

## 양측에서 발생한 합치성 낭종의 치험례

유정은 · 최영철 · 이금호

경희대학교 치과대학 부속병원 소아치과

### 국문초록

합치성 낭종은 흔한 발육성 낭종이지만 양측성 합치성 낭종은 극히 드물다. 양측성 또는 다발성 합치성 낭종은 일반적으로 다양한 syndrome과 연관된다. 본 증례는 특별한 전신질환이나 syndrome이 없이 5세 3개월에 하악 우측 제 1소구치에서, 이후 7세 6개월에 하악 좌측 제 1소구치에서 합치성 낭종이 발생하였으며, 조대술을 시행한 후, 환자의 임상적, 방사선학적 관찰 및 치료에서 다음과 같은 지견을 얻었기에 보고하는 바이다.

1. 낭종의 크기가 큰 경우의 치료 방법으로 적출술보다 조대술이 선택될 수 있다.
2. 조대술은 치아의 맹출력이 있는 연령에 발생한 합치성 낭종에서 dentoalveolar structure를 가능한 보존하고, 낭종에 이환된 치아의 맹출을 기대하는 목적으로 이용된다.
3. 양측성 또는 다발성 합치성 낭종은 다양한 syndrome과 함께 발견되는 것이 일반적이나, 본 증례는 syndrome과의 연관성 없이 하악 우측과 좌측 소구치부에서 합치성 낭종이 발생되었으며, 향후 또 발생할 가능성에 대하여 환자 및 보호자에게 사전에 알리는 것이 필요하다고 생각된다.

**주요어** : 양측성, 합치성 낭종, 조대술

### 1. 서 론

합치성 낭종은 백악법랑질 경계에서 미맹출 치아의 치관을 둘러싼 상피로 이장된 developmental cavity로서<sup>1)</sup> 치근단 낭종 다음으로 흔한 치성 낭종이며<sup>2)</sup>, 모든 진성 낭종의 약 24%를 차지한다. 발생빈도는 모든 100개의 미맹출 치아당 1.44개의 낭종으로 나타나며, 어떤 치아라도 이환 가능하지만 하악 제 3대구치가 가장 흔히 이환된다<sup>3)</sup>. 합치성 낭종은 치아 맹출 장애, 결손치나 치아 배열 부정의 검사를 위한 방사선 촬영시 발견되며, 이차적으로 감염되지 않는다면 환자는 동통이나 불편함을 느끼지 않는다. 낭종이 커졌을 때, 병적 골절, 변위로 인한 치열의 부정, 실활된 치아의 변색이 나타날 수 있다<sup>4)</sup>.

방사선 소견상으로 경계가 명확한 경화성 변연을 가진 단방성, 방사선투과성 병소로서 미맹출 치아의 치관과 관련된다<sup>5)</sup>. 정상적인 follicular space는 3~4mm이며, space가 5mm 이상일 때 합치성 낭종이라고 의심할 수 있다<sup>3,6)</sup>.

대부분의 합치성 낭종은 단독으로 발생되며, 양측성 또는 다발성 합치성 낭종은 일반적으로 많은 syndrome에서 나타난다. Hunter's syndrome<sup>7)</sup>, Marfan syndrome<sup>8,9)</sup>, Basal cell nevus syndrome<sup>10)</sup>, Maroteaux-Lamy syndrome<sup>11)</sup>, clei-

docranial dysplasia 등에서 다발성 합치성 낭종의 발생이 보고되었으며, Ko 등에 의해 매우 드물게 syndrome이 없이 발생한 양측성 합치성 낭종이 보고되었다<sup>3)</sup>.

낭종의 치료 방법을 선택시 작은 크기의 병소일 때는 적출술을 시행하는 것이 일반적이다. 그러나, 큰 병소에서 낭종을 적출한다면, 신경 등의 인접조직 또는 다수 치아의 손상이 우려되거나 미맹출 치아의 보존을 원하는 경우 조대술로 치료하며<sup>4)</sup>, 조대술 후 낭종에 이환되었던 치아의 정상적인 맹출이 보고된 바 있다<sup>12,13)</sup>.

사춘기 이전의 아동에서 합치성 낭종의 조대술 후 낭종에 이환된 치아의 맹출 속도는 낭종 크기의 감소율과 관계있고, 낭종에 이환되지 않은 치아의 맹출 속도보다 빠르며, 치축 경사도의 변화는 치근 형성 정도와 역비례 관계로서 조대술 후 3개월 동안 빠르게 개선됨이 보고되었다<sup>14)</sup>.

저자는 경희대학교 치과대학 부속병원 소아치과에 내원한 92년 12월생 남아로서 특별한 전신질환이나 가족력이 없이, 하악 우측과 좌측 제 1소구치에서 양측성 합치성 낭종이 발병한 환자의 임상적, 방사선학적 소견과 이의 치료 및 경과에 관하여 보고하는 바이다.

## II. 증례보고

### 1. 우측부 조대술

98년 3월 첫 내원시 환아는 하악 우측 구치부의 지속적인 둔통과 우측 안면부 종창을 주소로 내원하였다.

진단 결과 하악 우측 제 1소구치에서 기원한 합치성 낭종으로, Panoramic view에서 낭종으로 인한 하악 우측 견치, 제 1소구치 치배의 전위, 제 2소구치 치배의 발육 지연, 이환된 제 1, 제 2유구치의 치근 흡수와 치근단 농양이 관찰되었다(Fig. 1). Occlusal view에서는 협설측 피질골의 팽창과 비박화가 관찰되었다(Fig. 2).

환자의 나이가 어리고 낭종의 크기가 커 하악 우측 제 1유구치의 발치와 함께 조대술을 시행하였다. 낭종 cavity의 개방을 유지하기 위해 gauze strip을 삽입하고(Fig. 3) 3일 간은 매일, 그 이후 한 달 간은 3일마다 saline dressing을 시행하였다.

28개월 후의 follow up 결과 조대술을 시행하였던 우측에서는 낭종의 치유와 함께 하악 우측 제 1소구치가 정상적으로 맹출하였고, 협면에 범랑질 형성부전을 보였다. 또한 하악 우측 견치의 정상적인 치축 경사로의 회복과 제 2소구치의 발육이 관찰되었다(Fig. 4).

### 2. 좌측부 조대술

우측부 낭종에 조대술을 시행한지 28개월 후 2000년 7월에 본 환자는 하악 좌측 구치부의 간헐적 동통과 좌측 안면부 종창으로 재내원하였다. 하악 좌측 제 1소구치에 새로 발생한 합치성 낭종은 이전의 우측에 발병하였던 낭종과 유사한 임상적, 방사선 소견을 보였다(Fig. 4, 5).

우측부 낭종에서와 같은 술식으로 좌측부 낭종에 조대술을 시행하였다(Fig. 6).

### 3. Follow up

현재 follow up 중이며, 좌측부 낭종에 조대술을 시행한지 2개월 후의 방사선 소견에서 낭종의 크기가 감소하면서 골 밀도가 증가하였고, 하악 좌측 견치의 경사도가 개선되었다(Fig. 7).

## III. 총괄 및 고찰

합치성 낭종은 흔한 발육성 낭종이지만 양측성 합치성 낭종은 극히 드물다<sup>3)</sup>. 양측성 또는 다발성 합치성 낭종은 일반적으로 다음의 syndrome과 연관된다. Maroteaux-Lamy syndrome은 점액다당침착증(mucopolysaccharidosis VI)의 하나로서 특정 점액다당류의 분해에 필요한 특정 lysosomal enzyme에서의 유전적 결함으로부터 기원한 질환이다. 치과적 특

징은 미맹출 치열, 다발성 합치성 낭종, 부정교합, 과두의 결함, 치은 증식 등이 있으며, 전신적으로는 다발성 골형성부전증을 나타낸다<sup>11)</sup>. Hunter's syndrome (MPS II)은 유전적 질환으로서 구강 소견은 크고 돌출된 혀와 두껍고 벌어진 입술, 치아 맹출 지연, 합치성 낭종과 유사한 방사선 투과성 병소 등이 있다<sup>7)</sup>. Marfan syndrome은 거미 손가락(arachnodactyly)을 포함하는 다양한 골격성 결함과 연관되며, 다발성 합치성 낭종과 결체 조직의 질환으로서, 치과적 소견으로는 높은 구개, dentinogenesis / osteogenesis imperfecta를 보인다<sup>8,9)</sup>. Cleidocranial dysplasia는 쇄골의 부분적 또는 전체적 소실, 작은 키, 전두부와 두정부의 융기, 상악 열성장, 유치열의 만기 잔존, 영구치열의 맹출 지연, 미맹출 과잉치 등의 특징을 보인다. basal cell nevus syndrome에서 상하악에 다발성 합치성 낭종이 나타날 수 있다<sup>10)</sup>.

합치성 낭종은 상하악 어느 부위에서도 발생 가능하며, 유치에 이환되는 경우는 드물다.

10세 이하에서의 발생은 드물며, 20대에 영구치와 관련하여 호발하고, 방사선 소견상의 sclerotic line은 골의 반응을 나타낸다<sup>4,6)</sup>.

합치성 낭종의 치료방법의 선택은 병소의 크기에 의해 결정된다<sup>4)</sup>. 작은 병소일 때는 이환된 영구치에 손상을 피하면서 전체를 외과적으로 적출하는데, 수술에 의해 해부학적 구조가 위협받지 않을 때, 악성 종양의 성장이 의심될 때 이 방법을 사용한다<sup>15,16)</sup>. 치료 기간이 짧으며, 표본 전체를 조직학적으로 연구 가능하나, 다수 영구치가 제거될 수 있으며, 자연령에서 기능적 교합의 회복을 위한 복잡한 재건 과정이 필요하다. 더 큰 낭종인 경우에는 surgical drain을 삽입하여, 조대술로 치료한다. 광범위한 골파괴가 있을 때, 낭종이 중요한 해부학적 구조에 근접하였을 때, radical surgery를 견딜 수 없는 medically compromised 환자에서 시행하는데, 장기간 follow-up이 필요하고 병소의 악성 전이의 가능성이 있다<sup>15)</sup>.

합치성 낭종의 가능한 합병증으로는 골의 팽창성 파괴로 인한 영구적인 골 변형, 영구치열이나 신경지배의 소실, 낭종의 이장 상피로부터 기원한 ameloblastoma, epidermoid carcinoma, squamous cell carcinoma의 발생 등이 있다<sup>12,17,18)</sup>.

Miyawaki 등의 보고에 의하면 사춘기 이전 아동에서 합치성 낭종의 조대술 후 낭종에 이환된 하악 제 2 소구치의 맹출 속도와 치축경사도의 변화는 낭종에 이환되지 않은 소구치 경우보다 현저히 빠르다. 낭종에 이환된 치아의 맹출 속도는 낭종에 이환되지 않은 소구치의 맹출 속도와 상호관계가 있고, 경사 변화율은 치근 형성 정도와 역비례 관계이다<sup>14)</sup>. 낭종에 이환된 영구치는 치근 형성 정도, 낭종의 크기 및 종류와 관계없이 더욱 빠르게 맹출하며, 비정상적으로 경사진 치축은 조대술 후 첫 3개월 동안 빠르게 개선되었다. 합치성 낭종의 조대술 후 낭종에 이환된 하악 제 2소구치의 맹출 속도는 치근 형성 정도에 밀접히 관계되는 것이 아니라 낭종 크기의 감소율과 관련이 있고, 조대술 후 기간과 역비례 관계이다. 맹출 속도는 낭종 cavity에

서 빠른 골 형성과 압력의 해소 효과에 일치하여 치아가 성장함에 의해 이루어진다. 따라서 치근이 성숙되었다면 치아는 맹출력이 없고, 정상적인 위치로 맹출하지 못할 수도 있다. 최근 연구에서는 성숙된 치근을 가짐에도 불구하고 3개월 내에 완전히 맹출할 수 있는 낭종에 이환된 소구치의 사례도 있다<sup>19)</sup>. 조대술 후 낭종에 이환된 영구치의 예후를 고려할 때, 치근이 완전히 완성되기 전에 조대술의 시행이 바람직하다고 할 수 있다.

낭종에 이환된 소구치의 경사변화율은 압력 해소에 동반한 빠른 골 형성에 의해 영향받으며, 낭종의 크기, 소구치의 깊이, 치근 형성 정도와 관련된다<sup>14)</sup>. 경사가 팽창하는 함치성 낭종의 압력에 의해 영향받는다면, 낭종에 이환된 치아는 조대술 3개월 내에 빠르게 본래의 경사로 돌아온다. 맹출에 충분한 공간이 있다면 낭종에 이환된 치아의 교정적 견인은 조대술 3개월 후에 시행하는 것이 바람직하다<sup>20)</sup>.

유치의 지속적인 염증과 영구 계승치에 이환된 염증성 함치성 낭종의 발생<sup>21)</sup> 사이의 관계에 관한 연구에서 함치성 낭종 발생의 기간은 큰 낭종 병소에서 2~5년이었다. 이는 골 종류, 환자의 나이, 낭종의 국소화 등의 요인에 의해 영향받는다<sup>22)</sup>. 치아의 맹출력이 큰 나이 동안에는 조대술이 추천되며, 낭종 cavity가 둘러싼 결과로 소구치가 실활될 가능성이 있지만, 조대술을 시행함으로써 소구치의 빠른 발육이 일어날 수 있다<sup>5)</sup>.

법랑질 침착 동안 초기 단계에 stellate reticulum 내에서의 변성에 의해 함치성 낭종이 형성될 수 있으며, 이러한 낭종은 법랑질 형성부전을 보이는 치관을 포함한다. 법랑질 형성부전은 주로 교합면 전체 또는 절단면에 발생하며, 이는 결합이 법랑질 형성의 초기 단계에 발생됨을 나타낸다<sup>23)</sup>.

낭종은 임상증상이 나타나지 않으면서 상당한 크기까지 진행될 수 있기 때문에 이환율의 감소를 위해 낭종의 조기 발견과 치료가 중요하다. 방사선상의 모든 매복치나 미맹출치는 발견 즉시 낭종이나 법랑아세포종, 암종의 유발 방지를 위해 외과적 제거가 요구된다<sup>24-26)</sup>. 모든 미맹출 치아의 방사선학적 검사의 시행이 중요하데, bite-wing & periapical radiography는 정기적인 검사에서 시행되지만, 이들 검사는 때때로 병소의 전체 윤곽을 확인하는데 실패할 수 있다. 따라서 skull series 또는 tomography 같은 진보된 검사와 함께 panoramic radiograph가 병소의 범위와 인접 해부학적 조직과의 관계에 대해 더 명확한 정보를 제공할 수 있다<sup>3,27)</sup>.

본 증례는 특별한 전신 질환이나 가족력이 없이 함치성 낭종 발병 2년 후 반대측에서 또 다른 함치성 낭종이 발병하였으며, 함치성 낭종으로 인한 영구치배의 발육 지연 및 전위가 관찰되었다. 초진 당시 환자의 나이가 어리고 낭종의 크기가 커 조대술을 시행하는 것이 바람직할 것으로 판단되었다. 이후 낭종에 이환되었던 치아나 낭종으로 인해 전위되었던 치아의 정상적인 맹출이 관찰되었다. 좌측 하악 소구치부에 발생한 함치성 낭종에 조대술 시행 후 경과를 관찰하고 있으며, 지속적인 치과적 관리가 필요할 것으로 여겨진다.

#### Ⅳ. 요 약

본 증례는 특별한 전신질환이나 syndrome이 없이 5세 3개월에 하악 우측 제 1소구치에서, 이후 7세 6개월에 하악 좌측 제 1소구치에서 함치성 낭종이 발생하였으며, 조대술을 시행한 후, 환자의 임상적, 방사선학적 관찰 및 치료에서 다음과 같은 지견을 얻었기에 보고하는 바이다.

1. 낭종의 크기가 큰 경우의 치료 방법으로 적출술보다 조대술이 선택될 수 있다.
2. 조대술은 치아의 맹출력이 있는 연령에 발생된 함치성 낭종에서 dentoalveolar structure를 가능한 보존하고, 낭종에 이환된 치아의 맹출을 기대하는 목적으로 이용된다.
3. 양측성 또는 다발성 함치성 낭종은 다양한 syndrome과 함께 발견되는 것이 일반적이거나, 본 증례는 syndrome과의 연관성 없이 하악 우측과 좌측 소구치부에서 함치성 낭종이 발생되었으며, 향후 또 발생할 가능성에 대하여 환자 및 보호자에게 사전에 알리는 것이 필요하다고 생각된다.

#### 참고문헌

1. Daley TE, Wysocki GP : New developments in selected cysts of the jaws. J Can Dent Assoc 63:526-532, 1997.
2. Browne RM : The pathogenesis of odontogenic cysts: a review. J Oral Pathol 4:31-46, 1975.
3. Ko KSC, Dover DG, Jordan RCK : Bilateral dentigerous cysts-report of an unusual case and review of the literature. J Can Dent Assoc 65:49-51, 1999.
4. O'Neil DW, Mosby EL, Lowe JW : Bilateral mandibular dentigerous cysts in a five-year-old child: report of case. ASDC J Dent Child 56:382-384, 1989.
5. Murakami A, Kawabata K, Suzuki A, et al. : Eruption of an impacted second premolar after marsupialization of a large dentigerous cyst: case report. Pediatr Dent 17:372-374, 1995.
6. 대한구강악안면방사선학회 : 구강악안면방사선학, 이우문화사, 303-306, 1992.
7. Lustmann J, Bimstein E, Yatziv S : Dentigerous cysts and radiolucent lesions of the jaw associated with Hunter's syndrome. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 33:679-685, 1975.
8. Fitch HB, Secord RT : The Marfan syndrome. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 15:373-377, 1963.
9. Smith N : Multiple dentigerous cysts associated with arachnodactyly and other skeletal defects. Oral Surg

- Oral Med Oral Pathol 25:99-107, 1968.
10. Nakajima T, Yokobayashi T, Onishi M : Basal cell nevus syndrome. *Int J Oral Surg* 8:63-66, 1979.
  11. Roberts MW, Barton NW : Occurrence of multiple dentigerous cysts in a patient with the Maroteaux-Lamy Syndrome (mucopolysaccharidosis, type VI). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 58:169-175, 1984.
  12. Jacobi R. : Spontaneous repositioning of displaced molars after marsupialization of a dentigerous cyst. *J Am Dent Assoc* 102:655-656, 1981.
  13. Pandey RK, Loomba K, Chandra S : Dentigerous cyst-an attempt to ascertain the normal eruption of involved tooth in child patient. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 10:22-24, 1992.
  14. Miyawaki S, Hyomoto M, Tsubouchi J, et al. : Eruption speed and rate of angulation change of a cyst-associated mandibular second premolar after marsupialization of a dentigerous cyst. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 116:578-584, 1999.
  15. Norris LH, Piccoli P, Papageorge MB : Multiple dentigerous cysts of the maxilla and mandible: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 45:694-697, 1987.
  16. Weinstein IR : Treatment of large cysts of the jaws, in consideration of potential neoplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 23:489-496, 1965.
  17. Chretien PB, Carpenter DF, White NS, et al. : Squamous carcinoma arising from in a dentigerous cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 30:809-816, 1970.
  18. Fredrickson C, Cherrick HM : Central mucoepidermoid carcinoma of the jaws. *J Oral Med* 33:80-85, 1978.
  19. Kokich VG, Mathews DP : Surgical and orthodontic management of impacted teeth. *Dent Clin North Am* 37:181-204, 1993.
  20. Sain DR, Hollis WA, Togrye AR : Correction of a superiorly displaced impacted canine due to a large dentigerous cyst. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 102:270-276, 1992.
  21. Benn A, Altini M : Dentigerous cysts of inflammatory origin - A clinicopathologic study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 81:203-209, 1996.
  22. Aguilo L, Gandia JL : Dentigerous cyst of mandibular second premolar in a five-year-old girl, related to a non-vital primary molar removed one year earlier: a case report. *J Clin Pediatr Dent* 22:155-158, 1998.
  23. Talabani NG, Smith CJ : Experimental dentigerous cysts and enamel hypoplasia: their possible significance in explaining the pathogenesis of human dentigerous cysts. *J Oral Pathol* 9:82-91, 1980.
  24. 조한국 : 구강병리학, 교문사, 146-148, 1993.
  25. Generson RM, Porter JM, Stratigos GT, et al. : Mural odontogenic epithelial proliferations within the wall of a dentigerous cyst: their significance. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 42:717-721, 1976.
  26. Wine WM, Welch JT, Graves RW, et al. : Marsupialization of a dentigerous cyst of the mandible: report of case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 29:742-745, 1971.
  27. Smith G : Two dentigerous cysts in the mandible of one patient. case report. *Aust Dent J* 41:291-293, 1996.

사진부도 설명

Fig. 1. Panoramic view of the patient (taken on Mar. 16, 1998)

- 1) radiolucency surrounding unerupted #44
- 2) delayed development of #45
- 3) displacement of #43, #44
- 4) root resorption of #84, #85

Fig. 2. Occlusal view of the patient (taken on Mar. 16, 1998)

- : bucco-lingual cortical expansion & thinning

Fig. 3. Enamel hypoplasia

- : cyst-involved tooth, #44

Fig. 4. Panoramic view of the patient (28 months later, taken on Jul. 14, 2000)

- 1) a newly developed dentigerous cyst associated with #34
- 2) The marsupialized right side dentigerous cyst had resolved completely.
- 3) normal eruption of #44
- 4) improved angulation of #43
- 5) development of #45 crown

Fig. 5. Occlusal view of the patient (taken on Jul. 14, 2000)

Fig. 6. Marsupialization procedure (Jul. 14, 2000)

- a. Intraoral photo before treatment
- b. Extraction of #74
- c. Preparation of tampon
- d. Tampon insertion
- e. After treatment

Fig. 7. Follow up

- : Panoramic view of the patient (2 months later, taken on Sep. 15, 2000)
- 1) decreased radiolucency
  - 2) improved angulation of #33

사진부도 ①

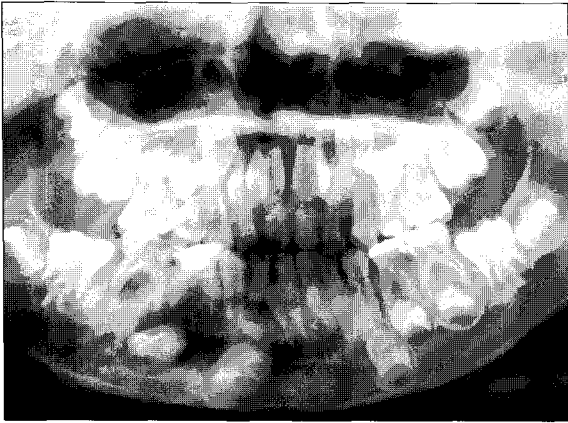


Fig. 1.

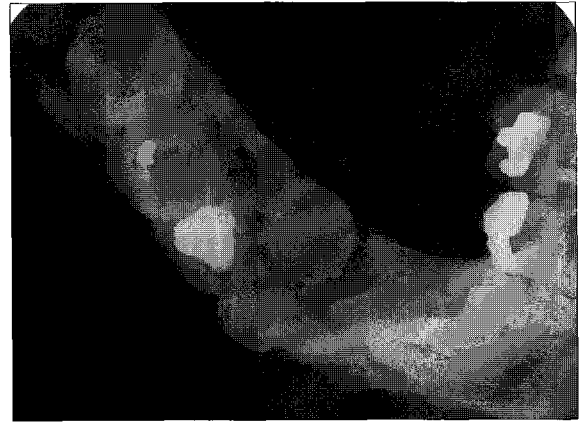


Fig. 2.

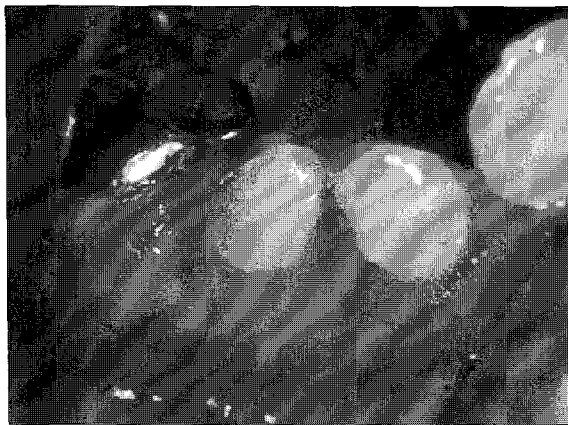


Fig. 3.

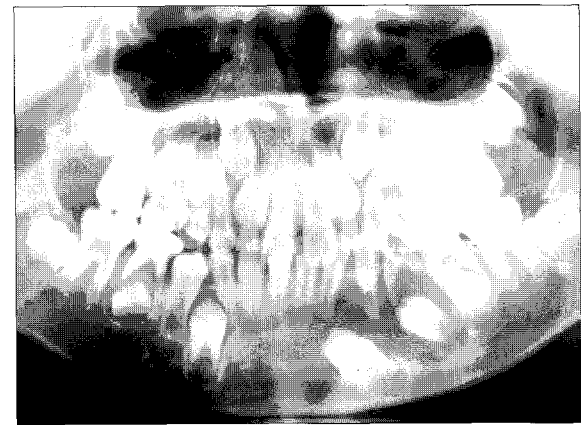


Fig. 4.

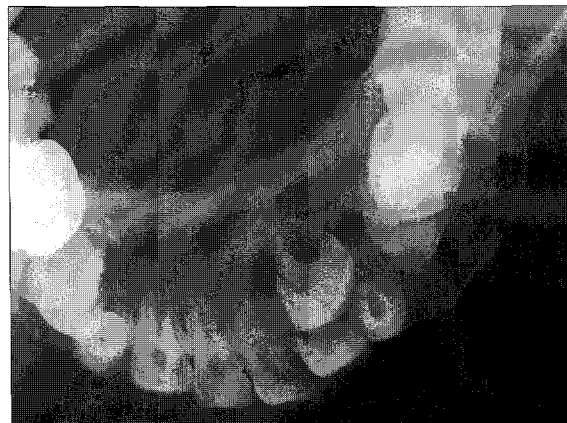


Fig. 5.

사진부도 ②

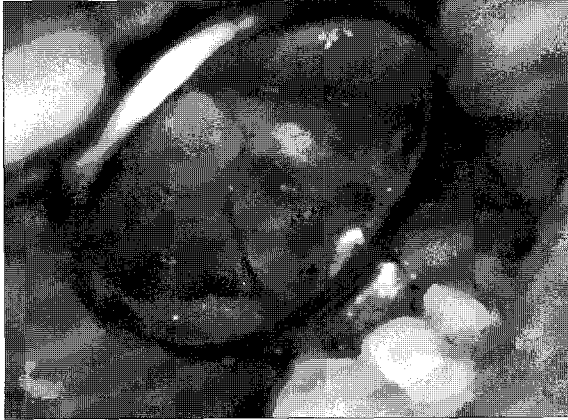


Fig. 6a.

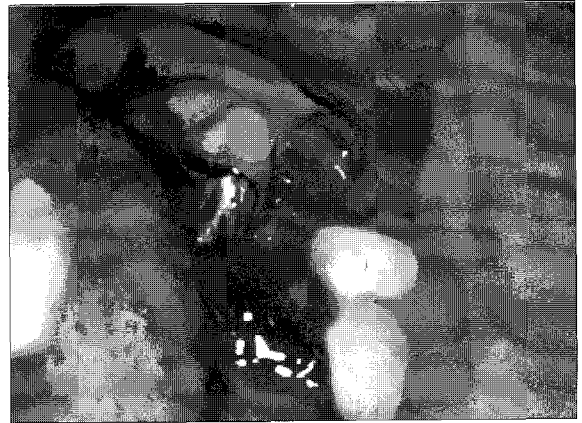


Fig. 6b.

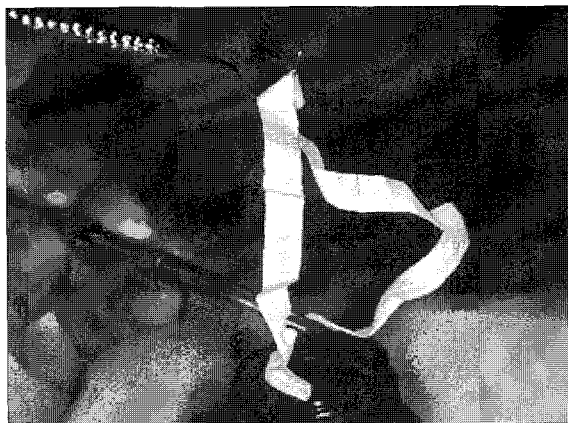


Fig. 6c.



Fig. 6d.



Fig. 6e.

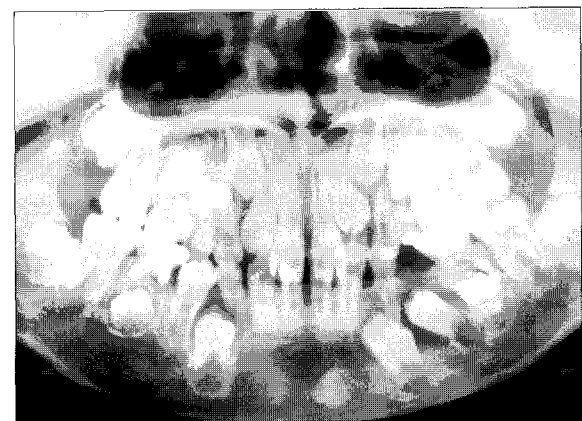


Fig. 7.

Abstract

CASE OF BILATERAL DENTIGEROUS CYSTS TREATED BY MARSUPIALIZATION

Jung-Eun Yoo, D.D.S., Yeong-Chul Choi, D.D.S., M.S.D., Ph.D.,  
Keung-Ho Lee, D.D.S., M.S.D., Ph.D

*Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Kyung-Hee University*

Most dentigerous cysts are solitary. Bilateral and multiple dentigerous cysts are rare and occur typically in association with a number of syndromes such as Maroteaux-Lamy syndrome, Hunter's syndrome, Basal cell nevus syndrome, Marfan syndrome, cleidocranial dysplasia.

The presented case is of bilateral nonsyndromic, dentigerous cysts associated with mandibular right and left first premolars.

A marsupialization procedure may be a choice of treatment for a large sized dentigerous cyst rather than an enucleation. The marsupialization procedure is recommended during the age when the erupting force of the teeth is still strong. We can expect the unerupted tooth to erupt normally.

Although most of bilateral or multiple dentigerous cysts which are not associated with syndromes are rare, a bilateral dentigerous cyst without syndrome is seen. Therefore, it is wise to explain a possibility of development of new one to patient / parents in advance.

**Key words** : Bilateral, Dentigerous cyst, Marsupialization