

석회화치성낭의 두 증례보고

원광대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실, *구강악안면외과학교실,
**울지대학교 의과대학 병리학교실, 원광 치의학 연구소

이병도 · 이 완 · 팽준영* · 이 준* · 최문기* · 손현진**

Two cases report of Calcifying Odontogenic Cyst

Byung-Do Lee, Wan Lee, Jun-Young Paeng*, Jun Lee*, Moon-Ki Choi*, Hyun-Jin Son**

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, *Oral & Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Wonkwang University, Wonkwang Dental Research Institute, **Department of Pathology, School of Medicine, Eulji University

ABSTRACT

The calcifying odontogenic cyst (COC) is a rare disorder of the jaws and shows various radiographic features. The purpose of this study is to describe the different radiographic appearances of 2 cases of COC.

Case 1 was located in the posterior maxilla extending into maxillary sinus, showing unilocular radiolucency with a well-defined margin. Cortical bone expansion and thinning were prominent. Root resorption of adjacent teeth was apparent. Case 2 showed unilocular radiolucency with a calcified material. Calcification was supposed to be dystrophic dental hard structures, detected at the periphery of the lesion. Ghost cell and proliferation of ameloblastoma-like tissues were common features for these two lesions on histopathological findings. This reports presented common and atypical radiographic features of the COC. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2009; 39 : 169-73)

KEY WORDS : Odontogenic; Cyst; Tumor; Calcification

석회화치성낭(calcifying odontogenic cyst, COC)은 발생 빈도가 비교적 드문 질환^{1,2}으로 낭과 종양의 특성을 동시에 가지고 있다.³

COC의 상피 조직은 이형성된 상아질(dentinoid) 등의 치성 경조직을 결체 조직 내에 생성시킬 수 있으며,⁴ 유령 세포(ghost cell)가 특징적으로 관찰된다.⁵ 이러한 석회화 조직이 방사선사진상에 낭과 동시에 관찰되는 경우 선양 치성종양(adenomatoid odontogenic tumor), 법랑모섬유치아종(ameloblastic fibro-odontoma), 석회화상피성치성종양(calcifying epithelial odontogenic tumor) 등과의 감별이 필요하다. COC는 단방성 병소 내에 석회화 물질이 산재되는 상이 가장 일반적인 방사선학적 소견이지만⁶ 다방성으로 관찰될 수도 있으며, 낭성 병소 내에 석회화 물질이 관찰되지 않는 경우에는 치성각화낭, 함치성낭, 치근단낭, 측방치주낭, 법랑아세포종 등과 감별해야 한다.

이와 같이 COC는 다양한 방사선학적 소견을 보이기 때문에 병소 진단시 주의를 기울여야 하고 종양의 특징이 있기 때문에 재발 가능성이 있다는 점을 염두해 두어야 한다.

본 증례에서는 좌측 상악골에 발생된 석회화치성낭이 석회화 물질은 관찰되지 않는 단방성 병소로 관찰되었고, 또 다른 증례에서는 상악전치-소구치부에 발생된 낭 내에 석회화 물질이 관찰되는 대조적인 양상을 보였기 때문에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례 보고

증례 1)

44세 여성 환자가 좌측 상악구치부의 불편감을 주소로 내원하였다. 파노라마 방사선사진상에서 단방성의 방사선 투과성 병소가 좌측 상악 소구치와 대구치 부위에서 관찰되었고 인근의 상악동으로 병소가 연장된 상이 관찰되었으며 대구치의 치근 흡수상이 관찰되었다. CBCT상에서 석회화 물질은 관찰되지 않았으며, 병소 경계가 명료하였으

접수일(2009년 7월 10일), 수정일(2009년 8월 3일), 채택일(2009년 8월 7일)
Correspondence to : Prof. Byung-Do Lee
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Wonkwang University, 344-2, Shinyong dong, Iksan city, Jeonbuk 570-711, Korea
Tel) 82-63-859-2912, Fax) 82-63-857-4002, E-mail) cebydo@wonkwang.ac.kr

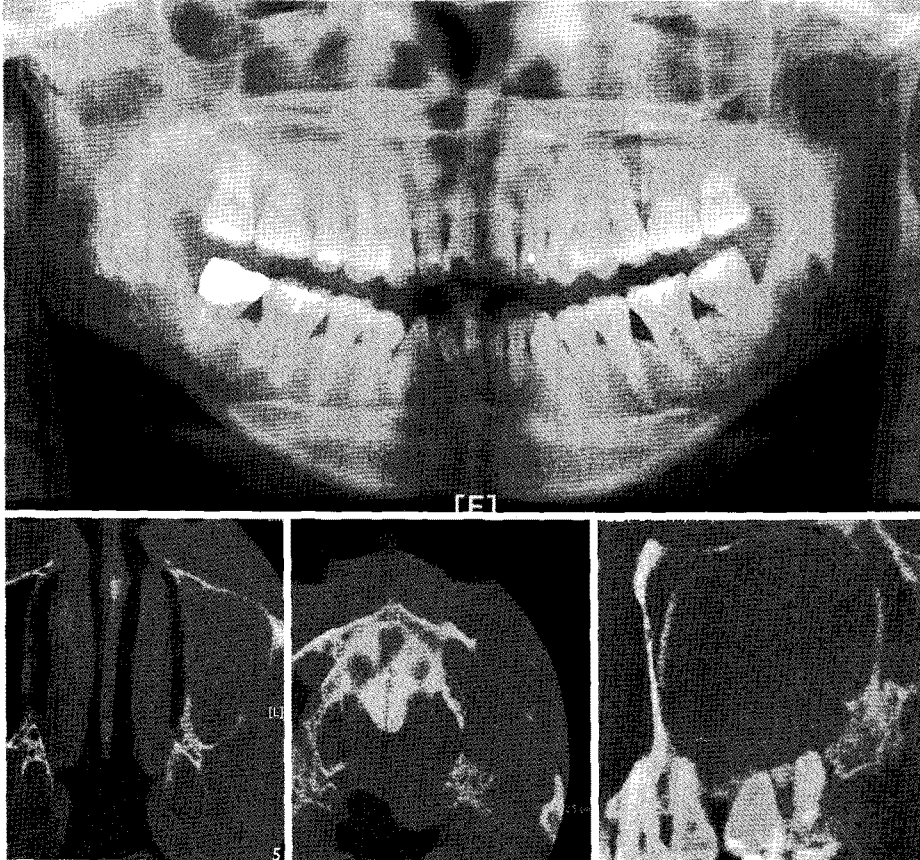


Fig. 1. Unilocular radiolucent lesion on left maxillary posterior region. This lesion extended into maxillary sinus and showed cortical expansion and thinning.



Fig. 2. Well capsulated lesion and severe root resorption state of left maxillary 1st and 2nd molar were observed during operation.

나 피질골의 비박과 팽윤이 부위에 따라서는 현저한 상을 보이고 있었다(Fig. 1). 병소 적출시 피막화가 잘 된 조직이 인접 골 조직으로부터 쉽게 분리되었으며 인접치인 상악 제1,2대구치도 동시에 발거되었는데, 치근흡수가 심한 양상을 확인할 수 있었다(Fig. 2). 조직학적으로 입방형의 기저세포(palisading columnar basal cells)와 유령세포로 구성된 상피층이 관찰되었으며, 부분적으로는 범람아세포종 모양의 상피증식이 결체조직 벽으로 진행된 양상이 관찰되었다(Fig. 3).

증례 2)

64세의 여성 환자가 상악 전치부 및 우측 종창을 주소로 내원하였다. 우측 상악 중절치로부터 우측 상악 제2소구치 부위에 이르는 단방성의 방사선투과성 병소가 관찰되었으며 병소 내의 근심 방향에서는 석회화된 물질이 관찰되었다. CBCT상에서 이 석회화된 부위의 방사선불투과도가 치아 경조직보다 작아 보였기 때문에 단순 석회화된 물질 혹은 이형성된 치아 경조직을 의심하였으며 피질골의 비박과 팽윤 소견 또한 관찰되었다(Fig. 4). 병리조직학적

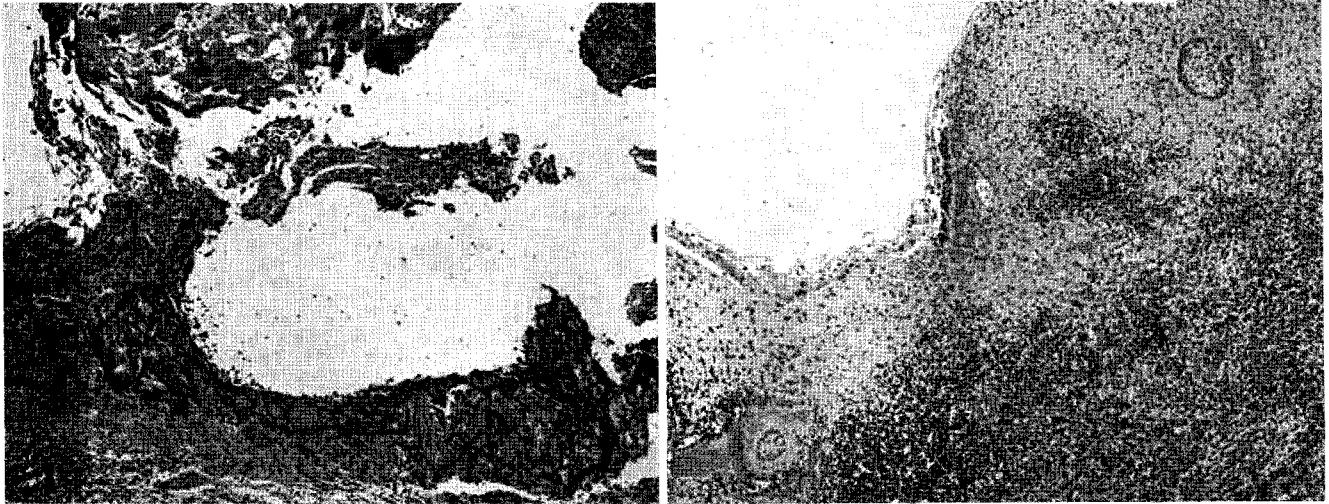


Fig. 3. Microscopically, the cyst is lined by a thick epithelial layer consisting of palisading columnar basal cells and enlarged eosinophilic epithelial cells without nuclei (“ghost cell”). In some areas, the ameloblastomatous epithelium extends into the capsular wall.

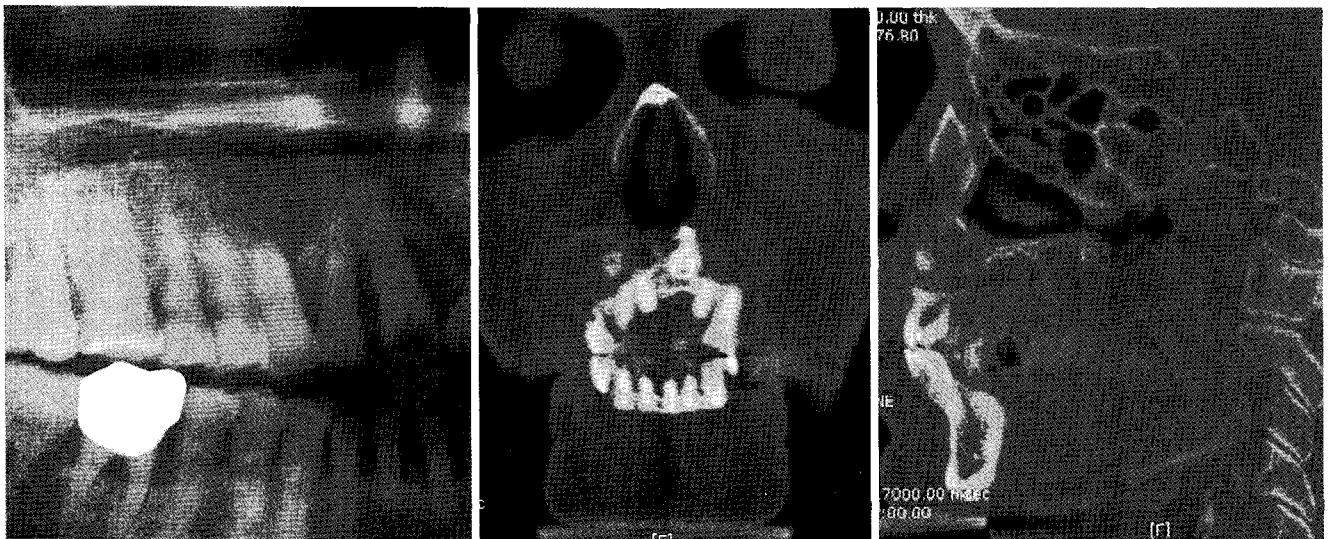


Fig. 4. Unilocular radiolucent lesion with a calcified material is observed on right maxillary anterior-premolar region. This lesion has a well defined border and showed cortical expansion and thinning.

소견에서는 상피의 유령 세포와 이형성 석회화(dystrophic calcification)가 특징적이었으며 법랑아세포와 유사한 조직 역시 관찰되었다(Fig. 5).

고 찰

석회화치성낭(COC)은 상피가 입방형의 기저세포로 구성되어 있으면서 유령세포가 상피 혹은 인접 결체 조직에 존재하는 비종양성 낭성 병소(non-neoplastic cystic lesion)로 정의⁷되었으나 최근에는 양성 종양으로 분류되고 있으며,⁸ 치성여포, 퇴축법랑상피, 기타 치성상피 잔사로부터 병

소가 유래되는 것으로 알려져 있다.⁹

COC는 낭성 조직과 종양 조직이 동시에 관찰되는 경우가 많다. 즉 치아종, 법랑아세포종, 선양치성종양, 법랑모섬유종, 법랑모섬유치아종, 석회화상피성치성종양 등¹⁰⁻¹⁶이 낭성 조직과 동시에 관찰될 수 있으며 악성 종양이 병발된 증례들도 보고되었다.^{17,18}

이러한 종양 조직이 이미 존재하는 낭(cyst)으로부터 2차적으로 유래되었는지, 아니면 종양 조직이 원래부터 존재하였는지는 확실하지 않다.¹⁹ COC는 이와 같이 다양한 조직 소견을 보이기 때문에 COC를 분류하는 여러 가지 방법이 제시되었으며 그 중 Praetorius 등⁹의 분류법이 일

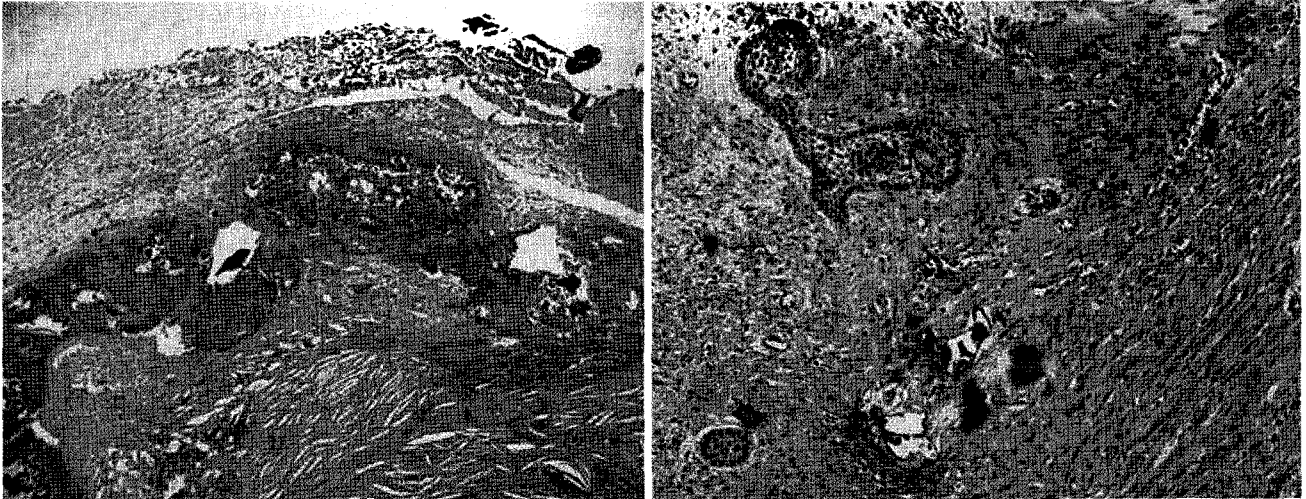


Fig. 5. Clusters of ghost cells and dystrophic calcification foci are present in the epithelial lining. Small foci of ameloblastoma-like islands of odontogenic epithelium are also identified.

반적으로 이용되고 있다. 즉 simple unicystic type, unicystic odontoma-associated type, unicystic ameloblastomatous proliferating type 등의 낭 군(cystic group)과 dentinogenic ghost cell tumor 종양 군으로 분류된다.

본 증례 1의 경우 석회화 물질이 관찰되지 않는 단방성의 병소가 상악 후방 구치에서 관찰되었으며, 상악골 내에 잔존하는 치성 상피가 원인이 된 치성 각화낭 등을 의심하였으나 피질골 비박과 팽윤이 심한 부위가 관찰되었으므로 종양의 가능성도 배제하지 않은 증례이다. 증례 2의 경우에는 증례 1과 달리 낭 내에 석회화 물질이 관찰되었는데 방사선불투과도가 치아 경조직보다 작아 보였기 때문에 이형성된 치아 경조직을 의심하였다. 증례 1과 2 모두 법랑아세포와 유사한 조직이 증식하는 상을 보이고 있었으므로 Praetorius 등⁹의 분류법 중 unicystic ameloblastomatous proliferating type으로 생각된다.

Yoshiura 등²⁰은 상악 구치부의 석회화 물질이 관찰된 증례와 이형성 상아질(dentinoid)이 관찰된 상악 전치부 증례 등을 보고하여 본 증례보고와 유사한 보고를 한 바 있으며, 또 다른 상악 전치부 증례²⁰는 낭 내에 석회화된 종괴(mass) 형태로 관찰되었는데 복합치아종(compound odontoma)이 병발된 증례이었다.

COC는 단방성 병소였으나 시간이 경과함에 따라 다방성(multicystic)으로 진행되는 경향이 있고 재발되는 경우에는 특히 다방성을 보인다고 보고되었다.⁴ Buchner¹⁶는 215개의 COC 증례를 보고하면서 다방성의 COC를 특징적으로 분류하여 보고한 바 있다. 본 증례들은 병소 크기가 비교적 큰에도 불구하고 단방성인 점이 이채로웠다.

COC 병소 초기에는 방사선사진상에서 단방성으로 관찰되다가 시간이 경과함에 따라 병소 내의 섬유성 조직이 골화되는 과정을 거쳐 격벽으로 관찰될 수 있다는 보고도

있다.⁴ 이러한 격벽은 전산화단층영상이나 자기공명영상 등의 특수 영상에서만 관찰되는 경우가 많기 때문에 일반 방사선사진에서는 실제의 다방성 병소가 단방성으로 평가되는 경우가 있을 수 있다. 또한 일반 방사선사진에서 관찰되는 미약한 석회화 물질은 격벽일 가능성이 있다는 연구 보고³가 있어 이에 대한 앞으로의 연구는 흥미가 있을 것으로 예상된다.

COC는 미맹출치와 종종 연관되며 그 빈도는 약 33% 정도로 보고되고 있으나²¹ 본 증례들의 경우에는 모두 미맹출치와 연관이 없었다. 증례 1의 경우에는 병소 인근의 제 1, 2대구치의 치근 흡수가 현저한 소견을 보였는데, 치근 흡수가 COC의 특징적인 소견이라는 연구와²² 일치되는 소견이다.

COC는 10-20대 젊은 연령층 혹은 50-60대의 다소 고령층에서 호발된다고 보고되고 있다.⁹ 남녀 비슷한 발생빈도를 보이며 전치부에서 호발하는 경향을 보인다.¹⁶ Li 등⁵은 COC 21 증례를 분석하면서 단방성의 경우 상악 전치-소구치 부위에서 빈발하며 재발 경향은 없다고 하였으나, 법랑아세포종과 연관되는 경우에는 하악에서 호발하며 병소 크기가 비교적 큰 경우 재발 경향이 있으므로 주의를 요한다고 하였다. 본 증례의 경우 병소가 40대와 60대의 여성 상악골에서 발견되었으며, 두 증례 모두 법랑아세포종과 유사한 조직이 관찰되었으므로 정기적인 추적 검사가 필요하다고 생각한다.

COC는 대부분 골내에서 발생되지만, 골외조직(extraosseous)에서 발생한 주변성(peripheral)의 경우^{2,23} 치은상에서 용기된 모양을 가지므로 임신 치은종 등과의 감별을 요한다.

Yoshiura 등²⁰은 CT를 이용하여 COC 관찰시 윈도우 조절을 통해 병소 내용물의 상이 다양하게 나타날 수 있다

고 보고한 바 있으며, 본 증례 1의 경우 낭성 병소 내의 석회화 물질의 존재가 의심되어 CBCT window level을 다양하게 설정하여 변화시켜 보았으나 석회화 물질은 관찰되지 않았다.

본 증례 1의 경우 특징적으로 상악 구치부에서 발생한 단방성 낭성 병소로서 상악동 내로 성장하여 상악골이 팽윤, 비박된 양상을 보였고 현저한 치근 흡수 소견을 보였으나 석회화 물질은 관찰되지 않은 증례이었으며, 증례 2의 경우에는 상악 전방부와 소구치에서 발생한 증례로서, 석회화된 물질이 관찰되어 증례 1과 대조되는 양상을 보였다.

참 고 문 헌

- Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP, Vickers RA. The calcifying odontogenic cyst—a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1962; 15 : 1235-43.
- Shamaskin RG, Svirsky JA, Kaugars GE. Intraosseous and extraosseous calcifying odontogenic cyst (Gorlin cyst). *J Oral Maxillofac Surg* 1989; 47 : 562-5.
- Langland OE, Nortje CJ, Langlais RP. *Diagnostic Imaging of the Jaws*. 1st ed. Malvern: Williams & Wilkens; 1995.
- Erasmus JH, Thompson IO, van Rensburg LJ, van der Westhuijzen AJ. Central calcifying odontogenic cyst. A review of the literature and the role of advanced imaging techniques. *Dentomaxillofac Radiol* 1998; 27 : 30-5.
- Li TJ, Yu SF. Clinicopathologic spectrum of the so-called calcifying odontogenic cysts: a study of 21 intraosseous cases with reconsideration of the terminology and classification. *Am J Surg Pathol* 2003; 27 : 372-84.
- Shear M. *Cysts of the oral regions*. Oxford: Butterworth-Heinemann Ltd; 1992.
- Pindborg J, Kramer I, Torloni H. *Histological typing of odontogenic tumours. Jaw cysts, and allied lesions. WHO International Histological Classification of Tumors*. Springer Verlag; 1992. p. 11-3. Geneva: The world health organization; 1971.
- Kramer I, Pindborg J, Shear M. *The World Health Organization: histological typing of odontogenic tumours*. 2nd ed. Berlin: Springer Verlag; 1992. p. 11-3.
- Praetorius F, Hjorting-Hansen E, Gorlin RJ, Vickers RA. Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. *Acta Odontol Scand* 1981; 39 : 227-40.
- Toida M, Ishimaru J, Tatematsu N. Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1990; 48 : 77-81.
- Tajima Y, Yokose S, Sakamoto E, Yamamoto Y, Utsumi N. Ameloblastoma arising in calcifying odontogenic cyst. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1992; 74 : 776-9.
- Lin CC, Chen CH, Lin LM, Chen YK, Wright JM, Kessler HP, et al. Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibroma: report of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2004; 98 : 451-60.
- Farman AG, Smith SN, Nortje CJ, Grotepass FW. Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibro-odontoma: one lesion or two? *J Oral Pathol* 1978; 7 : 19-27.
- Hong SP, Ellis GL, Hartman KS. Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72 : 56-64.
- Nagao T, Nakajima T, Fukushima M, Ishiki T. Calcifying odontogenic cyst: a survey of 23 cases in the Japanese literature. *J Maxillofac Surg* 1983; 11 : 174-9.
- Buchner A. The central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst: an analysis of 215 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1991; 49 : 330-9.
- Ikemura K, Horie A, Tashiro H, Nandate M. Simultaneous occurrence of a calcifying odontogenic cyst and its malignant transformation. *Cancer* 1985; 56 : 2861-4.
- Grodjesk JE, Dolinsky HB, Schneider LC, Dolinsky EH, Doyle JL. Odontogenic ghost cell carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 63 : 576-81.
- Shear M. *Cysts of the oral regions*. Bristol: Wright PSG; 1983.
- Yoshiura K, Tabata O, Miwa K, Tanaka T, Shimizu M, Higuchi Y, et al. Computed tomographic features of calcifying odontogenic cysts. *Dentomaxillofac Radiol* 1998; 27 : 12-6.
- Neville B, Damm D, Allen C, Bouquet J. *Oral and Maxillofacial Pathology*. 1st ed. Philadelphia: WB Saunders; 1995.
- Devlin H, Horner K. The radiological features of calcifying odontogenic cyst. *Br J Radiol* 1993; 66 : 403-7.
- Buchner A, Merrell PW, Hansen LS, Leider AS. Peripheral (extraosseous) calcifying odontogenic cyst. A review of forty-five cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72 : 65-70.