

장기 추적관찰한 상악동 거대세포육아종 1예

부산대학교 의학전문대학원 부산대학교병원 이비인후과,¹ 양산부산대학교병원 이비인후과²

장형준¹ · 오세준¹ · 조규섭¹ · 노환중²

A Case of Giant Cell Granuloma of Maxillary Sinus : Long-Term Follow-Up

Hyeong-Jun Jang, MD¹, Se-Joon Oh, MD¹, Kyu-Sup Cho, MD¹ and Hwan-Jung Roh, MD²

¹Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University Hospital, Busan; and

²Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

ABSTRACT

Giant cell granuloma is an uncommon bony lesion in the head and neck region that most commonly affects the maxilla and mandible. Although it is a benign disease process, it can also be locally destructive. The most common treatment for giant cell granuloma is surgery, ranging from simple curettage to resection. More recently, nonsurgical treatments have been reported. Systemic calcitonin and intralesional glucocorticosteroids have shown varying degrees of success and, when successful, have reduced the necessity for major reconstructive surgery, thus preventing any large surgical defects. We report a case of giant cell granuloma of the maxilla that responded favorably to treatment with surgical excision, followed by intralesional injection of steroid. (Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52:284-8)

KEY WORDS : Giant cell granuloma · Maxillary sinus · Steroids.

서 론

거대세포육아종은 주로 하악골에 발생하며 20세 이전의 소아나 청소년에 호발하는 양성종양으로 부비동에는 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다.¹⁻³⁾ 원인은 확실하지 않으나 외상이나 만성염증에 의해 유발된 골내 출혈이 중요한 역할을 한다고 보고되었으며,^{1,4)} 비록 양성이지만 혈관이 풍부하고 골증식이 일어나 침습적인 임상경과를 보일 수도 있으며 재발도 흔한 것으로 알려져 있다.^{1,5)} 치료는 수술, 화학요법, 방사선 치료 등이 알려져 있으며, 이 중 수술로 완전 제거하는 것이 가장 확실한 치료이지만 병변 특성상 수술의 범위가 광범위하고 완전 제거가 힘든 경우가 많다.^{5,6)} 저자들은 우측 비폐색을 주소로 내원한 19세 남자 환자의 우측 상악동 거대세포육아종을 부분적 절제술 후 스테로이드 국소 주입으로 치료한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

평소 특이한 질환 병력이 없던 19세 남자 환자로 5개월 간의 우측 비폐색을 주소로 내원하였다. 이학적 검사에서 우측 협부의 중창에 의한 안면 비대칭 소견을 보였으며, 비강 내시경검사서 우측 중비도가 밀려있는 소견이 관찰되었으나 명확한 종양은 관찰되지 않았다. 구강검사서 치은 점막 및 치아에서 특이 소견이 관찰되지 않았으며 특별한 과거력도 없었다. 부비동 전산화단층촬영(PNS CT)에서 우측 상악동을 가득 채우고 인접한 골의 침식을 야기하며 내부에는 광범위한 석회화를 가지고 있는 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 부비동 자기공명영상촬영에서 우측 상악동에 4.5×3.9×4.2 cm 가량의 T1 영상에서 낮은 조영강도를 보이며 T2 영상에서 혼합된 양상의 비균일성의 중간 조영강도를 보이면서 gadolinium으로 조영증가가 잘되는 고체성의 종양 병변이 관찰되었고, 양 하악골 가지에서 병변과 동일한 성질의 조영강도를 보이는 병변이 관찰되었다(Fig. 2).

다발성 혈관종(multiple hemangioma) 의심하에 조직검사와 종양제거를 위해 전신마취하 Caldwell-Luc 접근법을 시행하였다. 술 중 종양은 주위 상악동과 박리되지 않는

논문접수일 : 2008년 8월 9일 / 심사완료일 : 2009년 1월 6일
교신저자 : 노환중, 626-770 경남 양산시 물금읍 범어리
양산부산대학교병원 이비인후과
전화 : (055) 360-1440 · 전송 : (055) 360-2930
E-mail : rohhj@pusan.ac.kr

단단한 골성종양이었다. 종양을 완전 제거하여 원래 상악동의 용적과 모양을 회복시키려 하였으나 종양 자체의 출혈이 너무 심하고 상악동의 후벽에 갈수록 더욱 심한 출혈을 보여 상악동내 전벽, 하벽의 종양은 겸자와 큐렛을 이용하여 거의 제거하였으나, 외벽과 후벽의 종양은 완전 제거하지 못하였다. 수술 3일 후 시행한 PNS CT에서 수술 전

주위 골의 미란을 야기하는 상악동을 채우는 종양은 대부분 제거되었으나, 상악동의 외벽과 후벽에는 종양이 남아있는 소견을 보였다(Fig. 3). 수술 중 시행한 동결절편검사는 다핵거대세포를 함유하고 있는 섬유조직이 관찰되었고, 술 후 조직검사 결과는 거대세포육아종으로 진단되었다(Fig. 4). 재수술로서 완전 제거가 가장 중요한 치료이지만 환자

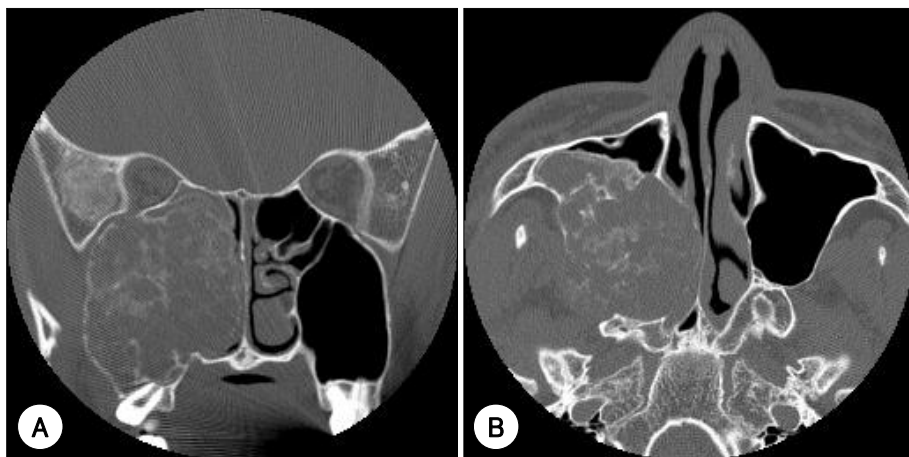


Fig. 1. Preoperative paranasal CT images show lobulated contour mass lesion in right maxillary sinus with adjacent bone erosion and forming irregular septa with diffuse calcification. A : Coronal view. B : Axial view.

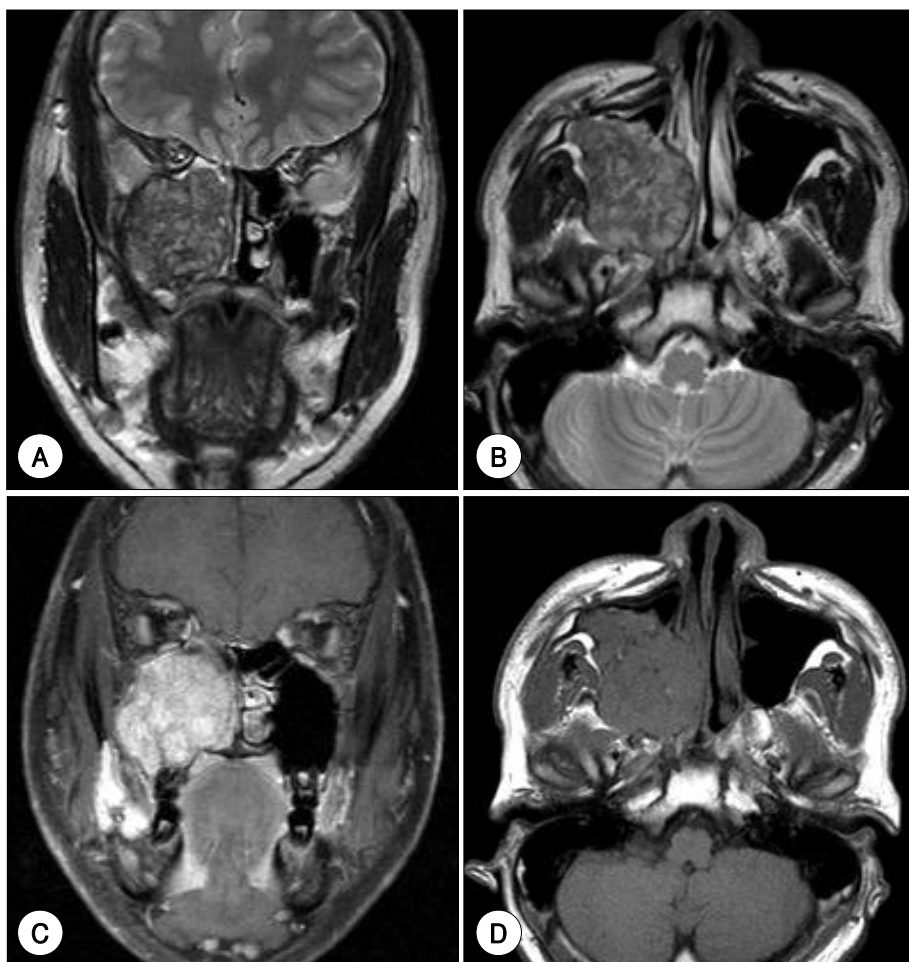


Fig. 2. Preoperative paranasal MRI findings show a well enhanced and lobulated 4.5×3.9×4.2 cm sized tumor mass in right maxillary sinus with low signal intensity at T1 weighted image (T1WI) and mixed heterogenous intermediate signal intensity at T2 weighted image (T2WI). Well enhanced lesion was shown in both ramus of mandible at gadolinium-enhanced T1WI. A : Coronal T2WI. B : Axial T2WI. C : Coronal gadolinium-enhanced T1WI. D : Axial T1WI.

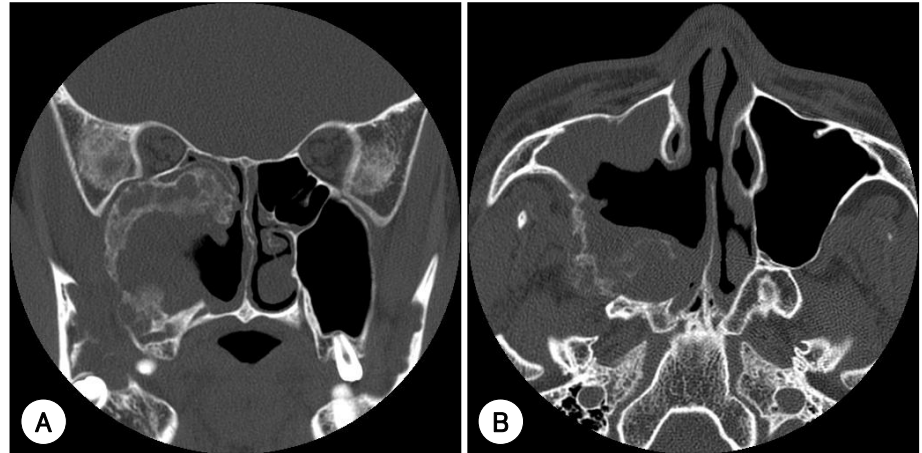


Fig. 3. Postoperative paranasal CT images show remnant mass in posterolateral wall and mucosa polypoid change in anterior wall of right maxillary sinus. A : Coronal view. B : Axial view.

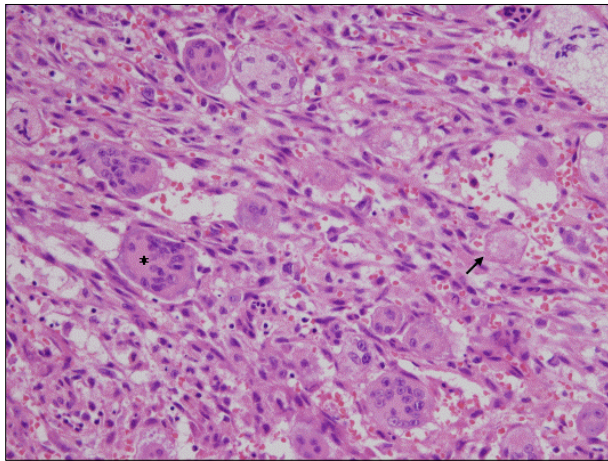


Fig. 4. Histopathologic findings of giant cell granuloma. There are numerous multinucleated giant cells (asterisk) and small island of vital bone (arrow) in the dense fibrous connective tissue (H & E stain, $\times 400$).

가 젊은 학생이고 상악동을 포함한 하악골 종양까지 완전히 제거할 경우 심각한 기능적, 미용적인 문제가 있을 것으로 생각되어 우선 주기적인 추적관찰을 하기로 하고 17개월간 정기적인 추적관찰 후 군 입대를 하였다. 군 입대 직전 촬영한 PNS CT에서 상악동내 종양의 크기는 수술 직후 CT에 비하여 감소하였으며, 양 하악골 가지의 병변은 특별한 변화를 보이지 않았다. 수술 후 2년이 경과한 군 복무 도중 우측 상악부위에 외상을 당한 후부터 우측 견치 및 대구치의 심한 동통을 호소하여 본원에 내원하였다. PNS CT에서 이전과 특별한 변화 소견은 보이지 않았지만, 심한 통증 증상의 출현으로 종양의 재활성화가 의심되었다(Fig. 5). 신체검사에서 칼슘 및 인, alkaline phosphatase 등은 정상 범위를 보여 갈색 종양, 부갑상선기능증대증은 배제하였다. Caldwell-Luc 접근법을 통해 견치 및 소구치 뿌리 부분의 병변을 큐렛을 이용하여 소파술을 시행하고 상악동의 후벽에 남아있는 종양은 일부 제거한 후 22 gauge needle을

이용하여 triamcinolone acetone 35 mg과 epinephrine 1 : 200,000이 혼합된 2% lidocaine을 1 : 1로 혼합하여 7 cc를 종양내 주입하였다. 수술 후 동통은 사라졌고 경과 는 양호하여 술 후 9일만에 퇴원하였다. 이후 25개월이 지난 현재 환자는 국소 소견과 PNS CT에서 종양의 재성장 소견은 관찰되지 않았으며, 특별한 증상 없이 추적관찰 중이다(Fig. 6).

고 찰

거대세포육아종은 1953년 Jaffe에 의해 처음 기술되었으며,⁷⁾ 조밀한 기질내의 섬유모세포 및 다핵거대세포의 증식을 특징으로 하는 드문 질환으로 하악 및 상악에 주로 발생하는 양성 골성질환이다. 30대에서 가장 흔히 관찰되며, 여성에서 더욱 흔하다고 알려져 있다.^{1,4,8)} 발생원인은 명확하지 않으나 외상 또는 감염에 의해 유발될 수 있으며, 임상증상은 서서히 자라는 무증상의 종창에서 동통 및 안면부의 심한 종창을 동반하는 공격적인 병변까지 다양하다.^{4,5)}

발병부위에 따라 두 가지 임상적 형태로 나누어지는데, 골 내에서 발생하는 중심형 거대세포육아종은 10~20대에 발생하고 주로 하악골을 침범하지만 상악골, 사골동, 접형동, 측두골에서도 발생할 수 있다. 연조직에서 발생하는 말초형은 30대 여성에서 흔하고 주로 구강, 잇몸점막, 치조점막에 발생하여 거대세포 치은종(giant cell epulis)이라고 불리며, 재발이나 종양의 진행은 임신 동안에 일어난다고 알려져 있지만 두 형태 사이의 조직학적 차이는 없는 것으로 알려져 있다.⁴⁾

방사선학적 소견은 경계가 명확하지 않은 파괴적인 병변에서 경계가 분명한 다방성의 양상을 보이는 것까지 다양하여 방사선학적 소견만으로 치성 혹은 골성종양과 같은 다른 종양과 구별하기는 힘들다.⁹⁾ 조직학적으로 혈관성 기

Fig. 5. After trauma, paranasal CT images show no specific interval change compared with postoperative CT images, although mucosa polypoid change of right maxillary sinus was much decreased. A : Coronal view. B : Axial view.

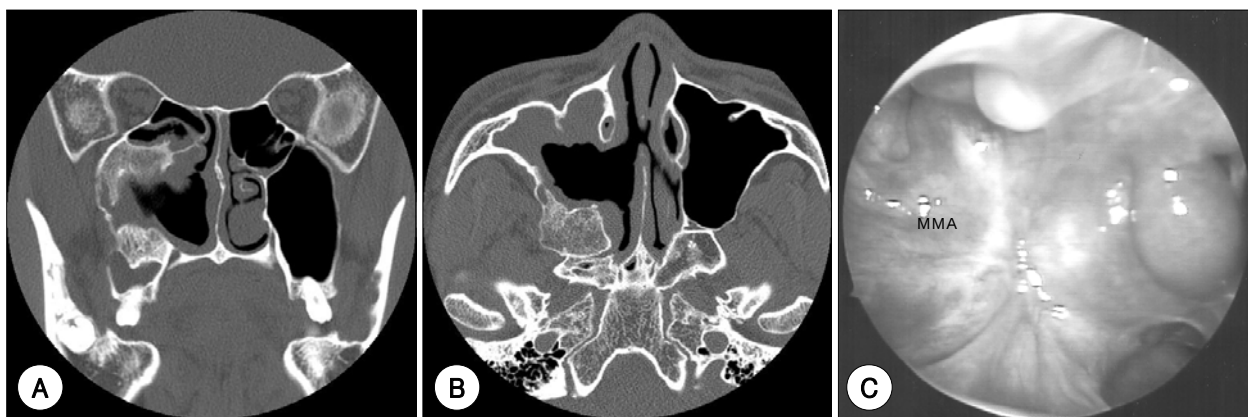
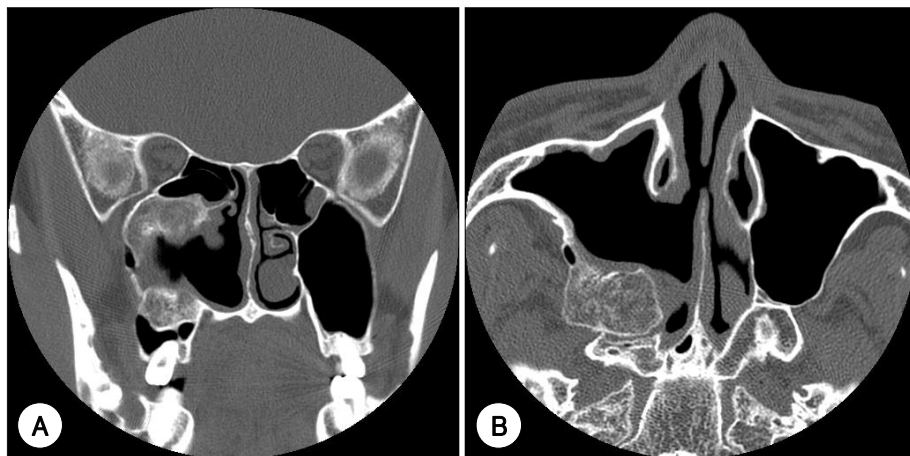


Fig. 6. Paranasal CT and endoscopic finding at 25 months after intralesional steroid injection. Coronal (A) and axial (B) CT image show no specific interval change compared with postoperative CT images, although mucosa polypoid change in anterolateral wall of right maxillary sinus was increased. Endoscopic finding of right nasal cavity shows no evidence of aggravation. MMA (C) : middle meatal antrostomy.

질내의 다핵거대세포, 신생골 형성이 관찰되며 출혈부위에 파골세포(osteoclast)처럼 생긴 거대세포가 반점형태로 흩어져 있다.^{1,4)} 거대세포육아종과 조직학적 유사성을 가지는 병변으로는 동맥류골낭종(aneurysmal bone cyst), 갈색종양(brown tumor), 비화골성섬유종(non-ossifying fibroma) 등이 있으며, 특히 갈색 종양과의 감별을 위해 거대세포육아종이 의심되는 모든 환자는 칼슘, 인, alkaline phosphatase를 평가해야 한다.^{5,8)}

거대세포육아종의 치료는 다양하지만 수술이 가장 이상적이며, 수술시 병변 절제의 범위는 소파술(curettage)에서 상악골절제술(maxillectomy)을 포함하는 광범위절제술(en bloc resection)까지 다양하다.¹⁰⁾ 술 후 재발률은 4~20%이며, 국소적으로 공격적인 병변일 경우 더욱 높은 재발률을 보인다.¹⁰⁾ 비록 수술이 일차적인 치료법으로 받아들여지고 있지만, 재발하는 경우나 얼굴의 여러 부위에 발생하여 제거할 경우 심각한 결손이 예상되는 경우, 광범위한 재건술이 필요한 경우, 많은 치아손실이 예상되는 경우는 비

수술적 치료를 시도할 수 있으며, 피하 calcitonin 주입술,^{11,13)} IFN- α 주입술,^{12,13)} 방사선 치료,^{12,13)} 병변내 스테로이드 주입술,^{6,8)} 등이 현재 알려져 있다. 피하 calcitonin 주입술은 최소 1년간 매일 calcitonin을 피하로 주사하여 완전 관해 되었으며 재발의 소견이 보이지 않았다고 보고되었지만 그 사용에 대한 이론적 근거가 부족해 호전되는 것이 자연경과 과정인지 불확실하며 저칼슘혈증 또는 이차성 부갑상선 기능항진증 같은 부작용이 발생할 수 있다고 하였다.¹¹⁾ 더구나 상대적으로 긴 치료기간으로 환자들이 쉽게 순응하지 못하는 경향을 보였다.¹¹⁾ 거대세포육아종이 증식성의 혈관이 풍부한 병변이기 때문에 항혈관 치료에 반응을 할 것이라고 가정해 시도한 IFN- α 피하투여가 효과가 있었다는 보고도 있었다.^{4,12)} 공격적인 병변에서 소파술 후 48~72시간에 IFN- α 3,000,000 unit/m²를 피하투여하여 재발이 억제되었다고 하였다.¹²⁾ 방사선 치료는 재발하거나 제거가 힘든 종양에서 적응이 된다고 알려져 있으나, 일부에서 방사선 치료에 저항적이고 방사선 치료로 인한 육종성 변화

가 보고되고 있어 최근에는 많이 시행하지 않는다.¹³⁾ 거대세포육아종에 스테로이드 치료가 처음 시작된 것은 1981년 광범위절제술 이후 재발한 공격적인 거대세포육아종이 항암 치료에도 반응이 없자 림프종과 같은 악성종양에서 스테로이드가 병변을 치유한다는 이론적 근거에서였다.¹⁴⁾ 하지만 전신적인 스테로이드 투여는 여러 가지 합병증을 유발할 수 있으므로 1988년 Jacoway 등은 거대세포육아종이 유육종증(sarcoidosis)과 병리학적 소견이 비슷하여 동일한 치료방법이 효과가 있을 것이라는 근거하에 스테로이드의 병변내 주입을 제안하였다.¹⁵⁾ 하악골에 발생한 거대세포육아종에 병변내 스테로이드 주입술을 시행하여 종양 성장이 멈추고 점차적으로 골의 재생이 이루어져 골융해성 병변을 채우고, 2년 후 신생골로 완전 재생이 이루어져 재발의 소견을 보이지 않았다고 보고하였다.^{6,13)} 거대세포육아종에서 병변에 투여된 스테로이드는 다핵거대세포인 파골세포의 세포고사(apoptosis)를 촉진하고 lysosomal proteases의 세포외 생산을 억제하여 골 흡수를 방지하고 교원질성 섬유결체조직(collagenized fibrous connective tissue)으로 대체시켜 치료 효과를 보인다고 하였다.^{6,8)} 본 증례에서 치료의 용량은 다른 논문에서 제시된 protocol에 따라 triamcinolone acetonide를 국소 마취제(2% lidocaine with 1 : 200,000 epinephrine)와 함께 동일한 용량으로 혼합하여 병변부위의 steroid 농도가 30~40 mg이 되도록 사용하였다.^{6,8)} 종양의 성장에 의한 종창이나 통증 등의 증상이 있으면 매주 최소한 6주 동안 시행하여야 하나 본 증례에서는 소파술과 함께 1회의 병변내 주사만 시행하였으며, 그 이후에 통증의 재발이 없어 추가적인 주사는 시행하지 않았다. 거대세포육아종에 주입된 스테로이드는 종양이 더이상 커지는 것을 방지하며, 골융해성 병변을 신생골로 재생이 이루어지도록 한다.^{6,13)} 그러나 본 증례에서는 종양의 성장 없이 통증만 있어 1회의 주사만 시행하였으며, 여러 번 주사를 시행하지 않아 스테로이드 국소 주입 후 신생골 재생과 같은 방사선학적 소견의 차이는 관찰할 수가 없었다.

본 증례는 상악골과 하악골에 발생하고, 상악골 자체의 병변도 수술로서 완전 제거가 힘든 경우였다. 이런 경우 경과 관찰 중 종양이 재활성화되어 성장하지 않는다면 필요에 따라 부분제거와 병변내 스테로이드 국소 주입술로서 장기 추적관찰하는 것이 환자의 삶의 질을 유지하는데 도움이 될

수 있다고 생각한다.

중심 단어 : 거대세포육아종 · 상악동 · 스테로이드.

이 논문은 부산대학교 자유과제 학술연구비(2년)에 의하여 연구되었음.

REFERENCES

- 1) Lee WY, Paik SI, Jung YG, Kim DS. A case of giant cell granuloma in the maxillary sinus. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1996;39(11):1884-9.
- 2) Lee HM, Kim JK, Ha HB, Cho GS, Yang KH, Park MS. A case of giant cell granuloma of the maxilla. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1990;33(5):1007-11.
- 3) Lee HM, Lee KS, Hwang SJ, Chu KC. A case of giant cell reparative granuloma of the maxilla. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1986;29(2):249-52.
- 4) Arda HN, Karakus MF, Ozcan M, Arda N, Gun T. Giant cell reparative granuloma originating from the ethmoid sinus. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67(1):83-7.
- 5) Tallan EM, Olsen KD, McCaffery TV, Unni KK, Lund BA. Advanced giant cell granuloma: A twenty-year study. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;110(4):413-8.
- 6) Adornato MC, Patcoff KA. Intralesional corticosteroid injection for treatment of central giant-cell granuloma. *J Am Dent Assoc*. 2001;132(2):186-90.
- 7) Jaffe HL. Giant cell reparative granuloma, traumatic bone cyst, and fibrous (fibro-osteous) dysplasia of the jawbones. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1953;6(1):159-75.
- 8) Carlos R, Sedano HO. Intralesional corticosteroids as an alternative treatment for central giant cell granuloma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93(2):161-6.
- 9) Kaffe I, Ardekian L, Taicher S, Littner MM, Buchner A. Radiologic features of central giant cell granuloma of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;81(6):720-6.
- 10) Bataineh AB, Al-Khateeb T, Rawashdeh MA. The surgical treatment of central giant cell granuloma of the mandible. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60(7):756-61.
- 11) de Lange J, van den Akker HP, Veldhuijzen van Zanten Go, Engels-hove HA, van den Berg H, Klip H. Calcitonin therapy in central giant cell granuloma of the jaw: A randomized double-blind placebo-controlled study. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006;35(9):791-5.
- 12) Kaban LB, Troulis MJ, Ebb D, August M, Hornicek FJ, Dodson TB. Antiangiogenic therapy with interferon alpha for giant cell lesions of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60(10):1103-11.
- 13) Terry BC, Jacoway JR. Management of central giant cell lesions, An alternative to surgical therapy. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 1994;6:579-600.
- 14) Body JJ, Jortay AM, De Jager R, Ardichvili D. Treatment with steroids of a giant cell granuloma of the maxilla. *J Surg Oncol* 1981;16(1):7-13.
- 15) Jacoway JR, Howell FV, Terry BC. Central giant cell granuloma-an alternative to surgical therapy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988;66:572.