

국소적 치아이형성증(regional odontodysplasia)에 대한 증례보고

경북대학병원 소아치과학 교실

손덕일 · 김현정 · 남순현 · 김영진

Abstract

REGIONAL ODONTODYSPLASIA : A REPORT OF TWO CASE

Duk-Il Son, D · D · S., Hyun-Jung Kim, D · D · S., Ph. D.,
Soon-Hyeun Nam, D · D · S., Ph. D., Young-Jin Kim, D · D · S., Ph. D

Department of Pedodontics, School of Dentistry, Kyungpook National University

Odontodysplasia is a rare developmental anomaly of tooth formation in which hard tissue are affected. Odontodysplasia affects the primary and permanent dentitions in the maxilla, mandible, or both jaws. The maxilla is involved twice as often as the mandible. The condition is more common in female than in male patients and in the anterior than in the posterior regions. The clinical manifestation of odontodysplasia are hypoplasia and hypocalcification of the enamel and dentin of affected teeth. Teeth tend to be small and discolored, with short roots and widely open pulp canal. Delayed eruption of affected teeth with abscess formation is common. Radiographically teeth assume a faint radiolucent image ("ghost teeth"). enamel and dentin appear thin and are similar in radiodensity. The pulp chambers are often larger than normal, calcifications(pulp stone and denticle) are found within them.

The etiology of regional odontodysplasia is unknown. However, several causes have been discussed, including somatic mutation, local circulatory disorders, local trauma, failure of migration and differentiation of neural crest cells, local infection.

I. 서 론

국소적 치아이형성증 또는 치아이형성부전증은 매우 드문 치아발육장애로써 유·영구치의 모든 경조직이 국소적으로 발육부전이나 석회화 부전을 나타내는 질환이다.

1934년 Hitchin¹⁵⁾에 의해서 처음으로 보고된 국소적 치아이형성증은 unilateral dental malformation³⁾, ghost teeth²⁴⁾, unilateral arrested tooth development²⁷⁾, localized hypoplasia (Turner's hypoplasia)³⁰⁾ 등 여러 명칭으로 소개되었으며, Zegarelli³²⁾에 의해 "Odontodysplasia"란 용어가 처음으로 사용되기 시작하였다. 또 Rushton²⁴⁾, Werelds & Douniau²⁹⁾, Gibbard¹³⁾은 이와같이 다양한 명칭으로 소개된 국소적 치아이형성증에 대한 보고를 종합하여 체계적으로 분석하여 보고한 바 있다.

국소적 치아이형성증의 정확한 원인은 밝혀지지 않았으나, 국소적 치아 외상^{2,3,32)}, 국소적 치배 감염^{2,32)}, 국소적 혈액 순환 장애^{2,25,28)}, 신경능 세포의 분화와 이주장애²⁶⁾, 국소적 체세포성 돌연 변이²⁴⁾, 유전^{2,24,32)} 등의 원인이 소개되어져 왔다.

하악에 비해 상악에서 2배 정도 호발하고 편측성 동측 악골에 다발하며 유, 영구치 모든 치열에서 발생하며 주로 전치부에서 호발하는 것으로 알려져 있다. 남자에 비해 여자에게서 2배 정도 호발하고⁸⁾ 가족력이나 인종간 차이는 특이사항이 없다.

이환된 치아는 정상치아보다 크기가 작고 갈색이나 노란색, 또는 황갈색을 나타내며, 거칠고 취약한 치면을 가져 치아우식이완률이 높고 치근단 농양과 치은 부종을 쉽게 유발한 다발육부전이나 정지로 인해 미맹출과 부분맹출, 지연 맹출을 유발하며 이에 따라 대합치의 정출을 초래할 수도 있다.^{3,25)}

이환측 안면 피부에 혈관성 모반(vascular nevus)^{7,13,18,25,28)}이나 악골의 저형성 & 안면 비대칭^{4,10,13,25,31)}, 안면의 비염증성 부종¹³⁾이 발생할 수도 있다.

방사선 소견상 이환된 치아는 특징적으로 ghostly appearance²⁴⁾를 보이며 범랑-상아질

경계가 불명확하고 넓은 치수강과 미완성 치근단공을 가진 짧은 치근을 가진다^{10,13,17)}. pulp stone과 denticle을 형성하는 calcified pulp inclusion을 나타낼수도 있으며⁶⁾ 이환된 주위 골은 방사선 투과상이 증가한 양상과 넓은 골수강을 보인다^{4,31)}. 간혹 미맹출 치아는 primordial cyst처럼 보이기도 한다²⁾.

저자는 경북대학교 병원 소아치과에 국소적 치아이형성증을 주소로 내원한 아동을 관찰한 바 다소의 지전을 얻었기에 보고하는 바이다.

II. 증례보고

증례 1

- 환자명 : 김 ○ ○, 4세, ♀
- 주소 : #85, 84, 83 지연맹출과 #81 치관파절
- 전신 병력 : 그림 (1, 2)

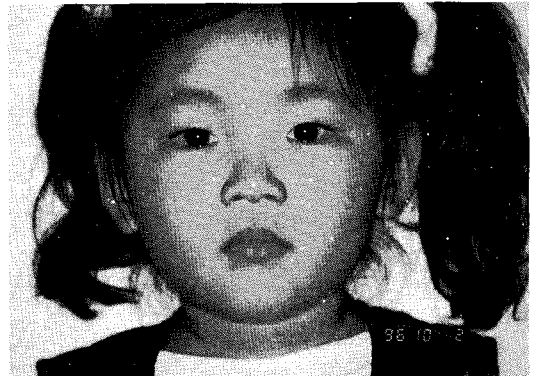


Fig. 1. 초진시 환자의 정면사진.



Fig. 2. 측면사진

특이 사항이 없으나 출생때부터 이환측 안면 피부에 혈관성 모반(vascular nevus)이 관찰되었다.

- 가족력 : 특이사항 없었다.
- 초진시 구강내 소견

95년 10월 초진 내원시 상악 우측 제 1, 2

유구치와 하악 우측 치아들이 국소적 치아이형성증에 이환된 상태로써 상악 우측 제 1유구치는 부분맹출, 제 2유구치는 미맹출 상태였고, 하악 우측 제 2 유구치 역시 미맹출, 하악 우측 제 1 유구치와 유전치는 부분맹출, 하악 우측 유중 절치, 유중절치는 치관 파절 상태였다. (그림3, 4)

- 방사선 소견

이환측 치아들은 전반적으로 증가한 방사선 투과상을 보였으며, 법랑-상아질 경계가 불명확하고, 넓은 치수강과 미완성 치근단공을 가진 짧은 치근을 보였다. 악골의 저형성과 비대칭 소견은 관찰이 되지 않았다. (그림 5,

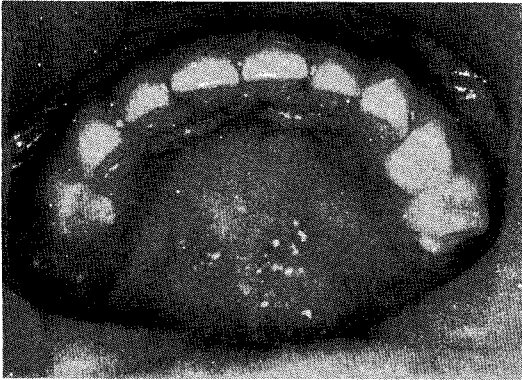


Fig. 3. 초진시 환아의 구강내 소견(상악).



Fig. 4. 초진시 환아의 구강내 소견(하악).

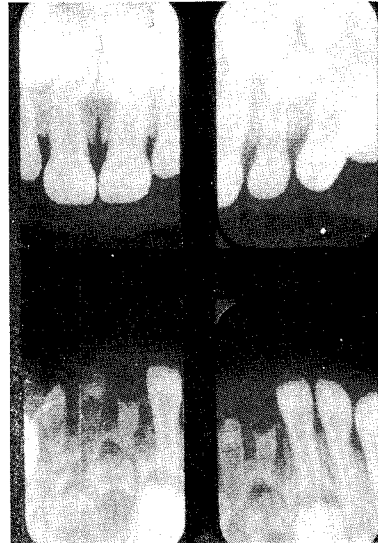


Fig. 6. 치근단 방사선 소견

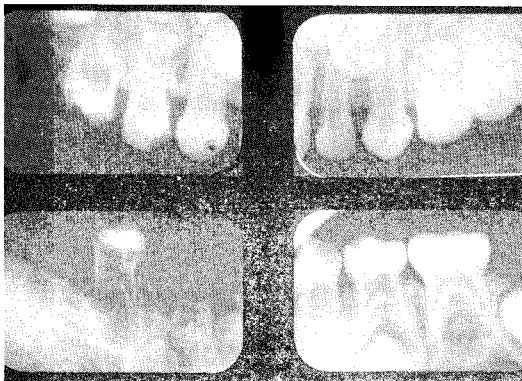


Fig. 5. 치근단 방사선 소견

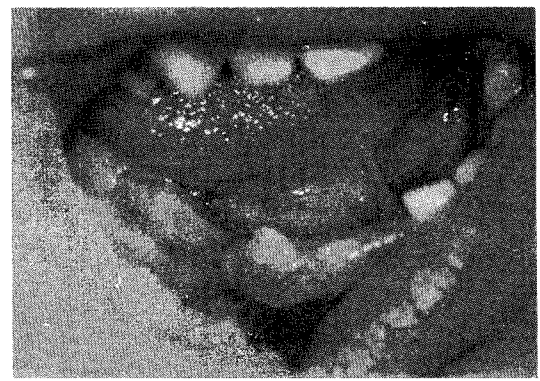


Fig. 7. 현재 환아의 구강내 소견

6)

• 치료경과 및 결과

하악 제 2 유구치는 미맹출 상태에서 치근단 농양과 치은 부종으로 발거하였고, 하악 제 1 유구치 역시 치근단 농양으로 인해 발거하였다.

(그림 7)

• 치료 계획

이환된 치아를 발거한 후 간격유지 장치 장착할 계획이다.

증례 2

- 환자명 : 신 ○ ○, 11세, ♀
- 주소 : #85, 84 치근단 농양 형성
- 초진일 : 89년 7월
- 전신 병력 :

출생 1개월때 Rt. facial paralysis 발견하여 LMC에서 계속 치료를 하였으나 증상이 완화 되지 않았다. 93년 한방병원에서 치료를 한 후

현재 안면근육이 회복된 상태이다.

- 가족력 : 특이사항 없었다.

• 초진시 방사선 소견 :

하악 우측 유치열 모두 국소적 치아이형성 증에 이환된 상태로 전반적으로 증가한 방사선 투과상을 나타내며 하방의 영구치배는 형성부전과 석회화 부전 양상을 보였다.

하악 우측 제 2 유구치는 근관치료한 상태에서 치근단 농양을 형성하였다.(그림8)

• 치료 경과 및 결과 :

하악 우측 제 2 유구치는 계속적인 치근단 농양 형성으로 발거하였으며

하악 제 1 유구치는 근관 치료 후 SS crown하였다.

하악 우측 중절치, 측절치는 근관치료를 시도하였으나 지속적인 농양 형성으로 발거하였다.

하악 우측 제 1 대구치는 미맹출로 외과적

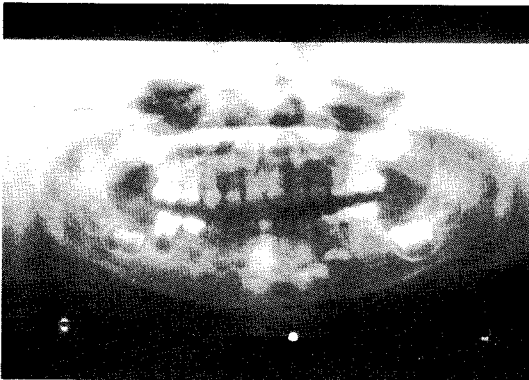


Fig. 8. 초진시 환자의 방사선 소견

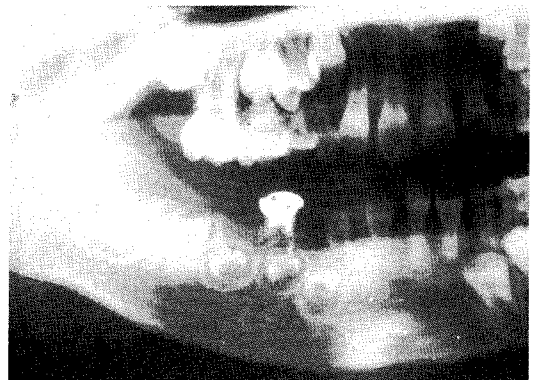


Fig. 10. 재 내원시 환자의 방사선 소견



Fig. 9. 재 내원시 환자의 방사선 소견

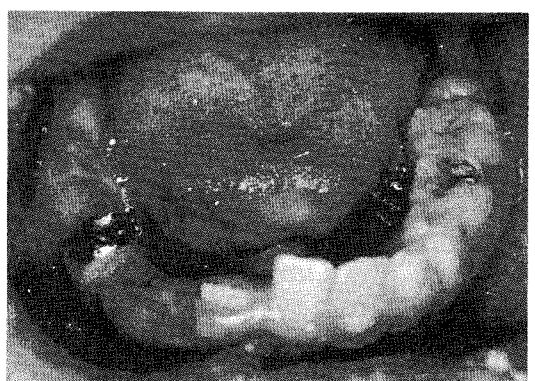


Fig. 11. 재 내원시 환자의 구강내 소견

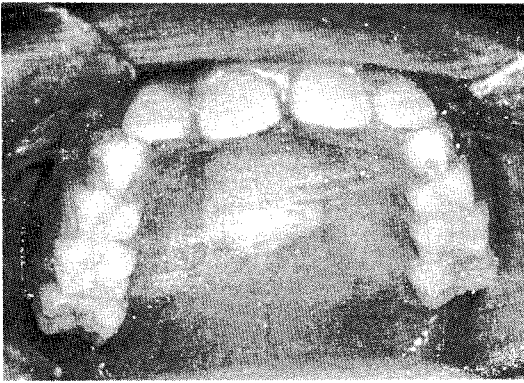


Fig. 12. 재 내원시 환아의 구강내 소견

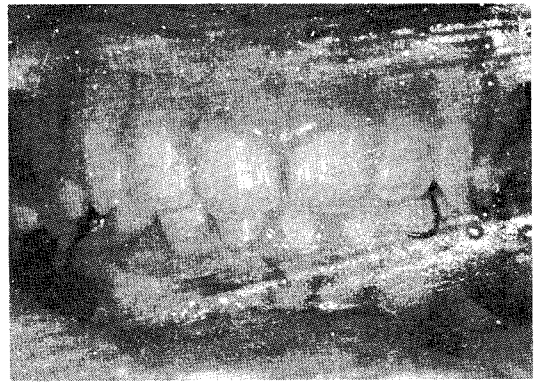


Fig. 14. 현재 환아의 구강내 소견(간격유지 장치 장착후)

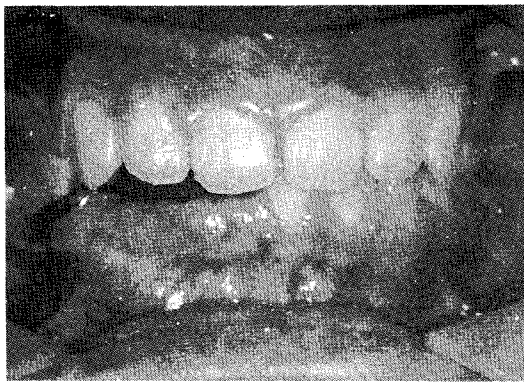


Fig. 13. 현재 환아의 구강내 소견(간격유지 장치 장착전)

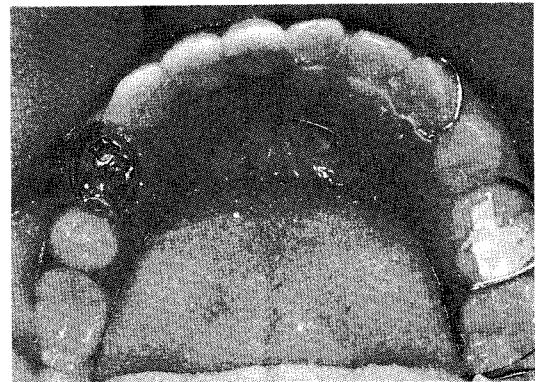


Fig. 15. 현재 환아의 구강내 소견(하악)

수술에 의해 발거하였다.(그림9, 10, 11, 12)

• 현재 상태 :

하악 우측 제 1 유구치에 SS crown을 장착한 후 하악에 간격 유지 장치를 장착하였다.(그림 13, 14, 15)

III. 총괄 및 고찰

국소적 치아이형성증은 매우 드문 치아발육 장애로써 유, 영구치 모든 치열에서 발생할 수 있으며 이환된 치아는 발육부전과 석회화 부전을 나타낸다. Hitchin(1934)¹⁵⁾에 의해 처음으로 보고되었으며, 국소적 치아이형성증에 관하여 Mc Call & Wald(1947)¹⁹⁾는 치아발육이 국소적으로 정지한 상태라고 정의하였고, Zegarelli & Kutscher³²⁾(1963)는 『odontodypla-

sia”라는 용어를 처음으로 사용하였다. 그 후 Rushton²⁴⁾, Werelds & Douniau²⁹⁾, Gibbard 등¹³⁾은 그 전까지 보고된 증례를 체계적으로 분석하여 보고한 바 있다.

국소적 치아이형성증의 정확한 원인은 밝혀지지 않았으나, Bergman(1963) 등³⁾은 2증례에서 외상을 그 원인으로 소개하였고, Rushton(1965) 등²⁴⁾은 국소적 체세포성 돌연변이를, Alexander(1966)²⁾등은 국소적 혈액순환장애를, Slootweg & Meuwisen(1985)²⁶⁾은 신경능세포의 분화와 이주 장애를 각각 소개하였으며, 그 외 치매 감염, viral infection등도 보고되었다.

이환된 치아는 그 크기가 정상치아보다 작으며 갈색이나 노란색 또는 황갈색을 나타내며, 치면은 거칠고 취약하여 치아우식이완률이 높고

치근단 농양이나 치은 부종을 쉽게 유발한다. 발육 부전이나 정지로 인하여 미맹출과 부분 맹출, 지연맹출을 유발하고 이에 따라 대합치의 정출을 초래할 수도 있다^{3,25)}. Walton(1978) 등²⁶⁾은 이환측 안면 피부에 혈관성 요인인 혈관성 모반(vascular nevus)^{7,13,18,25,28)}이 관찰된다고 하였고, Foster(1979)¹¹⁾는 Romberg syndrome에서 발생한 국소적 치아이형성증은 악골의 저형성과 비대칭이 동반된다고 하였고, Hintz(1972)¹⁴⁾와 Gardner(1973) 등¹²⁾은 이환측 악골에 비염증성 부종이 나타남을 보고하였다.

Lustmann(1976) 등¹⁸⁾은 유·영구치열에 따른 국소적 치아이형성증의 발생빈도의 연구에 의하면, 영구치열에서는 상·하악 전치부에 주로 발생하며 상악이 하악보다 2배정도 많이 발생한다고 하였고, 유치열 역시 전치부에서 다소 많이 발생한다고 하였다. 주로 악골의 1/4에서 발생하며 편측성 동측 악골에서 다발한다고 하였다. 남자에 비해 여자에게서 많이 발생하며 가족력이나 인종간 차이에는 특이사항이 없는 것으로 알려져 있다⁸⁾.

국소적 치아이형성증을 동반하는 질환으로는 hemifacial hypoplasia^{4,5,13,25,31)}, 구강내 연조직의 unilateral hyperplasia¹³⁾, ipsilateral vascular nevi^{7,13,18,25,31)}, epidermal nevus syndrome^{16,26)}, hydrocephalus⁹⁾, cervical spine의 scoliosis등이 있다.

국소적 치아이형성증은 특징적인 방사선 소견을 나타내는데, Rushton(1965)²⁴⁾은 이환된 치아의 증가된 방사선 투과양상을 “ghostly appearance”라고 명명하였다. ghost tooth는 법랑-상아질 경계가 불명확하고, 넓은 치수강과 미완성 치근단공을 가진 짧은 치근을 보이며, 간혹 pulp stone과 denticle을 가진 pulpal inclusion을 형성하기도 한다⁸⁾. Alexander(1966) 등²⁾은 국소적 치아이형성증에 이환된 미맹출 치아를 “primordial cyst”처럼 보인다고 하였다. 이환측 주위골은 증가된 방사선 투과상과 넓은 골수강을 가지기도 한다^{4,15,31)}.

이환된 치아는 대개 감염으로 인한 치근단 농양으로 발치하는 것이 일반적이다^{6,20,29)}.

그러나, 유·영구치의 대구치는 가능한 한

보존해야 하는데, 부분맹출한 치아는 전기외과적 수술(electrosurgery)로 상방치은을 절제하여 치관을 노출시킨후 산부식 수복으로 치료할 수도 있고⁸⁾, 임상치관이 충분하다면 SS crown으로 수복할 수도 있다¹⁸⁾. 만약 치아가 발거되었다면 발치된 공간은 가철식 간격유지장치를 장착하여 악골의 골격 성장시 치조골 형태를 보존하고, 기능적 또는 심미적인 면을 보완해야 한다.

본 증례에서는 국소적 치아이형성증이 편측 악골에 발생하였고, 이환된 치아는 발육부전과 정지로 인한 미맹출과 부분맹출 소견을 보였으며, 유치는 물론 하방 영구치배의 석회화 부전과 영구치의 지연 맹출이 관찰되었다. 이환된 치아는 치근단공이 완성되지 않은 상태에서 치근단 농양을 쉽게 형성하였으며 근관 치료를 계속하였으나, 잘 치유되지 않아 발거하였다. 미맹출 영구치는 발육 부전과 석회화 부전으로 인해 외과적으로 발거하였으며 발거한 부위에는 간격 유지 장치를 장착하였다.

IV. 결 론

저자는 경북대학교 병원 소아치과에 국소적 치아이형성증(regional odontodysplasia)를 주소로 내원한 아동을 치료 및 관찰한 바 다음과 같은 결론을 얻었다.

1. 국소적 치아이형성증에 이환된 치아는 발육부전이나 정지로 인하여 미맹출과 부분 맹출을 유발한다.
2. 국소적 치아이형성증에 이환된 치아는 치근단 농양과 치은 부종을 쉽게 유발하며 근관치료에도 잘 치유되지 않는다.
3. 본 증례에서는 국소적 치아이형성증의 원인으로 facial nerve weakness와 blood supply부족으로 사료된다.
4. 이환된 치아를 발치하고 난 후 간격유지장치를 장착하여 심미적, 기능적인 효과를 얻었다.

참 고 문 헌

1. Adler P. and Bencze J. : Amelogenesis imperfecta non-hereditaria segmentalis., *Dtsch. Zahnarztl. Z.*, 19 : 1092-1104, 1964.
2. Alexander W. N., Lilly G. E. and Irby W. B. : Odontodysplasia., *Oral Surg.*, 22 : 814-820, 1966.
3. Bergman G., Lysell L. and Pindborg J. J. : Unilateral dental malformation : report of two cases, *Oral Surg.*, 16 : 48-60, 1963.
4. Billet J., Kerebel B., Lumineau J. P. and Schmidt J. : Une exceptionnelle anomalie dentaire : "la dent fantom" ou "odontodysplasie", *Rev. Stomatol. Chir. Maxillofac.*, 76 : 23-31, 1975.
5. Bouyssou M., Grazide A. and Guilhem A. : Sur une nouvelle dysembryoplasie systematisee : les "dents fantomes" (ghost teeth), *Actual Odontostomatol(Paris)*, 75 : 307-327, 1966.
6. Burch M. S., Besley K. W. and Samuels H. S. : Regional odontodysplasia with associated midline mandibular cyst : report of a case., *J. Oral Maxillofac Surg.*, 31 : 44-48, 1973.
7. Chaudhry A. P., Wittich H. C., Stickel F. R. and Holland M. R. : Odontogenesis imperfecta : report of a case., *Oral Surg.*, 14 : 1099-1103, 1961.
8. Crawford P. J. M. and Aldred M. J. : Regional odontodysplasia : a bibliography., *J. Oral Pathol.*, 18 : 251-263.
9. Dahllof G., Lindskog S., Theorell K. and Ussisoo R. : Concomitant Regional Odontodysplasia and Hydrocephalus., *Oral Surg.*, 63 : 354-357, 1987.
10. Dayal P. K. and Mani N. K. : Odontodysplasia : Report of a case., *J. Oral Med.*, 36 : 79-81, 1981.
11. Foster T. D. : The effects of hemifacial atrophy on dental growth, *Br. Dent. J.*, 146 : 148-150, 1979.
12. Gardner D. G. and Sapp J. P. : Regional Odontodysplasia., *Oral Surg.*, 35 : 351-365, 1973.
13. Gibbard P. D., Lee K. W. and Winter G. B. : Odontodysplasia., *Br. Dent. J.*, 135 : 525-532, 1973.
14. Hintz C. S. and Peters R. A. : Odontodysplasia : report of an unusual case and review of the literature., *Oral Surg.*, 34 : 744-750, 1972.
15. Hitchin A. D. : Unerupted deciduous(?) teeth in youth aged 15 1/2., *Br. Dent. J.*, 56 : 631-633, 1934.
16. Kelley J. E., Hibbard E. D. and Giansanti J. S. : Epidermal syndrome : report of a case with unusual oral manifestations., *Oral Surg.*, 34 : 774-780, 1972.
17. Larik M. L. M. J., vander Waal I. and Vander Kwast W. A. M. : Regionale odontodysplasie., *Ned. Tijdschr. Tandheelkd.*, 85 : 238-241, 1978.
18. Lustmann J., Klein H. and Ulmanský M. : Odontodysplasia : Report of two cases and review of the literature., *Oral Surg.*, 39 : 781-793, 1975.
19. Mc. Call J. O. and Wald S. S. : Clinical dental roentgenography. 2nd. ed. Philadelphia., Saunders., 150, 1947.
20. Miller W. A. and Seymour R. H. : Odontodysplasia., *Br. Dent. J.*, 125 : 56-59, 1968.
21. Pindborg J. J. : Pathology of the dental hard tissues., Copenhagen : Munksgaard., 120-123, 1970.
22. Pruhs R. J., Simonsen C. R., Sharma P. S. and Fodor B. : Odontodysplasia., *J. Am. Dent. Assoc.*, 91 : 1057-1066, 1975.
23. Reeve J. S. and King W. C. : Unilateral maxillary odontodysplasia, *ASDC J. Dent. Child.*, 38 : 23-28, 1971.
24. Rusthon M. A. : Odontodysplasia : ghost

- teeth, *Br. Dent. J.*, 119 : 109–113, 1965.
25. Schmid-Meier E. : Unilateral odontodysplasia with ipsilateral hypoplasia of the mid-face : a case report, *J. Maxillofac. Surg.*, 10 : 119–122, 1982.
 26. Slootweg P. J. and Meuwissen P. R. M. : Regional odontodysplasia in epidermal nevus syndrome, *J. Oral Pathol.*, 14 : 256–262, 1985.
 27. Suter T., Jump E. B, and Landis R. L. : Localised arrested tooth development, *Oral Surg.*, 6 : 1305–1314.
 28. Walton J. L., Witkop C. J. and Walker P. O. : Odontodysplasia : report of three cases with vascular nevi overlying the adjacent skin of the face, *Oral Surg.*, 46 : 676–684, 1978.
 29. Werelds R. J, and Douniau R. : Les “dents fantomes” (ghost teeth) (une anomalie singulière : l’odontodysplasie), *Acta. Stomatol. Belg.*, 69 : 375–427.
 30. Worth H. M. : Principles and practice of oral radiological interpretation. Chicago : Year Book Medical Publishers, inc., 88–89, 1963.
 31. Ylipaavalniemi P., Ranta R. and Lamberg M. : Odontodysplasia associated with unilateral malformations : a case report., *Proc. Finn. Dent. Soc.*, 8 : 134–140, 1982.
 32. Zegarelli E. V., Kutscher A. H., Applebaum E. and Archard H. O. : Odontodysplasia, *Oral Surg.*, 16 : 187–193, 1963.