

# 편평세포암종과 병발한 치성점액종

김봉수 · 이상래 · 황의환 · 이병도\*

경희대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, 이병도치과의원\*

## Simultaneous occurrence of an Odontogenic Myxoma and a Squamous Cell Carcinoma of the Mandible

Bong-Su Kim, Sang-Rae Lee, Eui-Hwan Hwang · Byung-Do Lee\*

Department of Oral Maxillofacial Radiology, College of Dentistry,

Kyung Hee University, Seoul, Korea & Dr. Lee's Clinic\*

Squamous cell carcinoma is the most common type of oral cancer and odontogenic myxoma is relatively uncommon benign tumor of mesenchymal origin. There are, to our knowledge, no prior reports of simultaneously occurring squamous cell carcinoma and odontogenic myxoma of the jaw bones. In this case, at first, the plain films and computed tomograms revealed a large expansile multilocular radiolucent lesion on left mandible and marked expansion of cortical plate. In addition this radiograms revealed also infiltrative bony destruction of anterior and medial border of ascending ramus of left mandible and alveolar bone of left maxilla, floating teeth on left lower molar area and metastatic enlargement of left submandibular, jugular digastric and spinal accessory lymphnodes. Magnetic resonance imaging of this patient revealed infiltrative growth of tumor on alveolar bone of left maxilla, left retromolar fat pad, left masseter and left medial pterygoid muscle. Intraoral presurgical biopsy presented typical features of squamous cell carcinoma. After chemotherapy with radiation therapy during 6 months, this central lesion was diagnosed as odontogenic myxoma by the postsurgical biopsy. After 3 months, this patient presented multiple metastatic signs at lumbar spines, rib and liver. Consequently, our case is simultaneous occurrence of squamous cell carcinoma and odontogenic myxoma. (*J Korean Oral Maxillofac Radiol* 1999;29:339-353)

**Key words** : carcinoma, myxoma, metastasis

### 1. 서론

편평세포암종은 악골을 침범하는 악성 종양으로서, 상피성 기원을 가지며 구강암 중에서 가장 발현빈도가 높다. 대부분의 편평세포암종은 구강점막에서 발생하는 주변성 병소이며 심부의 조직을 침범하는데, 주변의 연조직과 신경간, 혈관, 골조직을 침범한다. 그러나 악골내에서 발생하는 중심성 편평세포암종은 드물게 보고되고 있

으며 이것은 치제의 상피잔사나 치성낭 상피의 악성변이 등으로 발생된다고 알려져 있다<sup>1)</sup>.

한편 치성점액종은 치성종양의3-6%를 차지하는 비교적 발생빈도가 낮은 중배엽성의 양성종양으로서<sup>2)</sup> Virchow(1863)<sup>3)</sup>에 의하여 처음 보고되었다. 점액종은 대부분 악골내에서 치성으로 발생되지만 구강내 연조직이나 두경부에서도 발생될 수 있다. Tolén(1936)<sup>4,5)</sup>에 의해 처음으로 구강내 연조직에서 발생한 점액종이 보고된 이

래, Thoma와 Goldman(1947)<sup>6)</sup>은 매복 또는 결손된 치아와 관련된 점액종에 관한 연구에서 이 종양은 치성조직에서 기원되거나 점액종성 변성을 보이는 치성섬유종에서 기원된다고 하였다. Stout(1948)<sup>7)</sup>는 점액종은 전이를 일으키지 않는 병소라고 하였으며 쇄골과 중족골을 침범하는 증례를, Mazabraud등(1969)<sup>8)</sup>과 Wirth등(1971)<sup>8)</sup>은 골에 발생한 섬유성 이형성증과 다발성의 연조직 점액섬유종과의 관련성에 대하여 각각 보고하였다.

또한 Kaffe등(1997)<sup>9)</sup>은 164증례의 점액종을 대상으로 연구하여, 이는 10대와 30대에서 75%가 발생되며 남성과 여성의 발생비율이 1: 1.5이고, 하악과 상악의 발생비율이 2:1이라고 보고하였다. 이들 점액종 중 55%가 다방성, 36%가 단방성의 병소이었으며 나머지 9% 중 대부분은 상악에 발생하여 상악동을 침범한 증례이었고, 병소가 클수록 다방성의 경향이 있어 통계학적으로도 유의성이 있다고 하였다. 또한 점액종 중 5%만이 미맹출치와 연관이 있음을 밝혔다.

이와 같이 발생의 기원과 임상 및 방사선학적 소견 등이 상이한 편평세포암종과 치성점액종이 병발된 증례는 아직 보고된 적이 없으므로 저자들은 본 증례를 보고하고자 한다.

## 2. 증례

1994년 12월 26일에 하악좌측구치부위에 동통과 저작장애를 주소로 37세의 남성 환자가 경희대학교 치과대학 부속병원에 내원하였다. 환자는 2년 전부터 주소부위에 간헐적인 종창의 기왕력을 가지고 있었으며, 20일 전에 다시 종창이 발생되었다. 현증으로는 좌측 하악부위의 종창이 관찰되었으며, 하악좌측 제3대구치부위의 협측 구강전정이 거상되었다. 또한 하악좌측 제2, 3대구치는 근심축으로 전이되어 있었으며, 하악좌측 제1, 2, 3대구치 부위에는 궤양이 발생되어 있었다.

내원 시에 환자의 파노라마와 후전방두개사

진, 하악 측사위사진, 하악 절단면 교합사진이 촬영되었고, 술 전 생검이 시행되었다. 파노라마사진상에서 하악좌측 제1대구치에서 후방으로 하악 상행지 전체를 포함하는 다방성의 방사선투과성의 병소가 관찰되었으며, 파노라마와 후전방두개사진상에서 근돌기를 포함하여 상행지의 전연과 내측 피질골이 파괴되어 있었다. 또한 하악골의 하연은 비박과 팽윤되어 있었고 좌측 하악관은 하방으로 전위되어 있었다. 하악 측사위사진상에서 병소의 내부에 가늘고 곧은 골중격들이 관찰되었고 인접 대구치의 부유된 소견이 관찰되었다. 하악 절단면 교합사진상에서 하악좌측 제2, 3대구치의 전위와 설측 피질골판의 비박과 팽윤소견이 판독되었다. (Fig.1)

한편 전산화단층사진에서 좌측 하악부위에 팽창성의 종괴가 관찰되었고 하악 상행지의 내측 피질골판과 상행지의 전연의 파괴소견이 관찰되었다. 상악좌측 구치부는 전내방으로 전위되었으며 골조직이 침윤성으로 파괴되고 좌측 하악 상행지에 있는 병소의 상부에서는 미약한 조영증강을 나타내는 고형의 부분이 관찰되었다. 종양의 팽창성 증대로 인하여 외측으로 교근이, 내측으로 내측익돌근이 변위되어 있었다. 또한 하악 임파절과 경정맥 이복근 임파절이 편평세포암의 전이로 인하여 증대되어 있었다. (Fig.2)

1995년 5월 23일의 <sup>99m</sup>Tc골스캔영상에서는 좌측 하악골의 병소부위에 방사성동위원소의 집적이 감소되어 있었고, 병소의 경계부와 좌측 상악 치조골에는 방사성동위원소의 집적이 증가되어 있었다. (Fig.3A)

1995년 5월 30일에 술 전 MRI가 촬영되었다. T1강조영상에서 좌측 하악체와 상행지에 낮은 신호강도를 나타내는 팽창성의 종괴가, 중앙부에 종양의 피사로 signal void가 각각 관찰되었다. 상악좌측 치조골은 편평세포암의 침윤성성장에 의해 피질골의 연속성이 파괴된 소견이 관찰되었으며 정상적인 지방골수의 고신호강도가 저신호강도로 변화되었다. 조영증강한 T1강조영상에서 종괴는 불균일한 증강을 나타내었고, 편평세포암

종이 좌측의 교근과 내측 익돌근을 침범하여 정상적인 근육의 신호강도가 증강되어 나타났다. (Fig.3B)

환자의 술 전 생검의 조직소견으로는 섬유성 결체조직 사이에 편평세포로 이루어진 상피도와 각화진주가 관찰되었다. (Fig.4A)

환자는 1995년1월부터 1995년4월까지 다섯 차례에 걸쳐 방사선조사와 화학요법의 병용치료를 받았다. 그 후에 원발부인 좌측하악부의 병소의 제거술이 시행되었다.

술 후 조직사진상에서 인접한 골조직을 침범하는 정상 섬유모세포와 망상섬유로 이루어진 점액종의 소견이 관찰되었고, 호산성으로 염색되는 세포핵과 파란색으로 염색되는 망상섬유들이 관찰되어 치성점액종으로 확진되었다. (Fig.4B)

수술 후3개월에 환자는 등에 통증을 호소하며 재내원하였고, 여러가지 방사선검사를 통하여 다발성의 전이가 확인되었다.(Fig.5)

### 3. 고찰

점액종은 악골 이외의 다른 골에서 보고된 증례가 드물며 골종양이라기 보다는 치성종양으로 인정되고 있다. Armed Forces Institute of Pathology에서는 치성점액종과는 달리 드물게 악골이외의 다른 골에서 발생하는 점액종을 섬유점액종(fibromyxoma)라고 하였다. 또한 World Health Organization Classification of Tumours of the Soft Tissues에서는 악골에 발생하는 점액종만큼이나 흔하게 연조직에 발생하는 이 병소를 연조직 점액섬유종(soft tissue myxofibroma)이라고 하였다<sup>9)</sup>.

Pindborg(1971)<sup>3)</sup>는 조직학적으로 전형적인 점액종은 풍부한 점액성의 간질사이에 둥글거나 각진 세포들로 이루어지며 치성상피의 잔사들이 종종 관찰된다고 하였다. Sedano와 Gorlin(1965)<sup>10)</sup>과 Hodson과 Prout(1968)<sup>11)</sup>은 점액종의 간질이 80%의hyaluronic acid와 20%의chondroitin sulfate로 구성된다고 보고하였다.

점액종의 기원에 대한 문헌들을 살펴보면, Shear와 Copelyn(1969)<sup>12)</sup>은 미맹출된 쥐의 치아를 둘러싸고 있는 치배조직과 비슷하였으며, Cawson(1972)<sup>13)</sup>은 점액종이 치유두와 닮았다고 하였고 Farman(1975)<sup>14)</sup>은 종양을 이루는 점액종성 조직이 인간 태아의 전신에 걸쳐 특히 발육중인 입술과 혀와 치아의 피하에 있는 원시 간엽조직과 비슷하다고 하였다. Shafer등(1974)<sup>15)</sup>은 이 병소가 발육 중인 치배의 간엽부분에서부터 발생될 것이라고 추정하였다. Evans(1966)<sup>16)</sup>은 점액종이 원시성간엽조직에서 발생된다고 하였다. 그러나 Whitman등(1971)<sup>17)</sup>은 이 종양은 중배엽성의 기원이며 정상세망은 외배엽성의 기원이므로 표면적으로만 유사하게 보인다고 하였다. 그리고 Colburn(1975)<sup>18)</sup>에 의해 치아지지조직이 아닌 하악 과두와 같은 부위에서 발생된 증례들이 보고되었고, 상악에 발생한 증례들의 다수는 상악동내에서 발생되는데, 미맹출된 치아와 연관된 증례들은 드물고, 발육중인 치아이상과 연관된 증례는 보고된 바 없었다. Goldblatt(1976)<sup>19)</sup>은 점액종의 초기세구조 연구를 통하여 점액종의 주된 종양세포가 치성기원의 섬유모세포와 많은 공통점을 가지는 동시에 제대(umbilical cord)의 세포와도 상당한 유사성을 보여 원시비치성간엽으로부터 유래할 가능성을 배제할 수 없다고 하였다. Lombardi(1988)<sup>20)</sup>등은 점액종의 종양세포의 세포질이 vimentin과 면역조직화학적 반응을 하는 것을 관찰하여 이 종양이 간엽조직 유래임을 확인하였다. Takahashi등(1990)<sup>21)</sup>은 점액종의 면역조직화학적 연구를 통하여 이 종양이 섬유모세포와 조직세포의 이중 기원임을, Moshiri(1992)<sup>22)</sup>등은 점액종의 조직화학적 연구와 초기세구조연구에서 종양세포와 근섬유모세포가 동일하게 vimentin과 actin에 면역반응을 나타내어 이 종양이 근섬유모세포 기원임을 각각 보고하였다.

한편 편평세포암종의 기원에 관해 살펴보면 Angelopoulos등(1966)<sup>23)</sup>은 하악의 편평세포암종의 여섯 가지 기원에 대한 가설을 제시하였다.

여기에는 신체의 타부위에 발생되어 악골로 전이한 원발성의 악성종양과 구강 점막의 이장상피, 하악골 내로 함입된 타액선, 합치성낭벽에서 발견되는 치성상피잔사, 합치성낭과 연관된 이전부터 존재한 법랑모세포종이 포함되며, 장기간 지속된 만성염증도 낭을 악성으로 변형시킬 수 있다고 하였다. Shear(1969)<sup>24)</sup>는 중심성암종이 치성상피잔사나 태아기의 융합부위에 고립된 상피에서부터 유래된다고 하였다.

이상의 선학들의 연구로부터 편평세포암종은 상피성 기원임이, 치성점액종은 간엽성 기원임이 밝혀져 있으나 이 두 종양의 기원사이에 어떠한 연관성에 관한 보고는 없었다. 따라서 본 증례에서는 치성점액종과 편평세포암종이 각각 독립적으로 발생되었다고 사료된다.

방사선사진에서 치성점액종은 단방형, 다방형, 치관주위형으로 관찰되는데, 병소는 경계가 명료하거나 불명료하며 과골성변형이 보이기도 하고 치근사이로 파동성의 경계를 가지기도 한다. 병소의 내부에는 가늘고 곧은 골중격이 있어서 테니스라켓 모양을 보이기도 하며 햇살모양의 침상골소견을 보이기도 한다. 주위의 치아를 전위시키지만 미약한 골팽윤 소견을 보인다. 그 밖에 자기공명영상의 T1강조영상에서는 중등도의 신호강도를, T2강조영상에서는 높은 신호강도를 보이는 것과 연조직 window의 전산화단층사진에서는 다방형으로 보이는 특징적인 소견이 있다.<sup>25)</sup> Cohen과 Mendelsohn(1990)<sup>26)</sup>은 점액종의 증례에서 전산화단층사진은 단순방사선사진보다 병소의 경계를 나타내는 데에 우수하며, 자기공명영상보다 피질골의 파괴를 더 잘 나타내고, 반면에 자기공명영상은 악성종양과 같은 파괴적인 병소를 평가하기는 데에 뛰어나지만 점액종이 피막화 되어있지 않고 주위조직으로 침윤하기 때문에 정확한 치료계획을 세우기 위해서는 전산화단층사진과 자기공명영상을 함께 이용하는 것이 바람직하다고 하였다. Kawai등(1997)<sup>27)</sup>은 상악에 발생한 점액종의 증례보고에서 자기공명영상은 경계가 명료하며 잘 증강되는 균질한

신호강도를 나타내는 종괴를 보이며 T1과T2강조영상에서 모두 중등도의 신호강도를 나타내다고 하였다.

그러나 본 증례에서는 양성종양의 방사선학적 소견과 악성종양의 소견이 함께 판독되었다. 본 증례의 단순방사선사진에서는 좌측 하악체와 하악각, 하악지를 포함하여 과두들기까지 확장된 테니스라켓 모양의 다방성의 방사선투과성의 병소가 관찰되고 피질골이 비박되고 팽윤되었으며 치아들이 전위되어 양성종양의 특징들을 보여주지만 하악상행지의 전연과 내측이 피질골을 포함하여 침윤성인 골파괴상을 보이며 좌측 하악 대구치들의 부유양상 등 악성종양의 특징적인 소견이 판독되었다.

본 증례의 전산화단층사진에서는 하악 좌측에서 팽창성의 양성종양의 소견이, 하악 상행지의 내측 피질골의 파괴된 소견과 좌측 상악구치부의 협측과 설측 피질골의 침윤성골파괴상 등 악성종양의 소견이 관찰되었다. 특히 경부 입과 절의 증대와 중심부의 괴사된 소견으로 미루어 악성종양의 전이를 확인할 수 있었다.

본 증례의 자기공명영상은 악성종양의 소견을 명확하게 나타내고 있었다. 먼저 좌측 상악치조골에서는 전산화단층사진에서의 골파괴된 부위보다 더 광범위한 부위에서 지방골수의 높은 신호강도가 낮은 신호강도로 변화되어 침윤성인 골파괴 양상을 보여주었으며, 좌측 구치부 후방의 fat pad의 신호강도도 낮은 신호강도로 변화되어 피막화되지 않고 침윤성으로 성장하는 악성종양의 특징이 판독되었다. 또한 좌측 교근과 내측 익돌근의 정상적인 근육의 신호강도가 비교적 높은 신호강도를 나타내는 종양에 의해 침범되고 있는 상이 관찰되어 인접 근육으로 악성종양이 증식해 나가고 있음을 잘 보여주었다. 이전에 보고된 치성점액종의 자기공명영상의 소견과는 달리 불균일한 증강을 보인 것도 치성점액종과 편평세포암종의 서로 다른 조직을 가진 두 종양이 혼재하기 때문이라고 생각된다.

#### 4. 결론

본 증례에서는 좌측 하악골에 발생하여 서서히 성장하는 치성점액종과 이 병소와 인접하는 해부학적 구조를 침윤성으로 파괴시키는 편평세포암종이 병발되었다. 그러므로 우리는 양성종양의 특징이 뚜렷한 단순방사선사진상에서 악성종양의 존재를 암시하는 소견이 관찰되므로 주의깊은 관찰이 필요하며 전산화단층사진과 자기공명영상을 함께 검사하는 것이 종양의 적절한 진단과 치료를 위하여 필요하다고 생각한다.

#### 참고문헌

1. Goaz PW, White SC. Oral radiology: principles and interpretation. 3rd ed. St. Louis: Mosby-Year Book Inc: 1994. p. 476-80
2. Goaz PW, White SC. Oral radiology: principles and interpretation. 3rd ed. St. Louis: Mosby-Year Book Inc: 1994. p. 450-6
3. Farman AG, Nortje CJ, Grotepass FW, Farman FJ, Van Zyl JA. Myxofibroma of the jaws. Br J Oral Surg 1977-78; 15: 3-18
4. Tholen EF. Myxomata of the Jaw and Pharynx. Trans Am Laryngol Rhinol Otol Soc 1936; 42: 608-618
5. White DK, Chen SY, Mohnac AM, Miller AS. Odontogenic myxoma. Oral Surg 1975; 39(6): 901-17
6. Thoma KH, Goldman HM. Central myxoma of the jaw. Am J Orthod 1947; 33: 532-540
7. Stout AP. Myxoma, the tumor of primitive mesenchyme. Ann Surg 1948; 127: 706-719
8. Wirth WA, Leavitt D, Enzinger FM. Multiple intramuscular myxomas. Another extraskeletal manifestation of fibrous dysplasia. Cancer 1971; 27: 1167-73
9. Kaffe I, Naor H, Buchner A. Clinical and radiological features of odontogenic myxoma of the jaws. Dentomaxillofac Radiol 1997; 26: 299-303
10. Sedano HO, Gorlin RJ. Odontogenic myxoma: some histochemical considerations. Arch Oral Biol 1965; 10: 727-9
11. Hodson JJ, Prout RES. Chemical and histochemical characterization of mucopolysaccharides in a jaw myxoma. J Clin Pathol 1968; 21: 582-9
12. Shear M, Copelyn M. Proceedings of the ninth congress of the international academy of oral pathology. Johannesburg: 1969
13. Cawson RA. Myxoma of the mandible with a 35 year follow-up. Br J Oral Surg 1972; 10: 59-63
14. Farman AG. The peripheral odontogenic fibroma. Oral Sur Oral Med Oral Pathol 1975; 40: 82-92
15. Shafer WG, Hine MK, Levy BM. Textbook of oral pathology. 4rd ed. Philadelphia, London, Toronto: W. B. Saunders Co. 1983; 295-297
16. Evans RW. Histological appearance of tumours. 2nd ed. Edinburgh and London: E&S Livingstone Ltd.; 1966
17. Whitman RA, Stewart S, Stoopack JG, Jerrold TL. Myxoma of the mandible: report of case. J Oral Surg 1971; 29: 63-70
18. Colburn JF, Epker BN. Myxoma of the mandibular condyle-surgical excision with immediate reconstruction. J Oral Surg 1975; 33: 351-5
19. Goldblatt LI. Ultrastructural study of an odontogenic myxoma. Oral Surg 1976; 42(2): 206-220
20. Lombardi T, Kufferr R, Bernard JP, Fiore-Donno G, Samson J. Immunohistochemical staining for vimentin filaments and S-100 protein in myxoma of the jaws. J Oral Pathol 1988; 17: 175-177
21. Takahashi H, Fujita S, Okabe H. Immunohistochemical investigation in odontogenic myxoma. J Oral Pathol Med 1991; 20: 114-119
22. Moshiri S, Oda D, Worthington P, Myall R. Odontogenic myxoma: histochemical and ultrastructural study. J Oral Pathol Med 1992; 21: 401-403

23. Angelopoulos AP, Tilson HB, Stewart FW, et al. Malignant transformation of the epithelial lining of odontogenic cysts. *Oral Surg* 1966; 22: 415
24. Shear M. Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 1969; 97: 645
25. Farman AG, Nortje CJ, Wood RE. Oral and maxillofacial diagnostic imaging. 1st ed; Mosby-Year Book, Inc.; 1993; 257-260
26. Cohen MA, Mendelsohn DB. CT and MR imaging of myxofibroma of the jaws. *J Comput Assist Tomogr* 1990; 14(2): 281-285
27. Kawai T, Murakami S, Nishiyama H, Kishino M, Sakuda M, Fuchihata H. Diagnostic imaging for a case of maxillary myxoma with a review of the magnetic resonance images of myxoid lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 84: 449-54

Address : Prof. Sang-Rae Lee, Dept. of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Kyung Hee Univ, #1, Hoeki-Dong, Dongdaemun-Ku, Seoul, KOREA  
Tel : (02) 958-9403~5 Fax : (02) 965-1256  
E-mail : xray96@unitel.co.kr

## EXPLANATION OF FIGURES

- Fig. 1.** Plain films showing a large expansile multilocular radiolucent lesion on left mandible with fine, straight septa and marked expansion of cortical plate, infiltrative bony destruction of anterior and medial border of ascending ramus of left mandible and floating teeth on left lower molar area.
- Fig. 2.** Computed tomograms showing large expansile mass with solid portion in upper part with mild enhancement, displacement of left masseter and medial pterygoid muscles, infiltrative bony destruction on left maxillary posterior area and metastatic enlargement of left submandibular, jugular digastric and spinal accessory lymphnodes.
- Fig. 3A.** Bone scan image showing decreased uptake of isotope on left mandible area and increased uptake of isotope at the periphery of the lesion and left maxilla area.
- Fig. 3B.** Magnetic resonance imaging showing expansile mass with heterogeneous enhancement and infiltrative growth of tumor on alveolar bone of left maxilla, left retromolar fat pad, left masseter and left medial pterygoid muscle.
- Fig. 4A.** Microscopic sections showing epithelial tumor islands and keratin pearls. (H-E stain, X40 & X100)
- Fig. 4B.** Microscopic sections showing scattered stellate cell with fibromyxoid stroma. (Alcian blue stain, X40 & X100)
- Fig. 5.** Serial radiograms showing multiple metastatic signs at lumbar spines, rib and liver, that is, osteolytic change on right L4, L5 pedicles, destruction of right 3rd rib and multiple hyper- and hypoechoic nodules in liver.

사진부도

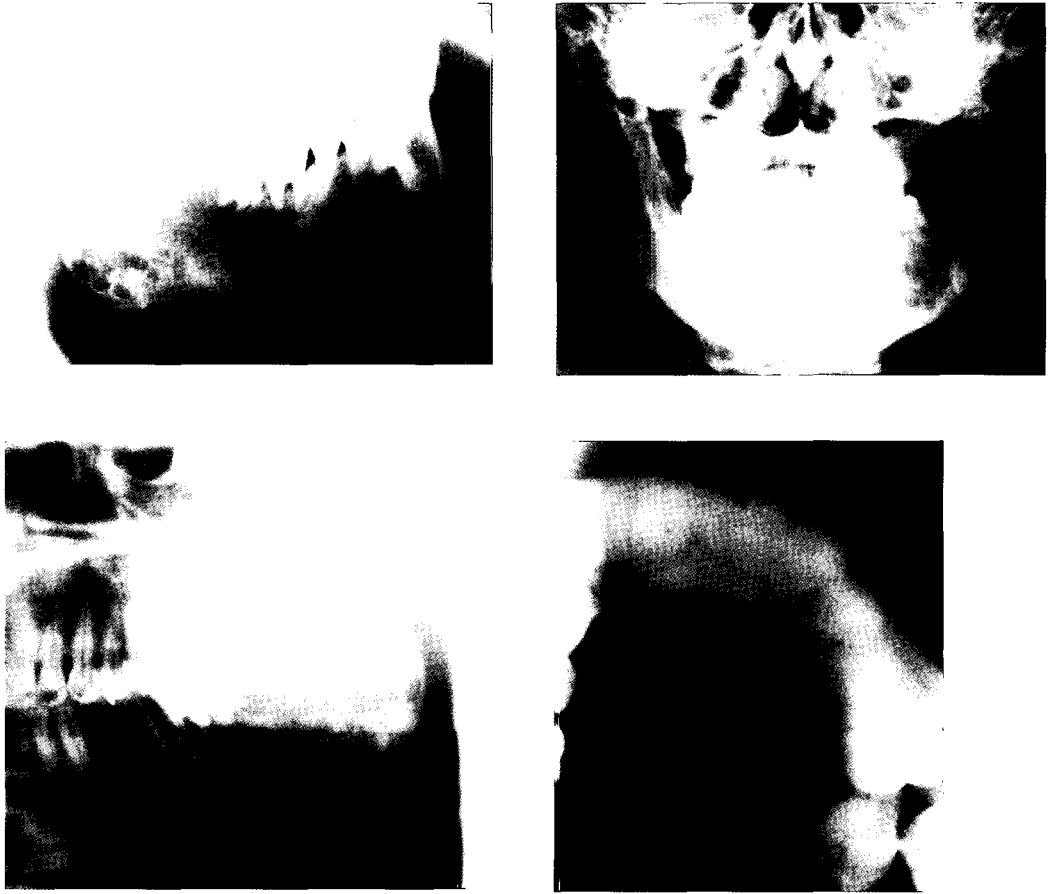


Fig 1



사진부도

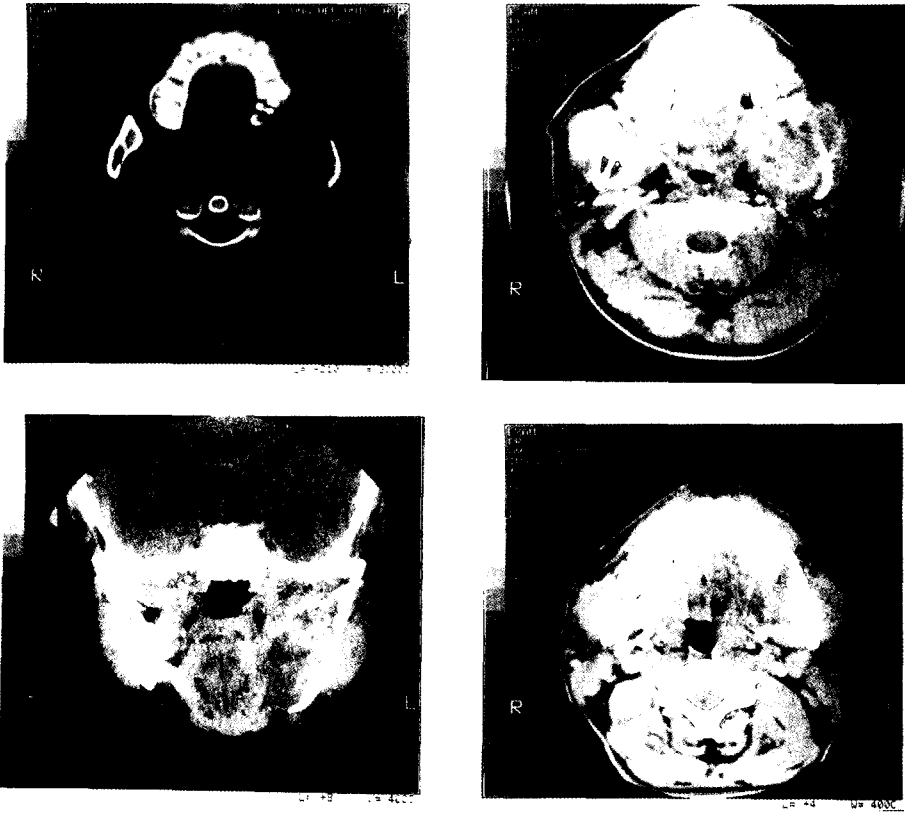


Fig 2

# 사진부도

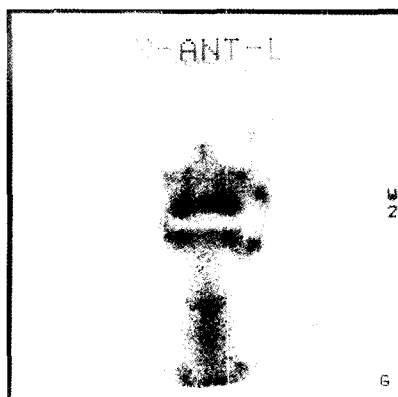


Fig 3A

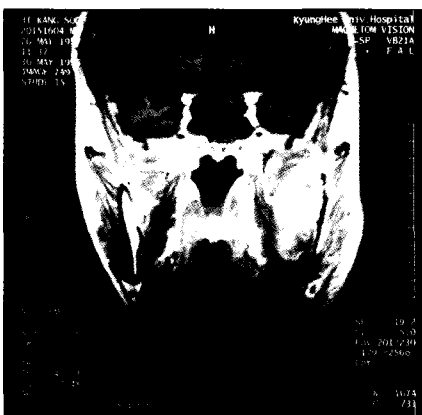
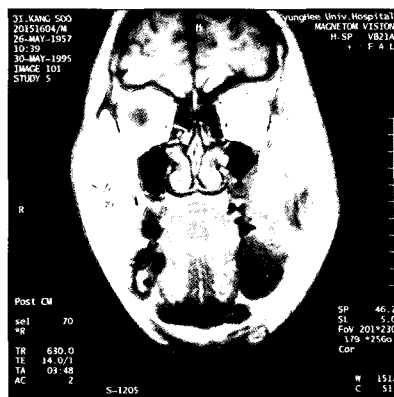


Fig 3B

# 사진부도

Fig 4A

Fig 4B

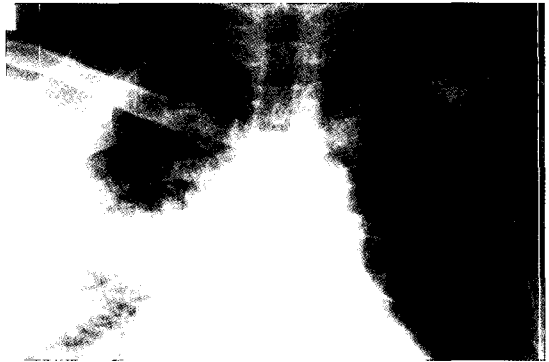
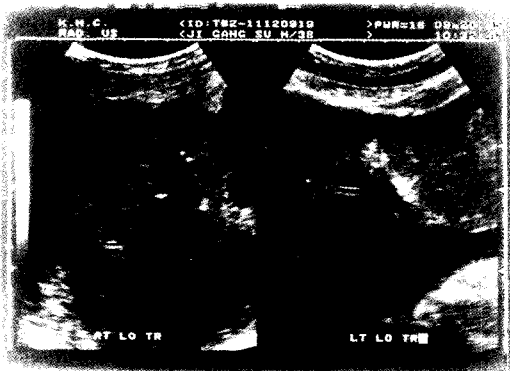


Fig 5