

안면 비대칭을 동반한 선양양치성종 1예

경북대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실

박지혜 · 김정수 · 허성재

A Case of Adenomatoid Odontogenic Tumor Causing Facial Asymmetry

Ji Hye Park, MD, Jung Soo Kim, MD and Sung Jae Heo, MD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, Kyungpook National University, Daegu, Korea

— ABSTRACT —

Adenomatoid odontogenic tumor is an uncommon benign odontogenic tumor, most often associated with an unerupted maxillary canine. The tumor is usually asymptomatic due to its slow growth. However, since facial deformities can result from the tumor, early detection and treatment are necessary. A 9-year-old girl visited our department due to an incidental finding of a maxillary mass during a brain magnetic resonance imaging examination. The right maxilla of the patient was protruded and facial asymmetry had developed. The mass was excised via the canine fossa approach and diagnosed as an adenomatoid odontogenic tumor. We report this rare case along with a literature review. (J Clinical Otolaryngol 2017;28:256-260)

KEY WORDS : Odontogenic tumor · Adenoameloblastoma · Maxilla · Facial asymmetry.

서 론

선양치성종양(Adenomatoid odontogenic tumor)은 상피 기원의 매우 드문 종양으로 전체 치성 종양의 약 3%를 차지한다.¹⁾ 조직학적으로 법랑아세포종의 변이로 간주되어 오랜 기간 선양법랑아세포종 등으로 명명되다가, Philipsen과 Birn이 선양치성종양의 용어를 제안하였고 1971년 WHO에서 그 용어를 채택한 후부터 널리 사용되고 있다.^{2,3)} 선양치성종양은 20세 전후의 젊은 여성에

서 흔히 발생하고 30세 이상에서는 드물며, 하악에 비해 상악에서 두 배 정도 호발한다.³⁾ 대개 상악의 미맹출 견치와 관련되어 임상적으로 함치성 낭종으로 오인되는 경우가 많다.^{3,4,11)}

선양치성종양은 대부분 치과에서 발견하여 보고하고 있고, 이비인후과에서의 보고는 극히 드물다. 국내에서도 지금까지 1예만이 이비인후과에서 보고되었다.⁵⁾ 그 이유로 치과에서 방사선 검사를 흔히 시행하고, 치아와 상악 골을 자세히 확인하기 때문에 발견 빈도가 높은 것으로 생각된다. 이비인후과에서도 부비동염의 확인을 위해 단순 부비동 영상 검사를 비교적 자주 시행하지만, 치아 주변부를 주의 깊게 관찰하지 않으면 치성종양을 단순 상악동 낭종 및 폴립으로 오인하거나 놓치기 쉽다. 저자들은 부비동염 및 골연령을 확인하기 위해 단순 두개 촬영을 몇 차례 시행했지만 발견하지 못한, 안면변형이 동반된 상악의 선양치성종양 1예를 문헌고찰과 함께 보고하

논문접수일 : 2017년 8월 29일

논문수정일 : 2017년 10월 31일

심사완료일 : 2017년 11월 24일

교신저자 : 허성재, 41404 대구광역시 북구 호국로 807
경북대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실
전화 : (053) 200-5777 · 전송 : (053) 200-2027

E-mail : blueskyhsj@hanmail.net

는 바이다.

증 례

여자 9세 환자가 성조숙증 의심 하에 소아청소년과에 내원하여 시행한 뇌 자기공명영상검사상 우측 상악에 종물이 발견되어 본과로 의뢰되었다. 환자는 평소 잦은 코막힘으로 이비인후과의원에서 치료한 것 외에는 과거력과 가족력에서 특이소견은 없었다. 내원 당시 시행한 비내시경 검사에서 비강 외측벽이 비강 쪽으로 밀려나 비강이 전체적으로 좁아진 소견을 보였다(Fig. 1A). 외관상 환자와 보호자는 인지하지 못하고 있었으나 우측 협부가 좌측이 비해 돌출되어 있었고 외비공 또한 우측이 좌측에 높은 안면 비대칭이 관찰되었다(Fig. 1B).

뇌 자기공명영상검사상에서 관찰된 종물은 우측 상악의 내측, 전방, 하방에 위치했으며 3.0×2.6 cm 크기로, 피막에 싸여서 주변과 경계가 뚜렷한 모습이었다. 종물은 우측 뺨을 돌출시키고 우측 비강 외측벽을 내측으로 전위시켰다. T1 gadolinium 강조영상에서 비균질한 고강도의 신호를 보였고, 미맹출치로 보이는 1.6×0.7 cm 크기의 매끈한 표면의 저강도의 음영도 관찰되었다(Fig. 2). 수술 전 시행한 전산화단층촬영검사에서는 원형의 종물이

2~3 mm의 골로 둘러싸여있고, 내부에는 연조직 음영바탕에 가장자리에는 모래를 뿌려놓은 듯한 양상의 석회화 음영이 관찰되었으며, 후상방에는 치아로 보이는 강한 석회화 음영이 있었다.

수술은 전신마취 하에 진행되었고, 잇몸-볼 주름에 절개를 가하여 우측 윗잇몸으로 접근하여 연조직을 박리한 후 노출된 상악골 일부를 제거하였다. 종물의 바깥쪽에 있는 흰색 피막이 관찰되어 절개를 시행하니 노란색의 투명한 액체가 배액되었으며, 내부에는 치아로 보이는 흰색 물질이 관찰되었고(Fig. 3) 그 주위에는 종양으로 보이는 연조직 물질이 있어 일부 제거 후 동결절편 조직검사를 시행하였다. 동결절편 조직검사 결과 비정형 세포는 관찰되지 않고 치성 종양으로 보이지만 정확한 진단을 위해서는 추가 검사가 필요하다고 하였다. 종물의 피막 및 내부 물질을 모두 제거하고 배액을 위해 종물을 둘러싸고 있는 골의 일부를 제거하여 하비도와 연결시키고 수술을 종료하였다.

최종 병리조직검사상 hematoxylin-eosin 염색에서 호산구를 포함하는 경계가 좋은 입방상피와 원주상피의 핵이 중심부에서 바깥 방향으로 극화되는 장미꽃 모양 또는 관상구조가 관찰되어 선양치성종양으로 진단되었다(Fig. 4). 환자는 특별한 불편감이나 합병증 없이 수술

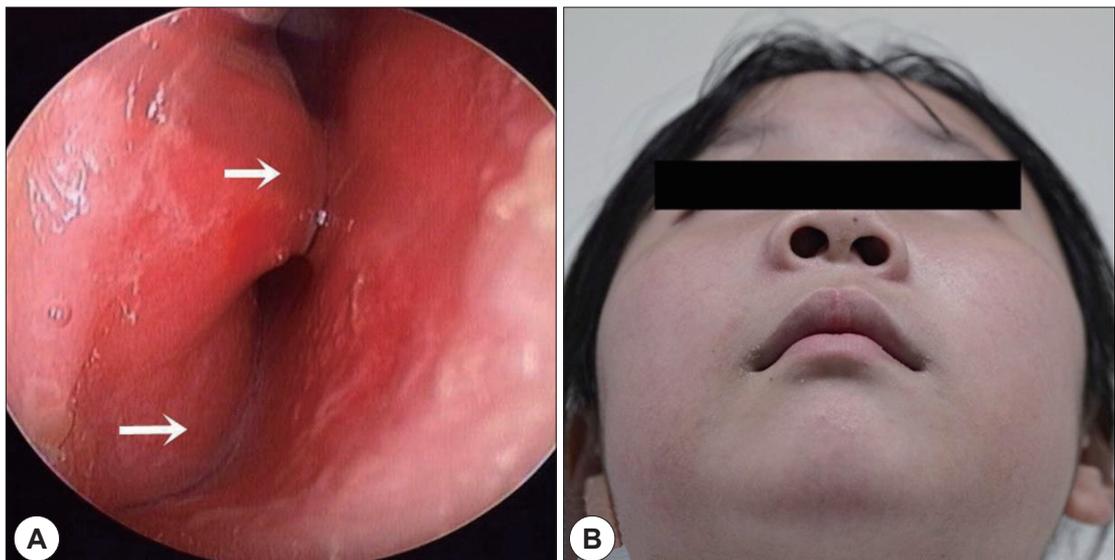


Fig. 1. Preoperative findings. A : Nasoendoscopy shows narrow right nasal cavity due to medialization of lateral nasal wall (white arrow). B : Right cheek is protruded and right nostril is elevated.

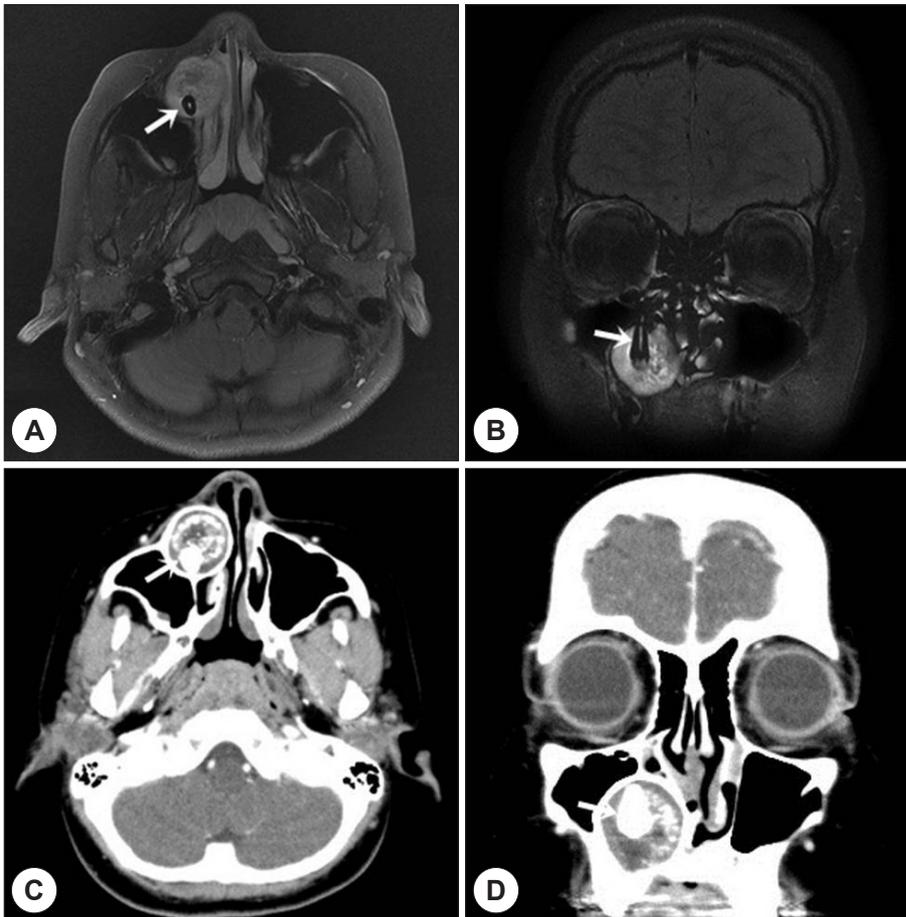


Fig. 2. Gadolinium enhanced T2-weighted magnetic resonance imaging demonstrates well-demarcated, heterogeneous hyperintense mass and hypointense tooth (white arrow) located inside the mass (A, B). Computed tomography scans show that the mass is surrounded by bony wall, and tooth (white arrow) and scattered calcific densities are seen inside the mass (C, D).

2일후 퇴원하였고, 수술 1주일 후 외래 방문하여 하비도의 딱지를 제거하였다. 수술 1개월 후 수술 부위는 잘 치유되었고, 41개월 동안 재발 없이 추적관찰 중이다.

고 찰

선양치성종양은 임상양상과 영상학적 소견에 따라 골내에 위치한 중심형과 골밖에 위치한 말초형으로 분류되며, 중심형은 미맹출치와 연관된 소포형과 관련이 없는 소포외형으로 나누어진다.⁶⁾ 중심형이 전체의 97%로 대부분을 차지하며, 그 중 소포형이 73%로 가장 흔하다.

임상적으로 양성이며 비침습적으로 속도는 느리지만

점진적인 성장을 하는 것으로 알려져 있는데, 실제 83.6%의 환자가 무통성 종물을 주소로 내원하고 4.5%는 방사선검사에서 우연히 발견되었다.^{2,3)} 본 증례에서도 환자는 코막힘 외의 증상은 없었고 환자와 보호자가 안면변형을 인지하지 못하였는데, 이는 종양의 성장이 느리기 때문으로 보인다.

방사선 검사상 소포형 선양치성종양은 함치성 낭종과 유사하게 미맹출치의 치관으로 둘러싸여 경계가 뚜렷한 단방성의 방사선 투과성 종물 소견을 보인다.^{3,7)} 이로 인해 선양치성종양의 약 77%가 수술 전에 함치성 낭종으로 오인되고, 본 증례에서도 수술 전 시행한 뇌 자기공명영상에서 함치성 낭종으로 의심되었다. 치아의 백악법랑

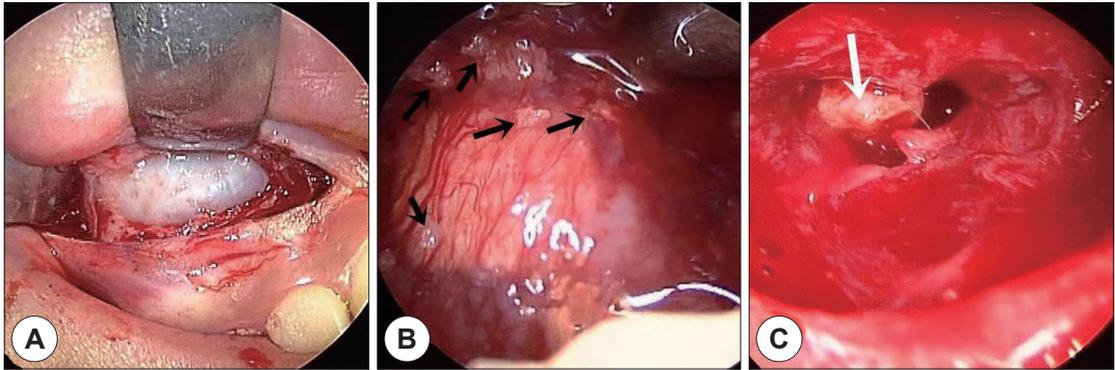


Fig. 3. Intraoperative findings. A : After the removal of bony wall of the mass, white capsule is observed. B : The tumorous soft tissues and focal multiple calcific materials (black arrow) are seen in the margin of the mass. C : Unerupted tooth (white arrow) and surrounding soft tissue are seen inside of the mass.

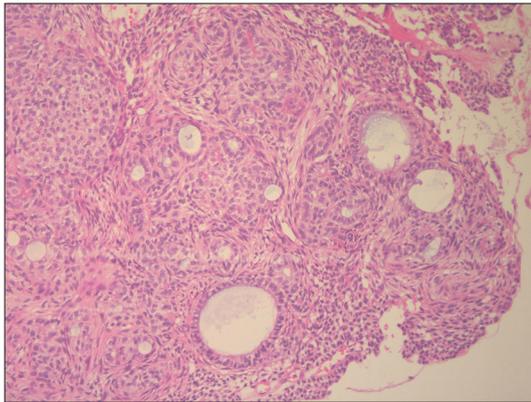


Fig. 4. Microscopic finding shows several duck-like structures lined by a single row of columnar epithelial cells forming nests of rosette-like structures (hematoxylin-eosin stain $\times 200$).

질 경계를 침범하지 않는 함치성 낭종과는 달리 선양치성종양의 대부분에서는 치관 및 치근을 침범하는 소견을 보이는데, 이는 두 질환을 감별 할 수 있는 특징적인 소견이다.^{8,9)} 선양치성종양은 미맹출치와 석회화를 흔히 보이는데 이는 다른 질환들을 감별하기 좋은 소견이다. 미맹출치가 보일 수 있는 함치성 낭종과 법랑아세포종에서는 석회화 소견이 흔하지 않고, 석회화 소견을 보일 수 있는 석회화 치성 낭종, 법랑아세포성 섬유치아종은 매복치아와 관계가 없다.¹⁰⁾

치료는 대부분 경계가 분명하고 재발이 드물기 때문에 보존적 적출술 혹은 소파술로 충분한 것으로 알려져 있다.²⁾ 그러나 드물게 재발에 대한 보고가 있어 추적 관찰

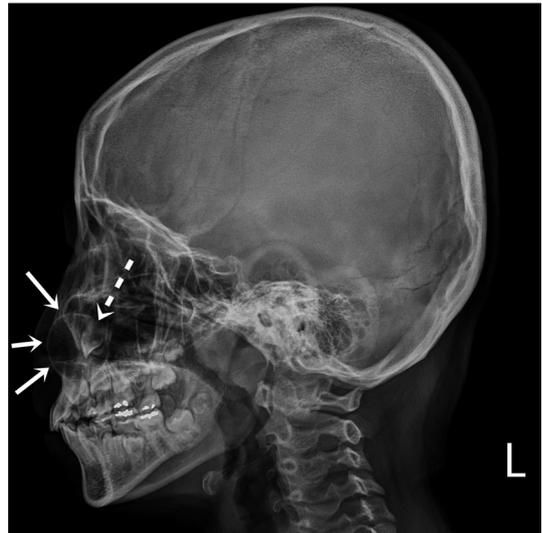


Fig. 5. Simple skull X-ray image shows a well-defined, round radiolucent lesion (white full line arrow) and unerupted tooth (white dotted line arrow).

이 필요하다. 본 증례의 경우 어린 나이로 비강이 좁기 때문에 잇몸 절개를 통해서 병변을 제거하였으나, 종물이 크지 않고 비강내 공간이 확보된다면 비강내로 접근하여 하비도 개창술을 통한 제거도 가능할 것으로 생각된다. 하지만, 이비인후과에서 치료한 보고가 국내외에 극히 드물고 비강내 접근법으로 치료한 보고가 없어 추가적 연구가 필요할 것으로 보인다.

선양치성종양은 드물게 발생하고 성장 속도가 느리지만 치료가 늦어지면 안면변형을 일으킬 수 있으므로, 조

기 진단 및 적극적인 치료가 필요하다. 하지만, 본 증례의 경우 뇌 자기공명영상검사를 시행 전에 이비인후과의원에서 두 차례 이상 단순 부비동 영상 검사를 시행했으나 의료진에 의해 발견되지 못하였다. 또한, 골 연령을 알기 위해 소아청소년과에서 시행한 측면 두부 사진에서 종물과 미맹출 치아의 음영이 관찰되지만(Fig. 5), 영상의학과에서 정상으로 판독하였고 소아청소년과에서도 선양치성 종양을 발견하지 못하였다. 단순 부비동 영상 검사는 이비인후과에서 흔히 시행하므로 의료진이 주의 깊게 영상을 확인한다면 치성 낭종이나 종양을 좀더 많은 환자를 조기에 발견해서 치료할 수 있을 것이다. 몇몇 치성 질환들은 내시경적 비내 접근을 통한 수술이 가능하고, 수술 후 외래에서 내시경을 통한 추적관찰이 용이하므로 이비인후과에서 좀더 관심을 가질 필요가 있다고 생각된다.

중심 단어 : 치성 종양 · 선법랑아세포종 · 상악 · 안면 비대칭.

REFERENCES

- 1) Prakasam M, Tiwari S, Satpathy M, Banda VR. *Adenomatoid odontogenic tumour*. *BMJ Case Rep* 2013;27:1-3.
- 2) Philipsen HP, Reichart PA. *Adenomatoid odontogenic tumour: facts and figures*. *Oral Oncol* 1999;35(2):125-31.
- 3) Swasdison S, Dhanuthai K, Jaikittivong A, Philipsen HP. *Adenomatoid odontogenic tumors: an analysis of 67 cases in a Thai population*. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008;105(2):210-5.
- 4) Lee SK, Kim YS. *Current concepts and occurrence of epithelial odontogenic tumors: I. Ameloblastoma and adenomatoid odontogenic tumor*. *Korean J Pathol* 2013;47(3):191-202.
- 5) Yang YJ, Kim YB, Yoo SH, Park MS. *A case of adenomatoid odontogenic tumor*. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2001;44(12):1337-41.
- 6) Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. *Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases*. *J Oral Pathol Med* 1991;20(4):149-58.
- 7) Philipsen HP, Birn H. *The adenomatoid odontogenic tumour. Ameloblastic adenomatoid tumour or adeno-ameloblastoma*. *Acta Pathol Microbiol Scand* 1969;75(3):375-98.
- 8) Neville BW. *Update on current trends in oral and maxillofacial pathology*. *Head Neck Pathol* 2007;1(1):75-80.
- 9) Hwang SJ, Lee HM, Kim DH, Lee DJ, Lee JH, Choi JH, et al. *Dentigerous cyst involving the maxillary sinus*. *J Rhinol* 2001;8(1,2):54-7.
- 10) Lee WY, Min JY, Kim HY. *A case of ameloblastoma in the maxilla*. *J Rhinol* 2011;18:78-82.
- 11) Kwon HS, Park IH, Choi CJ, Lee HC, Kim TH, Lee SM, et al. *Dentigerous cysts involving maxillary sinus*. *J Clinical Otolaryngol* 2009;20(2):214-8.