



낭종적출술 후 발생한 원인 모를 국소적 지방이영양증: 증례보고

이바다 · 나혜영 · 김남규 · 김형준

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Abstract

Idiopathic Localized Lipodystrophy of Subcutaneous Fat after Cyst Enucleation of Jaw: Report of 3 Cases

Bada Lee, Hye-Young Na, Nam-Kyoo Kim, Hyung Jun Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry

Lipodystrophy is a disorder characterized by the loss of subcutaneous adipose tissue which is inherited or heterogeneously acquired. We report 3 uncommon cases of localized lipodystrophy on face which distinguished 1 year after cyst enucleation of mandibular posterior area.

Key words: Lipodystrophy, Cysts, Enucleation, Atrophy, Fat

서론

지방이영양증(lipodystrophy)은 지방세포의 전체적, 부분적 감소를 보이는 질환으로 유전적, 획득적 원인에 의해 발생하게 된다. 지방세포의 비정상적 감소는 대사 장애로 인한 것으로 생각하며 임상적으로는 당뇨, 고지혈증, 진행성 간병변, 대사율 증가 등의 합병증을 갖는 인슐린 저항성 환자에서 자주 나타난다. 지방이영양증을 크게 분류하면 획득형, 유전형으로 나눌 수 있으며 획득형은 후천성 면역결핍 연관(lipodystrophy in human immunodeficiency virus [HIV]-infected patients), 부분적(acquired partial lipodystrophy), 전신적(acquired generalized lipodys-

trophy), 국소적 지방이영양증(localized lipodystrophy)으로 나눌 수 있다[1].

국소적 지방이영양증은 작은 부위의 피하지방 감소로 인해 움푹 들어간 반흔을 남기게 되며 원인으로는 인슐린, 코르티코스테로이드 등의 국소주사제, 지속적으로 가한 압력, 지방층염(panniculitis), 국소적 면역 변화 등이 있다[2].

하악 구치부 낭종적출술을 시행한 3명의 환자에서 술 후 약 1년 경과관찰 시 안면 부위의 국소적 지방이영양증이 눈에 띄게 관찰되어 이를 보고하고자 한다.

원고 접수일 2012년 4월 10일, 원고 수정일 2012년 4월 23일,
게재 확정일 2012년 5월 4일

책임저자 김형준
(120-752) 서울시 서대문구 연세로 50, 연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
Tel: 02-2228-3132, Fax: 02-2227-8022, E-mail: kimoms@yuhs.ac

RECEIVED April 10, 2012, REVISED April 23, 2012,
ACCEPTED May 4, 2012

Correspondence to Hyung Jun Kim
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry
50, Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
Tel: 82-2-2228-3132, Fax: 82-2-2227-8022, E-mail: kimoms@yuhs.ac

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례보고

1. 증례 1

49세 남자 환자가 개인치과에서 좌측 하악 구치 부위의 낭종에 관한 설명을 듣고 2009년 4월 7일 본과에 내원하였다. 임상 및 파노라마 방사선사진, 컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT) 검사 결과 좌측 하악 제3대구치가 완전 매복되어 있었으며 좌측 하악 제2대구치 치근단과 좌측 하악 제3대구치 치관에 걸쳐 낭성 병소가 관찰되어 합치성 낭종으로 가진하에 2009년 5월 8일 전신마취하에 낭종적출술을 시행하였으며 병리 검사 결과 합치성 낭종으로 확진 받았다(Fig. 1). 술 후 약 1개월, 3개월, 6개월, 1년 경과 관찰을 하였으며 특기할만한 이상 소견은 관찰되지 않았다. 2010년 8월 18일(술 후 약 1년 3개월 경과) 내원하여 왼쪽 안면부가 함몰된 것 같다는 호소를 하였으며 2~3개월 전부터 인지했다고 하였다. 임상검사 결과 좌측 관골 부위의 함몰이 관찰되었으며 enhanced CT 촬영 결과 좌측 관골 부위 피하지방의 국소적 지방이영양증이 관찰되었다(Fig. 2).

2. 증례 2

35세 여자 환자가 개인치과에서 좌측 하악 구치 부위의 낭종에 관한 설명을 듣고 2008년 10월 8일 본과에 내원하였다. 이 환자는 특별한 전신질환이 없었으며 본원에서 2002년 2월 19일 좌측 하악 제1대구치에서 제3대구치까지 광범위한 낭성 병소를 전신마취하에 적출술을 시행하였으며 조직검사 결과 치성 각화 낭종으로 확진 받은 과거력이 있었다. 임상 및 파노라마 방사선사진, 컴퓨터 단층촬영검사 결과 좌측 하악 제1대구치 및 제2대구치 치근단 부위에서 낭성병소가 관찰되어 재발된 치성 각화 낭종으로 가진하에 2008년 11월 14일 전신마취하에 낭종적출술을 시행하였으며 병리검사 결과 치성 각화 낭종으로 확진 받았다(Fig. 3). 술 후 약 1개월, 3개월, 6개월, 1년 경과 관찰을 하였으며 특기할만한 이상 소견은 관찰되지 않았다. 2010년 5월 19일(술 후 약 1년

6개월)에 시행한 임상검사에서 좌측 협부의 함몰이 관찰되었으며 환자는 2010년 2월경(술 후 약 1년 3개월 경과)부터 함몰된 것을 인지했다고 하였다. Enhanced CT 촬영 결과 좌측 협부 피하지방의 국소적 지방이영양증이 관찰되었다(Fig. 4).

3. 증례 3

27세 여자 환자가 개인치과에서 하악 구치 부위의 낭종에 관한 설명을 듣고 2010년 7월 28일 본과에 내원하였다. 환자는 특별한 전신질환이 없었으며 임상검사 및 파노라마 방사선사진, CT에 우측 하악 제2대구치 후방 부위에 낭성 병소가 관찰되었으며 부종, 동통 등의 특기할만한 소견은 없었다(Fig. 5). 치성 각화 낭종 가진하에 2010년 8월 20일 전신마취하에 낭종적출술을 시행 하였다. 조직검사 결과 치성 각화 낭종으로 확진되었고 술 후 1개월, 3개월, 6개월에 경과 관찰을 하였으며 특기할만한 소견 없이 양호한 경과를 보였다. 2011년 5월 26일(술 후 약 8개월



Fig. 2. Enhanced computed tomography view 15 months after cyst enucleation. Subcutaneous lipodystrophy is seen left zygoma area (arrow).



Fig. 1. Initial panorama view. Cystic lesion is observed at #37 apex and #38 crown.



Fig. 3. Initial panorama view. Cystic lesion is observed at #36, 37 apex.

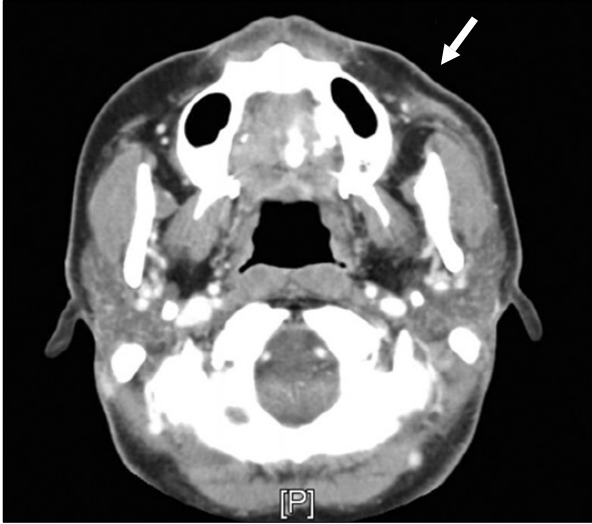


Fig. 4. Enhanced computed tomography view 12 months after cyst enucleation. Subcutaneous lipodystrophy is seen left maxilla area (arrow).



Fig. 6. Clinical photo 19 months after cyst enucleation. Right buccal cheek is depressed (arrow).



Fig. 5. Initial panorama view. Cystic lesion is observed at #47 distal, right mandible ascending ramus area.

3주 경과) 내원하였을 때 약 한달 반 전부터 오른쪽 볼이 꺼진 듯한 느낌이 든다고 호소하였으며 임상검사 결과 수술 부위는 양호한 양상을 보였으나 우측 협부의 함몰이 관찰되었다. CT 촬영하여 추가적인 평가를 권유하였으나 임신중이어서 출산 후 재평가하기로 하였다. 2012년 3월 15일(술 후 약 1년 7개월 경과) 내원하였을 때 우측 협부의 함몰이 더욱 증가한 소견을 보였으나 수술 부위는 임상, 방사선검사상 특별한 문제가 없었다(Fig. 6).

고 찰

지방이영양증(Lipodystrophy)은 매우 드물게 발생하며 그 원인 또한 아직 완전히 밝혀지지 않았다. 1885년 Mitchell[3]에 의해 처음 보고되었으며 1907년 Barraquer[4], 1911년 Simons[5]에 의해서 추가로 보고되었다. 2004년 Garg[1]는 지방이영양증을 획득형(acquired), 유전형(inherited)으로 분류하고 각각의 소분

류와 이에 대한 임상 양상, 병인, 치료법을 보고하였다. 획득형(acquired) 지방이영양증이 유전형 지방이영양증에 비해 발생 빈도가 높으며 획득형 중 가장 발생 빈도가 높은 것은 후천성면역결핍 환자와 연관된 지방이영양증(lipodystrophy in patients with HIV infection)이다. Protease inhibitors가 포함된 highly active antiretroviral therapy를 시행하는 환자의 40%에서 후천성면역결핍 환자와 연관된 지방이영양증이 나타나며 임상적인 특징은 안면, 팔, 다리의 피하지방 감소, 경부, 복부의 피하지방 축적이다. Protease inhibitors가 adipocyte의 분화를 막아 adipocytes의 apoptosis가 일어나거나 adipogenesis의 transcription factor의 dysregulation을 야기하여 이러한 증상이 나타나는 것으로 여겨진다[6].

Acquired partial lipodystrophy는 HIV 환자와 연관된 지방이영양증이 밝혀지기 전까지 가장 많은 비율을 차지했다. The barraquer-simons syndrome으로도 불리는 이 질환은 자가면역력에 의하여 adipose tissue가 감소하고 혈청검사상 serum C3 level의 감소를 보이는 것이 특징이다. 임상 양상은 안면, 경부, 팔, 몸통의 피하지방 감소를 보이는 것이다.

국소적 지방이영양증은 작은 부위의 피하지방 감소로 인해 움푹 들어간 반흔을 남기게 되는 것으로 증례 1, 2, 3의 환자들 모두 하악 구치부의 낭종적출술을 시행한 후 약 1년 뒤 수술 부위 주변의 관골, 협부의 국소적인 함몰이 발생하였으며 증례 1, 2의 환자는 증상 발생 후 enhanced CT를 촬영하여 관골, 협부 함몰의 원인이 피하지방의 감소임을 확인할 수 있었기에 통해 국소적 지방이영양증으로 진단할 수 있었다.

지방이영양증의 미용적 치료법은 자가 지방 이식법, 실리콘(silicone) 또는 다른 보형물을 사용하여 지방 세포를 대체하는 방법, 피관을 사용한 안면부 재건(surgical facial reconstruction)

등이 있다. 치료 방법의 선택은 지방이영양증의 정도에 따라 선택 될 수 있다.

James 등은 안면부의 지방이영양증(lipodystrophy)을 정도에 따라 4단계로 분류하였는데, 1단계는 경증의 국소적 안면부의 지방이영양증으로 거의 정상과 같음, 2단계는 안면 근육(특히 대협골근(zygomaticus major)을 포함한 깊고 긴 중앙 협부의 위축이 있어 함몰이 보이기 시작함, 3단계는 더 깊고 넓은 근육의 위축으로 인한 명확한 함몰, 4단계는 안구를 포함한 위축이 있는 경우이다. 이들 중 지방 이식, 피판을 이용한 재건 등의 수술적인 치료를 요하는 환자는 대부분 3, 4단계의 환자들이다. 본 세 증례의 환자들은 위 분류에 따르면 1, 2단계의 중간 정도로 볼 수 있으며 저자 등이 필러를 이용한 함몰부 회복법을 환자에게 제시하였으나 정도가 심하지 않다는 이유로 세 환자 모두 거부하였다.

후천성면역결핍 환자와 연관된 지방이영양증(lipodystrophy in patients with HIV infection) 환자의 수가 증가함에 따라 지방이영양증의 치료법은 계속해서 발전하고 있다. Moyle 등⁸⁾은 poly-L-lactic acid 주사를 통하여 안면부 지방이영양증의 장기적인 치료 효과를 보고하였고 Eugenia 등은 자가 지방 이식법, polylactic acid 주사법, polyacrylamide gel 주사법을 비교한 연구에서 48주 이상의 경과 관찰결과 세 그룹 모두 만족할만한 치료 효과가 나타났다고 보고하였다⁹⁾.

Karel 등은 두 개의 측두근을 사용한 partial lipodystrophy의 안면 외형을 재건법을 보고하였으며¹⁰⁾, Koshy와 Evans¹¹⁾는 전완 요골 유리 지방근막 피판(free radial forearm adipofascial flaps)을 사용한 국소적 지방이영양증의 재건법을 보고하였다.

저자 등은 위의 세 증례를 종합해 보았을 때 두 가지 특기할만한 점을 발견할 수 있었다. 첫째는 세 환자 모두 수술 부위와 지방이영양증이 발생한 부위가 인접한 위치는 아니지만 낭종이 존재했던 동측 협부에서 발생한 것이다. 세 증례 모두 하악 제2대구치 후방으로 절개를 가한 후 점막, 골막 박리를 시행 후 낭종적출을 시행하였으며 수술 시 관골, 협부는 박리하지 않았으며 해당 부위 지방층의 노출 소견도 없었다. 하지만 술 후 약 1년 후 지방이영양증이 발생한 부위는 모두 상악동 전벽 부위의 협부 피하지방층이었다. 둘째는 증상의 발현이 낭종적출술 후 약 1년 뒤라는 점이다. 수술 technique에 의하여 지방층이 노출되거나 제거되었을 경우 수술 직후 함몰이 나타났을 것이나 본 세 증례의 환자들 모두 수술 직후, 술 후 약 6개월까지의 경과관찰 시 특기할만한 이상이

없었고 술 후 약 1년 경과 시 안면부의 함몰 양상이 두드러지게 나타났다.

문헌에 보고된 국소적 지방이영양증의 원인과 본 증례들과의 상관관계를 밝혀낼 수는 없었으나 임상 소견 및 enhanced CT상 피하지방층의 지방이영양증을 명확히 관찰할 수 있어 본 증례들을 국소적 지방이영양증으로 진단하였으며, 아직까지 낭종적출술 후 국소적 지방이영양증의 발생에 관하여 문헌에 보고된 적이 없었기에 향후 낭종적출술 같은 수술이 동측 협부의 국소적 지방이영양증을 유발하는지에 대한 상관관계를 연구할 필요성이 있을 것으로 생각하여 본 증례를 보고한다.

References

- Garg A. Acquired and inherited lipodystrophies. *N Engl J Med* 2004;350:1220-34.
- Garg A. Lipodystrophies. *Am J Med* 2000;108:143-52.
- Mitchell SW. Singular case of absence of adipose matter in the upper half of the body. *Am J Med Sci* 1885;90:105-6.
- Barraquer L. Histoire clinique d'un cas d'atrophie du tissu celluloadipeux. *Neurolog Zentralblatt* 1907;26:1072.
- Simons A. Eine seltene Trophoneurose ("Lipodystrophia progressiva"). *Zeitschrift für die gesamte Neurologie und Psychiatrie* 1911;5:29-38.
- Carr A, Samaras K, Burton S, *et al*. A syndrome of peripheral lipodystrophy, hyperlipidaemia and insulin resistance in patients receiving HIV protease inhibitors. *AIDS* 1998;12:F51-8.
- Rowshan HH, Hart K, Arnold JP, *et al*. Treatment of human immunodeficiency virus-associated facial lipodystrophy syndrome with dermofat graft transfer to the nasolabial fold areas: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2008;66:1932-8.
- Moyle GJ, Brown S, Lysakova L, Barton SE. Long-term safety and efficacy of poly-L-lactic acid in the treatment of HIV-related facial lipoatrophy. *HIV Med* 2006;7:181-5.
- Negredo E, Higuera C, Adell X, *et al*. Reconstructive treatment for antiretroviral-associated facial lipoatrophy: a prospective study comparing autologous fat and synthetic substances. *AIDS Patient Care STDS* 2006;20:829-37.
- van der Wal KG, Mulder JW. Facial contour reconstruction in partial lipodystrophy using two temporalis muscle flaps. A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1998;27:14-6.
- Koshy CE, Evans J. Facial contour reconstruction in localised lipodystrophy using free radial forearm adipofascial flaps. *Br J Plast Surg* 1998;51:499-502.