

ADENOAMELOBLASTOMA의 一例 報告

서울大學校 齒科大學 放射線學教室

姜 佑 坤·李 祥 來

A CASE REPORT OF ADENOAMELOBLASTOMA

Wou Ghon Kang, D.D.S., Sang Rae Lee, D.D.S.

Dept. of Radiology, College of Dentistry,

Seoul National University

Abstract

Authors have observed a rare case of adenoameloblastoma in panagram and topographic occlusal film of the maxillary anterior region of 15 years old female, and obtained the following conclusions:

1. Adenoameloblastoma commonly occurred in 1st and 2nd decade of life.
2. The incidence of the lesion is higher in the female than in the male.
3. The incidence of the lesion is higher in the maxilla(especially canine region) than in the mandible.
4. The tumor is often related to an unerupted tooth.
5. The tumor resembled a dentigerous cyst but calcified bodies and clusters appeared in the cystic cavity[that shows radiopaque in the roentgenograms.

— 目 次 —

- I. 緒 論
- II. 症 例
- III. X線像 所見
- IV. 總括 및 考按
- V. 結 論
- 參考文獻

I. 緒 論

Adenoameloblastoma는 顎骨에 發生하는 上皮性 腫瘍으로서 1948年 Stafne¹⁾에 依하여 報告된 것을 嚙矢

로 하여 1950年代부터 學者들 間에 興味와 論議의 對象이 되어온 希貴한 腫瘍이다. 이의 X線像이나 臨床의 所見에서 主로 含齒性囊腫과 類似하나 病理學的으로는 그 固有의 所見을 가지며 學者들에 따라서 여러가지 이름으로 불리워졌다.

即 Cahn(1955)²⁾은 teratomatous adenoma, Oehler (1956)³⁾는 pleomorphic adenoma-like tumor, Miles(1951)⁴⁾는 cystic complex composite odontome, Lucas(1957)⁵⁾는 tumor of the enamel organ epithelium, Cina와 Dahlin⁶⁾은 ameloblastic adenomatoid tumor, Thoma(1955)⁷⁾와 Bernier(1950)⁸⁾等은 adenoameloblastoma로 命名하였다. Stafne¹⁾이 처음으로 3例의 adenoameloblastoma를 “epithelial tumors associated with developmental cyst”로서 報

告하였고 이어 Bernier와 Tiecke^{1),2)}, Miles¹⁰⁾ Oehler¹¹⁾ 등이 繼續하여 症例報告를 하였는데 이들의 報告와 現在까지 報告된 例를 綜合하여 보면 이 腫瘍은 주로 10代와 20代에서 好發하며 거의 全部가 小白齒 前方에서 發生하고 下顎보다는 下顎, 特히 上顎의 犬齒部位에서 好發하며 男子보다는 女子에서 發生率이 약간 높다고 하였으며 未萌出된 齒牙와 더불어 나타나는 例가 많아서 X線像에서 含齒性囊腫과 類似하나 이 病巢內에는 石灰化物質들이 球型 또는 無構造狀의 여러가지 形態를 나타내며 때로는 葡萄狀의 塊를 形成하여 radiopaque 하게 보인다.

外琺瑯上皮에서 由來되는 이 腫瘍은 結締組織으로 被覆되어 있고 膨脹性 成長을 하며 病理組織學的 所見에서 琺瑯芽細胞와 類似的한 上皮細胞가 發見된다. 이는 琺瑯上皮的 모든 層에서 發生될 수 있는 琺瑯芽細胞腫과 鑑別되어야 한다고 생각한다.

現在까지 世界 各國에서 文獻을 通하여 報告된 이 腫瘍은 다만 100餘例에 不過한 希貴한 것으로 最近 本院에 來院한 患者中에서 이러한 腫瘍을 發見하였기에 興味있고 價値있는 例라 思料되므로 報告하는 바이다.

II. 症 例

患者: 權○順

性別: 女子

年齡: 15歲

職業: 無

主訴: 上顎 前齒部 硬口蓋部, 唇面 齒槽骨 部位의 骨組織 膨脹 및 觸診時의 痛症.

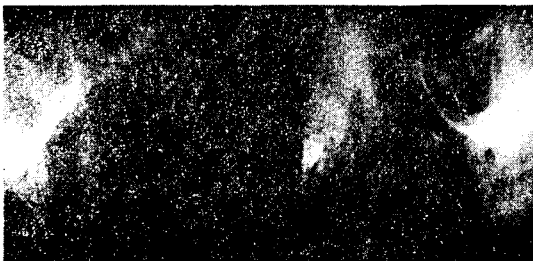


Fig. 1. Status X (panagram) of maxilla.

既往症: 約 三年 前에 上顎 左側 乳中切齒를 拔去한 後에 主訴部位의 唇側 齒槽骨 및 硬口蓋 部位의 骨組織이 漸進的으로 膨脹되었고 初期에는 自覺症狀이 없었으나 來院時에는 觸診時에 輕한 痛症을 나타내었으며 來院約 一週日 前부터 個人 齒科醫院으로 부터 抗生劑를 處方받아 經口 服用하였다.

現症:

1. 上顎 左側 中切齒가 缺損되어 있었다.
2. 上顎 左側 乳切齒가 滿期 殘存되어 있고 側切齒가 缺損되어 있었다.
3. 病巢 周圍의 骨組織이 膨脹되어 있었다.
4. 骨組織이 膨脹된 部位는 觸診時 단단하고 羊皮紙音이나 捻髮音等은 없었다.
5. 病巢部 軟組織의 炎症狀은 없었다.
6. 病巢部位의 모든 齒牙들은 生活齒로서 動搖가 없었고 打診反應이 없었다.
7. 咬合은 Angle氏 分類 第一級 狀態였다.
8. 全身의인 健康狀態는 比較的 良好한 便 이었다.

III. X線像 所見

本院 放射線科에서 上顎의 小白齒 中心 Status X와 上顎 前齒部 咬合關係를 撮影하여 判讀한 結果 다음과 같은 所見을 얻었다.



Fig. 2. Topographic occlusal view of maxillary anterior region.

The figures show adenoameloblastoma associated with an unerupted maxillary left central incisor and roentgenographic evidence of calcification within the tumor.

1. 上顎 右側 中切齒部位에서 부터 左側 犬齒 前方에 이르는 한개의 囊腫腔을 보였고 이 囊腫腔은 境界가 明瞭한 radiopaque한 線으로 둘러 싸여 있었다.
2. 埋伏된 上顎 左側 中切齒는 比較的 正常齒의 模樣을 하고 있었고 囊腫腔內에 包含되어 있는 듯한 像을 나타내고 있었다.
3. 囊腫腔 內에는 一定한 模樣을 갖지 않은 石灰物이 不規則하게 흩어져 있고 이들은 大部分 葡萄狀의 塊를 形成하여 X線像에서 radiopaque하게 나타나고 있었다.
4. 口蓋正中線은 右側으로 偏位되었고 右側 中切齒와 左側 側切齒 및 犬齒가 약간 偏位되어 있었다.
5. 病巢 周圍에서 新生骨의 形成은 찾아볼 수 없었다.
6. 囊腫腔 內의 骨標는 消失되어 있었다 (Fig. 1, 2 參照).

處置는 本院 口腔外科에서 腫瘍物 摘出術로 外科의 處로 除去하였다.

IV. 總括 및 考按

外胚層上皮細胞에서 부터 發生되는 이 adenoameloblastoma는 1948年 Stafne¹⁵⁾이 처음으로 “Epithelial tumors associated with developmental cyst”로서 三例를 報告한 것은 嚙欠로 하여 Miles¹⁰⁾와 Cahn⁹⁾ 등은 이것이 齒系組織이 發育하는 中에 發生되는 發育異常이라고 생각하여 Miles¹⁰⁾는 이 腫瘍을 “Cystic complex composite odontome”이라고 報告하였고 Cahn⁹⁾은 이 腫瘍이 齒系上皮와 腺上皮에서 發生하며 白堊質溜는 形成한다는 點에서 teratoma와 比較하였다.

한편 이 腫瘍이 adenoameloblastoma로 불리게 된 것은 珐瑯芽細胞腫과 類似한 組織學的 所見을 나타내며 또한 腺狀要素가 小管과 腺細胞를 形成하는 것으로 생각하였던 때문인 것 같다. 그러나 Lucas⁹⁾는 이 腫瘍이 臨牀的 및 組織學的 所見으로 珐瑯芽細胞腫과 다르고 오직 珐瑯器上皮에서 由來되고 腺上皮와는 無關하므로 adenoameloblastoma도 適當한 名稱이 될 수 없다고 하여 “Tumor of enamel organ epithelium”이라 命名하였다.

이 腫瘍이 Stafne¹⁵⁾에 의하여 처음으로 3例가 報告된 以後 Bernier와 Tiecke^{11), 12)}, Thoma¹⁷⁾ 등에 의하여 adenoameloblastoma로 多數의 例가 報告되었으며 Oehler¹¹⁾에 의하여 2例가 더 追加 報告되므로써 그때까지 報告되었던 21例中 43歲의 黑人男子에서 發見된 1例만을 除外하고 나머지는 11歲부터 26歲 사이의 年齡層에서 發見되었고 13例는 女子에서, 8例는 男子에서 發見되었다. 또한 上下顎의 發生 頻度는 거의 同一하였고 下顎 隅角部에서 發生한 1例를 除外하면 모두가 小白齒 前方

에서 發見되었다. 이들 中에서 13例가 未萌出齒牙와 함께 發生되어 X線像에서 含齒性囊腫과 類似하였다. Lucas⁹⁾는 11歲부터 21歲 사이의 好發年齡이라고 하였으며 Stafne¹⁵⁾은 20代를 好發年齡으로 報告하였다.

이 腫瘍은 주로 未萌出齒牙와 더불어 發生하고 上顎의 犬齒部를 好發部位로 報告하였는데^{9), 11), 13), 16)}, Bhaskar³⁾는 41例中 29例가 上顎에서, 26例가 未萌出齒牙와 더불어 發生되었다고 綜合하여 報告하였다.

이 腫瘍의 發生에 對해서는 一部의 腫瘍이 globular tuberosity와 maxillary tuberosity가 連結되는 部位에서 上皮殘存로부터 由來된다는 說¹⁰⁾이 있고 唾液腺 組織으로부터 由來된다는 說¹²⁾ 등 많은 學說이 있지만 病理組織學的인 面에서 이들에 對한 類似한 點을 發見할 수 없으므로 一般의 齒系組織, 特別 永臼齒의 形成 및 成長 時期에 外胚層上皮細胞에서 由來된다는 說에 大部分의 學者들이 意見을 一致시키고 있다.

이 腫瘍의 病理組織學的 所見은 管과 類似한 構造가 나타나고 그管은 한 層의 圓柱上皮細胞로 싸여 있으며 이 腫瘍의 典型的인 像이라고 할 수 있는 比較的 긴 細胞들이 두 줄로 配列되고 이 細胞들은 그 基底부에 腺 染色된 核을 가지며 小量의 細胞質을 가진다^{7), 14)}. 또한 大部分의 境遇에 있어서 石灰化物質들이 圓型, 타원형 또는 無構造狀으로 나타나며 때로는 이들이 融合하여 不規則한 石灰化塊를 形成하는데 石灰化 程度는 白堊質溜와 거의 同一하고 때로는 葡萄狀의 塊를 形成하며 X線像에서 radiopaque하게 보이고 이들의 染色性은 珐瑯組織과 類似하다. Miles¹⁰⁾는 이 腫瘍 內에서 象牙質과 類似한 組織을 發見하였다고 報告하였다.

이 腫瘍이 管狀의 構造를 보이며 珐瑯芽細胞와 類似한 細胞를 나타내므로 珐瑯芽細胞腫과 類似한 所見을 보이지만 星狀細胞가 없고 硬組織이 나타나며 오직 外胚層 珐瑯器上皮에서만 由來한다는 것이 珐瑯芽細胞腫과 다르다.

臨牀적으로는 好發年齡이 다르고 局部的인 除去만으로도 이 腫瘍은 再發이 없으므로 또한 珐瑯芽細胞腫과 鑑別點이 되고 있다.

이 腫瘍은 結締組織으로 被覆되어 있고 膨脹性 成長을 하는데 Oehler¹²⁾는 이를 solid type과 cystic type으로 나누었으며 局部的인 腫瘍摘出術로 除去하면 再發은 없다고 하는데 Lucas⁹⁾는 이 腫瘍을 除去하지 않고 두면 繼續的인 成長으로 因하여 solid type인 境遇 그 內部에서 囊腫性 變性を 한다고 報告하였다.

V. 結 論

上顎 前齒部의 骨組織 膨脹을 主訴로하여 本院에 來院

한 본 환자의 上顎 咬合필름 및 panagram (Status X) 에서 adenoameloblastoma를 判讀하여 다음과 같은 結論을 얻었다.

1. adenoameloblastoma는 10代와 20代에서 好發한다.
2. 男子보다는 女子에서 그 發生率이 높다.
3. 下顎보다는 上顎, 特히 上顎 犬齒部에서 好發한다.
4. 未萌出齒牙와 더불어 發生되는 例가 많다.
5. X線像에서 含齒性囊腫과 類似하나 石灰化物質이 여러가지 形態로 radiopaque하게 나타난다.

References

1. Bernier, J.L., and Tiecke, R.W.; Adenoameloblastoma, J. Oral Surg. 8: 259, 1950. cited from 9.
2. Bernier, J.L., and Tiecke, R.W.; Adenoameloblastoma; Report of nine cases, O.S., O.M., & O.P., 14: 712-726, cited from 9.
3. Bhaskar, S.N.; Adenoameloblastoma; its histogenesis and report of 15 new cases. J. Oral Surg., Anesth. and Hospl. D. Serv., 22: 218, 1964. cited from 16.
4. Bhaskar, S.N.; Synopsis of oral pathology, 211-213, The C.V. Mosby Co, ed. 2., 1965.
5. Cahn, L.R.; Discussion of Thoma, K.H., O.S., O.M. & O.P., 8: 441, 1955. cited from 12.
6. Cina, M.T., Dahlin, D.C. and Gores, R.J.; Ameloblastic adenomatoid tumors: A report of four new cases, Am. J. Clin. Path., 39: 59-65, 1963. cited from 16.

7. Colby, R.A., Kerr, D.A., Robinson, H.B.G.; Color atlas of oral pathology, 148, J.B. Lippincott Co., ed.3., 1971.
8. Ennis, L.M., Berry, H.M., Phillips, J.E.; Dental radiology, 556, Lea & Febiger, 1967.
9. Lucas, R.B.; A tumor of enamel organ epithelium, O.S., O.M., & O.P., 10: 652-660, 1957.
10. Miles, A.E.W.; A cystic complex composite odontome, Proc. Roy. Soc. Med., 44: 51, 1951. cited from 12.
11. Oehler, F.A.C.; An unusual pleomorphic adenoma-like tumor in the wall of a dentigerous cyst, O.S. O.M., & O.P., 9: 441, 1956. cited from 9.
12. Oehler, F.A.C.; The so-called adenoameloblastoma, O.S., O.M., & O.P., 14: 712-725, 1961.
13. Shira, R.B. and Bhaskar, S.N.; Oral surgery oral pathology conference, Walter Reed Army Medical Center, O.S., O.M. & O.P., 16: 745, 1963.
14. Spouge, J. D.; The adenoameloblastoma, O.S., O.M. & O.P., 23: 470-482, 1967. cited from 16.
15. Stafne, E.C.; Epithelial tumors associated with developmental cysts of the maxilla, O.S., O.M. & O.P., 1: 887, 1948. cited from 9 and 12.
16. Stafne, E.C.; Oral roentgenographic diagnosis, 172-173, ed. 3., Saunders Company, 1969.
17. Thoma, K.H.; Adenoameloblastoma, O.S., O.M. & O.P., 8: 441, 1955. cited from 13.