

기저세포모반증후군을 동반하지 않은 다발성 악골낭 두 증례

전남대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
윤숙자 · 강병철

Multiple jaw cysts not associated with basal cell nevus syndrome

Suk-Ja Yoon, Byung-Cheol Kang

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Chonnam National University

ABSTRACT

We present two cases of multiple jaw cysts not associated with basal cell nevus syndrome. Case 1: a nine year-old boy visited CNU Hospital for orthodontic treatment and his radiographs showed cystic lesions surrounding the crowns of teeth #13 and #17 respectively, which were diagnosed as dentigerous cysts. Subsequently, two more cysts were found on his follow-up radiographs in 12 and 15 months. The two cysts were determined to be odontogenic keratocysts. The boy had no skeletal abnormalities and no skin lesions associated with basal cell nevus syndrome. Case 2: a fifty-eight year old man had three impacted third molars with pericoronal radiolucencies, which were diagnosed as dentigerous cysts. He had no additional abnormalities associated with basal cell nevus syndrome. Multiple jaw cysts can occur at any age, and periodic radiographic surveillance may be needed for any cases of impacted tooth. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2003; 33 : 195-8)

KEY WORDS : jaw cysts; basal cell nevus syndrome; tooth, impacted

악골에서 다수로 발생하는 낭은 단독으로 발생하는 낭에 비해 매우 드물다. 증후군을 동반하지 않은 악골의 다발성 낭을 다발성 악골낭 (multiple conventional jaw cysts) 이라고 하며, 이 때 발생할 수 있는 낭은 대부분 치성각화 낭이며 그 외에도 함치성낭, 치근단낭 등이 있다.¹

악골의 다발성 낭은 기저세포모반증후군과 관련되어 발생할 수 있으므로, 악골의 방사선사진에서 다발성 낭이 발견되면 증후군을 의심해보고 임상 및 병리 검사를 하게 된다.^{1,2} 만일 악골의 다발성 낭 이외의 기저세포모반증후군의 증상들이 나타나지 않으면, 다발성 낭으로 임시 진단을 내릴 수 있다. 그러나 다발성 낭이 있다가 나이가 들면서 기저세포모반증후군의 다른 증상이 나타난 경우의 보고³도 있으므로, 다발성 낭이 있는 사람은 방사선사진 검사 및 임상 검사를 지속하여 기저세포모반증후군으로의 진행여부를 지속적으로 관찰해야 한다.^{1,4}

다음은 어린이와 성인에게서 발생한 기저세포모반증후군을 동반하지 않은 다발성 악골낭의 두 증례이다.

증례 보고

증례 1

2001년 8월에 9세 소년이 전남대학교병원에 교정치료를 위해 내원하였다. 파노라마 방사선사진에서 상악 우측 견치 및 제2대구치에 치관을 포함하여 경계가 명료한 낭성의 방사선투과상 병소가 확인되었다 (Fig. 1). 기저세포모반증후군 여부를 알기 위하여, 피부과에 환자를 의뢰하여, 몸에 난 여러 반점에 대한 모반기저세포암종 여부를 알아보고, 동시에 흉부사진을 촬영하였다. 피부과 검사와 흉부사진 검사 결과에서 환자는 정상 소견을 보여, 기저세포모반증후군은 배제되었다. 발육중인 치아 #13, #17을 포함하는 함치성낭에 대해 조대술을 시행하였다. 낭의 일부 조직을 채취하여 조직병리 검사를 하였고, 그 결과 비각화성의 치성상피가 존재하는 함치성낭으로 확인되었다 (Fig. 2).

환자는 추적 방사선사진을 촬영하여 조대술 후 치아의 맹출을 관찰하였다. 이 과정에서 2002년 3월 촬영한 방사선사진에서는 (Fig. 3) 보이지 않던 새로운 방사선투과성 상이 5개월 후인 2002년 8월 촬영한 방사선사진에서 발견되었다. 하악 좌측 측절치와 견치 치근 사이에 눈물방울 형태의 장경 10 mm의 경계가 뚜렷한 방사선투과상의 이 낭

접수일: 2003년 6월 26일; 심사일: 2003년 6월 27일; 채택일: 2003년 8월 12일
Correspondence to: Dr. Suk-Ja Yoon
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Chonnam National University Dongku, Hak 1, Gwangju, 501-757, KOREA
Tel) 82-62-220-5426, Fax) 82-62-228-2924
E-mail) yoonfr@chonnam.ac.kr

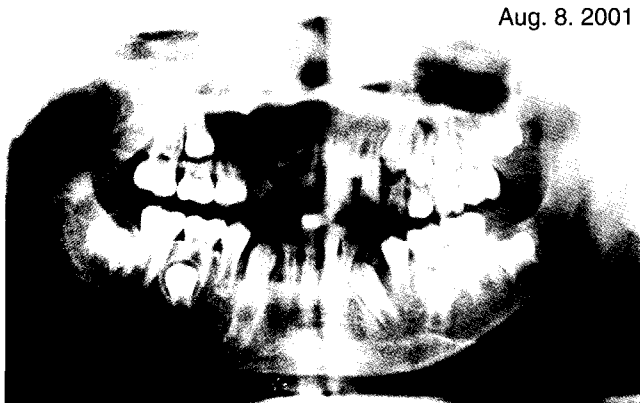


Fig. 1. The panoramic radiograph of a 9 year-old boy shows two dentigerous cysts on tooth #13 and #17. Tooth #13 is displaced superiorly and #17 is displaced into the maxillary sinus.



Fig. 2. The cystic wall from the cyst of #13 is lined with non-keratinized stratified epithelium. Hematoxylin-eosin stain. (Original magnification $\times 40$)

성 병소는 일단 측방치주낭으로 진단되었다(Fig. 4). 이 새로운 낭은 초진으로 두 개의 함치성낭이 발견된 이후 12개월 만에 발견된 것이다. 이 병소는 적출되었고, 이장상피의 조직병리 검사 결과 각화상피로 이장되어 있어 치성각화낭으로 진단하였다(Fig. 5).

이후의 추적 방사선사진에서 2002년 11월에 맹출 중인 하악 우측 제2소구치의 치관을 포함한 낭이 발견되었는데 이것은 3개월 전 2002년 9월에 촬영한 사진(Fig. 6)에서는 나타나지 않았던 새로운 방사선투과상으로, 초기 낭 발견 이후 15개월 후이었다(Fig. 7). 제2유구치를 발거하고 하악 우측 제2소구치를 둘러싸는 함치성낭의 조대술을 시행하였다. 이장상피의 일부에 대하여 조직병리 검사를 시행하였다. 검사 결과 각화성 이장상피로 둘러싸인 치성각화낭



Fig. 3. After the dentigerous cysts were treated by marsupialization, the displaced teeth are gradually repositioning near to their own positions.



Fig. 4. A new lateral positioned cystic lesion was detected between the lower left lateral incisor and canine in 5 months after the previous follow-up radiograph.

임이 밝혀졌다.

이 환자는 현재 추적방사선사진 검사를 하고 있다.

증례 2

58세의 남자가 우측 하악 부위의 감각 이상을 주소로 전남대학교병원 치과진료처에 내원하였다. 파노라마 방사선사진에서 네 개의 제3대구치 매복이 발견되었으며, 상악 우측 제3대구치, 하악 좌우측 제3대구치의 치관을 포함하는, 경계가 명료한 방사선투과성의 낭성 병소가 나타났다. 하악 우측의 낭성 병소는 그 경계가 조개껍질 모양이었다(Fig. 8). 다발성 악골낭이 존재하므로 기저세포모반증후군 여부를 확인하기 위하여 피부과에 의뢰하여 반점을 검사하였으나, 모반기저세포암종은 발견되지 않았다. 함치성낭으로 임시 진단하고 적출술 및 골 이식술을 시행하였다. 수술을 하기 전에 촬영한 흉부 방사선사진에서도 늑골의

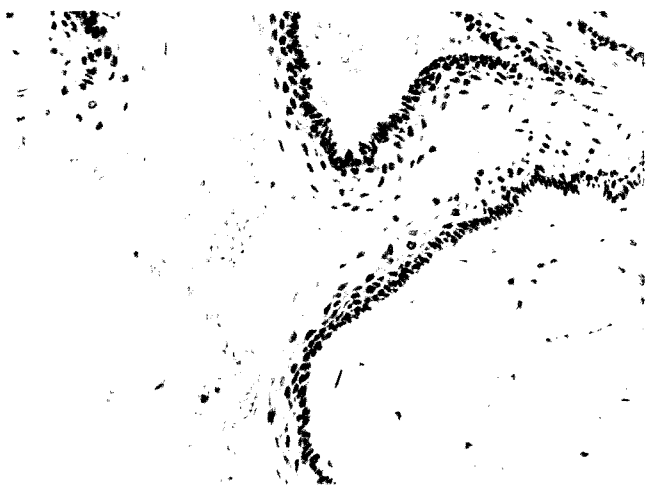


Fig. 5. Histologic feature of the enucleated cyst between the lower left lateral incisor and canine shows a keratin-filled cyst with well-differentiated stratified squamous epithelium. The basal cells are columnar or cuboidal and were arranged in a well-defined, palisading row. Hematoxylin-eosin stain. (Original magnification × 40)

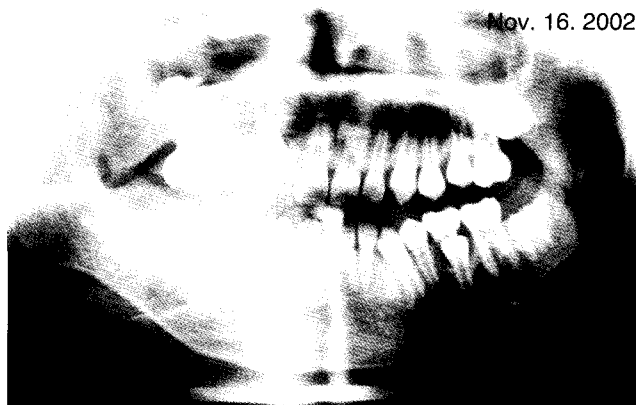


Fig. 7. Another new cyst was developed involving the crown of the lower right 2nd premolar within 3 months after the previous radiograph was taken.



Fig. 6. The cystic lesion medial to the tooth #33 was enucleated with bone graft.

어떤 이상은 발견되지 않았다. 적출된 낭의 이장상피를 조직병리검사한 결과 비각화성상피가 나타나 함치성낭으로 최종 진단하였다.

고 찰

악골의 다발성 낭은 기저세포모반증후군과 관련되어 발생할 수 있으므로, 악골을 촬영한 방사선사진에서 다발성 낭을 발견하면 기저세포모반증후군 여부에 대한 추가 검사를 해야 한다.^{1,4}

상염색체 우성으로 유전되는 기저세포모반증후군은, 다



Fig. 8. There are well-defined pericoronal radiolucent lesions associated with the displaced 3rd molars #18, #38, and #48.

수의 모반기저세포암종, 악골의 다발성 낭, 척추와 늑골 이상, 두개골내 석회화가 나타날 수 있으므로, 이러한 증상의 일부 또는 전부가 나타나는지를 면밀히 검사해야 한다.² 기저세포모반증후군에서는 함치성낭, 원발성낭, 치근단낭 등이 발생하며, 조직학적으로는 주로 치성각화낭이다.⁴

Woolgar JA 등은 522명 환자의 682개의 치성각화낭을 조사하였는데, 이 중 15명의 환자에서 초기 낭이 진단된 이후 새로운 낭이 발견되었으며, 이때 초기에 발견된 낭과 새로 발견된 낭의 발생 간격은 1-23년으로 매우 다양하였다. 한 환자에서는 23년 후에 또 다른 낭이 발견되었으며, 이열늑골, 잠재이분척추(spina bifida occulta), 피부의 포피낭 등과 같은 기저세포모반증후군의 증상이 추가로 검진되었다.³

증례 1에서 처음 두 개의 함치성낭이 발생하였고, 12개월 후에는 치아를 포함하지 않은 치성각화낭이 발생하였고, 15개월 후에 또 다시 치아를 포함한 치성각화낭이 발생하였다. 이러한 연속적인 다수의 낭이 발생하였지만, 기

기저세포모반증후군을 동반하지 않은 다발성 악골낭 두 증례

저세포모반증후군을 입증할 다른 증상은 없었고, 환자의 가족력에도 기저세포모반증후군을 나타낸 사람이 없었다. 그러나 Woolgar 등³의 보고에서 나중에 기저세포모반증후군의 증상이 나타난 예가 있고, 4개의 낭 중 2개가 재발율이 높은 치성각화낭이고, 환자의 나이가 아직 어리기 때문에 지속적인 추적 관찰은 필수적이라 하겠다.^{1,5}

매복된 제3대구치에서 발생하는 낭은 20대 및 30대에서 호발한다.⁶ 그러나 증례 2에서는 세 개의 매복 지치에서 함치성낭이 발생하였는데, 호발 연령에서 벗어난 58세에 낭이 발견되었다는 점이 특이한 사실이다. 매복 지치에 이처럼 늦은 나이에 낭이 발생하지만, 임상가가 임상 증상이 없는 매복 지치를 예방적으로 발거하면 다음과 같은 문제점이 발생할 수 있다는 사실을 알아야 한다. 무증상 매복 지치를 발거하는 경우, 동통, 부종, 출혈, 하치조신경의 손상 및 제2대구치의 치주질환 등의 합병증이 있을 수 있다.⁷ 또한 30세 이상의 환자에서 제3대구치를 발거했을 때 제2대구치 원심면에 골내 결손을 일으키게 된다. 외과적 발거술을 신중히 하고 발거 후 치주 관리를 철저히 하여도 제2대구치의 손상을 보상하기는 어렵다.⁸ 그러므로 매복된 지치 발거 여부에 대하여, Mercier와 Precious는 치아가 아직 발육하고 있는 14세 또는 22세 이하에서는 발거하고, 그 이후 연령에서는 발치 득실에 따른 자세한 설명을 환자에게 해주고, 환자가 발치를 원하지 않으면 지속적으로 관찰하는 것이 좋다고 하였다.⁹

제3대구치는 가장 많이 매복되는 경향이 있는 것은 잘 알려진 사실이고, 증례 2는 이러한 매복지치가 연령에 무관하게 악골낭을 유발할 수 있는 잠재성을 가지고 있어

지속적인 추적방사선사진 검사가 필요하다는 것을 입증한다고 하겠다.

참 고 문 헌

1. Wood NK, Goaz PW. Differential diagnosis of oral and maxillofacial lesions. 5th ed. St. Louis: Mosby-year Book Inc.; 1996. p. 381-3.
2. Olson RAJ, Stroncek GG, Scully JR, Govin L. Nevroid basal cell carcinoma syndrome: review of the literature and report of a case. J Oral Surg 1981; 39 : 308-12.
3. Woolgar JA, Rippin JW, Browne RM. The odontogenic keratocyst and its occurrence in the nevroid basal cell carcinoma syndrome. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1987; 64 : 727-30.
4. Gorlin RJ, Vickers RA, Kelln F, Williamson JJ. The multiple basal-cell nevi syndrome. An analysis of a syndrome consisting of multiple nevroid basal-cell carcinoma, jaw cysts, skeletal anomalies, medulloblastoma, and hyporesponsiveness to parathormone. Cancer 1965; 18 : 89-104.
5. Rud J, Pindborg JJ. Odontogenic keratocysts: a follow-up study of 21 cases. J Oral Surg 1969; 27 : 323-30.
6. Main DMG. Follicular cysts of mandibular third molar teeth: radiological evaluation of enlargement. Dentomaxillofac Radiol 1989; 18 : 156-9.
7. Ghali GE, Jones DL, Wolford LM. Somatosensory evoked potential assessment of the inferior alveolar nerve following third molar extraction. Int J Oral Maxillofac Surg 1990; 19: 18-21.
8. Kugelberg CF. Periodontal healing two and four years after impacted lower third molar surgery. A comparative retrospective study. Int J Oral Maxillofac Surg 1990; 19 : 341-5.
9. Mercier P, Precious D. Risks and benefits of removal of impacted third molars. A critical review of the literature. Int J Oral Maxillofac Surg 1992; 21 : 17-27.