

치성낭종으로부터 유래된 편평상피세포암종

원자력병원 구강악안면외과

김용각 · 박형국 · 권혁진 · 현재훈

SQUAMOUS CELL CARCINOMA ARISING FROM RESIDUAL ODONTOGENIC CYST : Report of a Case & Review of Literatures

Yong-Kack Kim, Hyung-Kook Park, Hyuk-Jin Kwon, Jae-Hoon Hyun

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Korea Cancer Center Hospital

Odontogenic cysts are relatively common pathologic lesions found in the oral and perioral structures, but the case of squamous cell carcinoma arising from those cysts are very uncommon. After first reported of that case in 1889 by Herman, Schwimmer¹⁾ collected 56 cases of previously reported squamous cell carcinoma arising in residual odontogenic cyst during about past one century.

More than 60 % of cases of carcinoma developing in odontogenic cysts arising in inflammatory periapical or residual cyst, and these tumors are usually well-differentiated with relatively good prognosis, and often are diagnosed as benign lesion in radiographic or clinical examination, therefore definitive diagnosis must be made by histologic examination.

We report a case and review the literatures, in our case, 78-year old woman were clinically and radiographically diagnosed as residual odontogenic cyst. But in histologic examination after enucleation of lesion, mass of squamous cell carcinoma were observed, but in other area, typical cyst wall and lining epithelium were observed. And in some area, carcinoma in situ and invading squamous cell carcinoma into the lining epithelium were also observed.

Key word : *Odontogenic Cysts, Squamous Cell Carcinoma, Malignant Transformation*

I. 서 론

낭종은 액체 또는 반고형의 물질을 포함하고 있으며 상피로 이장된 병적 상태를 말한다.

석회화 치성 낭종을 제외한 모든 낭종은위의 정의에 부합되며, 치아발육 과정에 관여하는 상피로부터 유래된다. 낭종들은 기원된 치아 발육 단계에 따라 원시성 낭종, 함치성 낭종

치근 낭종, 치성 각화 낭종, 석회화 치성 낭종, 잔류성낭종 등으로 분류되고 있다. 이들 치성 낭종에서는 암종으로의 변이가 가능한 것으로 알려져 있는데, 1889년 Herman이 치성 낭종에서의 악성 변형을 처음으로 발표한 이래 치성 낭종으로부터 유래된 편평 상피 세포 암의 증례들^{1,2,3,4,5,6)}이 보고되고 있으나 그 수는 매우 적다.

치성낭종에서 악성 종양으로 변형되는데 기여하는 몇몇의 소인들⁶⁾이 제안되어지고 있지만 아직 정확하게 입증되고 있지는 않으나 각 증례에서 환자의 연령과 병소에 이환된 시기 등에서 볼 때 여러 해의 잠복기가 있음이 추측되고 있으나 1년 이내에 재발된 낭종에서 편평 상피 세포암으로 변형된 증례가 보고된 바 있다⁷⁾.

이에 저자들은 술 전 임상적 및 방사선학적 검사에서 낭종 병소로 진단된 78세 된 여자환자에서 낭종적출술을 시행한 결과 술 후 조직 검사에서 편평 상피 세포암으로 진단된 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

본 증례의 78세 여자환자는 수개월 전부터 사각된 좌측 하악체 부위의 종창과 만통을 주소로 1996년 8월경에 본원에 내원하였다. 약 13년 전에 상·하악 총의치를 개인 치과의원에서 제작하였으나 장착시 불편함으로 1년 정도 장착 후 내원 전까지 무치악으로 지냈다. 구강 내 소견은 좌측 치조제 부위의 종창과 촉진시 좌측 하악체의 약간에 파동성을 보였으며 외견상 별다른 특이 소견은 없었고 점막은 양호한 상태였다. 환자의 전신 상태는 경도의 심장 비대 외에 양호하였으며 혈액 검사, 뇨 검사, 일반 화학 검사는 정상범위에 있었으나 고령에 의한 쇠약 현상을 보였다. 술은 마시지 않았으며, 흡연은 40년 동안 하루에 담배 한 갑 정도를 피웠고 특별한 가족력은 없었다.

방사선 검사상 파노라마사진과 하악골방사선사진, Water's view 등에서 경계가 명확한 골팽창성의 피질골 팽창을 보이는 병소가 관

찰되었으며 연조직 주위에 종물 소견은 없었다. 경부임파절에도 이상소견은 보이지 않았다.

파동성을 보이는 구강내 점막부위에 미세 주사 흡입 세포학 검사(FNAC)시에 벗짚 색깔의 낭종성 액체가 검출되었고 골내 낭종 병소의 임상적 진단 하에 환자가 고령인 관계로 국소 마취 하에 개창술을 시행하기로 하였다. 그러나, FNAC 결과 편평 상피 세포암 세포가 관찰되어 확진하기 위해 1996년 11월경 전신 마취 하에 낭종적출술을 시행하였으며 수술시 국소적인 피질골 천공이 관찰되었으나, 전반적으로 경계가 명확한 치성 낭종의 소견을 보였다. 술 후 조직 검사에서 중등도의 분화도를 갖는 편평 상피 세포암으로 확진되었으며, 환자의 고령과 쇠약 등을 감안하였고, 수술부위가 깨끗함으로, 추가적인 근치적 수술은 않고 부가적인 방사선 치료를 시행하였다.

병소부의 조직학적 소견으로서 그림 1에서는 전형적인 낭종의 양상으로서 낭종벽과 이장상 피세포층, 낭종벽 내의 골편들이 보이고 있으며, 그림 2와 3에서는 이장상피층내의 이형성과 상피내암의 소견을 보이고 있고, 그림 4와 5에서는 상피내암이 더욱 진행되어 있어 낭종벽 내로 침범하고 있는 소견을 보이고 있으며, 그림 6에서는 전형적인 높은 분화도(well differentiated)의 편평상피 세포암종의 종물 소견을 보이고 있다.

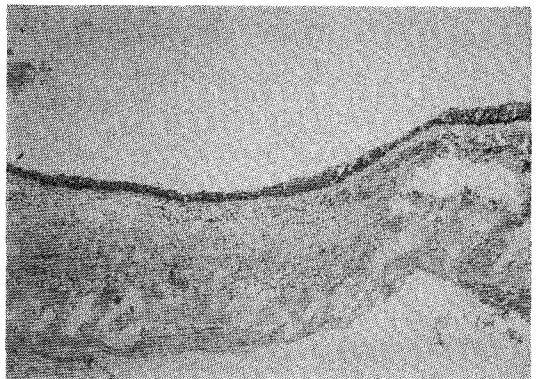


Fig. 1. The cyst wall; lining epithelium and some bony fragments in cyst wall were observed.

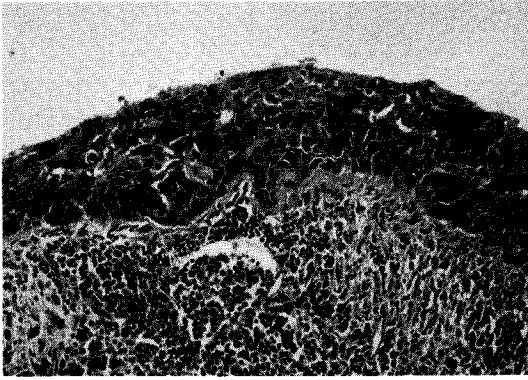


Fig. 2. Dysplastic changes in the lining epithelium

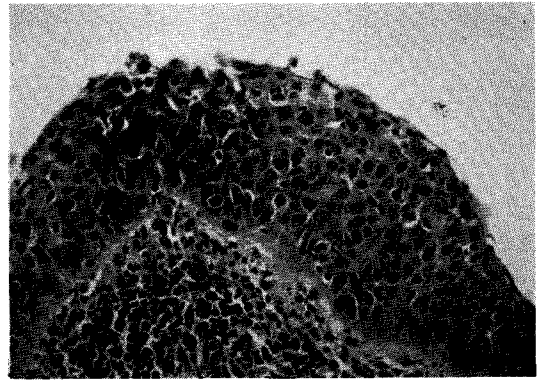


Fig. 3. more dysplastic changes and carcinoma in situ

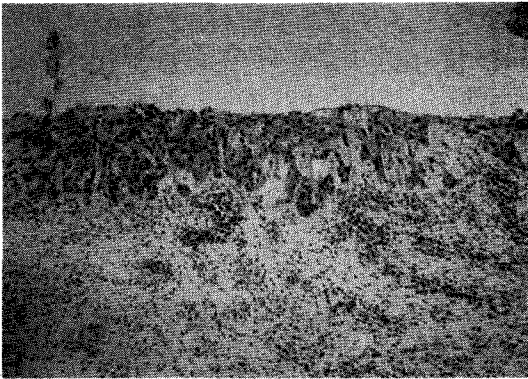


Fig. 4. More advanced state of carcinoma in situ

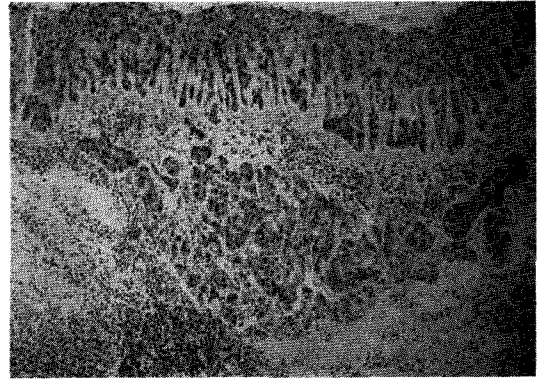


Fig. 5. Invasion of carcinoma into the cyst wall



Fig. 6. Mass of well differentiated squamous cell carcinoma with typical epithelial and keratin pearl were observed.

III. 총괄 및 고찰

낭종의 이장 상피는 치성 그리고 비치성 신 생물들을 야기시킬 수 있는데 낭종에서 유래될 수 있는 일반적인 치성 신 생물로는 법랑아 세포종과 같은 양성 종양이 있으며⁶⁾, 법랑아 세포종의 5~30% 정도는 치성 낭종 이장 상피에서 유래된다⁷⁾. 한편, 치성 낭종에서 유래될 수 있는 비치성 종양으로는 점액 유표피 암종과 편평 상피 세포 암종 등이 있다⁶⁾. 치성 낭종에서 악성 변형의 보고는 1889년 Herman에 의해 처음으로 보고된 이래 치성 낭종에서 유래된 편평 상피 세포암의 증례들이 보고되고 있지만 매우 드물다.

낭종내에서 악성 병변으로 이환되는 것을 설명하기 위한 몇 가지 가설 등이 있는데 상피 세포에서의 만성 염증과 낭종 내 액체(cystic fluid)에 의한 압력이 악성 변이의 요인으로 추측되어지고 있으며^{5,6)}, 이번 증례에서도 낭종 상피내벽에서 만성 염증 세포가 관찰되었다. 치성 낭종으로부터 유래된 편평 상피 세포암은 상악에서보다 하악에서 2배정도 호발되는 것으로 보고되고 있는데⁸⁾ 이번 증례도 하악의 경우이었다.

방사선 검사 상 단순 치성 낭종과 악성 병변을 감별하기는 매우 어려우며^{1,6)} 임상적으로도 이환 부위의 종창, 하순의 지각 마비, 만통(dull pain), 누공 등이 관찰될 뿐 악성 병변으로의 특이한 소견은 보이지 않기 때문에 최종진단은 조직검사서 얻어져야만 한다고 보고되고 있다¹⁾. 이와 마찬가지로 이번 증례에서도 방사선학적, 임상적 검사에서는 낭종성 병변으로 추측되었으나 낭종 적출술후 조직 검사에서 편평 상피 세포암으로 최종 진단되어졌다.

Hampf과 Harrigan⁹⁾은 치성낭종에서 악성 병변으로 변형되는데에 가장 확실한 근거는 정상 상피와 이형(dysplastic) 상피 사이에 존재하는 변이 지역(Transition zone)이라고 진술하였다. 그리고 Ward과 Cohen¹⁰⁾은 악골에서 상피 이장된 낭종과 근접한 암종의 관계를 3가지로 설명하였는데 (1) 이미 존재하고 있던 낭종이, 원격 부위에서 전이 됐거나 근접한 상피조직에서 기원한 원발암종에 2차 적으로 포함된 경우, (2) 원발 암종이 낭종성 병변을 일으킨 경우, (3) 낭종이 존재한 후 이장 상피에서 악성 변이가 나타난 경우 등이다. 이번 증례에서는 (3)의 경우로 생각되어 지는데 이 유는 환자에서 원격 부위의 암종이 발견되지 않았으며, 낭종성 병변을 일으킬 만한 원발 암종이 악골내나 구강내에서 방사선, 임상 검사에서 관찰되지 않은 점이다.

Elzay¹¹⁾는 원발성 골내 암종(Primary intraosseous carcinoma, PIOC)을 다음과 같이 세 가지로 분류하였는데 (1) 전에 존재하던 낭종에서 유래되는 경우, (2) 전에 존재하던 법랑아 세포종으로부터 유래되는 경우, (3) Arising

de novo이다. 또한, 원발성 골내 암종으로 받아들여지기 위해서는 다른 원격 부위로부터의 전이 또는 구강, 상악동, 코 부위에서 발생한 암이 직접적인 골내 확산되는 경우를 배제시켜야 한다. 이번 증례에서도 구강내 점막은 정상이었으며 방사선 검사, 초음파 검사 그리고 컴퓨터 단층 촬영 등을 통해 원격 부위로부터의 악골내 전이에 대한 어떠한 증거도 나타나지 않았으므로 낭종내의 상피에서 상피 암종이 유래되었으리라 사료된다.

Ibrahim Ramzy등¹²⁾은 피하 병소에서 미세 바늘 흡입 검사를 시행한 1000여 증례에서 430여 경우가 악성으로 진단되어졌다고 보고하였으며 이들 악성 중 약 37% 정도가 편평 상피 세포 암으로 나타났으며 대부분이 높은 분화도를 나타냈다고 보고하였다. 미세 바늘 흡입 세포학 검사에서 편평 상피 세포 암종으로 진단되는 경우는 흡입체에서 부정형의 편평 상피 세포(Atypical squamous cell)가 나타나는 경우나 때때로 극세포증식성 법랑아세포종(acanthotic ameloblastoma), 와튼씨 종양, 유세 낭종(Branched cleft cysts), 치성 각화 낭종 등에서도 부정형의 상피 세포가 검출될 수 있으므로 이들 질병과의 감별 진단을 위해 조직학적 검사가 시행되어야 한다고 보고하였다. 이번 증례에서도 파동성을 나타내는 구강내 치조점막에 미세 바늘 흡입 세포학 검사를 시행한 결과 편평 상피 세포 암종의 진단을 얻었고 확진을 하기 위해 시행한 술후 조직 검사에서도 같은 결과를 얻을 수 있었다.

치성 낭종에서 변형된 암종의 60% 이상이 염증성 치근단 낭종과 잔류성 낭종들에서 유래되며^{13,14)} 측방 치주 낭종¹⁵⁾이나 치성 각화 낭종^{1,3,5,16,17)}에서 유래되는 경우는 드물다고 보고되고 있다. 표 1은 1889년 Herman이 발표한 이래로 보고되었던 치성낭종에서 암종이 유발되었던 56 증례들을 1991년 Schwimmer 등¹⁾이 정리한 것으로 각각의 연령분포, 성별빈도, 증상, 부위, 낭종의 종류등을 보여주고 있다.

치성 낭종에서 유래된 대다수의 원발성 골내 암종(PIOC)은 잘 분화된 각화 암종이며¹³⁾ 비교적 덜 공격적이며⁷⁾ 보고된 원발성 골내 암종의

증례 41경우에서 2경우에서만 경부 임파절 전이가 보고되었으며^{18,19)}, Samir 등은 경부 임파절에 전이된 Spindle cell carcinoma를 보고하였다. 그러나, Elzay²⁰⁾는 치성낭종의 치료로 수술을 권고하였으며 예후는 매우 불량하다고 보고하였다. 보고에 따르면 낭종 내에 각화도의 존재가 악성 변형으로의 위험요소로 간주하고 있는데^{2,8)}, 치성 각화 낭종에서는 각화도의 정도에 따라 즉, orthokeratinization 보다 parakeratinization이 훨씬 공격적이며 재발되는 성향이 높다고 보고되어지고 있다⁸⁾.

Table 1. Clinical Data of Previously Reported Cases Collected by Schwimmer and Morrison¹⁾ in 1991. The total number of collected reports were about 56 cases.

Grouping	No.(%)
Age	
1-30	3 (5.4)
31-60	11 (25.0)
61-90	39 (69.6)
Sex	
F	18 (33.9)
M	33 (66.1)
Symptom	
Mass	33 (58.9)
Pain	10 (19.6)
Painful mass	8 (21.5)
Site	
Mandible	42 (80.3)
Maxilla	14 (19.7)
Nature of cyst	
Residual	21 (37.5)
Keratinized residual	10 (17.8)
Dentigerous	11 (19.7)
Appical periodontal	7 (12.5)
Lateral pperiodontal	2 (3.5)
Radicular	1 (1.8)
Unclassified	4 (7.2)

치성 낭종에서 유래되는 편평 상피 세포암은 매우 드문 경우이며, 악성 변형을 유발시키는 빈도는 각각의 낭종에서 마다 다르다. 그리고 원발성 골내 암종(Primary intraosseous carcinoma)으로 받아들여지기 위해서는 다른 원격 부위로부터의 전이나 구강, 비강 및 상악동 점막 암종으로 부터의 직접적인 골내 확산 등의 가능성을 배제시켜야 한다. 이들 치성낭종에서 변이된 악성암종은 대개 높은 분화도를 갖으며 비교적 좋은 예후를 갖는다고 보고된다.

저자들은 임상적, 방사선학적인 검사에서 잔류낭종으로 진단 하에 낭종적출술을 시행한 환자에서 조직 검사상 편평 상피 세포암으로 최종 진단된 78세의 여자 환자의 증례를 경험하고, 조직학적 검사 소견상 이 암종이 낭종의 이장 상피 세포에서 유래되었으리라는 의견을 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Schwimmer AM, Morrison SN : Squamous cell carcinoma arising in residual odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 72 : 218-221, 1991
2. Areen RG, Maclatchey KD, Baker HL : Squamous cell carcinoma developing in an odontogenic keratocyst. Arch otolarngol 107 : 568-569, 1981
3. Akira Sasaki : Odontogenic ghost cell carcinoma. J Oral Maxillofac Surg 54 : 108-111, 1996
4. Herbener GH, Gould AR : An electron and optical microscopic study of juxtaposed odontogenic keratocyst and carcinoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 71 : 322-328, 1991
5. Anand VK, Arrowood JP : Malignant potential of the odontogenic keratocyst. Otolaryngol Head Neck Surg 111 : 124-129, 1994

6. N. Bradley, Thomas DM : Squamous cell carcinoma arising in an odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 17 : 260–263, 1988
7. El-Mofty SK, Shannon MT : Lymph node metastasis in spindle cell carcinoma arising in odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 71 : 209–213, 1991
8. Van der Waal, I., Rauhamaa, R., Snow GB : Squamous cell carcinoma arising in the lining of odontogenic cyst. In *J Oral Maxillofac Surg* 14 : 146–152, 1985
9. Hampl F, Harrigan WF : Squamous cell carcinoma possibly arising from an odontogenic cyst. *J Oral Surg* 31 : 359–362, 1973
10. Ward TG, Cohen B : Squamous cell carcinoma arising in a mandibular cyst. *Br J Oral Surg* 1 : 8, 1963
11. Elzay RP : Primary intraosseous carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 54 : 299–303, 1982.
12. Ibrahim Ramzy, Schantz HD : Squamous cells in needle aspirates of subcutaneous lesions, A diagnostic problem, *Am J Clin Pathol* 85 : 319–324, 1986
13. Gardner AF : The odontogenic cyst as a potential carcinoma, *J Am Dent Assoc* 78 : 746–755, 1969
14. Eversole LR, Sabes WR, Robin S : Aggressive growth and neoplastic potential of odontogenic cysts, *Cancer* 35 : 270–282, 1975
15. Baker RD, Corio RL, Onofrio ED : Squamous cell carcinoma arising in a latent periodontal cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 47 : 495–499, 1979
16. Foley WL, Terry BC, Jacoway JR : Malignant transformation of an odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg* 49 : 768–771, 1991
17. Eva Ahlifers, Sven Sjogren : The odontogenic Keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg* 42 : 10–19, 1984.
18. Chretien PB, Capenter DF, White NS, Harrah JD : Squamous cell carcinoma arising in dentigerous cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 30 : 809–816, 1970
19. Pearcey RG : Squamous cell carcinoma arising in dental cyst. *Clin Radiol* 36 : 387–388, 1985
20. Elzay R : Primary intraosseous carcinoma of the jaws- review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Med Oral Pathol* 54 : 299, 1982.