

## 산전 초음파에서 구강 내 종괴 소견을 보인 선천성 치은종 1예

연세대학교 의과대학 산부인과학교실

류지원·권자영·남가현·박용원·김영한

### A case of fetal congenital epulis mimicking oral tumor detected by prenatal ultrasonography

Ji Won Ryu, M.D., Ja Young Kwon, M.D., Ka Hyun Nam, M.D.,  
Yong Won Park, M.D., Young-Han Kim, M.D.

*Division of Maternal-Fetal Medicine, Department of Obstetrics and Gynecology,  
Yonsei University College of Medicine, Yonsei University Health System, Seoul, Korea*

Congenital epulis, a kind of hamartoma, is a very rare tumor, which appears in front of maxillary alveolar ridge in most cases, and accompanies no malformations. As the tumor protrudes from the oral cavity, it may lead to respiratory difficulties and feeding problems. Therefore it is important for pregnant women to receive comprehensive prenatal counseling with accurate diagnosis of the fetal oral tumor. We report a rare case of prenatal detection of oral tumor with a brief review of literatures, which was confirmed to be a congenital epulis or granular cell tumor after birth.

**Key Words:** Granular cell tumor, Congenital epulis, Ultrasonography, Congenital anomaly

선천성 치은종은 선천성 과립세포 종양이라고도 불리며, 신생아에서만 드물게 발생하는 양성 종양이다. 대부분 상악골 치조제 앞에서 발생되며 10%에서 다발성 병변으로 나타나고 여아에서 호발한다.<sup>1</sup> 또한, 동반기형이나 치아 발달 장애와 관련성이 적어 비교적 좋은 예후를 가진다.<sup>2</sup> 선천성 치은종은 구강에서 발생하는 종괴이기 때문에, 신생아의 호흡곤란이나 식이장애를 야기할 수 있다. 최근 태아 구강 내 종괴로 인한 출생 시 호흡곤란으로 응급 수술을 요하였던 예가 보고된 바가 있어,<sup>3</sup> 치은종과 같은 태아 구강 내 종괴에 대한 산모의 산전상담 및 정확한 진단, 태

아 응급수술에 대한 치료 계획의 중요성이 부각되고 있다. 저자들은 자궁내임신 36주에 발견된 태아 구강 내 종괴로 선천성 치은종 1예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

환 자: 최 ○ 연, 33세  
주 소: 태아 구강 내 종괴  
산과력: 2-2-0-2  
월경력: 최종 월경 시작일은 2008년 6월 2일이었고, 분만 예정일은 2009년 3월 9일이었다.  
가족력: 특이 사항 없었다.  
과거력: 특이 사항 없었다.

접 수 일: 2009. 12. 16.  
채 택 일: 2010. 1. 7.  
교신저자: 김영한  
E-mail: yhkim522@yuhs.ac

**현병력:** 상기 환자는 개인병원에서 산전 진찰 받아오다 초음파상 태아 구강 내 종괴가 확인되어, 2009년 2월 11일 임신 36주에 본원으로 전원되었다.

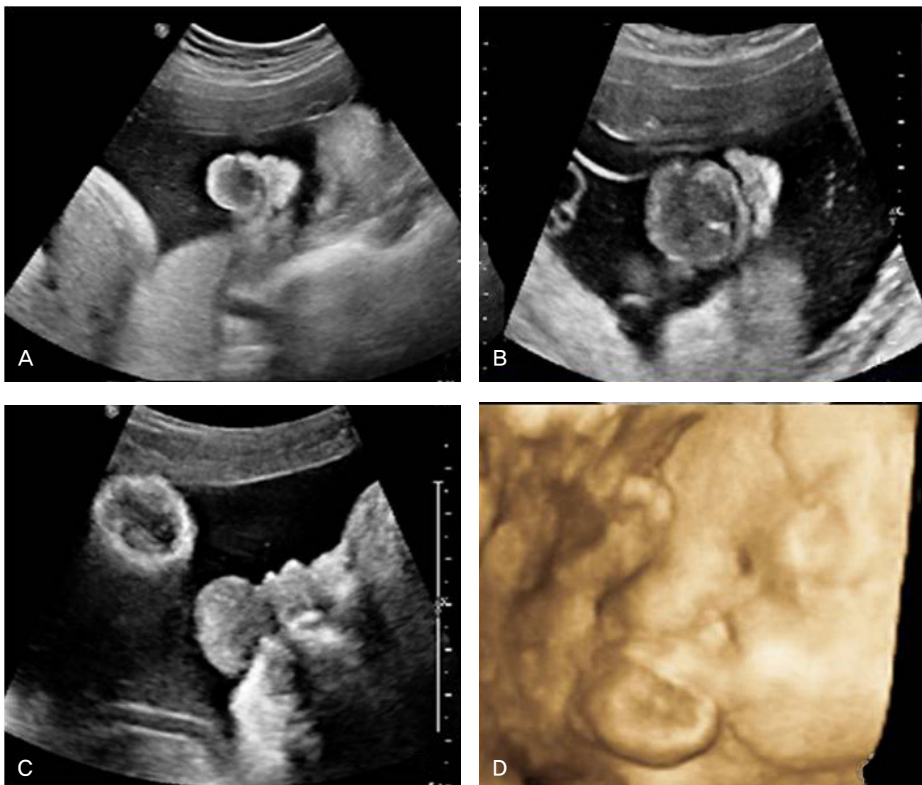
**산전 초음파 소견:** 임신 36주에 본원에서 시행한 초음파에서 2.2×2.0 cm 크기의 종괴가 태아 윗입술 앞에서 확인 되었다 (Fig. 1). 종괴는 경계가 명확했고 혀와 윗입술이 뚜렷이 구분되었다. 태아는 임신 36주에 합당한 소견으로 종괴 이외에 특이 소견은 관찰되지 않았다. 1주 뒤 시행한 초음파에서도 종괴의 크기 증가나 감소 등의 변화 소견 보이지 않았고 종괴 외 다른 특이 소견은 관찰되지 않았다.

**분만과 신생아 소견:** 2009년 3월 1일 임신 38주 6일에 자연 진통이 발생되어 질식분만으로 3,250 g의 여아를 분만하였고, 출생 후 Apgar 점수는 1분 9점, 5분 9점이었다. 총 분만 시간은 12시간 5분이었으며 분만 중 태아 압박 가사 소견은 관찰되지 않았다. 출생 후 환자의 구강 내에서 3×2 cm 크기의 선홍색 종괴가 발견되었으나 호흡곤란의 소견은 보이지 않았고 전반적인 건강 상태는 양호하였다 (Fig. 2A).

**출생 후 검사 및 치료:** 출생 당일 이학적 검사 시행 후 종괴 목 결찰술을 시행하였다. 7일 후 출혈 없이 종괴가 제거되었다 (Fig. 2B). 종괴는 선홍색의 매끈하고 단단한 표면을 가지고 있었다. 현미경학적 검사상 풍부한 과립성의 호산구성 세포질과 작은 핵을 포함하고 있는 세포가 확인되었고 그 병리학적 진단은 선천성 과립 세포 종양이었다 (Fig. 3). 환자의 유전자 검사 결과는 46,XX로 정상이었다. 환아는 종괴 제거 후 다음날부터 구강식을 시작하였고 소아치과와 소아과 외래 추적 관찰 중이나 9개월이 지난 현재까지 특이 소견 보이지 않고 있다.

## 고 찰

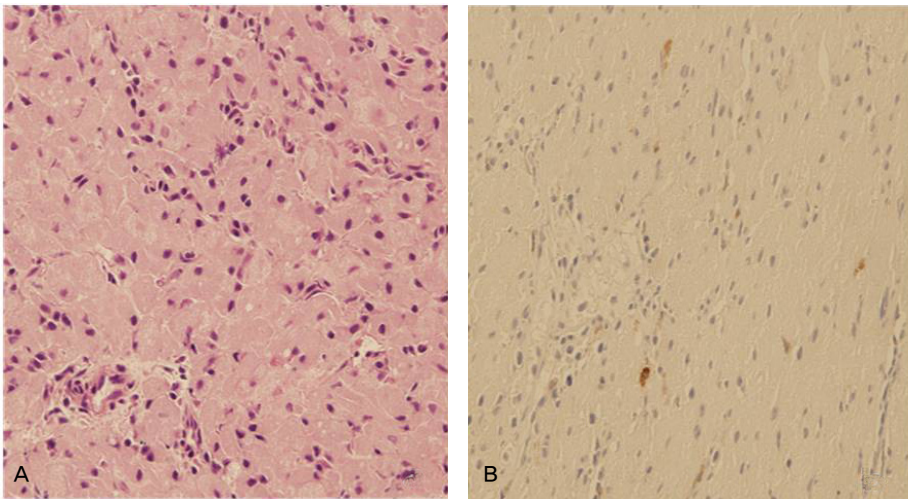
신생아에서 발생하는 선천성 치은종은 매우 드문 종양으로 1871년 Neumann에 의해 처음 기술되었고 이후 Neumann's tumor라고 불려지고 있다.<sup>4</sup> 선천성 치은종의 조직형성 기원세포로 치원성 상피세포 (odontogenic epithelium), 미분화된 간엽세포 (undifferentiated mesenchymal cell), 주변세포 (pericytes), 섬유아세포, 평활근



**Fig. 1.** (A, B) Fetal oral mass detected prenatally at 36 weeks of gestation, measuring 2.2×2.0 cm by ultrasound, anterior aspect, (C) Lateral aspect, (D) 3-Dimensional view.



**Fig. 2.** (A) Gross examination of congenital epulis after birth. About 3×2 cm sized pinkish solid mass with a stalk covered by mucosa was noted. (B) Gross appearance after stalk ligation of congenital epulis.



**Fig. 3.** (A) Postoperative pathological microscopic examination of neonatal congenital epulis or granular cell tumor. Predominantly granular eosinophilic cytoplasm was noted (PAS stain, ×200). (B) The finding was negative in S-100 stain (×200).

세포, 신경 관련세포 (nerve related cells), 조직구 등이 밝혀진 바 있으나 아직 정확한 발생학적 원인은 규명되지 않았고 여아에서 호발 하고 출생 후에는 퇴화되는 양상을 보여 그 발생학적 원인으로 모성 호르몬과의 연관성이 추측되나 종괴 내 에스트로겐과 프로게스테론 수용체가 확인되지 않아 이를 입증하지는 못하고 있다.<sup>6,7</sup> 현미경학적으로 호산성의 과립형 세포질을 가진 원형 세포로 구성되어 있고 세포질 내에 다수의 과립 외 소기관 (organelles)이 존재하지 않아 신생물이라기 보다는 단순한 세포 변성을 통해 기인된 것으로 알려져 있다.<sup>4</sup> 또한 S-100 단백질, 에스트로겐 및 프로게스테론 수용체 염색에 음성 반응을 나타내며 NSE, Vimentin 염색에는 양성 반응을 나타낸다.<sup>5</sup> 본 증례의 경우에서도 과립형 세포질을 가진 호산성 세포가 확인되었고 S-100 단백질 염색에는 음성반응을 나타내

었다 (Fig. 3).

선천성 치은종은 초음파상 대부분 경계가 명확하고 균질한 밀도를 가진 종괴의 형태로 나타나며 주로 임신 제 3 분기이상의 산전 초음파에서 발견된다.<sup>9</sup> 크기는 매우 다양하여 작게는 수 mm에서 최대 9 cm까지 그 예가 보고된 바 있다.<sup>10</sup> 대개 점막에서 발생되며 종괴 목을 가지고 있어 치명적인 호흡곤란이나 연하 장애를 일으키지 않는다. 태아 구강 폐쇄나 양수 섭취 장애로 양수과다증이 동반될 수 있지만 주로 임신 제3분기에 발생되며 대개 그 크기가 크지 않아 양수 과다로 인한 조산의 보고는 없으며 호흡곤란을 야기하여 태아 사망에 이르게 한 보고 또한 없다.<sup>9</sup>

치은종의 치료법은 광범위 절제술이 아닌 단순 종괴 제거술 및 종괴 목 결찰술이며 수술 시기는 종괴 크기와 위치에 따라 조절 할 수 있다. 수술 후 재발이나 악성 변성의

보고가 없고 드물게는 치은종이 자연 퇴화된 예가 보고된 바 있다.<sup>11</sup>

이와 감별을 요하는 태아 구강 내 종괴로는 혈관종, 림프종, 섬유종, 근육종, 이소성 위장관 낭, 비인강 기형종 등이 있다.<sup>12</sup> 이 중 비인강 기형종은 선천성 치은종과 함께 신생아에서 나타나는 드문 양성종양이나 예후가 매우 나쁘고 치료 경과 또한 매우 달라서 특히 주의를 요하는 질환 중 하나이다. 기형종의 하나인 비인강 기형종은 구개열 등의 동반기형이 많으며,<sup>12</sup> 종괴로 인한 양수 과다 동반이 흔하고 또한 이로 인한 조산의 동반이 많다.<sup>13,14</sup> 아울러 호흡곤란을 야기하여 분만 후 신생아 사망률이 높은 질환으로 철저한 치료 계획에 따른 분만과 EXIT (Ex Utero Intra-partum treatment) 등의 즉각적인 치료 준비를 요한다.<sup>13</sup> 이를 위해 산전 초음파상 보이는 태아 구강 내 종괴의 정확한 감별이 중요하다고 할 수 있다. 비인강 기형종은 주로 설상골이나 사골 등의 두개골 저에서 기원하여 구강 내로 돌출하며 임신 2분기에 초음파상 확인이 된다. 초음파

상 고형부분과 낭종성 부분이 섞여 있는 복합적인 종괴의 형태를 띠며 종괴 자체의 고형부분은 비균질적인 밀도를 가지고 석회화된 부분을 포함하는 특징을 나타낸다. 또한 대부분 태아 연하 장애를 일으켜 양수과다증을 동반하고, 초음파상 태아 위가 보이지 않는 경우도 있다.<sup>15</sup> 본 증례에서는 초음파상 2.2×2 cm의 경계가 명확한 종괴가 윗입술 앞에서 확인되었고 혀와 윗입술을 확인할 수 있었다. 양수과다증의 소견이나 동반된 다른 기형은 없었다. 자연분만을 시도하였고 출생 후 식이장애 외 호흡곤란이나 다른 문제는 보이지 않았다.

태아 구강 내 종괴는 매우 드문 질환이지만 종괴로 인한 호흡곤란, 연하곤란, 구강 영양 장애를 일으킬 가능성을 가진 질환이므로 정확한 산전 진단과 치료에 대한 철저한 준비가 필요하다. 저자들은 자궁내임신 36주에 발견된 태아 구강 내 종괴로 선천성 치은종 1 예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 참고문헌

- Vered M, Dobriyan A, Buchner A. Congenital granular cell epulis presents an immunohistochemical profile that distinguishes it from the granular cell tumor of the adult. *Virchows Arch* 2009; 454: 303-10.
- Lapid O, Shaco-Levy R, Krieger Y, Kachko L, Sagi A. Congenital epulis. *Pediatrics* 2001; 107: E22.
- McMahon MG, Mintz S. In utero diagnosis of a congenital gingival granular cell tumor and immediate postnatal surgical management. *J Oral Maxillofac Surg* 1994; 52: 496-8.
- Leocata P, Bifaretti G, Saltarelli S, Corbacelli A, Ventura L. Congenital (granular cell) epulis of the newborn: a case report with immunohistochemical study on the histogenesis. *Ann Saudi Med* 1999; 19: 527-9.
- Lack EE, Perez-Atayde AR, McGill TJ, Vawter GF. Gingival granular cell tumor of the newborn (congenital "epulis"): ultrastructural observations relating to histogenesis. *Hum Pathol* 1982; 13: 686-9.
- Tucker MC, Rusnock EJ, Azumi N, Hoy GR, Lack EE. Gingival granular cell tumors of the newborn. An ultrastructural and immunohistochemical study. *Arch Pathol Lab Med* 1990; 114: 895-8.
- Gokhale UA, Malhotra CJ. Congenital epulis of the newborn. *Indian J Pathol Microbiol* 2009; 52: 436-7.
- Eghbalian F, Monsef A. Congenital Epulis in the Newborn, Review of the Literature and a Case Report. *J Pediatr Hematol Oncol* 2009; 31: 198-9.
- Bornstein E, Boozarjomehri F, Monteagudo A, Santos R, Milla SS, Timor-Tritsch IE. Diagnostic and Prognostic Aspects in the Sonographic Evaluation of a Fetus With an Oral Mass. *J Ultrasound Med* 2009; 28: 689-93.
- Chami RG, Wang HS. Large congenital epulis of newborn. *J Pediatr Surg* 1986; 21: 929-30.
- Messina M, Severi FM, Buonocore G, Molinaro F, Amato G, Petraglia F. Prenatal diagnosis and multidisciplinary approach to the congenital gingival granular cell tumor. *J Pediatr Surg* 2006; 41: E35-8.
- Valente A, Grant C, Orr JD, Brereton RJ. Neonatal tonsillar teratoma. *J Pediatr Surg* 1988; 23: 364-6.
- Todd DW, Votava HJ, Telander RL, Shoemaker CT. Giant epignathus. A case report. *Minn Med* 1991; 74: 27-8.
- Ekici E, Soysal M, Kara S, Dogan M, Gokmen O. Prenatal diagnosis of epignathus causing acute polyhydramnios. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1996; 75: 498-501.
- Fotopoulou C, Toennies H, Guschmann M, Henrich W. Prenatal sonographic diagnosis of an oropharyngeal teratoma (epignathus) on a stillborn infant: a case report. *Z Geburtshilfe Neonatol* 2007; 211: 165-8.

---

**= 국문초록 =**

선천성 치은종은 과오종의 하나로 매우 드문 종양이다. 대부분 상악골 치조제 앞에서 발생되며 동반되는 기형이 없는 양성 종양이다. 치은종은 구강 내로 돌출되기 때문에 종괴로 인해 호흡곤란이나 식이 장애를 야기할 수 있다. 따라서 산전 검사상 확인된 태아 구강 내 종괴에 대한 정확한 진단과 적절한 산전 상담은 중요하다. 저자들은 태아 구강 내 종괴로 발견되었으며 출생 후 선천성 치은종으로 확진된 1예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

**중심단어:** 선천성 치은종, 초음파, 태아 기형

---