

# 어린이의 하악골에 발생한 결합조직형성 섬유종(Desmoplastic fibroma) 1예

윤정훈 · 이재호\*

연세대학교 치과대학 구강병리학교실, 구강종양연구소 및 소아치과학교실\*

## 국문초록

결합조직형성 섬유종(desmoplastic fibroma)은 국소적으로 공격성을 보이는 골내 양성종양으로, 연조직에 발생하는 섬유종증(fibromatosis)이나 유건종(desmoid tumor)의 골내 대조병변이다. 이 종양은 대개 30세 이하의 비교적 어린 나이에 발생하며, 가장 흔한 주수와 증상은 구강 내와 구강 외의 무통성 종창으로 안모변형을 일으킨다.

환자는 약 한달 전부터 시작된 좌측 안면부 종창을 주소로 본원에 내원한 9세 남아로 종창부위를 만져보면 통증은 있지만, 악하 림프절 증대는 없었다. 파노라마 사진에서 #33과 #34 치아 사이에 비교적 경계가 분명한 방사선 투과상 병소가 관찰되었다. 임상적으로 좌측 하악체 부위에는 양성 치성종양이, #46 치관 부위는 합치성 낭이 있는 것으로 추정하고 구강악안면외과에 의뢰하여 종양 및 낭 제거술을 시행하였다.

병리조직학적으로, 종양은 방추형의 섬유모세포의 증식과 교원섬유의 침착이 특징이었다. 이 증례에서 치아 및 악골이 발육중인 어린이의 경우 안모 손상을 초래할 수 있어 광범위한 외과 술식은 피하였다. 그러나 이 종양의 재발율이 높은 점을 고려하여 세심하고도 철저한 추적관찰이 필요하며, 추후 재발 시에는 악골 절제도 고려해야 할 것으로 생각한다.

**주요어** : 결합조직형성 섬유종, 하악골, 소아

## I. 서 론

결합조직형성 섬유종(desmoplastic fibroma)은 국소적으로 공격성을 보이는 골내 양성종양으로, 연조직에 발생하는 섬유종증(fibromatosis)이나 유건종(desmoid tumor)의 골내 대조병변이다<sup>1)</sup>.

1958년 Jaffe<sup>2)</sup>가 골의 섬유성 종양중에서 하나의 독립된 유형으로 이 병소를 기술하면서 결합조직형성 섬유종으로 처음 명명하였다. 주로 상완골, 대퇴골, 경골 등 장골의 골간단(metaphysis)에 발생하고<sup>1)</sup>, 악골에 생긴 예는 1965년 Griffith와 Irby<sup>3)</sup>가 처음 보고하였다. 구강악안면부에 발생한 경우는 매우 드물지만, 주로 하악 구치부에 호발하고, 청소년기에 흔한 것으로 알려져 있다<sup>4)</sup>.

저자들은 소아의 하악골에 발생한 결합조직형성 섬유종 1예를 경험하고, 소아에서 볼 수 있는 악골내 종양으로 소아치과의사들에게 소개하고자 이 증례를 보고한다.

## II. 증례보고

환자는 9세 남자아이로 약 한달 전부터 시작된 좌측 안면부

종창을 주소로 본원에 내원하였다. 환자는 내원 10일전 같은 부위에 종창이 있어 개인 치과의원에서 원인치아로 생각되는 하악 좌측 제1, 2유구치를 발거 하였고, 일주일 후 발사를 위해 내원하였는데 염증이 많아서 잘 낫지 않는다는 이야기를 듣고 2차례에 걸쳐 소파술을 시행 받았다고 한다. 이후 모 병원 치과에 찾아가서 검사를 더 받은 후 낭이 있다는 이야기를 듣고 본원 소아치과로 의뢰되었다. 과거력에 특별한 전신이상 소견은 없었다.

구강검사에서 발치된 유구치 부위에는 농이 배출되며 창상이 노출되어 있었고, 인접한 치은은 종창과 발적이 동반하였다. 하악 좌측 제1, 2소구치는 매복된 상태로, 노출된 창상부위로 약간 돌출되어 있었다. 종창부위를 만져보면 통증은 있지만, 악하 림프절 증대는 없었다.

파노라마 방사선사진에서 #33과 #34 치아 사이에 비교적 경계가 분명한 방사선 투과상 병소가 관찰되었다(Fig. 1). 하악 우측 제1대구치는 완전히 매복되어 있으며, 그 주위에 비교적 증대된 여포성 간극이 보였다.

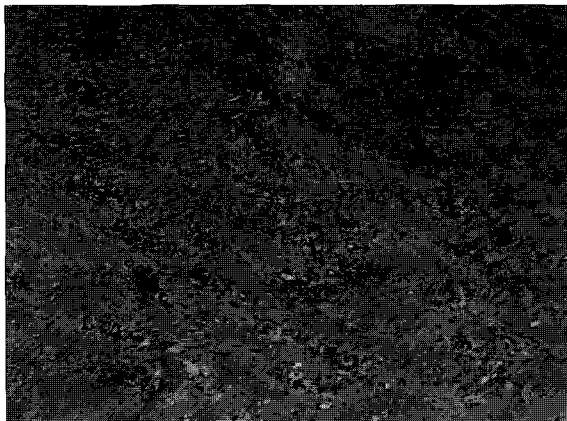
전산화 단층촬영 영상소견에서는 #33에서 #34 치아 원심부 하악체 부위에 주위와 비교적 경계가 잘 이루어진 골내 병소가 보이며, 이 병변으로 인하여 협측 피질골은 얇아지고 팽대되어



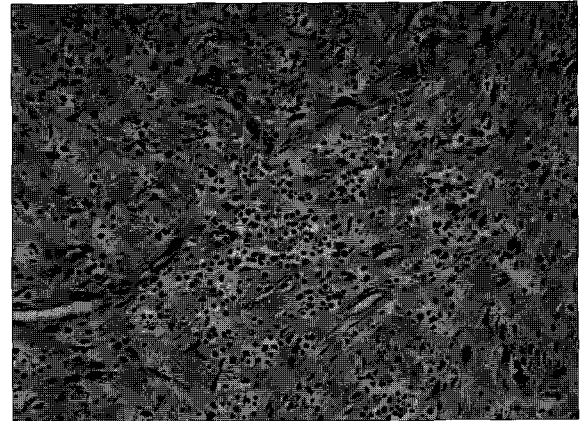
**Fig. 1.** 파노라마 방사선사진에서 #33과 #34 치아 사이에 비교적 경계가 분명한 방사선 투과성 병소가 관찰되며, 하악 우측 제1대구치는 완전히 매복하여 있고, 그 주위에 비교적 증대된 여포성 간극이 보임.



**Fig. 2.** 전산화 단층촬영 영상소견에서 #33에서 #34 치아 원심부 하악체 부위에 주위와 비교적 경계가 잘 이루어진 골내 병소로 인하여 혈측 피질골은 얇아지고 팽대되어 있음.



**Fig. 3.** 방추형의 섬유모세포의 증식과 교원섬유의 침착을 보임. (Hematoxylin-Eosin, x100)



**Fig. 4.** 세포 충실도가 높은 곳에서도 비정형적인 섬유모세포나 세포분열은 관찰할 수 없으며, 이차적인 소수의 염증세포의 침윤을 보임. (Hematoxylin-Eosin, x200)

있었다(Fig. 2). 이와 인접한 좌측 광경근은 두터워져 있으며 인접한 지방간극도 혼탁도가 다소 증가되어 있었다. 병소내로 침범된 #33, #34 치아는 설측으로 변위되어 있으며 병소와 인접한 #36 치아의 치경부의 치조골 부분은 골 경화도가 다소 증가되어 있었다.

임상적으로 좌측 하악체 부위에는 양성 치성종양이, #46 치관 부위는 함치성 낭으로 추정하고 구강악안면외과에 의뢰하여 좌측 종양 제거술과 우측의 낭 적출술을 각각 시행하였다.

병리조직학적으로, 종양은 방추형의 섬유모세포의 증식과 교원섬유의 침착이 특징이었다. 세포충실도(cellularity)는 부위마다 달라, 세포성분이 많은 곳은 교원질이 적고 세포성분이 적은 곳은 교원질의 침착이 많았다(Fig. 3). 세포 충실도가 높은 곳에서도 비정형적인 섬유모세포나 세포분열은 관찰할 수 없었다. 발치와 소파술로 인해 이차적인 소수의 염증세포의 침윤도 있었다(Fig. 4). #46 치관 부위에서 제거한 조직은 치낭(dental follicular tissue)조직으로 구성되어 있었다.

### Ⅲ. 총괄 및 고찰

1965년 Griffith와 Irby<sup>3)</sup>가 악골에 발생한 결합조직형성 섬유종을 처음 보고한 이래 현재까지 치과 문헌에 발표된 예는 많지 않다<sup>4,6)</sup>. 이 종양은 대개 30세 이하의 비교적 어린 나이에 발생하고, 성치는 없다. 가장 흔한 주소와 증상은 구강 내와 구강 외의 무통성 종창으로 안모변형을 일으킨다<sup>1,4,6)</sup>.

방사선적으로 단방형 또는 다방형의 방사선 투과성 병소로 정상골과 종양의 경계는 잘 지워져 있지만 경화성 테두리는 없다. 그러나 상악에 발생하는 경우에는 경계가 불분명하여 하악에 비해 더 공격적일 가능성이 없지 않다<sup>4)</sup>. 임상 및 방사선학적으로 골화성 섬유종, 거대세포종, 연골점액성 섬유종, 혈관종, 호산성 육아종과 치성낭 및 종양과의 감별이 필요하다. 이 증례에서도 단방성의 방사선 투과성 병소로 병소내에 석회화 물질이 없는 낭성 병소로 보였지만 낭에서 보는 경화성 테두리가 없어 감별이 가능하였다.

결합조직형성 섬유종의 조직학적 소견은 골의 연조직의 섬유

종중이나 유건종과 유사하다<sup>1,6)</sup>. 이 종양의 조직학적인 WHO 기준은 경도 내지 중등도의 세포성분을 보이며, 섬유교원성 결합조직에서 세포 다형성, 핵의 과색소성이나 세포분열이 없다는 점이다<sup>6)</sup>. 이 증례도 이러한 조직학적 기준에 합당하였다.

결합조직형성 섬유종의 치료방법의 선택에는 논란이 많다. Jaffe<sup>2)</sup>는 분절절제(segmental resection)를, Sugiura<sup>7)</sup>는 광범위 절제나 소파술 후 골이식이 효과적인 치료법이라고 주장하고 있다. 그러나, Eisen과 Butler<sup>8)</sup>는 안모추형을 피하기 위해 보존적인 치료를 제안하여 엇갈린 견해를 갖고 있다.

그러나 이 증례에서처럼 치아 및 악골이 발육중인 어린이의 경우 안모 손상을 초래할 수 있어 광범위한 외과 술식은 피하였다. 그러나 이 종양의 재발율이 높은 점을 고려하여 세심하고도 철저한 추적관찰이 필요하며, 추후 재발 시에는 악골 절제도 고려해야 할 것으로 생각한다.

#### Ⅳ. 요약

저자들은 소아의 하악골에 발생한 결합조직형성 섬유종 1예를 경험하고, 소아에서 볼 수 있는 악골내 종양으로 소아치과의사들에게 소개하고자 이 증례를 보고하였다. 이 증례에서는 치아 및 악골이 발육중인 어린이의 경우 안모 손상을 초래할 수 있어 구강악안면외과에서 종양제거 수술을 시행하였지만 광범위한 외과 술식은 피하였다. 그러나 이 종양의 재발율이 높은 점을 고려하면 세심하고도 철저한 추적관찰이 필요하며, 추후 재발 시에는 악골 절제도 고려해야 할 것으로 생각한다.

#### 참고문헌

1. Waldron CA : Bone pathology. *In Oral and Maxillofacial Pathology*. WB Saunders Co., Philadelphia, Ed. by Neville BW, Damm DD, Allen CA, Bouquet JE. 480-481, 1995.
2. Jaffe HL : Tumors and tumorous conditions of the bones and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 298-303, 1958.
3. Griffith JG, Irby WB : Desmoplastic fibroma. *Oral Surg* 20:269-275, 1965.
4. Hashimoto K, Mase N, Iwai K, et al. : Desmoplastic fibroma of the maxillary sinus. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 72:126-132, 1991.
5. Miyamoto Y, Satomura K, Rikimaru K, et al. : Desmoplastic fibroma of the mandible associated with tuberous sclerosis. *J Oral Pathol Med* 24:93-96, 1995
6. Templeton K, Glass N, Young SK : Desmoplastic fibroma of the mandible in a child: report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodon* 84:620-623, 1997.
7. Sugiura I : Desmoplastic fibroma: Case report and review of the literature. *J Bone Joint Surg* 58A:126-130, 1976.
8. Eisen MZ, Butler HE : Desmoplastic fibroma of the maxilla: report of a case. *J Am Dent Assoc* 108:608-609, 1984.

**Abstract**

**DESMOPLASTIC FIBROMA OF THE MANDIBLE IN A CHILDREN : A CASE REPORT**

**Jung-Hoon Yoon and Jae-Ho Lee\***

*Departments of Oral Pathology & Pediatric Dentistry\*, Department of Pediatric Dentistry  
School of Dentistry, Yonsei University*

This case describes a case of desmoplastic fibroma of the mandible. A 9-year-old boy was seen with a history of progressive swelling and expansion of the left mandible for one month period. Desmoplastic fibroma was diagnosed on histopathologic examination. This report reviews the diagnostic criteria, differential diagnosis and surgical treatment of choice in brief of this uncommon primary bone tumor of the oral and maxillofacial region.

**Key words** : Desmoplastic fibroma, Mandible, Children