

# 상악골에 발생한 치성낭종에서 유래된 편평상피세포암

민경인 · 이주현 · 서경숙 · 김철환  
파티마병원 치과/구강악안면외과

## Abstract

### SQUAMOUS CELL CARCINOMA OF THE MAXILLA ORIGINATED IN ODONTOGENIC CYST - A CASE REPORT -

Kyong-In Min, Ju-Hyun Lee, Kyung-Suk Seo, Chul-Hwan Kim  
*Department of Dentistry/Oral & Maxillofacial Surgery, Fatima Hospital*

Primary intraosseous carcinoma(PIOC) is defined as a squamous cell carcinoma arising within the jaw, having no initial connection with the oral mucosa.

The squamous cell carcinoma within the bone can be presumably developed from residues of the odontogenic epithelium, therefore, it is seen in the jaw only. Metastatic carcinoma from another primary site should be excluded in the diagnosis of Primary Intraosseous Carcinoma.

This is a case of 62-year-old man, who initially diagnosed as odontogenic cyst on maxilla, but its pathologic examination was diagnosed as squamous cell carcinoma with odontogenic cyst.

We treated this patient with partial maxillectomy, modified radical neck dissection(mRND), and postoperative radiation therapy.

**Key words** : Primary Intraosseous Carcinoma(PIOC), Odontogenic cyst

## I. 서 론

원발성 골내 상피암(Primary Intraosseous Carcinoma ; PIOC)은 매우 드문 질환으로, 악골내에서 편평상피세포암의 조직학적 소견을 보이는 것으로서, 구강점막이나 피부, 상악동이나 비점막과는 연결이 없으며, 전이성 암종의 소견도 보이지 않는 것을 의미한다<sup>1)</sup>.

1972년 세계보건기구(WHO)에서는 악골내에 발생하는 치성암종을 PIOC, 악성 범랑아세포종(Malignant Ameloblastoma) 그리고 치성낭종의 상피층이 악성변이된 암종으로 분류하였으며, PIOC는 치성낭종이나 종양에서 발생한 악성종양을 제외한 암종으로, 악골내 상피조직에서 유래하는 것으로 추정하였다<sup>2)</sup>.

그 후 1982년 Elzay<sup>3)</sup>는 세계보건기구의 정의에서 제외되었던 치성낭종의 상피층이 악성변이된 암종, 신체의 타 부위로 전이된 범랑아세포종(Malignant Ameloblastoma)과 범랑아세포종이 악성변이된 암종, 즉 범랑아세포암종(Ameloblastic Carcinoma)까지

PIOC에 포함시켜 세가지 종류로 분류하였으며, 1989년 Waldron과 Mustoe는 Elzay의 분류에 골내점액유포피암(Intraosseous mucoepidermoid carcinoma)까지 포함시켜 가장 광범위한 질환군으로 분류를 하였다<sup>4)</sup>.

저자 등은 발치부위의 지속적인 둔통과 치은의 종창을 주소로 내원한 환자에서 임상적 검사 및 방사선학적인 검사를 통해 치성낭종으로 진단하고, 낭종의 적출 및 골이식을 시행하였으나, 병리조직학적 검사결과 낭종의 상피층이 악성변이를 보여 치성낭종에서 기원한 원발성상피암(PIOC, Type 1)<sup>5)</sup>으로 진단하고 상악골절제술(Partial Maxillectomy)과, 변형경부곽청술(mRND)을 시행하였고, 술 후 방사선요법을 시행한 증례에 대해 보고하는 바이다.

## II. 증례보고

62세의 남자환자가 발치부위의 지속적인 둔통과 치은의 종창을 주소로 본원에 내원하였다. 과거력상, 3개월 전 치아의 동요로 인해 타병원에서 발치를 시행한 상태였으며, 구강내 소견으로는 구강점막의 궤양이나 치은의 괴사 등의 이상소견은 발견할 수 없었으며, 방사선검사 결과 잘 경계된 부위의 낭종성 방사선 투과성을 보여, 발치 후에 잔존하고 있는 치근단 낭종으로 진단하였다(Fig. 1).

환자는 전신마취하에 낭종의 적출술과 경골(Tibia)로부터 자가골 이식술을 시행하였다. 술 중 낭종의 적출에 특이 소견은 없었

### 김 철 환

701-600, 대구광역시 동구 신암동 302-1

파티마병원 치과/구강악안면외과

Chul-Hwan, Kim

Dept. of Dentistry/Oral & Maxillofacial Surgery, Fatima Hospital

302-1 Simam-Dong, Dong-Gu, Daegu

Tel. (053) 940-7390 Fax: (053) 954-7417

E-mail: dental@fatima.or.kr

으며, 과골성 경계를 가진 전형적인 낭종의 구개형태를 나타내었고, 이장상피와 그 내부에는 만성적인 감염으로 인한 것으로 추정되는 농과 유사한 물질이 관찰되었다.

환자는 술 후 1일째에 보행이 가능하였으며 구개점막에 아주 작은 크기의 천공이 존재하였으나, 이식된 골의 감염이나 다른 특이소견은 보이지 않았고 잘 치유되는 모습을 보였다.

그러나, 해부병리조직검사 결과 이장상피층의 침윤 및 핵의 다형화와 과염색성을 나타내는 편평상피세포암으로 진단되었고 (Fig. 2, 3), 이에 따라 전신검사를 시행한 결과 경부방사선 사진에서 우측 경부에 서너개의 크기가 증가된 임파절이 모여있는 것이 관찰되었고, 이하선 하방에 직경 12mm 정도의 종괴가 존재하여 암의 경부전이 의심되었으나 확진은 할 수 없었으며, 흉부 및 복부의 방사선 사진과, 위장관 내시경 검사결과 특이할 사항은 없었다. 골스캔상에서는 상악골과 우측 경골 근위부에 방사선동위원소의 조영증가가 관찰되었다.

이상과 같은 임상적, 방사선학적, 조직학적 소견을 통하여 Elzay분류의 Type I 원발성 골내 상피세포암으로 진단하였으며, AJCC의 분류에 따른 T<sub>2</sub>N<sub>1</sub>M<sub>0</sub>, Stage III로 잠정 진단하고, 이환측의 상악골절제술 및 경부곽청술을 계획하였다.

중안면부 박리술(Mid-Facial Degloving Approach)을 이용하여 상악골을 절제하였고, Martin씨 절개를 통하여 부신경을 보존하는 변형 경부곽청술을 시행하였다. 술 후 병리조직검사결과, 구개와의 연결이 없고 낭의 소견이 뚜렷하여 낭에서 기원한 편평상피세포암으로 진단하였으며, 이하선 하방의 종물은 와르틴씨 종양(Warthin's tumor)으로 판명되었으며 그 외 절제된 경부 임파절에서의 특이 소견은 없었다.

술 후 구강점막과 절제된 골면은 특이 증상 없이 양호하게 치유되었고, 1개월 후부터 약 3개월 동안 60Gy의 방사선치료를 시행하였으며, 수술 2년 후 현재까지 임상적, 방사선학적 검사 결과 재발이나 전이소견은 없었다(Fig. 4, 5).

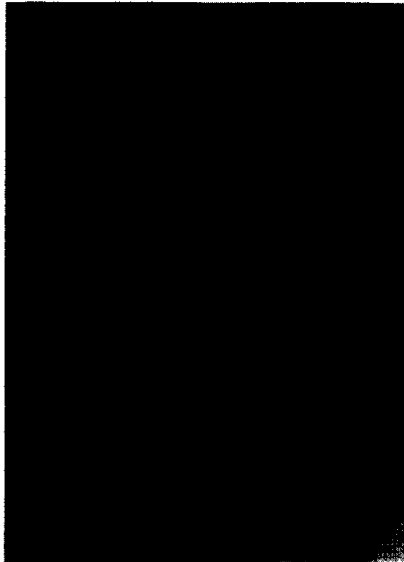


Fig. 1. 초진시 방사선소견.

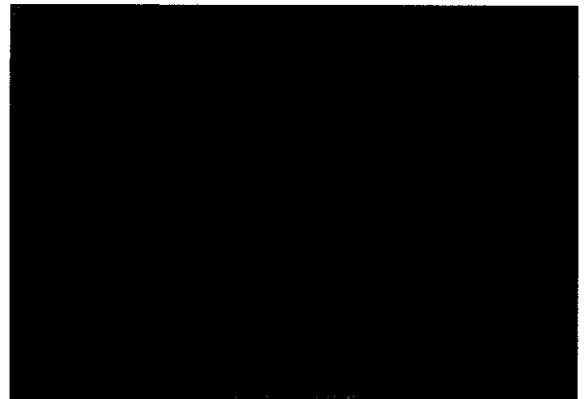


Fig. 2. 낭종상피의 침윤이 관찰됨.

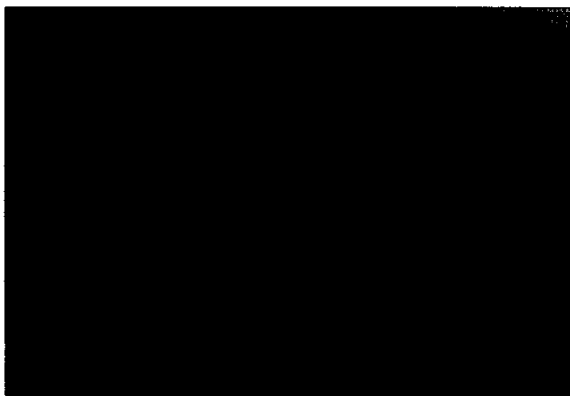


Fig. 3. 핵의 다형화와 과염색성을 나타냄.



Fig. 4. 술 후 1년에 촬영한 Follow-up CT.



Fig. 5. 보철물을 장착하고 있는 구강내 사진.

### III. 총괄 및 고찰

구강내의 편평상피세포암은 주로 치은 등의 구강점막이나 타액선, 또는 원발부의 종양의 전이로 인해 발생하지만, 원발성 골내 상피암(PIOC)은 악골내에서 원발성으로 발생하는 매우 드문 질환이다<sup>1,6,7)</sup>.

악골에서 원발성으로 상피세포암이 발생하는 경우는 그 정의와 어휘가 혼동되어, 1913년 Morison과 Deeley, Loose 등이 처음 “중심성 유포피암종(Central Epidermoid carcinoma of the jaws)”의 병명으로 소개한 이래, 1948년 Willis가 “치조골내 유포피암종(Intra-alveolar epidermoid carcinoma)”으로 보고하였으며, Shear는 “원발성 치조골내 유포피암종(Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma)”으로 명명하였다<sup>4,7)</sup>. 1972년 Pindborg 등이 “원발성 골내 상피암(Primary intraosseous carcinoma)”의 병명으로 분류한 이래로 이 명칭이 널리 사용되고 있다<sup>8)</sup>.

세계보건기구(WHO, 1972년)의 분류에 의하면 말라세의 상피잔사(Malassez's rest) 또는 안면 발생당시 융합부위에 갇힌 상피잔사로부터 유래되어 구강점막과 관계없이 악골내에서 원발성으로 발생한 상피암으로 정의하였으며, 낭종에서 기원한 종양이나, 조직학적으로는 양성이지만 타부위로 전이가 일어난 악성법랑아세포종과 법랑아세포종이 악성으로 전이한 경우는 PIOC의 분류에서 제외하여 협의의 분류를 하였다<sup>2)</sup>. 그러나, 1982년 Elzay<sup>9)</sup>는 편평상피세포암이 법랑아세포종<sup>8,9)</sup>이나 치성낭종<sup>10,11)</sup>으로부터도 발생할 수 있기 때문에, 이 분류를 수정하여 법랑아세포종이나 치성낭종에서 기원한 상피암도 모두 광의의 PIOC의 분류에 포함시켜야 한다고 주장하였다. 그 후 1989년 Waldron과 Mustoe는 타액선이 안면부에만 존재한다는 것에 기초를 두어 Elzay의 분류에 골내 점액유포피암(Intraosseous Mucoepidermoid Carcinoma)까지 PIOC로 분류하였다<sup>12)</sup>.

치성낭종의 상피층은 법랑아세포종이나 점액유포피암, 편평상피세포암 등의 다른 종양으로 변이될 수 있는 잠재를 가지고 있다<sup>10,13)</sup>. 그러나 이들의 악성전이는 아주 드물며, 그 원인에 대해서는 정확히 알려져 있지 않지만 몇 가지 가설이 존재한다. Hardman<sup>14)</sup>과 Kay와 Kramer<sup>15)</sup> 등은 만성염증상태가 악성변이를

야기한다고 하였다. Browne와 Gough<sup>16)</sup>, Van der Waal<sup>17)</sup> 등은 이러한 악성변이가 상피의 과증식과 상피의 이형성에 따른 각질의 이형성(keratin metaplasia)과 연관된다고 하였으나, Eversole, Sabes, Robin<sup>18)</sup> 등은 악성변이가 존재하는 잔유낭종의 약 4분의 1에서만 각화된 층이 존재한다고 보고하였다. Anand와 Arrowood<sup>19)</sup>, Bradley와 Thomas<sup>20)</sup> 등은 상피세포에서의 만성 염증과 낭종 내 액체에 의한 압력이 악성 변이의 요인이라고 보고하였다.

방사선 검사 상 단순 치성 낭종과 악성변이를 감별하기는 매우 어려우며, 임상적으로도 이환 부위의 종창, 만성적인 동통, 누공 등이 관찰될 뿐, 악성 병변으로의 특이한 소견은 보이지 않기 때문에 최종진단은 조직검사에서만 얻어질 수 있다고 보고되고 있다<sup>20)</sup>. 낭종상피에서 악성의 변이를 보이는 경우는 몇몇 다른 해석으로 받아들여질 수 있는데, 이미 존재하고 있던 낭종의 상피에 원격부위에서 전이되거나, 인접한 악골에서의 상피세포암이 낭종으로 침윤한 경우, 또는 원발 암종이 낭종형태의 병변을 일으킨 경우, 낭종의 상피가 단독으로 악성변이를 일으킨 경우 등으로 해석될 수 있다. Hampl과 Harigan<sup>21)</sup>은 치성낭종에서 악성병변으로 변형되는 가장 확실한 근거는 정상 상피와 이형(Dysplastic) 상피 사이에 존재하는 변이 영역(Transitional zone)이라고 서술하였다. 하지만 이러한 변이 지역은 악성변이의 초기에만 나타나고, 후기에는 암종이 낭종의 상피를 모두 파괴하므로 항상 존재하는 것은 아니다<sup>22)</sup>.

골내에 존재하는 편평상피세포암은 그 소견이 원발부에서 전이된 암종의 소견과 유사하므로 PIOC의 진단을 위해서는 원발부에서의 전이 또는 구강, 상악동, 코의 상피에서 발생한 암이 직접적으로 확산된 경우와 감별하여야만 한다. 본 증례에서도 구강내 점막은 정상이었으며 전신의 방사선 검사, 및 위장관 내시경 검사, 초음파검사, 전산화단층촬영 등을 통해 원격부위에서의 어떠한 암종의 기원도 발견되지 않았으며, <sup>99m</sup>Tc를 이용한 골스캔검사에서도 타골격에서의 특이소견을 발견할 수 없었으므로, 상악골에 발생한 잔유 낭종의 상피가 악성의 변이를 보인 것으로 사료된다.

임상적으로 이 질환은 주로 30~60대에 호발하며 여성보다는 남성에서 그 빈도가 높고, 상악에서보다 하악에서 3배 이상 빈발한다<sup>23)</sup>. 대부분의 문헌에서 환자는 주로 악골의 종창이나, 동통을 호소하였으며, 드물게는 안면부의 지각이상을 호소하기도 한다. 이는 종양이 하치조신경의 신경혈관계에 침윤하였을 때 생길 수 있다. Kramer와 Scribner<sup>24)</sup> 등은 함치성낭종에서 기인한 편평상피세포암이 신경혈관계를 따라 전파됨을 보고하였다.

종양의 치료는 조대술, 적출술, 부분절제술(En bloc resection), 부분 또는 전체의 상악골 및 하악골 절제술을 시행할 수 있으며, 광범위한 경부확청술을 요할 수도 있다. 최근의 보고에 의하면 낭종에서 기인한 상피세포암의 경우, 약 50% 정도에서 술자가 술 전에 악성의 변이를 알지 못하고 낭종의 적출술만을 시행하였으며, 최종진단은 병리학적검사에 의해 이루어졌다고 한다. 그 후 대부분의 증례에서 연관된 악골의 부분 또는 전체절제술을 시행하였다고 보고되고 있다<sup>1)</sup>. 본 증례에서도 초기에 낭종성

질환으로 진단하여 적출술과 골이식술을 시행하였으나, 병리검사결과 낭종에서 변이된 편평상피세포암으로 진단되어 부가적인 악골의 절제술을 시행하였다.

PIOC의 예후에 대해서는 명확히 알려져 있지는 않으나 Shear<sup>7)</sup> 등의 연구에 의하면 5년 생존율이 30~40%, Ruskin<sup>25)</sup> 등은 2년 생존율이 40%, Waldron<sup>1)</sup> 등은 36증례에 대해 2년 생존율이 53%라고 보고하였다. 낭종에서 기인한 상피세포암(PIOC Type 1)과 악골내에 원발성으로 발생한 암종(PIOC Type 3)의 예후에는 차이가 있다. 문헌의 고찰에 의하면 전자의 경우 더 좋은 예후를 나타내며, 후자의 경우 더 나쁜 예후를 나타낸다고 할 수 있다. Elzay는 악골내에서 원발성으로 발생한 암종의 경우 2년 생존율이 40%정도라고 하였으며, 그 중 66%에서 임상적, 조직학적으로 종양의 전이가 일어났음을 보고하였다. 이와는 대조적으로 Pearcey는 낭종에서 기인한 상피세포암의 14증례 중 단 한 경우에서 종양의 전이가 일어났음을 보고하였다<sup>26)</sup>.

본 증례에서는 술 후 2년간 경과 관찰한 결과 현재까지 재발이나 전이소견은 보이지 않고 있다.

#### IV. 결 론

원발성 골내 상피암의 임상적 양상은 치아 및 치조골의 질환과 유사한 증상을 나타낸다. 우식이나 매복치 주위의 애매모호한 동통, 치조골의 융기나 치관주위염과 같은 증상을 나타내기도 하며 증상의 치료로 치아를 발치하거나 항생제 등을 투여할 수도 있다. 이러한 치료 후 증상은 더욱 심해져 개구장애나 종물의 현저한 성장이나, 악성종양을 의심하게 하는 지각이상 등의 증상을 나타낼 수도 있다. 대부분의 경우에는 상기한 PIOC의 증상들은 실제로 치성기원의 문제들일 수 있지만, 발치하기 전 광범위한 방사선 검사나, 이러한 환자의 치료 후 면밀한 검사가 필요하다.

저자들은 임상적, 방사선학적인 검사에서 치성낭종의 진단하에 낭종적출술을 시행한 환자에서 조직검사 결과 치성낭종에서 유래한 편평상피세포암(PIOC, Type 1)으로 최종 진단된 환자의 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다<sup>27)</sup>.

#### 참고문헌

1. Waldron CA, Mustoe TA : Primary intraosseous carcinoma of the mandible with probable origin in an odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 67 : 716-724, 1989.
2. Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H : Histologic typing of odontogenic tumors, jaw cysts and allied lesions. Geneva. World Health Organization, 1972, p.35-36.

3. Elzay RP : Primary intraosseous carcinoma of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 54 : 299-303, 1982.
4. Lipincott JB : American Joint Committee on Cancer : Manual for staging of cancer, 4th ed. Philadelphia, 1992, p3-29.
5. Casson PR, Bonnor PC, Converse JM : The midface degloving procedure. *Plast and Reconstr. Surg.* 53 : 102-103, 1974.
6. Laskin DM : Oral and maxillofacial surgery, St. Louis, C. V. Mosby, 1980, p.285.
7. Shear M : Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 97 : 645, 1969.
8. Russell L Corio, Lawrence I. Goldblatt, Paul A. Edwards and Kenton S. Hartman : Ameloblastic carcinoma : A clinicopathologic study and assessment of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 64 : 570-576, 1987.
9. Sloodweg PJ, Muller H : Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg* 57 : 168-176, 1984.
10. Eversole WR, Sabes and Sheldon Rown : Aggressive growth and neoplastic potential of odontogenic cysts. *Cancer.* 35 : 270-282, 1975.
11. Samir K. El-Mofty, Michael, T. Shannon and Mustoe TA : Lymph node metastasis in spindle cell carcinoma arising in odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 71 : 209-213, 1991.
12. 김철환, 김미숙 : 하악골에 발생한 Primary Intraosseous Carcinoma의 치험례, 대한악안면성형재건외과학회지 19 : 200-208, 1997.
13. Stoelinga PJW, Bronkhorst FB : The incidence, multiple presentation and recurrence of aggressive cyst of the jaws. *J Cranio Max Fac Surg* 16 : 184-195, 1988.
14. Hardman FG : Carcinoma arising in dental cyst. *Br J Oral Surg* 1 : 124-131, 1963.
15. Kay LW, Kramer IRH : Squamous cell carcinoma arising in a dental cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 15 : 970-979, 1962.
16. Browne RM, Gough NG : Malignant change in the epithelium lining of odontogenic cysts. *Cancer* 29 : 1199-1207, 1972.
17. Van der Waal I, Rauhamaa R, Van der Kwast WAM, Snow GB : Squamous cell carcinoma arising in the lining of odontogenic cysts. *Int J Oral Surg* 14 : 146-152, 1966.
18. Anand VK, Arrowood JP : Malignant potential of the odontogenic keratocyst. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 111 : 124-129, 1994.
19. Bradley N, Thomas DM : Squamous cell carcinoma arising in an odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 17 : 260-263, 1988.
20. Schwimmer AM, Morrison SN : Squamous cell carcinoma arising in residual odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 72 : 218-221, 1991.
21. Hampl F, Harrigan WF : Squamous cell carcinoma possibly arising from an odontogenic cyst. *J Oral Surg* 31 : 359-362, 1973.
22. Gardner AF : A survey of odontogenic cysts and their relationship to squamous cell carcinoma. *J Canad Dent Assn.* 3 : 161-167, 1975.
23. Lindqvist C, Teppo L : Primary intraosseous carcinoma of the mandible. *Int J Oral Maxillofac Surg* 15 : 209-214, 1986.
24. Kramer HS, Scribner JH : Squamous cell carcinoma arising in a dentigerous cyst - report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 19 : 555-561, 1965.
25. Ruskin JD, Cohen DM, Davis LF : Primary intraosseous carcinoma. *J Oral Maxillofac Surg* 46 : 425-432, 1988.
26. Pearcey RG : Squamous cell carcinoma arising in dental cysts. *Clin Radiol* 36 : 387-388, 1985.
27. 김용각, 박형국, 권혁진, 현재훈 : 치성낭종으로부터 유래된 편평상피세포암종, 대한악안면성형재건외과학회지 19 : 209-214, 1997.