

개구 장애를 지닌 소아환자를 대상으로한 Interdisciplinary approach

단국대학교 치과대학 소아치과학교실

임철수 · 김용기

Abstract

INTERDISCIPLINARY APPROACH A CHILD PATIENT WITH RESTRICTED MOUTH OPENING: A CASE REPORT

Cheol-Soo Leem, Yong-Kee Kim

Dept. of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Dankook University

Restricted opening of the mouth in children can be derived from a variety of extra and intra articular causes.

A 5-year-old female patient with an elongated right coronoid process and with congenital missing teeth came to clinic for wearing of esthetic denture.

A proper medical consultation and laboratory test had done for assessment a systemic syndrome related to her dental anomalies. The result was that her systemic findings didn't accord specific signs and symptoms of Hallermann-Streiff syndrome.

Unilateral coronoidectomy was fulfilled to improve mouth opening and subsequently endodontic and restorative procedure. Maxillary partial denture was delivered for esthetic problem.

The periodic recall medical/dental check-up are recommended

I. 서 론

개구 장애는 다양한 요소가 원인이 되어 나타나며 그 원인 요소로는 관절성, 외상성, 종양성 그리고 증후성 원인 요소들이 있다^{1,2)}. 그 중 관절성 원인 요소들은 다음과 같다 1) 관절의 선천적 이상, 2) 외상, 3) 아관 강직(ankylosis), 4) 감염, 5) 종양 등이 있다.

소아에서의 개구 제한은 드물게 나타나며

진단이 어렵고 개구 제한을 가진 소아의 관리도 각별한 주의를 요한다^{3,4)}. 소아 환자에서 개구 장애는 관절의 이상이 원인이 되어 나타날수 있으며 그 관절의 원인 요소로는 최근의 외상, 외상 후 scarring, 길어진 coronoid process, 종양 등이 있다. 위 원인 요소들 중 coronoid process 의 이상에 의한 개구 장애는 외과적 수술로서 개구 제한의 개선을 도모할수 있다^{5,6)}.

선천적 치아 결손은 다양한 syndrome 들과 관련지어서 나타나며⁸⁾, 유치열기는 좀처럼 쉽게 이환되지는 않는다⁹⁾. 선천성 치아 결손과 관련된 syndrome 으로서는

- 1) Ectodermal dysplasia
- 2) Orofaciodigital syndrome
- 3) Down's syndrome
- 4) Hurler's syndrome
- 5) Hallermann-Streiff syndrome 등이 있다.

1986년 Ohishi, Murakami, Hiata 등은¹⁰⁾ Hallermann-Streiff syndrome 과 관련지어 영구 제1대구치를 제외한 모든 영구치배의 선척적 결손을 보인 증례를 보고한 바 있다.

본 증례는 coronoid process 의 과다 증식에 의한 개구 장애와 다수의 선척적 치아 결손등의 특이 구강내 소견을 보인 소아 환자를 대상으로 전신적 증후군 유무를 규명하기 위하여 여러 진단 과정을 수행하였으며 환자가 가진 여러 문제점들을 해결해 주기 위하여 구강외과와 협력하여 전신 마취하에 coronoidectomy 와 수복 및 보철 치료를 수행하여 만족할만한 결과를 얻었기에 이에 보고하는 바이다.

II. 증 례

1. 초진일 : 1993. 7. 19
 생년월일 : 1989. 12. 25
 성 별 : 여
2. 주 소
 전치부 심미적 의치 장착을 위해
3. Medical history
 psychological assessment : normal
 present medication : none
 no specific allergic condition

4. Dental history
 의치 장착을 위해 과거 치과 방문 경험
 발치나 수복 치료 경험 없음

5. 구강 내 소견

① 선척적 치아 결손

상악 유중절치와 유측절치의 결손 그리고 상하악 영구 제1대구치를 제외한 모든 영구치배 결손(그림 1)



그림1. 초진시 panorama 사진.

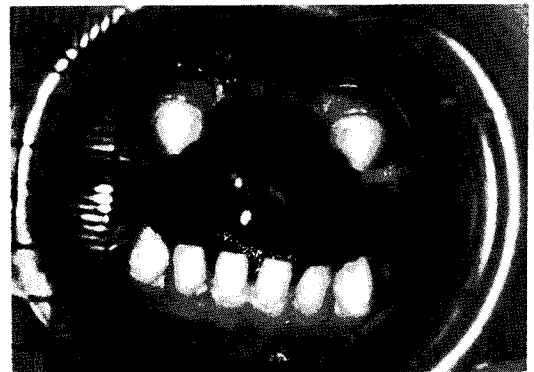


그림2. 초진시의 개구량.

② 개구 제한

상하악 유견치 교두첨간 거리가 약 0.8cm로 구치부 치료가 불가능한 상태(그림 2)

③ 설 배면에 이상 외방 증식성 병소(그림 3)

④ caries 그리고 hypoplastic primary molars (그림 4) (그림 5)

6. 방사선 소견

Panoramic view 에서는 다수의 결손된 치아와 치배를 관찰할 수 있었고(그림 1)

Cephalometric view 에서는 상악골 전방부의 함몰 양상과 골격성 Class III 양상을 관찰할 수 있었다(그림 6). Oblique lateral view, Transcranial view 그리고 Waters' view 에서는 하악골 우측 coronoid process의 이상 비대를 관측할 수 있었고(그림 7), 단층 촬영 사진상에서 이 사실을 확인할 수 있었다(그림 8).

구강 내 소견들과 방사선 촬영 결과로 정확한

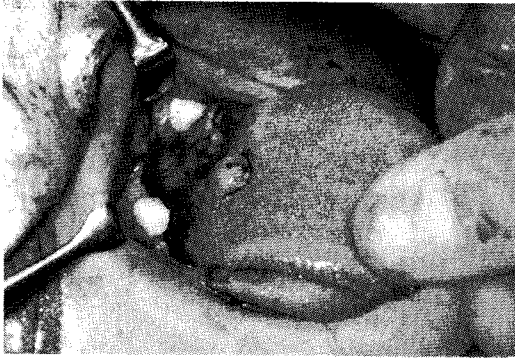


그림3. 설배면의 이상 외방 증식성 병소.



그림4. 초진시의 구강내 상악사진.



그림5. 환자의 구강내 하악사진.



그림6. 환자의 cephalogram.

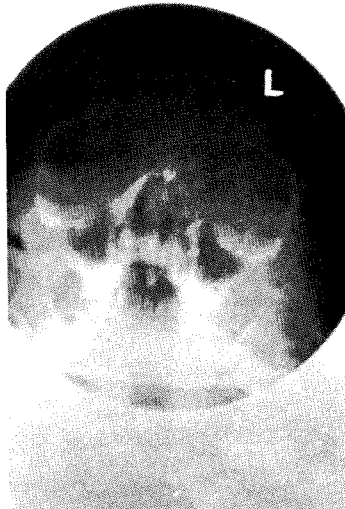


그림7. Waters' view.

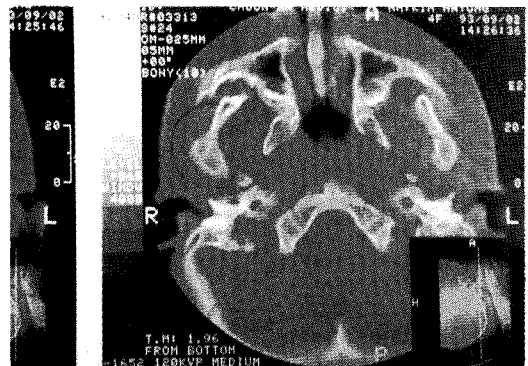


그림 8. Computerized Tomography.

의과적 진단을 내리기에는 미흡하다고 판단이 되어 적절한 medical consultation과 그에 따른 실험실 검사를 시행하였다.

7. Medical consultation & Laboratory test
Pediatrics, Ophthalmology, Endocrinology

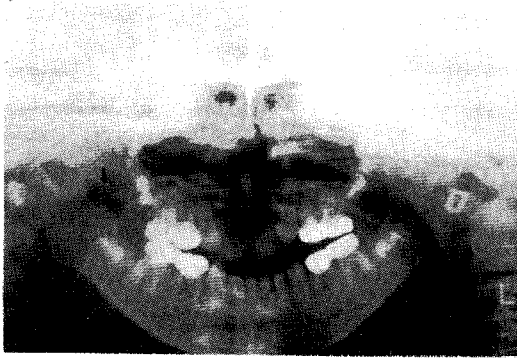


그림9. 술후 panorama사진.

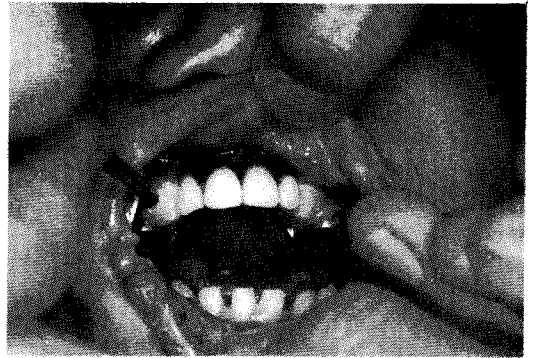


그림10. 환자의 구강내 장착된 의치 모습.

그리고 Cardiology 에 의뢰 결과, 특별한 소견은 없었다. 실험실 검사로는 CBC, Urinolysis, Liver Function Test, EKG를 시행하였고 그 결과 역시 특이 소견을 발견할수는 없었다.

이상의 분석에서 dental anomalies를 제외한 다른 전신적 소견들이 Hallermann-Streiff syndrome의 주증상을 만족시키지는 못하였다. 환자가 가진 치과적 문제점들을 해소해주기위하여 전신 마취하에 구강 외과와 협력하여 여러 치료 절차를 수행하였다.

8. 치료 경과

① Unilateral coronoidectomy

② Excision of soft tissue lesion on the tongue

③ 치수 치료 및 보철 치료

우식이 심하게 진행된 유구치는 5분 formocresol pulpotomy 후 SSC 로 수복하여 주었고 hypoplastic appearance를 유구치도 SSC 로 수복하여주었다(그림 9).

④ 보철 치료 환자의 전치부 심미적 개선을 목적으로 band adaptation 후 인상을 채득하여 고정성 의치를 제작하여 장착하여 주었다(그림 10)

⑤ Biopsy

절제된 coronoid process의 생검 결과 정상 조직에서는 보이지않는 섬유성 조직 증식과 골 조직을 관찰할수 있었다(그림 11).

⑥ 유지 및 관리 영구 제 1대구치의 맹출 후

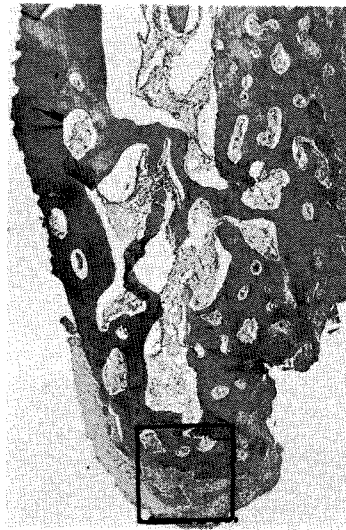


그림11. 절제된 coronoid process의 조직편 모습.

이 치아들에 대한 예방적 배려가 필요하고 성장, 발육에 따른 의치의 재 제작이 필요하다고 하겠다. 그리고 제 1대구치의 맹출 후 기능적인 교정장치의 필요성도 고려하기로 하였다.

Ⅲ. 총괄 및 고안

소아에서 나타나는 개구 제한에 대해서는 여러 학자들^{4, 11, 13)}에 의해서 논의된 바 있으나 이는 주로 관절 내 ankylosis가 원인 이었다. 개구 제한은 관절의 원인에 의해서도 나타날수 있으며 Hans Peter M.¹³⁾는 관절외 원인 요소로서 acute trauma, operation, infection, post-

perative scarring, elongated coronoid process 등이 있다고 보고하였다.

그 중 coronoid process의 이상 비대가 원인이 되어 나타난 개구 장애에 대하여 1973년 Van Hoof와 Besling¹³⁾, 1980년에는 Hecker와 Corwin¹⁴⁾ 등이 1986년에는 Giacomuzzi¹⁵⁾ 등이 보고한 바 있다.

비대된 coronoid process는 개구시 zygomatic bone과 접촉하여 최대 개구를 불가능하게 한다. coronoid process 이상을 진단하기 위하여 다양한 방사선 사진이 유익한 자료가 되며 이에 Panoramie view, Cephalometric view, Water's view, Computerized Tomography 등이 포함된다. coronoid process의 비대가 원인이 된 개구 제한은 대부분 intraoral coronoidectomy를 시행하여 개구 제한의 개선을 도모하였다. 수술로 개선된 개구량은 이의 유지를 위해 수술 후 지속적인 opening exercise가 요구된다.

다수의 치아나 치배에 이환된 선천적 결손은 Ectodermal dysplasia 와 같은 전신적 증후군들과 밀접한 관계를 갖고 나타난다. 이 전신적 증후군 중에서 Hallermann-Streiff syndrome에서도 선천적 치아 결손이 빈번히 나타나는데 1984년 P.J Slotweg¹⁶⁾ 등은 이 증후군과 관련지어 나타난 치아 혹은 치배 결손이 유치열과 제 1대구치를 제외한 모든 치아에서 나타났다고 보고한 바 있다.

한편, Hallermann-Streiff syndrome은 Hallermann¹⁹⁾과 Streiff²⁰⁾에 의해서 각각 처음 보고되었고, 태아 발육중 5~6 주 시기에 발육 장애에 의해서 나타난다고 Ullrich 와 Fremerey-Dohna²¹⁾는 보고하였다. Hallermann-Streiff syndrome과 관련된 sign 과 symptom에 대해서 1958년 Francois²²⁾는 7항목을 제시하였다. 1) dyscephalia and bird face, 2) dental anomalies, 3) proportionate nanism, 4) hypotrichosis, 5) atrophy of the skin(generally localized to the head and nose), 6) bilateral microphthalmia, and 7) congenital cataract. 이 7항목 중 dental anomalies 에 관하여 1971년 D. Hutchinson²³⁾ 이래로 많은 보고^{10, 17, 18)}가 있어왔다.

이 syndrome과 관련되어서 나타날수 있는 dental anomaly 에는 mandibular hypoplasia, partial anodontia, anterior open bite, high and vaulted palate, hypoplastic teeth, neonatal tooth, abnormal position of the TMJ, 그리고 상악골 전방부의 함몰 등이 있다.

본 증례에서 나타난 구강 내 소견이 Hallermann-Streiff syndrome의 구강 내 소견과 매우 유사하여 이 syndrome과의 정확한 관계를 규명하기 위하여 소아과와 안과를 중심으로 medical consultation 한 결과 dental anomalies 를 제외한 다른 sign 과 symptom은 만족시키지 못하였다. 그러나 여러 방사선 소견에서 알수 있듯이 우측 coronoid process의 이상 비대는 확인 할수 있었다.

IV. 결 론

편측 coronoid process의 hyperplasia에 의한 개구 장애와 선천적 치아 결손을 지닌 환자에서 나타난 구강 내 소견과 전신적 증후군 사이의 연관성 여부를 적절한 medical consultation과 실험실 검사를 통하여 알아본 결과 의심되었던 Hallermann-Streiff syndrome으로 진단하기엔 미흡한 것으로 사료되었다.

환자가 가진 치과적 문제점들을 해결해 주기 위하여 전신 마취하에 외과적 수술에 의해서 개구 제한을 해소한 다음, 치수 및 수복 치료를 수행하여 기능 향상을 도모하였고 상악 국소 의치를 장착하여 전치부 심미적 개선을 도모 하였다. 향후 정기적인 medical/dental check-up을 통한 환자의 전신 및 구강 관리가 요구 된다.

참고문헌

1. Junquera Gutierrez, et al : Trismus-a difficult diagnosis : Rev-Actual-Odontomatol-Esp : 1990 Dec., 50(399) ; P. 67-71.
2. Ter Haar, B.G.A., van Hoof, R.F. : Trismus als onderdeel van enkele weinig bekende syndromen met extremiteitenafwijkingen.

- Maandschr. Kindergeneesk. 41(1973)180–202.
3. Hans Peter M. Freibofer ; Restricted opening of the mouth with an extra-articular cause in children : J. of Craniomaxillofacial surgery ; 1991 Oct. ; 19(7) ; P. 289–98.
 4. Steinbauser, E.W. : The treatment of ankylosis in children. Int. J. Oral Surg. 2 (1973) 129–136.
 5. Rames p., Urban F. ; Hyperplasia of the coronoid process of the mandible-case report ; Prakt-Zubn-Lek ; 1990 Sep. ; 38 (9) ; P. 277–80.
 6. Yasunori Totsuka, Hiroshi Fukuda : Bilateral Coronoid Hyperplasia, report of two case and review of thr literature : J. Cranio-Max. -Fac. Surg. 19(1991) 172–177.
 7. Hayter JP ; Robertson JM ; Surgical access to bilateral coronoid hyperplasia using the bicoronal flap ; Br-J-Oral-Maxillofac-Surg ; 1989 Dec ; 27(6) ; P. 487–93
 8. Ralph E. McDonald, David R. Avery ; Oligodontia. Dentistry for the child and adolescent. 147. 1987.
 9. Ray E. Stewart, et al ; Pediatric dentistry, P. 91.
 10. Ohishi, Murakami, Haita et al ; Hallermann-Streiff syndrome and its oral implication J-of-Den. for children., 1986. 1–2. P. 32–37.
 11. El Mofty, S. ; Ankylosis of the temporomandibular joint ; Oral Surg., 2(1973)129–136.
 12. Oluwasanmi, J.O., S.B. Lagundoye, O.O. Akinyem ; Ankylosis of the mandible from cancrum oris. Plast. Reconstr. Surg. 57 (1976)342–350.
 13. Van Hoof, R.F., W.F.J. Besling ; Coronoid process enlargement. Br. J. Oral Surg. 10 (1973)339–348.
 14. Hecker, R., J.O. Corwin ; Bilateral coronoid hyperplasia-Review of the literature and report of a case. J. Oral Surg. 38 (1980)606–608.
 15. Giacomuzzi, D. ; Bilateral enlargement of the mandibular coronoid processes. Review of the literature and report of case. J. Oral Maxillofac. Surg. 44(1986)728–731.
 16. Przyłipiak S. ; Numerous missing tooth germs with symptoms of ectodermal dysplasia. Czas Stomatol. 39(7)461–466. 1986.
 17. Eiichi Honda, et al ; Dental radiographic signs characteristic to Hallermann-Streiff syndrome ; Oral Surg., Oral Med., Oral Pathol., 1990. 70. P. 121–125.
 18. P.J. Slootweg and J. Huber ; Dentoalveolar abnormalities in oculomandibulodyscephaly (Hallermann-Streiff syndrome). J. of Oral Pathology. 1984 ; 13 ; 14–154.
 19. Hallermann, W. ; Vogelsicht and Cataracta, klin, Mbl. Augenheilk 113 ; 315–318. 1948.
 20. Streiff, E.B. ; Dysmorphie mandibulo-faciale (tete d'oiseau) et alteration oculaires, Ophthalmologica (Basel) 120 ; 79–83, 1950.
 21. Ullrich, O., and Fremerey-Dohna, H. ; Dyskephalie mit Cataracta congenita and Hypotrichose als typischer Merkmalskomplex, Ophthalmologica (Basel) 125 ; 73–90, 144–154.
 22. François, M.J. ; Anew syndrome : Dyscephalia with bird face and dental anomalies and congenital cataract, Arch. Ophthal. (chicago) 60 ; 842–862. 1958.
 23. D. Hutchinson ; Oral manifestation of oculomandibulodyscephaly with hypotrichosis (Hallermann-Streiff syndrome) ; Oral Surg., Vol 31(2), 1971, 234–244.