

## 치아종을 동반한 석회화 치성낭의 치험례

이상엽 · 김대업 · 이광희

원광대학교 치과대학 소아치과학교실 · 원광치의학연구소

### 국문초록

석회화 치성낭은 비교적 드문 낭으로 하나의 독립된 유형의 치성 병소로 인정받고 있지만, 조직학적 소견이 다양하고 분류 체계도 학자들마다 다르다. 석회화 치성낭의 이장상피는 중층편평상피로 되어 있으며, 상피층 내에 특징 세포인 유령세포가 출현한다. 유령세포들은 인접한 결합조직에 치성조직을 유도할 수 있는 능력을 가지고 있어 법랑모세포종, 법랑모세포 치아종, 법랑모세포 섬유치아종, 치아종 등의 치성종양이 합병되어 발생하기도 한다. 외과적 제거 후 재발율은 적지만 치성종양이 병발될 경우가 있기 때문에 반드시 조직병리학적 검사를 수행하여야 한다.

7세 남아가 상악 좌측 중절치의 미맹출을 주소로 원광대학교 치과병원 소아치과에 내원하였다. 방사선 사진에서 맹출되지 않은 상악 좌측 중절치 및 측절치 치관 상방에 방사선 불투과성 물질이 보였다. 초기 임상적 방사선학적 검사 결과 치아종으로 진단하였으며, 외과적 적출 및 생검을 시행하였다. 적출물은 불규칙적인 석회화 물질로 구성된 복잡 치아종 양상을 보였으며 상피조직으로 싸여 있었다. 조직병리학적 검사 결과, 이장상피에서 유령세포의 군집이 관찰되었고, 석회화 조직은 법랑질, 상아질 형태의 조직들이 혼합된 양상을 보여, 복잡 치아종을 동반한 석회화 치성낭으로 진단하였다.

본 증례에서와 같이 매복치 상방의 치아종 양상의 병소가 관찰 되었을 때 석회화 치성낭의 가능성을 염두에 두어야 할 필요가 있다.

**주요어** : 석회화 치성낭, 치아종, 유령세포

### 1. 서 론

석회화 치성낭(calcifying odontogenic cyst: COC)은 1962년 Gorlin<sup>1)</sup>에 의해 처음 기술된 낭으로, 악골에 생기는 낭 중에 1% 정도만 차지하고 있을 만큼 드문 낭이다<sup>2)</sup>. 과거 WHO에서 조직병리학적으로, 핵이 없는 호산성 유령세포를 가지며, 상피와 결합조직벽에 석회화 물질을 포함하는 법랑기질을 닮은 상피 조직에 의해 둘러싸여 있으며, 간혹 다른 병변과 관련되어 나타나는 비신생물의 성격을 가진 낭성 병소로 정의하였으나, 최근에는 치성종양으로 분류하고 있다<sup>3,4)</sup>. 여러 학자들에 의해서 이 병소는 석회화 치성낭(Califying Odontogenic Cyst),

각화 석회화 치성낭(Keratinizing Calcifying Odontogenic Cyst), 석회화 유령세포 치성 종양(Califying Ghost cell Odontogenic Tumor), 낭성 석회화 치성 종양(Cystic Calcifying Odontogenic Tumor), 상아질형성 유령세포 종양(Dentinogenic Ghost cell Tumor), 치성 유령세포 종양(Odontogenic Ghost cell Tumor)등으로 불리기도 한다. 종양의 형태로 나타난 경우에는 드물게 악성의 소견을 갖기도 한다<sup>4,7)</sup>. COC의 현미경적 소견으로 원주세포로 이뤄진 기저층을 가진 낭성 피복상피로 되어 있으며, 정상세망 형태의 층을 가지고 있고, 상피세포층이나 낭벽 내에 특징세포인 유령세포를 가지고 있다<sup>3)</sup>. 이 피복상피는 인접한 결합조직에 치성조직을 유도할 수 있는 능력을 갖고 있어 다른 치성 종양과 흔히 동반하여 발생하는데, 가장 흔한 유형이 치아종이며 드물지만 선양 치성 종양이나 법랑모세포종과 동반하여 발생할 수 있다<sup>8-10)</sup>.

석회화 치성낭의 평균 발생 연령은 평균 16세로 10세 이하에서 발생한 경우는 극히 드물다<sup>11)</sup>. 본 증례는 7세 남아의 상악 전치부에 발생한 치아종을 동반한 석회화 치성낭을 경험하여 이를 보고한다.

교신저자 : 이 광 희

전북 익산시 신웅동 344-2

원광대학교 치과대학 소아치과학교실

Tel : 063-850-1955

E-mail : kwhlee@wonkwang.ac.kr

II. 증례보고

7세 남아가 상악 좌측 중절치가 나지 않는 것을 주소로 원광대학교 치과병원 소아치과에 내원하였다. 구강검사에서 #61, #62 치아가 동요도를 보였으며, 치은의 특이한 변화는 관찰되지 않았다. 치근단 및 교합 방사선 사진상에 #21 #22 치아가 매복, 변위 되어 있었으며 매복된 치아 상방에 치관과 중첩된 2cm 정도 크기의 경계가 잘된 많은 양의 방사선 불투과성 물질을 함유한 병소가 관찰 되었고, #61 #62치아의 치근은 흡수된 소견을 보였다(Fig. 1, 2). 다른 의과적·치과적 특이사항은 없었다. 임상적으로 복잡성 치아종으로 진단하였다. 국소마취를 시행하고 통상적인 방법으로 구개판막을 형성, 해당부위의 구개측 골을 삭제한 후 적출을 하였다. 제거된 석회화 물질은 많은 부분이 치아형태를 띄고 있었으며, 전혀 치아형태로 보기 어려운 석회화 물질도 보였고, 상피조직으로 이장되어 있었다(Fig. 3). 수술 한달 후 촬영한 방사선 사진에서 병소가 있던 부위에

방사선 불투과상이 다소 증가한 소견을 보이고 있다(Fig. 4). 그리고 앞으로 변위 매복된 상악 좌측 중절치와 측절치의 발육과 맹출양상의 확인을 위해 주기적인 방사선 촬영을 할 예정이다.

병리조직학적으로 상피조직은 원주형의 기저세포로 구성되었으며, 상부는 성글게 배열되어 정상세망(stellate reticulum)구조와 비슷하였다. 특징적으로 상피 내에 다수의 유령세포가 관찰되었고, 석회화가 진행중인 유령세포들이 관찰되었다(Fig. 5, 6). 석회화는 유상아질이라 여겨지는 호산성의 물질인 무정형의 결정들과, 발생중인 치아 형태와 유사한 것도 보이며, 치아 내에 치아형태가 있는 특이한 석회화 물질이 관찰되었다(Fig. 7, 8). 이런 병리조직학적 소견으로 복잡 치아종을 동반한 석회화 치성낭으로 진단하였다.

환아는 수술 3개월이 지난 현재까지 재발 소견은 없었고, 현재 소아치과에서 임상적·방사선학적 검사를 통해 정기적인 검진을 받고 있는 중이다.



Fig. 1. Periapical radiograph at first visit.



Fig. 2. Occlusal radiograph at first visit.

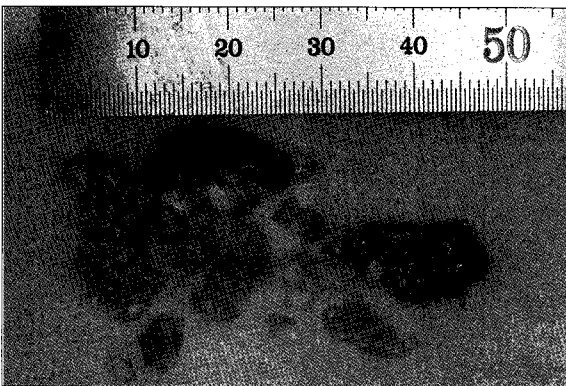


Fig. 3. Enucleated mass surrounded by epithelium.



Fig. 4. Occlusal radiograph after surgery.

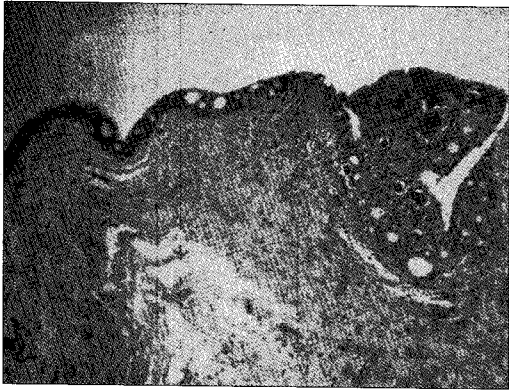


Fig. 5. Ghost cells in Epithelium.

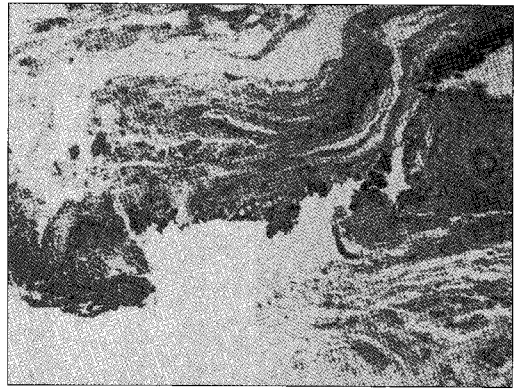


Fig. 6. Calcifying ghost cell.



Fig. 7. Tooth-like calcifying hard tissue.

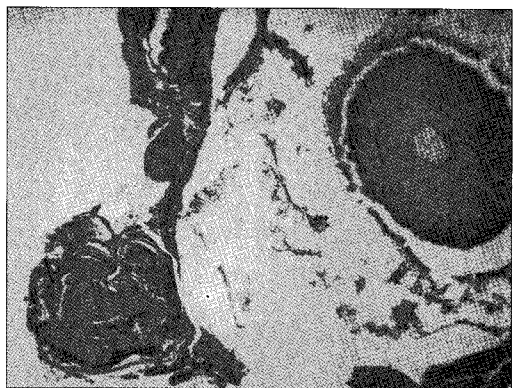


Fig. 8. Amorphous calcifying hard tissue.

### Ⅲ. 고 찰

석회화 치성낭(COC)의 현미경적 소견으로 원주세포로 이뤄진 기저층을 가진 낭성 피복상피로 되어 있으며, 성장세망 형태의 층을 가지고 있고, 상피세포층이나 낭벽 내에 특징세포인 유령세포를 가지고 있다<sup>3)</sup>. 이 피복상피는 인접한 결합조직에 치성조직을 유도할 수 있는 능력을 갖고 있어 다른 치성 종양과 흔히 동반하여 발생하는데, 가장 흔한 유형이 치아종이며 드물지만 선양 치성 종양이나 법랑모세포종과 동반하여 발생할 수 있다<sup>8-10)</sup>. 유령세포가 보이는 질환으로는 COC를 포함하여 법랑모세포종, 법랑모세포 섬유치아종, 치아종, 두개인두종등이 있다<sup>1,6,8)</sup>. 호산성의 유령세포는 변형된 상피세포로 기본적인 세포의 윤곽은 유지하고 있으면서 핵이 없는 것을 특징으로 한다. 하지만 유령세포의 성격에 대해서는 논란이 많다. 몇몇 학자들은 이런 변화가 상피의 응고괴사에 의해 발생한다고 생각하며, 다른 보고에 의하면 치성 상피의 정상적인 혹은 변이된 각화(keratinization)의 형태라고도 한다<sup>4,6,8)</sup>. Kim 등<sup>15)</sup>은 유령세포는 세포사멸(apoptosis)의 한 과정으로 비정상적인 최종 분화라고 하였다. Takata 등<sup>16)</sup>은 COC의 유령세포는 세포질내에

법랑질과 연관된 단백질을 포함하고 있으며 이는 석회화 상피종(Calcifying Epitheliomas)의 유령세포와는 다르다고 하였다. 상피와 유령세포에 인접하여 유상아질(dentinoid)이 침착될 수 있는데 이는 치성 상피에 의한 인접한 간엽 조직에 대한 유도효과와 결과로 생각된다<sup>8-10)</sup>. 이 병소는 치아종이나 법랑모세포종과 동반하거나, 드물게는 법랑모세포 섬유치아종이나 법랑모세포 섬유치아종과 동반하여 나타난다<sup>8-10)</sup>. 따라서 치성 종양과의 감별이 쉽지 않다. 특히 본 증례는 많은 양의 석회화 물질로 인하여 임상적 방사선학적으로 치아종으로 처음 진단하였으나, 생검 결과 유령세포들이 상피 내에 존재하고 그 주변으로 유상아질이 발견되어 법랑모세포종과 감별할 수 있었다.

치아종을 동반한 석회화 치성낭의 경우 발생기전을 여러가지로 생각해 볼 수 있는데 첫째, 독립된 두 유형의 낭과 종양이 동시에 발생하여 합쳐진 충돌성 종양(collison tumor)이거나, 둘째, 치아종을 형성하던 치성상피가 이차적으로 석회화 치성낭을 형성하였을 가능성과 셋째, 석회화 치성낭의 피복상피는 인접한 결합조직에 치성조직을 유도할 수 있는 능력을 가지고 있기 때문에 석회화 치성낭이 먼저 발생하고 치아종이 발생되었을 가능성이다<sup>4,6-9,11)</sup>.

많은 학자들이 석회화 치성낭에 대한 분류를 했다. 특히 Praetorius 등<sup>3)</sup>은 석회화 치성낭을 낭과 신생물 두 개의 Type 으로 나누고 Type I 에는 단순한 단방성 형태(A)와 치아종을 동반한 경우(B), 범람모세포성 분화를 가진 형태(C)로 분류하였다. 이 분류법에 의해 본 증례는 치아종을 동반한 석회화 치성낭으로 Type IB 로 볼 수 있다.

석회화 치성낭의 발생연령은 평균 16세이며, 10세 이하에서 발생하는 석회화 치성낭은 약 10%로 추정하고 있다<sup>11)</sup>. 10세 이하에서 발생하는 치성낭 및 종양이 매우 드물기 때문에 술 전에 석회화 치성낭으로 잠정 진단하는 것은 쉽지 않다. 특히 본 증례의 경우 치아종이 낭 전체를 차지하고 있기 때문에 생검을 통한 확진 이전에는 단순한 복잡성 치아종으로 생각하였다. 복잡성 치아종의 경우 재발이 드물지만, 석회화 치성낭은 수술 5년 후에 잔존 상피조직으로부터 재발하는 경우가 있기 때문에<sup>11,14)</sup>, 석회화 치성낭의 가능성을 항상 염두에 두어 병소 적출시 적절한 소파를 시행해야 한다. 이 증례의 환아는 수술 3개월까지 재발 소견이 없으며, 재발 가능성과 매복치의 맹출 양상의 관찰을 위하여 주기적인 검진이 필요하다.

#### IV. 요약

7세 남아의 상악 전치부에 발생한 치아종을 동반한 석회화 치성낭을 보고하였다. 치근단 및 교합 방사선 사진상에 상악 좌측 중절치 및 측절치가 매복, 변위 되어 있었으며 그 치관과 중첩되어 2cm 정도 크기의 경계가 잘된 많은 양의 방사선 불투과성 물질을 함유한 병소가 관찰 되었다. 외과적으로 병소를 적출하였고, 적출된 석회화 물질은 복잡성 치아종 형태를 띠고 있었으며, 상피조직으로 이장되어 있었다. 병리조직학적으로 상피조직은 원주형의 기저세포로 구성되었으며, 상부는 성글게 배열되어 성장세망(stellate reticulum)구조와 비슷하였다. 특징적으로 상피 내에 다수의 유령세포와 유사아질이라 여겨지는 호산성의 물질인 무정형의 결정들과, 발생중인 치아 형태와 유사한 석회화 물질이 관찰되어 복잡 치아종을 동반한 석회화 치성낭으로 진단하였다.

10세 이하에서 발생하는 치성낭 및 종양은 매우 드물어서 술 전에 석회화 치성낭으로 잠정 진단하는 것은 쉽지 않다. 특히 이 증례에서는 낭의 대부분을 치아종으로 차 있어서 생검을 통한 확진 이전에는 단순한 복잡 치아종으로 생각하였다. 치아종의 재발율은 낮은데 반해 석회화 치성낭은 재발이 보고 되어 있어 소아에서도 석회화 치성낭의 발생 가능성에 대해 항상 염두에 두어 생검을 통한 확진이 필요하다고 생각한다. 환아는 수술 3개월이 지난 현재까지 재발 소견은 없었고, 소아치과에서 정기적인 검진을 받고 있다.

#### 참고문헌

1. Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP, et al. : The calcifying odontogenic cysta possible analogue to the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 15:1235-1243, 1962.
2. Aithal D, Reddy BS, Mahajan S, et al. : Ameloblastomatous calcifying odontogenic cyst: a rare histologic variant. *J Oral Pathol Med*, 32:376-378, 2003.
3. Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M : Calcifying odontogenic cyst. WHO International Histological Classification of Tumours. Springer-Verlag, Berlin, 20-21, 1992.
4. Hong SP, Ellis GL, Hartman KS : 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 Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 72:56-64, 1991.
5. Toida M : So-called calcifying odontogenic cyst: review and discussion on the terminology and classification. *J Oral Pathol Med*, 27:49-52, 1998.
6. Praetorius F, Hjorting Hansen E, Gorlin RJ, et al. : Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. *Acta Odontol Scand*, 39:227-240, 1981.
7. Waldron CA : Odontogenic cysts and tumors : Oral & maxillofacial pathology. Saunders, Philadelphia, 506-509, 1995.
8. Shear M : Developmental odontogenic cysts. An update. *J Oral Pathol Med*, 23:1-11, 1994.
9. Takeda Y, Suzuki A, Yamamoto H : Histopathologic study of epithelial components in the connective tissue wall of unilocular type of calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med*, 19:108-113, 1990.
10. Lukinmaa PL, Lepaniemi A, Hietanen J, et al. : Features of odontogenesis and expression of cytokeratins and tenascin-C in three cases of extraosseous and intraosseous calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med*, 26:265-272, 1997.
11. Oliveira JA, da Silva CJ, Costa IM, et al. : Calcifying odontogenic cyst in infancy: report of case associated with compound odontoma. *ASDC J Dent Child*,

- 62:70-73, 1995.
12. 윤정훈, 김수관, 이창섭 등 : 치아종과 동반한 석회화 치성낭. 대한소아치과학회지, 29:371-375, 2002.
  13. Kim J, Lee EH, Yook JI, et al. : Odontogenic ghost carcinoma: a case report with reference to the relation between apoptosis and ghost cell. Oral Surg Oral Pathol Oral Radiol Endod, 90:630-635, 2000.
  14. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A : Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: a possible separate entity (odontocalcifying odontogenic cyst). J Oral Maxillofac Surg, 52:555-558, 1994.
  15. Takata T, Zhao M, Nikai H, et al. : Ghost cell in calcifying odontogenic cyst express enamel-related proteins. Histochem J, 32:223-229, 2000.

Abstract

CALCIFYING ODONTOGENIC CYST ASSOCIATED WITH  
COMPLEX ODONTOMA : CASE REPORT

Sang-Yup Lee, Dae-Eop Kim, Kwang-Hee Lee

*Department of Pediatric Dentistry and Wonkwang Dental Research Institute, College of Dentistry, Wonkwang University*

Calcifying odontogenic cyst(COC) is a rare developmental odontogenic cyst, which shows diverse classification and terminology. Cystic epithelial lining of COC is composed of basal cell layer of columnar cells and overlying layer of stellate reticulum. In the epithelium, ghost cells that might induce adjacent mesenchymal tissue to develop dental organ are shown characteristically. In spite of low rate of recurrence, we have to get a histopathological examination so that odontogenic lesions may recur without fully curettage of lining epithelium.

7-year-old male child came pediatric dentistry in wonkwang university dental hospital in order to check the delayed eruption of left maxillary central incisor. Radiographic examination revealed a well-defined radiopaque mass, overlapping impacted left central and lateral incisor crown. Enucleated mass was tooth-like features and also had epithelium lining. Results of histopathologic procedure, we saw the lots of ghost cell and proliferating hard dental tissues. Also we saw the cystic epithelium cells. It revealed diagnosis of the COC associated complex odontoma.

For this reason one should consider of COC when patients present odontoma-like lesion with impacted tooth.

**Key words** : Calcifying odontogenic cyst, Odontoma, Ghost cell