

하악골에 발생한 양성 섬유성 조직구종의 치험례

최소영 · 김진욱 · 권대근 · 신희인* · 변기정** · 김진수

경북대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, *경조직-바이오치아 재생 연구소, 구강병리학교실

**울산대학교병원 치과

Abstract

BENIGN FIBROUS HISTIOCYTOMA OF MANDIBLE - A CASE REPORT-

So-Young Choi, Jin-Wook Kim, Tae-Geon Kwon, Hong-In Shin*, Ki-Jeong Byeon**, Chin-Soo Kim

Department of Oral & Maxillofacial Surgery,

**IHBR, Dept. of Oral Pathology, School of Dentistry, Kyungpook National University*

***Department of Dentistry, Ulsan University Hospital*

Benign fibrous histiocytoma(BFH) is a mesenchymal cell-originated tumor composed of cells with fibroblastic and histiocytic differentiation. BFH occurs predominantly on sun-exposed skin of extremities. Oral BFH lesions are uncommon. The majority of oral lesions includes the soft tissue but not the jaw bones. The lesion appears as well-defined multilocular radiolucencies associated with bony swelling when it occurs on the jaw. The lesion induces the thinning and expansion of the cortex and shows many thin, indistinct septa in the lesion. Surgical excision is the choice of treatment. The recurrence rate is low and metastasis has not been reported. We report the clinical, radiographic and microscopic findings of a BFH case occurred in the mandible with literature reviews.

Key words: Benign fibrous histiocytoma(BFH)

I. 서 론

양성 섬유성 조직구종은 섬유모세포와 조직구세포의 분화를 보이는 간엽 세포에서 유래된 종양으로,¹⁾ 1967년 Stout와 Lattes가 연조직의 양성 섬유성 조직구종에 대하여 처음 기술하였으며,²⁾ 1972년 Kempson과 Kyriakos가 섬유아세포와 조직구로 구성된 종양을 섬유성조직구종이라 명칭하고 이들을 양성과 악성으로 구분하였다³⁾.

양성 섬유성 조직구종은 주로 태양에 노출된 사지의 피부에서 발생하며,²⁾ 발생 빈도는 하지 50%, 상지 20%, 후복막 20%, 안와 부위 순이다. 골에 발생하는 경우는 드물며, 주로 발생하는 부위는 골반, 대퇴골, 경골이다⁴⁻⁶⁾. 양성 섬유성 조직구종이 악골에서 발생하는 경우는 극히 드물며,⁷⁻¹¹⁾ 구강에서 발생하는 경우의 대부분이 연조직에 발생한다.

본 교실에서는 하악에 발생한 양성 섬유성 조직구종을 치험하였기에 임상적, 방사선학적, 조직학적인 소견을 문헌 고찰과 함께 보고한다.

II. 증례 보고

32세 여자 환자가 본원 내원 2주전 하악 우측부위 우리한 통증을 주소로 타병원에서 방사선 사진을 촬영한 후 우측 하악골 부위 광범위한 방사선 투과성 병소로 조직검사를 시행하였다. 채취한 조직이 검사에 적절하지 못해 조직검사 결과가 나오지 않아 재조직 검사 및 치료를 위해 본원으로 의뢰되었다.

환자 병력상 특별한 기왕력은 없었다. 일반 혈액 검사, 간 기능 검사, 신기능 검사, 혈당, 전해질, 뇨검사, 심전도 검

사, 흉부 방사선 검사 등은 정상범주였다.

방사선 사진상에 부분적으로 경계가 구분이 되나 전반적으로 불명확한 경계를 보이는 다방성의 방사선투과성 병소가 하악지, 근돌기, 하악과두 경부에서 관찰되며 하악지 전연으로의 비박과 팽윤을 동반하고 병소에 이환된 하악관의 피질골성 벽이 소실되어 보인다. 컴퓨터 단층 촬영상에는 두께가 불균일한 협설측 피질골의 비박과 팽윤이 관찰되며 부분적인 천공이 관찰된다(Fig. 1). 술 전 조직 검사를 시행하였으며 조직 검사 결과 양성 섬유성 조직구종으로 진단되어 전신 마취하에 하악 우측 제1대구치를 발치하면서 제 1

대구치 후방부에서 편측 하악골 절제술을 시행하고 선부자를 통해 악관고정을 시행하였다. 종물은 피질골의 비박과 팽윤이 관찰되었으며 하악지 부위와 오뎀돌기 부위에 피질골 천공이 부분적으로 관찰되었다(Fig. 2).

조직학적 소견은 소포성 핵을 가진 방추형의 잘 분화된 섬유모세포가 나선형으로 배열을 이루고 있다. 면역조직화학적 검사상 산재한 조직구 형태의 세포들이 CD68에 양성반응을 보이고 있다(Fig. 3).

술 후 9개월간 지속적인 추적 관찰 중이며 현재까지 재발은 없는 상태이다. 저작에 대한 특별한 불편감을 호소하지

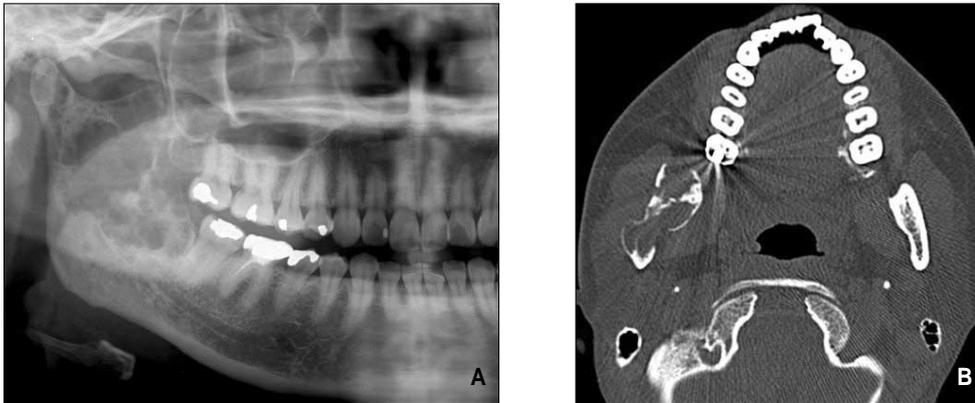


Fig. 1. A. Panoramic radiograph showing ill-defined multilocular radiolucent lesion on right ramal, coronoid process areas. B. Computed tomogram showing bucco-lingual expansion with thinning and partial perforation of the cortical bone.

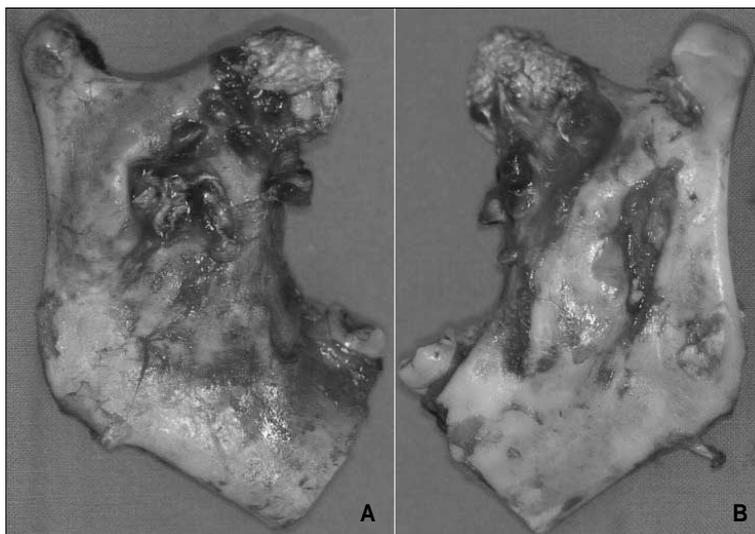


Fig. 2. Specimen showing bucco-lingual expansion with thinning of the cortical bone. Notice the focal perforation of ramal and coronoid process areas. A. Outer surface, B. Inner surface

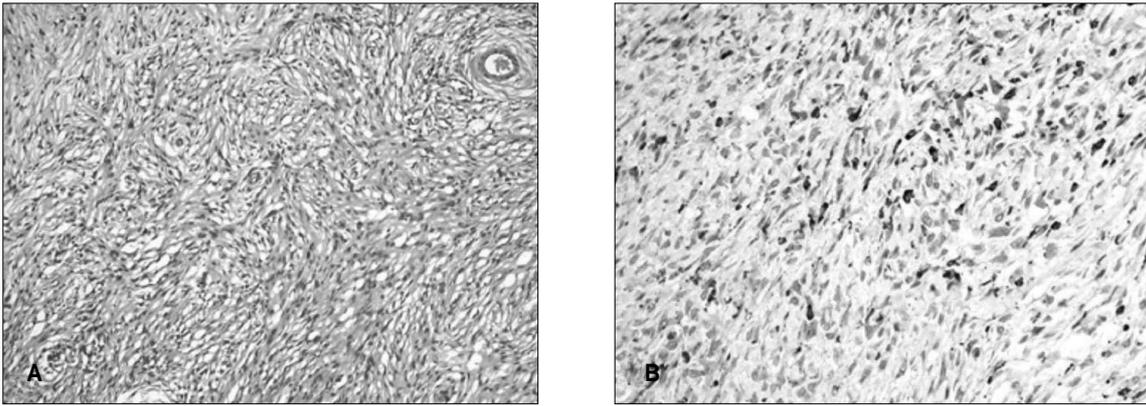


Fig. 3. A. Note the characteristic storiform arrangement of highly proliferated spindle-shaped fibroblastic cells with vesicular nuclei (H-E, original magnification $\times 100$). B. The scattered histiocyte-like cells reveal positive immunoactivity for CD68 (original magnification $\times 200$).

는 많고 있지만 우측 안면부가 함몰되어 보여 외관상의 이유로 하악골 절제부위에 대한 재건술을 계획하고 있다.

Ⅲ. 고 찰

섬유성 조직구종은 지질을 함유하는 조직구와 방추형의 섬유아세포가 다양한 비율로 구성되는 연조직 종양으로 사지부의 피부에 호발한다. 두경부에서는 비교적 드물게 발생하며 대부분 양성이다. 심부조직에 발생시 예후가 불량하며 국소적인 침윤과 재발을 나타낸다¹²⁾. 골조직에 발생하는 섬유성 조직구종은 드물며, 주로 장골에서 발생된다. 악골에 발생하여 보고된 증례는 상악에 1증례, 하악에 5증례로 두개골과 안면골에 발생하는 경우는 매우 드물다(Table 1).

골조직에 발생한 경우 방사선 소견상 경계가 뚜렷한 방사선 투과성의 병소로 피질골의 비박 및 팽윤은 있으나 골막 반응이나 종양의 석회화 소견이 없는 것이 특징이다. 본 증례와 같이 경계가 불명확한 방사선 투과성 병소를 가지며, 피질골의 천공과 벌레먹은 양상(moth-eaten)이 관찰되거나, 인접 정상 골조직으로의 침윤을 보일 경우 악성 병소로 오인될 수 있으며, 예후가 불량할 것으로 예측할 수 있다¹³⁾.

섬유성 조직구종은 다양한 조직학적 소견 및 명칭이 있는데 1967년 Stout와 Lattes가 연조직의 양성 섬유성 조직구종에 대하여 처음 기술하였으며,²⁾ 1972년 Kempson과 Kyriakos가 섬유아세포와 조직구로 구성된 종양을 섬유성 조직구종이라 명칭하고 이들을 양성과 악성으로 구분하였다³⁾. 1967년 Stout와 Lattes로 인해 연조직 기원의 섬유성 조직구종에 대한 분류를 더 잘 이해할 수 있었지만 골에서 발생할 경우 정확한 분류는 여전히 논란이 되고 있다. 1989년 Cale이 골에 발생한 섬유성 조직구종을 분류하기 위해

새로운 분류 체계를 제안하였다(Table 2)⁷⁾. Cale의 분류에 따르면 본 증례는 양성분류에서 소분류인 양성 섬유성 조직구종에 속한다.

섬유성 조직구종은 일반적으로 성숙 교원질을 합성하는 길고 방추형의 섬유모세포와 조직구를 나타내는 난원형 핵과 풍부한 세포질을 갖는 큰 세포로 구성된다. 변연부는 종종 침윤성이지만 부분적으로 피막에 싸여있거나 경계가 잘 되어 있다. 조직내에 좀 더 표면쪽에 위치한 병소는 섬유모세포성 세포들이 바람개비(pinwheel) 모양의 배열을 보이는데 이를 회오리형(storiform pattern)이라 하며, 섬유성 조직구 병소의 특징이다. 감수분열은 흔치 않으며 조직구 세포가 다형핵을 보일 수 있다. 세포질내 지방의 존재로 인해 거품 세포질을 가진 황색종 세포(xanthoma cell)를 관찰할 수 있다.

정확한 진단을 위해서는 면역조직화학적 검사가 도움이 된다. 면역조직 화학적 검사중 조직구에 특이적 반응을 보이는 CD68이 섬유성 조직구종 진단에 도움이 된다. 본 증례의 경우 조직구양 세포들이 CD68 면역 염색에는 양성반응을 보였고, trichrome 염색에서 섬유모세포들이 푸른색으로 염색을 보여 섬유성 조직구종으로 진단되었다.

섬유성 조직구종의 치료는 광범위한 외과적 절제가 선택적 치료이다. 완전한 절제가 이루어진 경우, 재발율은 낮으며 두경부 영역에서의 전이는 아직 보고되어 있지 않다¹⁴⁾. Bielamowicz 등¹⁵⁾의 보고에 의하면 국소적 절제술을 시행한 양성 섬유성 조직구종의 18명의 환자에서 2명(11%)의 재발을 보였으며, Clarke 등⁴⁾의 보고에 의하면 8명의 환자중 3명이 재발을 보였다. 이들 3명의 환자들은 소파술 및 골 이식을 한 경우였다. Peter B¹⁹⁾ 등의 보고에 의하면 18명의 환자에서 외과적 절제술을 시행한 경우 재발이 없었다고

Table 1. Benign fibrous histiocytoma in the jaw

Case	Year	Author	Patient (age/sex)	Anatomic location	Treatment	Prognosis
1	1986	White RD ⁸	29/F	Lt. mandible (body and ramus)	curettage	2 year f/u, no recurrence
2	1989	Cale AE ⁷	13/M	Lt. maxilla (from the deciduous canine to the deciduous second molar)	Excision	?
3	2003	Ertas ¹⁸	32/M	Mandible (from Rt. 1st incisor to Lt. 1st premolar)	curettage	?
4	2004	Heo MS ⁹	42/M	Lt. mandible (body and ramus)	Hemimandibulectomy and a fibular flap	1 year f/u
5	2005	Kishino M ¹⁰	49/F	Lt. mandible (from the molar to the condyle)	Excision	2 years and 11 months f/u, no recurrence
6	2007	Wataru K ¹¹	48/M	Rt. mandible (condylar process)	Excision after removal of the cortical bone	1 year f/u, no recurrence

Table 2. New category for the classification of fibrohistiocytic lesions of bone (1989, Cale⁷)

Benign	1. Metaphyseal fibrous defect	a. Fibrous cortical defect
		b. Nonossifying fibroma
	2. Benign fibrous histiocytoma	
Malignant	1. Malignant fibrous histiocytoma	

보고하고 있다. 이러한 점을 고려해 볼 때 종양의 완전한 절제가 재발을 방지하기 위한 최선의 치료 방법으로 생각된다.

IV. 결 론

저자 등은 우측 하악골에 생긴 양성 섬유성 조직구종을 외과적 절제술로 치험하여 양호한 결과를 얻었기에 이를 보고하는 바이며 완전한 절제가 이루어진 경우 재발율이 낮다고 보고되고 있으나 추후 계속적인 추적 조사가 필요하다고 사료된다. 양성 섬유성 조직구종이 악골에 발생하는 경우는 매우 드물기 때문에 이러한 병소의 성격을 더욱 잘 이해하기 위해서는 앞으로 더 많은 증례들이 수집되어야 할 것으로 보인다.

REFERENCES

1. Calonje E, Mentzel T, Fletcher CD : Cellular benign fibrous histiocytoma. *Am J Surg Pathol* 18 : 668, 1994.
2. Stout AP, Lattes R : Tumors of the soft tissues. Atlas of tumor pathology, second series. Washington DC, United States Armed Forces Institute of Pathology, 1967, p. 38.
3. Kempson RL, Kyriakos M : Fibroxanthosarcoma of the soft tissues : A type of malignant fibrous histiocytoma. *Cancer* 29 : 961, 1972.
4. Clarke BE, Xipell JM, Thomas DP : Benign fibrous histiocytoma of bone. *Am J Surg Pathol* 9 : 806, 1985.
5. Bertoni F, Calderoni P, Bacchini P *et al* : Benign fibrous histiocytoma of bone. *J Bone Joint Surg Am* 68 : 1225, 1986.
6. Hamada T, Ito H, Araki Y *et al* : Benign fibrous histiocytoma of the femur: review of three cases. *Skeletal Radiol* 23 : 23, 1996.
7. Cale AE, Freedman PD, Kerpel SM *et al* : Benign fibrous histiocytoma of the Maxilla. *Oral Surg Oral Med Oral*

- Pathol 68 : 444, 1989.
8. White RD, Markar J : Xanthofibroma of the mandible. J Oral Maxillofac Surg 44 : 1010, 1986.
 9. Heo MS, Cho HJ, Kwon KJ *et al* : Benign fibrous histiocytoma in the mandible. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 97 : 276, 2004.
 10. Kishino M, Murakami S, Toyosawa S *et al* : Benign fibrous histiocytoma of the mandible. J Oral Pathol Med 34 : 109, 2005.
 11. Wataru K, Mitsuhiro N, Mitsunobu K : Benign fibrous histiocytoma in the condylar process of the mandible: Case report. British J Oral Maxillofac Surg 46 : e1-e2, 2008.
 12. Jordan MB, Soamest JV : Fibrous histiocytoma of the larynx. J of Laryngology and Otology 103 : 216, 1989.
 13. Thompson SH, Shear M : Fibrous histiocytomas of the oral and maxillofacial regions. J of Oral Pathology 13 : 282, 1984.
 14. Hong KH, Kim YK, Park JK : Benign fibrous histiocytoma of the floor of the mouth. Otolaryngol Head Neck Surg 121 : 330, 1999.
 15. Bielałowicz S, Dauer MS, Chang B *et al* : Noncutaneous benign fibrous histiocytoma of the head and neck. Otolaryngol Head Neck Surg 113 : 140, 1995.
 16. Remagen W, Nidecker A, Prein J : Case report 359: Gigantic benign fibrous histiocytoma (nonossifying fibroma) Skeletal Radiol 15 : 251, 1986.
 17. Harsanyi BB, Larsson A : Xanthomatous lesion of the mandible. osseous expression of non-X histiocytosis and benign fibrous histiocytoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 65 : 551, 1988.
 18. Ertas U, Buyukkurt MC : Benign fibrous histiocytoma : report of case. J Contemp Dent Pract 4 : 74, 2003.
 19. Peter B, Arthur S, Michael J : Benign fibrous histiocytoma of the oral/perioral regions : report of a case and review of 17 additional cases. J Oral Maxillofac Surg 50 : 1239, 1992.

저자 연락처

우편번호 700-422
 대구광역시 중구 삼덕동 2가
 경북대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
김진수

원고 접수일 2008년 6월 10일
 게재 확정일 2008년 7월 8일

Reprint Requests

Chin-Soo Kim
 Dept. of OMFS, School of Dentistry, Kyungpook National Univ.
 101 Dong In-Dong 2 Ga, Jung-Gu, Daegu, 700-422, Korea
 Tel: 82-53-420-5911, 5914 Fax: 82-53-426-5365
 E-mail: kimcs@knu.ac.kr

Paper received 10 June 2008
 Paper accepted 8 July 2008