

상악동에 발생한 치성각화낭종 1예

을지대학교 의과대학 을지병원 이비인후과학교실,¹ 병리학교실²
최아영¹ · 윤상원¹ · 이원미²

A Case of Odontogenic Keratocyst in the Maxillary Sinus

A Young Choi, MD¹, Sang Won Yoon, MD¹ and Won Mi Lee, MD²

¹Department of Otorhinolaryngology, ²Pathology, Eulji University School of Medicine, Seoul, Korea

-ABSTRACT-

The odontogenic keratocyst is well known for its tendency to recur, its specific histopathologic feature and potential aggressive behavior. Recurrence is usual, occurring principally in the first 2 years after operation. Recurrence rate was found to vary from 25% to 60%, depending on the kind of treatment management and follow-up period. The odontogenic keratocyst is a histologically distinct lesion that is thought to arise from dental lamina remains, usually occurring in the posterior portion of the mandible or the mandibular ramus. Odontogenic keratocyst occurrence in the maxilla is unusual and its appearance in the maxillary sinus is very uncommon. Recently, we experienced a case of odontogenic keratocyst in the maxillary sinus that presented as nasal obstruction in a 23-year-old female. An enucleation was performed and there has been no evidence of recurrence up to 6 months following the surgery. (J Clinical Otolaryngol 2009;20:90-93)

KEY WORDS : Odontogenic keratocyst · Maxillary sinus.

서 론

치성각화낭종은 특징적인 조직학적 소견, 높은 재발률과 주위 조직을 파괴시키면서 성장하는 임상적인 특징 때문에 특별한 관심을 끌고 있는 치성낭이다.¹⁾ 주로 하악에서 발생하나 상악에 생긴 예도 종종 보고되고 있으며 상악동을 침범한 예는 극히 드물게 보고되고 있다. 발생연령은 다양하지만 주로 20~30대에 발생하며, 남녀 비는 1.42 : 1로 남자에서 발생빈도가 높다.²⁾ 임상증상

논문접수일 : 2008년 12월 30일

논문수정일 : 2009년 2월 9일

심사완료일 : 2009년 3월 2일

교신저자 : 윤상원, 139-711 서울 노원구 하계1동 280-1
을지대학교 의과대학 을지병원 이비인후과학교실

전화 : (02) 970-8276 · 전송 : (02) 970-8275

E-mail : ysw4205@eulji.ac.kr

이나 방사선학적 소견은 비특이적으로 조직검사를 통해 다른 치성낭과 감별이 가능하다. 최근 저자들은 드물게 발생하는 상악동을 침범한 치성각화낭종을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

23세 여자환자가 약 3개월 전부터 발생한 좌측 비폐색을 주소로 내원하였다. 과거력과 가족력상 특이사항 없었으며 문진상 좌측 비폐색과 간헐적인 비루 이외의 다른 증상은 없었다. 비내시경 검사상 등근 종괴가 좌측 하비도를 채워 좌측 하비갑개를 상방으로 밀고 있었으며 내측으로는 비중격과 접하여 있었다(Fig. 1). 종괴의 표면은 매끄러웠고 낭종의 형태를 보여, 주사기로 시험적 천자를 하였으며 약 2 cc의 진한 노란색 액체가 흡인되어 세포검사를 시행한 결과 비핵편평세포들(anucleated squ-

amous cells)과 염증세포가 혼재된 소견이 관찰되었다. 부비동 전신화단층촬영 검사상 좌측 상악동에 조영되지 않는 불균일한 음영이 관찰되었다. 내측으로 상악동 내 측벽의 골미란을 초래하여 종괴의 일부가 비강내로 확장되어 있었고, 전하측으로 치조와까지 확장되어 있었으며 후방부에는 격막이 존재하여 종괴를 둘로 분리하고 있었고 후외측에는 치아로 생각되는 단단하고 흰 종괴가 관찰되었다(Fig. 2).

좌측 상악동 종괴 의심하에 부비동 내시경을 이용하여

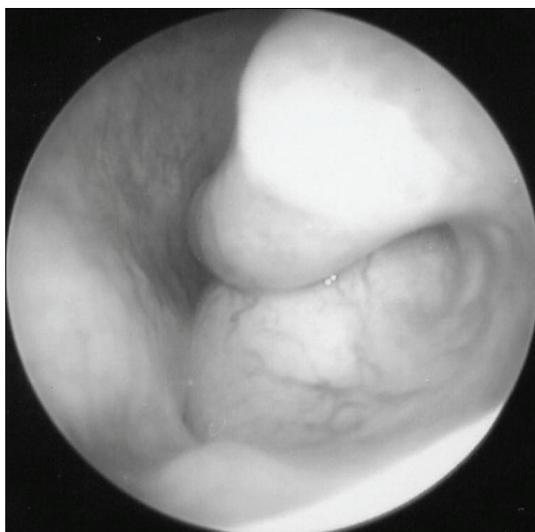


Fig. 1. Preoperative nasal endoscopic finding. The photo shows a large cystic soft mass in the left inferior meatus.

좌측 중비도 및 하비도 상악동 개방술을 시행하여 낭종 제거술을 시행하였다. 수술 소견상 좌측 상악동 내부에 골성 격막을 가진 낭종이 있었으며 내부는 각질로 생착되는 노란색 물질로 가득 채워져 있어 흡입하여 제거하였다. 후외측에 제 3 대구치가 상악동 내로 돌출되어 있는 것을 발견하여 제거하려 하였으나 단단히 부착되어 있어 제거하지 못하고 좌측 상악동의 격막을 모두 제거하여 하나의 공동으로 만든 후 수술을 마쳤다. 낭종 내부의 물질에 대한 병리학적 검사를 의뢰하였다. 광학 현미경 소견상 낭종을 둘러싸는 상피조직은 보이지 않았으며 치밀한 비핵편평세포 덩어리들과 괴사된 조직이 혼재되어 있었고 염증세포 침윤 및 부전각화(parakeratosis) 덩어리도 일부 보였고 비핵편평세포를 탐식한 이물육아종도 관찰되었다(Fig. 3). 이를 소견으로 미루어 편평세포로 피복된 낭성 병변임을 알 수 있었고 치성각화낭종에 가장 합당한 소견으로 판단 가능하였다. 기저세포모반증후군(basal cell nevus syndrome)의 동반여부를 알아보기 위해 수술 후 2개월에 시행한 PTCH 유전자 검사 결과 유전자의 이상은 동반되지 않은 것으로 밝혀졌다. 현재 수술 후 6개월째 재발의 증거는 없으나(Fig. 4) 상악동 내의 치아는 추후 구강외과에서 발치 할 예정이다.

고 찰

1956년 Philipsen에 의해 치성각화낭종이 언급된 후,³⁾

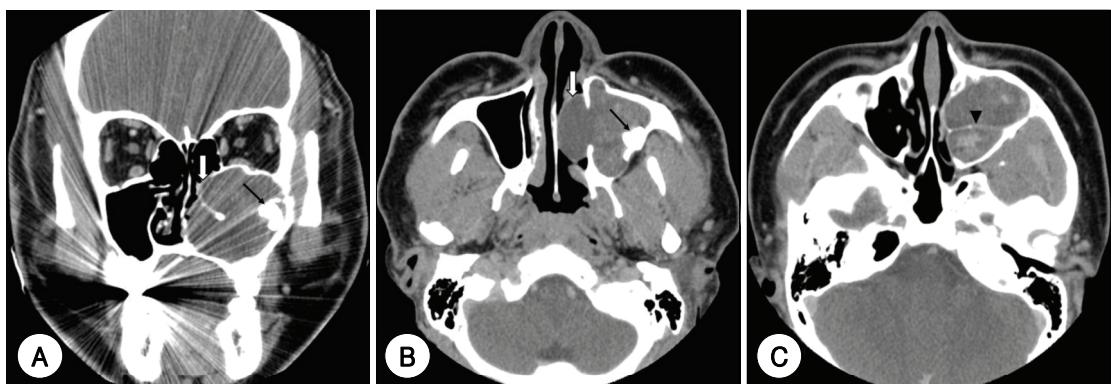


Fig. 2. Preoperative PNS CT scans. Preoperative CT scans show an expansile space occupying, heterogeneous low density mass (white arrow) in the left maxillary sinus. A : Coronal scan shows that the lesion is originated from left maxillary alveolar fossa with a migrated 3rd molar tooth (black arrow). B : Axial scan shows that the lesion extends to left nasal cavity with bony defect. C : The mass in the maxillary sinus is divided two portions by bony septum (arrow-head).

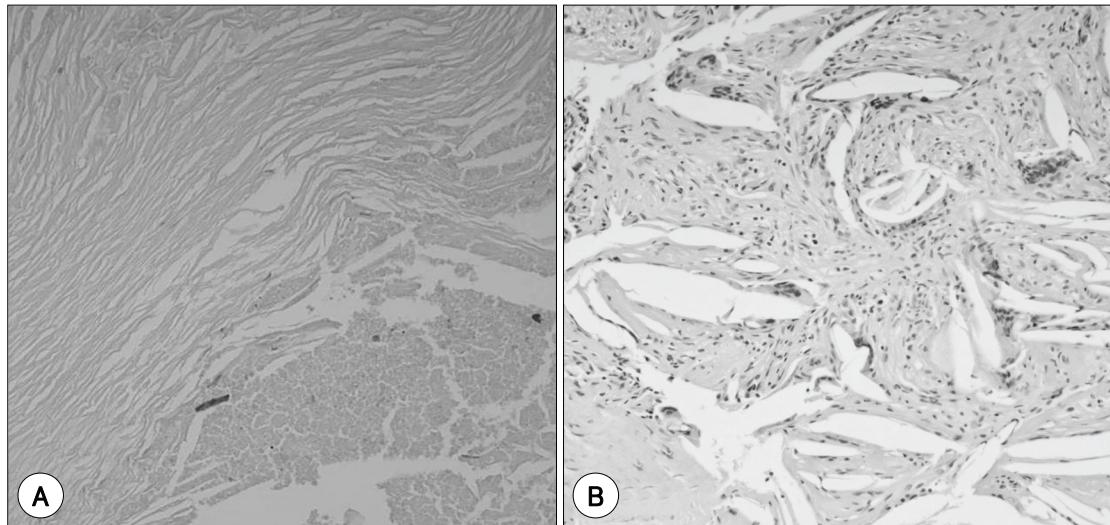


Fig. 3. Histopathologic findings. A : Light microscopic finding shows stacks of keratin intermixed with necrotic materials (H&E staining, $\times 200$). B : There are keratin-laden foreign body granulomas (H&E staining, $\times 400$).

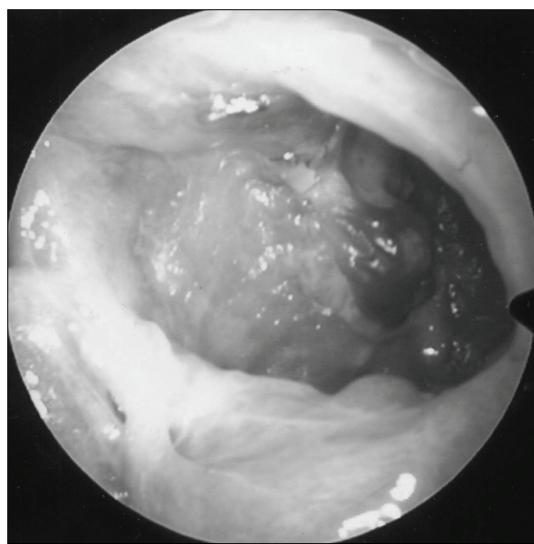


Fig. 4. Nasal endoscopic finding of left maxillary sinus shows no evidence of recurrence 6 months after operation.

1963년 Pindborg와 Hansen 등은 치성각화낭종의 진단을 위한 필수적인 조직학적 소견을 제시하였다.⁴⁾ 조직학적 소견에서 치성각화낭종은 특징적으로 5~7개의 세포층을 가진 평편상피의 상피층이 존재하고 그 아래로 과염색성 기저세포층이 배열되며 상피 표면에 부전각화증을 보이고 낭종 내부에 박리된 각질(desquamated ke-

ratin)이 포함되어 다른 치성낭과 감별이 가능하다.⁵⁾ 본 증례에서는 수술 중 좌측 상악동을 채우고 있는 낭종 내부의 물질에 대한 조직검사상 치밀한 비핵편평세포 덩어리들과 괴사된 조직이 혼재되어 있었고 염증세포 침윤 및 부전각화 덩어리가 관찰되어 편평세포로 피복된 낭성병변인 치성각화낭종으로 진단할 수 있었다.

침범부위는 하악에서 발생하는 경우가 가장 많아 약 70.5% 정도를 차지하며, 상악에서 발생하는 경우는 16.4% 정도이고 상악과 하악 모두에 발생한 경우는 13.1%로,⁶⁾ 이 중 상악동을 침범한 예는 극히 드물어 상악에서 발생한 경우의 1% 미만으로 보고되고 있다.¹⁾ 본 증례는 좌측 상악의 구치 전방부에서 발생하여 상악동을 침범한 경우로 미맹출 치아는 상악동의 후외측벽에 존재하였다.

치성각화낭종의 병인론에 대해서 기저세포에서의 기원을 주장하는 의견도 있으나 원시치관의 잔류조직에서 기원하였다는 보고가 의미있게 받아들여지고 있으며 치관의 원시상피는 치아 발생기간 동안 각화성, 중식성 및 결체조직으로의 침윤성을 나타낼 수 있는 능력을 가지고 있어 이로 인해 치성각화낭종이 발생될 수 있다고 제안하고 있다.⁷⁾ 또한 낭종의 성장에 낭종 내부의 압력이 중요한 역할을 한다는 의견도 최근 제시되고 있다.⁸⁾

치성각화낭종의 성장능력과 종양억제유전자인 PTCH 유전자와의 연관성, 기저세포모반증후군(basal cell ne-

vus syndrome) 과의 연관성 등에 대해 알려지며 이를 양성 낭성 종양으로 고려해야 한다는 의견이 있어왔다.⁹⁾ 기저세포모반증후군은 PTCH 유전자의 돌연변이에 의해 유발될 수 있는 상염색체 우성 유전질환으로써 대표적인 증상으로는 기저세포모반암, 치성각화낭종, 골격계 이상 등이 나타날 수 있다. 다발성의 치성각화낭종은 기저세포모반증후군과 연관이 있다고 알려져 있으며 치성각화낭종을 가진 환자의 약 6%에서 기저세포모반증후군이 동반가능하며, 기저세포모반증후군 환자의 약 75%에서 치성각화낭종이 나타날 수 있다고 보고되고 있다.¹⁰⁾ 치성각화낭종은 기저세포모반증후군에서 가장 먼저 발생하는 증상으로, 본 증례의 경우 치성각화낭종 이외의 증상은 발현되지 않았으나 추후 타병변 발생 가능성을 염두에 두고 정기적인 관찰을 시행하였으며, 수술 후 2개월에 PTCH 유전자 검사를 시행하였으나 타병변은 관찰되지 않았으며 유전자 이상도 동반되지 않은 것으로 밝혀졌다.

낭종의 치료에는 단순 낭종적출술 또는 조대술과 같은 보존적인 치료와 종양적인 성격을 고려하여 시행하는 침습적인 치료가 있으며, 침습적인 치료는 주로 기저세포모반증후군을 동반한 경우, 크기가 큰 경우, 재발한 경우에 권고되고 있다. 침습적인 방법에는 주변 골절제술, 낭종적출술 후 Carnoy's solution을 도포하는 방법 등이 포함된다.¹¹⁾ 2005년 WHO에서 낭종의 종양적인 성격을 고려하여 keratocystic odontogenic tumor로 재분류하였으며, 가장 효과적인 치료 방법으로 낭종적출술 후 Carnoy's solution 도포하는 방법과 조대술을 통한 감압술 후 낭종을 적출하는 방법을 제안하였다.¹²⁾ 낭종 절제 후 낭종의 재발률은 치료 방법과 추적관찰 기간에 따라 25~60%로 다양하게 보고되고 있으며, 특히 수술 후 2년 간은 주의 깊은 관찰이 필요하다. 본 증례는 낭종적출술을 시행하여 조직검사를 시행한 결과 치성각화낭종을 진단할 수 있었던 경우로, 침습적인 치료는 이루어지지 못하

여 추후 낭종 재발여부에 대한 철저한 평가가 요구된다.

저자들은 드물게 상악에서 발생하여 상악동을 침범하는 치성각화낭종을 조직검사를 통해 진단한 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 치성각화낭종 · 상악동.

REFERENCES

- Guilherme CC, Edgard CS. *Odontogenic keratocyst in the maxillary sinus: report of two cases*. *Oral Oncol EXTRA* 2006;42:231-4.
- Myoung H, Hong SP, Hong SD, Lee JI, Lim CY, Choung PH, et al. *Odontogenic keratocyst: review of 256 cases for recurrence and clinicopathologic parameters*. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 2001;91 (3):328-33.
- Philipsen HP. *Om keratocystedr og kaeberne*. *Tandlaegebladet* 1956;60:963-71.
- Pindborg JJ, Hansen J. *Studies on odontogenic cyst epithelium: clinical roentgenological aspects of odontogenic keratocyst*. *Acta Pathol Microbiol Scand* 1963;58:283-94.
- Yuh-Chyun C, Pin-Zhir C, Tsung-Han Y. *Transnasal endoscopic marsupialization for a large midline maxillary odontogenic keratocyst in a 6-year-old child*. *Int J Pediatr Otolaryngol* 2006;1:41-4.
- Gonzalez-Alva P, Tanaka A, Oku Y, Yoshizama O, Itoh S, Sakashita H, et al. *Keratocystic odontogenic tumor: a retrospective study of 183 cases*. *J Oral Sci* 2008;50 (2):205-12.
- Stoepling PJ, Peters JH. *A note of the origin of keratocyst of the jaw*. *Int J Oral Surg* 1973;2 (2):37-44.
- Oka S, Kubota Y, Yamashiro T, Ogata S, Ninomiya T, Itos, et al. *Effects of positive pressure in odontogenic keratocysts*. *J Den Res* 2005;84 (10):913-8.
- Shear M. *The aggressive nature of the odontogenic keratocyst: is it a benign cystic neoplasm? Part 1. Clinical and early experimental evidence of aggressive behaviour*. *Oral Oncol* 2002;38 (3):219-26.
- Manfredi M, Vescovi P, Bonanini M, Porter S. *Nevoid basal cell carcinoma: a review of the literature*. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004;33 (2):117-24.
- Meiselman F. *Surgical management of the odontogenic keratocyst: conservative approach*. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1994;52 (9):960-3.
- Madras J, Lapointe H. *Keratocystic odontogenic tumour: reclassification of the odontogenic keratocyst from cyst to tumour*. *J Can Dent Assoc* 2008;74 (2):165a-h.