하악 전방부에 발생한 Stafne's cyst에 대한 증례보고

장학선 · 김은주 · 윤보근 · 임대호 · 고승오 · 신효근
전북대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실, 구강생체과학연구소

Abstract

A CASE REPORT: STAFNE'S CYST IN THE ANTERIOR MANDIBLE

Hak-Sun Jang, Eun-Ju Kim, Bo-Keun Yoon, Dae-Ho Leem, Seung-O Ko, Hyo-Keun Shin
Department of Oral & Maxillofacial Surgery, School of Dentistry,
Institute of Oral Bio Science, Chonbuk National University

In 1942, Stafne described 35 "bone cavities" at the angle of the mandible. They appeared as unilocular, well-circumscribed, round or elliptical radiolucencies located below the inferior dental canal and between the angle of the mandible and first molar tooth. Since 1942, these lesions have been frequently described under various terms: aberrant or ectopic salivary gland; static or latent or idiopathic defect, cavity or cyst; mandibular salivary gland inclusion; lingual mandibular cavity; and Stafne's cyst, defect or cavity. Usually they were asymptomatic, with a predilection for men between age 50 and 70 years, and almost unilateral. At surgical exploration, they appeared as concavities on the lingual cortex and contained salivary gland tissue, often in continuity with the submandibular gland. In 1957, Richard and Ziskind were the first to report the appearance of a Stafne's cyst in the premolar region. Contrary to posterior defects, the anterior defects are difficult to diagnose clinically because the mandibular canal is not present, and the unilocular radiolucency can be confused with other cysts (radicular, residual, odontogenic, lateral periodontal,etc).

The purpose of the present report is to describe an unusual case of Stafne's cyst in the anterior region of the mandible in 58-years-old woman.

Key words: Stafne's cyst, Mandible

Ⅰ. 서 론

Stafne (1942)는 하악 우각부에 발생한 35 증례의 골 공동(bone cavities)에 대해 처음으로 보고하였다.[1] 이것들은 하악 우각부와 제1대구치 사이의 하악관 하방에 위치하였으며 단방성이고 잘 경계가 되어진, 원형 혹은 타원형의 방사선 투과상을 보였다.

직경은 1-3 cm이고, 과골성 변연에 의해 잘 경계가 되어졌다. 그 크기가 시간이 지나도 영구적으로 변화지 않기 때문에, 다른 학자들은 이런 병소들을 static 혹은 latent cysts로 명명하였다. 이후로 이러한 골 함몰의 병인이 확실하지 않아 aberrant or ectopic salivary gland; static or latent or idiopathic defect, cavity, or cyst; mandibular salivary gland inclusion; lingual mandibular cavity; Stafne's cyst, defect or cavity 등 다양하게 명명되어 왔다.

최초의 언급 이후, 비슷한 방사선투과성 병소들은 외과적으로 조사되었다. 대부분 정상 혹은 염증성의 악하선 조직을 포함하였고, 그 밖에 정상 혹은 염증성 림프선 조직, 지방조직, 섬유성 결합 조직, 혈관, 말초 신경, 빈 공간 등을 포함하였다.

보통 무증상이고, 50대에서 70대 사이의 남성에서 대부분 편측성으로 나타난다. 외과적 검사 시, 설측 피질골에 함몰부를 보이며 그 내부에 타액선 조직을 포함하고 종종 악하선과 연결되기도 한다. 대부분의 Stafne's cysts는 편측성이며, 양측성인 경우는 드물다. 병소가 하악 전방부에 발

생하는 경우는 양측성의 경우보다도 훨씬 드물다. 발생률은 연구에 따라 0.1-0.48%로 다양하였다.[2,3]

Richard와 Ziskind (1957)는 소구치부에 위치한 Stafne's cyst에 대한 증례를 최초로 보고하였다. 전방부 병소의 경우 후방부 병소와 달리, 하악관과 같은 해부학적 지표가 없고 방사선사진 상 단방성이어서 다른 낭종들(치근낭, 잔존낭, 치성낭, 측방치주낭)과 혼동되기 쉽다.[4]

본 교실에서는 매우 드문 증례로써, 58세 여성의 하악 전방부에 발생한 Stafne's cyst를 치험하였기에 대하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Ⅱ. 증례 보고

58세 여자 환자가 하악 좌측 중절치의 근관치료를 위해 개인 치과에 내원하였다가 하악 우측 전방부에 방사선 투과성 병소가 발견되었다.

구강외 소견으로 안면부 부종 및 압통 소견 보이지 않았고, 발열 및 발적 소견 없었다. 개구 제한이나 하악 우측 또는 이부에 지각이상도 관찰되지 않았다. 구강내 소견으로는 하악 우측 협측 및 설측 전정부에 부종 및 압통 존재하지 않았고, 촉진 시 하악 우측 견치 하방으로 함몰부가 감지되었다. 하악 우측 중절치, 측절치, 견치, 제1소구치의 동요도 및 타진반응은 없었고, 전기 치수 반응 검사 시, 모두 치수 생활력을 나타냈다.

파노라마방사선사진, 치근단방사선사진 촬영 결과 하악 우측 견치 하방에 1.5 × 0.8 cm 크기의 명확하게 경계가 구분이 되는 방사선 투과성 병소가 관찰되었다(Fig. 1). 병소의 상방 및 하방, 좌측 및 우측에서는 두꺼운 피질골성 변연을 가지고 있었다. 인접치근과의 중첩 없이 분리되어 있었으며, 인접치아의 변위 또는 치근 흡수 양상은 발견되지 않았다(Fig. 2). 환자의 병력 상 14년 전 자궁 근종 제거 수술을 받았고, 3년 전부터 불면증으로 진단받아 약물을 복용하고 있다가 한 달 전부터 중단하였다. 그 외에 하악 우측 전방부 병소와 연관된 것으로 여겨지는 하악골의 외상 또는 수술 등의 기왕력은 없었다. 정확한 진단을 위한 추가 검사로 전산화 단층 촬영을 실시하였다. 병소 중앙부의 체축면, 시상면상에서 설측 피질골은 깊게 함몰되어 협측 피질골과 맞닿아 두 피질골을 구분할 수 없었으며 협측 피질골이 얇아진 양상을 보였다(Fig. 3). 그러나 피질골의 팽윤, 천공, 골파괴 양상으로 보이지는 않았다.

환자에게 임상 증상이 없었고, 방사선 검사 결과를 토대로 Stafne's cyst로 진단하였다. 그러나 Stafne's cyst가 하악 전방부에 발생하는 경우는 매우 드물고, 다른 양성 종양이나 낭성 병소일 가능성을 배제할 수 없기 때문에 확진을 위해 외과적으로 접근하여 생검하기로 하였다. 국소마취 하에 생검을 시행하였으며 검사 결과 타액선 조직을 포함한 Stafne's cyst로 진단되었다(Fig. 4).

Ⅲ. 고 찰

하악골 후방부의 Stafne cyst는 쉽게 인지할 수 있는 하악관 하방의 특징적인 위치와 방사선학적 특징을 가지고 있어, 일반적인 방사선 검사로 비교적 쉽게 진단이 가능하다.[5] 이 병소는 때때로 하악골 하연의 연속성을 중단시키기도 한다.[5] 드물게, 하악 설측의 골결손부가 임상 검사 중에 촉진될 수 있으며 이는 진단에 도움을 준다. 또한, 악하선의 타액선 조영술도 진단에 매우 유용하게 이용될 수 있다.[4] 이러한 병소들은 대개 무증상이고, 비침습적이며, 외과적 개재는 적응증이 아니다. 하지만 방사선 추적 검사가 요구된다.[4]

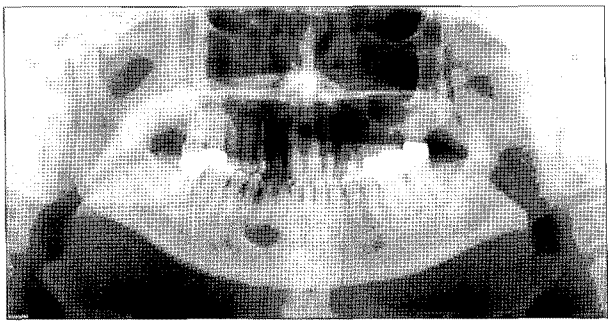

Fig. 1. Panoramic radiograph shows a oval-shaped radiolucency with a sclerotic margin at right anterior mandible.

Fig. 2. Periapical standard showing unilocular, well-circumscribed, elliptical radiolucencies located below right mandibular lateral incisor and cuspid.

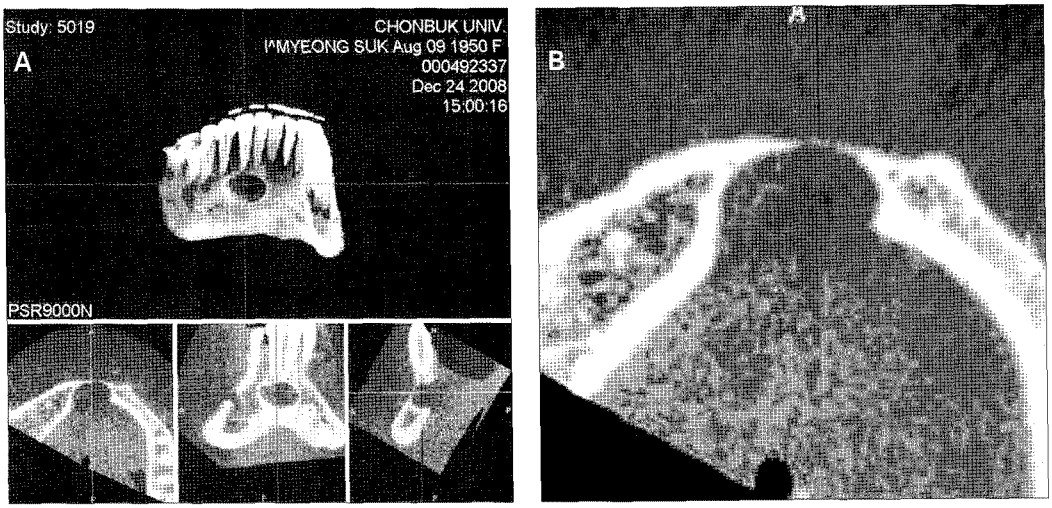

Fig. 3. A. Computed tomography images displaying a characteristic opening of the defect in the lingual mandibular cortex. B. Axial view shows thinning of the buccal cortex.

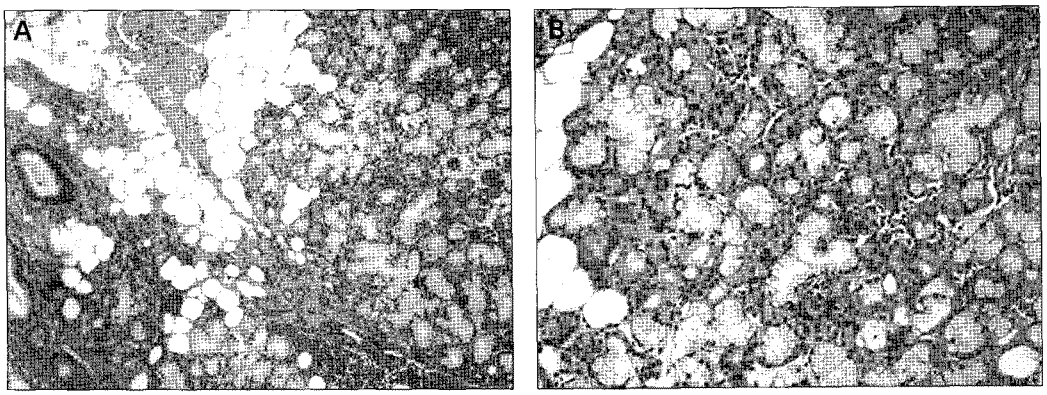

Fig. 4. A. Microphotograph of lower power showing salivary gland tissue with glandular lobules (Hematoxylin- eosin stain; magnification x100).
B. Microphotograph of high power showing salivary gland tissue with glandular lobules (Hematoxylin-eosin stain; magnification x100).

후방부 병소와 반대로, 전방부 병소는 하악관과 같은 해부학적 지표가 없다. 단방성의 방사선 투과성으로 치근 사이 혹은 치근 하방에 존재할 수 있고, 치근과 겹쳐 보일 수도 있으며, 이전의 발치와 부근에 존재할 수도 있다. 이러한 위치 상의 특징으로 인해 다양한 양성 종양들이나 낭성 병소들과 혼동되기 쉽다.[4,6-9] 따라서, 불필요한 근관치료를 피하기 위해서 정확한 감별진단이 이뤄져야 한다.[10]

악하선의 개구부인 Wharton's duct는 크기가 커서 타액선 조영술이 가능하기 때문에 후방부 병소가 악하선과 연관된 경우 진단에 도움을 줄 수 있다. 그러나 설하선의 개구부인 Bartholin's duct는 크기가 작기 때문에 타액선 조영술을 시행할 수 없는 점도 전방부 병소를 진단하기 어려운 이유 중 하나이다.[5,10] Amaral과 Jacobs는 교합 방사선 사진을 진단 목적으로 이용하여 외과적 접근 시 위치를 확인하였다. 이런 방법으로 수술로 인한 외상을 줄이고, 불필요한 피질골의 제거를 피할 수 있다고 하였다. 흔히 사용되는 전산화 단층 촬영은 혈관을 통한 조영제의 주입, 비주입을 통해 골과 연조직의 상을 보여줌으로써 병소의 크기와 범위를 파악할 수 있다.[11,12] 최근 많이 이용되는 cone beam CT의 경우는 방사선 노출량을 standard maxillofacial CT의 1/30로 크게 줄여 주었고,[13] 좀 더 세밀한 골의 관찰을 통해 진단에 도움을 얻을 수 있다. 한 연구는 단지 18초의 방사선 노출만으로 기존의 파노라마 방사선사진에 비해 대조도의 상실을 최소화 하면서 상을 얻을 수 있음을 입증하였다.[14] 자기 공명 영상은 연조직의 특징을 평가할 수 있으므로 비침습적 진단을 위한 중요 기준이 될 수 있다.[15,16] 특히,

T1 영상은 타액선 조직을 보여주고 신생물적인 변화(neoplastic changes)를 배제하는데 유용하다.[17] 연조직의 대조도는 전산화 단층 촬영과 자기 공명 영상 모두에서 조영제 없이도 Stafne's cyst를 진단하기에 적절하다. 하지만, 조영제를 주입한 영상에서 인접 타액선 조직과 비슷한 정도의 조영증강을 보이므로 진단에 더욱 도움을 줄 수 있다.[16]

하악골의 전방부에 발생한 Stafne's cyst에 대한 보고는 2007년까지 영문 문헌 상에서 40증례에 불과할 정도로 매우 드물다.[5,18-20] 방사선학적으로 입증된 전방부 설측 하악골 결손의 발생율은 0.009-0.03% 정도이다.[18,20] 남성에서 평균 발견 연령은 5,60대인데 반해 여성에서는 30-50대에 주로 발견되며, 여성보다 남성에서 3배 정도 더 발생하는 경향이 있다.[19,20] 전방부 증례 중 57%가 견치와 제1대구치 사이, 26%가 전치부, 그리고 나머지는 하악골 전방부에 넓게 퍼진 양상으로 나타났다.[5] 후방부 병소와 마찬가지로 대개 무증상이고 비침습적이며, 일상적인 방사선 검사에 의해 발견되었다. 방사선학적으로, 병소는 둥글고 방사선 투과성이며, 치근 하방에 존재하거나 치근과 겹쳐 보였다.[6] 변연은 경화성을 띠거나, 명확하게 구분되었다. 병소의 크기는 0.5-2.0 cm (평균 1.2 cm)이고 9 cm 크기(1증례)의 경우도 보고되었다.

대부분의 경우 확진을 위해 외과적 접근을 하여 생검을 시행하였고, 생검에 대한 조직학적 검사는 이러한 병소의 조직 구성을 드러내 주었다. 대부분 정상 혹은 염증성의 설하선 조직을 포함하였고, 그 밖에 지방 조직, 섬유성 결합 조직, 빈 공간 등을 포함하였다. 본 교실의 증례에서는 생검 결과 타액선 조직으로 판명되어 Stafne's cyst로 확진하였다.

Stafne's cyst의 발생 기전은 명확하게 밝혀지지 않았다. 많은 학자들이 이러한 골 결손이 선천적이라는 가설을 수용하였다. 이 이론은 Stafne에 의해 처음 언급되었고, 그 외 다른 학자들에 의해 지지되었다.[6,21] 이들은 하악골의 발생과 골화 시기에 타액선의 일부가 그 안에 갇히게 되면서 생긴다고 주장하였다. 이 이론의 가장 큰 결함은 이러한 골 결손이 어린이보다 성인에서 더 빈번히 진단된다는 부분이고, 이는 하악골의 골화 이후, 삶의 나중에 발생한다는 것을 뒷받침해 준다. 두 번째로 Lello 등은 설하선이나 악하선에 의해 생긴 국소적 압력을 흡수하는 과정에서 이러한 병소가 야기된다고 주장하였다.[22]

많은 연구들이 치료적인 측면에서 Stafne's cyst는 전방부, 후방부 병소 모두 외과적 수술은 비적응증이라는 점에 동의하였다. 병소의 변화를 주기적으로 재검사하는 것이 중요하다. 진단이 불확실하거나 갇힌 타액선 조직에서 발생하는 질환(예, 다형성선종)이 의심될 때에는 이를 배제하기 위해 외과적 접근과 생검이 수행되어야 한다.

Ⅳ. 결 론

본 교실에서는 매우 드문 증례로 하악 전방부에 발생한 Stafne's cyst를 치험하여 이를 보고하는 바이다. 병적인 상태가 아닌 해부학적인 구조물로 여겨지므로 불필요한 근관 치료를 피하고 다른 질환과의 감별을 위해 정확한 진단이 요구된다. 병소의 위치 및 주변 골 조직과의 전반적인 형태를 파악하기 위해 전산화 단층 촬영을 시행한 것이 진단에 도움을 주었다. 임상 증상이 없고 Stafne's cyst라고 강하게 의심되는 경우, 가급적 침습적 진단을 보류하고 주기적 관찰을 시행하는 것이 좋다. 그러나 기타 질환과의 감별진단이 필요하다 판단되는 경우, 최소한의 절개와 생검을 고려할 수 있다.

References

1. Stafne EC : Bone cavities situated near the angle of the mandible. J Am Dent Assoc 29 : 1969-72, 1942.
2. Layne EL, Morgan AF, Morton TH : Anterior lingual mandibular bone concavity: report of case. J Oral Surg 39 : 599, 1981.
3. Strom C, Fjellstrom CA : An unusual case of lingual mandibular depression. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 64 : 159, 1987.
4. Apruzzese D, Longoni S : Stafne cyst in an anterior location. J Oral Maxillofac Surg 57 : 333, 1999.
5. Courten AD, Kuffer R, Samson J *et al* : Anterior lingual mandibular salivary gland defect (Stafne defect) presenting as a residual cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 94 : 460, 2002.
6. Salman L, Chaudhry AP : Malposed sublingual gland in the anterior mandible: a variant of Stafne's idiopathic bone cavity. Compendium 12 : 42, 1991.
7. Anneroth G, Berglund G, Kahnberg KE : Intraosseous salivary gland tissue of the mandible mimicking a periapical lesion. Int J Oral Maxillofac Surg 19 : 74, 1990.
8. Childers EL, Johnson JD, Warnock GR *et al* : Asymptomatic periapical radiolucent lesion found in an area of previous trauma. J Am Dent Assoc 121 : 759, 1990.
9. Barak S, Katz J, Mintz S : Anterior lingual mandibular salivary gland defect: a dilemma in diagnosis. Br J Oral Maxillofac Surg 31 : 318, 1993.
10. Katz J, Chaushu G, Rotstein I : Stafne's bone cavity: A possible diagnostic challenge. J Endodontics 27 : 304, 2001.
11. Heo MS, Lee SC, Lee SS *et al* : Quantitative analysis of normal major salivary glands using computed tomography. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 92 : 240, 2001.
12. Shimizu M, Osa N, Okamura K *et al* : CT analysis of the Stafne's bone defects of the mandible. Dentomaxillofac Radiol 35 : 95, 2006.
13. Ludlow JB, Davies-Ludlow LE, Brooks SL : Dosimetry of two extraoral direct digital imaging devices: NewTom cone beam CT and Orthophos Plus DS panoramic unit. Dentomaxillofac Radiol 32 : 229, 2003.
14. Hardman JG, Limbird LE, Goodman Gilman A : Goodman & Gilman's: The Pharmacological Basis of Therapeutics. 10th ed. New York: McGraw-Hill; 2001.

15. Grellner TJ, Frost DE, Brannon RB : Lingual mandibular bone defect: report of three cases. J Oral Maxillofac Surg 48 : 288, 1990.
16. Branstetter BF, Weissman JL, Kaplan SB : Imaging of a Stafne bone cavity: what MR adds and why a new name is needed. Am J Neuroradiol 20 : 587, 1999.
17. Yousem DM, Kraut MA, Chalian AA : Major salivary gland imaging. Radiology 216 : 19, 2000.
18. Philipsen HP, Takata T, Reichart PA *et al* : Lingual and buccal mandibular bone depressions: a review based on 583 cases from a world-wide literature survey, including 69 new cases from Japan. Dentomaxillofac Radio 31 : 281, 2002.
19. Correll RW, Jensen JL, Rhyne RR : Lingual cortical mandibular defects: a radiographic incidence study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 50 : 287, 1980.
20. Langlais RP, Cottone J, Kasle MJ : Anterior and posterior lingual depressions of the mandible. J Oral Surg 34:502, 1976.
21. Choukas NC, Toto PD : Etiology of static bone defects of the mandible. J Oral Surg 18 : 16, 1960.
22. Lello GE, Makek M : Stafne's mandibular lingual cortical defect. J Maxillofac Surg 13 : 172, 1985.

저자 연락처
우편번호 561-712
전북 전주시 덕진구 금암동 634-18
전북대학교 치의학전문대학원 구강악안면외과학교실
신 효 근

원고 접수일 2009년 09월 22일
게재 확정일 2010년 02월 03일

Reprint Requests
Hyo-Keun Shin
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Chonbuk National University
664-14, Duckjindong, Chonju, Chonbuk, 561-756, Korea
Tel: 82-63-250-2113 Fax: 82-63-250-2089
E-mail: hkshin@chonbuk.ac.kr

Paper received 22 September 2009
Paper accepted 3 Fabruary 2010