

보존적 치료를 통한 단방성 총상형 법랑모세포종의 치험례 : 증례보고

최수진 · 지영덕 · 고세욱 · 김형우 · 최지연 · 이재환
원광대학교 산본치과병원 구강악안면외과학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2008;34:498-502)

CASE REPORT : THE CONSERVATIVE TREATMENT OF UNILOCLAR PLEXIFORM AMELOBLASTOMA

Su-Jin Choi, Young-Deok Chee, Se-Wook Koh,
Hyong-Woo Kim, Ji-Yeun Choi, Jae-Hwan Lee

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Wonkwang University, Sanbon Dental Hospital

Ameloblastoma is the most common aggressive benign odontogenic tumor of the jaws. Because of slow growth and tendency to local invasion of bone and soft tissue, high rates of recurrence are common. The treatment for ameloblastoma is still controversial and poses some special problems in children. Because of growth of the jaw and the different incidence, prognosis of the tumor make the surgical consideration different from adults. Radical resection cause facial deformity, jaw abnormal movement and masticatory disturbance especially to child and adolescents. So conservative treatment as enucleation, curettage is acceptable initial treatment of ameloblastoma in children who can be followed up in a precise, detailed manner.

This report describes a case of unilocular plexiform ameloblastoma treated by enucleation and curettage followed by marsupialization.

Key words: Ameloblastoma , Conservative treatment, Marsupialization

I. 서 론

법랑모세포종은 치성 상피기원의 종양으로 법랑기의 세포 잔사, 발생중인 법랑기나, 치성낭종의 이상상피, 구강점막의 기저세포층으로부터 발생하는 치성양성종양으로¹⁾ 임상적으로 천천히 성장하며 주로 하악에서 발생되고 있으며 세포학적으로 양성이지만 부분적으로는 공격적인 침윤성향을 가지고 있으며 드물게 악성으로 전이하는 형태를 하고 있다.

법랑모세포종의 치료는 보존적 술식과 근치적 수술방법으로 나누게 되며 아직 치료방법에 대해서는 논란이 되고 있지만 환자의 나이, 임상적 소견, 조직학적 소견, 병소의 위치 및 크기 등을 고려하여 결정하고 있다.

특히 성장기의 환자의 경우는 악골의 성장에 따른 발병률,

양상, 예후 등이 성인과는 다르게 나타나므로 반드시 수술방법 결정시 고려를 해야 하며 일부 학자들은 어린이에서도 절제술과 같은 근치적 수술을 주장하기도 하지만 많은 문헌에서 보존적 수술이 어린 환자의 경우 성장에 따른 안모변형의 가능성이 낮고 중요 해부학적 구조물의 보존이 가능하여 법랑모세포종의 치료방법으로 추천되고 있다^{2,3,4)}.

본 교실에서는 단방성 총상형 법랑모세포종(plexiform unilocular ameloblastoma)으로 내원한 환자에서 나이를 고려하여 적출술 및 소파술과 함께 조대술을 실시하여 양호한 예후를 보여 증례와함께 문헌고찰을 보고하는 바이다.

II. 증례보고

본 증례는 15세 남자환자로 2006년 12월 하악 우측 제 2대구치 원심부위의 통증을 주소로 개인병원에 내원하여 검진과정에서 하악골의 방사선투과상이 관찰되어 본원으로 의뢰되었다. 현증으로 2-3년전부터 하악 우측 우각부의 무통성의 점진적인 부종이 관찰되었으며 과거병력으로 특이할 만한 사항은 없었다. 초진 당시 우측 후삼각부위 점막의 종창 및 경계가 뚜렷한 종괴가 관찰되었으며 흡인시 삼출액이나 낭종액은 관찰

최수진

435-040 경기도 군포시 산본동 1142번지
원광대학교 산본치과병원 구강악안면외과

Su-Jin Choi

Dept. of OMFS, Wonkwang university, Sanbon Dental Hospital
1142 Sanbondong Gunpo-si Gyeonggi-do, 435-040, Korea
Tel: 82-31-390-2875
E-mail: redvodka@hammail.net

※ 본 연구는 2007년 원광대학교 교비연구비 지원에 의해 이루어짐.

되지 않았다 (Fig. 1). 이학적 검사에서 우측 하악 제 1대구치 및 제 2대구치부위의 전기치수검사에서 음성을 보였으며 동요도나 치아우식은 관찰되지 않았다.

파노라마 사진에서 우측 하악 제 2대구치의 근심부위에서 하악우각부 및 관상돌기부위까지의 경계가 명확한 단방성의 방사선투과상 및 우측 하악 제 2대구치의 치근흡수, 하악 제 3대구치의 협측 변위가 관찰되었으며 하악골 우각부 변연부위의 피질골 비박화 및 팽창이 관찰되었고 컴퓨터 단층촬영 영상사진 (computed tomography)에서는 협설측 피질골관의 비박화 및 팽창과 불균일한 저밀도의 단방성 병소가 우측 하악골에서 관찰되었다 (Fig. 2).



Fig. 1. Preoperative state.

Preoperative photo showing invasion of lesion to overlying buccolingual mucosa on retromolar area.

2006년 12월 7일 초진 당시 국소마취하에 조직생검을 시행하여 병리조직학적으로 총상형의 범랑모세포종으로 진단되어 임상적, 방사선학적, 조직검사 결과와 환자의 나이를 고려하여 2007년 12월 22일 전신마취하에 외과적 적출술 및 소파술을 시행하고 조대술을 시행하였다. 구내접근에 의한 하악 협측 점막골막피판을 이용하여 병소부위를 노출시켰으며 동시에 병소 상방을 덮고 있는 얇은 피질골판을 제거하였다. 낭 내에 종괴로 차있는 모습이 관찰되었고 이에 적출술을 시행하고 협측으로 변위된 하악 제 3대구치 발치를 시행하였다. 종괴를 적출 후 하방으로 변위된 하치조신경의 주행이 확인되어 보존하고 개창부위의 점막을 봉합하여 이차치유를 유도하기 위해 조대술을 시행하고 낭 내로 바세린거즈를 충전하였으며 2주후 레진 밀폐장치(obturator)를 장착하도록 하였다 (Fig. 3). 술 후 환자는 감염없이 치유가 잘 진행되었고 적출된 종괴는 조직검사 결과 총상형 범랑모세포종으로 확진되었으며 (Fig. 4). 술 후 5일에 수술부위의 연조직의 조직생검을 시행하여 변연부위의 포함될 수 있는 병소를 확인하였다. 범랑모세포종의 병소는 관찰되지 않았으며 1개월 간격으로 내원하여 파노라마 촬영을 시행하였으며 3개월마다 CT를 촬영하여 추적관찰을 시행하였다. 현재 술 후 18개월로 재발소견은 보이지 않았으며 양호한 골생성의 결과를 보여주었다 (Fig. 5).

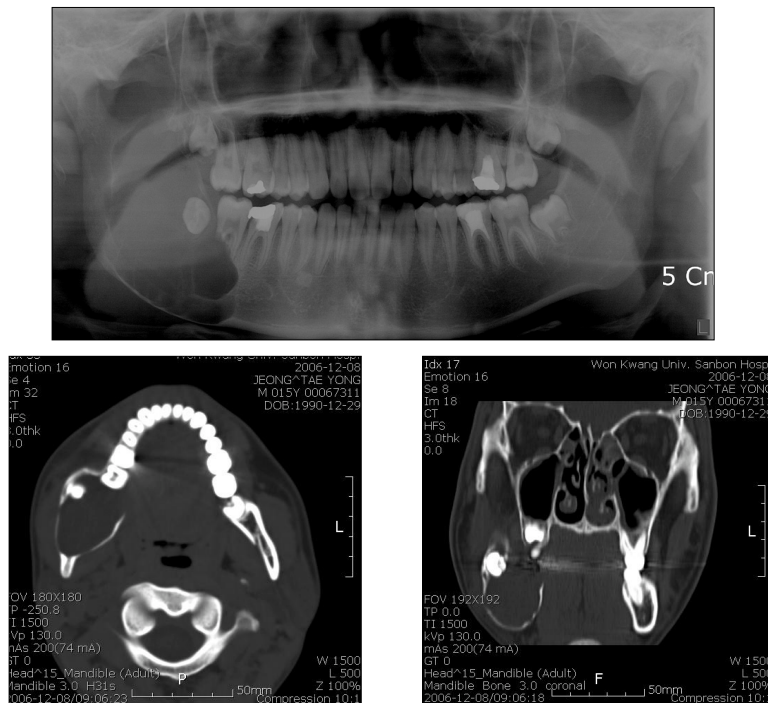


Fig. 2. Preoperative panorama & CT view.

Preoperative orthopantomogram showing ameloblastoma of the Rt.ramus and molar region, causing resorption of the 2nd molar roots and displacement of the 3rd molar. Axial and coronal section of CT depicting buccolingual bone expansion and cortex thinning and erosion.

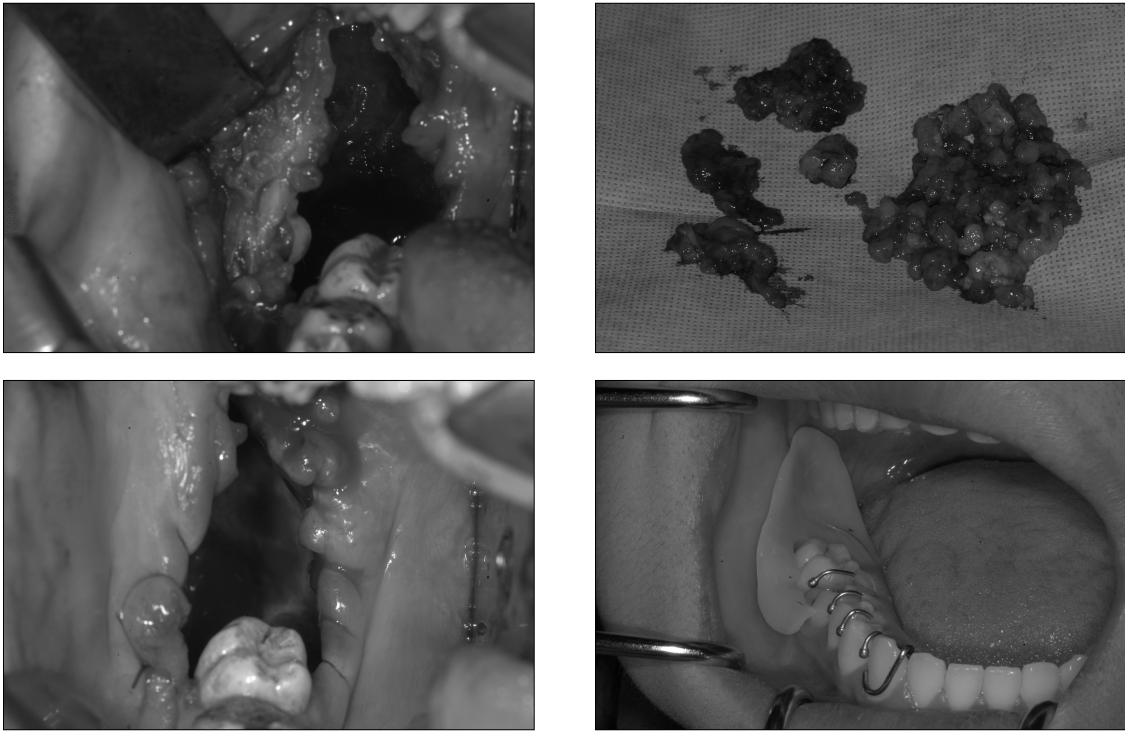


Fig. 3. Intraoperative photographs.
Masupialization followed by Enucleation of lesion was performed by intraoral approach.

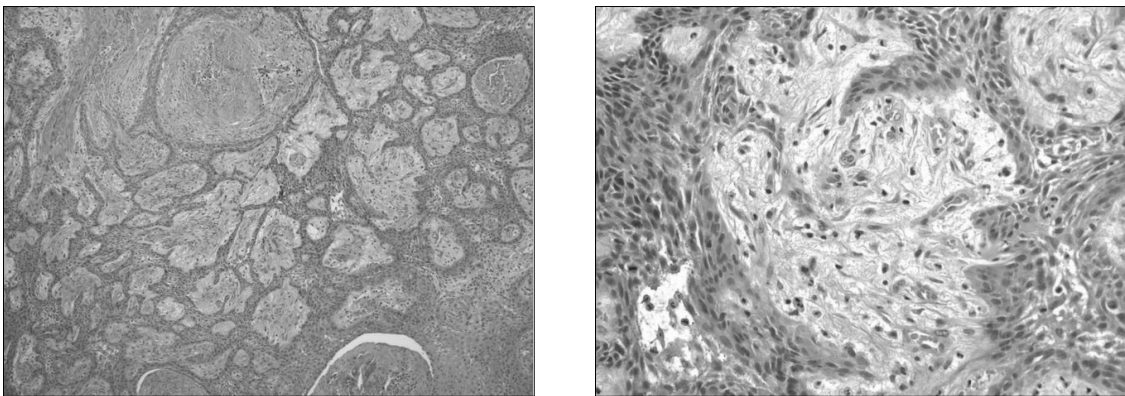


Fig. 4. Histopathologic examination.

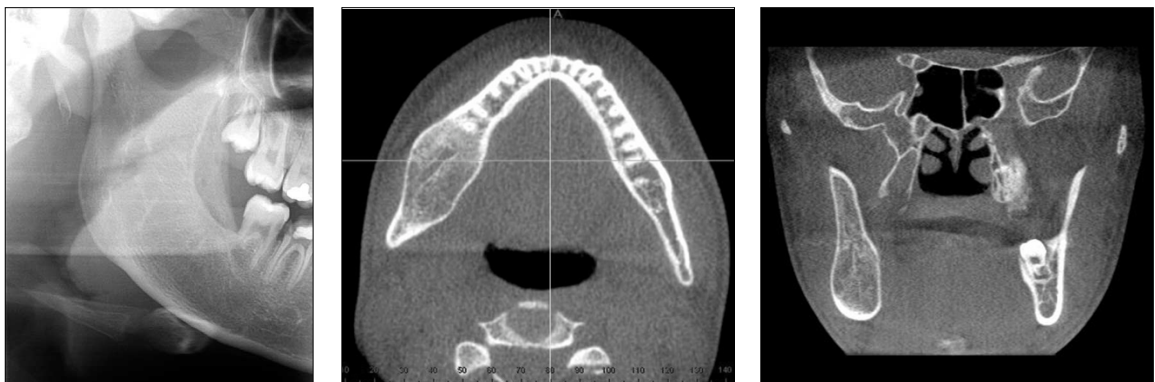


Fig. 5. Postoperative panoramic & CT view.
Extensive bone repair and remodeling and no signs of recurrence 18 months after surgery.

III 고 찰

법랑모세포종은 법랑모세포로부터 기원하는 양성 치성종양으로 악골에 발생하는 전체종양의 약 1% 정도로 보고되고 있다.

임상적으로 법랑모세포종은 천천히 성장하며 무통성의 부종, 국소적 불편감 및 피질골의 팽창과 때로는 협설측 피질골의 천공이 나타나며 그 상방의 연조직까지 침윤되는 양상을 보인다. 또한 병소와 인접한 치아의 변위, 누공 형성, 치근흡수 및 감각이상이 관찰되기도 한다⁵.

상악보다 하악에 호발하며 I-Yueh Huang⁶ 등은 남성에서 여성보다 1.5배 더 호발하며 부위로는 주로 하악각부위(66.6%)에서 호발하고 하악체(20%), 하악정중부(6.7%) 상악골(6.7%)에서 발생한다고 보고하였다.

법랑모세포종은 조직학적 분류에 의해 여포형(follicular), 총상형(plexiform), 극세포형(acanthomatous), 과립세포형(granular), 결합조직형성형(desmoplastic), 및 기저세포형(basal cell)으로 분류된다. Reichart⁷는 여포형과 총상형은 주로 나이 어린 환자와 구치부에서 발생하며 극세포형은 전치부와 성인에서 나타난다고 보고하였다. 그리고 총상형의 법랑모세포종은 중앙 세포 분화단계에서 원시단계에 해당하며 여포형과 극세포형은 편평세포로의 분화가 이루어진 단계로 총상형이 여포형보다는 덜 공격적인 형태를 나타낸다고 하였다⁸. Hong 등⁹은 조직병리학적인 형태가 재발율과 더 연관이 있음을 보고하였으며 여포형과 극세포형은 재발율이 높으며 총상형과 결합조직형성형은 상대적으로 재발율이 낮음을 보고하였다.

법랑모세포종은 임상적인 양상과 예후에 따라 골내형(intraosseous type)의 충실형 혹은 다방성 법랑모세포종(conventional solid or multicystic ameloblastoma)과 치은에 발생하는 말초형 법랑아세포종(peripheral ameloblastoma), 단낭성 법랑모세포종(unicystic ameloblastoma)로 분류된다. 충실형 혹은 다방성 법랑모세포종은 국소적으로 공격적이며 침윤되는 성향으로 재발율이 높게 나타나지만 단낭성 법랑모세포종은 다방성 법랑아세포종에 비해 젊은 사람에게서 호발하며 덜 공격적인 특징을 지니고 보다 낮은 재발율이 보고되고 있다.

법랑모세포종의 치료방법은 소파술(curettage), 적출술(enucleation), 조대술(marsupialization)등과 같은 보존적 술식과 변연절제술(marginal resection), 분절골절제술(segmental resection)과 같은 근치적 수술방법으로 분류되며 보조적인 술식으로 화학적 소작법(chemical cauterization)이 함께 이용되고 있다. 하지만 아직까지 치료방법에 대해서는 논란이 되고 있다.

Feinberg¹⁰, Anwar B¹¹ 등은 다방성 법랑모세포종의 병소의 크기가 작을 경우 병소를 포함한 주변골 1-2cm 정도를 포함하는 골절제술이 이루어져야 하며 골의 비박 및 천공시 분절골절제술을 시행하고 하방 연조직 침범시 광범위하게 제거되어야 하며 피질골이 포함되지 않은 경우는 변연골절제술을 시행하여 하악골의 연속성을 유지하여 안모의 변형을 최소화하도록 해야 한다고 주장하였다. 또한 다방성 법랑모세포종은 방사선사

진상에서는 관찰되지 않으나 딸세포의 주변골 및 인접조직으로의 함입과 하악상행지와 같은 시야가 제한된 부위에서는 잔존가능성으로 인하여 잠재적인 재발가능성이 높아 근치적 절제술이 이루어져야 한다고 주장하였다¹².

근치적 절제술시 고려사항으로 Gardner¹³는 다방성 법랑모세포종의 치료에 있어 건전한 피질골이 종양의 확산을 방지할 수 있도록 효과적인 차단벽의 역할을 하고 있으며 해면골 내로의 침윤여부를 중요한 수술 시 고려사항으로 주장하였다. Stephen¹⁴은 수술 중에 절제된 종괴보다는 주위 해면골의 동결절편법(Frozen section)을 시행하여 술중에 침윤여부를 확인해야 한다고 하였다.

하지만 이런 근치적 절제술은 낮은 재발율의 장점을 지나 수술 후 환자 안모의 성장 장애에 따른 심각한 안모변형, 저작기능의 장애, 비정상적인 악골의 운동과 같은 합병증을 나타낼 수 있다.

특히 어린이나 청소년과 같이 성장기의 환자의 경우 보존적 처치를 시행하여 수술 후 합병증을 최소화하는 것이 중요하며 골의 재생을 위해 건전한 골막을 유지하여 적출술을 시행할 것을 추천하였다.^{4,15}

Sammartino¹⁶는 충실형 법랑모세포종의 치료로 피질골 천공이 없는 병소의 경우 주변골 0.5-1cm 정도를 포함하여 소파술을 시행하고 추적 관찰을 시행할 것을 주장하였다.

Takahashi¹⁷는 성장기의 환자의 경우 주위 골까지 충분한 소파술을 시행한 후 조대술을 실시하여 경과관찰을 하였는데 이때 조대술을 수술 후 치유양상과 재발가능성에 대한 관찰을 할 수 있는 방법으로 보고하였으며 재발시 법랑모세포종이 더 침습적인 성향을 나타낸다고 하더라도 성장이 완료될 때까지는 보존적 처치를 시행하여야 한다고 주장하였다.

화학적 소작술에 대해서 Lee¹⁸는 적출술 후 Camoy's solution을 적용하여 해면골 골주사이로 침윤되어 남아있는 중앙세포를 고정(Fixation)시킴으로써 재발을 줄일 수 있으며 병소에 인접한 치아의 보존시 치근부위에 중앙세포의 잔존가능성을 줄일 수 있다고 보고하였다.

재발성과 방사선소견과의 관계를 보면 단방성인 경우 20%, 다방성의 경우 75%로 동일한 시술시 다방성이 단방성에 비해 재발율이 높으며 병소가 큰 경우 정상적인 치유과정에서 나타나는 수술 후 섬유화현상으로 인한 방사선투과상과의 감별진단이 중요하며 이때 CT보다는 MRI가 더 유용한 것으로 보고되고 있다¹⁹.

본원에서 치료한 법랑모세포종은 초진 당시 후삼각부위에서 침윤된 상방점막의 절개 생검을 통하여 총상형의 법랑모세포종으로 진단되었고 단방성의 비교적 큰 병소로 환자의 어린 나이에 따른 수술 후 악골의 성장을 고려하여 보존적 처치를 시행하기로 결정하였다. 충실형의 법랑모세포종의 특징과 후삼각부위의 골 파괴 및 상방점막으로의 침윤이 진행된 상태를 고려하여 정상조직을 포함한 충분한 주위점막의 절제 및 골내 병소의 적출술 및 소파를 시행하였으며 수술 후 경계부에서 중앙세포의 잔존여부에 대한 반복적인 조직검사가 이루어졌다.

또한 환자 나이를 고려하여 치근흡수된 우측 제 2대구치를 보존하기로 하고 치근 이개부와 시야가 제한된 치아 근심부위로 철저한 소파술을 시행하였다. 술 후 3개월마다 정기적으로 CT를 촬영하고 있으며 현재 수술을 시행한 후 18개월로 CT상 재발의 소견은 보이지 않았으며 환자의 불편감 없이 치유가 진행되고 있다. 하지만 재발까지의 추적기간에 대하여 평균 4.5년으로 대부분 2-5년 사이에 발생하는 것으로 보고되고 있어²⁰ 본 증례의 경우 반드시 장기간의 정기적인 추적관찰이 요구된다.

단방형의 법랑모세포종과 같이 비교적 재발율이 낮게 보고되고 있는 병소의 경우에 있어 특히 성장기의 환자라면 악골의 성장을 고려하여 기능적, 심미적으로 유지시킬 수 있는 보존적 수술을 우선적으로 고려해 볼 수 있으리라 사료된다.

참고문헌

- 대한구강악안면병리학회. 구강악안면병리학. 군자출판사 2002;388.
- Nakamura N, Higuchi Y, Mitauyasu T. Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93:13-20.
- 신민영, 이혁기, 최제원, 신성수, 박양호, 박준우. 단방성 법랑아세포종의 보존적 수술에 관한 증례보고 및 문헌고찰. *대한구강악안면외과학회지* 2005;31(1):70-73.
- 김희경, 이의웅. 골내법랑아세포종의 적출술 후 치료효과. *대한구강악안면외과학회지* 2003;29(2):140-144.
- Chidzonga MM, Lopez Perez VM, Portilla Alvarez AL. Ameloblastoma : the Zimbabwean experience over 10 years. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endol* 1996;82:38-41.
- I-Yueh Huang, Sheng-Tsung Lai, Chung-Ho. Surgical management of ameloblastoma in Children. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007;104:478-85.
- Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995;31:86-99.
- Matsuo A, Ueno S. Immunohistochemical demonstration of keratin in ameloblastoma as an indication of tumor differentiation. *J Oral Maxillofac Surg* 1991;49:282-288.
- Hong J, Yun PY, Chung IH, Myoung H, Suh JD, Seo BM et al. Long-term follow up on recurrence of 305 ameloblastoma cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2007;36:283-8.
- Feinberg SE, Steinberg B. Surgical management of ameloblastoma. Current status of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endol* 1996;81:383-8.
- Anwar B. Bataineh. Effect of preservation of the inferior and posterior borders on recurrence of ameloblastomas of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endol* 2000;90:155-163.
- Olaitan AA, Adeola DS, Adekeye EO. Ameloblastoma: Clinical features and management of 315cases from Kaduna, Nigeria. *J Craniomaxillofacial Surg* 1993;21:351.
- Gardner DG. Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endol* 1996;82:660.
- Stephen A. Surgical Excision with peripheral Osteotomy : A definitive, Yet Conservative, Approach to the Surgical Management of Ameloblastoma. *J Oral Maxillofacial Surg* 2006;64:476-483.
- Tanaka N, Murata A, Yamaguchi A, Kohama G. Clinical features and management of oral and maxillofacial tumors in children. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999;88:11-15.
- Sammartino G, Zarrelli C, Urciuolo V, di Lauro AE, Di Lauro F et al. Effectiveness of a new decisional algorithm in managing mandibular ameloblastomas: A 10-years experience. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007;45:306-10.
- K. Takahashi, K. Miyauchi, K. Sato. Treatment of ameloblastoma in children. *Br J of Oral and Maxillofac Surg* 1998;36:453-456.
- Lee PK, Samman N, Ng IO. Unicystic ameloblastoma-Use of Carnoy's solution after enucleation. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004;33:263-267.
- 박노부, 신상욱, 김진수. 임상소견에 따른 법랑모세포종의 방사선학적 특징에 관한 임상통계학적 분석. *대한악안면성형재건회과학회지* Vol.17, No.4, 1995.
- Ord RA, Blanchaert RH Jr, Nikitakis NG, Sauk JJ. Ameloblastoma in children. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60:762-70.