

하악에 발생된 석회화 치성낭종

경북대학교 치과대학 치과방사선학 교실

안상희·최갑식

목 차

- I. 서 론
 - II. 증례
 - III. 고찰
 - IV. 결 론
- 참고문헌
영문초록
사진부도

I. 서 론

구강내에 드물게 발생되는 석회화 치성낭종(calcifying odontogenic cyst)은 진주종이나 법랑모세포종의 변종 또는 치아종의 한 유형 등으로 여겨져 왔으나, Gorlin 등¹⁾에 의해 독립된 질병으로 분류되었고, WHO²⁾에서는 비종양성 낭종으로 이장상피는 원주세포와 여러종의 성상세망으로 구성되어 있고, 유령세포(ghost cell)가 출현하며 상피하방에 이형성 상아질(dysplastic dentin)을 형성하는 병소로 정의하였다.

한편 석회화 치성낭종은 낭종의 일반적인 양상을 가질 뿐만 아니라 종양의 특징도 나타낼 수 있으므로, calcifying ghost cell tumor³⁾, cystic calcifying odontogenic tumor⁴⁾ 등의 명칭을 사용하자는 의견이 있었으나, 석회화 가능성을 가진 치성낭종이란 점에서 석회화 치성낭종이란 명칭이 받아들여지고 있다⁵⁻⁷⁾.

이 병소는 10대에 가장 호발되고 성별차는 없

으며, 상·하악에서 비슷하게 나타나고 대부분 전치부에서 발생된다^{1,8,9)}. 대부분 중심성병소로 알려져 있으나 드물게 치은과 치조점막 등의 연조직에서 발생되기도 한다¹⁰⁻¹²⁾.

이에 저자들은 경북대학교병원 치과에 내원한 환자에서 임상·방사선학적 및 조직병리학적 검사를 통해 각각 낭종의 양상과 종양의 양상을 가진 석회화 치성낭종으로 확진된 두 증례를 경험하고, 희귀성을 고려하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례

증례 1

임상소견

환자는 16세의 남자로서 수개월전부터 지속된 하악 전치부의 둔통과 치아 전위를 주소로 내원하였고, 하악 전치부 순축에 단단한 종창이 촉진되었으며, 하악 좌측 측절치와 견치의 전위와 동요가 관찰되었다.

방사선학적 소견

파노라마 방사선사진상에서 하악 좌측 소구치부위에서 중앙선을 넘어 우측 견치부까지 이르는 낭종형태의 방사선투과상이 관찰되었고, 병소의 상부에 방사선불투과성 촛점이 관찰되었으며 병소의 변연은 과골성이었다(Fig. 1). 구내 표준형 방사선사진상에서 하악 좌측 견치와 측절

치의 심한 치근이개가 관찰되었으나 인접 치근들의 흡수상은 관찰되지 않았고, 절단형 교합 방사선사진상에서 협측 피질골의 심한 비박과 팽용 및 설측 피질골의 비박이 관찰되었다(Fig. 2, 3).

조직병리학적 소견

원주상피로 이루어진 낭종벽과 상부에 성상세망과 유사한 세포층이 관찰되었고, 이영양성 석회화된 유령세포들이 관찰되었으며 낭종강내로 법랑모세포섬의 증식도 관찰되었다(Fig. 4, 5).

치료 및 예후

치아의 발거와 함께 외과적 적출술이 시행되었으며, 술후 2년간 추적검사에서 재발의 소견은 없었다.

증례 2

임상소견

환자는 21세의 여자로서 하악 전치부의 종창을 주소로 내원하였고, 하악 전치부 순측 부위에 단단한 종창이 촉진되었으며, 2개월전 순측으로 절개와 배농을 시행한 병력이 있었다.

방사선학적 소견

파노라마 방사선사진상에서 하악 우측 전치부에 비교적 경계가 분명한 방사선투과상이 관찰되었고, 내부에는 다양한 크기의 방사선퐁투과성 촛점들이 산재된 양상이었다(Fig. 6). 구내 표준형 방사선사진상에서 인접한 치근의 이개가 관찰되었으며, 절단형 교합 방사선사진상에서 순측 피질골의 비박과 팽용 및 천공이 관찰되었다(Fig. 7, 8).

조직병리학적 소견

법랑모세포띠가 하방 결합조직내로 증식한 양상이었고, 유령세포와 이형성 상아질 및 석회화 물질이 관찰되었다(Fig. 9, 10).

치료 및 예후

환자의 거부로 치료를 시행하지 못하였다.

III. 고 칠

석회화 치성낭종은 1962년 Gorlin¹⁾에 의해 독립된 질병으로 분류되어 Gorlin낭종이라고도 불리며, 법랑모세포와 유사한 .기저세포층과 이형성상아질의 생성 그리고 치성조직과 인접한 부위에서 발생되는 것으로 보아, 퇴축 치성상피나 치성상피섬 또는 잔사로부터 유래된 치성기원병소로 간주된다^{1,5,6)}.

병소는 다양한 조직학적 양상을 가지므로 분류에 있어서 많은 논란이 있어 왔으나 1981년 Praetorius¹³⁾은 이를 낭종과 종양의 형태로 나누고 낭종의 형태는 다시 유령세포와 이형성 상아질이 나타나고 석회화 물질이 나타나지 않는 simple unicystic type(type 1A), 치아종과 연관되어 나타나는 unicystic odontome-producing type(type 1B), 그리고 법랑모세포종과 유사한 조직이 낭종강과 낭종벽으로 증식한 unicystic ameloblastomatous proliferating type(type 1C)으로 세분하였고, 종양의 형태는 별개의 질환으로 분리하여 dentinogenic ghost cell tumor(type 2)란 명칭을 제의하였다. 이후 Hong⁷⁾과 Buchner⁹⁾가 이에 근거한 유사한 분류를 제의하였으나 Shamaskin¹¹⁾은 대부분의 병소들이 여러 조직학적 양상을 공유하므로 이러한 분류에 따라 구분할 수 없다고 주장하였다.

임상적으로 이 질환은 10대와 20대에서 가장 호발되고 평균연령은 30세정도이나, odontome-producing type의 평균연령은 17세로 비교적 낮고, 종양의 형태를 갖는 경우에는 비교적 넓은 연령분포를 가진다^{5,6,8,9)}. 성별차는 없는 것으로 알려져 있고^{8,9,14)}, 상·하악에서 비슷한 발생률을 보이며 주로 제1대구치 전방부에서 호발된다^{4,5,9)}. 대부분 환자는 서서히 커지는 무통성 종창을 주소로 내원하고, 이차적으로 염증이 동반된 경우 통증을 수반하며 흡입시 점도가 높은 과립상의 노란 액체를 관찰할 수 있다^{4,5,8)}. 본 증례들의 경우 연령이 각각 16세와 21세로 본 질환의 호발연령 범주에 속하였고, 역시 호발부위인 전치부에서 각각 관찰되었으며, 이 병소의 일반적인 증상인 둔통과 종창을 호소하였다.

방사선학적으로는 경계가 분명한 단방성 방사

선투과상으로 나타나지만 간혹 다방성인 경우도 있으며, 내부에는 다양한 크기의 방사선불투과성 촛점들이 산재된 양상으로 나타난다^{4,5,8,15)}. 그러나 이러한 방사선불투과성 촛점들은 현미경적으로만 확인될 정도로 작아서 병소가 완전히 방사선투과상으로 나타나는 경우도 있고, 석회화가 많이 진행되어 방사선투과상이 병소의 대부분을 차지하기도 한다. 증례 2에서 비교적 많은 방사선투과성 촛점들이 산재한 양상으로 관찰되어 석회화정도가 심한 병소임을 알 수 있었다. 미맹출치 또는 치아종과 관련되어 나타나기도 하는데, 증례 1에서 방사선투과상의 상부에서 관찰되는 균일한 방사선투과상은 작은 치아종으로 의심되었으나 조직병리학적으로 확인할 수는 없었다. 또한 인접한 치근의 흡수와 전위가 나타나고, 피질골의 비박과 팽용이 나타나며 드물게 천공될 수도 있다. 본 증례들에서는 인접한 치근의 흡수는 관찰되지 않았으나 심한 치근의 전위와 피질골의 비박 및 팽용이 관찰되었으며, 특히 증례 2에서 관찰되는 순측 피질골의 천공은 2주전 절개와 배농때문으로 생각되었다.

방사선히학적으로 감별해야 할 병소로는 방사선투과상으로 나타나는 경우에는 합치성낭종 등이 있고, 방사선투과상과 불투과상의 혼합상일 경우에는 치성 선양종, 석회화 상피성 치성종양 등이 있다. 치성 선양종은 석회화 치성낭종에 비해 비교적 어린 나이에 발생되며, 상악전치부에서 미맹출치와 관련된 경우가 대부분이다. 또한 석회화 상피성 치성종양은 평균연령이 40세로 비교적 높은 연령에서 발생되고 호발부위도 하악 구치부로, 상·하악의 전치부에 호발되는 석회화 치성낭종과 감별된다.

조직병리학적으로는 낭종의 양상을 갖는 경우는 기저세포층이 법랑모세포와 유사한 입방상피 또는 원주상피로 이루어져 있고 상부로 올라가면서 성상세망과 유사한 상피의 배열이 나타나며, 특징적으로 유령세포와 이영양성 석회화가 나타난다^{1,6,7,13)}. 그러나 유령세포는 두개인두종, 법랑모 세포종 등에서도 나타나므로 유령세포가 입방세포나 원주세포와 그 상방에 성상세망과 유사한

세포로 기저세포가 구성된 피복상피에 존재할 때에 석회화 치성낭종으로 진단이 가능하다¹³⁾. 또한 이장상피는 인접 결합조직에서 치아 경조직 형성을 유도하여 복합 및 복잡 치아종과 연관되어 나타나기도 하는데^{1,13,16,17)} 증례 1에서 치아종으로 의심되는 균일한 방사선투과상이 병소의 상부에서 관찰되었다. 종양의 양상을 갖는 경우는 dentinogenic ghost cell tumor¹³⁾, epithelial odontogenic ghost cell tumor¹⁸⁾ 등으로 보고되었으며 법랑모상피띠 또는 법랑모상피섬들이 색상형으로 낭종강과 하방 결합조직으로 증식한 양상이 나타나고, 유령세포와 이영양성 상아질 또는 유골이 나타난다. 이 경우 유령세포가 약간 나타나고 법랑모상피띠 또는 법랑모상피섬이 나타나는 초기 법랑모세포종과 유사하나, 유령세포와 석회화가 석회화 치성낭종에 비해 부족하고, 외강측 증식이 있으므로 석회화 치성낭종과 구분된다¹⁹⁾.

치료는 외과적 적출술이고 드물지만 재발 또는 악성전이가 가능한 것으로 보고^{18,20-22)}되고 있으므로 주기적인 임상·방사선히학적 검진이 필요하다.

IV. 결 론

저자들은 하악전치부의 둔통과 종창, 치아전위를 주소로 내원한 16세 남자와 21세 여자환자에서 임상·방사선히학적 및 조직병리학적 검사를 통해 각각 낭종과 종양의 양상을 가지는 석회화 치성낭종으로 확진된 2증례를 경험하고 문헌고찰과 함께 보고한다.

REFERENCES

- Gorlin, R.J., Pindborg, J.J., Clausen, F.P. and Vickers, R.A.: The calcifying odontogenic cyst ; a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe—an analysis of fifteen cases, Oral Surg., 15:1235-1243, 1962.
- Kramer, I.R.H., Path, F.R.C., Pindborg, J.J. and Shear, M.: The WHO histological typing of odontogenic tumors, Cancer, 70:2988-2994, 1992.
- Fejerskov, O. and Krogh, J.: The calcifying ghost cell odontogenic tumor or the calcifying odonto-

- genic cyst, *J. Oral Pathology*, 1:273-287, 1972.
4. Freedman, P.D., Lumerman, H. and Gee, J.K.: Calcifying odontogenic cyst ; a review and analysis of seventy cases, *Oral Surg.*, 40:93-106, 1975.
 5. Goaz, P.W. and White, S.C.: *Oral radiology*, 2nd edition, pp. 502-503, 1982.
 6. Shafer, W.G., Hine, M.K. and Levy, B.M.: *A textbook of oral pathology*, 4th. edition, pp. 274-275, 1983.
 7. Hong, S.P., Ellis, G.L. and Hartman, K.S.: 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.*, 72:56-64, 1991.
 8. Nagao, T., Nakajima, T., Fukushima, M. and Ishiki, T.: Calcifying odontogenic cyst; a survey of 23 cases in the Japanese literature, *J. Maxillofac. Surg.*, 11:174-179, 1983.
 9. Buchner, A.: The central(intraosseous) calcifying odontogenic cyst ; an analysis of 215 cases, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 49:330-339, 1991.
 10. Swan, R.H., Houston, G.D. and Moore, S.P.: Peripheral calcifying odontogenic cyst(Gorlin cyst), *J. Periodontol.*, 56:340-342, 1985.
 11. Shamaskin, R.G., Svirsky, J.A. and Kaugars, G.E.: Intraosseous and extraosseous calcifying odontogenic cyst(Gorlin cyst), *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 47:562-565, 1989.
 12. Buchner, A., Merrell, P.W., Hansen, L.S. and Leider, A.S.: Peripheral(extraossous) calcifying odontogenic cyst, *Oral Surg.*, 72:65-70, 1991.
 13. Praetorius, F., Hjörting-Hansen, E., Gorlin, R.J. and Vickers, R.A.: Calcifying odontogenic cyst ; range, variations and neoplastic potential, *Acta Odontol. Scand.*, 39:227-240, 1981.
 14. Gorlin, R.J., Pindborg, J.J., Redman, R.S., Williamson, J.J. and Hansen, L.S.: The calcifying odontogenic cyst ; a new entity and possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe, *Cancer*, 17:723-729, 1964.
 15. Abrams, A.M. and Howell, F.V.: The calcifying odontogenic cyst ; report of four cases, *Oral pathology*, 25:594-606, 1968.
 16. Levy, B.A.: Ghost cells and odontomas, *Oral Surg.*, 36:851-855, 1973.
 17. Nagao, T., Nakajima, T., Fukushima, M. and Ishiki, T.: Calcifying odontogenic cyst with complex odontoma, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 40:810-813, 1982.
 18. Ellis, G.L. and Shmookler, B.M.: Aggressive(malignant?) epithelial odontogenic ghost cell tumor, *Oral Surg.*, 61:471-478, 1986.
 19. Vickers, R.A. and Gorlin, R.J.: Ameloblastoma ; delineation of early histopathologic features of neoplasia, *Cancer*, 26:699-710, 1970.
 20. Wright, B.A., Bhardwaj, A.K. and Murphy, D.: Recurrent calcifying odontogenic cyst, *Oral Surg.*, 58:579-583, 1984.
 21. Grodjesk, J.E., Dolinsky, H.B., Schneider, L.C., Dolinsky, E.H. and Doyle, J.L.: Odontogenic ghost cell carcinoma, *Oral Surg.*, 63:576-581, 1987.
 22. Tanaka, N., Iwaki, H., Yamada, T. and Amagasa, T.: Carcinoma after enucleation of a calcifying odontogenic cyst ; a case report, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 51:175-178, 1993.

- ABSTRACT -

CALCIFYING ODONTOGENIC CYST OF THE MANDIBLE

Sang-Hee An · Karp-Shik Choi

*Department of Dental Radiology, College of Dentistry
Kyungpook National University*

The calcifying odontogenic cyst is rare lesion having features of both cyst and neoplasm. Clinically it frequently occurs in young adult and more frequent in the anterior area of the jaw. Radiographically, this lesion has several radiopaque foci within unilocular or multilocular radiolucency.

The authors experienced cystic and neoplastic types of calcifying odontogenic cysts in the anterior area of the mandible in a 16-year-old male and 21-year-old female patients who suffered from pain, swelling and teeth displacement on the affected area. And we discussed the clinical, radiological and histopathological features with a brief review of the literatures.

논문 사진부도 ①



Fig. 1. Panorama radiograph

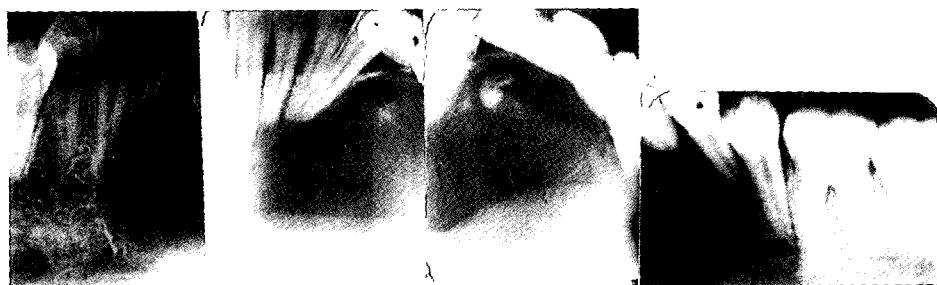


Fig. 2. Periapical radiographs



Fig. 3. Occlusal radiograph

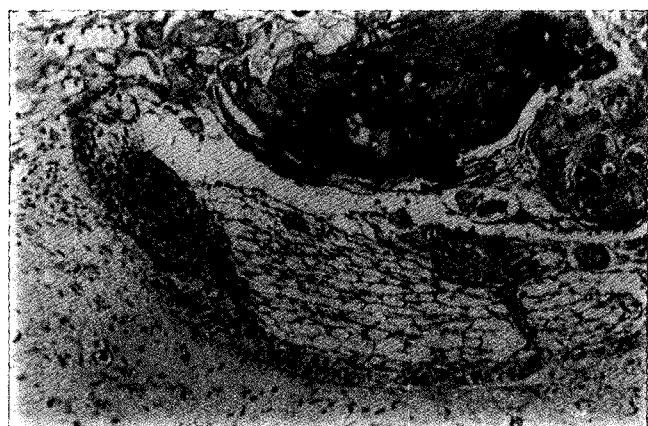


Fig. 4. H & E stain

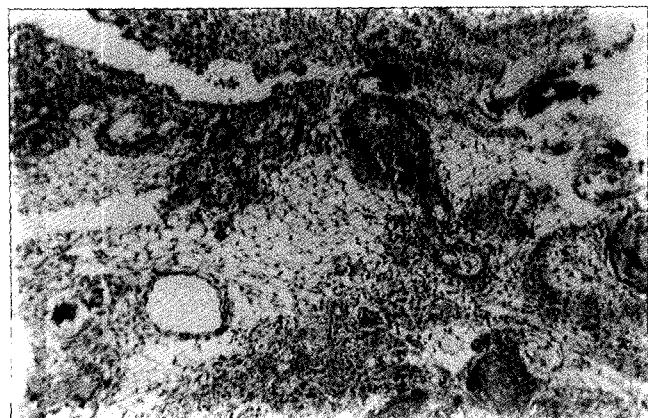


Fig. 5. H & E stain

논문 사진부도 ②



Fig. 6. panoramic radiograph

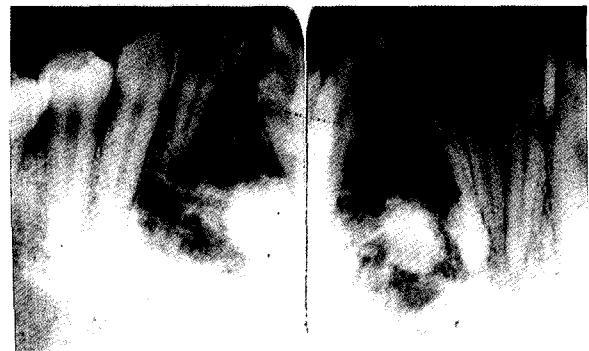


Fig. 7. periapical radiographs



Fig. 8. Occlusal radiograph



Fig. 9. H & E stain

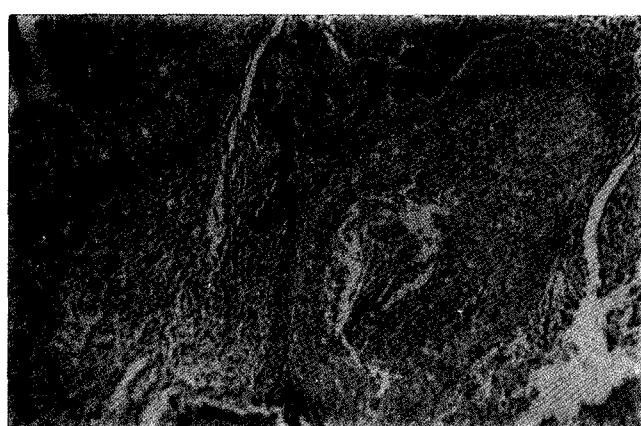


Fig. 10. H & E stain