

형제에서 발견된 단순골낭

경북대학교 치의학전문대학원 구강악안면방사선학교실
안서영 · 안창현 · 최갑식

Simple bone cysts of two brothers

Seo-Young An, Chang-Hyeon An, Karp-Shik Choi

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Kyungpook National University

ABSTRACT

17-year-old and 14-year-old brothers were referred for evaluation of the cystic lesions on the mandibular anterior area with no symptoms. Neither their mother nor the brothers could recall any past trauma to those areas. Panoramic and intraoral radiographs revealed moderately defined cystic lesions on their mandibular anterior areas. Biopsies on both lesions revealed simple bone cysts. Hereditary cause or familial history of simple bone cysts could not be found in literature review. This case may have been a coincidence. However, further investigation is needed to find the cause of simple bone cysts occurring in patients those are closely related. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2008; 38 : 183-7)

KEY WORDS : Simple Bone Cyst, Hereditary Cause

단순골낭은 1929년 Lucas¹에 의해 악골에 발생하는 드문 병소로 외상성골낭 (traumatic bone cyst)으로 처음 소개된 이후에 다양한 이름으로 불리어졌으며 1955년 Bernier와 Johnson²에 의해 단순골낭 (simple bone cyst)이라고 명명되었다. WHO에서는 단순골낭을 골과 관련된 비종양성 병소로 분류하고 상피가 없이 얇은 결합조직으로 이장되어 있는 골내 낭으로 정의한다.³ 가끔 통증과 종창을 호소하기도 하나 대부분의 경우 증상이 없으며 방사선사진 촬영 시 우연히 발견된다. 10대에 호발하며 성별 간의 차이는 거의 없거나 남성에게서 약간 더 호발하며 관련 인접 치아는 감염이 되지 않는 한 생활력이 있다. 하악체와 하악결합부에서 주로 발견되고 전형적으로 단방성의 비교적 경계가 명확한 방사선투과성 병소로 치조골 부위에 발생되면 특징적으로 치근과 치근 사이로 조개껍질 모양의 확장상을 보인다. 수술 시 낭 내부는 비어있거나 소량의 액체와 결합조직이 발견되며, 확진 및 치료를 위해 소파술을 실시하거나 자연적 치유를 기대하고 방사선사진으로 주기적인 검사를 하기도 한다. 가끔 재발이 보고되기도 하나

드물며 나이가 많은 여성에게서 개화성골형성이상과 연관되어 발생하기도 한다.⁴

이번 증례는 단순골낭이 형제에게서 동일한 부위에 비슷한 양상으로 발생한 경우로서 단순골낭의 원인이 아직도 명확히 밝혀지지 않은 상황에서 발생기전을 유전적 측면에서도 고려해 볼 수 있게 하는 특이한 증례라 생각되어 보고하고자 한다.

증례보고

17세와 14세 형제가 좌측 하악 전치부의 낭성 병소로 본원으로 의뢰되었다. 형의 제3대구치 발치를 위해 개인치과의원을 내원하여 파노라마방사선사진을 촬영한 결과 우연히 좌측 하악 전치부의 낭성 병소가 발견되었다. 동생의 구강 검진으로 파노라마방사선사진을 촬영하였으며 동일한 부위에서 낭성 병소가 발견되었다. 병소에 이환된 부위의 증상은 없었으며 협설측으로의 피질골성 팽창도 관찰되지 않았고 과거 특별한 외상의 병력도 없었다. 구강내 검사에서 별다른 이상 소견은 발견되지 않았으나 병소에 인접한 형제의 좌측 하악 견치의 생활력이 소실되어 있었다. 형의 파노라마방사선사진과 치근단방사선사진 검사에서 하악 좌측 견치에서 우측 중절치의 치근단부에 비교적

접수일 (2008년 7월 16일), 수정일 (2008년 8월 14일), 채택일 (2008년 8월 18일)
Correspondence to : Prof. Chang-Hyeon An
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Kyungpook National University 188-1 Samdeok 2-ga, Jung-gu, Daegu 700-714, Korea
Tel) 82-53-420-5971, Fax) 82-53-427-3396, E-mail) chan@knu.ac.kr

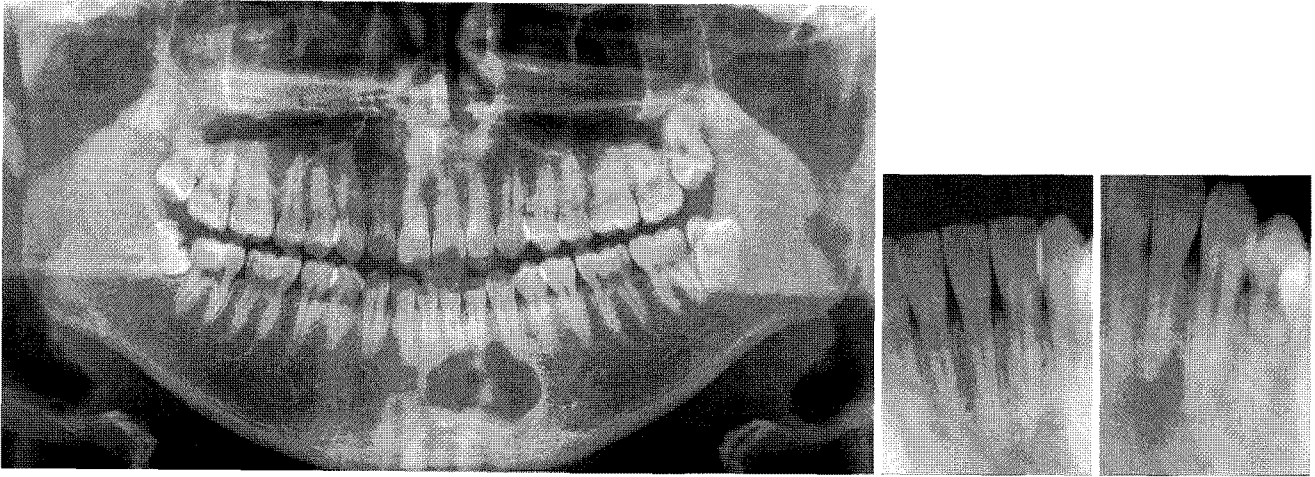


Fig. 1. Panoramic & periapical radiographs of the elder brother show a partially well defined and partially moderately defined radiolucent area on the mandibular anterior area. The superior border is scalloped and lamina dura of the involved tooth is intact.

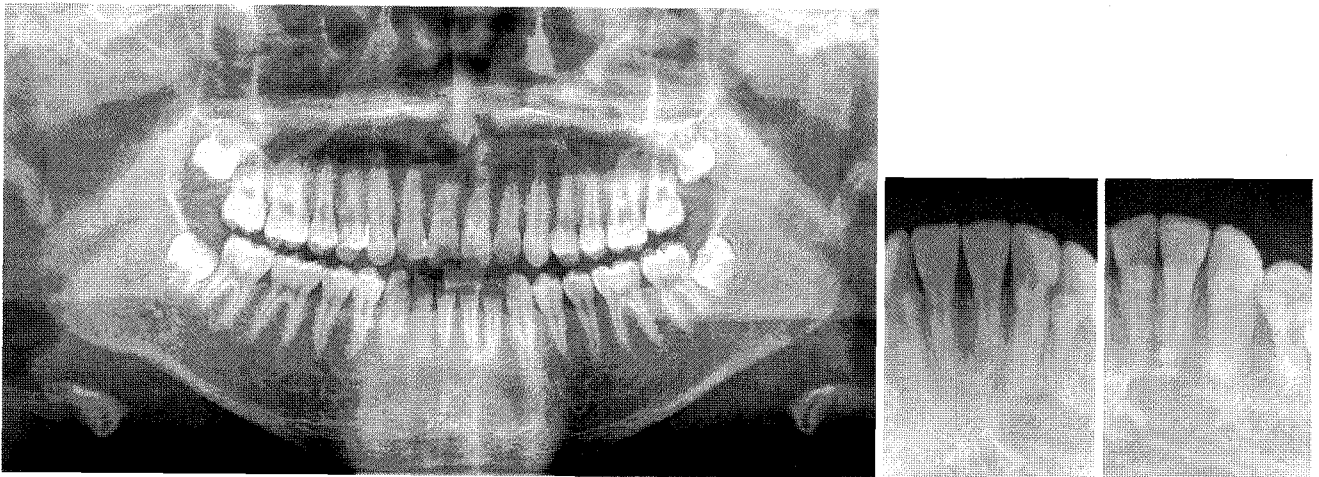


Fig. 2. Panoramic & periapical radiographs of the younger brother show a moderately defined radiolucent area on the mandibular anterior area. Lamina dura of the involved tooth is intact.

경계가 명확한 방사선투과상이 관찰되었으며 병소의 상방 경계는 인접 치근 사이로 확장되어 조개껍질 모양을 보였고 병소에 이환된 치아의 치조백선은 건전하였다(Fig. 1). 동생의 파노라마방사선사진과 치근단 방사선사진 검사에서도 부분적으로 경계가 명확한 방사선투과상이 하악 좌측 측절치와 견치 치근단부위에서 관찰되었으며 병소에 포함된 치아의 치조백선은 건전하였다(Fig. 2). 이상의 방사선사진 소견으로 단순골낭으로 진단하였고 4개월 후 재내원 시의 방사선사진 검사에서 별다른 변화가 관찰되지 않았다(Fig. 3). 확진을 위해 국소마취하에 생검을 실시하였고 조직병리학적 검사에서 형제 모두에서 이장상피나 결합조직이 없이 골벽만 관찰되어 단순골낭으로 최종 진단되었다(Fig. 4).

고 찰

단순골낭은 초기에는 드문 병소로 생각되었으나 파노라마방사선사진의 보편화로 보고되어지는 증례가 증가되어 왔다.^{5,6} 단순골낭의 원인은 명확히 밝혀지지 않았으며 다양한 의견들이 제시되고 있어 여러 가지 이름으로 불려왔다. 즉, 외상성 골낭(traumatic bone cyst), 외상성 낭(traumatic cyst), 출혈성 골낭(hemorrhagic bone cyst), 출혈성 낭(hemorrhagic cyst), 외상성 출혈성 낭(traumatic hemorrhagic cyst), 혈관외유출낭(extravasation cyst), 출혈성 혈관외유출낭(hemorrhagic extravasation cyst), 고립골낭(solitary bone cyst), 고립낭(solitary cyst), 고립골강(solitary bone cavity), 진행성 골강(progressive bone cavity), 특발성 골강

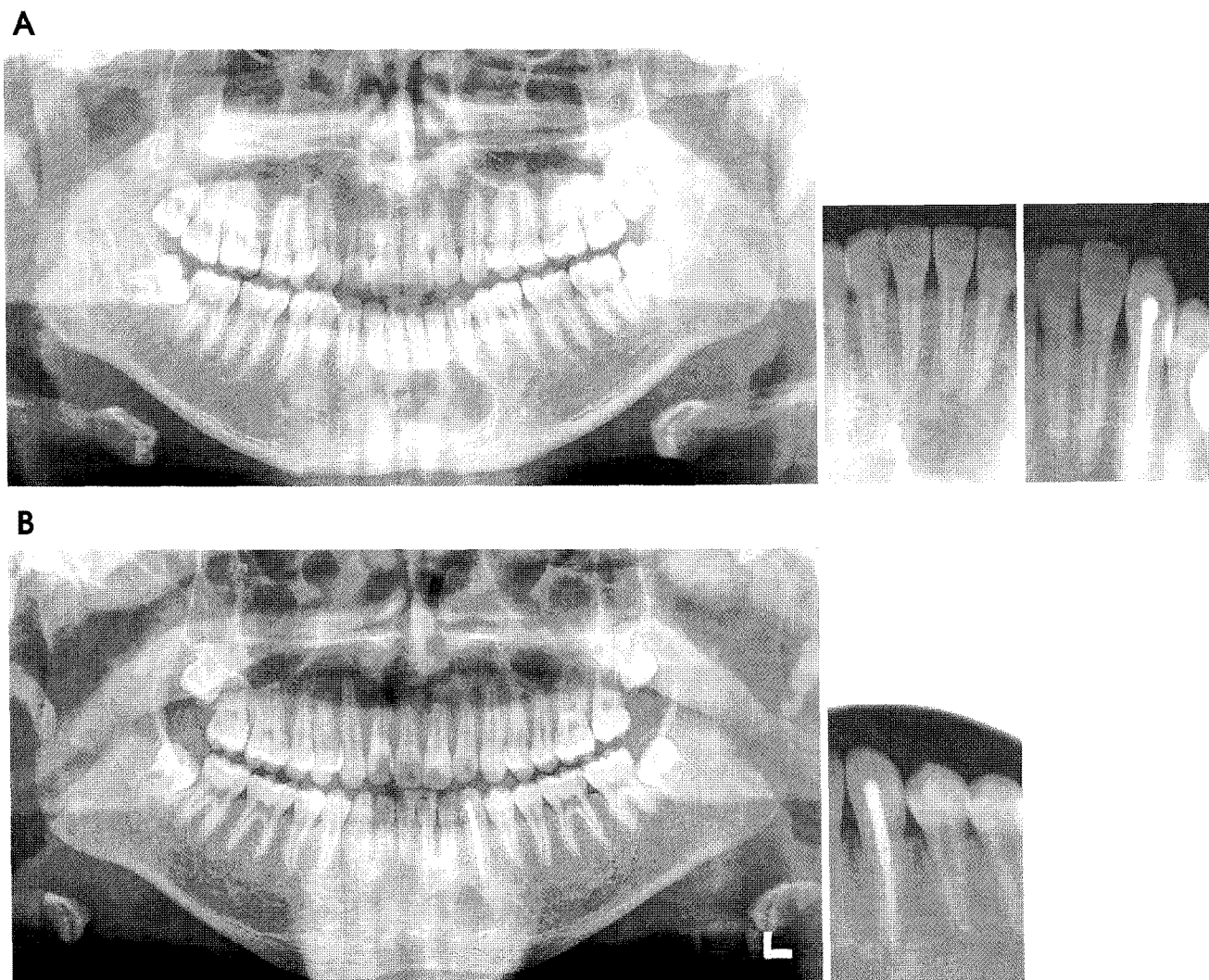


Fig. 3. Panoramic & periapical radiographs after 4 months show no specific change. (A) the elder brother (B) the younger brother.

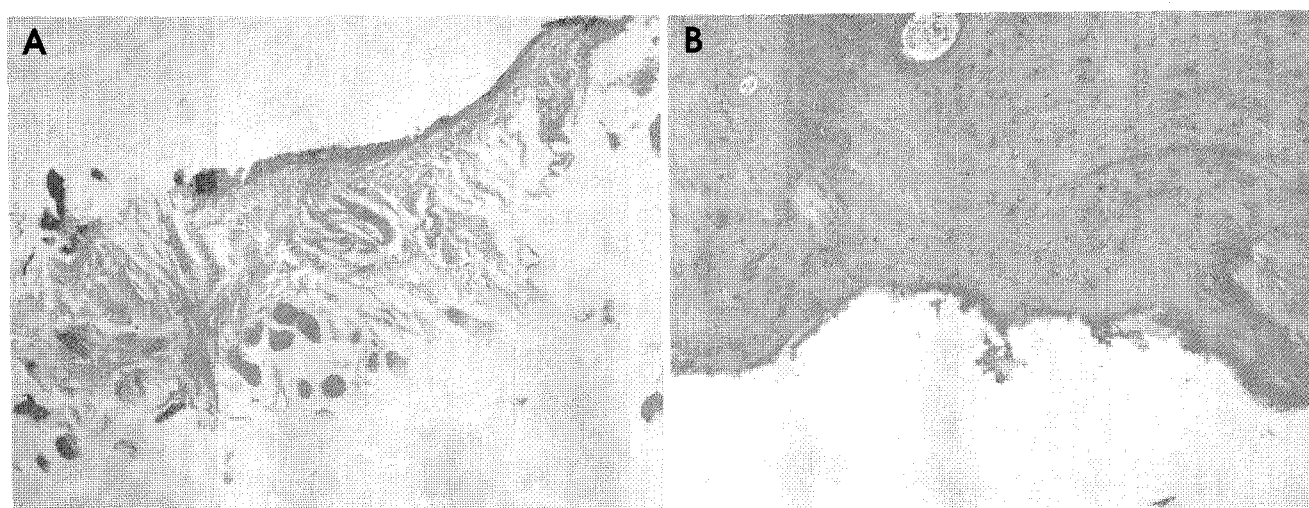


Fig. 4. Histopathologic examinations of the cystic cavities show only bones. There were no connective tissue or epithelial lining. (A) the elder brother, HE stain, original magnification $\times 200$, (B) the younger brother, HE stain, original magnification $\times 100$.

(idiopathic bone cavity) 그리고 단방성 낭(unicameral cyst) 등이다.⁷⁻⁹ 단순골낭의 원인 중 가장 널리 받아들여졌던 외상설은 정상적 골조직 내에서 외상에 의해 출혈이 일어나고 혈병이 조직화되어 자가 치유가 일어나는 대신 골수를 포함하는 해면골 부위에 손상을 받은 후 혈병이 생성되지 않고 골내에 비어있는 공간이 만들어진다는 이론이다.^{10,11} 그러나 외상의 병력이 없었던 보고도 많고 외상 후에 단순골낭이 발생하는 빈도도 낮아 단순골낭의 원인으로 보기에는 논란의 여지가 많다. 이외에도 단순골낭의 원인으로 양성 종양의 낭성 변화, 미약한 감염, 칼슘대사의 이상, 골성장의 국소적 장애, 허혈성 골수 괴사, 골파괴를 야기하는 정맥로 폐쇄 및 골대사의 변화 등이 보고되어 왔다.⁸ 이번 증례는 형제 모두 외상의 병력이 없었으며 단순골낭이 동일한 부위에 비슷한 양상으로 발생되어 단순골낭의 또 다른 원인의 하나로 유전적인 요인을 고려해 볼 수 있다. 하지만 저자들이 조사한 바에 따르면 지금까지 단순골낭을 가족력과 연관시켜 보고된 증례가 하나도 없었으며 단순골낭의 원인을 유전적인 측면에서 접근한 문헌도 없어 형제에게서 동일한 부위에 단순골낭이 발생한 이번 증례는 우연의 일치로 볼 수도 있겠으나 앞으로 단순골낭의 원인을 다른 각도에서 접근해보는 것도 의미가 있을 것이라 생각된다.

단순골낭의 진단을 위한 여러 가지 기준들이 제시되어 왔는데 Rushton¹²은 낭이 하나여야 하고, 이장상피가 없으며, 급성 또는 만성 감염의 소견이 없어야 한다고 했다. 또한 주로 연조직이 아닌 액체를 포함해야 하고 낭벽은 부분적으로 얇을 수도 있으나 단단한 골이어야 하며 병리학적·화학적 소견으로는 단순골낭을 배제할 수 없어야 한다고 했다. Kaugars와 Cale¹³은 수술 시 얇은 연조직층이나 액체를 포함하는 비어있는 골강이어야 하고 현미경사진, 조직학적 소견이나 병리 보고서 결과가 다른 병적 소견일 수 없는 섬유성 결체조직 또는 생골로 되어있어야 한다고 했다. Sapp과 Stark¹⁴는 임상적·방사선학적 기준을 구분하여 임상적으로는 통증이나 다른 감각이 없이 이환치의 생활력이 있어야 하며 구강 내와 소통이 되지 않아야 된다고 하였다. 방사선학적으로는 경계가 명확한 병소가 골의 수질부에 있어야 하고 방사선투과성이며, 경계가 명확하고 평활하며 변연이 피질골화되어 있지 않아야 한다고 했다. 또한 병소의 모양이 원형이나 타원형이며 인접 치아의 치근 사이로 확장된 틈날 모양의 변연을 가져야 하고 가끔 피질골의 비박 또는 팽윤이 나타난다고 보고했다. Matsumura 등¹⁵은 현미경소견에서 단단한 골에 의해 둘러싸인 비어있거나 장애 또는 혈액을 포함하는 낭성 병소로 감염이 없어야 하고, 조직병리학적 소견에서 낭벽으로 얇은 결합 조직이 존재하거나 이장상피가 없어야 한다고 했다. 단순골낭은 대부분의 경우 방사선사진을 통해 잠정적인 진단이 가능하며¹⁶ 이번 증례에서도 초진시의 방사선사진에

서 비교적 경계가 명확한 방사선투과성의 병소가 관찰되었고, 인접 치아의 치조백선이 건전했으며 형제에게는 단순골낭의 특징적 소견인 인접 치근 사이로 조개껍질 모양의 확장이 보여 단순골낭으로 진단하였다. 단순골낭은 이장상피가 없어 진성낭은 아니며 대부분 얇은 결합조직으로 둘러싸여 있고¹⁷ 연조직으로 이장되어있지 않는 경우는 대개 단단한 치밀골에 의해 둘러싸여져 있다.^{18,19} 이번 증례에서도 병리조직 검사에서 결합조직의 피개없이 골벽만 관찰할 수 있었고 단순골낭으로 최종 진단되었다. 단순골낭에서는 감염이 되지 않으면 병소에 인접한 치아는 생활력이 있는 것으로 보고되어 왔는데 이번 증례에서는 형제 모두에게서 감염 소견 없이 치수생활력이 소실된 점이 특이했다.

형제에게서 동일한 부위에 단순골낭이 발생한 이번 증례는 우연의 일치로 생각되나 단순골낭의 발생기전에 있어 유전적인 측면에서의 연구도 지속적으로 필요하리라 생각된다.

참 고 문 헌

1. Lucas CD. Do all cysts of the jaws originate from the dental system? J Am Dent Assoc 1929; 16 : 647-61.
2. Bernier JL, Johnson LC. Comments on Dr. John G. Whinery's paper, "Progressive Bone Cavities of the Mandible". Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1955; 8 : 970-2.
3. Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M. The WHO Histological Typing of Odontogenic Tumours. A commentary on the Second Edition. Cancer 1992; 70 : 2988-94.
4. Saito Y, Hoshina Y, Nagamine T, Nakajima T, Suzuki M, Hayashi T. Simple bone cyst. A clinical and histopathologic study of fifteen cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1992; 74 : 487-91.
5. Choukas NC, Romano J. Idiopathic bone cavities. J Oral Surg 1978; 36 : 33-5.
6. Morris CR, Steed DL, Jacoby JJ. Traumatic bone cysts. J Oral Surg 1970; 28 : 188-95.
7. Choi SC, Lee SS, Lee GI. Radiologic study of the traumatic bone cysts. Korean J Oral Maxillofacial Radiol 1994; 24 : 7-21.
8. Shimoyama T, Horie N, Nasu D, Kaneko T, Kato T, Tojo T, et al. So-called simple bone cyst of the jaw: a family of pseudocysts of diverse nature and etiology. J Oral Sci 1999; 41 : 93-8.
9. White SC, Pharoah MJ. Oral radiology; principles and interpretation, 5th ed. St. Louis: Mosby Inc; 2004. p. 405-8.
10. Fielding AF, Loudon RD, Johnson AL. Simple bone cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999; 88 : 277-8.
11. Pogrel MA. A solitary bone cyst possibly caused by removal of an impacted third molar. J Oral Maxillofac Surg 1987; 45 : 721-3.
12. Rushton MA. Solitary bone cysts in the mandible. Br Dent J 1946; 81 : 37.
13. Kaugars GE, Cale AE. Traumatic bone cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1987; 63 : 318-24.
14. Sapp JP, Stark ML. Self-healing traumatic bone cysts. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1990; 69 : 597-602.
15. Matsumura S, Murakami S, Kakimoto N, Furukawa S, Kishino M, Ishida T, et al. Histopathologic and radiographic findings of the sim-

- ple bone cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998; 85 : 619-25.
16. Forssell K, Forssell H, Happonen RP, Neva M. Simple bone cyst. Review of the literature and analysis of 23 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1988; 17 : 21-4.
17. Park TW, Lee SR, Kim JD, Park CS, Choi SC, Koh KJ, et al. *Oral & Maxillofacial Radiology*. 3rd ed. Seoul: Narae Publishing Inc; 2001. p. 418.
18. Shear M. *Cysts of the oral regions*. 3rd ed. Oxford: Butterworth-Heinemann Ltd; 1992. p. 171-8.
19. Sueti Y, Tanimoto K, Wada T. Simple bone cyst. Evaluation of contents with conventional radiography and computed tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994; 77 : 296-301.