

개화성 백악질-골 이형성증: 증례보고

김남균¹ · 김현실² · 김진² · 남웅¹ · 차인호¹ · 김형준¹

연세대학교 치과대학 ¹구강악안면외과학교실, ²구강병리학교실 구강종양연구소

Abstract (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011;37:515-9)

Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases

Nam-Kyun Kim¹, Hyun-Sil Kim², Jin Kim², Woong Nam¹, In-Ho Cha¹, Hyung-Jun Kim¹

Departments of ¹Oral and Maxillofacial Surgery, ²Oral Pathology, Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University, Seoul, Korea

Cemento-osseous dysplasia occurs in the tooth bearing areas of the jaws and is probably the most common fibro-osseous manifestation. They are usually classified into three main groups according to their extent and radiographic appearance: periapical (surrounds the periapical region of teeth and are bilateral), focal (single lesion) and florid (scleroticsymmetrical masses) cemental-osseous dysplasias. Florid cemento-osseous dysplasia clearly appears to be a form of bone and cemental dysplasia that is limited to the jaws. Patients do not have laboratory or radiologic evidence of bone disease in other parts of the skeleton. For asymptomatic patients, the best management consists of regular recall examinations with prophylaxis and the reinforcement of good home hygiene care to control periodontal disease and prevent tooth loss. The treatment of symptomatic patients is more difficult. At this stage, there is an inflammatory component caused by the disease and the process is basically a chronic osteomyelitis involving dysplastic bone and cementum. Antibiotics might be suggested, but are not always effective. Two cases of florid cemento-osseous dysplasia diagnosed in two Korean females are reported with a review of the relevant literature.

Key words: Cemento-osseous dysplasia, Periapical cemental dysplasia, Focal cemento-osseous dysplasia, Florid cemento-osseous dysplasia
[paper submitted 2011. 6. 24 / revised 2011. 8. 30 / accepted 2011. 10. 12]

I. 서 론

백악질-골 이형성증(cement-osseous dysplasia, COD)은 치아를 포함하는 악골의 구성요소로부터 기원하는 가장 흔한 섬유골성 병소이다. 이 질환은 그 양상과 방사선학적 특징으로 크게 3가지 그룹으로 분류된다. 치근단(periapical cemento-osseous dysplasia, PCD), 국소적(focal cement-osseous dysplasia, FCD), 그리고 개화성(flорid cement-osseous dysplasia, FCOD) 백악골 이형성증이 그것이다.

이중 FCOD는 COD의 한 형태로 악골에 국한되어 나타나게 되며, PCD나 FCD보다 더 광범위하게 나타나는 형태로서 중년의 흑인 여성에서 가장 흔하게 나타나며 가족 성향을 보이기도 한다. 보통 외적인 증후나 증상은 없으나 병

소가 감염된 경우 통증이나 불편감을 유발하기도 한다. 이에 본 저자는 FCOD를 치료하면서 다소간의 지견을 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증례보고

1. 증례 1

39세의 여자 환자가 상악 우측과 하악 양측으로 방사선 불투과성 골내병소가 존재한다는 주소로 개인병원에서 의뢰되었다. 환자는 특이할 만한 병력이 없었으며, 상기 부위의 감염 및 수술 병력도 없었다. 초진 내원 시 환자의 안면에 부종이나 종창과 감염 소견은 관찰되지 않았다. 양측 하악골 및 우측 상악골의 촉진 시 통증은 존재하지 않았고, #37, #38 및 #46, #47의 타진 시 통증 및 동요도가 관찰되지 않았다.

방사선 검사 상에서 #37-#38, #46-#47, 우측 상악골의 방사선 불투과성 골내병소가 관찰되었다. #38 치근단 부위의 방사선 투과성 병소는 치근단 육아종, 치근단 낭종과 감별이 필요하다고 판단되었다. #46-#47 부위는 방사선 불투과

김형준

120-752 서울시 서대문구 성산로 250
연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실 구강종양연구소

Hyung-Jun Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University
250, Sungsan-no, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
TEL: +82-2-2228-3132 FAX: +82-2-364-0992
E-mail: kimoms@yuhs.ac

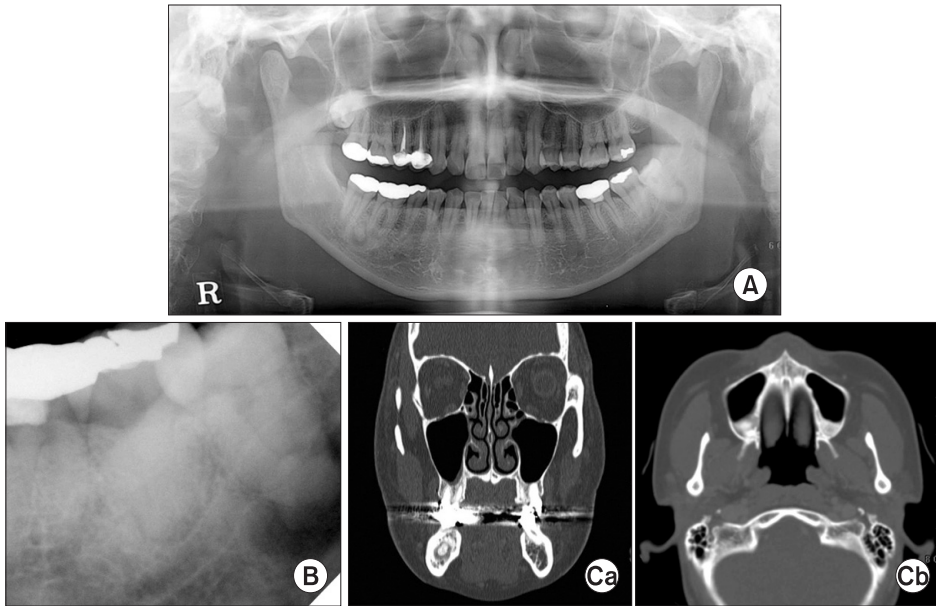


Fig. 1. Pre-operation. Panoramic (A), peri-apical view (B), computer tomography findings (Ca, Cb) demonstrated multiple radiopaque/radiolucent admixed lesions on maxilla and mandible.
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

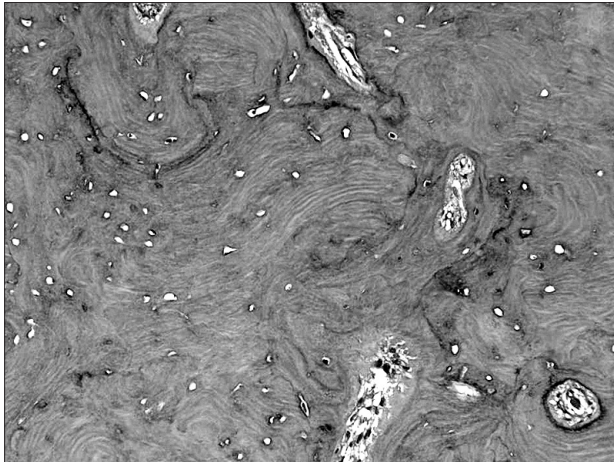


Fig. 2. Microscopic features showed dense immature bony tissue with concentric calcification (H & E staining, x100).
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

성 병소를 둘러싼 방사선 투과성 경계가 관찰되었고, 우측 상악골에서 방사선 투과성 병소와 불투과성 병소가 혼재되어 있는 양상을 보였다.(Fig. 1)

이러한 임상 및 방사선 소견상 FCOD로 잠정 진단하였다. 국소마취 하에 수평으로 완전 매복되어 있는 #18 치아를 발치 후, 발치와 하방에서 절제생검을 시행하였으며 #38 치아 발치 후 치근단 병소를 제거하였다. 증상이 없는 하악 우측의 병소는 주기적으로 경과를 관찰하기로 하였다. 조직검사에서 무세포성의 백악질양 석회화 구조물과 미성숙 골조직이 혼재되어 있는 양상이 관찰되어 FCOD로 확진하였다.(Fig. 2) 술 후 환자는 1년 주기로 추적 관찰 중이며 술 후 4년 6개월이 지난 현재까지 재발은 관찰되지 않았다.(Fig. 3)



Fig. 3. Post-operation. Panoramic view (2 months) showed good healing state.
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

2. 증례 2

39세 여자 환자가 악골 전반에 방사선 투과성 병소와 불투과성 병소가 혼재되어 관찰된다는 주소로 개인병원에서 의뢰되었다. 환자는 특이할 만한 내과적 병력이 없었고 안면에 부종, 종창과 감염 소견은 관찰되지 않았다. #35, #36는 동요도는 없었고, 타진 시 약간의 통증이 존재하였다. #45의 생활력은 없었으며, #46는 치아 동요도와 타진시 통증이 관찰되었다.

방사선 사진 상 대다수 치아의 치근단에 방사선 투과성 병소와 방사선 불투과성 병소가 혼재되어 있는 양상을 관찰할 수 있었고, 하악 좌 우측 치근단 및 상악 우측에서는 협설측 피질골 흡수 양상이 관찰되어 치근단 병소와의 감별이 필요하였다.(Fig. 4)

이러한 임상 및 방사선 소견상, #45 치아는 치근단 병소를 동반한 FCOD로 잠정 진단하였다. 수술 전 #45 치아는

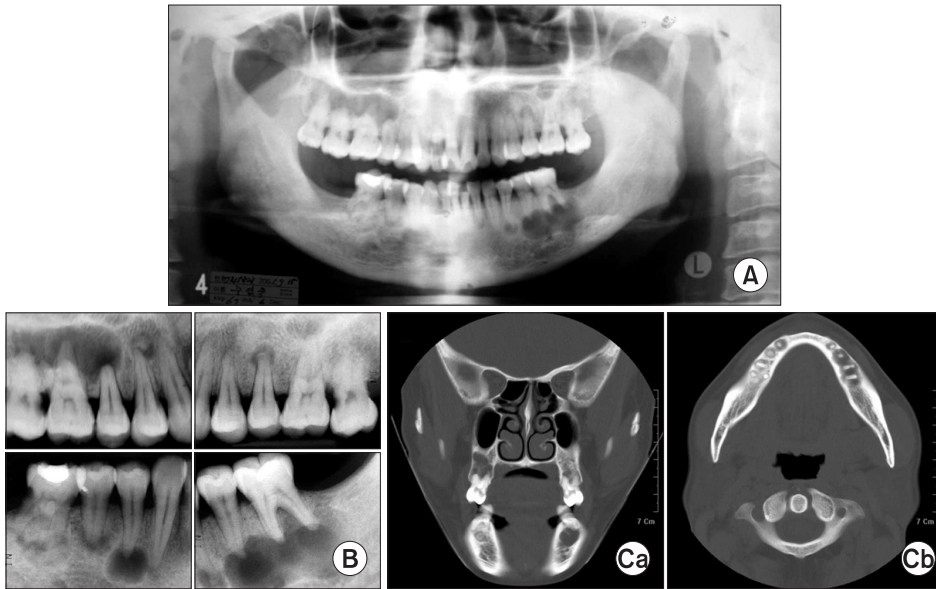


Fig. 4. Pre-operation. Panoramic (A), periapical view (B), computer tomography findings (Ca, Cb) demonstrated multiple radiopaque/radiolucent admixed lesion on maxilla and mandible.
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

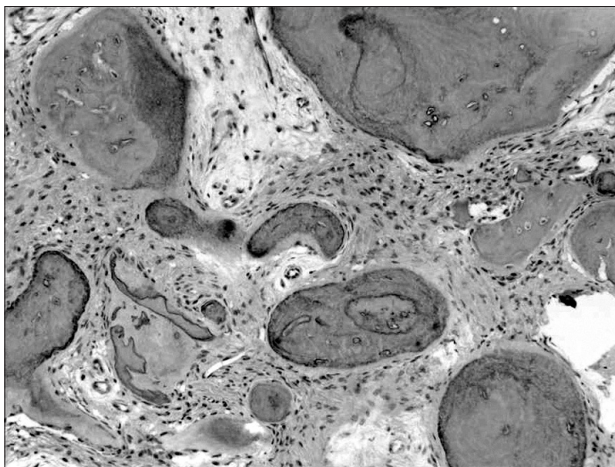


Fig. 5. Microscopic features showed spherical and irregular calcified structures (H & E staining, x100).
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

신경치료를 시행하고 전신마취 하에서 상 하악 좌우측 종물 부위의 적출, #45 치근단 절제술 및 #46 발거술을 시행하였으며, 병소는 조직검사를 시행하였다.

조직검사 상 무세포성의 백악질양 석회화 구조물과 미성숙 골조직이 혼재되어 있는 양상이 관찰되어 FCOD로 확진하였다.(Fig. 5) 술 후 8년이 경과한 현재까지 매 6개월마다 경과 관찰 중에 있으며, 하악골 우측의 병소는 통증은 없으나 방사성 투과성이 증가한 양상을 보이고 있고, 악골의 나머지 부분은 방사선 투과성의 증가 없이 양호한 상태가 관찰된다.(Fig. 6)

III. 고 찰

World Health Organization에서는¹ 1992년 환자 나이, 성



Fig. 6. Post-operation. Panoramic view (4 years) showed radiopaque/radiolucent admixed lesion still remained on maxilla and mandible.
Nam-Kyun Kim et al: Florid cemento-osseous dysplasia: a report of two cases. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

별, 조직학적 소견, 방사선학적 소견, 임상적 특징, 병소의 위치 등을 고려하여 cementomatous lesion을 분류하였으며, 여기에 benign cementoblastoma, cement-ossifying fibroma, 그리고 COD가 포함된다. COD는 그 양상에 따라서 PCD, FCD, FCOD로 세분될 수 있다.

COD의 발생원인은 정확히 알 수 없으나 Kawai 등²은 COD의 발생 원인을 골개조에 영향을 주는 호르몬의 불균형에 의해 발생하는 골의 이형성으로 추측하였다. Thoma³에 따르면 COD는 osteolytic stage, cementoblastic stage, mature inactive stage의 세 단계를 거쳐 성숙된다고 설명하였다. 초기 osteolytic stage는 병소의 미성숙한 상태로 골조직이 침착되지 않은 결합조직으로 구성되어 있으며, 이 시기의 골조직은 흡수되어 방사선 사진상 투과상을 보인다. 2번째 단계인 cementoblastic stage는 cementoblast가 cementum을 형성하는 시기이다. Cementum이 침착되면 점차 방사선 불투과성을 보이게 되고 이 시기에 결합조직은 여전히 남아 있어 불규칙한 형태의 방사선 투과상과 불투

과상이 혼재되게 된다. 마지막으로 mature inactive stage에서는, 골조직은 방사선 불투과상이 명확해지고 결절상도 관찰되며 아주 적게 남아있는 결합조직은 골조직을 얇게 감싸고 있는 상으로 관찰된다.

백악-골 이형성증(COD)은 임상증상 및 방사선학적 periapical lesion, chronic diffuse sclerosing osteomyelitis, Gardner's syndrome, fibrous dysplasia, Paget disease와 감별 진단이 필요하다. Periapical lesion은 치관부에 치아우식증과 동반되어 치아의 생활력이 소실되는 경우가 많으며 협설측 치은에 농루를 형성하기도 한다. 백악-골 이형성증에 연관된 치아는 일반적으로 치수생활력을 가지고 있으며, 증상이 없는 경우가 대부분이다⁴. 2번째 증례의 #45 치아의 경우 치아우식증이 관찰되지 않았으나, 치수생활력이 없는 상태로 신경치료를 시행하였다. Chronic diffuse sclerosing osteomyelitis는 이전에 감염이나 골수염 등의 기왕력이 있는 상태에서 나타나는 해면골의 감염증상으로, 편악에 나타나며 연조직의 종창과 통증 열감 및 경부입파선염 등의 병력이 존재하였고, 치아가 존재하지 않는 부위까지 확대되기도 한다⁵. 이에 반해, 위의 두 증례와 같이 백악-골 병소는 구강 내로 노출되지 않는 한 임상증상이 나타나지 않으며 치아가 있는 악골에서 나타나고, 보통 양측 악골을 포함하며 주로 여성에서 호발하는 경향을 보인다.

PCD는 cementoma로도 알려져 있으며 COD 중 가장 흔한 병소로 대개 하악전치부에 국한되어 나타나고 간혹 simple bone cyst로 혼돈되기도 한다⁶. 일반적인 경우 병소에 이환된 치아는 치수 생활력이 있으며 통증이나 협설측 피질골의 팽창은 관찰되지 않지만, 치수 감염이나 발치 시 골수염으로 진행될 가능성이 있어 주기적인 방사선학적 검사가 필요하다.

FCD는 40대와 50대에 발생하며 Summerlin 등⁷에 따르면 주로 여성의(88%) 하악에서(77%) 호발하며 증상이 없는 경우 특별한 치료가 필요치 않지만, FCD의 FCOD로 변형될 가능성이 있기 때문에 주기적인 경과관찰이 필요하며, ossifying fibroma와 감별이 필요하다.

FCOD는 PCD가 상하악에 광범위하게 나타나는 형태로 가족성향을 보이기도 한다^{8,9}. FCOD는 악골 내 방사선 불투과성 덩어리가 불규칙하게 채워져 있어 cotton-wool appearance를 보이는 특징적인 질환으로 일반적인 경우 증상이 없어 특히 치과 치료 중 방사선 사진에서 우연히 발견되는데 위 두 증례 또한 치과치료 도중 우연히 발견되어 본 과로 의뢰되었다. 2번째 증례에서 #45 치아는 치수생활력이 없는 치수괴사의 상태로 확인되었으며, #46 치아는 1도의 치아동요도 및 타진 시의 통증을 보였고 병소 주변에 방사성 불투과성 석회화 병소가 혼재되어 있었다. 조직학적으로 악골 내 균질적이고 밀도 높은 석회화 덩어리는 혈관 분포가 부족하고 따라서 감염에 취약하다고 보고되고 있기 때문에^{10,11} 병소로의 감염 이환을 조절하기 위해 #45 치아

의 근관 치료 후 치근단 절제술과 #46 치아의 발거 및 치근단 병소의 절제술을 동시에 시행하였다.

FCOD는 악골 변화를 일으키는 측면에서 Gardner's syndrome과 유사하지만⁹, 다른 골내 병소나 피부종양과 치아의 이상을 일으키지 않는다. Fibrous dysplasia는 주로 10대에 호발하며 사춘기를 지나면서 성장을 멈추는 경향이 있고 방사선 사진에서 크기가 작은 구형의 간유리상 혹은 오렌지 껍질 모양이 특징적으로 관찰된다. Fibrous dysplasia는 정상 골조직과의 경계가 대부분 불명확하게 나타나지만 본 증례와 같이 FCOD는 정상 골조직과의 경계가 명확하게 나타난다^{5,12,13}. Paget disease는 백인 남성에서 하악보다 상악에 호발하며 FCOD보다 광범위하게 증상이 없는 다발성 질환이기 때문에 척추, 장골, 흉골, 치골 및 두개골로 이환되기도 하는데¹⁴, 감별진단을 위해 두부 방사선사진과 알칼리성 인산효소농도를 측정하기 위한 혈액검사 등이 필요하다⁴.

FCOD는 골이 구형의 백악질양 무세포 구조와 미성숙된 골질들이 다양한 정도의 석회화 정도를 보이는 결합조직으로 대체되는 질환으로 환자의 자각증상이 없이 무통성으로 진행되기 때문에 다른 구강 내 처치 시 우연적으로 발견되는 경우가 대부분이다. 감염 증상이 없는 경우 외과적 처치 없이 경과관찰이 필요하지만, 병소가 크고 증상이 나타나는 경우 광범위한 외과적 절제술이 필요하다. 그러나, FCOD는 발치 등의 외과적 수술 후 창상치유에 약점이 있고, 감염으로 인한 합병증으로 골수염이 진행된 경우에는 그 양상이 매우 심각한데, 이는 백악질 유사 물질이 염증병소 내에서 세균 감염을 증가시키기 때문이라는 증거가 있다¹⁵. 따라서, FCOD 환자는 특히 발치, 치근단 병소에 대한 처치 및 인공치아 식립술 등 다양한 구강 내 시술 시 각별한 주의를 요한다.

References

1. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histologic typing of odontogenic tumors. WHO international Classification of Tumors. 2nd ed. Berlin: Springer-Verlag; 1992:29
2. Kawai T, Hiranuma H, Kishino M, Jikko A, Sakuda M. Cemento-osseous dysplasia of the jaws in 54 Japanese patients: A radiographic study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999;87:107-14.
3. Thoma KH. Cementoblastoma. Int J Orthod Oral Surg 1937;23: 1127-37.
4. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral & Maxillofacial Pathology. 2nd ed. Philadelphia: WB Saunders Co.; 1995:449-51.
5. Singer SR, Mupparapu M, Rinaggio J. Florid cemento-osseous dysplasia and chronic diffuse osteomyelitis: Report of a simultaneous presentation and review of the literature. J Am Dent Assoc 2005;136:927-31.
6. Higuchi Y, Nakamura N, Tashiro H. Clinicopathologic study of cemento-osseous dysplasia producing cysts of the mandible: report of four cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1988;65:339-42.
7. Summerlin DJ, Tomich CE. Focal cemento osseous dysplasia: a clinicopathologic study of 221 cases. Oral Surg Oral Med Oral

- Pathol 1994;78:611-20.
8. Toffanin A, Benetti R, Manconi R. Familial florid cemento-osseous dysplasia: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2000;58:1440-6.
 9. Wolf J, Hietanen J, Sane J. Florid cemento-osseous dysplasia (gigantiform cementoma) in a Caucasian woman. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1989;27:46-52.
 10. Coleman H, Altini M, Kieser J, Nissenbaum M. Familial florid cemento-osseous dysplasia: a case report and review of the literature. *J Dent Assoc S Afr* 1996;51:766-70.
 11. Gonçalves M, Pispico R, Alves Fde A, Lugão CE, Gonçalves A. Clinical, radiographic, biochemical and histological findings of florid cemento-osseous dysplasia and report of a case. *Braz Dent J* 2005;16:247-50.
 12. Groot RH, van Merkesteyn JP, Bras J. Diffuse sclerosing osteomyelitis and florid osseous dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;81:333-42.
 13. Johannsen A. Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible: radiographic differential diagnosis from fibrous dysplasia. *Acta Radiol Diagn (Stockh)* 1977;18:360-8.
 14. White SC, Pharoah MJ. *Oral Radiology-Principles and Interpretation*. St. Louis: Mosby; 2000:439-48.
 15. Lee SK, Krebsbach PH, Matsuki Y, Nanci A, Yamada KM, Yamada Y. Ameloblastin expression in rat incisors and human tooth germs. *Int J Dev Biol* 1996;40:1141-50.