

3가지 형태의 백악질-골성 이형성증에 대한 증례보고

김영란 · 김여갑 · 이백수 · 권용대 · 최병준

경희대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2009;35:481-485)

3 TYPES OF CEMENTO-OSSEOUS DYSPLASIA : CASE REPORTS

Young Ran Kim, Yeo Gab Kim, Baek Soo Lee, Yong-Dae Kwon, Byung Joon Choi

Departments of Oral and Maxillofacial Surgery, Kyung Hee University Dental School, Seoul, Korea

Cemento-osseous dysplasias are a group of disorders known to originate from periodontal ligament tissues and involve, essentially, the same pathological process. They are usually classified, depending on their extent and radiographic appearances, into three main groups.

Periapical cemental dysplasia predominantly involves the periapical region of the anterior mandible. Florid cemento-osseous dysplasia presents with multifocal lesions in the tooth bearing or edentulous areas of the maxilla and mandible, often occurring bilaterally with symmetric involvement. Focal cemento-osseous dysplasia exhibits a single site of involvement in any tooth bearing or edentulous area of the mandible or maxilla, with the posterior mandible representing the most common site.

We report the clinical, radiographic and histological findings of 3 types of cemento-osseous dysplasia with a review of literatures.

Key words: Periapical cemental dysplasia, Florid cemento-osseous dysplasia, Focal cemento-osseous dysplasia

(원고접수일 2009. 9. 14 / 1차수정일 2009. 9. 24 / 2차수정일 2009. 10. 5 / 게재확정일 2009. 10. 21)

I. 서 론

1992년 World Health Organization(WHO)에서는¹⁾ 환자 나이, 성별, 조직학적 소견, 방사선학적 소견, 임상적 특징, 병소의 위치 등을 토대로 cementomatous lesions을 분류하였다. 여기에는 cement-ossifying fibroma, benign cemento-blastoma, cemento-osseous dysplasia group이 포함되어 있으며 cemento-osseous dysplasia(COD)는 그 양상에 따라서 periapical, florid, focal로 세분될 수 있다.

Periapical cemento-osseous dysplasia(PCOD)는 하악 전치부에서 호발하며 10-14:1로 여성, 특히 흑인 여성에 자주 발생하는 것으로 알려져 있다²⁾. 임상증상은 거의 없으며 40-60대에 흔히 발생하는 것으로 보인다³⁾.

Florid cemento-osseous dysplasia(FCOD)는 PCOD보다 더 광범위하게 나타나는 형태로써 중년의 흑인 여성에서 가

장 흔하게 나타나며 가족성향을 보이기도 한다^{4,5)}. 보통 외적인 징후나 증상은 없으나 병소가 이차 감염된 경우, 통증이나 불편감이 동반될 수 있다⁶⁾.

Focal cemento-osseous dysplasia는 상,하악의 유치악이나 무치악 부위에 한 곳에서만 나타나는 형태로 하악 구치부에서 주로 관찰된다. 10:1 정도의 비율로 여성에서 호발하며 백인에게서 더 자주 발생한다²⁾.

본 증례보고에서는 3가지 COD type의 방사선학적, 조직학적, 임상적 소견 및 치료방법을 살펴보고자 한다.

II. 증례 보고

1. CASE 1

38세 여자 환자가 좌측 상악 전치부에서 고름이 나온다는 주소로 2006년 12월 타병원에서 의뢰되었다. 2년 전 #21을 발치한 후, 1년 전부터 그 부위에 잇몸이 붓고 고름이 나오기 시작했다고 하였다. 기타 전신 병력이나 흡연, 음주 경험은 없었다. 내원 당시 상악 전치부위에 치은부종 및 발적을 보이고 있었으며 촉진 시 통증을 호소하였다. #21부위에서 지속적으로 배농되고 있었으며 EPT 검사상 #11과

김 여 갑

130-701 서울특별시 동대문구 회기동 1번지
경희대학교 치의학전문대학원 부속병원 구강악안면외과

Yeo Gab Kim

Hoegi 1, Dongdaemunku, Seoul, 130-701, Korea
Dept. of OMFS, KyungHee University Dental School
Tel: 82-2-958-9440
E-mail: kyukab@khu.ac.kr

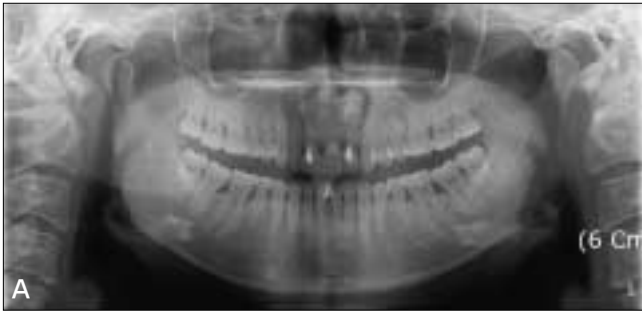


Fig. 1. A moderately-defined radiopaque-radiolucent lesion on the maxillary upper area with a scalloped margin is observed. Amorphous radiopaque portion attached on the #22 root. Cortical bone thinning, expansion and destruction of the buccal and palatal side are seen.

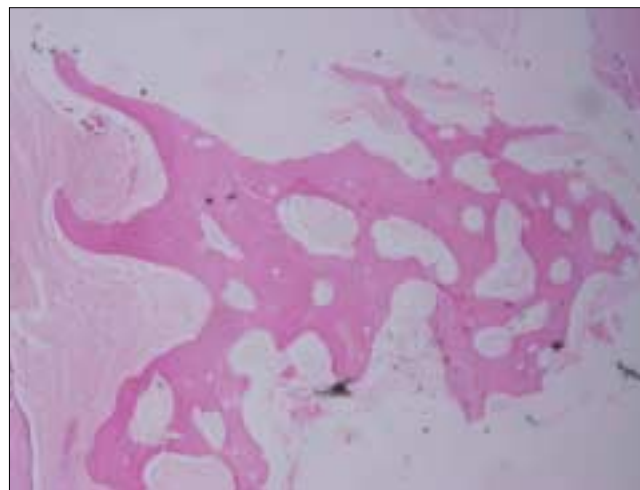
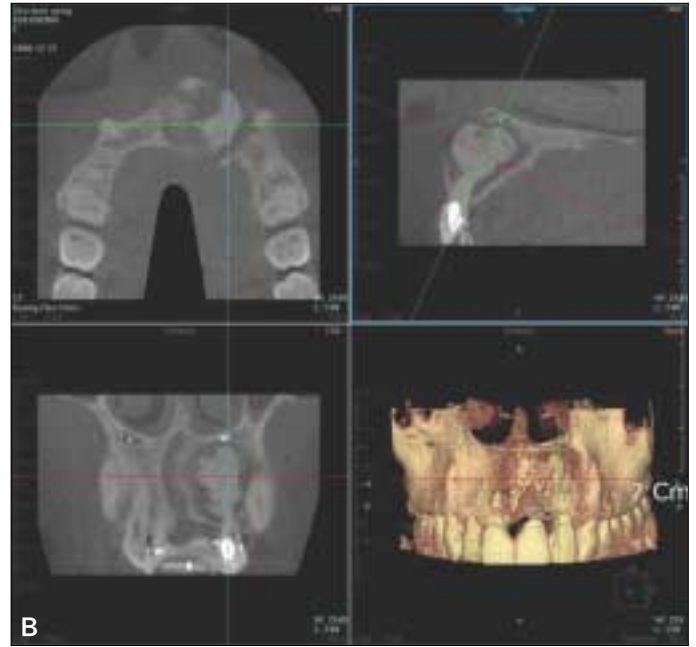


Fig. 2. The fibrous tissue is composed of spindle-shaped fibroblast and dense collagen fibers. The calcified matrix is cementum-like and acellular, and arranged in trabeculae and spicules. (x40, H/E)

#22의 생활력은 소실된 것으로 나타났다. 타진검사 시 통증을 나타내는 치아는 없었으며 동요도 또한 관찰되지 않았다.

Panorama와 Dental CT상 #11에서 #23까지의 치근단 부위에 방사선 불투과성 및 방사선 투과성이 혼재된 양상의 병소가 관찰되었다. 무정형의 방사선 불투과성 부분은 직접적으로 #22과 연결되어 있었으며 전체 병소 주변으로 방사선 투과성 rim이 관찰되었고 협측 및 구개측의 치밀골은 비박화되고 때로는 파괴된 양상을 나타내었다(Fig. 1). 이러한 임상 및 방사선 검사 상, 감염이 수반된 periapical

cemento-osseous dysplasia로 잠정 진단하였으며 병소를 완전히 적출한 후 조직검사하기로 하였다. 전신 마취 하에 병소를 외과적으로 적출하였으며 비교적 경계는 명확한 것으로 나타났다. 병소와 직접적으로 연결된 #22과 병소 제거 후 심한 동요도를 보이는 #11, #23은 발치하였다.

조직검사 상 방추형 섬유모세포와 콜라겐 섬유로 구성된 세포성 결합조직 및 무세포성의 백악질양 석회화 구조물이 관찰되어 periapical cemento-osseous dysplasia로 확진하였다(Fig. 2). 술 후 환자는 주기적으로 추적 관찰 중이며 현재까지 재발은 보고되지 않았다.



Fig. 3. Multiple moderately-defined radiopaque lesions on mandible are observed(A). Ill-defined and diffuse bony destruction of the alveolar bone on the right posterior mandibular region are noted(B).

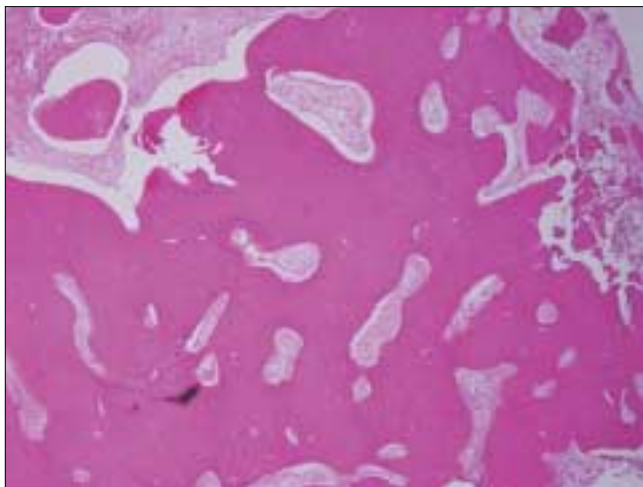
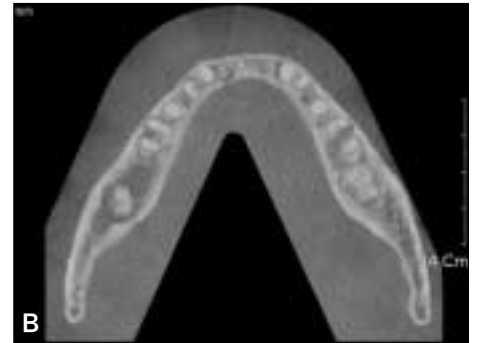
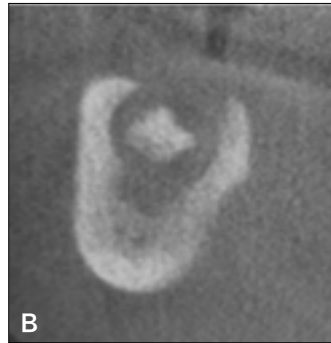


Fig. 4. Individual trabeculae are fused, connected, and form a large irregular mass. (x40, H/E)

2. CASE 2

55세 남자 환자가 2008년 8월경 타병원에서 우측 하악 제 3대구치를 발거한 후, 동일 부위에 지속적인 통증 및 배농이 있어 2009년 1월 본과로 의뢰되었다. 기타 전신 병력은 없었으며 내원 당시 우측 하악 구치부 치은 부종이 관찰되었고 촉진 시 통증을 호소하였다.

panorama상 하악 치아 치근단부에 다발성으로 방사선불투과성의 병소가 관찰되었으나(Fig. 3A) 우측 구치부를 제외하고는 임상적으로 이상소견을 보이지 않았다. Dental CT상 하악 우측 구치부위에 경계가 불명확한 방사선 불투과성 병소가 관찰되었으며 협설측 피질골이 파괴되어 부

골화된 양상을 나타내었다. 또한 설측 피질골에 반응성 골막반응을 관찰할 수 있었다(Fig. 3B). 이러한 임상 및 방사선 소견 상 기준에 Florid cemento-osseous dysplasia가 있었고 발치로 인해 하악 우측 구치부위에 골수염이 발생한 것으로 잠정 진단하였다. 전신마취하에 외과적으로 적출하였으며 병소는 조직검사를 시행하였다. 조직 검사 상 각각의 석회화 구조물들이 서로 연결되어 불규칙한 모양의 큰 덩어리를 형성한 것이 관찰되었으며 방사선학적 소견과 종합하여 Florid cemento-osseous dysplasia로 확진하였다(Fig. 4). 술 후 환자는 주기적으로 검사 중이며 구강 내로 노출이 되지 않은 다른 병소들은 별다른 임상증상을 나타내지 않는 것으로 관찰되었다.

3. CASE 3

59세 여자 환자가 좌측 하악 구치부위 골성 종창을 주소로 타병원에서 의뢰되었다. 내원 당시 환자는 저작시 #35, #37에 통증을 호소하고 있었다. 임상적으로 좌측 하악 구치부 골조직이 overgrowth된 양상 보이고 있었으며 #35, 37은 타진반응은 없었으나 1도 정도의 동요도를 나타내고 있었다.

Panorama상 비교적 경계가 명확한 방사선 투과성 및 방사선 불투과성이 혼재된 병소가 좌측 하악 구치부에 관찰되었으며 주변부로 방사선 투과성 rim이 존재하였다(Fig. 5A). Dental CT상 협설측 피질골이 비박화되고 팽창된 것을 관찰할 수 있었으며 방사선 투과성 병소는 무정형의 내부구조를 나타내었다(Fig. 5B). Cemento-ossifying fibroma



Fig. 5. A moderately-defined monocular radiolucent-radiopaque lesion on the left mandibular body area. The border is scalloped with a radiolucent rim(A). Thinning and expansion of the buccal and lingual cortical plate are observed(B).

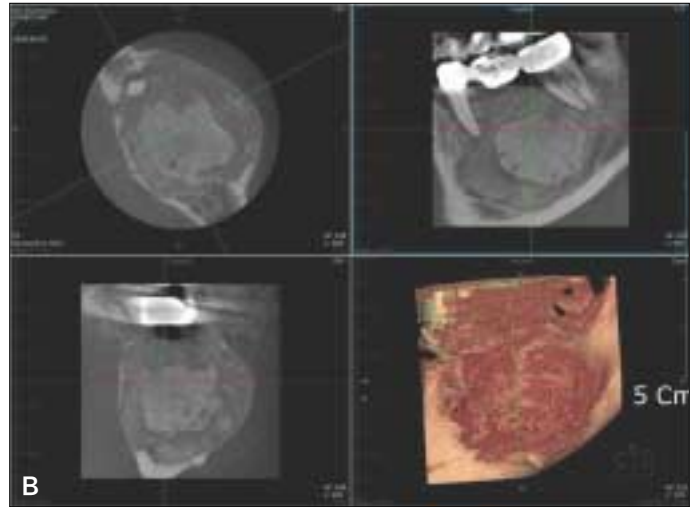


Fig. 6. Cemental mineralization which is surrounded by fibroblastic cellular stroma is observed. (x40, H/E)

로 잠정진단하고 국소마취 하에 조직검사를 시행한 결과, cemento-osseous dysplasia로 확인되었다. 치료방법으로 보존적 절제술을 고려하였으나 환자가 병소부위에 심한 통증을 호소하여 완전 절제하기로 계획하였다. 전신마취하에 partial mandibulectomy 시행 후 iliac bone graft 하였다. 병리조직검사에서 섬유모세포성 기질로 둘러싸인 백악질 성분의 석회화 물질이 관찰되었으며 방사선학적 소견을 종합하여 focal cemento-osseous dysplasia로 확진하였다(Fig. 6). 술 후 수술 부위에 지속적인 염증 증상으로 2번의 sequestrectomy를 추가로 시행하였으나 현재는 별다른 임상증상 없이 잘 유지되고 있는 것으로 나타났다.

Ⅲ. 고 찰

양성 섬유-골성 병소란 세포성 섬유조직과 불규칙하게 배열되는 석회 구조물이 정상 골조직 즉, 소주골과 골수를 대체하는 악골 내 병소를 말한다. 여기에 속하는 가장 흔한

질환이 COD이다. 이 병소는 백악질 기원으로 생각되는 구형 석회화 물질과 소주골에서 떨어져 나온 조각과 유사한 방향성 없이 배열된 소주골이 함께 나타나기 때문에 이렇게 명명되었다. COD의 발생원인은 정확히 알 수 없으나 Kawai 등⁷⁾은 COD가 골개조에 영향을 주는 호르몬 불균형에 의해서 발생하는 이형성 과정으로 추측하기도 하였다.

세 가지 type의 COD는 초기 형성에서 병소가 성숙되는 단계까지 세 가지 형태의 방사선 소견을 보인다⁸⁾. 초기 osteolytic stage에서는 골조직이 흡수되면서 혈관이 잘 발달한 섬유성 결합조직의 증식이 이루어진다⁹⁾. 방사선학적으로는 경계가 좋은 방사선 투과성 병소가 관찰되며 치주인대와 lamina dura가 소실되기 시작한다. 병소는 Round, oval, 또는 불규칙한 형태를 보이고 주변에 다양한 두께의 경화된 골로 둘러싸이는 경우도 있다. 두 번째 cementoblastic stage에서는 결절성의 방사선 불투과성 침전물을 가진 방사선 투과성 소견을 보이며 경계가 명확하고 크기는 osteolytic stage에서와 비슷하다. 마지막 osteosclerotic stage에서 병소는 경계가 명확한 방사선 불투과성 소견을 보이며 조직학적으로 결절성도 관찰되고 결합조직은 아주 적게 된다. 각각의 방사선 불투과성 결절은 주변의 골조직과 치아를 분리시키는 얇은 방사선 투과성 지역으로 둘러싸여 있다. 이러한 병소들은 악골에 국한되며 다른 골격 부위에 혈액검사상 또는 방사선학적 검사상 골 질환을 나타내지는 않는다¹⁰⁾.

PCOD는 periapical cemental dysplasia 또는 cementoma로도 알려져 있으며 COD 중에서 가장 흔한 병소이다. 단독으로 병소가 발생하기도 하지만 다발성으로 더 많이 나타난다. 하악 절치의 치근단 하방에서 가장 흔하게 발생하며 치아는 생활치이고 피질골의 협축 또는 설축 팽창은 거의 없다. PCOD로 진단되면 더 이상의 치료는 필요치 않으나 발치 등으로 병소가 노출되면 case 1의 경우처럼 골수염으로 진행될 우려는 있다²⁾. 따라서 외과적 처치 전 방사선학적 검사를 꼼꼼히 하는 것이 중요하고 환자에게 추후 골수염

발생 가능성에 대해서 주지시키는 것이 필요하다.

FCOD는 치아가 있는 부위나 무치악 부위에 다발성으로 병소가 발생하는 것으로 가끔은 양측에 대칭적으로 발생하는 모습을 보이기도 한다²⁾. 이 질환은 상염색체 우성 유전 양상을 보이기도 하지만 흔히 보고되는 경우는 아니다^{5,11)}. 대부분의 환자들은 증상이 없으나 가끔은 둔통이나 상악 누공을 호소하기도 하고 이차 감염으로 구강 내에 무혈관성의 골구조가 노출되기도 한다³⁾. 병소가 광범위하게 나타나기 때문에 외과적으로 모두를 완전 절제하는 것은 적절치 않으며, 수술이 필요할 경우에는 심미성을 위해서 remodeling resection이 추천된다¹²⁾. 따라서 case 2의 경우에도 골수염이 발생한 부위만을 외과적으로 처치하고 다른 임상증상을 보이지 않는 병소 부위에 대해서는 추적 관찰중이다.

Focal cemento-osseous dysplasia는 40-50대에 주로 발생하는³⁾ 질환으로 수술적 치료가 필요 없다. 그러나 확진을 위해서는 지속적인 검진이 필요하며 Waldron¹³⁾이나 Manganaro¹⁴⁾ 등은 florid cemento-osseous dysplasia로 변형될 가능성도 있다고 보고하였기 때문에 장기간 검사 시 이점을 고려해야 될 것으로 생각된다. Case 3의 경우 incisional biopsy상에서 COD로 나왔으나 방사선학적 형태상 cemento-ossifying fibroma처럼 관찰되고 환자가 지속적인 통증을 호소하는 바, 병소 전체의 조직 검사가 필요하다고 판단하여 부분적 하악절제술을 시행하였다.

COD는 질환단계에 따라 방사선학적으로 관찰되는 양상이 다르므로 임상적 양상을 함께 고려하여 periapical abscess, cyst, chronic diffuse sclerosing osteomyelitis, fibrous dysplasia, Paget disease 등과 감별진단하는 것이 중요하다. Periapical abscess나 cyst의 경우, 치관부에 caries나 restoration을 동반하는 경우가 흔하고 치아의 생활력이 소실되는 경우가 많으며 가끔 치아변위를 일으키기도 한다. 이에 반해, COD와 연관된 치아는 건전한 경우가 많으며 생활치이다.³⁾ chronic diffuse sclerosing osteomyelitis는 주로 코카시안 성인 남자에게서 발병하는 것으로 병소의 경계가 불명확하며 주기적으로 통증 및 부종이 반복되고 화농성 병소가 형성되기도 한다. 이에 반해, COD는 병소가 구강내로 노출되지 않는 한 임상증상이 흔하지 않으며 여성에서 호발하는 경향을 보인다.¹⁵⁾ fibrous dysplasia는 COD에 비해 골소주의 크기가 작고 방사선학적으로 골껍질 혹은 간유리 모양과 같은 독특한 양상으로 관찰된다.¹⁶⁾ Paget disease는 COD보다 광범위하게 모든 하악골을 이환시키는 경우가 많으며 다골성 질환이기 때문에 대개 두개골로 이환된다. 따라서 감별진단을 위해서 두부 방사선사진과 알칼리성 인산 효소농도를 측정하기 위한 혈액검사를 시행하는 것이 필요하다.³⁾ 일단 COD로 진단이 되면 환자가 임상증상을 느끼지 못하는 경우에는 치료를 할 필요가 없다. 그러나 이와 연관된 치아를 발거한 뒤에는 치유가 잘 안되며 비교적 골수염에 쉽게 이환될 수 있기 때문에 구강위생 관리를 잘해

야 한다. 또한 치아가 발거된 후 잔존해 있던 석회화 물질이 구강점막을 통하여 노출될 경우 감염원이 될 수 있으므로 의치 등을 제작할 경우에는 미리 제거해 주는 것이 좋다.

IV. 결 론

본 증례에서는 발치 등으로 인하여 임상증상을 나타내는 백악질-골성 이형성증 환자에서 임상 및 방사선학적, 조직학적 소견을 바탕으로 3가지 type으로 구분하여 진단하였으며 종물을 외과적으로 적출 후 현재까지 재발 등의 증상 없이 양호한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histologic typing of odontogenic tumors. WHO international Classification of Tumors 2nd ed. Berlin: Springer-Verlag., 1992.
2. Resnick CM, Novelline RA. Cemento-osseous dysplasia, a radiological mimic of periapical dental abscess. Emerg Radiol 2008;15:367-74.
3. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. Oral & Maxillofacial Pathology 2nd ed. Philadelphia: W.B.Saunders Co., 1995.
4. Miyake M, Nagahata S. Florid cemento-osseous dysplasia. Report of a case. Int J Oral Maxillofac Surg 1999;28:56-7.
5. Toffanin A, Benetti R, Manconi R. Familial florid cemento-osseous dysplasia: a case report. J Oral Maxillofac Surg 2000;58:1440-6.
6. Goncalves M, Pispico R, Alves Fde A, Lugao CE, Goncalves A. Clinical, radiographic, biochemical and histological findings of florid cemento-osseous dysplasia and report of a case. Braz Dent J 2005;16:247-50.
7. Kawai T, Hiranuma H, Kishino M, Jikko A, Sakuda M. Cemento-osseous dysplasia of the jaws in 54 Japanese patients: a radiographic study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999;87:107-14.
8. Tanaka H, Yoshimoto A, Toyama Y, Iwase T, Hayasaka N, Moro I. Periapical cemental dysplasia with multiple lesions. Int J Oral Maxillofac Surg 1987;16:757-63.
9. Galgano C, Samson J, Kuffer R, Lombardi T. Focal cemento-osseous dysplasia involving a mandibular lateral incisor. Int Endod J 2003;36:907-11.
10. Dagistan S, Tozoglu U, Goregen M, Cakur B. Florid cemento-osseous dysplasia: a case report. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2007;12:348-50.
11. Oikarinen K, Altonen M, Happonen RP. Gigantiform cementoma affecting a Caucasian family. Br J Oral maxillofac Surg 1991;29:194-7.
12. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 1985;43:249-62.
13. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 1993;51:828-35.
14. Manganaro AM, Millett GV. Periapical cemental dysplasia. Gen Dent 1996;44:336-9.
15. Groot RH, van Merkesteyn JP, Bras J. Diffuse sclerosing osteomyelitis and florid osseous dysplasia. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1996;81:333-42.
16. Singer SR, Mupparapu M, Rinaggio J. Florid cemento-osseous dysplasia and chronic diffuse osteomyelitis Report of a simultaneous presentation and review of the literature. J Am Dent Assoc 2005;136:927-31.