

# 주변성 법랑모세포종의 증례

전북대학교 치의학전문대학원 구강악안면방사선학교실 및 구강생체과학연구소  
송주섭 · 김경아 · 고광준

## Peripheral ameloblastoma: A case report

Ju-Seop Song, Kyoung-A Kim, Kwang-Joon Koh

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, and Institute of Oral Bio Science, Chonbuk National University

### ABSTRACT

Peripheral ameloblastoma is an extremely rare odontogenic soft tissue tumor with histologic characteristics similar to those of the intraosseous ameloblastoma. It appears in the gingiva and oral mucosa. And it usually does not show any bone involvement on radiographs, except for saucer shaped erosion of underlying alveolar bone. Recurrence is considered uncommon. We report a case of peripheral ameloblastoma with bone involvement. Histologically it presented with follicles and nest of tumor cells with palisading pattern. And radiographs showed the typical saucer shaped alveolar bone erosion at the distal area of right mandibular third molar. At 6-month follow-up after operation, no local recurrence was noted. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol 2006; 36 : 117-21*)

**KEY WORDS :** Peripheral Ameloblastoma; Bone Erosion, Saucer Shaped

주변성 법랑모세포종(peripheral ameloblastoma)은 매우 드물게 연조직에서 발생하는 치성 종양으로서 주로 구강 내 치조점막 부위에서 발견되며, 골내에서 발생하는 골내 법랑모세포종(intraosseous ameloblastoma)과 유사한 조직학적 소견을 보인다.<sup>1-4</sup> 이 병소는 전체 법랑모세포종의 1-5%의 발병률을 보이며 남성에서 더 호발하고 주로 40-60대에 발생된다.<sup>3,5-7</sup> 임상적으로 주변성 법랑모세포종은 대부분 무증상을 보이며 정상 색조를 띠지만 적색을 보이는 경우도 있다. 또한 이 병소는 편평하거나 약간 융기된 소견을 보이기도 하며, 병소의 표면은 평활한 양상을 보인다.<sup>4</sup> 이 병소의 성장 양상은 골내 법랑모세포종에 비해 덜 공격적인 것으로 보고되고 있다. 방사선학적으로 주변성 법랑모세포종은 대부분 골내로의 침범양상이 관찰되지 않지만 드물게 골 외측에서 골 내부로 접시 모양(saucer shape)의 골침식 양상을 보이는 경우가 있다.<sup>1,3,5,7-9</sup> 주변성 법랑모세포종은 성장이 느리고 골 내로의 침범성향이 적으며 재발률이 낮기 때문에 국소적인 적출을 시행하는 등의 보존적인 치료를 시행한다.<sup>1,4,7,10,11</sup>

본 증례는 방사선사진에서 접시 모양으로 골이 침식되

는 상을 보이는 매우 드문 증례로서 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

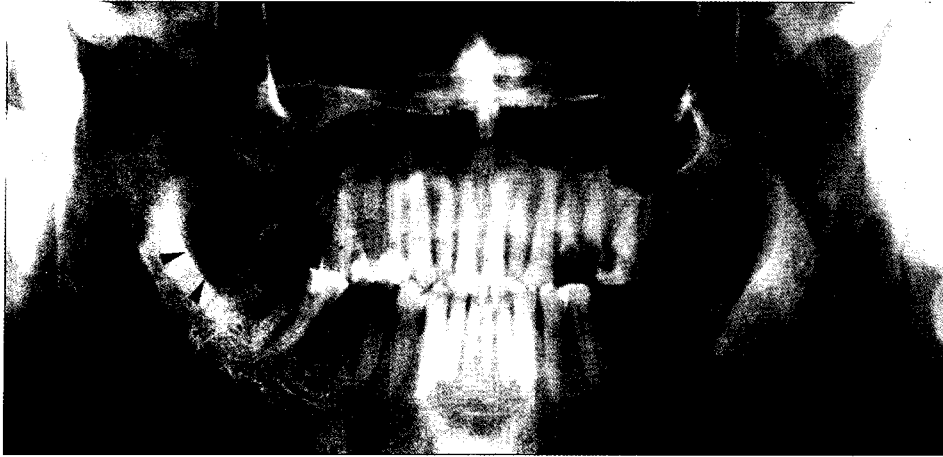
### 증례 보고

63세 남성환자가 하악 우측 구치부 후방 부위의 동통을 동반한 종창을 주소로 전북대학교 치과병원에 내원하였다.

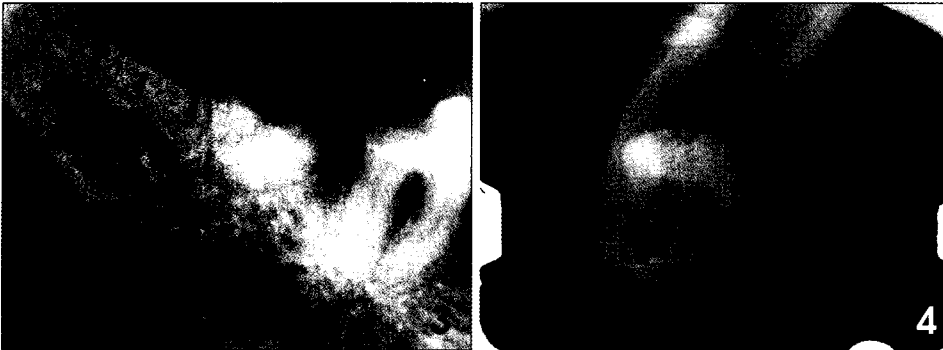


**Fig. 1.** Clinical aspect of the gingiva at the right mandibular posterior region. It shows swelling of the gingiva with normal color and smooth surface.

접수일 : 2006년 3월 21일; 심사일 : 2006년 3월 22일; 채택일 : 2006년 5월 3일  
Correspondence to : Prof. Kwang-Joon Koh  
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, 634-18, Keum-Am Dong, Duk-Jin Gu, Jeon-Ju, Chonbuk 561-712, Korea  
Tel) 82-63-250-2023, Fax) 82-63-250-2081, E-mail) radkoh@chonbuk.ac.kr

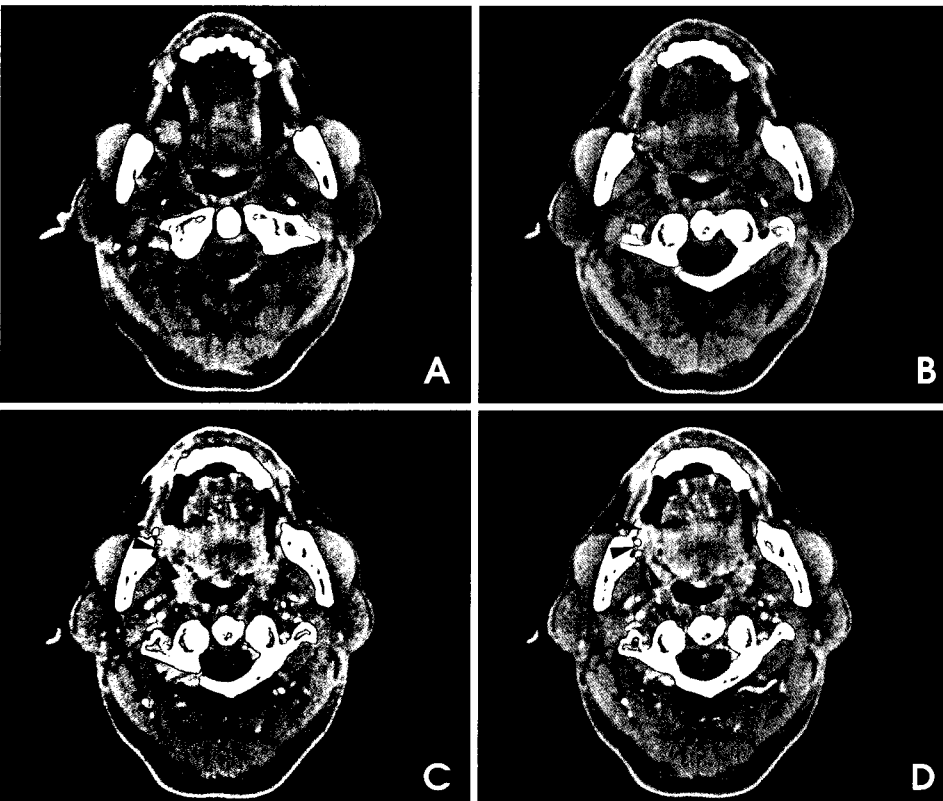


**Fig. 2.** Panoramic view shows shallow saucer shaped alveolar bone erosion at the distal area of the right mandibular third molar.

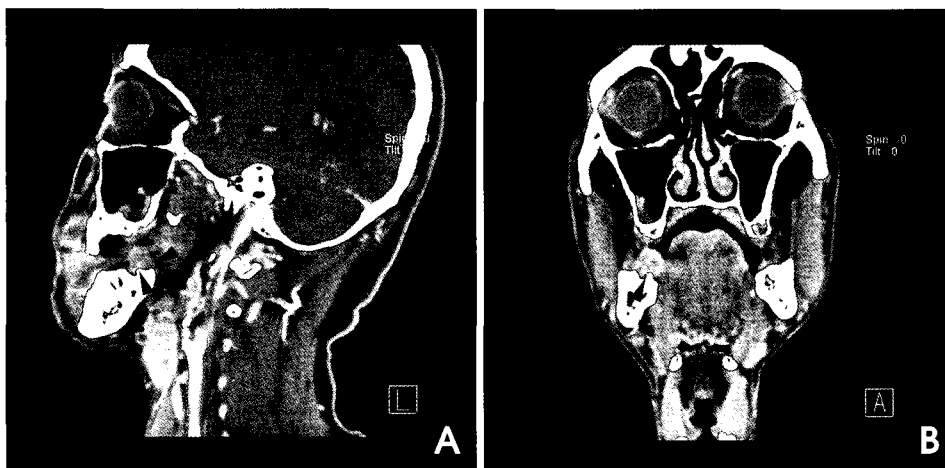


**Fig. 3.** Periapical view shows saucer shaped alveolar bone erosion at the distal area of the mandibular third molar. It appears normal intact lamina dura of the distal root.

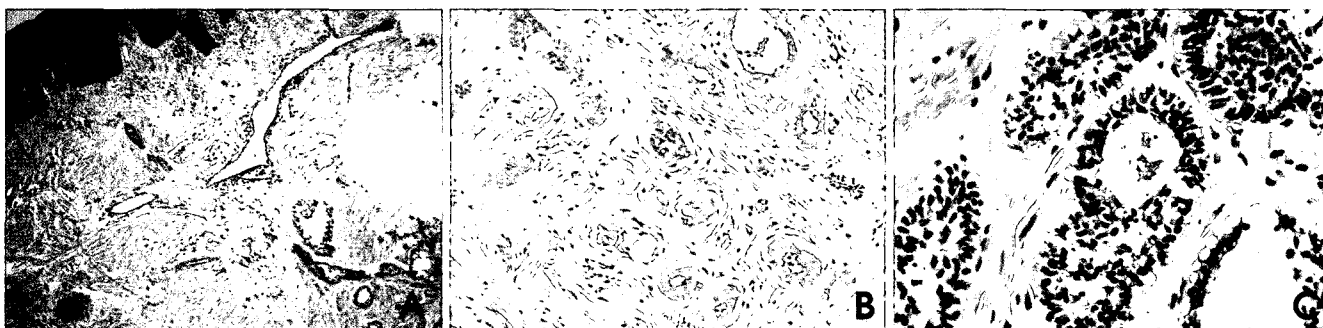
**Fig. 4.** Occlusal view shows increased radiolucency at the distal area of the right mandibular third molar. Neither expansion nor perforation of the buccal or lingual cortex is noted.



**Fig. 5A-D.** Axial CT scans show a soft tissue mass at the lingual surface of the right retromolar pad area. The adjacent lingual cortical bone is eroded.



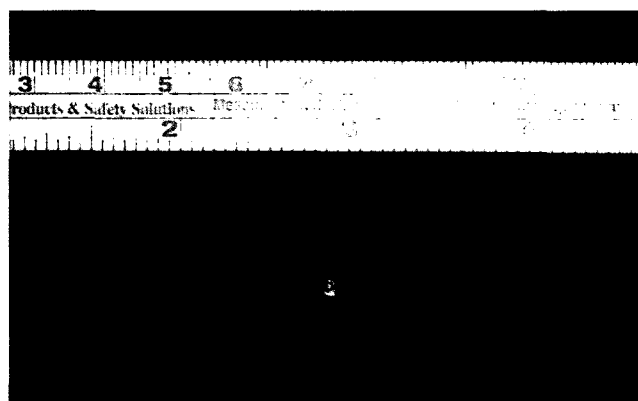
**Fig. 6A, B.** Sagittal CT scan (Fig. 6A) and Coronal CT scan (Fig. 6B) of the same patient. It shows soft tissue mass at the right retromolar pad area and mild erosion of the underlying alveolar bone.



**Fig. 7A-C.** Photomicrographs show infiltration of tumor cells from overlying epithelium into the fibrous connective tissue and no continuity between overlying epithelium and tumor islands is noted (A. H-E stain,  $\times 40$ ). Tumor islands of epithelium appears follicular pattern (B. H-E stain,  $\times 100$ ) and typical palisading pattern of the tumor cells are shown in the tumor islands (C. H-E stain,  $\times 200$ ).

임상검사서 하악 우측 후구치부에서 1.3×1.4 cm 크기의 치은 및 치조점막의 연조직 종괴를 관찰할 수 있었으며 병소 부위의 치은 및 치조점막의 색조는 정상이었다. 병소의 표면은 비교적 평활하였으며 농의 배출은 없었다. 또한 하악 우측 제3대구치는 연조직 종괴에 의해 둘러싸여 있었다 (Fig. 1).

파노라마방사선사진에서 하악 우측 제3대구치 후방 부위에서 치조골이 하방으로 접시모양으로 침식된 상이 관찰되었다 (Fig. 2). 치근단방사선사진에서 하악 우측 제3대구치 후방 치조골이 침식된 상이 관찰되었지만, 하악 우측 제3대구치 원심치근의 치조백선은 건전하였으며 치근흡수는 관찰되지 않았고, 치아의 변위도 없었다 (Fig. 3). 교합방사선사진에서 하악 우측 제3대구치 후방 부위에서 골이 침식된 상이 관찰되었으며 협축이나 설축으로 골이 팽용되거나 천공된 상은 관찰되지 않았다 (Fig. 4). 횡단면 CT 영상에서 하악 우측 제3대구치 부위에서 하악골 내측에 발생한 연조직 병소가 관찰되었다 (Fig. 5A). 또한 연조직 병소에 의해 하악골의 설축 피질골이 침식된 상이 관찰되었다 (Fig. 5B, C, D). 시상면과 관상면 CT영상에서도 우측



**Fig. 8.** Soft tumor mass excised by blunt dissection.

하악골 후방 부위에서 연조직병소 하방으로 하악골의 설축 피질골이 침식된 상이 관찰되었다 (Fig. 6A, B).

조직병리학적으로 종양세포들이 결합조직 내로 침윤성 성장을 하면서 중앙주를 형성하고 있었으며 전체적으로 소포형 (follicular type) 양상을 보였다 (Fig. 7A). 핵들이 울타

리 모양(palisading)으로 배열되어 있었으며(Fig. 7B, C) 역분화나 핵분열 양상은 관찰되지 않았다.

이러한 방사선학적 소견 및 조직소견을 통해 소포형 양상을 보이는 주변성 법랑모세포종으로 최종 진단하였다.

치료는 출혈감소를 위해 전신마취와 더불어 병소 부위에 대한 국소마취를 시행한 후 침식된 치조골을 포함하여 연조직병소를 완전 절제하였다(Fig. 8).

수술 6개월 경과 후 재발은 없었다.

## 고 찰

주변성 법랑모세포종은 치은, 치조점막, 협점막, 구순, 구개부 등의 구강점막에서 매우 드물게 발생하는 치성종양으로서 골내 법랑모세포종과 조직학적으로 유사한 소견을 보인다.<sup>2,4,12</sup> 그러나 임상적으로는 골내 법랑모세포종에 비해 덜 공격적인 성향을 보인다.<sup>10</sup>

Lin 등<sup>6</sup>은 모든 법랑모세포종 중 약 1-5%만이 주변성 법랑모세포종이었다고 보고한 바 있으며, Gurol과 Burkes<sup>5</sup>는 205종의 법랑모세포종 중 단지 8종(4%)만이 주변성 법랑모세포종으로 보고된 바 있다고 하였고, Reichart 등<sup>7</sup>은 3,677종의 법랑모세포종 중 단지 73종(2%)만이 주변성 법랑모세포종이었다고 보고하였다.

주변성 법랑모세포종은 남성에서 호발하며 주로 하악 견치와 소구치 설측 치은부에서 발생된다. 또한 상악에서 발생하는 경우에는 대부분 상악결절 부위에서 발생된다.<sup>13</sup> 그러나 일반적으로 무치악부보다는 유치악 치조점막에서 더 호발하는 경향이 있다. 주변성 법랑모세포종은 임상적으로 무통성의 고착성(sessile) 또는 외방성(exophytic) 병소로 발견되며 병소의 색조는 정상이거나 약간 붉은 색을 띤다.<sup>4</sup> 병소의 표면은 평활하지만 불규칙한 표면 형태를 보이는 경우도 있으며 병소가 성장하여 저작시 대합치에 의한 외상으로 인해 케양이나 각화 소견을 보이는 경우도 있다. 골내 법랑모세포종의 호발연령은 30대 중반인데 비하여 주변성 법랑모세포종의 호발연령은 50대 초반으로서 발생연령에 있어서 차이를 보인다.<sup>3,4,7,14</sup> 종양의 크기는 1.4 cm 정도로 알려져 있다. 또한 주변성 법랑모세포종은 단독 병소로 나타나지만 Hernandez 등<sup>15</sup>은 하악 좌측 측절치 부착치은과 하악 우측 측절치 부착치은에서 동시에 주변성 법랑모세포종이 발생된 증례를 보고한 바 있다.

골내 법랑모세포종의 경우 방사선사진에서 경계가 명확한 단방성 혹은 다방성의 방사선투과성 상으로 관찰되나, 주변성 법랑모세포종은 방사선사진에서 병소와 인접한 골의 변화가 없는 경우가 대부분이며 드물게 골 외측부에서 미약하게 골이 접시 모양으로 침식된 상을 보이기도 한다. Gurol 등<sup>5</sup>은 8종의 주변성 법랑모세포종을 보고하였는데 이 중 단지 하나의 증례에서만 골 외측부에서 접시모양으로 골이 침식된 상이 관찰되었다고 하였으며, Reichart 등<sup>7</sup>

은 73종 중 5종에서만 골 외측부에서 접시 모양으로 골이 침식된 상이 보고되었다고 하였다. 그러나 연조직 병소가 골에 이환된 경우 접시 모양으로 골이 침식된 상은 종양세포의 침윤에 의한 골파괴라기보다는 연조직 병소의 성장에 따른 압력으로 나타나는 것으로 보는 견해도 있다.<sup>4,9,10</sup>

조직병리학적으로 주변성 법랑모세포종은 병소 상방의 표면 상피나 잔존 치성 상피로부터 기원하며, 치성 상피섬(epithelial island)이 결합조직 내에서 존재하고 종양세포가 특징적인 울타리모양으로 배열되어 있는 등 골내 법랑모세포종과 동일한 소견을 보이며, 병소가 골 외부에 존재하는 종양으로 정의하고 있다. 따라서 병소 상방 표면 상피와 종양 상피섬과의 연속성은 이 종양의 기원을 설명하는데 중요한 의미를 지닌다.<sup>4,10,16</sup> 한편 본 증례에서는 표면 상피와 결합조직 내 종양 상피와의 연속성은 관찰되지 않아 잔존 치성상피에서 기원한 주변성 법랑모세포종으로 생각할 수 있다.

조직학적으로 골내 법랑모세포종과 주변성 법랑모세포종은 종양세포의 형태나 배열양상 등에서 유사한 소견을 보이나, 골내 법랑모세포종은 총형(plexiform type)이나 소포형이 많은데 비해, 주변성 법랑모세포종은 유두형(acanthomatous type)이나 혼합형(mixed type)이 더 많다.<sup>4,7</sup>

한편 주변성 법랑모세포종은 재발이 거의 없어 보존적인 술식을 통해 치료가 이루어지지만,<sup>1,7,9-11,17</sup> 골내 법랑모세포종은 재발이 흔하고 대개 50% 이상의 재발이 술후 5년 이내에 발생된다.

감별해야 할 질환으로는 주변성 치성섬유종, 주변성 석회화치성낭, 주변성 석회화상피성치성종양, 주변성 선양치성종양 등과 같은 주변성 치성종양이 있으며, 치은농양이나 화농성육아종 등과 같은 염증성 병소와 자극성 섬유종, 유두종과 같은 증식성 병소가 있다.<sup>1,3,4,10,18-20</sup>

본 증례는 임상적으로 무통성의 종창을 보이며 표면은 비교적 평활하고 정상 색조를 보이는 연조직 병소로서, 방사선학적으로 연조직 부위에서 인접 피질골로 골이 접시 모양으로 침식된 상을 보여 단순한 염증성 병소나 증식성 병소를 배제할 수 있었으며, 조직학적으로 종양세포들이 침윤성 성장을 하면서 치밀한 콜라겐 기질(collagenous stroma) 내부에서 종양괴를 형성하고 종양세포들이 울타리모양으로 배열되는 등 전형적인 법랑모세포종의 소견을 보여 다른 주변성 치성종양을 배제할 수 있었다. 한편 조직소견에서 표면상피와 결합조직 내 종양 상피와의 연속성은 관찰되지 않아 본 증례는 잔존 치성 상피에서 기원하였음을 알 수 있다.

주변성 법랑모세포종은 매우 드물게 보고되는 질환으로서 전형적인 조직학적, 방사선학적 소견을 보여 본 증례를 보고하는 바이나 주변성 법랑모세포종에 관한 증례가 매우 한정되어 있고 오랜기간 동안의 예후가 평가된 경우가

드물어 이 질환에 대한 이해의 폭을 넓히기 위해서는 향후 추가적인 증례보고와 더불어 장기간의 예후 관찰이 필요하다.

### 참 고 문 헌

- Mintz S, Anavi Y, Sabes WR. Peripheral ameloblastoma of the gingiva. A case report. *J Periodontol* 1990; 61 : 649-52.
- Califano L, Maremonti P, Boscaino A, De Rosa G, Giardino C. Peripheral ameloblastoma: report of a case with malignant aspect. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1996; 34 : 240-2.
- Philipsen HP, Reichart PA, Nikai H, Takata T, Kudo Y. Peripheral ameloblastoma : biological profile based on 160 cases from the literature. *Oral Oncol* 2001; 37 : 17-27.
- Buchner A, Sciubba JJ. Peripheral epithelial odontogenic tumors : A review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 63 : 688-97.
- Gurol M, Burkes Jr EJ. Peripheral ameloblastoma. *J Periodontol* 1995; 66 : 1065-8.
- Lin SC, Lieu CM, Hahn LJ, Kwan HW. Peripheral ameloblastoma with metastasis. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987; 16 : 202-6.
- Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma : Biological profile of 3677 cases. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995; 31 : 86-99.
- Nauta JM, Paunders AK, Schoots CJF, Varmey A, Roodenburg JLN. Peripheral ameloblastoma : A case report and review of literature. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1992; 21 : 40-4.
- Gardner DG. Peripheral ameloblastoma : A study of 21 cases, including six reported as basal cell carcinoma of the gingiva. *Cancer* 1977; 39 : 1625-33.
- Moskow BS, Baden E. The peripheral ameloblastoma of the gingiva : Case report and literature review. *J Periodontol* 1982; 53 : 736-42.
- Rapadis AD, Andressakis DD, Stavrianos SD, Faratzis G, Lagogiannis NA, Valsamis SV, et al. Ameloblastomas of the jaws : Clinico-pathological review of 11 patients. *Eur J Surg Oncol* 2004; 30 : 998-1002.
- Martelli-Junior H, Souza LN, Santos LAN, Melo-Filho MR, De Paula AMB, Claros M. Peripheral ameloblastoma : A case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005; 99 : 31-3.
- McClatchey KD, Sullivan MJ, Paugh DR. Peripheral ameloblastic carcinoma : A case report of a rare neoplasm. *J Otolaryngol* 1989; 18 : 109.
- Patrikiou A, Papanicolaou S, Stylogianni E, Sotiriadou S. Peripheral ameloblastoma : Case report and review of literature. *Int J Oral Surg* 1983; 12 : 51-5.
- Hernandez G, Sanchez G, Caballero T, Moscow BS. A rare case of a multicentric peripheral ameloblastoma of the gingiva: A light and electron microscopic study. *J Clin Periodontol* 1992; 19 : 281.
- Woo S, Smith-Williams JE, Sciubba JJ, Lipper S. Peripheral ameloblastoma of the buccal mucosa : Case report and review of the English literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 63 : 78-84.
- Wettan HL, Patella PA, Freedman PD. Peripheral ameloblastoma : review of the literature and report of recurrence as severe dysplasia. *J Oral Maxillofac Surg* 2001; 59 : 811-5.
- Shetty K. Peripheral ameloblastoma : An etiology from surface epithelium? Case report and review of literature. *Oral Oncol* 2005; 41 : 211-5.
- Langlais RP, Langland OE, Nortjé CJ. Diagnostic imaging of the jaws. Malvern : Williams & Wilkins; 1995. p. 642-5.
- Manor Y, Mardinger O, Katz J, Taicher S, Hirshberg A. Peripheral odontogenic tumors-differential diagnosis in gingival lesions. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004; 33 : 268-73.