

소아에서의 shell teeth의 치험례

박인호 · 윤정훈* · 이난영 · 이창섭 · 이상호

조선대학교 치과대학 소아치과학교실, 구강병리학교실*

국문초록

Shell teeth는 매우 드문 상아질 이상으로 상아질 이형성증의 한 형태로서 특징적으로 정상적인 법랑질, 매우 얇은 상아질, 비정상적으로 큰 치수강, 짧아진 치근 등을 보인다.

Shell teeth는 1954년 Rushton이 21세 남자 환자에서 나타난 증상을 설명하여 처음 명명하였으며, 1984년 Kinirons이 8세 남아의 shell teeth에 대해 보고하였다. 1992년 Harrison과 Kennedy는 7세 6개월 된 남아에서 보인 shell teeth를 14년간 관찰하여 보고하였는데 이 환아는 유치열과 영구치열 모두 shell teeth가 관찰되었고, 일반적인 shell teeth와 달리 치관에서는 shell teeth의 특징이 나타나지 않았으며, 치근에서만 나타났다. 매우 얇은 상아질과 큰 치수강은 국소적 이형성증에도 관찰되는 특징인데, shell teeth는 전치열에서 보이는데 반해 국소적 이형성증은 한정된 몇 개의 치아에서만 관찰되어 감별진단 할 수 있다.

본 증례는 3세 남아에 관한 것으로 구강내 소견은 모든 유치 치관이 파괴되어 상아질이 노출되어 있었고, 방사선 소견은 얇은 상아질로 둘러싸인 매우 큰 치수강과 확장된 치근관을 보였으며 다수의 소구치가 결손되어 있었다.

환아는 행동조절의 문제 때문에 전신마취하에 치료를 받았다. 현재 환아는 공간유지장치를 장착하고 있으며, 정기적인 관찰이 필요하리라 사료된다.

주요어 : 상아질 이형성증, Shell teeth

I. 서 론

상아질 형성부전증은 상아모세포가 불완전하게 분화되어 비정상적인 상아질이 형성되는 것으로¹⁾ 임상적인 특징은 적갈색 내지 유백색의 치관을 보이며 치아가 구강내로 맹출되자마자 상아질 부실로 인해 법랑질의 급속한 파괴가 시작된다. 이로 인해 노출된 연화상아질은 급속도로 마모되어 때로는 치은연과 일치되기도 한다. 방사선사진 소견은 가느다란 치근과 둥그런 치관의 형태를 보이고 치수강은 적거나 결손되어 있으며 치근관은 작고 리본모양을 하고 있다²⁾. 간혹 보이는 치근단의 방사선 투과상은 치수노출과 관련되어 있다³⁾. 상아질 형성부전증은

상염색 우성유전이며^{4,5)} 8000명 중 1명에서 유전적 소인을 나타낸다⁶⁾.

Shields²⁾는 상아질 형성부전증이 골형성부전증과 같이 나타나는 것을 Type I, 단독으로 나타나는 것을 Type II, 그리고 미국 Brandywine 지역에서 유전적으로 특수하게 나타나는 형태를 Type III로 분류하였다. Shell teeth는 Shields의 분류에 속하지 않는 상아질 형성부전증의 변이된 형태로⁷⁾, 보고된 증례가 매우 드물어 유병률이 확인되지 않고 있으며 국내에서는 아직 보고된 증례가 없다.

Shell teeth는 1954년 Rushton에 의해 처음 보고되었으며 특징적으로 정상적인 법랑질, 얇은 상아질, 큰 치수강, 짧은 치근을 보인다. 유치열과 영구치열 모두에서 나타날 수 있으며 전치열에 이환되지만 그 정도가 같지는 않고, 조직학적으로 법랑-상아질계 부근에서는 정상적인 상아질이지만 상아세관 방향으로 점차 변이가 일어나고 상아질 침착이 멈춘 양상을 보인다⁸⁾. Shell teeth는 얇은 상아질 층 때문에 비교적 정상적인 법랑질이 쉽게 파절되어 전 치열의 광범위한 파괴의 임상적인 문제점

교신저자 : 이 난 영

광주광역시 동구 서석동 375번지
조선대학교 치과대학 소아치과학교실
Tel : 062-220-3860
E-mail : nandent@chosun.ac.kr

을 야기하여 여러 문제를 일으킨다.

본 증례는 소아에서 나타난 shell teeth를 관찰, 치료하여 얻은 소견이 있어 보고하고자 한다.

Ⅱ. 증례보고

3세 1개월의 남자 아이가 충치가 있다는 주소로 본과에 내원하였다. 특이할 만한 가족력이나 전신병력은 없었다. 임상 소견으로 법랑질이 파절되고 상아질이 마모된 다수의 잔존치근이 있었고 상악 유구치에서는 치수 폴립이 관찰되었다. 하악 좌측 유구치들은 치관이 파괴되어 치은 폴립에 덮여 있었다(Fig. 1). 방사선 사진에서 치근의 길이는 비교적 정상이었고 전 치열에

걸쳐서 큰 치수강과 이를 둘러싼 얇은 경조직층이 보였으며 여러 개의 소구치가 결손되어 있었다(Fig. 2).

이상의 검사결과 shell teeth로 진단되었으며 치료는 행동조절 문제 때문에 전신마취를 실시하여 시행하였다. 잔존 치근과 심하게 손상되어 수복이 불가능한 치아를 발거하였으며 상악 좌, 우측 제 2유구치와 하악 우측 제 2유구치는 비교적 상태가 양호하여 기성관으로만 수복하였고 상악 좌측 제 1유구치와 하악 우측 제 1유구치는 근관치료 후 기성관으로 수복했다. 하악 유견치는 레진을 이용하여 수복을 하였으나 남은 치관이 작아 원래 형태대로 수복하지 못했고 유축절치는 치관이 거의 치은 연 높이로 있어 그대로 두기로 했다(Fig. 3). 시술 후 의치를 장착하여 기능성과 심미성이 향상되었는데 의치상만으로 유지가

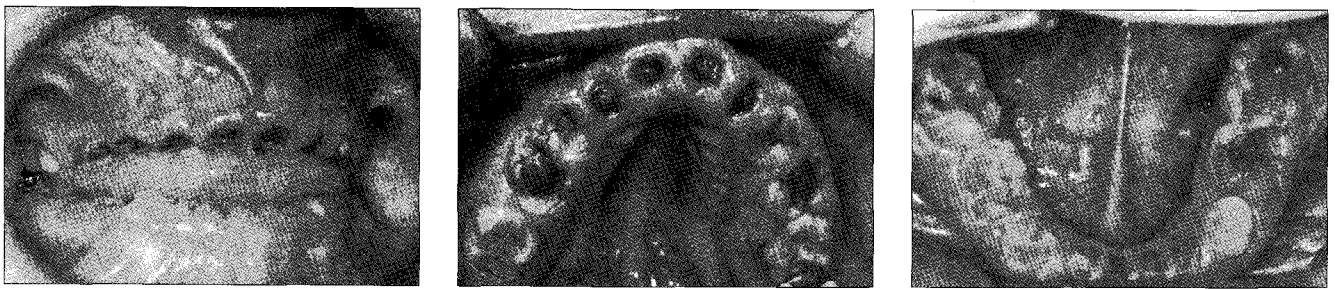


Fig. 1. Initial intraoral photograph showing root rests and pulp polyp of maxillary deciduous molars. The gingival polyp covered mandibular deciduous molar.

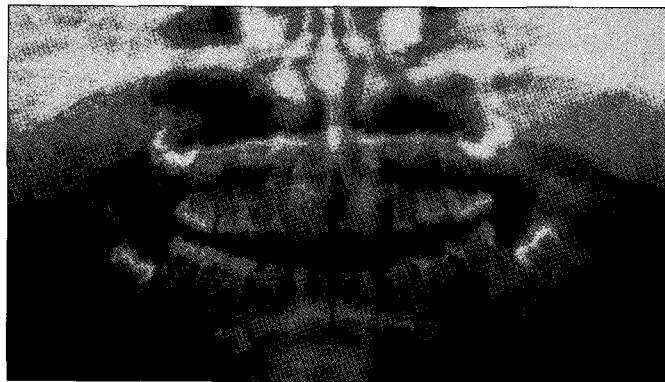


Fig. 2. Initial panoramic view showing normal roots, enlarged pulp cavities, thin hard tissue layer, congenitally missing premolars.



Fig. 3. Intraoral photograph at the day of treatment.

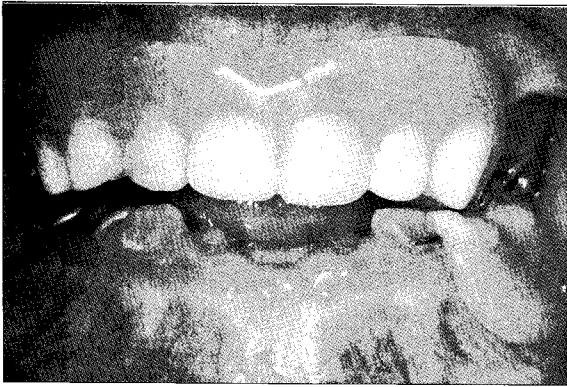


Fig. 4. Denture delivery after restorative treatment.



Fig. 5. Photograph showing a fistula after six months from the treatment.



Fig. 6. Panoramic view showing a lesion in the mandibular second deciduous molar furcation area at six months.



Fig. 7. Periapical radiograph after endodontic treatment.



Fig. 8. Photomicrograph showing the enlarged pulp cavity(a) and the thin dentin layer(b). (×100)

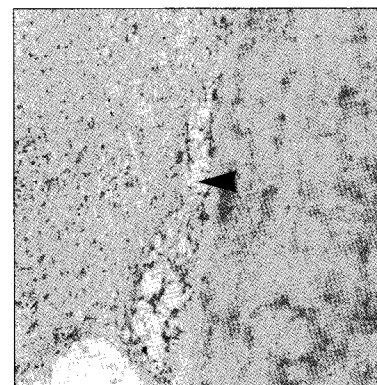


Fig. 9. Photomicrograph showing the irregular odontoblastic layer. (×200)

어려워 wire를 이용해 유지력을 높였다(Fig. 4).

시술 6개월 후 정기검사에서 상태가 양호하여 기성관으로만 수복한 하악 우측 제 2유구치 치은에 누공이 관찰되었다(Fig. 5). 방사선사진에서 하악 우측 제 2유구치 치근 이개부에 방사선 투과상의 병소가 보였고, 초진시 명확히 보이지 않았던 하악

우측 제 1소구치가 발육되는 것이 보였지만 다른 소구치들은 보이지 않았다. 발육중인 제 1대구치와 상악 측절치는 큰 치수강과 얇은 경조직층이 보여 shell teeth로 의심되었다(Fig. 6). 진정요법하에 하악 우측 제 2유구치를 근관치료하고 기성관 수복을 했다(Fig. 7).

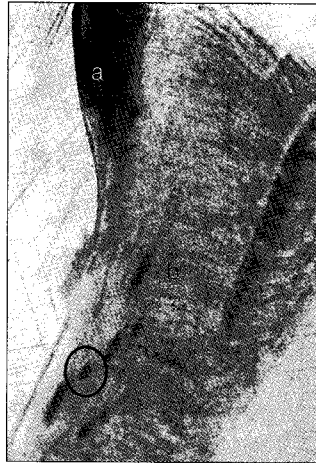


Fig. 10. Decalcified photomicrograph showing normal enamel(a) and irregular dentin(b). (×100)

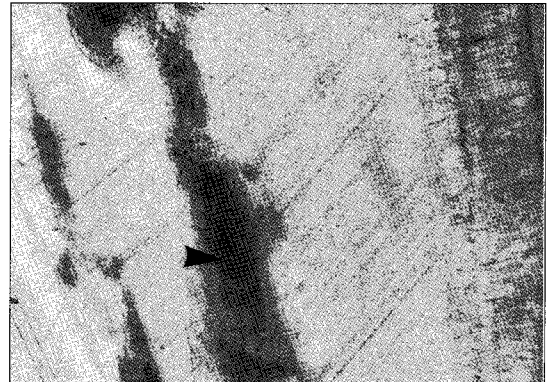


Fig. 11. Decalcified photomicrograph showing abnormal interglobular dentin. (×200)

조직 소견에서 치아들은 전반적으로 백악질은 정상이지만 넓은 치수강과 얇은 상아질이 보였고(Fig. 8), 상아모세포가 발달이 미약하여 불규칙한 양상을 나타냈다(Fig. 9). 탈회 표본 사진에서는 법랑질은 정상적이지만 상아세관이 불규칙한 것이 나타나며(Fig. 10), 비정상적으로 형성된 interglobular dentin이 관찰되었다(Fig. 11).

Ⅲ. 총괄 및 고찰

Shell teeth는 상아질 형성부전증의 가족력이 있는 경우도 있지만⁹⁾ 본 증례는 가족력이 없어 유전자의 돌연변이로 추정되어 향후 유전자 검사를 계획하고 있다. 국소적 치아형성증은 법랑질과 상아질이 매우 얇고 치수강이 커서 shell teeth와 유사하지만 국소적으로만 발생하여 감별진단이 될 수 있다¹⁰⁾. 다른 상아질 형성부전증도 감별진단 할 필요가 있는데 임상적인 양상은 유사하지만 방사선학적으로 비정상적인 상아질에 의해 치수가 폐쇄된 양상이 큰 치수강을 나타내는 shell teeth와는 구별된다.

Shell teeth는 1954년 Rushton⁹⁾에 의해 처음 보고된 이후 드물지만 몇 가지 증례가 보고되었다. Witkop 등¹¹⁾은 Brandywine에서 나타난 상아질 형성부전증 환자 중 8명에서 shell teeth 소견을 관찰하였다. Shell teeth는 유치열에서만 관찰되었는데 치관의 마모로 황금색의 상아질이 노출되었으며 부모들은 모두 상아질 형성부전증의 가족력을 갖고 있었다. 영구치열 기까지 관찰결과 이 중 4명에서 상아질형성 부전증이 보였다. 상아질 형성 부전증의 가족력이 있는 증례는 Kamen 등⁹⁾도 보고하였다. 이들은 2.5세의 여아에서 나타난 shell teeth 소견을 관찰하였는데 4대에 걸쳐 상아질 형성부전증의 가족력이 있었다. 법랑질이 모두 마모되어 치관 높이가 치연면 위로 2 mm를

넘지 못하였다. 모든 유치는 치수가 크고 상아질이 얇았으며 큰 치수와 계승 영구치는 비정상적인 법랑질을 보였다.

본 증례에서 치관의 파괴가 적어 근관치료 없이 기성관으로만 수복한 하악 우측 제 2유구치에서 치근 이개부 병변이 나타나 근관치료를 시행하고 기성관으로 재수복하였다. 처음 수복한 기성관을 제거하였을 때 치관부 파괴가 보이지 않아 치관 파괴로 인한 치수 감염으로는 생각되지 않았다. Harrison과 Kennedy¹²⁾의 증례에서도 수복물이나 우식이 없었던 상악 우측 유구치에 치근 이개부 병변이 나타났다. 본 증례에서 근관치료 없이 기성관으로만 수복한 상악 제 2유구치들도 지속적인 관찰이 필요할 것이다.

Harrison과 Kennedy¹²⁾의 증례에서는 치근의 길이는 정상적이었고 하악 측절치가 외상 병력이 없는데도 파절을 보였는데 이는 얇은 상아질 때문에 작은 충격에도 파절이 일어난 것이다. 유구치와 상악 영구 절치의 치관 치수는 매우 축소되어 있었고 shell teeth의 특징인 큰 치수강과 얇은 경조직 층은 치근관에서만 보여 저자들은 shell teeth가 아닌 shell root라 명명하였다. 저자들은 14년간 환아를 관찰하였는데 영구치열에서도 shell teeth가 나타났다. 대부분의 shell teeth 증례에서 전신 병력은 보고되지 않았는데 Kinirons⁷⁾는 거미손가락증, 관절 이완, 높은 구개궁, 푸른색 공막, 골 형성부전증등의 전신 질환과 함께 나타난 shell teeth를 보고하였다.

본 증례는 유치열에서 치아의 광범위한 파괴로 심미적, 기능적 문제가 야기되어 다수 치아의 발거와 함께 기성관 수복을 하고 의치를 장착하였다. 얇은 상아질 층 때문에 근관치료와 삭제시 주의가 필요하였으며 현재까지 양호한 결과를 보이고 있다. 하지만 소구치의 선천적 결손과 영구치의 shell teeth 가능성 때문에 지속적인 관찰이 필요하다.

Ⅳ. 요 약

조선대학교 소아치과에 내원한 shell teeth를 가진 소아환자를 치료하여 다음과 같은 결과를 얻었다.

1. 법랑질의 파괴와 상아질의 급속한 마모로 인해 다수 치아의 발거가 필요했다.
2. 유구치를 기성관으로 수복하여 치아의 보존에 효과적이었으나 근관치료하지 않은 치아에서 치근단 병변이 나타나 재수복하였다. 근관치료 하지 않고 기성관으로만 수복한 다른 치아들도 계속적인 관찰이 필요하다.
3. 의치를 장착하여 기능성, 심미성이 향상되었지만, 의치상의 면적이 작아 유지가 어려웠다.
4. Shell teeth는 맹출 직후부터 급속한 치아 파괴가 일어나고 정상치에 비해 치료에 어려움이 있어 조기 진단과 보존적 치료가 필수적이다.

참고문헌

1. Herold RC : Fine structure of tooth dentine in human dentinogenesis imperfecta. Arch Oral Biol, 17:1009-1013, 1972.
2. 대한소아치과학회 : 소아청소년치과학, 신흥인터내셔널, 76, 1992.
3. Hodge HC, Finn SB : Heriditaty opalescent dentin. Ⅱ. General and oral clinical studies. JADA, 26: 1663-1674, 1939.
4. Bixler D, Conneally PM, Christen AG :

Dentinogenesis imperfecta: Genetic variations in a six-generation family. J Dent Res, 48:1196-1199, 1969.

5. Johnson ON, Chaudhry AP, Gorlin RJ, et al. : Hereditary dentinogenesis imperfecta. J Pediatr, 54:786-792, 1959.
6. Richard MO, Charles MR, Rochester M : Uninherited dentinogenesis imperfecta. Oral Surg, 5:742-746, 1975.
7. Kinirons MJ : Shell teeth affecting a child patient : Report of a rare dental anomaly. J Dent Child, 51(6):441-443, 1984.
8. Rushton MA : A new form of dentinal dysplasia : Shell teeth. J Oral Surg, 7:543-549, 1954.
9. Kamen S, Goodman D, Heimler A : Genetic aspects of shell teeth : Report of case. J Dent Child, 47(3): 187-189, 1980.
10. Shafer WG, Hine MK, Levy BM: A textbook of oral pathology. Philadelphia, W B Saunders, 55-59, 1974.
11. Witkop CJ, MacLean CJ, Schmidt PJ, et al. : Medical and Dental Findings in the Brandywine isolate. Ala J Med Sci, 3:383-403, 1966.
12. Harrison R, Kennedy D : Shell teeth-management from the mixed to the permanent dentition : case report. Pediatr Dent, 14(2):110-114, 1992.

Abstract

TREATMENT OF SHELL TEETH IN CHILD : A CASE REPORT

In-Ho Park, Jung-Hoon Yoon*, Nan-Young Lee, Chang-Seop Lee, Sang-Ho Lee

Department of Pediatric Dentistry, Department of Oral Pathology
College of Dentistry, Chosun University*

Shell teeth, a rare dysplastic condition of dentin, was first described by Rushton in 1954. It is characterized by normal enamel, extremely thin dentin, correspondingly large pulp chambers, and shortened roots. This case report is of a male 3 years old. He is referred to the Chosun University dental hospital Pediatric Dentistry because of dental caries and dentin hypoplasia. Intra-oral examination showed attrition of all primary teeth. Radiographic examination showed that the pulps were extremely large with only a shell of surrounding hard tissue. The permanent premolars were missed congenitally. The diagnosis was shell teeth. Because of behavior problem, all dental treatment was undertaken with general anaesthesia. Extration, endodontic treatment and SS crown were performed. The patient has now been wearing the space maintainer and manages it well. The patient is seen intervals for supervision and follow-up care.

Key words : Dentinal dysplasia, Shell teeth