

상악에 발생한 법랑아세포 섬유-치아종의 치험례

김현민 · 이준규 · 문철현* · 이상민**

가천의과대학교 길병원 구강악안면외과학교실, *교정학교실, **치주학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2006;32:594-597)

AMELOBLASTIC FIBRO-ODONTOMA(AFO) IN THE MAXILLA: A CASE REPORT

Hyen-Min Kim, Jun-Kyu Yi, Cheol-Hyun Moon*, Sang-Min Yi**

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, *Department of Orthodontics,

**Department of Periodontics, Gachon University, Gil Medical Center

Ameloblastic fibro-odontoma(AFO) is a rare mixed odontogenic tumor. It is composed of connective tissue characteristic of an ameloblastic fibroma and calcified tissue as a complex or compound odontoma.

AFO usually presents itself as an asymptomatic swelling of jaw or failure of tooth eruption. The lesion usually occurs in individual less than 30 years old. The differential diagnosis of this tumor includes odontoma, ameloblastoma, and ameloblastic fibroma.

This report describes an ameloblastic fibro-odontoma occurring in maxilla of sixteen-year-old female. The lesion was treated by surgical enucleation and curettage without extraction of the involved canine(#23). This patient has shown no sign of recurrence during postoperative 34 months. So we report our case with review of literatures

Key words: Ameloblastic fibro-odontoma

I. 서 론

법랑아세포 섬유-치아종(Ameloblastic fibro-odontoma)은 치아 경조직(즉, 법랑질, 상아질)을 포함하는 증식성의 외배엽성 간엽조직으로 이루어진 치성기원의 진성 혼합성 종양으로, 모든 치성 종양의 약 3.1%에서 나타난다. 30세 이하에서 주로 발생하며, 평균 발생 연령은 8.1세이다^{1,2)}. 성비는 1.4:1로 남성에서 약간 더 호발하며, 상악은 전치부에서, 하악은 구치부에서 주로 발생한다³⁾. 임상적으로 종양 자체는 무증상인 경우가 많으나, 때로 인접 치아의 미맹출이나 무통성 종창이 나타나는 경우도 있다. 방사선 사진에서는 경계가 잘 지어진 단방성 또는 다방성의 방사선 투과상에, 석회화 정도에 따라 다양한 비율로 방사선 불투과성 병소가 혼재되어 나타난다. 이런 임상적, 방사선적 특성 때문에, 각화 상피성 치성 종양, 각화성 치성 낭종, 미성숙한 복합 치아종과의 감별이 어려울 수 있으므로, 조직학적 소견을 통한 감별진단이 필요하다.

조직학적으로 불규칙하게 배열되어 있는 방추형 세포로 구

성된 섬유성 결합 조직을 배경으로 불규칙한 모양의 상아질 혹은 법랑질 기질과 치관과 비슷한 띠 모양의 치성 상피가 존재한다.

II. 증례보고

16세 여자 환자로 2003년 8월 좌측 상악 견치의 미맹출을 주소로 가천의과대학교 길병원 구강악안면외과로 내원하였다. 임상 검사상 좌측 상악 유견치가 잔존해 있었고, 우측 상악 견치는 교합면 수준에 도달해 있는 반면 좌측 견치는 구강내로 맹출하지 않은 상태였다. 피질골이 협측으로 약간 팽창해 있었으나, 특별한 염증 소견은 보이지 않았으며, 특별한 전신 병력은 없었다. 파노라마와 교합면 방사선 사진상에서 경계가 명확한 방사성 투과상과 불투과상이 혼재된 병소를 확인할 수 있었으며, 병소에 의해 좌측 상악 견치는 원심-상방으로 변위되어 있었다(Fig. 1).

복합성 치아종이라는 가진하에 국소마취 후, 잔존 유견치를 발거하고, 우측 상악 중절치에서 좌측 제1소구치에 이르는 열구절개와 좌측 제1소구치 원심 선각에 수직절개를 가한 후, 절제생검을 위해 전층점막골막피판을 거상하였다. 풍용해진 협측 피질판을 제거하고 종양을 견치의 지배와 노출된 제1소구치의 치근으로부터 분리시켜 한 덩어리로 적출하였다(Fig. 2). 적출된 종물은 1.0 × 1.5 × 2.0cm 크기로 표면은 매끄럽고 피막으로 완전히 덮여 있었다. 이와 동시에 매복 견치의 치관에

김 현 민

405-760, 인천광역시 남동구 구월동 1198

가천의과대학교 길병원 구강악안면외과학교실

Hyen-Min Kim

Dept. of OMFS, Gachon University, Gil Medical Center

1198, Guvol-Dong, Namdong-Gu, In-chon, 405-760, Korea

Tel: 82-32-460-3373 Fax: 82-32-467-8997

E-mail: jumincw@hanmail.net

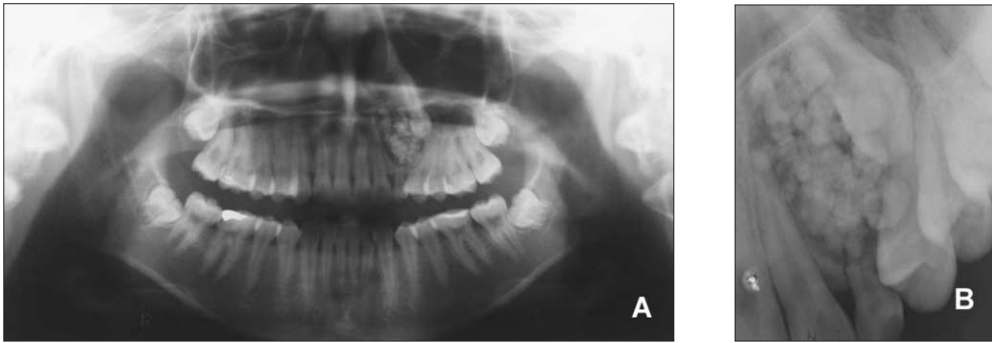


Fig. 1. A, Panoramic radiograph at initial presentation. Note the well circumscribed zone of the irregular radiopacity in left maxilla. B, Preoperative periapical radiograph; The lesion has distally-superiorly displaced canine of left maxilla and scattered calcified material.



Fig. 2. A, Exposed canine after tumor excision. B, Excised tumor mass was consisted of various calcified material covered by soft tissue. C, Wire application for forced eruption of the left maxillary canine.

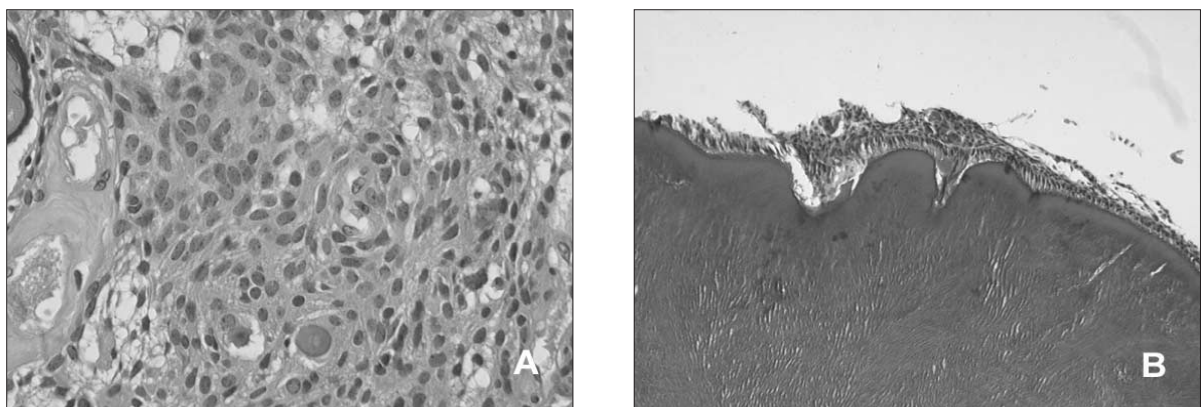


Fig. 3. A and B, Mass is consisted of loose fibrous connective tissue and dentigerous hard tissue.

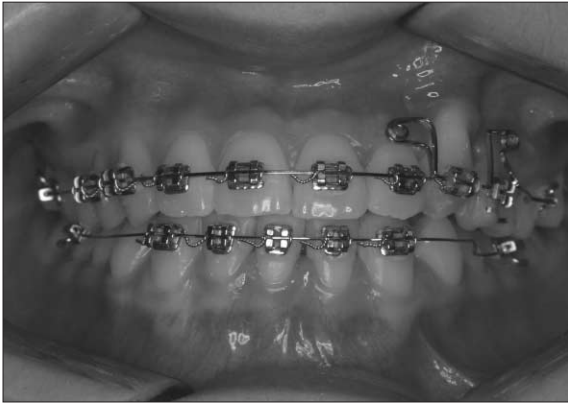


Fig. 4. Left maxillary canine is placed at the occlusal level.



Fig. 5. No recurrence sign at the postoperative 20months panoramic radiograph.



Fig. 6. Root coverage of the left maxillary canine using free gingival graft. (postoperative 30months)

교정적 정출을 위한 와이어를 부착하였다(Fig. 2).

Hematoxylin과 eosin으로 염색한 절편의 저배율상 광학 현미경 검사에서 법랑질과 상아질 기질의 산재와 함께 섬유성 결합조직으로 둘러싸인 치성 상피의 띠 혹은 섬을 관찰할 수 있었다. 고배율상에서는 이 치성상피들이 원주 혹은 입방형의 모양을 가지고 있었다. 이를 통해 법랑아세포성 섬유-치아종으로 최종 진단하였다(Fig. 3).

매복되었던 좌측 상악 견치는 교정적 정출을 통해 인접치 교합면 수준에 도달하였으며(Fig. 4, 5), 낭종 제거 6개월 후 시행한 전기치수반음 검사에서 양성을 보였다. 그러나 정출된 견치의 치근이 노출되고 견치와 제1소구치 사이의 gingival cleft가 발생해 심미성 개선을 위한 subepithelial connective tissue graft를 시행하였다(Fig. 6). 이후 별다른 합병증은 관찰되지 않았으며, 34개월이 지난 2006년 6월 현재까지 재발 소견은 보이지 않고 있다.

III. 총괄 및 고찰

법랑아세포성 섬유-치아종은 치아 발생기에 관찰되는 상피성 조직과 간엽성 조직성분이 혼재하는 드문 혼합 치성 종양이다. 이 병소의 조직발생은 명확하지 않다. Gardner는 혼합 치성 종양을 서로 다른 것으로 분류하고 있지만⁴⁾, Regezi와 Sciubba는 법랑아세포성 섬유-치아종이 법랑아세포성 섬유종에서 파생된 것으로 생각한다⁵⁾. Slootweg 등은 나이, 성별, 발생 부위 등을 고려한 자료를 바탕으로 법랑아세포 섬유종은 미성숙한 복합 치아종이라고 하였다⁶⁾. 또한 Philipsen 등은 조직발생학적 관점에서 치성종양을 neoplastic line과 hamartomatous line으로 구분하고, 법랑아세포성 섬유종과 법랑아세포성 섬유-상아종은 neoplastic line에 속하는 반면, 법랑아세포성 섬유-치아종은 hamartomatous line에 해당한다고 하였다⁷⁾.

법랑아세포성 섬유-치아종은 양성 종양으로 국소적 침윤이나 재발의 가능성이 낮기 때문에, 대부분의 경우 적출술만으로 충분하다. 하지만, 인접한 치아가 병소로 인해 맹출에 방해를 받는 경우가 많이 있으며, 병소와 함께 인접한 매복 영구치를 제거하는 것이 보통이다. 실제로, Furst 등이 병소에 포함된 치배를 발거하지 않고 병소만을 제거하여 재발한 증례를 보고하였으며, 이 증례에서 그는 관련된 치배를 남겨두어 신생물성 조직의 완전한 적출이 이루어 지지 않았고, 이로 인해 병소가 재발하였다고 하였다⁸⁾. 그러나 Friedrich는 종양을 적출하면서 동시에 종양에 포함된 치배를 제거 하였음에도 불구하고 수술 18개월 후 재발한 증례를 보고하였다. 그는 특히 병소의 크기가 크다면 관련된 치아의 보존 여부에 상관없이 절제된 변연에 종양의 잔여물이 계속 잔존하여 국소적인 재발이 이루어질 수 있으며, 따라서 주의 깊은 예후관찰이 중요하다고 하였다⁹⁾. Masaya는 매복치를 발거하지 않고 법랑아세포 섬유-치아종을 치료한 두 증례를 보고하였다. 그는 두 증례에서 종양의 재발 없이 매복된 영구치가 교합 수준까지 맹출하였으며, 절개생검 시행 8개월 후(매복치의 맹출을 유도한 후) 병소를

완전히 제거하여 재시행한 병변에서도 악성변이는 관찰되지 않았다고 하였다¹⁰. 본 증례의 경우 협측 피질골의 천공이 있었지만 병소의 피막이 잘 형성되어 있었고 매복치와의 분리가 용이하였으므로 매복치를 발거하지 않고 종양만을 적출하였다.

조직학적으로 법랑아세포 섬유-치아종은 법랑아세포 섬유종과 같이 원주 혹은 입방상피들이 섬 또는 띠 모양으로 산재되어 있으며, 동시에 치판이나 법랑 기질 등의 치아 경조직 성분을 포함하여 치아종의 양상을 띠게 된다¹¹. 법랑아세포 섬유-치아종은 방사선학적 소견상 혼합 치성 종양인 치아종뿐 아니라 상피성 치성 종양인 선양치성 종양(AOT), 법랑아세포 치아종, 석회화 치성 낭종(COC), 석회화 상피성 치성 종양(CEOT) 등과 흡사하다¹². 처음 언급한 네 가지의 병소는 20세 이하에서 호발하는 반면, 석회화 치성 낭종과 석회화 상피성 치성 종양은 노인 환자에서 흔히 발병한다¹³. 이 병소들은 모두 임상적으로나 방사선학적으로 유사한 특징을 갖지만, 치료는 두 그룹으로 나누어 생각해야 한다. 법랑아세포 섬유-치아종이나 치아종, 선양치성 종양, 석회화 치성 낭종은 단순한 소파술이나 적출술에도 낮은 재발율을 보이지만, 법랑아세포 치아종과 석회화 상피성 치성 종양은 법랑아세포종과 유사한 생물학적 특성을 보이기 때문에 좀 더 광범위한 절제와 장기간의 예후관찰이 필요하다.

IV. 결 론

법랑아세포 섬유-치아종은 다른 혼합성 치성 종양이나 상피성 치성 종양들과 조직학적 검사를 통해서만 감별할 수가 있다. 따라서 조직학적 생검을 통한 확진으로 공격적인 치료를 요하는 병소들과 감별하여 불필요하게 광범위한 외과적 절제술을 피하고, 병소와 관련된 매복치가 존재하는 경우 병소와의 분리가 용이하다면 교정적 정출과 주기적 관찰을 시행하는

것이 좋으리라 사료된다.

이에 본 교실에서는 상악 전치부에 발생한 매복치를 동반한 법랑아세포 섬유-치아종의 증례에서 매복치를 발거하지 않고 교정적 정출을 시도하여 양호한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Slootweg PJ: An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors-ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and the odontomas. *Oral Surg* 1981;51:266-76.
2. Hooker SP: Ameloblastic odontoma: an analysis of 26 cases. *J Oral Surg* 1967;24:375.
3. Daley TD, Wysocki GP, Pringle GA: Relative incidence of odontogenic tumours and oral jaw cysts in a Canadian population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;77:276-80.
4. Gardner DG: The mixed odontogenic tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984;57(4):395-7.
5. Regezi Ja, Sciubba JJ: *Oral Pathology: Clinical-Pathologic Correlation*. Philadelphia, P.A.Saunders. 1989.
6. Slootweg PJ: Epithelio-mesenchymal morphology in ameloblastic fibro-odontoma; a light and electron microscopic study. *J Oral Pathol* 1980;9:29-40.
7. Philipsen HP: Mixed odontogenic tumours and odontomas. Considerations on interrelationship. Review of the literature and presentation of 134 new cases of odontomas. *Oral Onco Eur J Cancer* 1997;33B:86-99.
8. Ian Furst: Recurrence of an ameloblastic fibro-odontoma in a 9-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 1999;57:620-3.
9. Reinhard E: Recurrent ameloblastic fibro-odontoma in a 10-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 2001;59:1362-6.
10. Masaya Okura, Hirokazu Nakahara, Tokuzo Matsuya: Treatment of ameloblastic fibro-odontoma without removal of the associated impacted permanent tooth. *J Oral Maxillofac Surg* 1992;50:1094-7.
11. 이상철, 김여갑, 류동목, 최진용: 하악골에 발생된 법랑아세포성 섬유치아종에 대한 연구. *대구외지* 1989;15(1):69-74.
12. Wood NK: *Differential diagnosis of oral lesions* 2nd ed. Toronto, C.V.Mosby Co. 1980.
13. Shafer WG: *A textbook of oral pathology* 3rd ed. Philadelphia, W.B.Saunders Co. 1974.