

<https://doi.org/10.22974/jkda.2024.62.6.004>

투고일 : 2024. 4. 30

심사일 : 2024. 5. 2

게재확정일 : 2024. 5. 9

4

법랑모섬유치아종의 일례: 하악 제2대구치 결손이 관찰되는 희귀 증례보고

간추린 제목 : 결손치를 동반한 법랑모섬유치아종

김유리^{1,2}, 이병도¹¹원광대학교 치과대학 영상치의학교실, ²조선대학교 치과병원 치과교정과

ORCID ID

Yu Ri Kim,  <https://orcid.org/0009-0006-0450-1517>Byung-Do Lee,  <https://orcid.org/0000-0002-1660-7339>

ABSTRACT

Ameloblastic fibro-odontoma with a congenitally missing mandibular second molar : a rare case report

Running title : Ameloblastic fibro-odontoma with a congenital missing tooth

Yu Ri Kim^{1,2}, Byung-Do Lee¹¹Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Wonkwang University²Department of Orthodontics, Chosun University Dental Hospital

Ameloblastic fibro-odontoma (AFO) is a rare benign mixed odontogenic tumor predominantly occurring in children. This tumor is often asymptomatic and associated with disturbances in tooth eruption. We present the case of a 7-year-old boy who exhibited delayed eruption of his left mandibular first molar, attributable to AFO with a congenitally missing mandibular second molar. Radiographs revealed a well-defined, ovoid, radiolucent lesion containing sparse calcified materials in the left posterior mandible. To the best of our knowledge, few reports have documented AFO in conjunction with the congenital absence of a permanent tooth. This case is discussed along with a review of relevant literature.

Key words : Ameloblastic fibro-odontoma, odontogenic tumors, mandible

Corresponding Author

Byung-Do Lee, DDS, PhD, Professor

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Wonkwang University,

895 Muwang-ro, Iksan-si, Jeonbuk-do, Korea

Tel : +82-63-859-2912 / E-mail : eebydo@gmail.com

ACKNOWLEDGEMENTS 본 연구는 2024학년도 원광대 교비연구비의 지원에 의해 진행되었음.

1. 서론

법랑모섬유치아종은 정상적인 치아 형성 과정 중에 치성상피 및 간엽 조직이 이상증식을 함으로써 발생하는 양성 혼합성 치성 종양이다¹⁾. 법랑모섬유치아종은 1967년 Hooker²⁾가 병리조직학적 특성에 의해 법랑모치아종으로부터 이를 분리하여 보고한 이래 치성종양 중 3.25% 비율로 관찰되고 있으며³⁾, Chrcanovic⁴⁾ 등은 법랑모섬유치아종의 215 사례만이 문헌에 보고되었다고 하여 희귀한 발생빈도를 보이는 질환임을 알 수 있다.

법랑모섬유치아종은 하악골에서 특히 소구치와 대구치 부위에서 호발하고 대부분 소아에서 관찰되며 발견 평균 나이는 9.4세로 20세 이상에서는 드물게 나타난다⁵⁾. 방사선영상에서는 경계가 명확한 단방성이나 다방성 병소에 치아 경조직과 유사한 방사선 불투과상이 관찰되며, 이러한 불투과성 물질의 크기와 밀도는 증례마다 다양하게 보고되고 있다⁶⁾. 법랑모섬유종의 연조직 성분과 복잡치아종의 경조직 성분이 동시에 관찰되는 점이 이 병소의 방사선학적 특징이나 그 실체에 대해서는 논란이 지속되고 있다. 즉 법랑모섬유종이 시간 경과에 따라 분화되면서 법랑모섬유치아종으로 진행되며, 최종적으로 복잡치아종으로 발달된다는 보고들이⁷⁾ 있는 반면 법랑모섬유치아종은 미성숙된 복잡치아종이라는 연구들^{8,9)}, 또는 독립적인 종양병소로서 악골변형이나 골파괴를 야기시킬 수 있다는 주장들이¹⁰⁾ 있다.

법랑모섬유치아종은 슬후 재발경향은 거의 없는 것으로 알려져 있으므로 치료법으로는 소파술이나 적출술 등의 보존적이 방법이 권장되고 있으나, 병소가 현저하게 증식하는 경우에는 골절제술 등이 필요할 수도 있으며⁴⁾, 극히 드물게 법랑모섬유종으로의 악성 변화가 보고된 바 있으므로 주의가 필요하다¹¹⁾.

법랑모섬유치아종은 보통 미맹출치나 매복치와 연관되어 치아의 맹출장애를 야기한다고 보고되고 있으나^{4,9)}, 선

천적 결손치와 관련된 경우는 거의 보고되지 않았다.

Buchner¹²⁾ 등이 법랑모섬유치아종 114례를 분석한 연구에서 하악 제2대구치 및 제3대구치 결손이 관찰된 증례를 각각 1례씩 제시한 보고를 제외하고는 문헌상 연구 보고가 없다.

위와 같이 법랑모섬유치아종은 주로 아동 악골에서 희귀하게 발견되는 질환으로서, 방사선투과성 병소내에 석회화 물질이 혼재되어 나타나는 특징적인 방사선학적 소견을 나타내는 질환이다. 본 연구에서는 하악 좌측 제1대구치의 지연 맹출을 주소로 내원한 어린이의 좌측 제2대구치 선천적 결손이 방사선 영상에서 우연히 발견된 법랑모섬유치아종의 희귀 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

2. 증례

7세 남아가 하악 좌측 제1대구치의 맹출 지연으로 치과병원에 내원하였으며 수개월전 상악 중절치의 맹출 지연으로 해당부위 치은 절제술을 받은 치과적 병력 외에는 특이할 만한 전신적, 치과적 병력과 가족력은 없었다. 구강내 임상 검사시 하악 좌측 제2대구치 부위에서 설측로의 미약한 치조골의 팽윤이 탐지되었으나 환자 및 보호자는 이를 인지하지 못하고 있었으며 통증이나 불편감 등 어떤 증상도 경험하지 않았다고 하였다.

파노라마방사선영상 검사에서 하악 좌측 제2대구치가 결손되어 있었고, 치아 결손부위에 난형의, 경계가 명료한 방사선 투과성 병소가 대신 관찰되었는데(병소 최대 직경 1.5cm) 방사선투과성 병소 내부에는 희미한 석회화 물질이 소량 산재되어 보였다. 그리고 이 병소에 의해 하악 좌측 제1대구치가 약간 전방 변위되면서 제2대구치에 의해 맹출이 방해받는 상이 관찰되었다(Fig. 1). 콘빔 CT에서는 경계가 명확한 방사선 투과성 병소와 그 내부에 방



Figure 1. Panoramic radiograph displays a well-defined, ovoid, radiolucent lesion with a few calcified materials in the left mandibular posterior region of the absent second molar. The second molar is congenitally absent. The eruption of the first molar appears anteriorly displaced by this lesion, and its eruption is obstructed by the second primary molar.

사선 불투과성의 물질들이 관찰되었고 병소에 의해 설측 피질골이 약간 비박되고 팽윤된 상이 관찰되었다. 석회화 물질들은 크기가 작고 무정형이었으며, 투과성 병소 중심 주변부위에 산재되어 있었는데, 법랑질과 유사한 방사선 불투과상이 관찰되었기 때문에 치아종 성분을 의심할 수 있었다(Fig. 2. A~C).

이와 같이 방사선투과상과 불투과상이 혼합된 특징적인 방사선학적 소견을 보였기 때문에 석회화치성낭, 선양 치성종양, 석회화상피성치성종양 등의 악골병소와 감별이 필요하였다. 본 증례에서는 석회화된 구조물이 특정한 형태를 갖추지 않고 방사선 투과상 내에 소량 산재되어 있었으므로 특히 석회화치성낭과의 감별이 필요하였으나, 병소 발견연령이 7세로 어린 나이였고 석회화 물질의 방사선 불투과 정도는 치아 경조직과 유사하여 법랑모섬유치아종을 추정할 수 있었다. 또한 좌측 제2대구치가 결손

되지 않고 발육이 더딘 미성숙한 형태를 추정할 수도 있었으나, 반대측의 우측 하악 제2대구치는 치관이 이미 형성되어 있는 상이 관찰되었으므로 좌측 제2대구치의 경우 정상적인 치아 발육과정은 아닐 것이라고 추정하였다.

조직병리학적 검사결과 섬유성 결합조직 및 치성 상피, 백악질 성분 등이 관찰되어 법랑모섬유치아종으로 최종 진단되었다(Fig. 3). 병소는 소파술로 제거되었으며 주위 건강 골조직과 잘 분리되었다. 술후 2개월후 촬영된 파노라마방사선영상에서는 제2유구치에 의한 하악 좌측 제1대구치 맹출 경로 차단이 완화되어 보여 정상적인 맹출과정이 기대되었는데(Fig. 4), 이는 법랑모섬유치아종으로 인한 제1대구치의 전방 변위가 더 이상 존재하지 않기 때문에 일어난 결과라고 사료되었다. 외과적 수술로 인한 골 결손부위는 정상적인 치유양상을 보이고 있었으며 하악 제2대구치 결손으로 인한 좌측 상악 제2대구치의 정출 문

CASE REPROT



Figure 2. Cone beam CT images provide a detailed view of the calcified materials and cortical alteration in the area of the missing mandibular second molar. Sagittal (A) and axial (B) views reveal amorphous, scattered calcified materials within a unilocular, radiolucent lesion with well-defined borders, exhibiting radiopacity similar to tooth structure. The coronal image (C) shows a corticated border of the lesion with slight expansion and thinning of the lingual cortex.

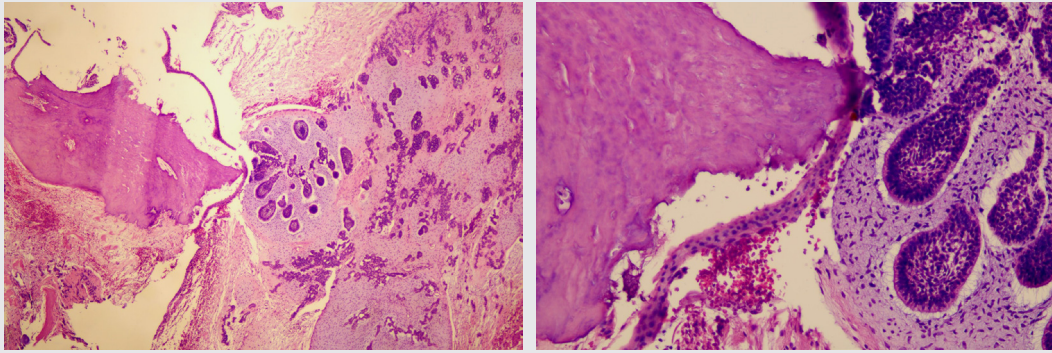


Figure 3. Histopathologic images present reduced enamel epithelium, cementum, and odontogenic epithelial islands (stained with hematoxylin and eosin).



Figure 4. Panoramic radiograph from a two-month postoperative follow-up shows the surgical defect without calcified material and an enhanced eruption pattern of the left mandibular first molar, compared with the preoperative image (Figure 1).

제를 해결하기 위해 교정치료를 계획하면서 수술부위의 치유과정을 지속적으로 관찰하기로 하였다.

3. 토의

본 증례는 법랑모섬유치아종이 좌측 하악 제2대구치 부위에 발생되면서 해당부위 영구치가 결손된 매우 희귀한 증례이다. 또한 방사선 영상에서 병소 크기가 비교적 작고(최대 직경 1.5cm) 피질골 팽용등의 소견이 미약하게 관찰된 점도 특징적이었으며, 내부 석회화물질들의 크기가 작고 병소 중심부를 중심으로 산재되어 보였다. 이러한 소견들은 일부 선학들의 연구와 유사한 점이다²⁾. 그러나 공격적인 양상과 골팽용을 현저하게 야기시킨 증례들도 보고되었으므로¹⁰⁾ 법랑모섬유치아종의 방사선학적 소견이 다양함을 시사한다.

본 증례에서는 특징적으로 하악 제2대구치가 결손되었다. 하악 제2대구치의 치관 경조직의 형성은 생후 2.5~3년경에 시작되며, 법랑질은 7~8년에 완성되고, 구강내에는 11~13세경에 출현하는 것이 일반적이다¹³⁾. 본 증례의 병소는 하악 제2대구치의 치배 조직으로부터 유래된 것으로 사료되며, 해당 치아의 치배 조직이 형성되는 시기인 생후 1~2세경부터 법랑모섬유치아종으로 대체되는 과정을 겪었을 것으로 추정된다¹⁴⁾. 그 발생원인에 대해서는 감염, 외상, 그 외 특발성 요소 등에 의해 외배엽 및 중배엽 성분이 증식하여 법랑모섬유치아종이 발생한다고 보고된 바 있다¹⁵⁾.

법랑모섬유치아종은 방사선영상에서 주위 건강골 조직과의 경계가 명료하면서 단방성 혹은 다방성을 나타내는데 방사선투과상은 상피 및 결합조직을 나타내며, 그 내부에서는 다양한 크기와 형태의 석회화된 구조물이 산재되어 관찰된다. 증례에 따라 석회화물질이 관찰되지 않는 경우에는 매복치와 연관된 함치성 낭종으로 오진될 수

있다⁹⁾.

방사선투과성 부위내에 석회화물질이 소량일 경우에는 특히 석회화치성낭, 선양치성종양 등과의 감별을 요한다¹⁶⁾. 석회화치성낭은 10~20대 젊은 연령층 혹은 50~60대의 다소 고령층에서 호발 된다고 보고되고 있으며 남성 조직과 종양 조직이 동시에 관찰되는 경우도 많고 다양한 조직 소견을 보인다⁶⁾. 법랑모섬유치아종의 경우 석회화물질이 복잡치아종의 성분인 치아 경조직으로 구성되는데 비해 석회화치성낭의 경우 치아 경조직 성분 보다는 유령세포로 알려진 각화되고 석회화된 상피세포의 존재로 법랑모섬유치아종과 감별할 수 있다. 그러나 석회화치성낭은 그 표현양식이 다양하므로 치아종과 연관된 증례인 경우에는 감별이 쉽지 않을 수 있다¹⁷⁾. 선양치성종양은 10대에서 호발하며 전치부 중 특히 상악 전치부가 호발부위이다¹⁸⁾. 선양치성종양 내 석회화 물질의 정체는 미성숙된 법랑질, 상아질상, 백악질 등이며 점상 형태의 석회화물질이 보고되기도 하였다¹⁸⁾. 그 외에도 법랑모섬유상아종과의 감별이 필요할 수도 있다. Hisazumi¹⁹⁾ 등이 보고한 하악 제2대구치부위의 법랑모섬유상아종의 증례에서는 치배 구조나 법랑질 등의 성분은 발견되지 않았고 오직 상아질 관련 조직만 관찰되었고 이러한 점에서 법랑모섬유치아종과 법랑모섬유상아종이 생검상으로 구별될 수 있다고 사료되었다.

방사선투과성 부위의 비율이 상대적으로 큰 법랑모섬유치아종 사례도 보고된 바도 있으며¹⁰⁾ 이런 경우는 치아종과의 감별이 필요하다. 특히 복잡치아종은 후방 구치에서 비교적 흔하게 관찰되고 매복치와 관련되어 관찰되기 때문에 법랑모섬유치아종과의 감별을 요한다¹⁴⁾. 그러나 복잡치아종에서는 치아 경조직의 방사선투과성 부위가 대부분의 영역으로 관찰되고, 법랑모섬유치아종의 경우에는 상피 및 결합조직의 연조직 부위가 상대적으로 많기 때문에 방사선투과성부위가 복잡치아종에 비해서 상대적으로 많은 점이 감별점이다⁶⁾.

법랑모섬유치아종의 실체에 대해서는 오랫동안 논란을 거듭하였으며, 희소한 증례보고와 장기적인 추적관찰의 어려움 때문에 실제 입증에 대한 연구의 어려움이 많다. Buchner¹²⁾ 등은 법랑모섬유치아종 114 증례를 분석한 결과 법랑모섬유치아종 일부는 과오종 성격의 치아종으로의 발전해 나가는 단계라고 추정할 수 있으나, 치아종이 아닌 종양의 성격을 보이는 법랑모섬유치아종과의 감별이 병리조직학적으로 가능하지 않기 때문에 방사선학적 임상적 특징들이 이들 병소들을 감별하는데 도움을 줄 수 있다고 하였다. 치아종은 일정시기에 도달하면 더 이상 성장하지 않기 때문에 예후가 매우 좋은 편이나, 종양의 성격을 가지는 법랑모섬유치아종의 경우 병소가 계속 성장하여 인접조직을 침범하거나 심한 안모변형을 야기할 수 있기 때문에 병소의 실제 규명은 병소의 치료 및 예후 결정에 중요한 변수가 될 수 있다고 사료된다.

본 증례는 병소 크기가 작고 피질골 팽윤이 매우 미약하였기 때문에 종양의 초기 단계 혹은 미성숙단계의 치아종 등의 해석이 모두 가능하였다. 그러나 본 연구에서는 위의 논란이 존재함에도 불구하고 생검 결과에 기반한 법랑모섬유치아종으로 최종 진단하였다. 법랑모섬유치아종은 병소가 잘 피막화 되어 있고 국소적 침습을 하지 않기 때문에 단순한 소파술이나 적출술이 시행된다고 보고되었으며 본 사례에서도 병소는 단순 소파술로 제거되었다.

법랑모섬유치아종은 아동 및 어린이에서 주로 발견되는데, Philipsen⁹⁾ 등이 1997년에 보고한 법랑모섬유치아종 86사례 중 단 1사례만이 20세 이상이었으며 대개 미맹출치와 연관되어 있었다. Hooker²⁾는 병소 발견 연령이 평균 11.5세라고 하였고, Slootweg⁸⁾는 평균 8.1세를 보고하였으며, 본 환자의 경우 선학들의 보고보다 어린 7세였다. 성별에 따른 차이는 거의 없다고 하였으나 Hooker²⁾는 3:1로 남성에서 약간 더 호발한다고 하였다. 또한 상악보다는 하악에서, 전치부보다는 후방구치부에서 호발된다고 알려져 있다⁹⁾.

본 연구에서는 7세 남아의 하악 제2대구치가 결손된 부위에서 법랑모섬유치아종이 미약하게 성장되는 증례를 보고하였으며, 본 증례는 법랑모섬유치아종의 다양한 임상 및 방사선학적 특징들을 연구하는데 일부 자료로 활용될 것으로 기대된다.

이해상충 (Conflict of interest)

저자들은 이해상충이 없음을 선언한다.

참고문헌

- Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of head and neck tumours. IARC, 2005.
- Hooker S. Ameloblastic odontoma: An analysis of twenty-six cases. *Oral Surg*. 1967;24:375-376.
- Soluk-Tekkesin M, Cakar S, Aksakalli N, Alatti C, Olgac V. New World Health Organization classification of odontogenic tumours: impact on the prevalence of odontogenic tumours and analysis of 1231 cases from Turkey. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2020;58(8):1017-22.
- Chrcanovic BR, Gomez RS. Ameloblastic fibrodentinoma and Ameloblastic fibro-odontoma: an updated systematic review of cases reported in the literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 2017;75(7):1425-37.
- Soluk-Tekkesin M, Vered M. Ameloblastic Fibro-Odontoma: At the Crossroad Between "Developing Odontoma" and True Odontogenic Tumour. *Head Neck Pathol*. 2021;15(4):1202-1211.
- Langlais RP, Langland OE, Nortjé CJ. *Diagnostic Imaging of the Jaws*. Michigan: Williams & Wilkins; 1995.
- Barnes L. *Surgical Pathology of the Head and Neck*. 3rd ed. India: Informa; 2009.
- Slootweg PJ. An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors—ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and the odontomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1981;51(3):266-276.
- Philipsen HP, Reichart PA, Pratorius F. Mixed odontogenic tumors and odontomas: Considerations on interrelationship. Review of the literature and presentation of 134 new cases of odontomas. *Oral Oncol*. 1997;33(2):86-99.
- Pillai A, Moghe S, Guru KN, Nair PP. Large ameloblastic fibro-odontoma in an 18-year-old girl and review of literature. *BMJ Case Rep*. 2012;19:bcr-2012-007160.
- Shadavlonjid B, Cho E, Nam W, Kim HS, Yook JI, Kim J. A case of ameloblastic fibrosarcoma transformed from ameloblastic fibro-odontoma. *Korean J Oral Maxillofac Pathol*. 2017;41(1):45-50.
- Buchner A, Kaffe I, Vered M. Clinical and radiological profile of ameloblastic fibro-odontoma: an update on an uncommon odontogenic tumor based on a critical analysis of 114 cases. *Head Neck Pathol*. 2013;7(1):54-63.
- 대한소아치과학회. *소아청소년치과학*. 제6판. 서울:대한나래출판사; 2023.
- Nolla C. The development of permanent teeth (Dissertation). Univ Mich. Published online 1952.
- Cohen DM, Bhattacharyya I. Ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and odontoma. *Oral Maxillofac Surg Clin N Am*. 2004;16(3):375-384.
- Phillips MD, Closmann JJ, Baus MR, Torske KR, Williams SB. Hybrid odontogenic tumor with features of ameloblastic fibro-odontoma, Calcifying Odontogenic Cyst, and Adenomatoid Odontogenic Tumor: A Case Report and Review of the Literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 2010;68(2):470-474.
- Samir MC, Lamiae G, Bassima C. Calcifying odontogenic cyst of anterior maxillary: Case report and review. *Int J Surg Case Rep*. 2021;85:106267.
- Zeitoun IM, Dhanrajani PJ, Mosadomi HA. Adenomatoid odontogenic tumor arising in a calcifying odontogenic cyst. *J Oral Maxillofac Surg*. 1996;54(5):634-637.
- Hisazumi I, Tokutarou M, Shuichi F, Izumi A. Ameloblastic fibrodentinoma with a congenitally missing second premolar tooth: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2014;117:88-91.