

## 국소적 치아이형성증 환아에 관한 증례

김지희 · 최병재 · 이제호 · 손흥규 · 김성오 · 최형준

연세대학교 치과대학 소아치과학교실

### 국문초록

국소적 치아이형성증(regional odontodysplasia)은 매우 드물게 나타나는 치아의 형성 장애로서 치아 발육이 국소적으로 정지되어 발생하며 이환된 유치와 영구치의 모든 경조직이 발육 부전이나 석회화 부전을 나타내는 질환이다. 하악 보다는 상악에서 호발하는 것으로 알려져 있으며 인종간의 차이는 없고, 여성에서 2배 정도 많이 발생한다. 국소적 치아이형성증의 정확한 원인은 밝혀지지 않았으나, 국소적 혈액 순환 장애나 체성 돌연변이, 바이러스 침투, 치배 감염, 치아 외상, 이상고열, 방사선 조사, 영양 및 대사 장애, 유전 등이 보고되었다.

이환된 치아는 정상치아보다 크기가 작고, 저형성을 보이며, 노란색 또는 황갈색을 나타내고, 거칠고 취약한 치면을 가진다. 방사선학적인 특징은 법랑질이 정상의 경우보다 얇고 치밀하지 못하며, 상아질의 발육부전으로 치수강이 크고, 근관은 넓게 보이며, 치근은 짧고 불명확하게 보인다. 간혹 치관부가 너무 얇고 석회화가 불량하여 방사선사진에 보이지 않을 수도 있다.

이 증례는 연세대학교 치과대학병원 소아치과에 내원한 환아에 관한 증례로, 2세 3개월 남아에서 임상 구강검사 및 방사선사진검사 결과 하악 좌측 1/4 악의 유치열에 발육부전과 석회화부전 소견을 보이는 국소적 치아이형성증으로 진단되어 이를 보고하는 바이다.

**주요어** : 국소적 치아이형성증, 발육부전, 석회화부전

### I. 서 론

국소적 치아이형성증은 매우 드물게 나타나는 치아발육장애로서 치아발육이 국소적으로 정지되어 발생되며 이환된 유치와 영구치의 모든 구성요소가 발육부전이나 석회화부전을 나타내는 질환이다. 1934년 Hitchin<sup>1)</sup> 이 처음으로 국소적 치아이형성증을 보고하였고, Mc Call 와 Wald<sup>2)</sup> 가 치아발육이 국소적으로 정지한 상태라고 정의하였으며, Gibbard 등<sup>3)</sup> 은 “발육중인 치관부 치성조직에 영향을 미치는 희귀한 비유전성 치아발육장애”로 표현한 바 있다.

국소적 치아이형성증의 정확한 원인은 밝혀지지 않았으나, 국소적 혈액 순환 장애<sup>4,5)</sup>, 국소적 치아외상<sup>6,7)</sup>, 국소적 치배감염<sup>6,8)</sup>, 신경능 세포의 분화와 이주장애<sup>9)</sup>, 체성 돌연변이<sup>10)</sup>, 바이러스 침투<sup>8)</sup>, 이상고열<sup>4)</sup>, 방사선 조사, 영양 및 대사장애<sup>10)</sup>, 유전<sup>11)</sup> 등이 그 원인으로 제시되고 있다. 주로 악골의 1/4에서 발

생하며 편측성 동측 악골에서 다발하고, 하악 보다는 상악에서 2배 정도 많이 발생하며, 여성에서 더 호발하는 것으로 보고되고 있고<sup>12,13)</sup> 인종에 따른 발생을 차이는 없는 것으로 알려져 있다<sup>14)</sup>.

유치, 영구치열에서 모두 발생 가능하며, 이환된 치아는 크기가 작고, 저형성을 보이며, 노란색 또는 황갈색을 띄고, 거칠고 취약한 치면을 가져 치근단 농양이나 치은 부종이 발생하기 쉽다. 또한 발육부전이나 정지로 인해 미맹출과 부분맹출, 지연맹출이 유발되며 이에 따라 대합치의 정출을 초래할 수도 있다<sup>7,15)</sup>. 이환측 안면 피부에 혈관성모반(vascular nevus)<sup>3,5,12,15,16)</sup> 이나, 악골의 저형성 및 안면 비대칭<sup>3,17,18)</sup>, 안면의 비염증성 부종이 발생할 수도 있다<sup>3)</sup>. 방사선학적 소견으로는 이환된 부위의 치아가 전반적으로 증가된 방사선 투과상을 보이며 특징적으로 “ghost-like appearance”를 나타낸다<sup>10)</sup>. 또한 치수강 내에 치수 석회화물이나 상아질석을 나타낼 수도 있으

교신저자 : 김 지 희

서울시 서대문구 신촌동 134 / 연세대학교 치과대학 소아치과학교실/ 02-2228-8800/ jhdentist@naver.com

원고접수일: 2008년 08월 18일 / 원고최종수정일: 2008년 11월 04일 / 원고채택일: 2008년 11월 10일

며<sup>13,19)</sup>, 이환된 주위 골은 방사선 투과상이 증가한 양상과 넓은 골수강을 보이기도 한다<sup>17,20)</sup>. 조직학적 소견으로는 조상아세포와 조법랑세포의 비정상적인 분화 때문에 결손된 상아질과 법랑질이 발견되며, 법랑-상아질 경계가 불규칙하고 조개 껍질 모양(scalloping)으로 되어 있다. 치낭은 종종 확대되어 있고 치성 상피 잔사나 석회화 물질이 포함되어 있기도 한다<sup>1,21,22)</sup>.

본 증례는 하악 좌측 치아들의 맹출 지연과 치아구조 이상을 주소로 연세대학교 치과대학병원 소아치과에 내원한 2세 3개월 남환에 관한 것으로, 임상 구강검사 및 방사선사진검사 결과 국소적 치아이형성증으로 진단되어 이에 대한 보고를 하는 바이다.

## II. 증례보고

2세 3개월 된 남환이 하악 좌측 치아들의 맹출 지연과 치아구조 이상을 주소로 연세대학교 치과대학병원 소아치과에 내원하였다. 환아는 특이할 만한 전신병력을 가지고 있지 않았다. 구강 검사 소견에서 하악 좌측 유견치와 제 2유구치의 미맹출 및 제1유구치의 부분맹출을 보이고 있었고, 동측 부위 유중절치, 유측절치, 제1유구치가 크기가 작고, 저형성을 보이며, 황갈색

을 띠고, 거칠고 취약한 치면을 가지고 있었다. 1년 후 하악 좌측 제1유구치의 식사 시 동통을 주소로 재내원하였고, 검사 결과 하악 좌측 제1유구치에 심한 저형성과 함께 치아우식증이 동반되어 있었고, 하악 좌측 유견치는 저형성 양상으로 맹출되었으며 하악 좌측 제2유구치는 여전히 미맹출 상태였다(Fig. 1).

방사선검사 소견에서 하악 좌측 부위의 유치와 영구치 치배가 전반적으로 증가된 방사선투과상을 보이며 특징적으로 "ghost-like appearance"를 나타내고 있었다. 법랑질과 상아질이 얇고 치밀하지 못하며 경계가 불분명하고, 치수강이 크고, 근관은 넓게 보이며, 치근이 짧고 불명확하게 보이고 있었다(Fig. 2, 3). 악골의 저형성이나 비대칭 소견은 관찰되지 않았다.

임상 및 방사선검사를 통해 하악 좌측 부위 치아들의 국소적 치아이형성증으로 진단할 수 있었고, 하악 좌측 제1유구치에 글래스아이오노머 시멘트를 이용한 수복 치료를 시행한 후 현재 관찰 중에 있다. 향후 정기적인 검진을 통해 제2유구치와 영구치의 맹출 여부, 영구치의 이환 여부 등을 관찰하여 환아의 연령에 알맞은 치료를 시행할 예정이다.



Fig. 1. Intraoral view.

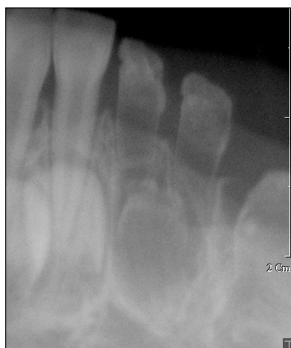


Fig. 2. Periapical view.

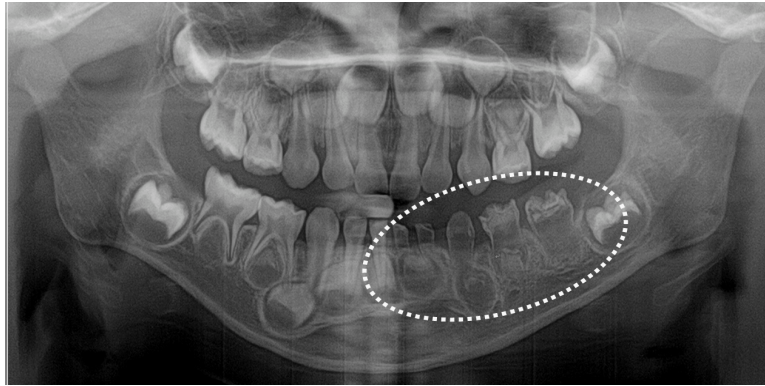


Fig. 3. Panoramic view.

### Ⅲ. 총괄 및 고찰

국소적 치아이형성증은 매우 드물게 나타나는 치아발육 장애로서 치아발육이 국소적으로 정지되어 발생되며, 이환된 유치와 영구치의 모든 구성 요소가 발육부전이나 석회화부전을 나타내는 질환이다. Zegarelli 등<sup>11)</sup>은 “odontodysplasia”란 용어를 처음으로 사용하였고, 그 밖에 “localized arrested tooth development”, “Unilateral dental malformation”, “odontogenesis imperfecta”, “odontogenic dysplasia”, “ghost teeth”, “localized hypoplasia(Turner’s teeth)”라고 명하기도 하였다.

국소적 치아이형성증의 정확한 원인은 밝혀지지 않았으나, Bergman 등<sup>7)</sup>은 치아발육 단계에서의 외상을 그 원인으로 소개하였고, Rushton<sup>10)</sup>은 초기 발육 시 체성 변이가 치아 형성을 방해한다는 국소적 체세포성 변이 이론을 발표하였다. Alexander 등<sup>6)</sup>은 국소적 혈액순환장애를 그 원인으로 제시하였고, 이에 대한 실험으로 Lunin 과 Devore<sup>4)</sup>, Kraus 등<sup>23)</sup>은 실험 동물의 두경부 동맥을 묶거나 자르면 영향 받는 부위에 혈관종이나 혈관성 모반이 나타나고, 동일 부위 치아 경조직 형성에 유사한 결손 양상이 발생됨을 발견하였다. Sloopweg 와 Meuwissen<sup>9)</sup>은 신경능 세포의 분화와 이주장애를 각각 그 원인으로 제시한 바 있으며 이외에도 국소적 치배감염<sup>6,8)</sup>, 바이러스 침투<sup>8)</sup>, 이상고열<sup>4)</sup>, 방사선 조사, 영양 및 대사 장애<sup>10)</sup>, 유전<sup>11)</sup> 등이 원인으로 제시되고 있다.

임상적 특징으로 유치, 영구치열에 모두 발생하며, 유치가 영향을 받으면 계승 영구치에도 치아이형성증이 나타나는 경우가 대부분이다<sup>14)</sup>. 이환된 치아는 크기가 정상 치아 보다 작고, 노란색 또는 황갈색을 띄고, 거칠고 취약한 치면을 가진다. 미맹출과 지연맹출 또는 불완전 맹출로 대합치의 정출을 초래하기도 하며, 심한 우식 없이 이환된 치아 주위에 치근단 농양이나 치은부종 등의 합병증이 발생할 수도 있다<sup>15)</sup>. 또한 이환측 안면 피부에 혈관성 모반이나<sup>3,12,15,16)</sup> 악골의 저형성 및 안면 비대칭<sup>24)</sup>, 안면의 비염증성 부종<sup>25,26)</sup>이 발생할 수도 있다.

방사선학적 특징으로 이환된 부위의 치아가 전반적으로 증가된 방사선 투과상을 나타내며, 법랑질과 상아질이 정상인 경우

보다 얇고 치밀하지 못하여 이로 인해 희미한 치아의 형상을 보이는 “ghost like appearance”를 나타낸다<sup>10,23)</sup>. 또한 상아질과 법랑질의 대조도의 차이가 없어 구분이 거의 불가능하고, 치수강이 넓게 보이며 치근이 짧고 불명확하게 나타난다<sup>19,21,22)</sup>. 간혹 넓은 치수 공간에서는 치수석, 상아질석 등이 형성되기도 한다<sup>13)</sup>. 미맹출 치아는 큰 치낭에 둘러싸여 원발성 낭종처럼 보이기도 하고<sup>6)</sup>, 이환된 주위 골은 방사선 투과상이 증가한 양상과 넓은 골수상을 보인다<sup>17,20)</sup>.

조직학적 특징으로 조상아세포와 조법랑세포의 비정상적인 분화 때문에 결손된 상아질, 법랑질이 발견되며, 법랑-상아질 경계는 불규칙하고 조개껍질 모양을 보이고, 저형성, 저광화, 변성된 구형 석회화 물질로 구성되어 있다. 불규칙한 상아기질에 무정형 상아질이 존재하며 구간 상아질과 무정형 물질의 혼합물 사이에 산재된 틈새를 보인다. 치수에는 관 또는 충편 형태의 산재 또는 부착 석회화 물질이 보이기도 한다. 치낭은 크기가 확대되어 있고 치성 상피잔사나 석회화물을 포함하기도 한다<sup>1,21,22)</sup>.

국소적 치아이형성증과 감별해야 할 질환으로는 심한 치아우식증, 상아질 형성부전증, 상아질 이형성증 등이 있다. 먼저 심한 치아우식증과는 넓은 치수강, 짧은 치근, 개방된 치근침 등으로 감별할 수 있고, 상아질 형성 부전증과는 비유전성이며, 일부 부위에만 국소적으로 이환되고, 법랑질의 발육부전이 뚜렷한 것으로 감별 가능하다. 또한 상아질 이형성증은 치관의 크기, 모양, 비율이 정상이고 모든 치근이 짧거나 비정상적인 형태이며, 특히 유치의 치근이 맹출 후 치수강폐쇄와 근관축소를 보이는 점에서 국소적 이형성증과 감별된다<sup>27)</sup>.

이환된 치아는 대개 감염으로 인한 치근단농양으로 발치하는 것이 일반적이지만<sup>20,25,26)</sup>, 치아 발거는 비가역적이고 치조골 용기에 큰 영향을 주므로 신중히 결정해야 한다. 특히 환아가 어린 경우에는 가능한 치아를 보존하여 치조골 성장을 유도함으로써 나중에 보철물을 위한 심미성 확보와 임플란트를 위한 적당한 골 상태를 유지해줘야 한다<sup>28)</sup>. 부분 맹출한 치아는 전기 외과적 수술(electrosurgery)로 상방 치은을 절제하여 치관을 노출시킨 후 산부식 레진이나 글래스아이오노머 시멘트로 수복 치료할 수도 있고<sup>13)</sup>, 임상 치관이 충분하다면 기성금관으로 수

복할 수도 있다<sup>12)</sup>. 치아 발거만이 유일한 치료 방법은 아니며, 유치에 맹출하자마자 치수절제술과 기성금관을 수복해 주고, 영구치는 과절과 감염을 막기 위해 기성금관으로 보호해 주어 이환치의 생활력 보존과 지속적인 상아질 형성을 유도할 수도 있다. 예방적 근관 치료를 함으로써 마모나 기계적인 삭제로부터 치수 노출을 차단해주고, 치수절단술이나 치근단형성술을 통해 치근형성을 유도할 수도 있다. 그러나 이환된 치아의 치근이 매우 짧거나 치근침이 넓게 개방되어 있다면 치수괴사나 치아 불안정성으로 발거가 고려되며, 발치된 공간은 가철식 간격유지장치를 장착하여 악골의 성장시 치조골 형태를 보존함과 동시에 기능적 또는 심미적인 면을 보완해야 한다<sup>29)</sup>.

본 증례는 임상 및 방사선검사를 통해 하악 좌측 치아들의 국소적 치아이형성증으로 진단되었으며 가능한 치아를 보존하기 위해 하악 좌측 제 1유구치에 글래스아이오노머 시멘트를 이용한 수복치료를 시행한 후 현재 관찰 중에 있다. 향후 정기적인 검진을 통해 치아의 맹출 여부와 계승 영구치의 이환 여부 등을 관찰하여 발생 가능한 구강 내 문제점을 최소로 할 수 있는 대책이 필요할 것으로 사료된다.

IV. 요약

1. 국소적 치아이형성증에 이환된 치아는 발육 부전이나 정지로 인하여 미맹출이나 부분 맹출이 발생할 수 있다.
2. 국소적 치아이형성증에 이환된 치아는 취약한 치면으로 인해 치근단 농양이나 치은 부종이 유발되기 쉬우므로 예방적인 수복 치료를 시행해 줌으로써 가능한 치아를 유지하여 치조골 형태를 보존해야 한다.
3. 이환된 치아의 발거가 불가피한 경우에는 발거 후 간격유지장치를 장착하여 기능적, 심미적인 면을 보완해야 하며, 정기적 검진을 통해 계승 영구치의 상태를 평가한 후 치료 계획을 설정해야 한다.

참고문헌

1. Hitchin AD : Unerupted deciduous teeth in a youth aged 15 1/2. Br Dent J, 56:631-633, 1934.
2. Mc Call JO, Wald SS : Clinical dental roentgenography. 2nd ed. Philadelphia, Saunders, 150, 1947.
3. Gibbard PD, Lee KW, Winter GB : Odontodysplasia. Br Dent J, 135:525-532, 1973.
4. Lunin M, Devore D : The etiology of regional odontodysplasia. J Dent Res, 55:109-122, 1976.
5. 손덕일, 김현경, 남순현 등 : 국소적 치아이형성증(regional odontodysplasia)에 대한 증례보고. 대한소아치과학회지, 24:19-26, 1997.
6. Alexander WN, Lilly GE, Irby WB : Odontodysplasia. Oral Surg, 22:814-820, 1966.
7. Bergman G, Lysell L, Pindborg JJ : Unilateral den-

- tal malformation : Report of two cases. Oral Surg, 16:48-60, 1963.
8. Jay VK, Nannni BT, McGuff HS : Regional odontodysplasia. J Clin Pediatr Dent, 21:35-40, 1996.
9. Slootweg PJ, Meuwissen PRM : Regional odontodysplasia in epidermal nevus syndrome. J Oral Pathol, 14:256-262, 1985.
10. Rushton MA : Odontodysplasia : ghost teeth. Br Dent J, 119:109-113, 1965.
11. Zegarelli EV, Kutscher AH, Applebaum E et al. : Odontodysplasia. Oral Surg, 16:187-193, 1963.
12. Lustmann J, Klein H, Ulmanky M : Odontodysplasia : Report of two cases and review of literature. Oral Surg, 39:781-793, 1975.
13. Crawford PJM, Aldred MJ : Regional odontodysplasia. J Oral Pathol Med, 18:251-263, 1989.
14. Lustmann J, Klein H, Ulmanky M : Odontodysplasia : Report of two cases and review of literature. J Oral Surg, 39:781-793, 1975.
15. Schmid ME : Unilateral odontodysplasia with ipsilateral hypoplasia of the midface : a case report. J Maxillofac Surg, 10:119-122, 1982.
16. Walton JL, Witkop CJ, Walker PO : Odontodysplasia : report of three cases with vascular nevi overlying the adjacent skin of the face. J Oral Surg, 46:676-684, 1978.
17. Billet J, Kerebel B, Lumineau JP et al. : Une exceptionnelle anomalie dentaire : "la dent fantom" ou "odontodysplasie". Rev Stomtol Chir Maxillofac, 76:23-31, 1975.
18. Dayal PK, Mani NK : Odontodysplasia : Report of a case. J Oral Med, 36:79-81, 1981.
19. Crawford PJM : Regional odontodysplasia. J Oral Pathol Med, 18:251-263, 1989.
20. Ylipaavalniemi P, Ranta R, Lamberg M : Odontodysplasia associated with unilateral malformations : a case report. Proc Finn Dent Soc, 8:134-140, 1982.
21. Kahn MA, Hinson RL : Regional Odontodysplasia : case report with etiologic and treatment considerations. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 72:462-467, 1991.
22. Gardner DG, Sapp JP : Regional Odontodysplasia. J Oral Surg, 35:351-365, 1973.
23. Kraus BS, Myers RE, Clark GR : Teratogenic effects of carotid artery ligation on the developing dentition of the rhesus monkey. Teratology, 2:163-172, 1969.
24. Foster TD : The effects of hemifacial atrophy on

- dental growth. Br Dent J, 146:148-150, 1979.
25. Burch MS, Besley KW, Samuels HS : Regional odontodysplasia with associated midline mandibular cyst : report of a case. J Oral Maxillofac Surg, 31:44-48, 1973.
26. Miller WA, Seymour RH : Odontodysplasia. Br Dent J, 125:56-59, 1968.
27. 대한구강악안면방사선학회편 : 구강악안면방사선학 2판, 이우문학사, 서울, 279-282, 1996.
28. Hintz CS, Preters RA : Odontodysplasia : report of an unusual case and review of the literature. Oral Surg, 34:744-750, 1972.
29. Pinkham JR, Burkes EJ : Odontodysplasia. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 36:841-850, 1973.

Abstract

REGIONAL ODONTODYSPLASIA : CASE REPORT

Hyung-Jun Choi, Byung-Jai Choi, Jae-Ho Lee, Heung-Kyu Son, Seong-Oh Kim, Ji-Hee Kim

*Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Yonsei University*

Regional odontodysplasia(ROD) is relatively rare localized developmental anomaly of tooth formation in which hard tissue is affected. The maxilla is typically affected than the mandible, and especially the maxillary left quadrant is the most commonly involved. Females are affected twice as often as males, and there is no association with race.

Its etiology remains undetermined, but local circulatory disorders, somatic mutations, virus infections, local trauma, hyperpyrexia, irradiation, metabolic disturbances, and hereditary transmission are considered as possible etiologic factors.

The affected teeth are likely to be small, hypoplastic, brown, and grooved. Eruption failure or delay is frequently seen as well as abscess or fistulae formation in absence of caries. Radiographically, there is a lack of contrast between the enamel and dentin, both of which are less radiopaque than unaffected counterparts. Moreover, enamel and dentin layers are thin, giving the teeth a "ghost-like appearance". The pulp chambers and canals are large, the roots seem like to be short and indistinct.

A 2-year-3-month old boy came to the department of pediatric dentistry, Yonsei University, with the chief complaint of delayed eruption and abnormal tooth shape on the lower left quadrant. He was diagnosed as regional odontodysplasia based on the clinical and radiographic findings.

**Key words** : Regional odontodysplasia, Developmental anomaly, Hypoplastic