

## 상악골에 발생한 법랑아세포종의 임상적 연구

이중호 · 서제덕 · 이은진 · 명 훈 · 황순정 · 최진영 · 정필훈 · 김명진

서울대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

**Abstract** (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2002;28:348-352)

### AMELOBLASTOMA OF THE MAXILLA: CLINICAL STUDY

Jong-Ho Lee, Je-Duck Suh, Eun-Jin Lee, Hoon Myoung, Soon-Jung Hwang, Jin-Young Choi,

Pill-Hoon Chung, Myung-Jin Kim

*Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Seoul National University*

Ameloblastoma of the maxilla is an unusual epithelial tumor of odontogenic origin. According to many authors and reports, ameloblastoma account for approximately 1% of all tumors of the jaws, but when pseudo-tumors and cysts are excluded, the ratio rises to 11%. Of these tumors, 80% originate in the mandible, while 20% originate in the maxilla. Although it is considered benign histopathologically, it can behave in a slowly growing infiltrative fashion, with multiple recurrences and eventual intracranial, or even distant, spread.

We clinically analyzed common site in maxilla, radiographic findings, recurrence rate, duration between treatment and recurrence, the presence and site of distant metastasis in 15 patients who were diagnosed as ameloblastoma of the maxilla and took treatments from 1985 to 1999 in Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery, Dental Hospital, Seoul National University.

In this paper, treatment outcomes and our clinical experiences of maxillary ameloblastoma are reported with review of literatures.

## I. 서 론

법랑아세포종은 양성 치성 종양으로 악골에 발생하는 모든 낭종과 종양 중 1%를 차지하며 위성종양과 낭종을 제외하면 그 발생빈도가 11%로 증가하고 하악에서 약 80% 정도, 상악에서 약 20% 정도 발생한다고 보고되고 있다<sup>1-6)</sup>. 양성종양의 조직학적인 특성에도 불구하고 적절히 치료하지 않는 경우 높은 재발과 주변 조직으로의 침습 경향을 갖는다.

법랑아세포종은 임상적으로 크게 단방성(unicystic), 다방성(multicystic 또는 solid), 주변성(peripheral), 악성(malignant) 법랑아세포종으로 분류된다. 단방성 법랑아세포종은 법랑아세포종의 조직학적 특성을 가지며 내강(lumen) 또는 결합 조직내로 상피증식을 보이는 낭종성 병소를 말한다. 이는 흔히 하악에서 20대에 호발하며 다방성 법랑아세포종보다는 예후가 좋다. 그러므로 보존적인 치료로도 충분히 효과적이다. 주변성

(peripheral) 법랑아세포종은 치아를 덮는 악골부의 연조직에서 발생한 골내 법랑아세포종의 조직소견을 보이는 치성종양을 말하며 구강점막상피에서 기시한다는 점이 골내 법랑아세포종과는 다르다. 악성(malignant) 법랑아세포종은 원발부와 동일한 조직소견을 보이며 원격전이를 보이는 병소를 말한다.

저자들은 상악골에 발생한 법랑아세포종으로 진단된 15명의 환자에서 연령 및 성별, 발생부위, 각 조직학적인 분류, 1차수술의 종류, 수술 종류에 따른 재발정도, 재발로 판정될 때까지의 시간 등에 대해 살펴보았다.

## II. 환자 및 방법

1985년도부터 1999년까지 서울대학교 치과병원 구강악안면외과에 내원하여 조직생검결과 상악골에 발생한 법랑아세포종으로 진단된 15명의 환자를 대상으로 후향적인 연구를 시행하여 자료를 얻었으며, 이들을 연령, 성별, 발생부위, 1차수술의 종류, 1차수술후 재발소견을 보일 때까지의 시간, 임상소견, 재발후 수술종류, 조직학적 소견 등에 따라 분류 조사하고 이들간의 연관성에 대하여 고찰하였다. 각 증례에 대한 정보는 의무기록, 방사선사진(Panorama, Water's view, CT) (Fig. 1, 2) 등을 통해 수집하였으며 외래 정기적인 내원이 이루어지지 않았던 환자들 의 경우 전화를 이용하여 정보를 수집하였다.

### 서 제 덕

110-744, 서울특별시 종로구 연건동 28-2  
서울대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

### Je-Duck Suh

Dept. of OMF, College of Dentistry, Seoul National Univ.  
28-2 Yeongun-Dong, Chongro-Ku, 110-744 Seoul, Korea  
Tel : 82-2-760-2630, 2631 Fax : 82-2-766-4948

“본 연구는 2002년도 보건복지부 보건의료기술 개발사업 중점공동연구지원비(02-PJ1-PG1-CH07-0001)의 지원을 일부 받았음”

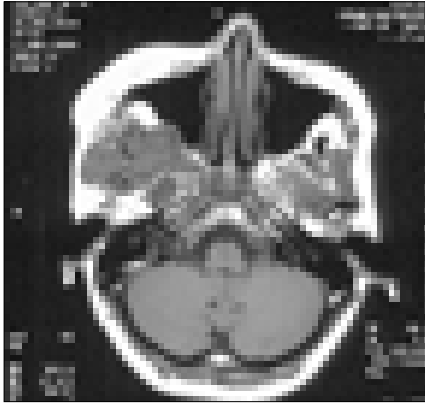


Fig. 1. Invasion of ameloblastoma into the skull base (coronal view)

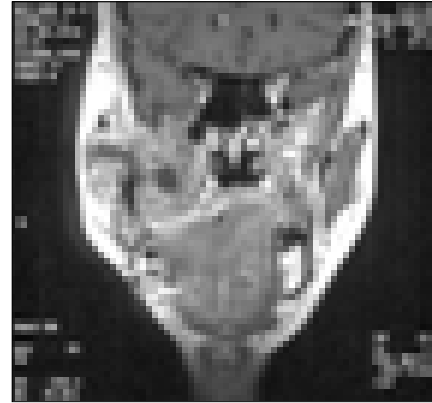


Fig. 2. Ameloblastoma occupying infratemporal fossa

### Ⅲ. 결 과

#### 1. 초진시 연령 및 성별

총 15 증례 중 남자가 10명, 여자가 5명으로 남자에서 2 : 1의 비율로 호발하였으며, 연령분포는 13세에서 63세까지로 평균연령이 45.2 세였고, 50대에서 31.5%로 가장 빈발하였다(Table 1).

#### 2. 발생부위

상악골에서 범랑아세포종이 호발하는 부위를 파악하기 위해 상악을 크게 견치에서 견치까지의 전치부, 소구치부, 구치부 등 세 부위로 분류하였다. 결과 상악 구치부에 8 증례가 발생하였으며, 기타 부위와 동시에 이환된 증례를 포함하면 10 증례에서 발생한 것으로 나타나 상악 구치부가 범랑아세포종이 가장 호발하는 부위로 확인되었다(Table 2).

#### 3. 조직학적 분류

조직학적인 분류시 방법은 WHO에서 제정한 분류법에 기초하여 분류하였고, 수술당시의 병리조직학적인 보고서를 참조하고

Table 1. 연령별 분포

	증례수	%
20대 미만	1	6.8
21세~30세	2	13.3
31세~40세	2	13.3
41세~50세	3	20.0
51세~60세	5	33.3
60세 이상	2	13.3

Table 2. 발생부위별 분포

	증례수	%
전치부 (견치~견치)	2	13.3
전치부, 소구치부	3	20.0
구치부	8	53.4
전치부, 소구치부, 대구치부	2	13.3

Table 3. 조직학적 분류

	증례수	%
Solid type	Acantomatous type	2 13.3
	Plexiform type	3 20.0
	Follicular type	4 26.7
	Desmoplastic type	3 20.0
Unicystic type	2	13.3
Atypical type	1	6.7

본원 구강병리과에 근무하는 구강병리과 의사와 당시의 조직표본들을 다시 고찰해보았다. 결과 acantomatous type 2 증례, plexiform type 3 증례, desmoplastic type 3 증례, follicular type 4 증례, unicystic type 2 증례, 그리고 상기의 기준으로 분류할 수 없는 1 증례 등의 결과를 보여 여러 형태가 비교적 균일하게 발생했던 것으로 나타났다(Table 3).

#### 4. 일차수술방법 및 재발

외과적인 수술이 본 연구에서의 모든 환자들에게 있어서 일차적인 처치방법으로 선택되었다. 수술방법은 각 환자의 의무기록에 보관되어있는 수술기록부를 참고하였고, 크게 보존적인 방법-적출술, 소파술-과 근치적인 방법-부분 상악골 절제술-으로 분류하였다.

본과에서 보존적인 수술방법을 일차수술방법으로 선택했던 8명 중 7명(87.5%)이 국소적인 재발소견을 보였으나, 근치적인 수술방법을 선택했던 7명의 경우는 이후 계속된 검진상 재발 소견을 보이지 않은 것으로 나타났다. 본 연구대상 중 1명은 본 연구대상기간 이전인 82년도와 84년도에 치근단낭종 진단하에 낭종적출술을 시행받았으나 이후 88년도에 재발 소견을 보여 부분 상악골절제술을 시행한 결과 법랑아세포종으로 진단되었고, 다

른 1명은 76년도에 타병원에서 법랑아세포종 진단하에 종괴적출술을 시행한후 재발로 진단되어 본과에서 부분상악골절제술을 시행하였으며, 또 다른 1명도 79년도에 법랑아세포종 진단하에 종괴적출술을 시행받고 88년도 재발의 소견이 나타나 적출술을 시행하였다. 이 3 증례의 경우에 있어서 최종적인 수술후 특이한 재발소견을 보이지 않았던 것으로 나타났다(Table 4).

위 언급된 바와 같이 연구대상으로 설정된 기간동안 과거에 시행되거나 타병원에서 일차수술이 시행된 경우가 있었지만 정기적인 추적 검사중 재발을 보였던 7명의 경우에 있어서 초진부터 이후 재발로 진단된 때까지의 시간은 일차수술후 2개월에서 12년 1개월까지로 매우 다양한 결과를 나타내었던 것으로 나타났다(Table 5).

### IV. 고 찰

법랑아세포종은 상악골내에서 구치부에서 약 47%정도로 가장 호발하는 것으로 알려져 있으며, 그외 상악동과 비강저에서 약 15%, 소구치부에서 약 9%, 전치부 약9%, 구개부에서 약 2% 정도로 발생한다고 보고되고 있다<sup>7-9)</sup>. 조기에 상악동, 익돌상악열, 측두하와, 비강으로 확장될 수 있으며 두개내나 안외부로의 침습도 발생할 수 있다<sup>8)</sup>.

주로 골 내 병소로 발생하는 관계로 조기에 이를 파악하는 것은 매우 어려우며 발생시부터 치료까지의 시간적 차이는 수년 이상 매우 지연되게 된다. 대표적으로 환자들은 동통을 동반하거나 동반하지 않는 부종으로 인해 내원하게 되며 이러한 부종은 상악에서는 비강부의 폐쇄나 특정 안면부의 부종의 형태로 나타나게 된다. Sehdev 등<sup>10)</sup>에 따르면 상악 특정부-협부 치은, 구개부-의 부종은 일차처치를 받기전 환자들 중 약 95% 정도에서 나타나는 주소이며 비강부 폐쇄는 일차처치를 받은 병력이 있는 환자들에

**Table 4.** 일차수술방법별 재발율

	증례수	재발증례수	재발율(%)
Conservative treatment	8	7	87.5
Radical treatment	7	0	0

**Table 5.** 각 환자별 일차수술방법별 재발여부

	성별	초진시 연령	부위	분류	일차수술방법	재발여부
1	남	53	우측구치부, 소구치부, 전치부	Acantomatous	EnBloc resection	×
2	남	13	좌측구치부	Unicystic	Enucleation	×
3	여	35	좌측소구치부, 전치부	Acantomatous	Enucleation	0
4	남	45	우측구치부	Plexiform	Enucleation	0
5	여	52	좌측소구치부, 전치부	Desmoplastic	Segmental maxillectomy	0
6	남	36	우측구치부	Unicystic	Enucleation	0
7	여	43	전치부	Atypical	Simple excision	×
8	여	63	전치부	Desmoplastic	EnBloc resection	×
9	남	55	좌측소구치부, 전치부	Follicular	Segmental maxillectomy	×
10	남	57	좌측구치부	Follicular	Enucleation	0
11	남	60	우측구치부, 소구치부, 전치부	Follicular	Partial maxillectomy	×
12	여	27	우측구치부	Plexiform	Simple excision	0
13	남	61	좌측구치부	Desmoplastic	Enucleation	0
14	남	49	우측구치부	Follicular	Subtotal maxillectomy	×
15	남	27	좌측구치부	Plexiform	Partial maxillectomy	×

계 주로 보이는 주소라고 하였다.

통상적으로 방사선상에서 방사선투과성의 다방성이며 경계가 명확한 경화성 변연부를 갖는 골과괴 양상을 보이며 피질골판을 팽창시키는 양상을 볼 수 있으나, 가끔 결체직증식으로 그 변연이 모호할 수 있다. 치근이 변위되거나 흡수소견도 나타나게 된다<sup>8)</sup>. 특징적으로 follicular ameloblastoma는 주로 다방성 또는 비누거품상의 방사선 소견을, plexiform type의 경우 단방성의 방사선 소견을 보인다고 주장하는 보고도 있다<sup>11)</sup>. 범랑아세포종은 그 방사선학적인 특성이 기타 낭종들과 매우 유사한 소견을 보여 부분적인 생검을 시행하지 않고 본 처치를 시행하는 경우 단순히 보존적인 적출술로만 처치하게 되는 경우가 많게 된다.

범랑아세포종은 주로 follicular type과 plexiform type, acantomatous type, granular cell type으로 구성되며 드물게 desmoplastic, basal cell type이 나타날 수 있고, 드물게 papilliferous keratoameloblastoma나 keratoameloblastoma등도 보고되고 있다. 흔히 한 병소내에 하나 이상의 조직학적인 형태가 나타날 수 있다. 그러나 1989년 Ueno 등<sup>2)</sup>에 따르면-비록 하악에서의 조사내용이기는 하지만-Follicular type (56.8%)이 Plexiform type (32.3%)보다, 다방성 병소(60.7%)가 단방성 병소(35.0%)보다 더 많이 재발한다고 보고하면서 어느 정도의 조직학적 분류에 따른 예후 결정인자에 대한 언급을 하였다. 비록 치료방법과 관련한 예후에 대해서는 많은 보고들이 있지만 그외 많은 보고들에서 어떤 일정한 조직학적 분류와 치료에 따른 예후에 대한 자세한 언급을 찾아볼 수 없으며 오히려 이러한 조직학적 분류에 따른 범랑아세포종의 특성보다는 발생시 얼마나 적절한 방법으로 병소를 제거하느냐가 더욱 중요한 문제로 여겨진다<sup>1)</sup>.

1977년 Robinson과 Martinez<sup>12)</sup>가 처음 보고한 단방성 범랑아세포종은 본질적으로 내강 또는 결합조직내로 증식을 보이는 단방성 병소이다. 기원에 대해서는 여러가지 학설이 존재하나 대표적으로 기존에 존재하던 치성 낭종의 상피에서 기원한다는 주장과 범랑아세포종 자체가 낭성 변화를 갖는다는 주장이 있으나, Leider 등<sup>13)</sup>에 따르면 발생기전을 크게 다음의 세가지로 요약하고 있다.

1. 퇴축된 범랑질 상피세포가 범랑아세포로의 변환을 거친후 낭종성 종양으로 다시 변환한다.
2. 이장상피가 신생물로 전환된 치성 낭종에서 단방성 병소가 기시한다.
3. Solid type의 범랑아세포종이 낭종성 변화를 거쳐 단방성 범랑아세포종으로 변환한다.

단방성 범랑아세포종의 생물학적 특성은 다방성 병소에 비해 덜 공격적이다. Robinson 등<sup>12)</sup>은 20증례의 적출술을 시행한 단방성 범랑아세포종에서 25%의 재발율을 보였다고 보고하였고, Gardener 등<sup>14)</sup>은 10.7%의 재발율을, Leider 등은 18%의 재발율을 보인다고 보고하였다.

Solid(multilocular) ameloblastoma인 경우 상기한 모든 조직학적 형태를 보일 수 있으나 매우 aggressive하고 재발율

이 매우 높으며 인접조직으로 침습을 잘하며 때때로 원격전이를 할 수 있는 특성을 가지며, Abaza<sup>15)</sup>에 따르면 이를 low-grade malignant basaloid tumor로 간주해야 하며 그 처치는 근치적인 방법을 선택하여야 한다고 주장하였다. 단방성 범랑아세포종의 경우 하악에 있어서는 보존적인 처치로도 재발이 적지만 상악에 있어서는 보존적인 처치시 10-20% 이상의 재발율을 보일 수 있다고 보고되고 있다<sup>8)</sup>. Tsaknis와 Nelson<sup>16)</sup>은 상악의 경우 각 조직학적인 유형들 사이에 생물학적인 특성이나 그 예후 등에 있어서는 차이가 크게 없는 것으로 보고하였고 이러한 보고는 본 연구의 결과와 크게 다르지 않았다. 그러나 특징적으로 상악에서는 granular 또는 basal cell type의 범랑아세포종은 존재하지 않는다.

범랑아세포종의 전이는 상당히 드문 것으로 알려져 있으나 때때로 타부위로 전이하며 이를 malignant ameloblastoma라고 명명한다<sup>17)</sup>. 한때 ameloblastic carcinoma가 혼동되어 사용되었으나 ameloblastic carcinoma는 원발성 병소나 전이 병소에서 조직학적인 소견상 악성도를 보이는 경우를 말하는 것이며 malignant ameloblastoma와는 서로 다른 종류로 생각해야 한다. 상악에 발생한 범랑아세포종의 경우는 하악에 발생한 것에 비해 기타부위의 전이율이 더욱 드물지만 기타부위의 전이가 발생한 경우 외과적인 수술, 약물요법, 방사선치료 등으로 주로 치료하고 있다. 전이가 발생하는 부위는 주로 폐에 호발하며 인접 림프절이 그 다음으로 많이 호발하며 흉막과 척추, 두개골, 간, 이하선, 인접 연조직, 췌장, 신장, 소장 등에도 전이할 수 있다. 이러한 전이가 발생하는 기전으로는 종양세포가 흡인되어 기타 부위로 식립되는 경우와 혈류나 임파 등을 통해 전이하는 것이 있다. 악성 종양을 갖는 환자의 경우 골조직으로 전이가 발생할 경우 골과괴로 인해 혈중 칼슘의 농도가 빈번히 상승하지만, 범랑아세포종의 경우에 있어서는 직접적으로 골조직으로의 전이가 발생하지 않더라도 종양세포에 의해 부갑상선 호르몬과 유사한 물질-prostaglandin, vitamin D 유사물질, osteoclast-activating factor-이 생산되어 나타나는 pseudo-hyperparathyroidism에 의해 혈중 칼슘농도가 증가될 수 있다<sup>18)</sup>.

조직병리학적으로 하악골에 발생한 것과 상악골에 발생한 범랑아세포종은 크게 차이는 없다고 하지만 상악골은 하악골에 비해 피질골의 두께가 얇아 종양의 팽창을 제한하기가 어렵고 상대적으로 혈관이 풍부한 해부학적 구조를 가지며, 인접 주변조직과의 긴밀성으로 인해 방사선 사진상으로 조기에 발견하기가 어렵고 외과적인 처치시 시야 확보가 어려우며 적절한 접근이 용이하지 않다. 또한 중요 주변조직과의 긴밀성-두개저와의 접근성-으로 상악에 발생한 범랑아세포종은 외과적으로 성공적으로 치유될 수 있는 비율은 낮아진다. 보존적인 외과적 처치를 1차 수술방법으로 선택하면 안면부 변형이 적다는 장점이 있으며, 상악 견치와 견치 사이의 전방부는 인접 중요장기와 비교적 멀리 떨어져 있어 보존적인 처치를 고려할 수 있으나 범랑아세포종이 재발할 경우 그에 대한 2차적인 처치에 더 큰 어려움을 겪게 되고 2차수술후에도 불량한 예후를 보이므로 처음 발견시 적극적인 처치를

시행하는 것이 예후가 더 좋다고 보고되고 있다<sup>1)</sup>. 1993년 Marx 등<sup>19)</sup>은 34 증례의 하악골에 발생한 범랑아세포종의 변연부에 대해 조사를 하였는데 방사선상으로 나타나는 변연부에서 2.3 - 8.0 mm의 부위에서 중앙세포가 보인다고 보고하였다. 그러므로 Gardner와 Pecak<sup>20)</sup>은 임상적으로 정상소견을 보이는 인접 골조직을 1-2cm 가량 절제하고 만약 인접 연조직으로 침습한 경우 동결 조직 표본을 통한 깨끗한 변연을 확인하며 절제해 내야 한다고 하였다. 상악골 후방부에 발생한 단방성 낭종 소견을 보이는 병변은 근치적인 방법-marginal resection 또는 partial maxillectomy-을 선택하여야 한다. Scaccia 등<sup>4)</sup>은 상악골내에 재발한 경우 예후가 나빠 초기의 적극적인 상악골 절제가 합당하다고 하였다.

상악동에 발생한 경우 상악동의 측벽으로부터 충분한 거리가 있는 경우 구강내제거나 LeFort I 골절술을 이용하여 병소를 제거하며 만약 그렇지 않다면 Weber-Fergusson 절개를 통해 시야확보를 확실한 후 상악골절제술을 시행하여 병소를 제거한다. 측두하와나 익돌상악부에 발생한 경우라면 구강내 접근과 bicoronal 또는 hemicoronal로 동시에 접근하여 병소를 제거해내야 한다. Cri 등<sup>21)</sup>에 따르면 범랑아세포종을 보존적인 처치-curettage-를 시행하고 인접 골조직을 액화질소 분무기를 이용하여 처치한 후 양호한 결과를 얻었음을 보고하였다. 동결수술은 인접 골조직을 약 1-2cm 가량 비살활화시키는 효과가 있으며 이는 해부학적인 면에서 보면 보존적인 반면 적극적인 처치를 시행한 것과 같은 효과를 갖는다고 하였다<sup>9,21)</sup>.

간혹 범랑아세포종은 방사선조사에 효과가 있는 경우도 있으나 방사선에 대해 저항성을 갖는 경우가 많다. 방사선조사 후 42%에서 재발율이 보고되어 있으며, 25%에서는 육종이 발생하는 경우가 있다는 보고가 있어 방사선조사의 유용성에 대해서는 아직 회의적이라 할 수 있다<sup>5)</sup>.

술후 정기적인 검진에 대해서 아주 오랜 시간이 경과한 후에라도 재발할 수 있는 특성으로 인해 환자들에 대한 장기적인 검진이 필요하다. 대다수의 환자들은 특이한 재발의 증상을 느끼지 못하는 경우가 많으며, 술자의 입장에서도 위치적인 문제로 인한 재발 확인의 곤란 등으로 쉽게 지나치는 경우가 많게 된다. 그러나 1988년 Demeulemeester 등<sup>22)</sup>은 8년에서 29년 사이에 재발한 증례들을 보고하였고, Williams<sup>8)</sup>은 범랑아세포종 환자는 일평생 동안 정기적인 검진을 시행받아야 한다고 주장하고 있으며 본 교실의 연구결과에서도 12년 이상 경과한 후에 재발했던 증례가 있었음을 감안해본다면 1차 수술을 시행한 후 적극적으로 지속적인 검진을 통해 재발 등을 확인하여야 할 것이다.

## V. 결 론

저자들은 본 연구를 통해 몇 가지 결론을 도출해 낼 수 있었다. 우선 상악골의 범랑아세포종은 다양한 연령층에서 성별의 구별 없이 발생할 수 있으나 주로 50대 이상의 남자에게서 호발하였으며 기타 다른 부위보다는 상악골의 대구치부위에서 발생율이 높았다. 상악골에 발생한 범랑아세포종은 다양한 조직학적 특성

을 나타낼 수 있었으며. 치료로는 보존적인 단순적출술이나 소파술보다는 부분상악골절제술 등의 근본적인 방법으로 처치하고 장기간의 정기적인 검진을 시행하여야 더 나은 예후를 보장할 수 있었다.