

# 뇌성마비 환자의 지연맹출을 동반한 다발성 과백악질증 : 증례보고

김별이라 · 선예지 · 송제선 · 이제호\*

연세대학교 치과대학 소아치과학교실

#### **Abstract**

# GENERALIZED HYPERCEMENTOSIS WITH ARRESTED DENTAL ERUPTION IN A CEREBRAL PALSY PATIENT: A CASE REPORT

Byurira Kim, Yeji Sun, Je Seon Song, Jae-ho Lee\*

Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Yonsei University

Hypercementosis is an excessive deposition of secondary cementum on the root of a tooth. It is mostly presented as a solitary lesion or in rare cases as a generalized type, but which is seldom recognized; typically it is discovered during regular dental X-ray. Increased thickness of cementum is not uncommon but generalized hypercementosis on impacted permanent teeth which may cause delayed eruption is rarely reported.

This case report discusses a patient with cerebral palsy, epilepsy and mental retardation that presents multiple hypercementosis with delayed eruption. On intraoral examination, multiple retained primary molar teeth were found. As there was no any further symptoms, regular dental checkup had been done for several years. In 2015, a surgical opening was performed in the second molar area, but there was no specific change. Panoramic view showed multiple impacted permanent teeth with increased thickness of roots due to excessive deposition of cementum. Hypercementosis was also observed in the root of the erupted tooth. Several laboratory test results including hormone, urine, complete blood count test were reviewed. The patient was also diagnosed with subclinical hypothyroidism, impaired fasting glucose and had been taken valproic acid(Orfil®) for 10 years. However, none of them clearly explained generalized hypercementosis or delayed eruption. The patient is now 24 years old and regular dental checkups and radiographs are taken to confirm that there is no change in the lesion. [J Korean Dis Oral Health Vol.13, No.2: 91-94, December 2017]

**Key words:** Generalized hypercementosis, Delayed eruption, Cerebral palsy

Ĭ.서 톤

\*Corresponding author: Jae-ho Lee

50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, 03722, Korea Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Yonsei University

Tel: +82-2-2228-3173, Fax: +82-2-392-7420

E-mail: JHLEE@yuhs.ac

과백악질증은 1931년 Gardner와 Goldstein에 의해 방사선사진상 관찰되는 백악질의 과도한 증식으로 정의된 비종양성 질환이다". 연령과 관련되어 나타나는 퇴행성 변화로 알려져 있으며 대개는 치근단 부위의 백악질 과침착으로

나타나나 드물게 치근 전체가 두꺼워지는 경우도 있다. 다근치의 경우 1개 이상의 치근에서 동시에 발견되기도 하며 치조백선은 백악질의 경계를 따라 존재하고 정상적인 치주인대강이 관찰된다. 특별한 임상증상이 없어 정기적인 방사선 사진에서 우연히 발견되는 경우가 많다<sup>2,3)</sup>.

백악질의 과침착은 국소적으로 나타나거나 전악에 걸쳐 다발성으로 나타나는 경우도 있으며 주로 상악 소구치와 하악 제1대구치에서 발견된다". 과백악질의 원인은 대합치의 상실로 인한 치아의 과맹출, 치근단 감염, 과도한 교합, 매복치 등의 국소적인 요인, 또는 전신적인 질환과 관련된 이차적인 증상일 수 있으나 대부분 특발성이거나 노화에 의한 것이다. 전신적 질환과 관련되는 경우 백악질 침착이 다발성으로 나타날 수 있는데 Paget병, 갑상선종, 류마티스열, 말단비대증, 석회증, 또는 드물게 비타민 A 결핍이 원인이될 수 있다".

과백악질증과 맹출 장애의 관련성은 명확히 밝혀지지 않 았으나 과도한 백악질 침착이 치아의 이동에 영향을 줄 수 있다<sup>5)</sup>. 단 전악에 걸친 매복영구치의 과백악질증과 이로 인 한 맹출 장애는 보고된 바가 없었다.

본 증례는 본원 소아치과에 내원한 뇌성마비 환자에서 전 악에 걸친 다발성 과백악질증에 대한 보고이다.

# Ⅱ. 증 례

본 환자는 23세 남환으로 뇌성마비, 경련 및 발달지연으로 서울대학교병원에서 항경련제(Orfil®)를 복용 중이었다. 1999년도부터 본원 소아치과에 비정기적으로 내원하였으며 유치의 만기잔존과 영구치의 지연맹출이 의심되었으나 협조도 부족 및 개구 어려움으로 방사선 검사 없이 임상 검사만 시행하였다. 이후 내원이 중단되었다가 2015년 3월 잇몸이 붓고 피가난다는 주소로 재내원하였다. 구내검사 결과 상악 좌우측 제2유구치, 하악 좌측 유견치, 제 1, 2 유구치, 하악 우측 제1유구치의 만기잔존 및 하악 우측 소구치부위의 국소적 치은 증식이 발견되었다. 당시 환자의 나이는 만 21세로 협조도가 향상되어 치근단 방사선 사진을 촬영하였다. 방사선 사진 상 잔존 유구치 하방에 영구치가 확인되었으며 맹출한 상악 양측 소구치의 치근단부에 과백악질 소견이 나타났다(Fig. 1).

이후 서울대학교 치과병원에서 전신마취 하 제2대구치 맹출 유도를 위한 개창술 시행시 촬영하였던 파노라마 사진을 확인 하였다. 파노라마 상 매복된 상악 좌우측 제2소구치, 하악 좌측 견치, 제2소구치, 하악 좌우측 제1소구치, 상하악 좌우측 제2, 3대구치 치근단 부위에 과증식된 백악질이 뚜렷하게 나타났다. 상악 제2소구치는 상악동 부위까지 이소매복된 상태였으며, 양측 치아의 매복 양상이 유사하게나타났다. 제3대구치를 포함하여 결손된 치아는 없었다. 맹

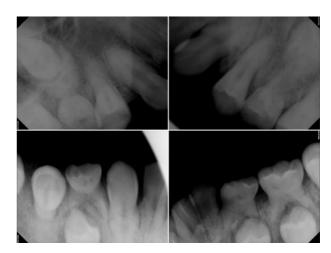


Fig. 1. Periapical view taken on Sep. 2015. Hypercementosis on erupted premolars and impacted permanent teeth follicles.



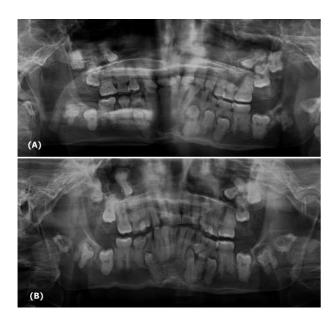
Fig. 2. Panoramic view, taken on Sep, 2015. Generalized hypercementosis on both erupted and unerupted teeth.

출한 영구치에도 치근단의 과백악질 소견이 보였다(Fig. 2).

본원 영상치의학과에 의뢰한 결과 "Generalized hypercementosis"로 판독되었으며 뇌하수체 기능 저하증과 같은 호르몬 질환 확인이 권유되었다. 보호자에게 매복치의 낭종 발생 가능성 및 주기적 관찰 필요성을 고지하였다. 현재 주기적으로 내원하여 잔존 유치 관리 및 파노라마 사진을 통해 병적 소견 여부를 관찰 중이다(Fig. 3, 4).

#### Ⅱ.고 찰

과백악질증은 치근단 부위의 이차성 백악질이 과도하게 침착되는 병리학적 현상이다<sup>21</sup>. 국소적으로는 교합력이 증가되었거나 감소한 치아 및 치근단 염증으로 치근단 1/3부위에서 백악질 침착이 증가되며 Paget병 또는 뇌하수체 기능항진증 환자의 경우 전악에 걸쳐 다발성으로 나타나기도 한다<sup>4.61</sup>. 본 증례의 경우 전악에 걸친 백악질 과침착은 보이나 Paget병에서 특징적으로 나타나는 악골 내 병소나 골 팽융현상<sup>61</sup>이 관찰되지 않았으므로 Paget병은 제외하였다.



**Fig. 3.** No pathological interval change is seen between two radiographs. Each panoramic view was taken on (A) Apr, 2016, (B) Mar, 2017.



Fig. 4. Intraoral photo showing retained primary molar teeth with gingival hyperplasia and posterior deep bite.

환자의 증상과 연관된 전신적인 요인을 알기 위해 본원에서 혈액검사를 시행하였다. 혈청 내 칼슘, 인 등의 무기질 함유량 및 혈액 수치들은 정상이었으나 특이적으로 높은 갑 상선자극호르몬(Thyroid Stimulating Hormone, TSH) 수치와 정상적인 갑상선호르몬 수치를 보였다. 갑상선 호르몬은 치아의 맹출과 관련이 있는 내분비 호르몬으로, 갑상선저하증 소아에서 치아의 발육과 유치의 탈락이 지연되고 악골의 크기도 비교적 작은 반면 갑상선항진증 환자에서는 치아의 발육이 빨라지고 유치가 조기에 맹출하여 조기에 탈락한다". 환자의 호르몬 이상이 지연발육을 유도했을 가능성이 의심되었으나 환자의 TSH는 높은 반면 갑상선 호르몬(T3, T4) 수치는 정상으로 나타났으므로(Table 1) 불현성 갑상선 기능저하증(Subclinical hypothyroidism)으로 진단되었다. 갑상선 호르몬 수치는 정상이므로 본 증례와 같이 뚜렷한 임상적 증상이 나타나기는 어렵다".

Somatomedin-C는 간에서 생성되는 내분비 호르몬의 일종으로 성장호르몬(growth hormone)에 의해 생성이 촉진된다". Somatomedin-C 결핍 시 성장이 저해되고 악골에서는 치아의 맹출이 늦어진다는 보고가 있다<sup>100</sup>. 2016년 2월 측정된 환자의 somatomedin-C 수치는 122.4 ng/ml로 정상수치인 179.9 - 777.6 ng/ml보다 낮았다. 성장인자의 감소가 치아의 발육에 영향을 미쳤을 가능성이 있으나 환자의 신장, 체중 등 다른 신체 조건은 정상 성인 범위에 속하였으므로 해당 호르몬의 결핍이 악골에만 특징적으로 영향을 끼쳤다고 보기는 어렵다.

당 수치는 정상범위보다 높아 공복혈당장애(Impaired fasting glucose, IFG) 진단을 받았으나 치아의 맹출장애나 백악질 과침착과 연관성은 없었다<sup>111</sup>. 본 증례의 치은 증상은 당뇨병으로 인한 치주질환 보다는 외상성 교합으로 인한 과증식 소견에 가까웠다.

환자는 10년이상의 valproic acid 성분의 항경련제(Orfil®)를 복용중이었다. Valproic acid를 복용하는 환자는 혈소판 감소 가능성이 있으므로 치과 치료 시 출혈에 주의해야 한다<sup>12)</sup>. Siqueira WL et al.,<sup>13)</sup>의 연구에서는 valproic acid를 복용하는 경련환자에서 타액의 감소가 나타난다고 밝혔으나 해당 약물과 치아의 맹출 지연 또는 백악질 과침착과 연관성이 있는 근거는 찾을 수 없었다.

**Table 1.** Thyroid hormone and thyroid stimulating hormone (TSH) level of the patient. Continuous high level of TSH is seen, contrasting to normal level of thyroid hormone

	Normal range	2016-02-26	2016-03-12	2016-06-11	2016-12-24
T3 (ng/ml)	0.58-1.59	1.02	1.21	1.05	1.00
Free T4 ((ng/dL)	0.70 - 1.48	0.92	1.04	0.89	0.89
TSH ([µIU/ml)	0.35-4.94	10.13	9.81	8.36	6.12

\*TSH: Thyroid Stimulating Hormone

영구치 맹출 장애와 매복치의 과백악질증 간의 상관관계에 대한 추가적인 연구가 필요할 것으로 보인다. 치근의 과도한 백악질 증식이 지연맹출의 원인이 될 수 있으나 역으로 지연 맹출로 인해 장시간 기능하지 않은 치아에 백악질이 과침착 될 수 있다<sup>14</sup>. 환자의 의과적 병력을 고려할 때, 뇌성마비 환자들은 정상인에 비해 치아의 맹출이 지연될 수 있다<sup>15,16</sup>. 전신질환으로 인해 치아 맹출이 지연되고 매복치치근단에 백악질이 과침착되며, 과백악질증이 다시 치아 맹출을 지연시킬 수 있다. 본 증례는 매우 드물고 비전형적이며 일반적인 뇌성마비 환자들에서 보이지 않는 증상들이 있음을 고려하였을 때 다발성 과백악질증 및 지연맹출과 다른 원인에 대한 연구가 필요할 것으로 보인다.

# Ⅳ. 요 약

본 증례는 다발성 과백악질증 및 영구치의 맹출 지연을 나타내는 뇌성마비 병력 환자에 대해 보고이다. 현재 환자 는 큰 불편감 없이 유구치를 유지하고 있으며 방사선 사진 검사를 통해 매복 영구치의 낭종 발생 여부를 확인하고 잔 존 유치를 최대한 보존해야 한다.

### **REFERENCES**

- Leider AS, Garbarino VE: Generalized hypercementosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 63: 375–380, 1987.
- 2. Weinberger A: The clinical significance of hypercementosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 7: 79-87, 1954.
- 3. Monahan R. Periapical and localized radiopacities. Dent Clin North Am. 38:113-136, 1994.
- 4. Zhou J, Zhao Y, Xia C, Jiang L, et al.: Periodontitis with hypercementosis: report of a case and discussion of possible aetiologic factors. Aust Dent J, 57:511-514, 2012.
- 5. Humerfelt A, Reitan K: Effects of hypercementosis on the movability of teeth during orthodontic treatment. Angle Orthod, 36:179–189, 1966.
- 6. Rao VM, Karasick D: Hypercementosis-an important clue to Paget disease of the maxilla. Skeletal Radiol, 9:126-128, 1982.

- Vucic S, Korevaar TIM, Ongkosuwito EM, et al.
   Thyroid Function during Early Life and Dental Development. J Dent Res, 96:1020-1026, 2017.
- 8. Vigone MC, Di Frenna M, Weber G, et al.: Mild TSH resistance: clinical and hormonal features in childhood and adulthood. Clin Endocrinol, 87: 587-596, 2017.
- 9. Katsumata N: Standardization of Growth Hormone and Insulin-like Growth Factor-I Measurements. Pediatr Endocrinol Rev, 14(Suppl 1):209-215, 2017.
- 10. Bright GM, Rogol AD, Johanson AJ, Blizzard RM, et al.: Short stature associated with normal growth hormone and decreased somatomedin-C concentrations: response to exogenous growth hormone. Pediatrics, 71:576-580, 1983.
- 11. Perez CM, Munoz F, Joshipura KJ, et al.: Cross-sectional associations of impaired glucose metabolism measures with bleeding on probing and periodontitis. J Clin Periodontol, 44:142–149, 2017.
- 12. Sanders BJ, Weddell JA, Dodge NN: Managing patients who have seizure disorders: dental and medical issues. J Am Dent Assoc, 126:1641-1647, 1995.
- 13. Siqueira WL, Santos MT, Nicolau J, et al.: The influence of valproic acid on salivary pH in children with cerebral palsy. Spec Care Dent, 27:64–66, 2007.
- 14. Azaz B, Ulmansky M, Moshev R, Sela J: Correlation between age and thickness of cementum in impacted teeth. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 38:691-694, 1974.
- 15. Moslemi M, Vejdani J, Sadrabad ZK, Shadkar MM: A study on the eruption timing of permanent dentition in patients with cerebral palsy. Spec Care Dentist, 33:275-279, 2013.
- 16. Pope JE, Curzon ME: The dental status of cerebral palsied children. Pediatr Dent, 13:156-162, 1991.