

저작근 공간에서 재발된 치성각화낭

서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실
*서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실, 치학연구소
**서울대학교 치의학대학원 구강악안면방사선학교실, 치학연구소 및 BK21
임수연 · 허경희* · 이원진** · 최현배 · 최순철*

Recurrent odontogenic keratocyst within the masticatory space

Su-Yeon Lim, Kyung-Hoe Huh*, Won-Jin Yi**, Hyun-Bae Choi, Soon-Chul Choi*

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Seoul National University
*Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Dental Research Institute, School of Dentistry, Seoul National University
**Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Dental Research Institute and BK21, School of Dentistry, Seoul National University

ABSTRACT

The odontogenic keratocyst (OKC) is a developmental odontogenic cyst typically occurring in the jaws. Since the first description of OKC was published in 1956, the lesion has been of particular interest because of its specific histopathologic features, high recurrence rate, and aggressive behavior. Recurrences most commonly arise within bone at the site of the original cyst. However, as lining cells may find their way into surrounding tissues either from implantation during surgery or from cortical perforation recurrences may arise at a distance from the original cyst. Here, we report a rare case of recurrent OKC which was first developed in mandible and recurred within the masticatory space. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2008; 38 : 117-20)

KEY WORDS : Odontogenic Keratocyst; Recurrence; Masticatory Muscles; Diagnostic Imaging

1956년 Phillipsen¹에 의해 처음으로 발표된 치성각화낭 (odontogenic keratocyst: OKC)은 발육성 치성낭으로 치성낭 중 3-11% 정도의 발병율을 가진다.² 치성각화낭은 하악체의 후방부위와 상행지에 많이 발생되며 20대와 30대에서 많이 나타나고 남성에게 약간 더 호발하는 경향이 있다.^{2,4} 방사선학적으로 치성각화낭은 경계가 명확한 방사선 투과성 병소로 나타나고 부드럽고 종종 피질골화된 변연을 보이며 주로 단방성으로 나타난다. 치성각화낭의 25-40%는 미맹출치와 연관되어 나타난다.⁵

치성각화낭은 조직병리학적 특성, 높은 재발률, 공격적인 양상 때문에 많은 주목을 받아왔다. 특히 재발률에 있어서는 3-62%까지 다양한 발병률을 보였다고 보고되었으며⁶ 재발에 있어서 남녀의 성비차이는 거의 보이지 않고 50대에서 가장 많이 나타난다.⁷ 대부분의 재발은 원래 낭이 발

생한 골 내에 발생하나 간혹 연조직이나 이식 부위 등에 발생하는 경우가 있다. Emersion 등⁸은 외경동맥의 후방부와 두개저에서 재발한 경우와 하악지 주위로 여러 개가 재발한 경우를 보고하였으며 Worrall⁹은 근돌기 (coronoid process)에서 발생한 치성각화낭이 측두근에 재발된 경우를 보고하였다.

그러나 연조직 내에서 재발된 치성각화낭은 매우 드물게 보고되고 있으며 더욱이 근육 내에서 재발된 경우는 더욱 드물어 저자들은 하악지와 하악체에 처음 발생한 치성각화낭이 인접 저작근 공간부위에서 재발한 증례에 대해서 보고하고자 한다.

증례 보고

36세의 남자 환자로 왼쪽 뺨이 부은 것을 주소로 본원에 내원하였다. 4년 전 타병원에서 하악골의 염증으로 해당부위 골 제거 후 재건술을 받았으며 이 때 치성각화낭으로 진단을 받았다. 2년 전 하악골 수술 부위의 부종이

접수일 (2008년 2월 11일), 수정일 (2008년 3월 19일), 채택일 (2008년 3월 26일)
Correspondence to : Prof. Soon-Chul Choi
School of Dentistry, Seoul National University, 28 Yeongeong-dong, Jongno-gu, Seoul 110-749, Korea
Tel) 82-2-2072-2622, Fax) 82-2-744-3919, E-mail) raychoi@snu.ac.kr

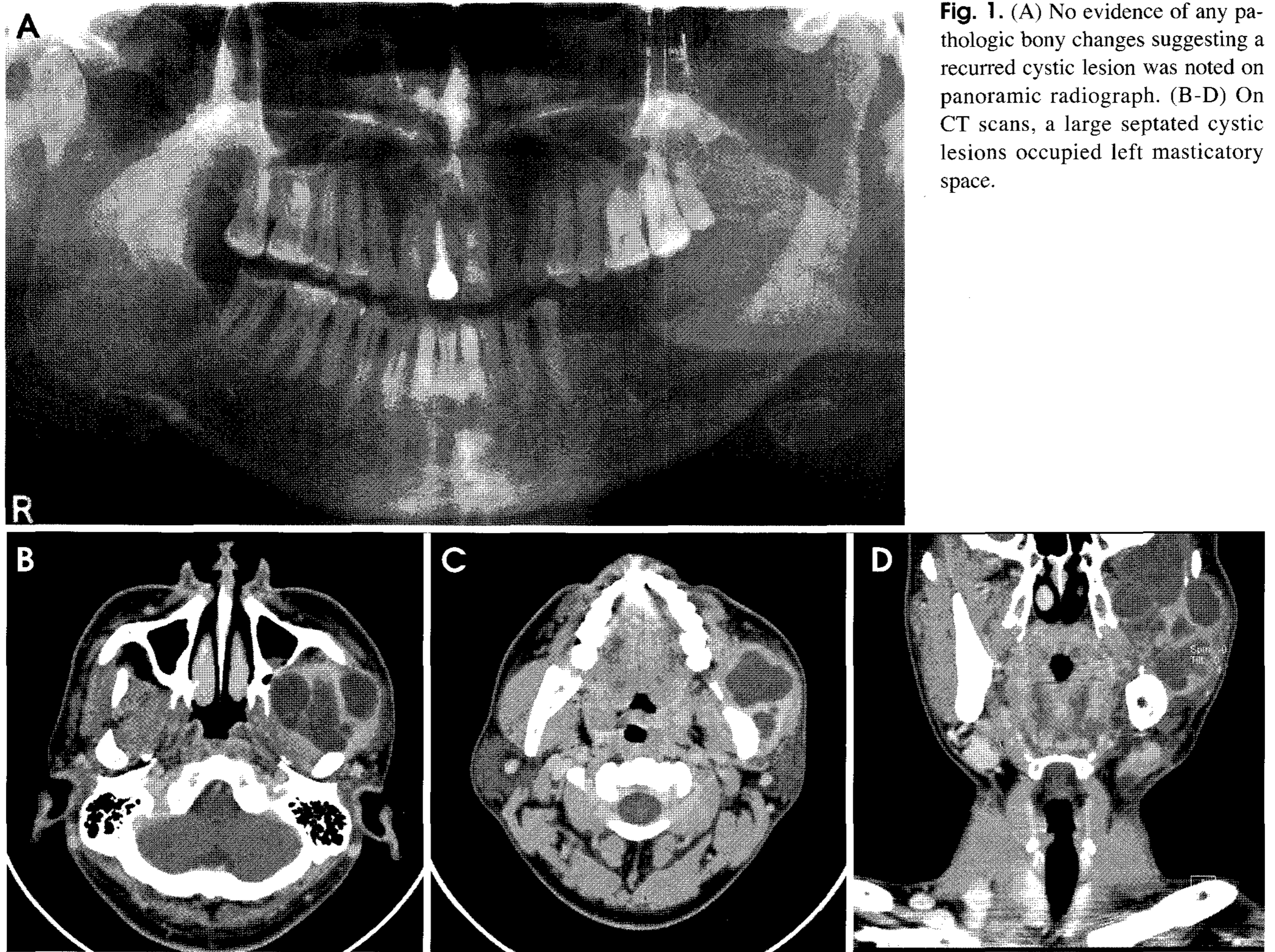


Fig. 1. (A) No evidence of any pathologic bony changes suggesting a recurred cystic lesion was noted on panoramic radiograph. (B-D) On CT scans, a large septated cystic lesions occupied left masticatory space.

나타나 치료를 받았으며 1년 전부터 왼쪽 뺨에 부종이 다시 관찰되어 3개월 뒤 서울대학교 치과병원 구강외과를 방문하였다. 구강외과에서 절개와 배농을 시행하였으나 이후로도 왼쪽 뺨의 종창이 감소되었다 증가되는 현상을 지속적으로 나타내어 방사선 영상 검사를 시행하였다.

파노라마 영상(Fig. 1A)에서 왼쪽 하악지와 하악체의 후방부에서 하악 과두에 이르기까지 부분적인 하악골절제가 시행되어 있는 것이 관찰되나 골 내에서는 재발 소견을 나타내는 변화는 관찰할 수 없었다. CT 영상(Fig. 1B-D)에서도 잔존한 골 내에서 별다른 소견을 관찰할 수 없었으나 인접한 저작근 공간에서 다방성 낭성 병소가 관찰되며 이로 인해 뺨이 외측으로 종창되어 있는 모습을 보인다.

낭성 병소 내부에서는 격벽과 조영증강된 변연(enhancing rim)이 관찰되며 주위 저작근에서는 조영증강 소견과 부종성 변화가 혼재되어 있다. 상방으로 측두근을 따라 측두영역(temporal area)까지 낭성 변화가 길게 연장되어 있는 소견이 관찰된다. 이 병소의 영상 진단 결과 저작근 공간 내에 재발된 치성각화낭으로 결론을 내렸다.

병소를 적출하여 두 개의 조직을 조직 병리 검사를 시

행하였다. 작은 조직은 구형의 말랑말랑한 주머니 모양이었으며 큰 조직은 불규칙한 형태이나 내부에 구형의 조직이 포함되어 있었고 중심부 절단 시 직경 2.5 cm 정도의 다방성의 낭성병소가 관찰되고 내부에 담황색의 점액성 물질로 가득 차 있음이 관찰되었다.

이 병소의 현미경사진에서는 다양한 두께의 상피 이장이 나타나고 상피 돌기(rete peg)가 보이지 않는 치성각화낭의 특징적인 모습이 나타나며(Fig. 2A) 이상각화층을 가진 중층편평상피의 모습과 기저층 세포들의 핵이 울타리 모양으로 줄지어 있는 것이 관찰된다(Fig. 2B). Fig. 2C는 이 낭의 딸낭(daughter cyst)을 나타낸다. 이상의 조직학적 소견으로 치성각화낭이 재발되었음이 확인되었다.

고 찰

1962년에 Pindborg 등¹⁰은 치성각화낭이 다음과 같은 특징을 가진다고 서술하였다. (1) 이장상피는 보통 매우 얇고 두께가 비교적 일정하며 상피 돌기(rete ridge)가 존재하지 않는다. (2) 명확한 기저층 세포가 존재하며 이들은 입방형

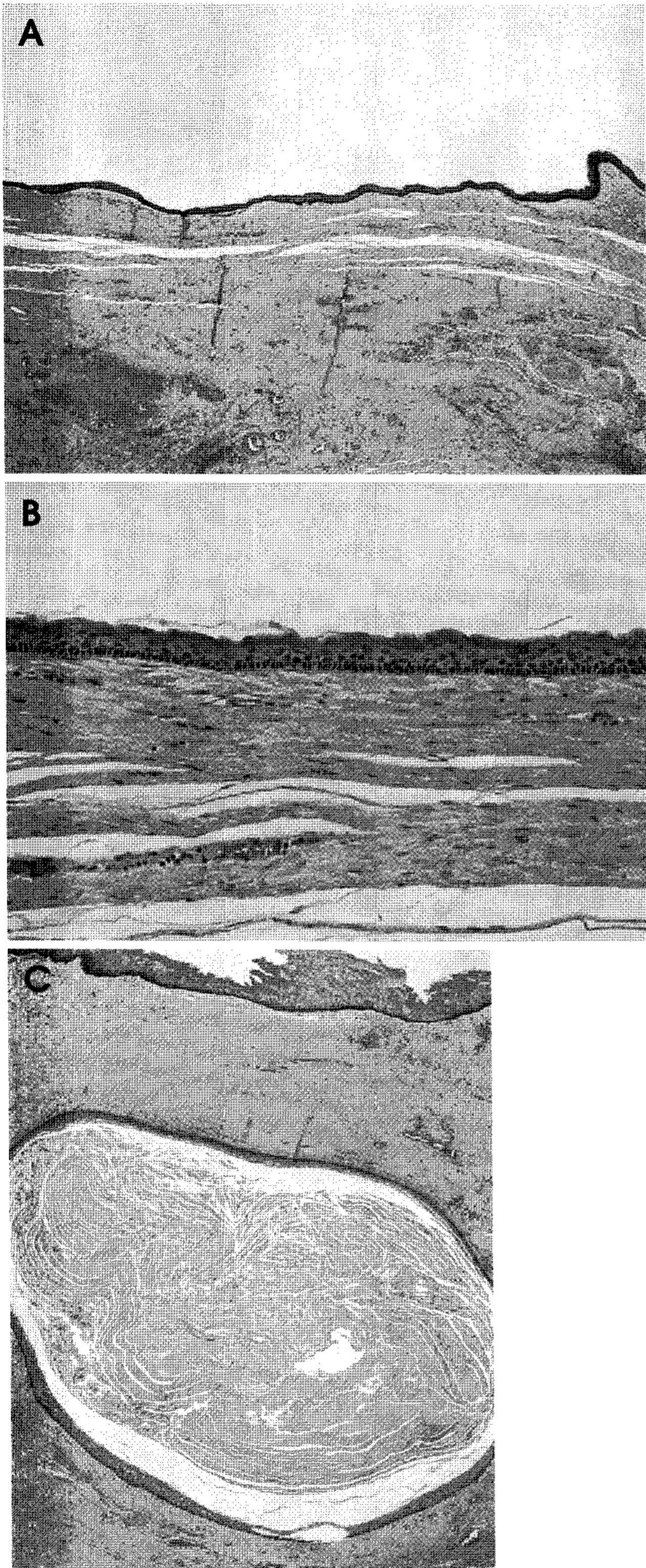


Fig. 2. (A) Photomicrograph demonstrates a cyst minor variation in thickness of the epithelial lining and a lack of rete pegs (hematoxylin eosin, original magnification $\times 40$). (B) Photomicrograph of the cyst lining shows stratified squamous epithelium with a corrugated parakeratin layer and prominent basal cell layer nuclear palisading (hematoxylin eosin, original magnification $\times 200$). (C) Daughter cyst (hematoxylin eosin, original magnification $\times 40$).

이거나 기둥모양이며 줄지어 배열되어 있다. (3) 기저층 세포로부터 직접적으로 전이된 얇은 가시세포층 (spinous cell layer)이 있다. (4) 가시세포층은 종종 세포내 부종 (intracellular edema)을 나타낸다. (5) 각화 (keratinization)는 이상각화 (parakeratinization)가 대부분이나 정상각화 (orthokeratinization)를 나타내는 경우도 있다. (6) 케라틴 층은 종종 물결모양이다. (7) 섬유성 낭벽은 보통 얇고 비염증성이다.

치성각화낭의 임상병리학적 특성은 여러 논문에서 광범위하게 연구되어 왔다. 치성각화낭의 가장 주목할 만한 특징은 높은 재발률에 있으며 재발을 이해하는 기본 바탕은 ‘치성각화낭은 단일 병소이며 적출한 다음에는 재발하지 않는다’¹¹에서 ‘치성각화낭의 임상적인 행동은 양성 종양을 흉내 낸다’¹²로 바뀌었다.

재발률은 여러 가지 요소에 의해 영향을 받을 수 있으며 3%에서 62%까지 다양하다.^{6,12} 그러나 이 높은 재발률에 대한 명확한 이유는 아직 밝혀지지 않고 있다. Harris¹³는 치성각화낭 세포들이 prostaglandin과 collagenase를 분비하는데 이들이 낭을 확장하는데 주요한 역할을 한다고 보고하였다. Scharfetter 등¹⁴은 치성각화낭 상피와 결합조직의 성장률이 치근낭 (radicular cyst)의 성장률보다 크며 이들 상피와 결합조직의 공격적인 성장, prostaglandin에 의한 골 흡수, collagenase 활동이 낭의 재발을 발병시키는 근본이 된다고 보고하였다. 또 다른 이유로는 낭벽의 증가된 섬유소용해 작용 (fibrinolytic activity)이 제시된 바 있다.¹⁵ 그러나 Hume 등¹⁶은 치성각화낭 상피의 성장은 함치성낭 (dentigerous cyst)보다 크지 않다고 보고하였고 Eyre 등¹⁷은 상피의 성장이나 prostaglandin, collagenase의 분비보다 치성각화낭의 이장벽이 얇고 찢어지기 쉬워 한 번에 제거하기가 어렵기 때문에 재발률이 높다고 설명하였다. 이러한 이유로 치성각화낭의 수술방법으로는 적출 (enucleation)이 추천되는데 이는 한 번에 조직의 일부를 절제하여 재발률을 낮출 수 있는 방법이다.¹⁸ Voorsmit¹⁹는 수술을 하기 전 Carnoy's solution을 사용하면 낭의 이장벽이 단단해져 완벽하게 제거하기가 보다 용이해지므로 재발률을 낮출 수 있다고 보고한 적이 있다.

또 Brannon²⁰은 정상각화 (orthokeratinization)에 비해 이상각화 (parakeratinization)인 경우 성장 가능성이 높고 재발되는 경우가 많아 정상각화 부류 (orthokeratinized variant)와 이상각화 부류 (parakeratinized variant)를 명확히 구별해야 한다고 하였다. 또 Myoung 등⁷은 하악지와 하악각 부위에서 치성각화낭이 발생한 경우 하악체에 발생한 경우에 비해 재발이 잘 일어나는 경향이 있다고 하였는데 이는 그 부위에서 치성각화낭이 발생한 경우 완전한 제거가 어렵기 때문이라고 설명하였다.

대부분의 재발은 원래 낭이 발생한 골 내에 발생한다. 그러나 이장 세포들이 주위 조직이나 수술 동안 이식한 조직,¹² 피질골 천공²⁰에 의해 다른 곳으로도 이동할 수 있

기 때문에 본래 발생한 곳과 다른 부위에서도 재발이 일어날 수 있다. 그렇지만 치성각화낭이 피질골을 뚫고 연조직에 침투한다 해도 연조직으로의 재발은 비교적 드물게 보고된다.

Attenborough²¹는 하악 절제후 이식한 골편과 관골부위에서 재발이 일어난 경우를 보고하였고 DeGould와 Goldberg²²도 치성각화낭이 발생한 하악골을 절제 후 이식한 장골 (iliac crest bone)에서 재발된 경우를 보고한 바 있다.

Emerson 등⁸은 외경동맥의 후방부와 두개저에서 재발한 경우와 하악지 주위로 여러 개가 재발한 경우를 보고하였으나 CT 영상이 없어 연조직 내에서의 발현 양상을 영상으로 알 수는 없었다. Worrall⁹은 근돌기 (coronoid process)에서 발생한 치성각화낭이 측두근에 재발된 경우를 보고하였는데 이 경우는 측두근 내에 국한된 작은 병소였으나 본 증례는 교근 내는 물론 주위의 저작근 공간을 모두 차지할 정도로 매우 크게 성장한 드문 증례이다.

본 증례는 처음 하악골에 치성각화낭이 발생한 후 지속적으로 불편을 호소하였고 4년 만에 교근, 측두근, 익돌근 등 저작근 공간으로 치성각화낭의 재발이 일어난 경우이다. 치성각화낭의 조직학적 특성상 재발이 잘 일어나고 발생 부위도 하악지와 하악각 부위이므로 재발이 발생하기 쉬운 5년에서 10년 동안은 지속적인 추적에 요구된다고 생각된다. 그러나 추적 기간 동안 상용적으로 파노라마 영상만을 촬영하는 경우 골내 변화 소견이 동반되지 않는다면 재발에 대한 평가가 정확하지 않을 수 있다. 그러므로 추적 기간 동안에도 파노라마 영상뿐 아니라 임상 증상 등을 고려하여 필요한 경우에 CT 영상 등도 촬영하여 골 소견과 연조직 소견을 함께 관찰하여야 보다 완벽한 평가가 가능하리라 생각된다.

참 고 문 헌

1. Philipsen HP. Om keratocyster (kolesteatomer) I kaeberne. Tandlaegebladet 1956; 60 : 963-80.
2. Chuong R, Donoff RB, Guralnick W. The odontogenic keratocyst. J Oral Maxillofac Surg 1982; 40 : 797-802.
3. Brannon RB. The odontogenic keratocyst. A clinicopathological study of 312 cases. Part I. Clinical features. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1976; 42 : 54-72.
4. Payne TF. An analysis of the clinical and histologic parameters of odontogenic keratocyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1972; 33 :

- 536-46.
5. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral and maxillofacial pathology. 2nd ed. Philadelphia: Saunders; 2002. p.595
6. Voorsmit RA, Stoelinga PJ, Van Haelit UJ. The management of keratocysts. J Maxillofac Surg 1981; 9 : 228-36.
7. Myoung H, Hong SP, Hong SD, Lee JI, Lim CY, Choung PH, et al. Odontogenic keratocyst: Review of 256 cases for recurrence and clinicopathologic parameters. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2001; 91 : 328-33.
8. Emerson TG, Whitlock RI, Jones JH. Involvement of soft tissue by odontogenic keratocysts (primordial cysts). Br J Oral Surg 1972; 9 : 181-5.
9. Worrall SF. Recurrent odontogenic keratocyst within the temporalis muscle. Br J Oral Maxillofac Surg 1992; 30 : 59-62.
10. Pindborg JJ, Philipsen HP, Henriksen J. Studies on odontogenic cyst epithelium. In: Sognaes RF, editor. Fundamentals of keratinization. Washington (DC): American Association for the advancement of Science; 1962. p. 151-60.
11. Shear M. Primordial cysts. J Dent Associ of South Africa 1960; 15 : 211.
12. Partridge M, Towers JF. The primordial cyst (odontogenic keratocyst) : It's tumor-like characteristics and behaviour. Br J Oral Maxillofac Surg 1987; 25 : 271-9.
13. Harris M. Odontogenic cyst growth and prostaglandin-induced bone resorption. Ann R Coll Surg Engl 1978; 60 : 85-91.
14. Scharfetter K, Balz-Herrman C, Lagrange W, Koberg W, Mittermayer C. Proliferation kinetics-study of the growth of keratocyst. Morpho-functional explanation for recurrence. J Craniomaxillofac Surg 1989; 17 : 226-33.
15. Donoff RB, Harper E, Guralnick WC. Collagenolytic activity in keratocysts. J Oral Surg 1972; 30 : 879-84.
16. Hume WJ, Moore JK, Main DM. Differences in the in vitro growth of epithelium from inflammatory and developmental odontogenic cysts. Br J Oral and Maxillofac Surg 1990; 28 : 85-8.
17. Eyre J, Zakrzewska JM. The conservative management of large odontogenic keratocysts. Br J Oral Maxillofac Surg 1985; 23 : 195-203.
18. Forssell K. The primordial cyst. A clinical and radiological study. Proc Finn Dent Soc 1980; 76 : 129-74.
19. Voorsmit RA. The art of treating keratocyst: fixation before enucleation. Presented at the Autumn Meeting of the British Association of Oral and Maxillofacial Surgeons. London; 1990.
20. Browne RM. The odontogenic keratocyst. Clinical aspects. Br Dent J 1970; 128 : 225-31.
21. Attenborough NR. Recurrence of an odontogenic keratocyst in a bone graft: report of a case. Br J Oral Surg 1974; 12 : 33-9.
22. DeGould MD, Goldberg JS. Recurrence of an odontogenic keratocyst in a bone graft. Report of a case. Int J Oral Maxillofac Surg 1991; 20 : 9-11.