

Rapid Prototyping 모델을 이용한 골삭제를 위한 외과적 지표 : 섬유성 골이형성증 치료를 위한 기술적 제안

김운규

조선대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Abstract

SURGICAL INDEX FOR BONE SHAVING USING RAPID PROTOTYPING MODEL : TECHNICAL PROPOSAL FOR TREATMENT OF FIBROUS DYSPLASIA

Woon-Kyu Kim

Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Chosun University

Bone shaving for surgical correction is general method in facial asymmetrical patient with fibrous dysplasia. Therefore, decision of bone shaving amount on the preoperative planning is very difficult for improvement of ideal occlusal relationship and harmonious face. Preoperative planning of facial asymmetry with fibrous dysplasia is generally confirmed by the simulation surgery based on evaluation of clinical examination, radiographic analysis and analysis of facial study model. However, the accurate postoperative results can not be predicted by this method.

By using the computed tomography based RP(rapid prototyping) model, simulation of facial skeleton can be duplicated and 3-dimensional simulation surgery can be performed. After fabrication of postoperative study model by preoperative bone shaving, preoperative and postoperative surgical index was made by omnivaccum and clear acrylic resin. Amount of bone shaving is confirmed by superimposition of surgical index at the operation.

We performed the surgical correction of facial asymmetry patients with fibrous dysplasia using surgical index and prototyping model and obtained the favorable results.

Key words : Bone shaving, RP model, Surgical index.

I. 서 론

섬유성 이형성증은 다양한 원인에 의해 발생하는 양성의 섬유성-골 병소이며, 신체의 어디에도 발생할 수 있다. 발생되는 양상은 증상이 없이 단독 병소에서 다발성 병소까지 다양하게 나타나며 점진적으로 진행되어 기능적 및 심미적 장애를 보인다^{1,2)}.

섬유성 이형성증을 가진 환자의 치료의 과정은 먼저 조직검사를 통한 정확한 진단, 방사선학적 분석, 임상검사, 수술 방법의 선택, 절제량의 계획, 환자를 위한 적합한 수술을 시행하고 장기간의 추적 검사의 단계를 거친다. 임상적 평가는 환자의 호흡, 연하, 발음, 교합, 시력, 청력, 뇌기능 등을 검사한다. 환자의 연령에 따른 수술시기를 계획하고 정확한

수술을 시행하여 술후 환자의 기능과 심미성을 증진시킬 수 있도록 한다. 섬유성 이형성증은 완전한 적출술을 시행하지 않은 경우 지속적인 점진적 성장을 보이는 경우가 있다. 골성 육종 등 악성으로 전환되는 경우가 있는데 이는 다골성의 섬유성 골이형성증이 두개 안면부에 침범한 경우 주로 전환된다고 하였으며, 수술 후 장기간 변화를 주기적으로 관찰하여야 한다³⁻⁵⁾.

섬유성 이형성증의 환자의 치료시 방사선치료는 잠재적인 악성 전이성이 있으며, 화학적치료는 효과가 없기 때문에 금기증이다⁶⁻⁸⁾. 이러한 연구를 근거로 외과적 수술이 유일한 치료선택이 될 수 있다. 외과적 수술의 방법에는 완전한 적출술과 보존적인 부분적인 절제 또는 골삭제가 이용되는데 이중 골삭제는 골성장이 완료된 환자에서 기능과 심미를 증

진시킬 수 있어 보편적으로 사용되고 있다. 그러나 골식제는 삭제하고자 하는 양과 범위를 결정하는 것은 어렵다⁹⁻¹³⁾.

본 증례는 섬유성 이형성증을 가진 환자에서 컴퓨터 단층 촬영을 통하여 얻어진 자료를 의뢰하여 3차원적으로 rapid prototyping 모형을 제작하고 이 모형을 복제하여 수술전에 모형상 골식제를 시행하고 수술전의 모형과 수술후의 모형을 omnivaccum을 이용하여 clear acrylic resin을 이용하여 외과적 지표(surgical index)를 제작하여 수술중 삭제된 골의 양과 수술범위를 정확하게 예측하여 수술에 이용하여 만족할 만한 결과를 얻어 증례보고와 함께 외과적 지표를 만드는 방법을 소개하고자 한다.

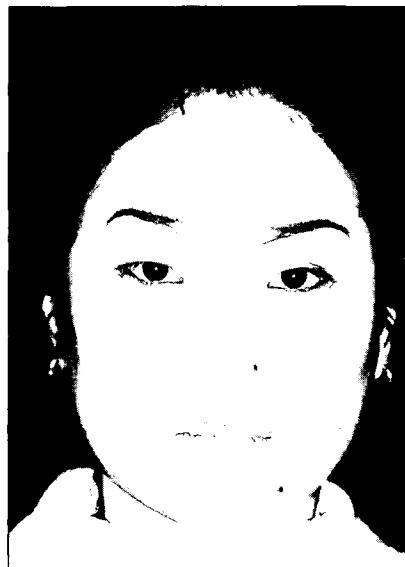


Fig. 1. Preoperative facial view.



Fig. 3. Preoperative 3D CT.

Ⅱ. 증례보고

2000년 10월 20일경 26세 여성 환자가 하악 우측 골체부의 경결성 팽창으로 인한 안모 비대칭과 하악 우측 제3대구치 발치 후 지속적인 둔한 통증을 주소로 타 병원에서 검진 후 본원에 의뢰되었다(Fig. 1). 구강내 및 안면부 검사시 하악 우측 제3대구치 발치 후 잘 치유되어 가는 창상을 보였으며, 농의 유출은 없었으며, 하악 우측 제1소구치에서 하악지 전연까지 하악골체의 골성 팽창을 보였으며, 이로 인한 하안모 1/3의 안모의 비대칭이 나타났다. 악골의 팽창으로 인하여 발치된 제1대구치에서 제3대구치가 상실된 무치악부위의 악간 수직고경이 상실되어 있었다. 하순부의 감각의 저하가 있었다. 방사선학적 검사를 위해 파노라마와 컴퓨터 단층 촬영을 시행하였으며, 우측 하악골체 부위에 방사선 불투과상의 비교적 잘 경계가 된 ground glass 양상이 나타났으며, 협설과 하방으로 심한 팽창이 나타났다. 파노라마상 하악 우측 구치부의 무치악부의 수직고경이 상



Fig. 2. Preoperative panoramic view.



Fig. 4. Preoperative RP model (frontal view).

실되어 있었다(Fig. 2). 본원에서 촬영한 컴퓨터 단층촬영의 방사선 자료를 저장하여 rapid prototyping 모형을 제작하는 곳에 의뢰하였다. 환자의 과거 병력으로는 8년 전(1992년) 개인의원에서 하악 우측 골체부의 골성 팽창이 있어 골삭제하면서 그 검체를 조직 검사를 시행한 결과 섬유성 이형성증이었다는 진단을 받은 병력이 있었다. 가족력으로는 섬유성 이형성증과 관계된 특기할 만한 사항은 없었다. 수술전 이화학적 검사를 시행하였으며 혈액, 심전도, 흥

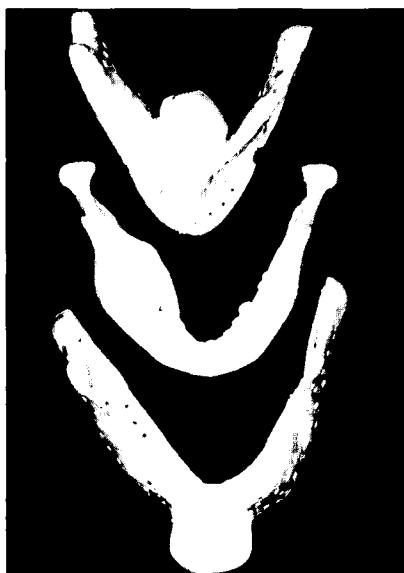


Fig. 5. Replication of RP model with individual tray.

부 및 사지 방사선 사진상 특이할 만한 소견은 나타나지 않았다.

이 환자의 치료계획으로 골팽창 부위를 제거하기 위한 골삭제을 계획하였고 삭제될 골의 정확한 양과 범위를 측정하기 위해 외과적 지표를 제작하기로 하였다. 수술전 파노라마와 컴퓨터 단층촬영(Somatom plus 4 power model, Siemens Inc. West Germany) 등 방사선 촬영을 시행하였고 컴퓨터 단층촬영 상 얻어진 방사선학적 자료를 이용하여 3차원 영상모델을 만든다(Fig. 3). 이 모델을 rapid prototyping 표준 입력 format인 STL(Stereolithography) 모델로 변환하고 이를 rapid prototyping 제작장비에 입력하여 rapid prototyping 모델을 제작하였으며, 모델의 제작과정은 rapid prototyping 모델 제작업체(주. 사이버메드)에 의뢰하였다(Fig. 4). 제작된 rapid prototyping model을 paraffin wax를 이용하여 먼저 인상재가 들어갈 수 있는 공간을 확보(relief)하고 model과 tray와의 stop을 부여하였고 이 위에 individual tray을 제작하기 위해 tray 제작용 resin으로 감싸 외부주형을 제작하였다. 외부주형을 협설측 2개로 분리할 수 있도록 중간부위에서 diamond disk을 이용하여 삭제하여 분리하였다(Fig. 5). Paraffin wax를 제거한 뒤 유동성이 좋은 러버 인상재를 사용하여 인상을 체득하고 인상재가 경화된 후 분리하여 석고를 주입하여 석고모형을 체득하였다. 2개를 복제하여 하나는 수술전 모형으로 보존하고 하나는 심미성과 기능성을 고려하여 수술전에 모형상 수술(model surgery)을 시행하여 수술 후 형태를 예측하였다. 수술전 모형과 수



Fig. 6. Fabrication of preoperative surgical index before bone shaving using omnivac (buccal side and lingual side).



Fig. 7. Fabrication of Postoperative surgical index after bone shaving using omnivac (buccal side and lingual side).

술후 모형을 omnivaccum을 이용하여 1.5mm 두께의 투명한 아크릴릭 레진판을 가온하여 흡인 압착시켜 수술 전, 후의 지표(preoperative and postoperative surgical index)를 만들고 주변부위 여분의 레진판은 제거하고 모양을 형성하였다. 이렇게 만들어진 투명한 아크릴릭 레진판을 수술시 골삭제량과 범위를 측정할 수 있도록 이용하기로 하였다(Fig. 6, 7, 12).

2000년 11월 5월 전신마취를 시행하고 구강내 접근을 통하여 하악 전치에서 하악지 전연까지 절개를 시행하여 병소부를 노출시켰다. 수술전 외과적 지표에 표시된 골삭제선을 확인하고 골삭제전에 팽창된 병소부에 fissure bur를 이용하여 표시를 하였다(Fig. 8). 외과골절도를 이용하여 골삭제를 시행하고 삭제된 골편은 술전 및 술후 외과적 지표에 담아서 그 양과 범위를 확인하고 삭제가 덜된 부위는 추가

적으로 삭제를 시행하였다(Fig. 9). 또한 외과적 지표를 연조직과 삭제되는 골 사이에 위치시켜 기구조작시 연조직에 손상이 되지 않도록 보호하는 역할을 하도록 하였다. 골이 삭제되고 나서 삭제된 양과 범위의 확인은 술후 외과적 지표를 구강내에 적합시켜 보아 확인할 수 있었다. 병소부가 하악 이공 부위까지 이환되어 수술중 이공주위를 삭제하였으며, 본 증례의 경우 이공의 크기가 비교적 다른 경우에 비하여 작았으며, 이신경 또한 굽기가 상대적으로 작았다. 구강내 삭제부위를 세척하고 통법의 방법으로 봉합하고 암박붕대를 이용하여 후처치를 시행하였다. 2001년 4월 20일 까지 확인 결과 환자는 안모에 대한 만족하였으며, 이신경의 손상으로 인한 하순의 감각이 저하되어 있으나 수술 직후보다는 감각이 많이 회복되어 비교적 순응하고 있었다(Fig. 10, 11).



Fig. 8. Intraoperative view(bone shaving line).



Fig. 9. Superimposition of preoperative & postoperative surgical index (buccal side view).



Fig. 10. Postoperative facial view.



Fig. 11. Postoperative 3D CT.

III. 총괄 및 고안

섬유성 이형성증은 선천성, 대사성, 비가족성의 장애로 하나 또는 여러 개의 골에서 발생하며 피부의 색소 침착이나 내분비 이상과 동반되어 나타나는 경우가 있다¹⁻⁵⁾. 섬유성 이형성증은 전체 골종양의 2.5% 정도, 비악성의 골종양 중 7%정도가 된다⁹⁾. 호발연령은 10~20대로 생식세포 보다는 체세포의 동연변이에 의해 발현하여 유전성은 없는 것으로 알려져 있으며, 섬유성 이형성증은 단골성(monostotic type), 다골성(polyostotic type), Albright's syndrome 등으로 분류되며 Kreutziger는 단골성이 모든 섬유성 골이형성증의 약 70%을 차지한다고 하였으며, 여성에서 더 호발하고 하였다¹⁴⁻¹⁶⁾.

섬유성 이형성증 환자 중 거의 1/3이 두개 또는 안면부의 골에 이환된다. 두개 안면부에 발생한 섬유성 이형성증은 안모의 변형, 비강의 폐쇄 및 뇌신경의 압박 등이 발생할 수 있으며, 안구부위에 발생시 흔히 안와저를 침범하며 복시나 안구돌출, 시력저하, 안구의 하방변위 등의 증상과 이부 및 측두부위에 이환시 외이도의 폐쇄로 점진적인 청력 상실과 담치종(cholesteoma) 및 이륜(auricle)의 변형을 가져온다. 뇌신경의 압박시 시각 장애와 안면마비, 무후각증 등이 발생한다. 하악골의 침범시에는 무통성의 팽윤과 부정교합, 변위된 치아, 무치악부의 수직교경의 상실과 하치조신경관을 압박하는 경우 하순의 감각의 저하가 나타나기도 한다^{9,17,18)}. 본 증례의 경우 하악 우측 견치 하방 부위에서부터 하악지 전연과 우각부위까지 이환되어 있으면서 안모의 비대칭과 팽창이 관찰되었으며, 하순부의 감각저하를 호소하였다.

1938년 Lichtenstein¹⁹⁾은 처음으로 섬유성 이형성증이라는 용어를 제안하였고, 이러한 상태가 하나 또는 다수의 골에서 나타날 수 있고, 피부와 내분비의 변화를 동반한다고 하였다.

1942년 Lichtenstein 등²⁰⁾은 섬유성 골이형성증은 골을 생성하는 간엽조직의 기능이나 발생에 이상이 생겨 정상적인 골조직이 섬유성 결체조직으로 대체되는 질환이라고 하였다. 1946년 Schlumberger²¹⁾는 외상에 대한 국소적인 골조직의 비특이성 반응장애가 발생원인이라고 하였으며, Albright¹⁵⁾는 골의 병소에 제한된, 변화에 의해 발생한 “불완전한 형태”의 섬유성 이형성증을 밝혀내었고, Hummel²²⁾은 다골성 형태는 성적 성숙도에 관계없이 남성에서 과색소 침착과 관련될 수 있다고 하였다.

섬유성 이형성증은 아동기 후반에 대체로 나타나며, 비록 보고는 적지만 출생 전에 발생하기도 한다. 방사선상으로 불투과상 또는 낭종과 같은 형태를 보이며, 동통이 없는 부종을 나타내며 발생한다. 장골이 이환 되었을 때, 골간단(metaphysis) 부위에 변화가 나타난다. 비정상 조직은 콜

라겐을 형성하는 세포로 대부분 구성되고, 해면조직은 거의 만들어지지 않는다. 이때, 골의 침상형태(spicules)와 심지어 가끔은 연골의 일부가 이들 사이에 적색의 섬유성 물질의 띠를 형성한다. 장골에서는 섬유성 이형성증이 관절과 골단(epiphysis) 사이를 분리시키기도 한다²³⁾. 다골성 형태는 92%에서 대퇴골을 포함한다. 경골과 늑골은 대퇴골보다는 적은 빈도로 이환된다. Edgerton 등⁹⁾은 골에 병변을 가진 환자 중 최소 1/3에서 몸의 다양한 부위에 cafe-au-lait이나 밤색의 모반(nevi)가 나타난다고 하였으며, 단골성의 섬유성 이형성증은 다골성 형태보다 4배나 많고, 완전한 Albright syndrome보다 30배나 많다고 하였으며. 단골성 형태는 늑골, 대퇴골, 경골, 두개골, 상악, 그리고 하악에 가장 일반적으로 발생하며 전두골이나 접형골은 두개골 중 가장 잘 이환되는 곳이며, 측두골, 두정골, 후두골은 비교적 낮은 빈도로 이환된다고 하였다. Fries²⁴⁾는 39명의 두개 또는 안면골의 섬유성 이형성증 환자에 대해 보고하였다. 11명은 단골성, 28명은 다골성). 이 그룹에서 18명은 두개골에, 16명은 안면골에, 그리고 5명은 두개와 안면골에 이환되었다. 따라서 섬유성 이형성증 환자중 1/3은 두개와 안면골에 이환 되었음을 보고하였다.

시각의 문제나 현기증은 두개안면골에 이환되었을 때 일반적으로 나타난다. 눈에 나타나는 증상은 특정 골의 비정상적인 증식에 의해 발생한다. Leokos는 frontal bone의 이환이 눈의 돌출을 야기한다고 밝혔다. 두개저의 이환은 안구외부의 근육의 경련과 삼차신경통을 야기한다. 시신경의 압박은 안구의 위축과 시력의 감소를 유발한다. 접형골의 이환은 시신경교차부의 압박으로 시력의 상실을 유발한다. 상악의 경우는 다루증을 유발한다²⁴⁻²⁷⁾.

질의 출혈이나 가슴의 증대는 성적 성숙이 조기에 발생한 소아들이나 유아에게서 나타며, 장골의 비정상적인 성장을 보인다. estrogen level은 항상은 아니지만 가끔 증가되며, 두명의 환자에서 나중에 pituitary basophilic adenomas가 발견되었다. 이 과정은 사춘기의 정지와 연관이 있다고 하였다. 초기의 보고와 달리, 섬유성 이형성증은 임신중이나 후에 재활성화 된다고 하였으며, 심지어 새로운 병소가 생겨나기도 한다고 하였다. 다골성에서 단골성으로 변한 경우는 결코 보고되지 않았다. 피부의 색소침착은 다골성 환자의 1/3에서 발견되었다. 이러한 피부병소는 Von Recklinghausen씨 병과 착색에 있어서 조직학적으로 구분된다^{9,15,16,27)}.

골의 성장 증가는 과도한 조직의 혈관분포와 관계된다고 하였으며 여러 환자에서 다발성 동정맥류가 나타났다고 하였다. 치료되지 않은 다골성 섬유성 이형성증은 심장 비대와, 선택적 정맥혈 검사시 낮은 동정맥 산소교환으로 발전하게 된다. 질환부위를 외과적으로 제거하는 것은 이러한 심장의 변화를 막을 수 있었다고 하였다. 부갑상선, 갑상선

또는 부신선의 과운동은 섬유성 이형성증의 몇몇 증거로서 발생하기도 하지만 이에 대한 기전은 아직 밝혀지지 않았다^{9,12)}.

섬유성이형성증의 조직학적 특징은 증식된 부위는 골수가 붉은 갈색의 혈관성 섬유조직으로 대치됨을 보여준다. 다골성 변화에서는 연골의 작은 파편이 관찰된다. 그 조직은 새로운 골의 작은 침상형태 때문에 모래알 같은 양상을 보인다. 초기의 상태에서는 정상적인 피질골이 팽창하면서 앓아지고, 골막은 긴밀하게 부착되어 있다. 작은 낭종이 섬유성 조직 사이에서 발견되기도 한다. 두개안면부에서는 층판골과 골모세포 모두 섬유성 이형성증에서 나타난다. 장골과 두개골 모두에서 인접한 골은 정상으로 나타나고, 이형성 물질과 골의 분계가 분명히 드러나지는 않는다. 양측성의 이환되는 다골성의 형태는 팔, 다리보다 두개안면부에서 보다 자주 나타난다. 섬유성 이형성증의 오래 지속된 병변은 새로운 골의 형성이 많이 되었음을 알 수 있다. 초기에는 골모세포가 아주 크고, 일반적인 골모세포보다 핵이 크다. 이 때, 낭종은 아주 커지며, 미분화 간엽으로부터 원시적인 활액관절(synovial joint)가 형성될 수 있다. 오래 지속된 병변은 층판 석회화가 증가하고, 방사선상에 골종과 비슷하게 나타나며 그와 같은 병변은 간질(stroma)사이에 적은 수의 세포가 있으며, 골 형성 비율을 낮춘다고 하였다^{9,22,28,29)}. Pritchard³¹⁾는 비록 섬유성 이형성증의 일부 부위가 용해기(lytic phase)에서 골모세포의 활동을 보인다면 흡수에 의해 정상 골이 사라지며, 단지 드물게 다향거대세포가 보인다고 하였다. Hadders⁹⁾는 섬유성 이형성증이 간엽조직의 불완전한 성숙과 함께 골의 이형적인 성장을 유발하는 선천적인 비정상의 발현이라고 주장하였다. 그는 섬유성 요소가 우세하면 섬유종, 섬유아세포종 또는 섬유성육종으로 발전하게 된다고 하였고 다른 예로는 골 형성이 우세하였을 때 골섬유종, 골종 또는 골성육종이 유발된다고 하였다. Changus²⁹⁾는 섬유성 이형성증 병변을 생검하여 섬유아세포의 alkaline phosphatase의 활성을 연구하였으며, 활성도가 높고 정상의 골모세포와 비슷하다고 밝혔다. 반대로, 이 부위에서 이형성골주(metaplastic bone trabeculae)는 골세포의 phosphatase 활성도가 거의 없었다고 하였다.

섬유성 골이형성증의 악성 변성은 Schwartz 등⁷⁾이 보고한 28명의 증례 중 골성육종 19명과 섬유성육종이 7명이었으며, 연골성육종이 2명, 거대세포육종이 1명이었으며, 섬유성 이형성증의 진단과 악성으로의 발전 사이의 평균적인 interval은 13.5년이었다. 이것은 만약 섬유성 이형성증을 치료하지 않았을 때, 악성으로의 발전 가능성이 0.5%(200명 중 1명)임을 시사한다. 악성 변성은 다골성 형태를 가진 남성에게서 가장 높다. 단골성 질환을 가진 환자 사이에서는 두개안면부의 병변에서 가장 높게 악성 변성의 확률을 보였다. 1979년 Campanacci 등³²⁾에 의하면 섬유성 골이형성증과 관련된 65례의 육종중 안면골을 침범한 19례를 보고

하였으며, 이중 9례는 상악에서 그리고 10례는 하악에서 발생하였다. 악성으로의 발전시 임상적 증상으로는 통증, 급속한 부종, 그리고 alkaline phosphatase level의 증가가 있다. 중요한 점은 악성으로 발전한 환자의 절반이 방사선 치료를 조기에 받았으며, 방사선치료시 육종의 발병률은 400배나 증가하였다. 섬유성 이형성증 환자에게는 방사선 치료는 금기이며, 수술후에도 주기적인 내원과 검사가 필수적이다⁹⁾.

섬유성 이형성증의 방사선학적 소견은 그 부위가 경화 또는 방사선 투과상을 보이며, VonRecklinghausen's disease, Padget's disease, Ollier's enchondromatosis, 골의 혈관종, 거대세포종 또는 aneurysmal bone cysts의 병변과 비슷한 양상으로 나타날 수 있다. Fries²⁴⁾는 3가지 타입을 구별하였으며, Medulla의 경화성 섬유성 병변의 형태(23%), 비누거품형태의 골파괴형 타입(21%) 이 두가지 형태의 혼합형인 Pagetoid 형태(56%). 이 세번째 타입에서, 골은 외부와 내부로 팽창하였다고 하였고 일반적으로 첫 번째와 두 번째의 형태보다 환자의 연령이 많았다. 낭종 타입은 흐린 외형선과 팽창시 인접한 몇몇 골을 이환시키는 안면골에서는 거의 없었다. 방사선상의 특정 형태는 다른 골성 병변으로부터 섬유성 이형성증을 구별하는데 유용하다. 석회화된 섬유종과 골종은 방사선상에서 날카로운 외형선을 갖기 때문에 일반적으로 쉽게 구별이 된다. 골종은 종종 주위에 좁은 방사선 투과상을 나타낼 것이다. 뇌막종(meningioma)은 섬유성 이형성증이 두개골의 내면과 외면을 모두 얇게 만드는 것과 반대로 두개골의 내면을 두껍게 형성하는 경향이 있다. Padget's disease는 보다 나이가 많은 환자에게서 나타나며, cranial vault가 팽창하면서 두개골에 균일한 두께로 골이 두꺼워지고, 전형적인 cotton wool 형태가 방사선적으로 나타난다. 이러한 병변들은, 섬유성 이형성증과 같이 외형선이 날카롭지 않다. Strontium-85를 사용하는 scintiscanning도 진단에 특이적이지는 못하다^{9,24,33,34)}.

섬유성 이형성증의 비외과적 치료는 추천할 만 하지 못하다. 방사선 치료는 비효과적이면서 악성 변이를 일으킬 수 있기 때문에 시행되어서는 않된다. 어떠한 이유에서든지 어린아이들의 정상적인 골에 방사선 요법을 이용하는 것은 방사선 노출부위의 골에서 심각한 성장 장애를 일으킬 수 있다고 하였다⁷⁾. Cortisone이 지속적이진 않지만 골 병소의 통증을 줄인다고 보고된 적이 있다⁹⁾. Aluminium Acetate가 장에서 인을 활성화시킴으로서 섬유성 이형성증의 심각한 형태와 연관있는 고인산혈증의 위험성을 감소시키는데 사용되고 호르몬 치료는 거의 효과가 없다^{6,13)}.

섬유성 이형성증의 외과적 치료는 매우 유용하며 외과수술의 명백한 적용증은 이형성의 방향, 병리적 파절에 대한 치료, 통증의 조절, 장골의 과도한 성장과 연관이 있다. 외

과적 수술은 이들 종양의 침식에 의해 발생하는 시력, 청력, 언어장애의 위험성을 감소시킬 수 있다. 동시에 부비동의 감염이나 막힘은 배액으로 치료 가능하다. 치아가 변위됨에 따라 교합의 변화가 올 수도 있다. 비강으로 이환되는 결과로써 급성의 빈혈성의 코피가 나타날 수도 있다. 초기에는 사춘기시기에 이 질환이 잘 발생하므로 수술시기는 사춘기가 지날 때까지 기다리는 것이 일반적이었다. 그러나 외과적 시술이 잔여의 정상 조직의 성장율을 변경시킨다거나 악성으로의 전이를 촉진한다는 의학적 보고에 의한 증거는 없다^{9,13,35,36)}. 외과적 처치는 섬유성 이형성증의 양상에 따라 다양하게 시도되는데 병리적인 골절은 적합하게 부목(splint)시키면 잘 치유될 수 있다. 이환된 골의 모든 비정상 조직의 제거 없이 일부를 제거하기도 하며, 자가골의 block 이식체는 섬유성 이형성증의 일부를 포함하는 잔존 골과 성공적으로 유탑된다. 장골의 파절시의 수질내 고정은 성공적이며, 약해진 장골에서 파절편이 튀어나오는 것을 막기 위해 수질강내 편을 예방적으로 삽입하는 것을 지지하고 있다. 하악골에서 추천할 수 있는 외과적 술식이라고 하겠다⁹⁾. Chen 등¹³⁾은 두개안면부위에 발생한 섬유성 이형성증의 치료시기와 치료법위에 대한 연구에서 두개안면부를 4가지 영역으로 분류(Zone 1 : 상악치조골상방의 안면부위, Zone 2 : 모발이 있는 두개부위, Zone 3 : 두개기저부, 추체부, 유양부, 익돌부로 중요혈관 및 신경이 포함된 위험부위, Zone 4a : 상악치아 존재부위, Zone 4b : 하악치아 존재부위)하고 치료방법에 대해 Zone 1은 광범위한 절제와 재건을 시행하고 Zone 2는 선택적으로 광범위한 또는 보존적인 치료를 선택적으로 시행하고, Zone 3은 증상이 없는 경우 수술을 시행을 보류하고 주기적인 관찰을 시행하고, Zone 4는 보존적인 치료방법을 제시하였다. 그러나 섬유성 이형성증의 부위에서 보존적인 부분 절제가 골의 비대나 이형과 같은 재발이 25% 정도 일어난다고 하였다.

외과적 수술은 중요한 기능이 위협받거나 이형성이 상당히 발전하였을 때 빠른 시간 내에 이루어져야 한다. 이환된 골의 전체적인 적출은 필요하지도 않고 이상적이지도 않다. 이차적인 이형성이 점차 확대되는 덩어리와 연관되었을 때 초기의 수술로 제거되거나 최소화되어야 한다고 하였다. 안면골이나 두개골에서 확대된 골의 표면을 정상 표면으로 간단하게 다듬는 것은 꽤 효과가 있다. 하지만 전체 환자의 1/4에서 위와 같이 치료하였을 때, 수술후 재발이 나타났다고 하였다. 그러나 이러한 접근이 몇 년 후 다시 재수술을 하더라도 매우 효과적으로 나타났다^{9,33,34)}.

Edgerton 등⁹⁾은 병변을 다듬고, 얇게 만들고, 제거된 골을 재건하기 위해 유리골이식을 시행하였으며, 이러한 섬유성 물질이 낮은 골생성능력을 갖더라도, 주위의 골로부터 골아세포의 내부 이동을 촉진하는 훌륭한 골격체로 작용을 한다고 하였다. 비정상골의 적출은 정상골을 이식하여 기능

을 유지시켜주었다. 특히 어린아이의 섬유성 이형성증의 과형성된 골 표면을 간단하게 다듬었을 때, 이환된 골이 조금이라도 남아있으면 점진적인 재발이 발생하게 된다. 완벽한 제거, 형태의 재형성, 그리고 이러한 골의 제거는 재발을 막을 수 있다고 하였다. 골을 제거하고, 재형성하고, 그리고 재이식(reimplant) 기술을 사용하여 훌륭한 골 치유와 술후 좋은 외형을 얻었고, 골 팽창이 재발할 수 있는 근거를 찾지 못했다고 하였으며 보다 많은 시간과 증례가 이같은 초기의 결과로 시술에 대한 평가를 할 수 있는지 확인하는데 필요하다고 하였다. 만약 섬유성 이형성증의 이형성골을 제거한 후 지속적인 성장 능력이 감소되었을 때 그것을 평가하기는 이르지만, 이식한 동종의 정상골 내에서의 골아세포의 사멸은 비혈관화(devascularization)가 이형성 과정을 유발한다는 개념에 대한 신뢰를 갖도록 해준다고 하였다. methyl-methacrylate의 이식으로 성공적인 재건을 시행하였으며, 이 방법은 많은 양의 동종골을 사용하였을 때의 병발생 가능성을 제거하고, 재식한 조직의 재발 위험을 방지한다. 수술 후 아크릴 매식체는 인접한 종종 비정상적인 골 병변의 변연과 분리된다고 하였다. 섬유성 이형성증을 가진 많은 환자들의 회복을 위한 선택적 방법으로 또한 크기가 큰 methyl-methacrylate에 대해서도 보고되었다. 이 매식체는 잘 견디면서 높은 질의 임상적 결과를 만들어내고 다른 방법에 비해 병적 상태를 더욱 낮추었다.

Martinez-Lage³⁷⁾는 block resection을 시행하고 섬유성 이형성증을 대신할 골의 재이식술의 적용에 대해 보고하였다. 그는 3가지 증례를 2년간 내원검사를 시행하였으며, 골의 성장이 중단되는 것 뿐만 아니라, 재 이식한 골의 경미한 무형성을 발견하였고 몇 번의 생검에서 골의 이형성을 발견하지는 못했다고 하였다. 그는 안면부와 안부의 성형시 늑골과 장골을 이용한 자가골의 이식을 하였을 때, 종종 술 후 기간에 자발적인 흡수를 보였다고 하였다. 안면의 형태를 재건하기 위한 자가골의 이식에서 나타나는 점진적인 흡수는 모든 두개안면부 나타나는 문제점이었다. Moore 등³⁶⁾은 최근에 두개안면부 섬유성 이형성증에 대한 경험을 보고하였고, 이환된 골에 대한 처치를 광범위한 절개와 자가골 이식을 통한 재건법을 추천하였다. 16명 환자 중 13명의 머리뼈 기저부에 잔존된 골 이환부를 남겨두었다고 보고하였으며, 6명의 환자는 술후의 임상적인 재발이 있었다. 그들은 methyl-methacrylate 매식술을 사용하거나, 제거되어 재건된 이형성골로부터 생성된 이식재를 사용하는 방법에 대해서는 언급하지 않았다. Collins 등³⁸⁾은 골 신생을 자극하고 절제후의 골의 재건에 있어 이식재의 점진적인 대체가 일어나게 하는 이식재의 사용을 보고하였다. 따라서 이마, 안와천정, 비강저, 전두연의 기저부, 상악, 하악의 일부분을 재건하기 위해 성공적으로 섬유성 이형성골을 제거하고, 얇게 만들고, 성형하고, 이식재로 대치하였으며, 동시에 골 재

건을 위해 인접부위에 있는 자가골 이식재를 사용했다. 많은 연구들에서 자가골이 훨씬 더 빨리 골 신생을 자극하고, 간편하다는 것을 지적하고 있고, 섬유조직으로부터 얻어진 이식재를 사용함으로써 임상적 효용가치가 더 높다는 것은 고려해 볼 가치가 있는 것이다. 연조직의 구조적 지지가 더욱 확실해지고, 우수한 풍용성이 계속 유지되지만, 이식재의 과도한 비정상적 두께 증식은 일어나지 않는다고 하였다. Edgerton 등⁹은 이런 외과적 접근을 다른 외과의들에게 강하게 추천하였다. 이 외과적 술식은 공여부의 병적 상태가 확실히 감소되고, 이런 특이한 질환을 가진 어린이들에 있어서의 기형과 기능적 상실을 조절하기 위해 부가적인 혜택을 제공할 수 있다.

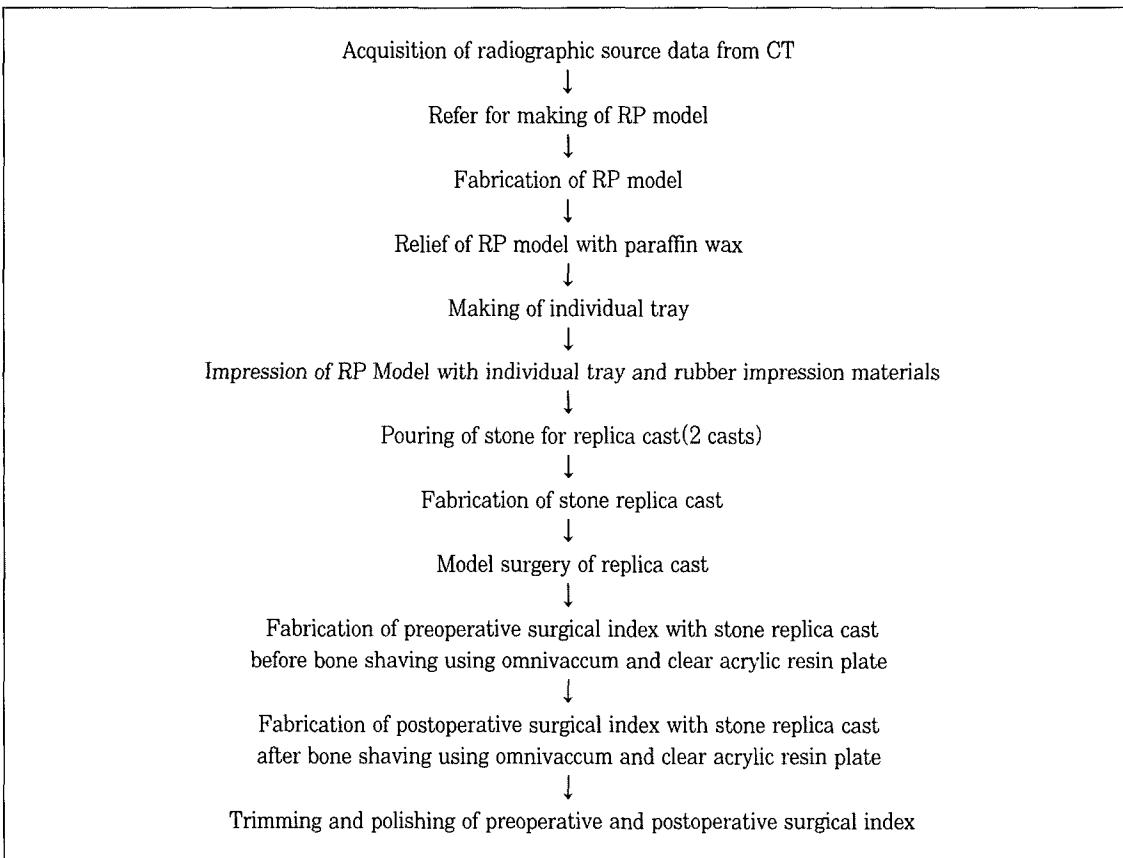
수술 방법에서 골을 삭제하는 방법 중 심미성과 기능성을 유지하면서 삭제하고자 하는 양을 측정하는 방법을 수술전 객관성있는 자료를 통해 골삭제후 심미성과 기능성을 도모하는 수술전 예측방법에 대한 논의는 문헌상 거의 없는 것으로 사료되며 수술 중 삭제하고자 하는 범위나 양은 수술 중 출혈이나 부종으로 인하여 육안적으로 정확한 계측을 하기가 힘들다. 저자는 이러한 점을 극복하고자 수술전 rapid prototyping 모형을 제작하여 수술전에 모형수술을 시행하고 수술전과 수술후를 비교하여 이를 수술에 이용하고자 하였다. 환자의 검진후 컴퓨터 단층촬영을 시행(CT scanning protocol : 2mm slit thickness, pitch 1.5, 2mm slice distance, 관전류 200mA, 관전압 120KVP)하였고 여기에서 얻어진 자료는 DICOM 파일 형태로 RP모형 제작을 의뢰하였다. 컴퓨터를 이용한 rapid prototyping의 임상적용은 다양하게 이용되고 있는데 3차원 모형상에서 직관적이고 정량적인 치료계획의 수립하는데 도움이 되며, 악안면부의 기형이나 악교정 수술, 악안면부의 종양이 있는 경우 모의수술용으로 이용할 수 있고, 종양제거후 재건술 또는 골절환자 등에서 수술전에 template을 제작하여 이용하므로서 실제 수술시간을 단축할 수 있으며, 실물 및 축소 모형이 제작 가능하여 특이 증례 및 의무기록으로 보관할 수 있다.

RP모형의 정확성은 실제 인체 장기와 크기 및 형태가 거의 허용할 수 있는 범위의 오차를 보이는데 최 등³⁹은 rapid prototyping으로 제작한 3D Medical model의 오차 측정에 관한 연구에서 본 증례에서 사용한 유사한 CT (Somatom plus 4, Semens Inc.)을 사용하였고 RP 표준 입력 포맷인 STL 모델로 변환하고, 이를 RP제작 장비에 입력하여 RP 모형을 제작하였고 RP 장비로는 SLA 5000(3D Systems Corp)기종을 이용하였다. CT 촬영조건으로 Slice thickness는 1.0mm, Pitch는 1.5, 관전류는 200mA, 관전압은 120KVP로 하였다. pitch는 본 증례와 같으며 이는 Ge Wang이 제안한 optimal pitch인 Squit(2)에 가깝게 설정하였다. 두개골과 3차원 영상모델사

이에는 $0.49 \pm 0.36\text{mm}$ (오차율 $0.67 \pm 0.53\%$)의 절대값 오차를 보였다고 하였으며, 3차원 영상모델과 RP모형 간에는 $0.59 \pm 0.68\text{mm}$ (오차율 $0.88 \pm 0.53\%$)의 절대값 오차를 보였다고 하였다. 이러한 오차율은 임상에서 사용할 경우 두개골과 RP모형간에 절대값 오차는 $1.08 \pm 1.04\text{mm}$ (오차율은 $1.55 \pm 1.06\%$)임을 감안하여 수술에 이용하여 오차를 줄일 수 있도록 하여야 한다. Lill 등⁴⁰은 인간 건조 두개골과 밀링을 이용한 polyurethane 모형간의 오차는 평균 1.5mm 라고 하였고 Barker 등⁴¹은 건조두개골과 SLA 모형간의 오차는 $+0.85\text{mm}$ 의 오차를 보였다고 하였다. 일반적으로 밀링을 이용하여 생성한 모형보다는 stereolithography를 이용하여 생성한 모형이 더 정밀한 것으로 보고되고 있으며 본 증례에서 사용한 방법도 이와 동일한 방법을 사용한 것이다. 본 증례에서는 오차율은 최 등이 연구한 것이 비하여 약간 더 높을 수 있는데 이는 컴퓨터 단층촬영시 slice thickness가 2mm로 더 두꺼웠기 때문이다라는 것으로 예상을 할 수 있었다. 같은 기종의 컴퓨터 단층촬영기를 이용하여 3.0mm의 slice thickness로 촬영을 시행하였을 경우 오차는 0.5~1.2mm의 범위로 나타나며 이러한 범위의 오차는 임상에서 RP모형을 응용할 수 있다는 가능성이 충분히 있다고 사료된다.

RP를 이용한 모의수술은 신경외과, 정형외과, 흉부외과, 성형외과 등 다양한 방면에서 이용되고 있는데 본 증례의 경우는 섬유성 골이형성증을 가진 안모의 심미적 비대칭을 동반한 경우로 골삭제의 기준을 육안적으로 확인하는 방법보다는 객관적으로 그 범위와 양을 확인하기 위하여 RP모형을 이용하여 이를 복제하여 수술전 모형과 복제된 모형상에서 모의수술을 통하여 수술후 모델을 만들고 이것을 비교하기 위하여 진공흡착을 시키는 omnivaccum과 투명한 레진판을 이용하여 술전 술후 모형에 template를 만들어 이것을 수술시 이용하는 외과적 지표(surgical index)로 사용하였는데 이러한 방법을 이용하면 수술전 외과적 지표에 골삭제부위를 미리 표시하여 섬유성 이형성 부위에 적합시켜 삭제하고자하는 경계부와 두께를 설정하고 이것을 기준으로 삭제하면 육안적으로 삭제하는 방법보다는 객관성이 있는 수술방법이 된다고 사료된다(Fig. 12). 수술전 미리 수술하고자 하는 부위를 설정하는 방법은 이러한 RP모형의 제작과정을 응용하여 치아의 재식시에도 사용되고 있어 좋은 결과를 얻고 있다.

본 증례에서 사용한 방법은 만들어진 RP모형을 다시 복제하고 복제한 모형을 모의수술을 통하여 술전 술후 모형상에서 다시 외과적 지표를 채득하는 방법으로 시간과 모형을 만드는데 비용이 들어가므로 이것을 3차원 영상에서 모의수술을 시행하고 여기에서 외과적 지표의 두께와 위치와 범위를 설정하여 외과적 지표만을 RP모형을 만드는 과정처럼 제작한다면 시간과 비용을 절약할 수 있으리라 사료되며 현

**Fig. 12** Schematic drawing of surgical index fabrication.

재 국내에서는 이러한 과정을 제작하지 못하고 있어 여기에 대한 연구가 추가적으로 필요하리라 사료된다.

VII. 결 론

섬세한 조작과 술후 예측을 할 수 있는 수술 방법을 이용하여 섬유성 이형성증을 가진 환자의 병소를 더 광범위하고 정확하게 절제하는 것이 가능하다. 본 증례의 경우 컴퓨터 단층촬영을 통한 술전 복제모형을 체득하고 모형 상에서 병소부의 골삭제를 시행하였다. 수술 전 모형과 수술 후 모형상에서 수술 전, 후 지표를 제작하고 만들어진 수술 전후 지표를 수술 중 병소부위에 적용하고 또한 제거된 골양을 지표에 담아 지표를 중첩시켜 수술 시 삭제된 골의 양과 범위를 정확히 확인할 수 있었다. 외과적 지표를 이용한 골삭제 후 심미성은 증진되고 구치부의 악간 수직고경을 확보할 수 있었다.

외과적 지표를 이용할 경우의 장점으로는 첫 번째 술전 술 후 지표를 중첩시켜서 제거된 골의 두께와 범위를 쉽게 확인할 수 있으며, 둘째 이 외과적 지표는 제거된 골조각을 쉽게 담아둘 수 있는 용기의 역할을 하며, 셋째 골삭제 시 안내(guide)역할을 하며, 네 번째 골조작시 골과 연조직 사이에

위치시켜 연조직을 보호하는 역할을 할 수 있다. 이와 같은 장점을 지닌 외과적 지표를 이용하여 국소적으로 발생한 섬유성 이형성증의 효과적인 삭제를 시행하여 만족할 만한 결과를 얻었다.

추후 컴퓨터 단층촬영을 통하여 얻어진 방사선 자료를 이용하여 컴퓨터 상의 3차원적인 영상을 만들고 3차원 영상에서 술전 술후 변화를 예측할 수 있도록 모형수술(simulation surgery)을 시행하고 이 영상을 통하여 일정 두께의 외과적 지표를 제작하여 수술에 이용한다면 본 증례에서 사용한 rapid prototyping 모형을 제작하고 인상을 채득하여 복제모형을 만들어서 이것을 다시 omnivaccum을 이용한 외과적 지표를 만드는 과정을 생략할 수 있어 편리하게 이용할 수 있으며, 상기의 컴퓨터 영상을 통한 수술을 통한 방법의 개발이 필요하리라 사료된다.

참고문헌

- Eversole LR, Sabes WR, Rovin S : Fibrous dysplasia : a nosologic problem in the diagnosis of fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Pathol. 1:189-220, 1972.
- Bessho K, Tagawa T, Murata M, Komaki M : Monostotic

- fibrous dysplasia with involvement of the mandibular canal. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 68:396-400. 1989.
3. Schmaman A, Smith I, Ackerman LV : Benign fibro-osseous lesions of the mandible and maxilla. *Cancer.* 26:303-312. 1970.
 4. Obwegeser HL, Freihofer Jr HPM, Horej J : Variation of fibrous dysplasia in the jaws. *J Maxillofac Surg.* 1:161-171. 1973.
 5. Waldron CA : Fibro-osseous lesions of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg.* 51:828-835. 1993.
 6. Tanner HC, Dahlin DC, Childs DS : Sarcoma complicating fibrous dysplasia. Probable role of radiation therapy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 14:837-846. 1961.
 7. Schwartz DT, Alpert M : The malignant transformation of fibrous dysplasia. *J Bone Joint Surg.* 54:1047-1056. 1972.
 8. Slow IA, Stern D, Freidman E : Osteogenic sarcoma arising in a pre-existing fibrous dysplasia: Report of a case. *J Oral Surg.* 29:126-129. 1971.
 9. Edgerton MT, Persing JA, Jane JA : The surgical treatment of fibrous dysplasia. Wkth emphasis on recent contributions from crano-maxillo-facial surgery. *Ann Surg.* 202:459-479. 1985.
 10. Stompro BE, Bunkis J : Surgical treatment of nasal obstruction secondary to craniofacial fibrous dysplasia. *Plast Reconstr Surg.* 85:107-111. 1990.
 11. Munro IR, Chen YR : Radical treatment for fronto-orbital fibrous dysplasia: the chain link principle. *Plast Reconstr Surg.* 67:719-729. 1981.
 12. Jackson IT, Armstrong HH : Treatment of cranio-orbital fibrous dysplasia. *J Maxillofac Surg.* 10:138-141. 1982.
 13. Chen YR, Noordhoff MS : Treatment of craniomaxillofacial fibrous dysplasia: How early and how extensive? *Plast Reconstr Surg.* 86:835-842. 1990.
 14. Waldron CA, Goiansanti JS : Benign fibro-osseous lesions of the jaws: A clinical-radiologic-histologic review of sixty-five cases: 1. Fibrous dysplasia of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 35:190-201. 1973.
 15. Albright A : Polyostotic fibrous dysplasia: A defence of the entity. *J Clin Endocrinol.* 7:307-324. 1962.
 16. Benedict PA : Sex precocity and polyostotic fibrous dysplasia. *Am J Dis Child.* 111:426-429. 1966.
 17. Bratt M, Rybak LP, Mann JL : Fibrous dysplasia masquerading as chronic maxillary sinusitis. *J Ear Nose Throat.* 68:42-46. 1989.
 18. Finney HL, Roberts TS : Fibrous dysplasia of the skull with progressive cranial nerve involvement. *Surg Neurol.* 6:341-343. 1976.
 19. Chen YR, Fairholm D : Fronto-orbito-sphenoid fibrous dysplasia. *Ann Plast Surg.* 43:249-262. 1985.
 20. Lichtenstein L, Jaffe HL : Fibrous dysplasia of bone. *Arch Path.* 33:777-816. 1942.
 21. Schlumberger HG : Fibrous dysplasia of single bones (monostotic fibrous dysplasia). *Milit Surg* 99:504-527. 1946.
 22. Hummel R : Zwei Fälle von ostitis deformans paget. *Rontgen.* 6:513-519. 1934.
 23. Houston WO : Fibrous dysplasia of maxilla and mandible: clinico-pathologic study and comparison of facial bone lesions with lesions affecting general skeleton. *J Oral Surg.* 23:17-39. 1965.
 24. Fries JW : Roentgen features of fibrous dysplasia of the skull and facial bones. A critical analysis of thirty-nine pathologically proved cases. *Am J Roent.* 77:71-88. 1957.
 25. Ramsey He, Strong EW, Faxell EL : Fibrous dysplasia of the craniofacial bones. *Am J Surg.* 116:542-547. 1968.
 26. Sassin JF, Rosenberg RN : Neurological complications of fibrous dysplasia of the skull. *Arch Neurol.* 18:363-369. 1968.
 27. Schonher A : Fibrous dysplasia of bone with proptosis. *Am J Dis Child.* 131:678-679. 1977.
 28. Slootweg P, Muller H : Differential diagnosis of fibro-osseous jaw lesion: a histological investigation on 30 cases. *J Craniomaxillofac Surg* 18:210-214. 1990.
 29. Chanus GW : Osteoblastic hyperplasia of bones. *Cancer.* 10:1157-1165. 1957.
 30. Tabolt IC, Keith DA, Lord IJ : Fibrous dysplasia of the craniofacial bones, a clinicopathological survey of seven cases. *J Laryn Otol.* 88:429-443. 1974.
 31. Pritchard JE : Fibrous dysplasia of the bones. *AM J Med Sci.* 222:313-332. 1951.
 32. Campanacci M, Bertoni F, Capanna R : Malignant degeneration in fibrous dysplasia. *Ital J Orthop Traumatol.* 5:373-381. 1979.
 33. Obisesan AA, Lagundoye SB, Daramola JO : The radiologic features of fibrous dysplasia of the craniofacial bones. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 44:949-959. 1977.
 34. Petrikowski CG, Pharoah MJ, Lee L, Grace MG : Radiographic differentiation of osteogenic sarcoma, osteomyelitis and fibrous dysplasia of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 80:744-750. 1995.
 35. Munro IR : Discussion : Treatment of craniomaxillofacial fibrous dysplasia: How early and how extensive? *Plast Reconstr Surg.* 86:843-844. 1990.
 36. Moore AT, Buncic JR, Munro IR : Fibrous dysplasia of the orbit in childhood. Clinical features and management. *Ophthalmology.* 92:12-20. 1985.
 37. Martinez-Lage JL : Bony reconstruction in the orbital region. *Ann Plast Surg* 7:64-65. 1981.
 38. Collin DH, Curzan RC : Modern trends in pathology. London, Butterworth & Co. Ltd, 300-312. 1959.
 39. 최진영, 최정호, 김남국, 이종기, 김명기, 김명진, 김영호 : Rapid prototyping으로 제작한 3D Medical Model의 오차 측정에 관한 연구. *대한구강악안면외과학회지* 25:295-303. 1999.
 40. Lill W, Solar P, Ulm C, Watzek G : Reproducibility of 3-dimensional CT assisted model production in the maxillo-facial area. *Br J Oral maxillofac Surg* 30:233-236. 1992.
 41. Barker TM, Earwaker WJ, Lisle DA : Accuracy of stereolithographic models of human anatomy. *Australas Radiol* 38:106-111. 1994.

저자연락처

우편번호 501-825

광주광역시 동구 서석동 421번지

조선대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

김운규

원고 접수일 2001년 05월 04일

게재 확정일 2001년 05월 24일

Reprint requests

Woon-Kyu Kim

Dept. of OMFS, College of Dentistry, Chosun Univ.
#421 Seosuk-Dong, Dong-Gu, Kwangju, 501-825, Korea
Tel. 82-62-220-3610, 3816 Fax. 82-62-224-9172

Paper received 4 May 2001

Paper accepted 24 May 2001