

선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 혼합된 혼합 상피성 치성종양의 면역조직화학 특성

유미현, 김현실¹⁾, 차인호^{1),2)}, 박광호²⁾, 윤정훈³⁾, 김학균⁴⁾, 김진^{1)*}

남서울대학교 치위생학과, 연세대학교 치과대학 구강종양연구소¹⁾, 구강병리학교실¹⁾,
구강악안면외과학교실²⁾, 조선대학교 치과대학 구강병리학교실³⁾,
구강악안면외과학교실⁴⁾

〈ABSTRACT〉

Immunohistochemical Characterization of Combined Adenomatoid Odontogenic Tumor and Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor - Report of 3 Cases and Review of the Literature -

Mi Heon Ryu, Hyun Sil Kim¹⁾, In Ho Cha^{1),2)}, Kwang Ho Park²⁾, Jung Hoon Yoon³⁾,
Hak Gyun Kim⁴⁾, Jin Kim^{1)*}

Department of Dental Hygiene, Namseoul University, Oral Cancer Research Institute, Yonsei University
College of Dentistry¹⁾, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of
Dentistry²⁾, Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Chosun University³⁾, Department of Oral
and Maxillofacial Surgery, Chosun University College of Dentistry⁴⁾

Combined epithelial odontogenic tumors are very rare and represent hybrid lesion comprising adenomatoid odontogenic tumor intermixed with calcifying epithelial odontogenic tumor. The authors present 3 cases of combined epithelial odontogenic tumor which contained diagnostic areas for both adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor. Their behaviour and histogenesis were discussed.

Key words : Calcifying epithelial odontogenic tumor, Adenomatoid odontogenic tumor, Combined odontogenic tumor, Immunohistochemistry

I. 서론

선종양 치성종양(adenomatoid odontogenic tumor, AOT)은 1907년 Dreibradt가 처음으로 보고하였으며 1948년

Stafne가 이 종양의 성질에 대해 기술하였다.¹⁾ 발생기원이 치성 상피의 과오종이라는 견해도 있지만 현재는 진성 종양으로 생각하고 있다. 임상적으로 여성에 많으며, 상악 전치부에 호발하고, 매복 전치 주변에서 가장 흔하며 무증상이나 악골의 팽창을 야기하는 경우가 있다. 보존적인 치료로도 예후가 좋아 재발이 드물다.^{2,3)} 석회화 상피성 치성종양(calcifying epithelial odontogenic tumor, CEOT)은 1955년 Pindborg가 처음 기술하였고, 국소적으로 공격성을 보이

* Correspondence : Jin Kim, Department of Oral Pathology, Yonsei University, School of Dentistry, 134 Shinchon-Dong, Sudaemun-Ku Seoul, Korea, 120-752
Tel : 82-2-2228-3031, Fax : 82-2-392-2959,
E-mail : jink@yumc.yonsei.ac.kr

* 이 논문은 학술진흥재단 중점연구소 연구비(KRF-2005-005-J05901) 지원으로 이루어졌음.

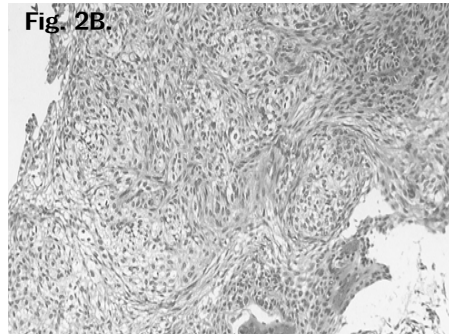
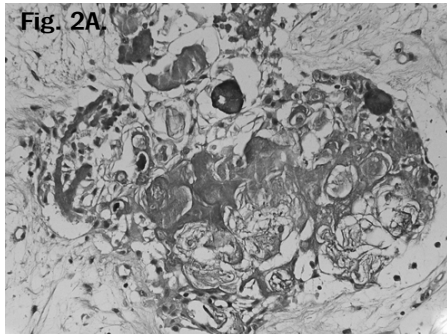
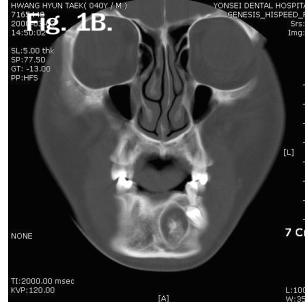
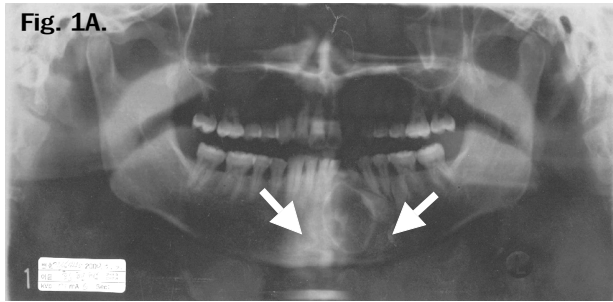


Fig. 1A. Panoramic view showing relatively well-defined radiolucent lesion containing several irregular radiopacities in the left anterior mandible. **B.** Axial CT showing relatively well-defined radiolucent lesion containing several irregular radiopacities associated with an unerupted the left mandibular canine. **Fig. 2A.** Solid nests of polygonal epithelial cells forming amorphous and calcified material (H/E stain, ×200). **B.** The nodules are composed of spindled epithelial cells that were in swirled pattern. (H/E stain, ×100).

며 남성에 많고, 하악 구치부에 호발하며 방사선 투과성 병소이거나 투과 병소내에 불투과 부위가 혼재된 양상으로 관찰되는 점 등 선종양 치성종양과는 다른 임상적 특징을 보인다.^{2,3)}

선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 혼합되어 발생한 혼합 상피성 치성종양은 1983년 Damm 등이 2예를 보고한 이래 현재까지 12예가 보고되어 있다. 혼합 상피성 치성종양의 석회화 상피성 치성종양 부분은 환자의 임상적 소견이나 예후에는 큰 영향이 없다는 점이 현재까지의 일반적인 견해이다.^{3,4)} 그러나 한 종양에서 두 가지 다른 종양 부위가 혼재되어 나타난 점은 혼합 상피성 치성종양을 포함한 치성종양의 발생기원을 규명하는데 많은 도움이 될 수 있다. 따라서 저자들은 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 혼재되어 나타난 혼합 상피성 치성종양 3예를 경험하고 이에 대한 면역조직화학 특성을 확인하여 보고한다.

II. 증례 보고

1. 증례 1

2000년 3월 40세 남성이 하악 좌측 전치부의 지각과민을 주소로 연세대학교 치과병원 구강악안면외과에 내원하였다. 환자는 3년 전 개인치과를 통해 하악 좌측 전치부에 종양이

있다는 것을 알고 있었으나 특별한 처치를 받지 않고 있다가 최근 하악 좌측 전치부 지각과민 및 통증으로 내원하였다. 의과 및 치과병력은 특이 사항이 없었다. 구강소견으로 하악 좌측 유전치 잔존과 하악 좌측 측절치 상실, 하악 좌측 제1 소구치와 제2 소구치 사이의 과잉치 맹출이 있었다. 하악 좌측 전치부에 협설측으로 골 팽창이 촉진되었고 부종이나 경결감, 배농, 압통이나 파동의 소견은 없었다. 파노라마 사진에서 하악 좌측 중절치에서 제1 소구치 부위 치근단에서 경계가 분명한 방사선 투과성 병소(1.5×2.5cm)에 불투과성 물질이 혼재된 양상이 관찰되었고 전산화 단층 촬영사진에서는 매복된 하악 좌측 견치의 전위와 경계가 분명한 방사선 투과성 병소 내에 불투과성 물질이 관찰되었다 (Fig. 1A, B). 2000년 3월 석회화 치성낭으로 생각하고 매복된 하악 좌측 견치의 발거 및 절제 생검을 시행하였다. 술 후 5년 동안 병소의 재발이나 합병증은 없었다(Table 1).

절제된 조직은 매복된 치아와 낭성 연조직으로 구성된 종양으로 종양 내부는 과립상으로 다량의 석회화 물질이 가득 차 있었다. 조직학적으로 종양은 경계가 분명한 결합조직으로 둘러싸여 있었으며, 결합조직 내측의 낭강에서 연조직이 증식하여 낭강을 채우고 있는 소견이 관찰되었다 (Fig. 2A, B). 종양은 다각형의 상피세포의 증식과 무정형 물질, 석회화 물질이 침착되어 있는 전형적인 석회화 상피성 치성종

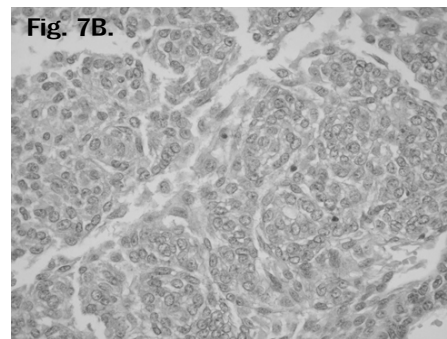
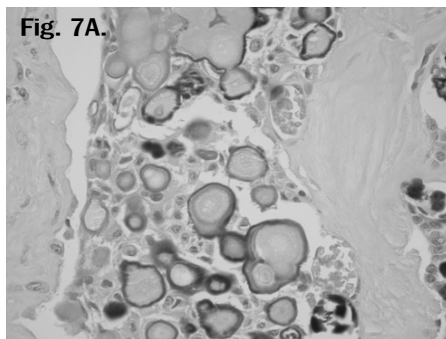
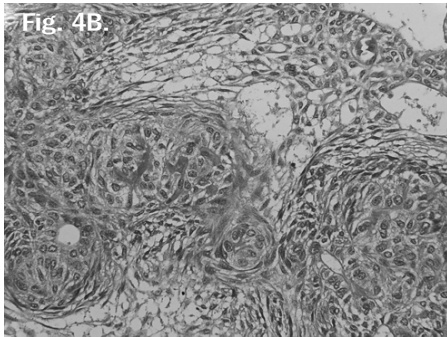
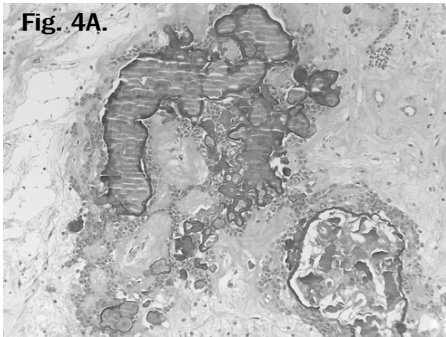


Fig. 3. Panoramic view showing relatively well-defined radiolucent lesion containing several irregular radiopacities associated with an impacted canine tooth in the apex of the left mandibular deciduous canine. **Fig 4A.** Solid nests of polygonal epithelial cells forming amorphous and partially calcified material (H/E stain, $\times 40$). **B.** The nodules were composed of spindled epithelial cells that are in swirled pattern with homogeneous material. (H/E stain, $\times 200$). **Fig. 5.** Clinical photographs showing expansion of the left anterior maxilla.

Fig. 6A, B. Panorama and CT showing relatively well defined radiolucency including an impacted tooth with divergency of adjacent roots. **Fig. 7A.** Foci of calcifying epithelial odontogenic tumor cells showing intercellular eosinophilic materials with varying degrees of mineralization. (H/E stain, $\times 100$) **B.** Partly detached luminal epithelial proliferation of adenomatoid odontogenic tumor. (H/E stain, $\times 100$)

양의 특징을 보이며 증식하는 부위가 대부분을 차지하고 있었고, 입방세포가 선 구조를 취하거나 방추형 세포들이 소용돌이 양상을 보이는 선종양 치성종양의 특징을 보이는 부위가 혼재되어 관찰되었다. 상피세포의 핵에서는 과염색상이나 비정형 등의 소견은 없었으며 Congo red 염색 후 편광 현미경으로 검경한 결과 특징적인 황록색의 이중 굴절 반응

이 관찰되었다.

2. 중례 2

2001년 3월 10세 여아가 하악 우측 견치부의 안면 종창을 주소로 연세대학교 영동세브란스병원 구강악안면외과에 내원하였다. 의과 및 치과 병력에는 특이 사항이 없었다. 환자

의 구강 소견은 하악 우측 유견치 잔존과 하악 좌측 견치 상실이 있었다. 하악 우측 유견치와 측절치 부에 골 팽창이 있었고 치은 발적과 촉진시 압통의 증세를 보였다. 파노라마와 교합 사진에 하악 우측 유견치에서 측절치 치근단 부위에서 매복된 치아와 연관된 경계가 분명한 방사선 투과성 병소 (3×2.5cm)가 관찰되었다(Fig. 3). 2001년 4월 선종양 치성종양 잠정진단하에 매복된 하악 우측 견치의 발거와 함께 병소 부위의 절제 생검을 시행하였다. 술 후 4년 동안 병소의 재발이나 합병증은 없었다(Table 1).

생검 조직은 매복된 치아를 포함하고 있는 결합조직 벽으로 둘러싸여 경계가 분명한 연조직으로 구성되어 있었으며,

조직학적으로 낭성 조직 내부에서 연조직 증식 소견이 관찰되었다(Fig. 4A, B). 연조직을 구성하는 종양세포는 전형적인 선종양 치성종양의 특징을 보이는 세포들이 대부분이었으며 석회화 상피성 치성종양의 조직학적 특징을 보이는 부위도 부분적으로 관찰되었다. 상피세포의 핵에서는 과염색상이나 비정형 등의 소견은 없었다.

3. 증례 3

2005년 4월 68세 여성이 상악 우측 전치부의 무통성 종창을 주소로 개인 치과를 경유 조선대학교 치과병원 구강악안면외과에 내원하였다. 의과 및 치과 병력은 특이 사항이

Table 1. Clinical summary of three cases of combined epithelial odontogenic tumour

Case	Year	Age	Sex	Duration	Site	C.C.	Clinical diagnosis	Radiographic finding	Treatment	Follow-up
1	2000	40	M	3 years	c4	HS	COC	RL with RO	cyst enucleation	5 yrs/NED
2	2001	10	F	2 weeks	c2	swelling	AOT	RL	excision	4 yrs/NED
3	2005	68	F	NA	23	swelling	COC	RL	cyst enucleation	1 yr/NED

C.C. = Chief Complaint

COC = Calcifying odontogenic cyst

RO = Radiopacities

AOT = Adenomatoid odontogenic tumor

HS = Hypersensitivity

RL = Radiolucency

NED = No evidence of disease

NA = Not available

Table 2. Antibodies and immunoreactivities employed

Antibody	Source	Dilution	Reactivity		
			Epithelium		Amorphous material
			AOT-like cell	CEOT-like cell	
Cytokeratin	Dako ^a	1:100	+	+	-
Vimentin	Dako ^a	1:200	+	+	-
Amelogenin	Kamiya ^b	1:100	+	+(weak)	+
Osteopontin	Santa Cruz ^c	1:100	+	+	+
Alkaline phosphatase	Novocastra ^d	1:50	±	±	-

^aDako, Glostrup, Denmark

^bKamiya Biomedical Technology, Seattle, WA, USA

^cSanta Cruz Biotechnology, Santa Cruz, CA, USA

^dNovocastra, Balliol Business Park West, Benton Lane, Newcastle, United Kingdom

없었다. 구강소견은 상악 우측 전치부의 구개측 종창을 보였으며 배농은 없었다 (Fig. 5). 파노라마와 교합, 전산화 단층 촬영 사진에서는 상악 우측 전치부에서 매복된 과잉치 또는 치아종과 연관된 경계가 분명한 방사선 투과성 병소가 관찰되었다 (Fig. 6 A, B). 2005년 5월 석회화 치성낭으로 생각

하여 병소의 절제 생검을 시행하였다. 술 후 1년 동안 병소의 재발이나 합병증은 없었다 (Table 1).

생검 조직은 매복된 치아와 연관된 경계가 분명한 낭성 연조직으로 구성되어 있었다. 현미경적으로 낭성 조직 내부에서 연조직 증식 소견이 관찰되었다. 연조직을 구성하는 세

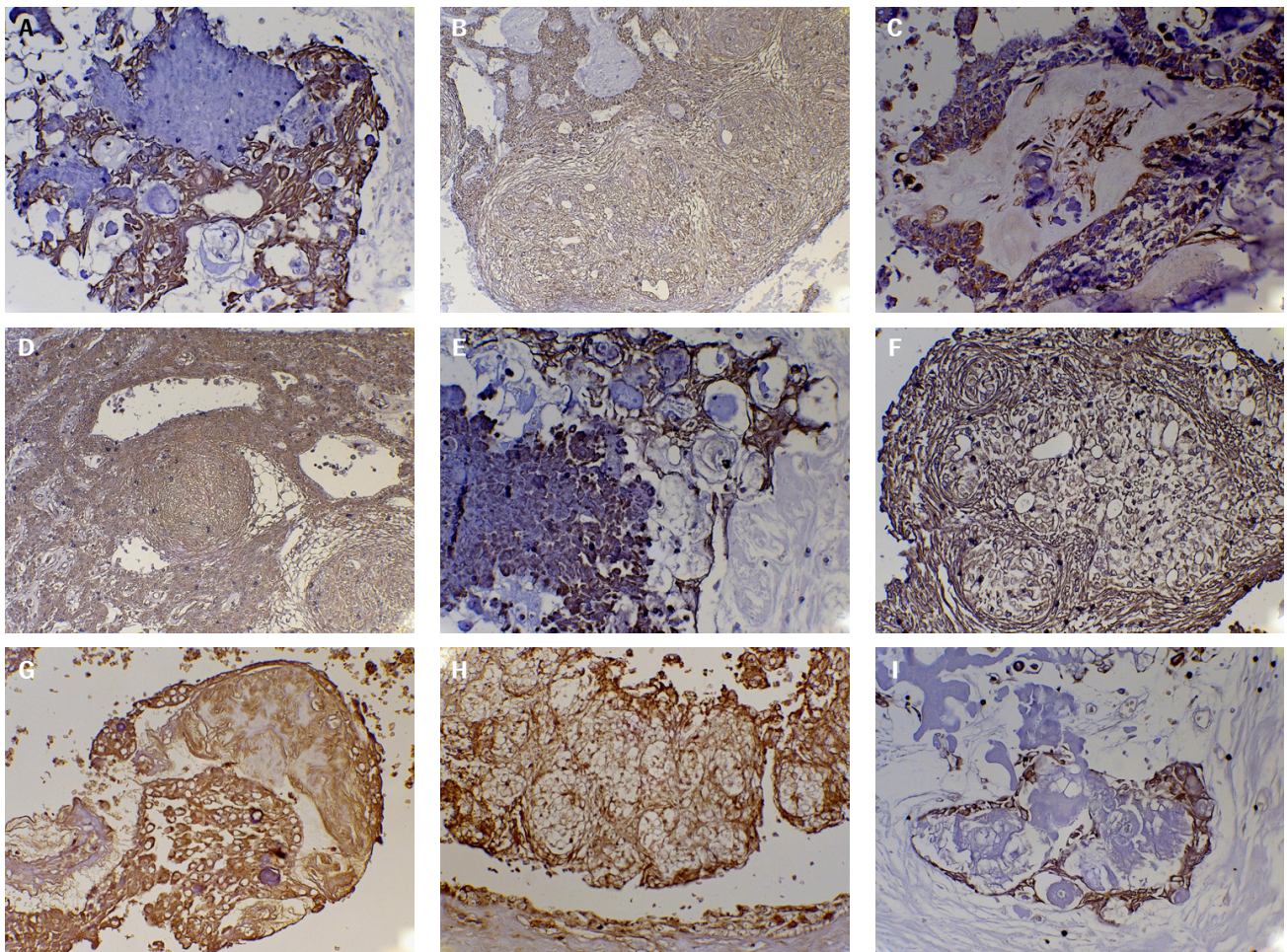


Fig. 8. Immunohistochemical features of combined odontogenic tumors. **A.** Cytokeratin expression in the cytoplasm of calcifying epithelial odontogenic tumor cells, confined to squamous cells adjacent to the homogeneous materials (Immunohistochemical stain, $\times 40$). **B.** Cytokeratin expression in the cytoplasm of adenomatoid odontogenic tumor cells, with delicate lattice network areas (Immunohistochemical stain, $\times 40$). **C.** Vimentin expression in the cytoplasm of calcifying epithelial odontogenic tumor cells, but not in the homogeneous materials (Immunohistochemical stain, $\times 100$). **D.** Vimentin expression in the cytoplasm of adenomatoid odontogenic tumor cells, with delicate lattice network areas (Immunohistochemical stain, $\times 40$). **E.** Amelogenin expression in the cytoplasm of calcifying epithelial odontogenic tumor cells and adjacent homogeneous materials (Immunohistochemical stain, $\times 40$). **F.** Amelogenin expression in the cytoplasm of adenomatoid odontogenic tumor cells, showing strong positivity in the peripheral portion of tumor cell nest (Immunohistochemical stain, $\times 100$). **G.** Osteopontin expression in the cytoplasm of calcifying epithelial odontogenic tumor cells and adjacent homogeneous materials (Immunohistochemical stain, $\times 100$). **H.** Osteopontin expression in the cytoplasm of adenomatoid odontogenic tumor cells (Immunohistochemical stain, $\times 40$). **I.** Alkaline phosphatase expression in the cytoplasm of combined odontogenic tumor cells, but not in the homogeneous materials (Immunohistochemical stain, $\times 40$).

또는 전형적인 선종양 치성종양의 특징을 보이는 세포들이 대부분이었으며 석회화 상피성 치성 종양의 조직학적 특징을 보이는 부위도 부분적으로 관찰되었다 (Fig. 7A, B). 상피 세포의 핵에서는 과염색상이나 비정형 등의 소견은 없었다.

III. 면역조직화학 특성

1. 면역조직화학 염색

보관된 파라핀 블록에서 박절 표본을 만들어 30분간 xy-lene 용액에 담가 파라핀을 제거하고 100%, 90%, 70% 에틸 알코올에 순차적으로 함수하였다. 3% H₂O₂ 용액으로 10분간 endogenous peroxidase를 제거한 후, 0.4% trypsin 용액으로 20분간 효소 처리하여 항원을 노출시켰다. 이후 horse serum(Vectastain[®] kit, Vector, Burlingame, CA, USA)에 30분간 반응시킨 후 cytokeratin(Dako, Glostrup, Denmark), vimentin(Dako, Glostrup, Denmark), amelogenin(Kamiya Biomedical Technology, Seattle, WA, USA), osteopontin(Santa Cruz Biotechnology, Santa Cruz, CA, USA), alkaline phosphatase (Novocastra, Balliol Business Park West, Benton Lane, Newcastle, United Kingdom)에 대한 일차 항체를 사용하여(Table 2) 각각 avidin-biotin 방법으로 면역조직화학염색을 시행하였다. 0.05% DAB를 이용하여 발색하고 수세 후 Mayer's hematoxylin으로 대조 염색하고 광학 현미경(Olympus, BH-2, Tokyo, Japan)으로 관찰하였다.

2. 면역조직화학 염색 결과

면역조직화학염색을 시행한 결과(Table 2) cytokeratin, vimentin에는 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 상피세포 모두에 강한 양성 반응을 보였으며 종양세포 사이의 무정형 물질과 석회화 물질에서는 음성 반응이었다 (Fig. 8A, B, C, D). Amelogenin과 osteopontin 염색에는 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 상피세포에서 모두 강양성 반응을 보였으며 종양세포 사이의 무정형 물질과 석회화 물질에서는 부분적으로 양성반응을 보였다(Fig. 8E, F, G, H). Alkaline phosphatase의 염색에서는 증례 1과 3에서 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 상피 세포에 양성 반응을 보였으며 무정형의 물질과 석회화 물질에서 음성 반응을 보였다 (Fig. 8 I). 증례 2에서는 상피세포,

무정형의 물질, 석회화 물질에서 모두 음성 반응을 보였다.

IV. 고찰

혼합 상피성 치성종양은 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 혼합되어 발생하는 것으로서 이제까지 보고된 예로는 선종양 치성종양이 대부분을 차지하며 국소적으로 석회화 상피성 치성종양이 존재하는 경우만 보고되었다. 증례 1과 같이 석회화 상피성 치성종양의 구성성분이 대부분을 차지하면서 국소적으로 선종양 치성종양의 특징을 보이는 경우는 아직 보고된 바가 없다. 현재까지 보고된 논문에 의하면 선종양 치성종양이 혼합 상피성 치성종양의 대부분을 차지하는 경우 환자의 임상 및 방사선 소견은 선종양 치성종양과 유사하거나 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 특징을 모두 나타내는 특징을 보인다.^{3,5-7)} 이 연구의 경우 3명의 환자의 연령은 각각 40대, 10대, 60대 등으로 다양하다. 선종양 치성종양은 이미 알려진 대로 10~20대의 젊은 연령층에서 호발하며, 석회화 상피성 치성종양은 40세 이상의 연령층에서 호발하는 것으로 알려져 있다.^{2,3,7,8)} 이 연구에서는 조직학적으로 선종양 치성종양의 비율이 대부분을 차지하는 증례 2, 3의 경우 발생 연령이 10대와 60대로서 매우 큰 차이를 보였다. 또한 조직학적으로 석회화 상피성 치성종양의 비율이 대부분을 차지하는 증례 1의 경우 발생 연령이 40대로서 석회화 상피성 치성종양의 발생 연령과 비슷하였다. 임상 소견상 3예 중 2예가 여성에서 발생하였으며, 3예 모두 상악 전치부에서 발생하였고 매복치와 연관되어 있었다. 선종양 치성종양은 임상적으로 전치부에서 많이 발생하며, 여성에 많고, 매복치와 연관되어 있으며 두꺼운 연조직 피막으로 둘러싸여 있는 특징이 있어,^{2,3)} 본 증례의 임상적 소견은 선종양 치성종양의 임상소견과 유사한 점이 많은 것으로 생각되었다.

본 3예는 모두 두꺼운 결합조직 피막을 가지고 있고 종양 세포가 결합조직 벽에서 내강 쪽으로 증식하여 내강을 채우고 있었으며 결합조직 벽으로의 침윤성 성장은 없어 선종양 치성종양에 가까운 조직학적 특성을 나타내고 있었다. 방사선 소견은 각 혼합 상피성 치성종양의 조직학적 특성에 따라 선종양 치성종양이나 석회화 상피성 치성종양에 가까운 소견을 보이는 것으로 생각되었다. 대부분의 세포가 석회화 상피성 치성종양으로 구성되어 있는 증례 1의 경우 매복치와

연관된 비교적 경계가 분명한 방사선 투과성 병소 내에 불투과 병소가 혼재되어 있어 석회화 상피성 치성 종양에 가까운 소견을 보인다고 생각되었으며, 대부분의 세포가 선종양 치성종양으로 구성되어 있는 증례 2, 3의 방사선 소견은 매복치와 연관되어 있는 비교적 경계가 분명한 방사선 투과성 병소로서 선종양 치성종양에 가까운 방사선 소견을 보였다.

환자의 추적 관찰에서 현재까지 재발이나 국소적 합병증은 관찰되지 않았다. 선종양 치성종양의 경우 보존적인 치료만으로도 재발이 드문 것으로 보고되어 있고 석회화 상피성 치성 종양의 경우 국소적으로 침윤성 성장을 하며 공격성을 보이기 때문에 보존적 치료는 추천되지 않는다.^{2,3)} 혼합 상피성 치성종양을 보고한 다른 12예의 보고에서는 장기간의 추적 관찰에서도 재발이나 합병증은 관찰되지 않는다고 하였다.^{4,9)} 대부분의 세포가 석회화 상피성 치성종양으로 구성되어 있는 증례 1의 경우에 있어서도 장기간의 추적 관찰에서 재발이나 별다른 합병증을 보이지 않아 혼합 상피성 치성종양의 예후는 두 종양의 조직학적 비율에 상관없이 선종양 치성종양의 예후에 가까운 것으로 생각되었다.

선종양 치성종양은 전범랑아세포, 중간층(stratum intermedium), 성상세망(stellate reticulum) 등에서 기원하며, 석회화 상피성 치성종양은 중간층 기원으로 발생하는 치성 종양이다.^{6,10)} 범랑기의 중간층은 alkaline phosphatase가 풍부한 조직으로 알려져 있으므로,^{6,8)} 이 연구에서는 alkaline phosphatase에 대한 일차항체를 이용한 면역조직화학염색을 시행하였다. 그 결과 3예 중 2예에서 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 특징을 보이는 부위에서 모두 양성반응을 나타내었다. 또한 전자현미경적으로 선종양 치성종양의 방추형 세포와 석회화 상피성 치성종양의 다각형 상피세포가 중간층 세포와 비슷하다는 보고가 있어 이 연구의 결과와 일치한다고 생각하였다.¹¹⁾ Cytokeratin, amelogenin, osteopontin, vimentin에 대한 면역조직화학염색 결과 3예 모두 선종양 치성종양의 특징과 석회화 상피성 치성종양의 특징을 보이는 종양 세포에서 강한 양성반응을 보였으며 간질 부분에서는 음성 반응을 보였다. 따라서 본 증례는 치성 상피기원이라 생각되었고 범랑 단백질을 분비하는 기능이 있는 세포의 증식에 의한 종양으로 생각하였다.¹²⁾ Vimentin은 치배의 종상기(bell stage)에 외범랑상피와 성상세망에 발현되며 이 시기에는 cytokeratin과 vimentin이 함께 발현되는 것으로 보고하여,^{13,14)} 치배의 종상

기 단계에서 유래한 치성 상피세포가 혼합 상피성 치성 종양을 형성하는 것으로 생각되었다. 또한 무정형 물질에서도 부분적으로 amelogenin과 osteopontin이 양성 반응을 보여 종양세포에서 분비된 치성 기원 물질로 생각하였고 종양 간질 부분은 치성 상피의 특징을 보이지 않는다고 생각하였다.

혼합 상피성 치성종양에서 나타나는 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 충돌(collision) 현상에 의한 것인지 진성 혼합 치성종양인지는 논란이 있다.⁶⁾ 본 증례의 3예 모두 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양의 세포가 섞여서 관찰되었으며 선종양 치성종양의 세포가 석회화 상피성 치성종양으로 이행되는 부위도 관찰되었다. Pindborg는 치성 종양의 형성 과정을 정상 치아 형성의 과정과 비교하였을 때 치성 상피에 의한 유도 현상의 다양성 정도에 따라 치성종양의 유형이 다양하게 나타난다고 하였다.^{15,16)} 또한 Damm 등의 보고에서는 혼합 상피성 치성종양의 석회화 상피성 치성종양의 특징을 보이는 종양세포가 선종양 치성종양의 조직학적 특징을 보이는 세포에서 기원하여 발생하였음을 주장한 바 있다.⁸⁾ 특히 본 증례는 선종양 치성종양이나 석회화 상피성 치성종양의 특징을 보이는 세포에서 동일한 면역조직화학적 특성을 갖고 있어 동일 세포 기원임을 추측할 수 있다. 아울러 본 증례의 혼합 상피성 치성종양 세포는 치배의 종상기에 나타나는 치성 상피세포에서 기원한 것으로서 중간층에서 발생하였을 가능성이 높은 것으로 생각되며 종양 기원세포가 범랑 단백질의 형성 능력을 가지고 있는 세포로 분화하여 종양을 형성하며 종양 발생 과정에서 서로 다른 분화를 보이면서 각기 다른 조직학적 유형을 보이는 종양으로 발생한 것으로 생각된다.

1992년 발표된 치성 종양의 세계 보건 기구(WHO) 분류에서는 선종양 치성종양을 혼합성 기원의 치성 종양으로, 석회화 상피성 치성 종양은 상피성 기원의 치성 종양으로 분류하였다.¹⁷⁾ 이 분류에서는 선종양 치성종양이 치성 기원의 외배엽성 간엽(ectomesenchyme)과 치성 상피가 함께 증식하여 종양을 형성한 것으로 기술하고 있으며 치성 경조직 형성을 동반하거나 동반하지 않는 경우로 분류하고 있다. 그러나 Tatemoto 등은 선종양 치성종양에서 keratin, vimentin은 양성 반응이나 desmin은 음성 반응을 보고하였으며¹⁸⁾ Philipsen 등은 선종양 치성종양에 나타나는 석회화 물질이 화생에 의해 형성된 상아질양 물질이라고 생각하였다. 또한 Gao 등의 보고에서는 골 형성 단백질(bone morphogenic

protein)의 면역조직화학염색 결과 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양에서 모두 음성 반응을 나타내었으며²⁰⁾ 선종양 치성종양의 기질이 외배엽성 간엽이라기보다는 종양 상피에 의한 유도 현상으로 나타난 성숙한 결합 조직이라고 주장하였다.¹⁹⁾ 본 증례의 면역조직화학염색 결과 선종양 치성종양 부분에서는 치성 상피 기원의 조직 증식 외 외배엽성 간엽 기원 조직의 증식을 볼 수 없었으며 석회화 물질도 치성 상피 기원으로 생각되었다. 또한 전술하였듯이 본 연구에 포함된 증례의 선종양 치성종양 부분과 석회화 상피성 치성종양 부분의 면역조직화학염색 소견이 일치하므로 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양은 같은 발생 기원의 치성 상피성 종양으로 재분류함이 타당하다고 생각된다.

V. 참고문헌

1. 김태완, 임지준, 홍성두, 이재일, 홍삼표. 선종양치성종 22례의 임상병리학적 검색. 대한구강악안면병리학회지 2005; 29: 231-237.
2. Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP. Contemporary oral and maxillofacial surgery, 2nd ed. St. Louis: Mosby, 2004: 143-147.
3. Hicks MJ, Flitz CM, Batsakis JG. Pathology consultation : Adenomatoid and calcifying epithelial odontogenic tumor. Ann Otol Rhinol Laryngol 1993;102:159-161.
4. Lesmada CM, Taylor AM, Le n ERR, Garza MP, Jaukin PG, Robertson JP. Adenomatoid odontogenic tumor with features of calcifying epithelial odontogenic tumours. (The so-called combined epithelial odontogenic tumour.) Clinico-pathological report of 12 cases. Oral Oncol, Eur J Cancer 1993; 29B: 221-224.
5. 윤정훈. 선종양 치성종양과 석회화 상피성 치성종양이 혼재된 연합 상피성 치성 종양 1예. 대한 구강악안면병리학회지 2001; 25:61-64.
6. Siar CH, Ng KH. The combined epithelial odontogenic tumor in Malaysians. Br J Oral Maxillofac Surg 1991 Apr;29(2):106-109.
7. Bingham RA, Adrian JC. Combined epithelial odontogenic tumor - Adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor : Report of a case. J Oral Maxillofacial Surg 1986; 44: 574-577.
8. Damm DD, White DK, Drummond JF, Poindexter JB, Henry BB. Combined epithelial odontogenic tumor: Adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor. Oral Surg 1983; 55: 487-496.
9. Siar CH, Ng KH. Combined calcifying epithelial odontogenic tumor and adenomatoid odontogenic tumor. Int J Oral Maxillofacial Surg 1987; 16: 214-216.
10. Okada Y, Mochizuki K, Sugimura M, Noda Y, Mori M. Odontogenic tumor with combined characteristics of adenomatoid odontogenic and calcifying epithelial odontogenic tumors. Path Res Pract 1987; 182: 647-657.
11. Morimoto C, Tsujimoto M, Shimaoka S, Takasu J. Ultrastructural localization of alkaline phosphatase in the calcifying epithelial odontogenic tumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1983; 56: 409-414.
12. Murata M, Cheng J, Horino K, Hara K, Shimokawa H, Saku T. Enamel proteins and extracellular matrix molecules are co-localized in the pseudocystic stromal space of adenomatoid odontogenic tumor. J Oral Pathol Med 2000; 29: 483-490.
13. Kasper M, Karsten U, Stosiek P, Mill R. Distribution of intermediate-filament proteins in the human enamel organ: unusually complex pattern of coexpression of cytokeratin polypeptides and vimentin. Differentiation 1989; 40: 207-214.
14. Crivelini MM, de Ara jo VC, de Sousa SOM, de Ara jo NS. Cytokeratins in epithelia of odontogenic neoplasms. Oral Dis 2003; 9:1-6.
15. Pindborg JJ. A calcifying epithelial odontogenic

- tumor. *Cancer* 1958; 11: 838–843.
16. Takeda Y, Kudo K. Adenomatoid odontogenic tumor associated with calcifying epithelial odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofacial* 1986; 15: 469–473.
17. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. WHO Histological Typing of Odontogenic Tumours, 2nd ed, Springer-Verlag, Geneva 1992.
18. Tatemoto Y, Takaaki T, Okada Y, Mori M. Adenomatoid odontogenic tumour: co-expression of keatin and vimentin. *Virchows Archiv A Pathol Anat* 1988;413:341–347.
19. Philipsen H, Reichart P. Revision of the 1992–edition of the WHO histological typing of odontogenic tumours. A suggestion. *J Oral Pathol Med* 2002;31: 253–258.
20. Gao YH, Yang LJ, Yamaguchi A. Immunohistochemical demonstration of bone morphologic protein in odontogenic tumours. *J Oral Pathol Med* 1997; 26:273–277.