

신생아의 치조제에 발생한 양성 종물

이제호 · 김소화 · 윤정훈* · 최병재

연세대학교 치과대학 소아치과학교실, 구강병리학교실*

국문초록

신생아에서 흔히 발생하는 연조직 종양으로는 신생아의 구개 및 치은 낭종(palatal & gingival cyst of the newborn), 선천성 치은종(congenital epulis), 혈관종(hemangioma), 기형종(teratoma), 화농성 육아종 및 자극성 섬유종(pyogenic granuloma & irritation fibroma)이 있다. 이렇게 신생아의 치조제에서 발생한 연조직 종양은 대부분 외과적으로 절제하여 치료하며, 치료하지 않는 경우 흡인(aspiration)으로 인한 기도 폐쇄 및 호흡 곤란, 구강으로 수유시 불편감, 비강으로 수유시 구도가 불가능해 흡인폐렴(aspiration pneumonia) 유발 가능성이 있다.

본 증례는 신생아의 치조제에 발생한 연조직 종양으로, 외과적으로 절제하여 치료하였으며, 조직 검사 소견상 화농성 육아종 및 자극성 섬유종과 유사하였지만 다핵형 거대세포(multinucleated giant cells)가 관찰되었고 선천적으로 발생하였다는 점에서 차이가 있었다. 이 종물의 병리 기전은 아직까지 명확하지 않으며 어떤 특정 질환으로 포함시키는 데 문제점이 있으므로 이에 보고하는 바이다.

주요어 : 연조직 종양, 신생아, 화농성 육아종, 자극성 섬유종

I. 서론

신생아에서 흔히 발생하는 종양에는 신생아의 구개 및 치은 낭종, 선천성 치은종, 혈관종, 기형종, 화농성 육아종 및 자극성 섬유종 등이 있을 수 있으며¹⁾, 악성종양은 거의 발병하지 않는다²⁻⁴⁾.

신생아의 구개 및 치은 낭종(palatal & gingival cyst of the newborn)에는 Epstein's pearls과 Bohn's nodules이 있다. 임상 특징을 보면, 신생아의 65~85%에서 나타나는 매우 흔한 질환으로 크기는 1~3mm 정도로 작고 백색 또는 황백색의 구진(papules)으로 나타난다. 주로 경구개와 연구개의 경계부에서 정중선 가까이 나타나거나 치조점막에서 발생하고 보통 2~6개의 낭이 집단적으로 발생한다. 조직학적으로는 중층편평상피(stratified squamous epithelium)로 둘러싸이고 keratin으로 채워진 낭이 특징적이다. 신생아의 구개 및 치은 낭종은 스스로 파열(rupture)되어 자연적으로 소실되므로 특별한 치료는 필요하지 않다⁵⁾.

선천성 치은종(congenital epulis)은 전치부 치조제의 치은에서 주로 발병하며 하악보다는 상악에 호발하고 성별로는 여자 어린이에서 호발한다. 일반적인 형태는 둥글거나 타원형이

고, 부드러운 점막으로 둘러싸인 분홍색의 종물로 간혹 분엽화되어 나타나기도 하며 크기는 대부분 20mm 이하이지만 수 mm에서 90mm에까지 이르는 경우도 보고되어 있다⁶⁾. 치은 조직과는 유경형이나 무경형으로 연결되어 있다. 선천성 치은종의 조직학적 특징은 과립세포의 증식으로 크고 둥글거나 각진 세포가 호산성 과립성 세포질(eosinophilic granular cytoplasm)에 둘러싸여 있으며 세포의 핵은 작고 둥글거나 타원형이며 세포의 한쪽으로 치우쳐 있다^{5,7)}. 선천성 치은종은 치조제 높이에서 외과적 절제하는 것이 가장 바람직하며⁸⁾ 크기가 작은 경우는 치료하지 않아도 스스로 치유되기도 한다^{9,10)}.

기형종(teratoma)은 신생아 4,000명당 한 명의 빈도로 나타나는 매우 드문 선천적 병소로 이 중 10%만이 두경부에서 발견되며^{11,12)} 구인두강(oropharyngeal cavity)에서 발생하는 경우는 2% 이하이다¹³⁾. 특히 구강이나 인두에서 발병하는 기형종을 epignathus라고 한다⁹⁾. 상악에서 하악보다 2~4배정도 호발하며, 성별로는 여자어린이에서 약 10배정도 많이 나타난다¹²⁾. Epignathus의 악성으로의 전환 잠재성은 조직학적 특징과 발달 단계에 따라 예측이 불가능하지만¹²⁾ 주로 신생아에서는 양성으로 나타나며 연령이 증가할수록 악성 종양으로 나타날 확률이 급격히 증가한다. 임상 증상은 종물의 크기에 따라 달라지

며, 특징은 매우 조직화(organized)되어 있고 3가지 germ cell layer의 요소 모두를 가지고 있다는 것으로, 명확하게 구별되는 다양한 기관을 포함하므로¹³⁾ 다른 종양들과 쉽게 구별된다. Epignathus는 기도폐쇄 위험이 있으므로 가능한 한 조기에 외과적 절제하여 치료하는 것이 바람직하며¹¹⁾, 이것이 불가능한 경우 화학요법(chemotherapy)을 하기도 한다.

혈관종(hemangioma)은 혈관들이 양성증식한 것으로 진성 종양이라기 보다 과오종(hamartoma)이나 형성이상(malformation)에 가깝다. 혈관종은 신생아의 1.1~2.6%에서, 어린이의 10~12%에서 발생하며 1/4~1/3 정도가 두경부에 발생한다. 혈관종은 여자 어린이에서 3~5배 호발하며 밝은색을 나타낸다. 신생아 시기에 첫 몇 주 동안 붉은 색소의 침착으로 시작되어, 그 후 6~12개월간 빠르게 성장하여 융기되고 분엽화된 종괴를 형성하며, 색깔도 붉은 자주색이 된다. 다음 수년간 서서히 크기가 감소하여 대부분 7세 이전에 사라진다. 조직 소견은 특징적으로 수많은 내피세포(endothelial cells)가 보이나, 성장하면서 내피세포는 납작해지고, 모세혈관 크기의 혈관이나 직경이 크고 확장된 다수의 혈관이 관찰되며, 이차적으로는 혈전증(thrombosis)과 정맥석(phlebolith)을 형성하기도 한다. 혈관종의 치료는 전신적인 corticosteroids를 투여하여 병소의 크기를 줄이거나, 수술 전치치로 전색(embolization)을 시행해 수술시 출혈을 감소시킬 수 있다. 종양의 크기와 위치, 증상에 따라 조심스럽게 외과적 절제하며, 최근에는 laser therapy가 각광받고 있다⁵⁾.

화농성 육아종(pyogenic granuloma)은 종양처럼 성장하지만 본질적으로 종양은 아니며, 감염과도 관계 없다. 원인은 국소적 자극이나 외상이며 이름과는 달리 진성 육아종은 아니다. 임상적으로 화농성 육아종은 매끄럽거나 분엽화된 종물로 나타나고 유경형이나 무경형으로 부착되어 있으며 표면에는 궤양이 보인다. 색깔은 분홍색, 붉은색 및 자주색으로 다양하며 혈관분포가 많아 촉진 시 쉽게 출혈되며 성장이 매우 빠른 특징을 보여 보호자나 임상가를 긴장시킨다. 상악 전치부 치은에 가장 호발하며 입술, 혀, 협점막 순으로 호발한다. 여자 어린이에서 호발하며 조직학적으로 혈관이 매우 증식되어 있어 육아조직과 유사하게 보인다. 수많은 크고 작은 내피이장관(endothelium-lined channels)이 분엽성 배열(lobular arrangement)하고 있어야 화농성 육아종으로 진단내릴 수 있으며¹⁴⁾, 중성백혈구(neutrophil), 형질세포(plasma cell), 임파구(lymphocyte)와 같은 염증세포들의 침윤이 관찰되며 특히 중성백혈구의 침윤이 두드러진다. 화농성 육아종은 끝막 하방으로 외과적 절제하여 치료한다⁵⁾.

자극성 섬유종(irritation fibroma)은 화농성 육아종처럼 국소적 자극이나 외상에 대한 반응으로 섬유성 결체조직이 증식하여 발생한다¹⁵⁾. 협점막, 혀, 치은 순으로 호발하고 매끈한 표면을 가진 분홍색의 소결절(nodules)로 나타나며 유경형이나 무경형으로 부착되어 있고 임상적 증상은 없는 것이 일반적이다. 조직학적으로는 섬유성 결체조직의 소결절 종괴가 중층편

평상피로 덮여 있는데, 이 결합조직은 치밀하고 교원질(collagen)이 풍부하다. 하방의 섬유성 종괴 때문에 rete ridges는 위축되어 있으며 임파구, 형질세포와 같은 만성 염증 세포가 산재되어 있다. 자극성 섬유종은 외과적 절제하여 치료한다⁵⁾.

본 증례의 환아는 선천적으로 치은 조직에서 발생한 등글고 유경형의 종물을 주소로 신생아 집중치료실에서 의뢰되었으며, 임상적 소견에 의거하여 선천성 치은종 가진 하에 흡인 위험이 있어 봉합결찰(suture ligation) 후 외과적으로 절제하였으며, 조직생검 결과 현재 명명되어 있는 어떤 종양과도 조직 소견이 일치하지 않아, 아직 명명되지 않은 특정 질병으로 추측되어 이에 보고하는 바이다.

Ⅱ. 증례 보고

1. 증례 1

생후 6일된 여환아가 오른쪽 위 잇몸에 이상한 것이 있다는 것을 주소로 내원하였다. 임상 소견으로 상악 우측 치조제 부위의 치은에서 황색 및 분홍색의 결절성 연조직 종괴가 관찰되었으며 크기는 0.6×0.3cm 정도였다(Fig. 1). 유경형으로 치은에 부착되어 유동성이 있어 흡인 위험이 있었으므로 소아과와 협의의 결과 신생아 집중 치료실에 입원하여 조기에 절제하기로 하였다.

다음날 신생아 집중 치료실에서 1 : 10만 epinephrine이 포함된 lidocaine으로 상악 우측 치은에 국소적 침윤마취 후 봉합 결찰하여 No.15 blade로 완전하게 단순절제(simple excision)하였으며 지압으로 완전 지혈 확인 후 조직생검 의뢰하였다.

조직생검 결과 병리적 소견은 ① 표면 점막의 궤양 및 세균 집락(Fig. 2) ② 다핵 거대 세포(multinucleated giant cells)(Fig. 3) ③ 어린 섬유아세포(young fibroblasts)와 모세



Fig. 1. Pre-operative intraoral photograph (Case 1).

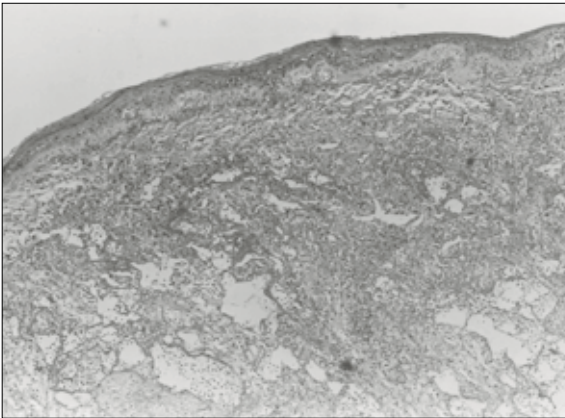


Fig. 2. Surface mucosal ulceration & bacterial colonies (Case 1).

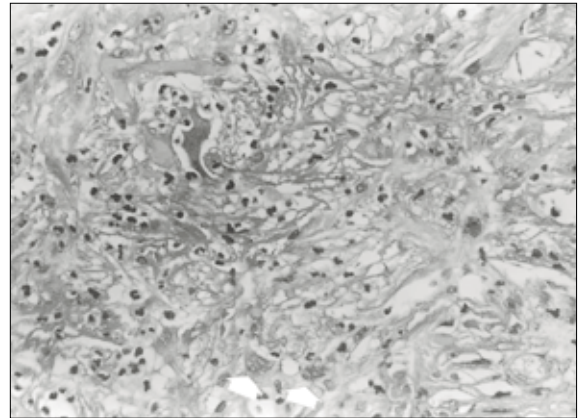


Fig. 3. Multinucleated giant cells (Case 1).

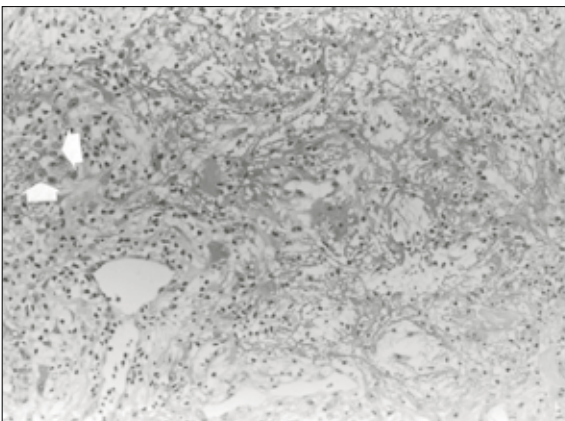


Fig. 4. Young fibroblasts & capillary proliferation (Case 1).

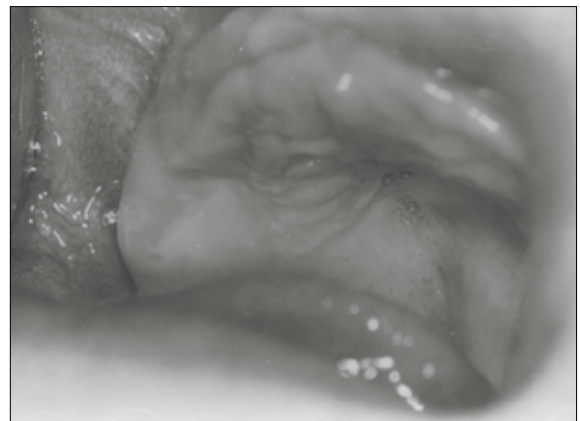


Fig. 5. At 4 month intraoral photograph (Case 1).

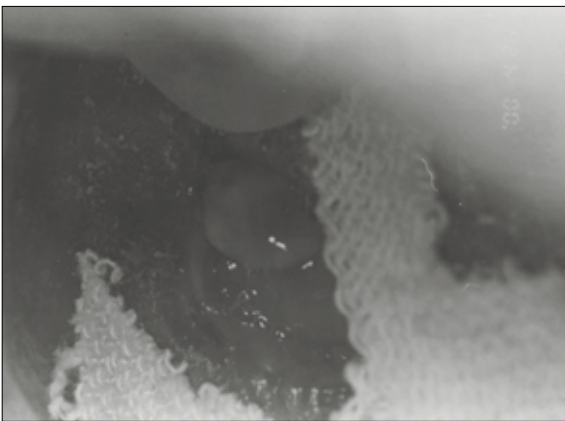


Fig. 6. Pre-operative intraoral photograph (Case 2).



Fig. 7. Ulceration, acute nonspecific inflammation & granulation tissue formation surrounding a developing tooth (Case 2).

혈관 증식(Fig. 4)이 있었으며 다형핵 백혈구(PMN) 및 조직구 침윤이 관찰되었다.

4개월 후 정기검진시 상악 우측 치은은 완전하게 치유된 것이 관찰되었다(Fig. 5).

2. 증례 2

생후 52일 된 미숙 남환아가 하악 전치부 치은에 선천치를 포함하는 연조직 종괴가 있다는 것을 주소로 신생아 집중 치료실에서 의뢰되었다. 임상 소견상 하악 전치부 치조제 부위의 치

에는 분홍색 및 회색의 단단하고 유동성이 있는 종물이 관찰되었으며 크기는 0.6×0.3cm 정도였다(Fig. 6). 1개의 선천치를 포함하였으며 유경형으로 치은에 부착되어 유동성이 있었으므로 흡인 위험이 있어 신생아 집중 치료실과의 협의 하에 외과적 절제하기로 결정하였다.

같은날 신생아 집중 치료실에서 1 : 10만 epinephrine이 포함된 lidocaine으로 하악 전치부 치은에 국소적 침윤마취 후 봉합결찰하여 절제하기 위해 당기는 순간 종괴가 치은에서 떨어졌다. 유경형으로 부착되어 종괴가 치은에 남지 않고 선천치를 포함하여 완전하게 떨어졌으므로 지압으로 완전 지혈 확인 후 조직생검을 의뢰하였다.

조직생검 결과 병리적 소견으로 선천치를 둘러싸는 육아조직 형성 및 섬유모세포 증식과 급성 궤양 및 비특이적 염증 소견이 관찰되었다(Fig. 7).

약 3개월 후 정기검진 시 다른 질병으로 신생아 집중 치료실에 계속 입원해 있는 상태였으며 정기검진 결과 하악 전치부 치은은 완전하게 치유되었다.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

본 증례는 신생아의 치조제에서 발생한 연조직 종양에 대한 보고이다. 두 증례 모두 선천성으로 발생하였으며 이 중 두번째 증례는 선천치와 연관되어 나타났다. 두 증례 모두 임상적으로 크기는 0.6×0.3cm 정도였으며 유경형으로 부착되어 유동성이 있었다. 따라서 임상적 소견에 의한 감별진단으로 선천성 치은종, 혈관종, 신생아의 구개 및 치은 낭종, 화농성 육아종 및 자극성 섬유종을 포함시켰다.

본 증례는 임상적 소견만으로 선천성 치은종으로 가진하였지만, 조직 검사 결과 선천성 치은종에서 특징적으로 관찰되는 과립세포가 관찰되지 않았으므로 선천성 치은종은 제외하였다. 혈관종은 신생아에서 가장 흔하게 발생하는 연조직 종양이며²⁾ 본 증례에서 모세혈관의 증식이 관찰되어 capillary hemangioma가 의심되었지만, 혈관종의 조직 소견에서는 본 증례에서 나타나는 염증 소견이 관찰되지 않는다. 신생아의 구개 및 치은 낭종은 조직학적으로 중층편평상피로 둘러싸여 있고 내강은 keratin으로 채워져 있어 명확하게 낭(cyst)의 소견을 나타내므로 본 증례의 조직학적 소견과는 뚜렷이 구별된다. 화농성 육아종 및 자극성 섬유종은 모세혈관과 섬유모세포의 증식으로 육아조직과 유사하게 보이며 표면 궤양을 나타내고 염증 세포의 침윤 등의 조직 소견으로 본 증례와 가장 유사하였지만, 본 증례의 조직 소견에서 보이는 다핵 거대세포가 관찰되지 않으며 선천적으로 발생하지 않는다는 점에서 차이가 있다.

증례 2와 같이 선천치와 연관되어 발생한 연조직 종양에 대한 몇몇 증례가 보고되었는데, Maureen 등¹⁶⁾이 발표한 증례는 6세된 남아로 부모에 따르면 선천치를 손가락으로 제거한 뒤 하악 전치부 치조제에 있던 종물이 급속히 성장하였다고 한다. 따라서 외과적 절제하였으며 조직생검 결과 조직 소견으로 모

세혈관과 급만성 염증세포, 섬유소(fibrin), 섬유조직(fibrous tissue) 등이 관찰되었으므로 선천치와 연관되어 발생한 화농성 육아종으로 진단하였다.

본 증례의 조직학적 소견이 자극에 의해서 발생하는 화농성 육아종 및 자극성 섬유종과 유사하다는 점과 선천치가 연관되었다는 점에서 두 증례 모두 발생기전은 자극에 의한 병변으로 추측되지만 아직 병리기전은 명확하지 않다.

본 증례와 같이 신생아의 치조제에서 발생한 연조직 종양은, 치료하지 않을 경우 흡인이나 기도폐쇄 및 호흡 곤란이 야기될 수 있고, 구강으로 수유시 불편감이 초래되며, 비강으로 수유시 구도가 불가능해 흡인폐렴(aspiration pneumonia) 유발 가능성이 있어⁹⁾ 위험하므로 보호자에게 충분히 설명하여 동의를 얻은 후 외과적 절제하는 것이 가장 바람직하다.

Ⅳ. 요약

본 증례는 신생아의 치조제에서 발생한 양성 종물에 대한 증례이며 진단명은 명확하지 않지만 임상소견과 조직소견을 종합하여 다음과 같이 요약할 수 있다.

1. 임상소견상 본 증례는 선천성 치은종, 혈관종, 신생아의 구개 및 치은 낭종, 화농성 육아종 및 자극성 섬유종과 유사하였다.
2. 증례 1은 조직 소견상 화농성 육아종과 유사하였으나 다핵 거대 세포가 관찰된다는 점에서 차이가 있었다.
3. 증례 2는 선천치의 존재와 조직 소견상 선천치와 연관된 자극성 섬유종과 유사하였으나 선천적으로 발생하였다는 점에서 차이가 있었다.

이상의 결과를 볼 때 두 증례 모두 발생 기전은 자극에 의한 병변으로 생각되지만, 병리 기전은 명확하지 않으며 어떤 특정 질환으로 포함시키는 데 문제점이 있었다.

참고문헌

1. Lindia JW, Hart IJr, Martin TS : Pyogenic granuloma presenting as a congenital epulis. Arch Pediatr Adolesc Med 154:603-605, 2000.
2. Jasser KM : Oral tumors in children: a review. J Clin Pediatr Dent 24(2):134-137, 2000.
3. Bhaskar SN : Oral tumors of infancy and childhood. J Pediatr 63:195-210, 1963.
4. Posnick JC : Paediatric craniofacial surgery: historical perspectives, recent advancement and refinements. Br J Oral Maxillofac Surg 33:343-361, 1995.
5. Brad WN, Douglas DD, Carl HA, Jerry EB : Oral & maxillofacial pathology. Philadelphia. WB Saunders. 23, 388-392, 1995.
6. Terry SO, Michael AS, Cynthia MO : Congenital

- granular cell tumor in the newborn. *Otolaryngol Head Neck Surg* 118:907, 1998.
7. Tayfun A, Bulent E, Metin G, et al. : Obstructive congenital epulis of the newborn. *Plast Reconstr Surg* 99(3):922-923, 1997.
 8. Barry LE, Michael AS, Andrew C : Obstructive congenital epulis in a newborn. *Ann Plast Surg* 27:152-155, 1991.
 9. Tokar B, Boneval C, Mirapoglu S, et al. : Congenital granular-cell tumor of the gingiva. *Pediatr Surg Int* 13:594-596, 1998.
 10. Jingo K, Sachiko K, Chihiro K, Toshirou I : Granular cell tumor (congenital epulis) in the fetus: A Case Report. *J Oral Maxillofac Surg* 55:1356-1359, 1997.
 11. Gunkel AR, Sprinzl GM, Puhlinger FK, et al. : Microendoscopic transoral CO₂-laser resection of an extensive nasopharyngeal and oral teratoma. *Am J Otolaryngol* 18(2):140-144, 1997.
 12. Demajumdar R, Bhat N : Epignathus: a germ-cell tumour presenting as neonatal respiratory distress. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 47:87-90, 1999.
 13. Antonio GO, Marilia HC, Joaquim MB, et al. : Epignathus: report of a case with successful outcome. *J Pediatr Surg* 33:520-521, 1998.
 14. Stacey EM, Philip HC, Robert EF : Lobular capillary hemangioma: the underlying lesion of pyogenic granuloma. *Am J Surg Pathol* 4(5):471-479, 1980.
 15. Louis M, Harold B : Irritation fibroma. report of a case. *NY State Dent J* 36:344-347, 1970.
 16. Maureen GM, Steve L, John MW : Pyogenic granuloma associated with a natal tooth: case report. *Pediatr Dent* 14(3):265-267, 1992.

Abstract

BENIGN TUMORS IN THE ALVEOLAR RIDGE OF NEWBORNS

Jae-Ho Lee, D.D.S., Ph.D., So-Hwa Kim, D.D.S., Jung-Hun Yun, D.D.S., Ph.D.*,
Byung-Jai Choi, D.D.S., Ph.D.,

Department of Pediatric Dentistry, Department of Oral Pathology*, College of Dentistry, Yonsei
University

The soft tissue tumors that occur commonly in newborn infants include palatal and gingival cyst of the newborn, congenital epulis, hemangioma, teratoma, pyogenic granuloma, and irritation fibroma. Such soft tissue tumors in the alveolar ridge of newborns are usually treated by surgical excision. If untreated, they can cause airway obstruction and breathing difficulty due to aspiration. They also cause discomfort during oral feeding. If nasal feeding is tried, since vomiting is impossible, there is a risk of aspiration pneumonia.

In this case, a newborn infant visited our hospital with soft tissue tumor as chief complaint, and the infant was treated by surgical excision. It appeared to be similar to pyogenic granuloma and irritation fibroma upon histologic exam. However, it was different from those diseases since multinucleated giant cells were observed and it was congenital. The pathologic process of this neoplasm is not clear. This case is reported, since it is difficult to classify it as a specific disease.

Key words : Soft tissue tumor, Newborn, Pyogenic granuloma, Irritation fibroma