상적이나 방사선 촬영으로는 다른 낭종들과 유사하여 조직학적으로 진단하여야 한다. 임상적으로는 광범위한 치성 낭종의 경우 감압조대술이 사용되는데 종양성 변화가 있을 경우 병소의 크기 감소나 신생골의 침착등이 잘 일어나지 않는 경우가 있다.

범랑아세포종으로의 종양성 변화를 보이는 낭종벽의 조직

학적 또는 병리학적 변화에 대한 논의는 많지 않은데, Vickers 등¹⁴⁾은 낭종 이장상피의 뚜렷한 변화를 보이는 낭종성 병변 10 증례를 연구 하면서 (1) 기저 세포핵의 hyperchromatism, (2) 기저세포 핵의 분극을 가지는 기저 세포들의 palisading, (3) 기저세포들의 cytoplasmic vacuolization 등의 조직학적 변화가 초기 법랑아세포성 변화와 연관되어있다고 하였다.

치성 낭종과 연관된 법랑아세포종으로 의심되거나 이러한 변화가 조직 병리학적 소견으로 확진될 경우에는 일반적인 낭종의 처치보다 조금 더 적극적인 처치가 필요하다. 악성으로의 변화가 의심되면 반드시 조직 병리학적인 검사를 시행하여야 하며, 확인된 경우에는 낭종내 조직을 철저하게 소파하여야 한다. 낭종의 벽을 제거한 후 변색된 표면을 round bur를 이용하여 약 5mm 깊이까지 충분히 소파한다. 골내 병소가 광범위한 경우에는 감압조대술 후 위의 골 소파술을 동반한 골소파술이 효과적일 수 있다¹⁵⁾. 특히 하악 우각부의 광범위한 병소의 경우에는 하치조 신경의 노출이 불가피하며 신경손상에 최대한 주의하면서 신경관 내부까지 소파를 시행한다.

본 증례에서는 광범위한 골병소를 보이고 있으며 조직 병리 검사 결과 합치성 낭종으로 진단되었기에 병소의 감압을 위해 감압조대술을 시행하였다. 감압조대술 후 급성염증의 소견은 보이지 않았으나 이후 경과 관찰에서 병소의 크기 감소 및 치유 양상이 관찰되지 않았다. 2차 조직 검사결과 낭종벽의 법랑아세포종 변화가 확인되었다. 골소파술을 동반한 적출술을 시행하였다.

치성낭종에서 발생한 법랑아세포종을 골소파술을 동반한 적출술을 시행하는 경우, 10%내외의 낮은 재발을 보인다고 보고되고 있다¹⁶⁾. 따라서 이러한 경우에는 보존적인 외과적 시술이 우선 선택으로 사용될 수 있다. 그러나 수술 시행시 철저한 소파가 동반되어야 한다. Lee 등¹⁷⁾은 벽재성 침범을 동반한 단방성 법랑아세포종 경우 Carnoy's solution의 적용을 동반한 적출술이 더 낮은 재발율을 나타냈다고 보고했다. Hakim 등¹⁸⁾은 하악 견치부위에 발생한 벽재성 법랑아세포종을 보고하면서 재발이 8년 이후에도 발생한 경우가 있으므로 장기간의 경과관찰의 중요성을 강조했다.

본원에서는 17세의 여자 환자에서 제3 대구치를 포함한 하악 우각부의 합치성 낭종을 감압조대술로 처치후 법랑아

세포종으로 발전한 병소를 골 소파술을 동반한 적출술을 사용하여 치료하여 현재까지 재발없이 치유되었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Shafer WG, Hine MK, Levy BM : A textbook of oral pathology, 4th ed. Philadelphia, WB Saunders, 1983, p.276.
2. Lee, FM : Ameloblastoma of the maxilla with probable origin in a residual cyst. Oral Surg 29 : 799, 1970.
3. Paul JK, Fay JT, Stamps P : Recurrent dentigerous cyst evidencing ameloblastic proliferation: report of case. Oral Surg 27 : 211, 1969.
4. Morlet A, Morlet JB : Kystes dentiferes et adomantinome a dents embryonnaires. Presse Med 33 : 677, 1925.
5. Alexander DP, Angelos PA, Cris AS et al : Mural (intracystic) ameloblastoma. Int J Oral Surg 11 : 166, 1982.
6. Lucas RB : Pathology of tumors of the oral tissues, 3rd ed, Edinburgh and London, Churchill Livingstone, 1976, p.46.
7. Kramer CR : Ameloblastoma: A clinicopathologic appraisal. Br J Oral Surg 10 : 13, 1963.
8. Martensson G : Cysts and carcinoma of the jaws. Oral Surg 8 : 673, 1955.
9. Gerard LL : The use of marsupialization in resolving a dentigerous cyst of mandible : report of case. J Oral Surg 29 : 742, 1971.
10. Takasi S, Koyama S : Guided eruption of an impacted second premolar associated with a dentigerous cyst in the maxillary sinus of a 6-year-old child. J Oral Maxillofac Surg 56 : 237, 1999.
11. Gorlin RL : The pathology of ameloblastomas and its relationship to treatment. In : Walker, RV(ed.): Transactions of the International Association for Oral Surgery. Edinburgh and London, Churchill Livingstone, 1971, p.230.
12. Stanley HR, Diehl DL : Ameloblastoma potential of follicular cyst. Oral Surg 20 : 260, 1965.
13. Vickers RA, Gorlin RJ : Ameloblastoma : delineation of early histopathologic features of neoplasia. Cancer 26 : 699, 1970.
14. Nakamura N, Higuchi Y : Comparison of long results between different approaches to ameloblastoma. Oral Surg Oral Mrd Oral Pathol Oral Radiol Endod 93 : 12, 2002.
15. Leider AS, Eversole LR, Barkin ME : Cystic ameloblastoma. Oral Surg 60 : 624, 1985.
16. Lee PK, Samman N, Ng IO : Unicystic ameloblastoma-use of Carnoy's solution after enucleation. Int J Oral Maxillofac Surg 33 : 263, 2004.
17. El-Hakim IE, El-Khashab MM : Peripheral and mural ameloblastoma in the mandibular canine region of a 13-year-old boy. J Oral Maxillofac Surg 58 : 1150, 2000.

Reprint Requests

Jae-Myung Shin

Dept. of OMFS, Inje Univ. Sanggye Paik Hospital
761-1, Sanggye 7 dong, Nowon-gu, Seoul, 139-707, Korea
Tel: 82-2-950-1161
E-mail: jmmo9496@hanmail.net

Paper received 17 October 2007

Paper accepted 5 March 2008

저자 연락처

우편번호 139-707
서울시 노원구 상계7동 761-1
상계백병원 구강악안면외과학교실
신재명

원고 접수일 2007년 10월 17일

게재 확정일 2008년 3월 5일