

상,하악에 발생한 다발성 치성각화낭종 1례

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

정대건 · 노우영 · 임필규 · 송승헌

= Abstract =

A Case of Multiple Odontogenic Keratocysts in Mandible and Maxilla

Dae Gun Jung, MD, Woo Young Ro, MD,
Pil Kue Lym, MD, Seung Heon Song, MD.

*Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery,
The Catholic University of Korea, College of Medicine, Seoul, Korea*

Odontogenic keratocyst is a central destructive lesion of the jaws characterized by a thin, fragile layer of orthokeratinizing or parakeratinizing stratified squamous epithelium. Correlation between the histologic type and the recurrence ratio remains a subject of controversy, and multiple cysts are known to be associated with the nevoid basal cell syndrome. We experienced a case of multiple odontogenic keratocyst in a 25 year-old male patient involving bilateral mandible and maxilla. The cystic mass of the right maxilla was removed by Caldwell-Luc's approach and the right mandibular mass was removed by intraoral approach but the teeth that were impacted in the mandibular bone were remained in order to prevent an iatrogenic fracture.

Key Words : Odontogenic keratocyst · multiple

교신저자 : 정대건(Dae Gun Jung, MD)
130-709 서울특별시 동대문구 전농동 620-56 성바오로병원 이비인후과
Tel : 02) 958-2145, 2442 Fax : 02) 959-5375 E-mail : dgjung@sph.cuk.ac.kr

I. 서론

치성각화낭종(odontogenic keratocyst)은 상, 하악에서 볼 수 있는 발달성 낭종(developmental cyst)으로 다른 낭종에 비해 높은 재발률과 주위조직의 파괴가 특징적인, 주의를 요하는 질환이다¹⁾. 조직학적으로 정상각화낭종(orthokeratinized type)과 이상각화낭종(parakeratinized type)으로 나누어지며 그 종류에 따른 예후에 대해서는 아직 논란의 여지가 많다. 다발성인 경우 주로 모반양 기저세포암 증후군(nevoid basal cell carcinoma syndrome)을 동반하며 드물게 악성으로 전환한 경우도 보고된 바 있다^{2,3)}.

저자들은 상악과 하악에 다발성으로 발생하였으나 모반양 기저세포암 증후군을 동반하지 않은 치성각화낭종 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례

25세 남자환자로 3년 전부터 서서히 생긴 우측 하악의 무통성 종물을 주소로 내원하여 하악에 생긴 매몰치아낭종 의심하에 panoramic view를 시행한 결과, 우측 하악에 4×3cm 크기의 팽창성 낭포 모양의 병변이 있었고 그 내부에는 3개의 매몰치아가 있었다(Fig. 1). Waters' view 상으로 우측 상악동은 전반적인 혼탁한 음영을 보였다(Fig. 2). 안면광 전산화단층촬영 소견상 우측 하악은 panoramic view와 동일한 소견을 보였고 우측 상악에 2개의 매몰치아가 보였으며, 좌측 상악과 하악에 1개씩의 매몰치아가 보였다(Fig. 3). 과거력상 5년 전에 만성 부비동염으로 수술을 권유받았으나 특별한 치료 없이 지냈고, 가족력상 특별한 사항은 없었다. 전신소견상 피부 및 팔경 질환 등을 동반하지 않았으며, 혈액 검사 및 소변 검사 소견도 정상이었다. 이학적 소견상 우측 하악에 직경 3cm 정도의 무통성 종물이 있었으며 우측 하악의 2, 3번째 대구치들은 보이지 않았다.

Caldwell-Luc씨 술식으로 우측 상악동내 치아를 포함하여 낭종을 제거하였고, 경구적 접근으

로 우측 하악내 낭종을 제거하였으며, 하악에는 동종 장골 이식을 시행한 후에 수술을 마쳤다. 좌측 상, 하악의 함몰된 치아는 국소 증상을 보이지 않고 환자가 원치 않아 후에 제거하기로 하였다. 상악과 하악에서 제거한 낭종들은 5×4×3cm 크기의 회색의 얇은 낭포(cyst)로 둘러싸여 있었으며 그 내부는 흰색의 크림 양상의 각화성 물질로 채워져 있었다(Fig. 4).

조직 병리학적 소견상 상피층의 위쪽에 정상 각질층이 있었고, 기저세포들은 이상각화낭종에서 볼 수 있는 관병식상의 나열(palisading) 또는 분극화(polarization)된 양상은 보이지 않았다(Fig. 5).

III. 고찰

발달성 낭종인 치성각화낭종은 상하악의 중심 파괴성 병변(central destructive lesion)으로 나타나며 정상각화 또는 이상각화 편평상피의 얇은 층이 둘러싸고 있다. 그 내부는 치상판(dental lamina)의 잔여물에서 형성되었다고 생각되는 흰색 크림 양상의 각화성 물질로 채워져 있다. '치성각화낭종'이라는 용어는 1956년에 Philipson⁴⁾에 의해 최초로 소개되었으며, 그는 이를 하악에 존재하는 각화성 편평 낭종(keratinizing squamous cyst)이라고 기술하였다. 1960년에 Shear⁵⁾는 3~5열의 편평상피세포열로 이루어진



Fig. 1. Preoperative panoramic view shows a large expansile cystic lesion at the right mandible with three impacted teeth and also unerupted tooth is shown in both maxilla and left mandible.

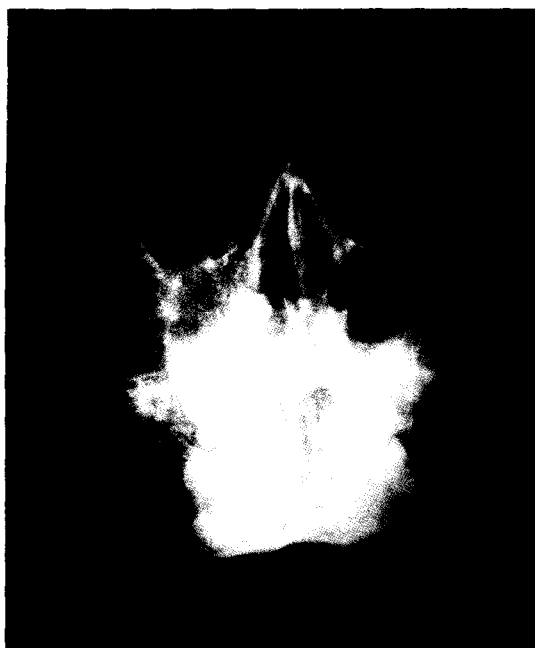


Fig. 2. Pre-operative Waters' view shows total opacification of the right maxillary sinus.



Fig. 3. Preoperative facial bone CT shows one of the two impacted teeth in right maxillary sinus and two of three impacted teeth in right mandible. Also noted are unerupted tooth in each of the left maxilla and mandible.

내강은 정상각화 또는 이상각화물질로 채워져 있다고 더욱 자세히 설명하였다.

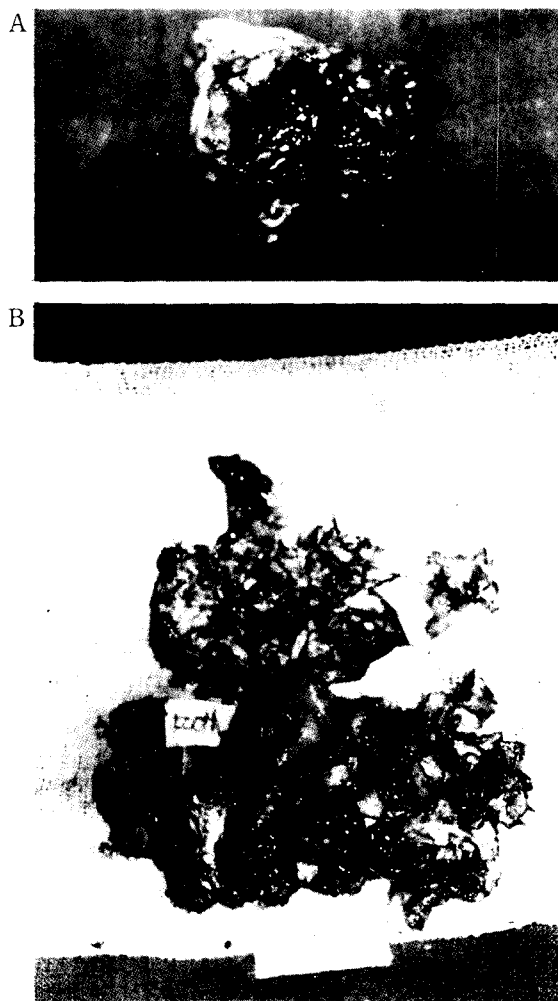


Fig. 4. Gross appearance of the pathologic specimen from the right maxillary sinus shows a well encapsulated light-gray colored cyst (A), and when opened, show creamy, whitish, keratinous materials filled inside (B). Also noted is a unerupted tooth. Pathologic specimen from the right mandible also showed similar findings.

아직까지 발생기전은 정확히 밝혀지지 않았고 임상적으로는 10~20대에서 주로 호발하며 30~40대에서도 많이 발병하는 것으로 보고되고 있다. 남녀 비는 1.8:1로 남자에서 약간 더 빈발하며, 발생하는 위치는 80%가 하악, 20%는 상악에서 발생한다고 알려져 있다.

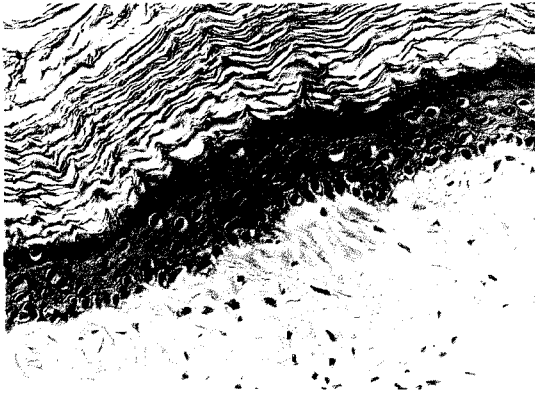


Fig. 5. Microscopic features show a thin epithelial lining. The basal epithelial layer does not demonstrate palisading or polarization. Also noted are flakes of orthokeratin present in the lumen(H&E ×80).

가장 흔한 증상은 국소적 팽창이며, 낭포내 분비액이 자연적으로 배출되는 경우가 자주 관찰되고 있다. 일반 방사선학적 검사로는 50%에서 단방성(unilocular)낭포의 형태를 보이고 경계가 잘 구분되어 있으며, 경화(sclerotic)된 양상을 보이고 치아의 위치이상 및 치아피질의 천공(cortical perforation) 등을 볼 수 있다.

조직학적으로는 두 종류로 나눌 수 있는데, 이중 덜 흔한 정상각화낭종은 재발율이 낮으며 Wright⁶⁾는 이것이 이상각화낭종과 임상 및 조직학적으로 많이 다르므로 서로 완전히 다른 질환으로 보아야 한다고 하였다. Crowley⁷⁾ 등은 치성각화낭종 499례에서 두 가지 형태의 낭종을 비교하였는데 정상각화낭종의 재발율은 2.2%인 반면에 이상각화낭종의 재발율은 42.6%로 큰 차이를 보였다. 그러나 다른 연구⁸⁾에서는 정상각화낭종이 더 높은 재발율(35% : 21%)을 나타낸다고 보고한 바 있으며, 또한 재발된 낭종의 50%는 분열된 상피층(disrupted epithelial lining)을 보였고, 대부분의 재발은 병변의 불완전 제거에 기인한다고 하였다.

다발성 치성각화낭종은 일반적으로 모반양 기저세포암 증후군을 강력히 시사하는 소견으로 전신의 이학적 검사를 요한다. 주로 전신 피부의 기저 세포암의 조기 형성 또는 이열 녹판

(bifid ribs), 전두골 융기(frontal bossing), 양안 격리증(hypertelorism), 상악 전돌증(prognathism) 등의 골격기형을 동반하는 경우가 많으며, 치성각화낭종의 5%를 차지한다⁹⁾. 조직학적으로 모반양 기저세포 증후군을 일으키는 형태는 이상각화낭종으로 정상각화낭종과는 무관하다고 보고되고 있다⁶⁾.

치료는 수술적 제거뿐이며 대표적 수술법은 조대낭술(marsupialization)과 낭종적출술이 있고, 낭종적출술은 Caldwell-Luc씨 술식이 많이 시행된다. 추적검사로 panoramic view를 5년 동안 매년 시행하는 것을 권장하고 있다. 이 질환은 드물게 악성 종양으로 변형되며 대부분의 경우는 편평 상피암으로 변형된다^{2,3)}.

최근에는 치성각화낭종을 다른 낭종과 구분할 수 있는 여러 가지 표지들에 대한 연구가 이루어지고 있으며, 이들은 CEA, p53 protein, EGF 등을 들 수 있으며, cytokeratin이 가장 신뢰할 만 하다고 한다¹⁰⁾. MacDonald와 Fletcher¹¹⁾가 18례에서 cytokeratin LP24에 대한 항체를 이용하여 치성각화낭종과 치성낭종을 구분하였으며, 수술 전에 세침검사만으로도 진단과 그 종류를 미리 알 수 있는 가능성을 제시하였다.

IV. 결 론

본 증례는 정상각화낭종으로서, 모반양 기저세포암 증후군은 아니면서 다발성으로 상악과 하악에 생긴 희귀한 경우로, 조직학적으로 재발율은 낮다. 현재로는 증상이 없으나, 서서히 자랄 가능성이 있는 좌측의 매몰치아가 남아 있어 증상을 나타낼 수 있으므로 지속적인 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

References

1. Chun YM, Choi HS: *Odontogenic Keratocyst. Korean J Otolaryngol. 1988; 31(5): 846-51*
2. Anand VK, Arrowood JP, Krolls SO: *Ma-*

- ligniant potential of the odontogenic keratocyst. Otolaryngol Head Neck Surg. 1994; 111: 124-9*
3. Minic AJ: *Primary intraosseous squamous cell carcinoma arising in a mandibular keratocyst. Int J Oral Maxillofac Surg. 1992; 21: 163-5*
 4. Philipsen HP: *Om keratocyster(kolesteatomer) I kaebeerne. Tandlaegebladet. 1956; 60: 963-80*
 5. Shear M: *Primordial cysts. J Dent Assoc S Afr. 1960; 15: 211-7*
 6. Wright JM: *The odontogenic keratocyst: orthokeratinized variant. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1981; 51: 609-18*
 7. Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC: *Odontogenic Keratocysts: a clinical and histologic comparison of the parakeratin and orthokeratin variants. J Oral Maxillofac Surg. 1992; 50: 22-6*
 8. Anand VK, Arrowood Jr. JP, Krolls SO: *Odontogenic keratocysts: a study of 50 patients. Laryngoscope. 1995; 105: 14-6*
 9. Brannon RB: *The odontogenic keratocyst: a clinicopathologic study of 312 cases. part I. clinical features. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1976; 42: 54-72*
 10. Meara JG, Li KK, Shah SS, Cunningham MJ: *Odontogenic keratocyst in the pediatric population. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1996; 122: 725-8*
 11. MacDonald AW, Fletcher A: *Expression of cytokeratin in the epithelium of dentigerous cysts and odontogenic keratocysts: an aid to diagnosis. J Clin Pathol. 1989; 42: 736-9*