하악골에 발생한 원발성 골내암종의 치험례

김학렬 · 류동목 · 오정환
경희대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2007;33:263-267)

PRIMARY INTRAOSSEOUS CARCINOMA ON MANDIBLE : A CASE REPORT

Hak-Ryeol Kim, Dong-Mok Ryu, Jung-Hwan Oh
Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Dental College, Kyung-Hee University

Primary intraosseous carcinoma (PIOC) is a rare odontogenic carcinoma defined as a squamous cell carcinoma arising within a jaw having no initial connection with the oral mucosa, and probably developing from residues of the odontogenic epithelium. PIOC appears more common in male than female, especially at posterior portion of the mandible.

Radiographic features of PIOC show irregular patterns of bone destruction with ill defined margins. It could be sometimes misdiagnosed as the cyst or benign tumor because it shows well defined margins. If it couldn't be done appropriate treatment initially, PIOC shows extremely aggressive involvement, extensive local destruction and spreads to the overlying soft tissue. Therefore accurate diagnosis in early state is necessary.

The diagnosis criteria proposed for PIOC are : (1) absence of ulcer formation, except when caused by other factors, (2) histologic evidence of squamous cell carcinoma without a cystic component or other odontogenic tumor cell, and (3) absence of another primary tumor on chest radiograph obtained at the time of diagnosis and during a follow-up period of more than 6 month(Suei et al., 1994).

Key words: Primary intraosseous carcinoma, Mandible, Odontogenic carcinoma

Ⅰ. 서 론

원발성 골내암종은 악골에 생기는 드문 암종으로 잔존된 치성 상피로부터 발생되는 것으로 추정된다[1,2].

세계보건기구(WHO)의 국제 종양 조직학적 분류에 따르면 악골내에 편평상피세포암종의 조직학적 소견을 보이는 것으로서, 구강점막과는 연결이 없으며, 전이성 암종의 소견이 없고 다른 치성 낭종이나 종양으로부터 발생한 악성종양을 제외한 암종으로 정의된다.

본 저자는 우측 하악의 통증과 감각 이상을 주소로 내원한 환자에서 임상적, 방사선학적 및 병리조직학적 검사상 원발성 골내암종으로 진단하고, 우측 하악골 부분 절제술과 상견갑설골 경부 청소술(Supraomohyoid neck dissecsion)을 시행하고 재건용 금속판(Reconstruction plate)을 사용하여 재건술을 시행하였다. 술후 4개월 경과시 재건용 금속판이 파절되어 Deep Circumflex Iliac Artery(DCIA) flap을 이용하여 재건술을 시행하였고, 술 후 1년이 경과된 현재까지 양호한 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고 하는 바이다.

김 학 렬
130-701 서울시 동대문구 회기동 1번지
경희대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
Hak-Ryeol Kim
Dept. of OMFS, School of Dentistry, Kyung Hee Univ.
1 Hoegi-dong, Dongdaemun-gu, Seoul, 130-701, Korea
Tel: 82-2-958-9440~1 Fax: 82-2-966-4572
E-mail: khr102den@gmail.com

Ⅱ. 증례 보고

50세 여자 환자가 1주일 전부터 시작된 우측 하악의 동통과 감각 이상을 주소로 본과에 내원하였다. 초진시 우측 하악골 부위의 동통과 하순의 감각 이상을 호소하였고, 구강내 소견상 구강점막의 궤양이나 치은 부종 등의 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 1). 경부 촉진시 우측 악하부에 증대된 임파절이 촉진 되었다.

내원시 환자의 panorama와 Skull PA 사진 상에서 우측 하악의 하악체와 하악지 부위에 경계가 불명확한 골파괴 소견과 우측 하악 제 2 대구치부의 치조 백선의 소실과 치근의 외흡수를 관찰 할 수 있었다(Fig. 2).

환자는 20여 년 전에 결핵을 앓았으나 현재는 완치 상태였으며, 10여 년 전부터 흡연을 시작하여 하루에 1/3갑 정도 흡연을 하고 있었으며, 다른 전신 질환은 존재하지 않았다. 환자의 혈액검사, 뇨검사, 심전도, 흉부 방사선 사진상 특기할 사항은 없었다.

Fig. 1. Intraoral photography at the initial examination.

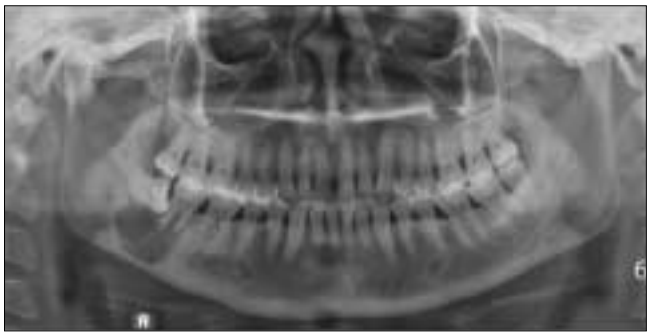

Fig. 2. Radiography at the initial examination.

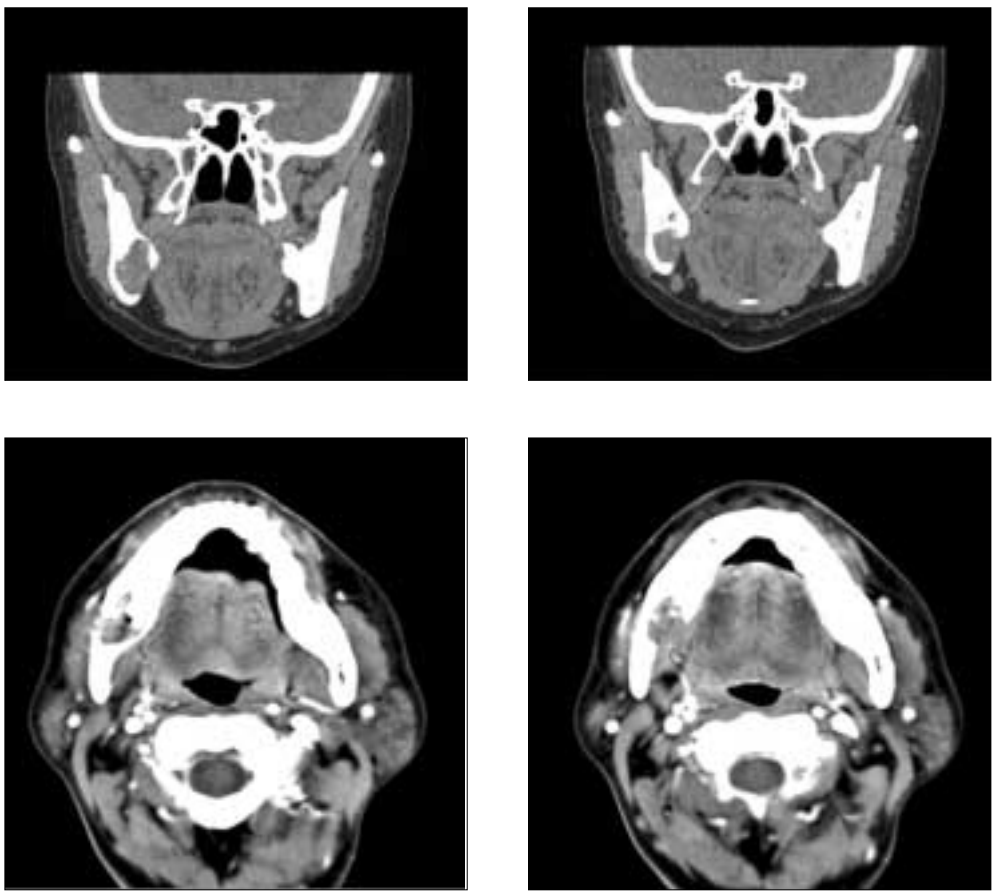

Fig. 3. CT shows bone destruction of Rt. Mn.

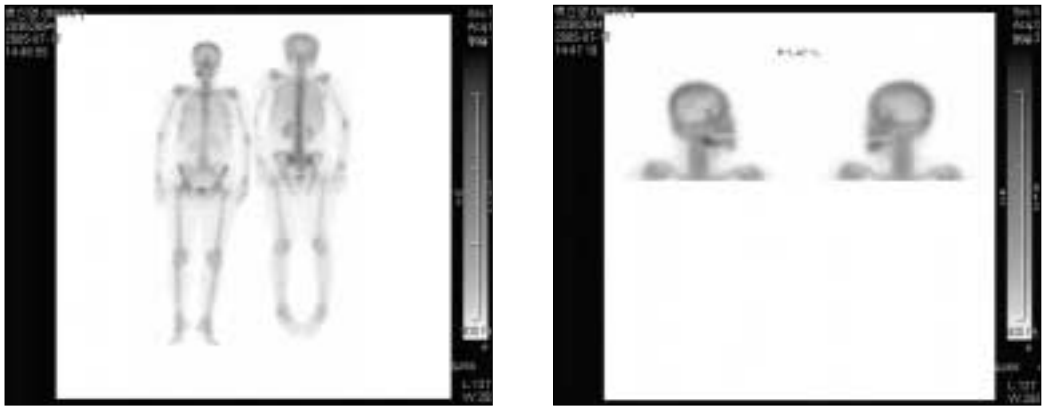

Fig. 4. Preoperative bone scanning showing a strong up take at the Rt. Mn.

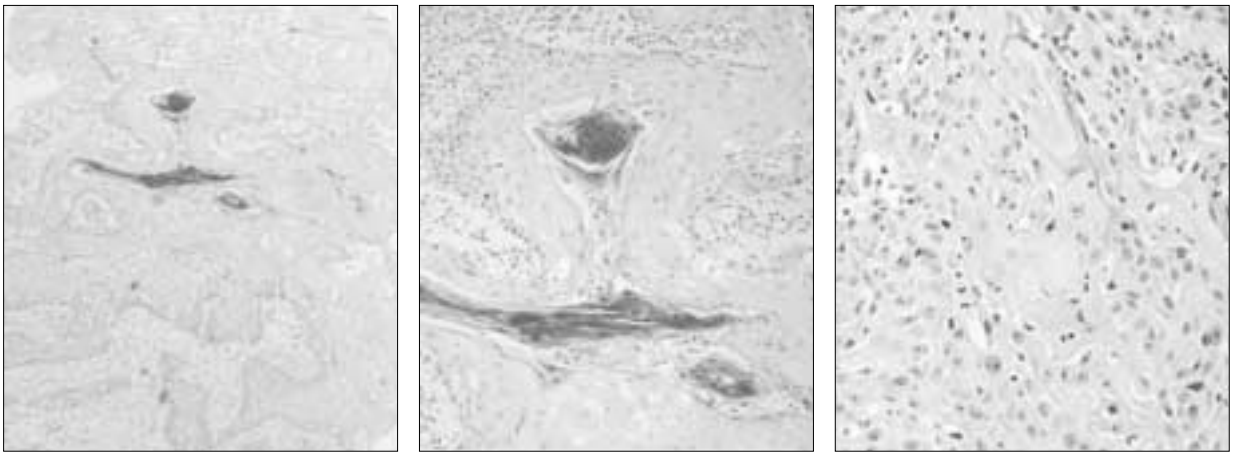

Fig. 5. The H-E staining specimens show irregular epithelial islands with cell atypia, nuclear hyperchromatism, pleomorphism, mitosis.

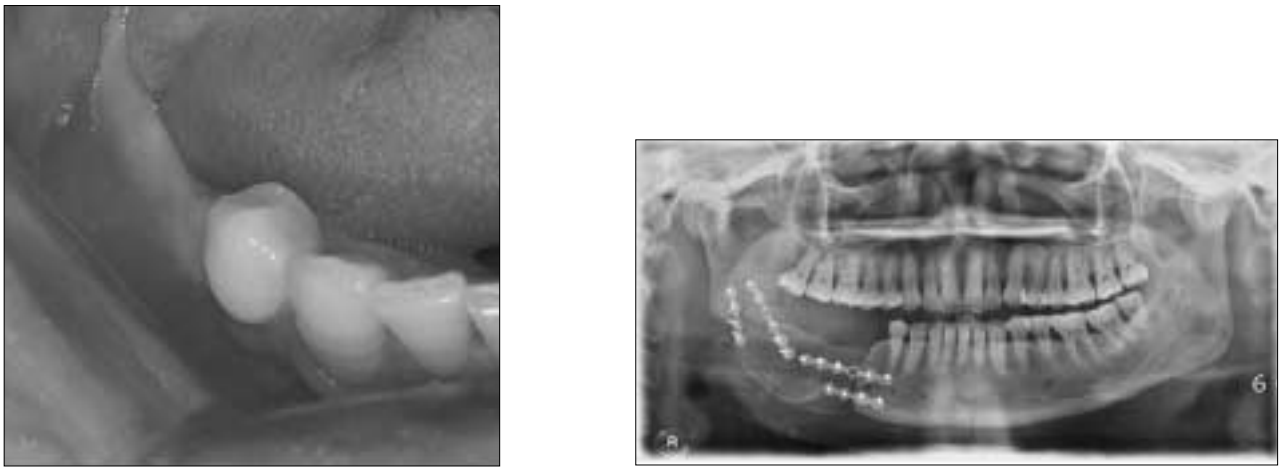

Fig. 6. Intraoral photography and radiography at follow up.

컴퓨터 단층 촬영 상에서 우측 하악에 약 24mm 정도의 골파괴 상이 보이며 설측 피질골이 파괴 소견이 관찰되었다. 우측 악하부와 upper internal juglar chain에서 증대된 임파절이 관찰되었다(Fig. 3).

골스캔(Bone scan)상에서 우측 하악골체부와 하악지 부위에 방사성 동위원소의 섭취가 증대된 소견이 관찰되었다(Fig. 4).

조직 생검을 위하여 병소에 이환되어 있는 우측 하악 제 2, 3 대구치 발거하고 주변 조직에 대해 조직 생검을 시행하였다. 골내 침윤적인 골파괴 소견과 협・설측 피질골의 천공된 소견을 보이고 있었다. 조직 소견상 불규칙한 상피도를 보이고 있으며, keratin pearl, 세포의 이형성, 핵의 다형성, 농염화 등의 악성 종양의 특징을 보이고 있었다. 조직 병리학적으로 분화가 잘 된 편평상피암종으로 진단되었다(Fig. 5). 이상과 같은 임상적, 방사선학적, 조직학적 검사를 통하여 원발성 골내암종으로 최종 진단하였다.

수술 전에 항암 요법(Chemotherapy) 시행하려 하였으나, 환자 오심, 구토 등의 부작용이 심하여 CDDP, 5FU를 이용하여 1차례 항암 요법 시행하고 중단하였다.

전신마취하에 우측 하악골 부분 절제술과 동측의 상견갑설골 경부 청소술 시행하였다. 재건용 금속판을 이용하여 골 결손부위를 재건하였다.

적출된 종물은 협설측 피질골이 파괴되었고, 조직 현미경 사진상 술전 조직 소견과 마찬가지로 편평상피암종으로 진단되었다. 종물의 절제된 경계부에서는 종물세포가 발견되지 않았고 경부 임파절 전이 소견은 없었다(Fig. 6).

술후 3개월 경과 되었을 때, 방사선 검사상 재건용 금속판의 파절 소견이 관찰되어 파절된 금속판 제거하고 DCIA flap을 이용하여 재건술 시행하였다. 추가적인 방사선 요법나 항암 요법은 시행하지 않았으며, 술 후 1년 현재까지 재발이나 전이 소견은 없으며, chest PA 상에서도 특이 소견 보이고 있지 않았다.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

많은 문헌에 따르면, 원발성 골내암종은 구강내 종양 중 1~2%를 차지하며, 대부분 하악 구치부에서 발병하고 남성에서 호발한다. 4세에서 81세까지 발생연령을 보이고 있으며, 평균 연령은 51세이다[4]. Suei 등은 상악 구치부에서의 발생 빈도가 낮은 것은 상악동 기원 암종과 원발성 골내암종의 구별이 어렵기 때문이라고 하였다[5].

골격계 전체에서 악골에서만 발생한다. 이는 악골만이 상피세포를 가질 수 있기 때문이다[6]. 이러한 상피 세포는 매복된 치아 주위의 잔존 법랑 상피, 잔존 법랑 상피, 치주인대 안에 남아있는 malassez 잔존 상피, 잔존 치판으로부터 유래된다고 추정된다[7,8]. 원발성 골내암종은 또한 존재하던 치성 낭종의 악성 변이나 법랑아세포종의 악성변이에 의해서도 발생할 수 있다[9]. Waldron과 Mustoe는 타액선이 안면부에만 존재한다는 것에 기초하여 골내 점액 유표피암종까지 원발성 골내암종에 포함 시켰다[10]. 이를 바탕으로 세계 보건 기구에서는 원발성 골내 암종을 아래 Table 1과 같이 분류하였다. 이 분류에 의해 본 증례는 type Ⅲ A로 진단하였다(Table 1).

임상적 증상으로는 치은 종창, 구강 점막 궤양과 같은 구강내 특이 소견이 없는 것이 특징이다. 골내의 편평세포암종이 수질골을 파괴하여 치아 동요를 일으키고 치조신경을 침범하여 동통과 지각 이상을 야기한다.

방사선학적 소견상 특징적인 소견은 없으며, 일반적으로 만성 골수염과 유사한 벌레 먹은 형태(Moth-eaten appearance)와 피질골 파괴(Cortical bone destruction)을 나타내거나, 불명확한 경계를 갖는 다양한 방사선 투과성을 나타낸다.

이러한 특징으로 원발성 골내 암종을 지닌 환자들은 대부분 정확한 진단을 받지 못하고 발치, 근관 치료와 같은 일반적인 치과 치료를 받아 짧게는 몇주에서 길게는 18개월까지 정확한 진단이 지연된다[11].

세계보건기구에 의하면 원발성 골내암종과 감별해야 할 질환으로는 악골에 침윤된 점막형 편평상피세포암종, 신체내 타 부위로부터 전이된 악골 종양, 상악동에서 기원한 암종, 만성 골수염 등이다[12]. 구강 점막 궤양 존재시, 구강 점막에서 발생한 것인지 또는 악골내에서부터 발생한 것이지 감별하기 위해서는 골 파괴 범위가 구강점막 궤양 범위보다 더 넓을 경우에 악골 내에서 발생한 것으로 추정할 수 있으며, 상악동 기원의 종양은 구강 전정이나 구개부로 팽창하는 반면, 상악골에 발생한 원발성 골내암종은 일반적으로 치조골을 침식시키므로 상악동 기원의 종양과 감별 할 수 있다.

Table 1. Classification of Primary Intraosseous Carcinoma by WHO

Type Ⅰ	PIOC exodontogenic cyst
Type Ⅱ A	Malignant ameloblastoma
Type Ⅱ B	Ameloblastic carcinoma arising de novo, exameloblastoma or exodontogenic cyst
Type Ⅲ	PIOC arising novo
A	Keratinising type
B	Nonkeratinising type
Type Ⅳ	Intraosseous mucoepidermoid carcinoma

원발성 골내암종의 1차적인 치료법으로 외과적 절제술을 추천하고 있으며, 추가적인 항암요법이나 방사선 요법은 병소를 완전히 제거하지 못하는 경우에 고려 할 수 있다고 하였다[13]. Zwetyenga 등은 33명의 환자를 외과적 방법으로 치료하였으며, 이 중, 16명은 외과적 절제술만 시행하였고, 13명은 외과적 절제술과 방사선 요법을, 2명은 외과적 절제술과 항암 요법을, 2명은 외과적 절제술, 방사선 요법, 항암 요법을 병행하였다[14]. 그러나 아직까지 방사선 요법과 항암 요법 중에 어느 것이 적절한 치료방법인지에 대한 논란은 계속되고 있다.

림프절 전이률에 대해 suei 등은 33명 중 13명으로 39.4%로 보고하였으며[5], 다른 문헌에서는 36명 중 10명으로 28%로 보고하였다[14]. Elzapy와 To 등은 임상적으로 경부 전이가 의심될 때 경부 청소술을 시행해야 한다고 하였다[2].

Zwetyenga 등에 따르면 2년 생존율은 60.5%로 보고되고 있으며, 다른 문헌에 의하면 5년 생존률은 30~40%로 보고되고 있다. 외과적 수술 방법, 방사선요법, 항암요법을 달리 하였을 때의 예후의 차이는 크게 없었으며, 임파절 전이 여부에 따른 예후의 변화도 크지 않았다. 빠른 진단만이 예후에 영향을 미치며, 정확하고 빠른 진단이 중요하겠다. Suei 등에 의하면 원발성 골내암종의 진단기준은, ① 다른 요인이 없으면 궤양을 형성하지 않고, ② 낭종 성분이나 다른 치성 종양세포가 없는 편평상피세포암종의 조직학적 소견을 보이고, ③ 진단시와 6개월 이상 정기 검사 동안 흉부 방사선 사진 상에 일차병소가 없다는 것이라고 하였다.

Ⅳ. 결 론

원발성 골내암종은 악골에 생기는 드문 암종으로 임상적 방사선학적으로 특이한 소견을 보이지 않아 정확한 진단이 늦어지는 경우가 많다. 본 교실에서는 50세 여자의 우측 하악에 생긴 원발성 골내암종에 대해 외과적 절제술, 경부 청소술과 DCIA flap을 이용하여 재건술을 시행하였고, 1년이 경과된 현재 재발 소견 보이지 않고 있다. 이에 본 저자는 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Shafer, Hine, Levy: Primary Intraosseous Carcinoma: Tomich. A Textbook of oralpathology. Fourth edition Philadelphia, W.B. Saunders co. 1983:285-286.
2. To EH, Brown JS, Avery BS, Ward-Booth RP: Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Three new cases and a review of the literature. Br J Oral Maxillofac Surg 1991;29:19-25.
3. Thomas G, Pandey M, Mathew A, Abraham EK, Francis A, Somanathan T, Iype M, Sebastian P, Nair MK: Primary intraosseous carcinoma of the jaw:pooled analysis of world literature and report of two new cases. Int J Oral Maxillofac Surg 2001;30:349-355.
4. Lin YJ, Chen CH, Wang WC, Chen YK, Lin LM: Primary intraosseous carcinoma of the mandible. Dentomaxillofac Radiol. 2005;34:112-116.
5. Suei Y, Tanimoto K, Taguchi A, Wada T: Primary intraosseous carcinoma: review of the literature and diagnostic criteria.J Oral Maxillofac Surg 1994;52:580-583.
6. Punnya A, Kumar GS, Rekha K, Vandana R: Primary intraosseous odontogenic carcinoma with osteoid/dentinoid formation. J Oral Pathol Med 2004;33:121-124.
7. Thomas G, Sreelatha KT, Balan A, Ambika K: Primary intraosseous carcinoma of the mandible-a case report and review of the literature. Eur J Surg Oncol 2000;26:82-86.
8. Mosqueda Taylor A, Meneses Garcia A, Ruiz Godoy Rivera LM, Suarez Roa Mde L, Luna Ortiz K: Malignant odontogenic tumors. A retrospective and collaborative study of seven cases. Med Oral. 2003;8:110-121.
9. Verneuil A, Sapp P, Huang C, Abemayor E: Malignant ameloblastoma:classification, diagnostic, and therapeutic challenges. Am J Otolaryngol 2002;23:44-48.
10. Muller S, Waldron CA: Primary intraosseous squamous carcinoma. Report of two cases. Int J Oral Maxillofac Surg 1991;20:362-365.
11. Waldron CA, Mustoe TA: Primary intraosseous carcinoma of the mandible with probable origin in an odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1989;67:716-724.
12. 김철환, 김미숙: 하악골에 발생한 Primary intraosseous carcinoma의 치험례. 대한악안면성형재건외과학회지 1997;19:200-208.
13. Scheer M, Koch AM, Drebber U, Kubler AC: Primary intraosseous carcinoma of the jaws arising from an odontogenic cyst-a case report. J Craniomaxillofac Surg 2004;32:166-169.
14. Zwetyenga N, Pinsolle J, Rivel J, Majoufre-Lefebvre C, Faucher A, Pinsolle V: Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2001;127:794-797.