

Conservative Surgical Treatment of Keratocystic Odontogenic Tumor : A Case Report

Seyoung Shin, Yeonmi Yang, Jaegon Kim, Byeongju Baik

Department of Pediatric Dentistry and Institute of Oral Bioscience, School of Dentistry, Chonbuk National University

Abstract

The keratocystic odontogenic tumor (KCOT) is a unique cyst because of its locally aggressive behavior, high recurrence rate and characteristic histological appearance. Various options are available for treatment. While some clinicians advocate aggressive forms of dental treatment, others prefer more conservative therapy. In this study, two types of conservative surgical procedures were performed to treat the tumor: marsupialization and cyst enucleation. The patients showed healing process on conservative surgical treatment and teeth erupted without recurrence.

Conservative surgical treatment can be an effective treatment option for young children because of their efforts to preserve teeth and other anatomical structures.

Key words : Keratocystic odontogenic tumor, Conservative surgical treatment, Marsupialization, Cyst enucleation

I. 서 론

치성각화낭종(Odontogenic Keratocyst, OKC)은 1956년 Philipsen에 의해 처음 도입되었으며¹⁾, 2005년 조직분류가 개정되어 World Health Organization(WHO)에서는 각화낭성 치성종양(keratocystic odontogenic tumor: KCOT)으로 명명하며, “양성의 단방 혹은 다방성의, 치성 기원의 골내 종양이며, 부전각화된 중층의 편평상피와 공격적이고, 침윤하는 특징”을 갖는 병소로 정의된다²⁾.

이는 모든 악골의 치성 낭 중 약 12~14%를 차지하며, 하악의 후방부에 주로 발생하고, 주로 10~30대에 나타나며 남자에게 약간 우세하다³⁾. 방사선학적으로는 단방성으로 경계가 비교적 명확한 방사선 투과성으로 나타나며, 인접 치아를 변위시키는 경우도 있다⁴⁾.

많은 임상가들이 각화낭성 치성종양의 치료시 보존적인 방법을 선호하지만, 일부는 공격적인 치료를 주장하기도 한다⁵⁾. Meiselman⁶⁾은 적출술, 소파술, 개창술을 포함하는 치료를 보

존적이라고 하였고, Williams과 Connor⁷⁾는 적출술과 소파술을 시행하고 골의 연속성이 존재하거나 존재하지 않는 절제를 포함하는 치료를 공격적인 치료라 하였다.

기존의 소아환자의 각화낭성 치성종양의 증례보고에서는 보존적인 방법으로 치료하였더라도 병소 주변의 영구치를 보존하지 못한 경우가 많다. 본 증례들은 본원에 내원한 각화낭성 치성종양을 보이는 환자로, 보존적인 방법으로 치료하여 양호한 골 치유와 인접 영구치의 보존 및 맹출이 이루어졌기에 이를 보고하는 바이다.

II. 증례보고

1. 증례 1

9세 6개월 남아가 상악 전치의 맹출지연을 주소로 내원하였다. 환아는 상악 우측 구개 부위에 중등도의 부종이 존재하였고, 촉진시 통증은 없었다.

Corresponding author : Yeonmi Yang

Department of Pediatric Dentistry, School of Dentistry, Chonbuk National University, 634-18 Keumam-dong, Deokjin-Gu, Jeonju, 561-180, Korea

Tel: +82-63-250-2128 / Fax: +82-63-250-2131 / E-mail : pedodent@chonbuk.ac.kr

Received June 24, 2013 / Revised September 11, 2013 / Accepted September 12, 2013



Fig. 1. Initial panoramic view. Expansive lesion at the right anterior maxilla deviated of #11,12 laterally.



Fig. 2. Cone-Beam Computed Tomography (CBCT) view. The lesion was expanding labial and palatal cortical bone and deviating of the right nasal floor superiorly.

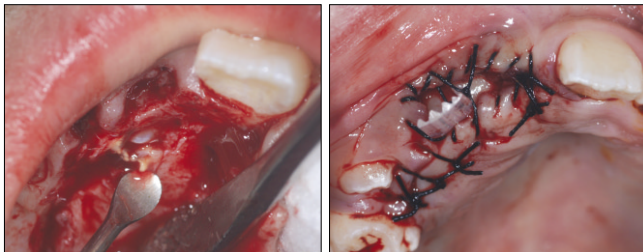


Fig. 3. Marsupialization. Cheeselike keratin in which one of the distinctive KCOT feature was observed.

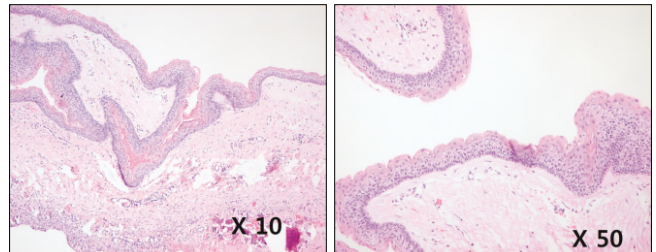


Fig. 4. Histological finding. Parakeratinized stratified squamous epithelium and palisading arrangement of basal cells are observed.

방사선사진상 상악 우측 전방부에 중절치와 측절치를 변위시키는 병소가 존재하였다(Fig. 1). 정확한 진단을 위해 전산화단층사진을 촬영한 결과 상악 전방부에 순측과 구개측의 피질골을 변위시키는 병소가 존재하였다. 병소는 상악 우측 비강저를 상방으로 변위시키고 있었으며, 상악 우측 중절치와 측절치도 변위되어 있었다(Fig. 2).

임상 및 방사선 검사를 통해 각화낭성 치성종양으로 잠정 진단하고, 외과적 치료를 계획하였다. 병소가 크고, 적출술시 이환 치아의 손상이 불가피하여 조대술을 통해 치료하기로 계획하였다.

국소마취 하에 상악 우측 제2유구치에서 상악 좌측 중절치까지의 부위 구개측에서 전층 판막을 형성한 후, 판막을 거상하였

다. 판막 거상시 각화낭성 치성종양에서 특징적인 노란 치즈양 물질을 확인하였다. 조대술 시행 후 낭종 내부를 세척하고 실리콘 배농관을 삽입 후 봉합을 실시하였다(Fig. 3). 병리조직 검사 결과 부전각화된 상피층과 극성을 보이는 기저세포층이 보여 각화낭성 치성종양으로 진단되었다(Fig. 4).

치료 3개월 후 파노라마 방사선 사진에서 술부에 정상적인 골치유가 진행되고 있음을 확인할 수 있고, 치료 8개월 후에는 고정식 교정장치를 이용하여 측절치를 배열하기로 하였다. 술 후 27개월 후 상악중절치와 측절치가 맹출하였고 재발 없이 골치유가 진행되었다(Fig. 5). 환아는 상악 견치의 맹출 공간이 부족하여 향후 포괄적인 교정치료를 계획 중이다.

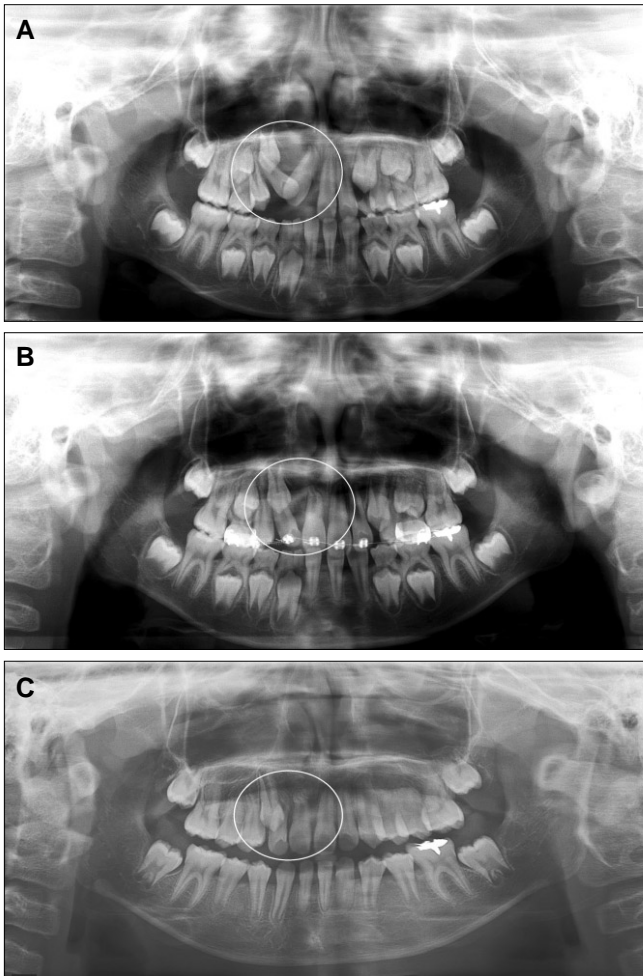


Fig. 5. Panoramic view after (A) 3 months, (B) 8 months, (C) 27 months, respectively. Bony healing was observed on upper right central and lateral incisor.

2. 증례 2

10세 4개월 여아가 하악 정중부에 낭성 병소를 주소로 개인 치과에서 의뢰되어 내원하였다. 환아는 하악 좌측 안면부 촉진 시 불편감과 악하부위의 림프절 종창을 보였다. 초진시 파노라마 방사선 사진에서 하악 좌측 전치부 하방에 비교적 경계가 명확한 방사선 투과성 병소가 존재하며, 하악 좌측 측절치를 변위시키고 있었다(Fig. 6). 전산화단층사진 촬영 결과 협측 골은 미약한 팽윤상태를 보이고, 협설측 모두 피질골이 얇아져 있었다(Fig. 7).

각화낭성 치성종양으로 잠정 진단하고 낭종적출술을 계획하였다. 병소와 접한 하악 좌측 중절치와 측절치는 전신마취 전 근관치료를 시행하여 근관계를 통한 감염 가능성을 차단하였다. 낭종적출술은 전신마취하에 하악 우측견치에서 좌측견치부위까지 협측 판막을 형성하고 골 삭제 후 낭종 적출술과 소파술을 시행한 후 봉합을 실시하였다(Fig. 8).

병리조직검사서 주름지고 부전각화된 얇은 상피와 나타났고 기저세포는 극성을 보여 각화낭성 치성종양으로 진단되었다(Fig. 9). 환아는 수술 후 정기적인 방사선 검사를 진행하고 있으며, 3개월 후 방사선사진에서 낭 주변부에 정상적인 골치유가 이루어지고 있으며, 7개월 후에는 낭 중심부에도 골치유가 이루어지고 있고, 하악 좌측 견치와 제1소구치의 맹출이 진행되었다. 25개월 후에는 하악 좌측 치아들의 치근 형성이 진행되고 있다(Fig. 10).



Fig. 6. Initial panoramic view. Expansive lesion at the left anterior mandible deviated lower left incisor.

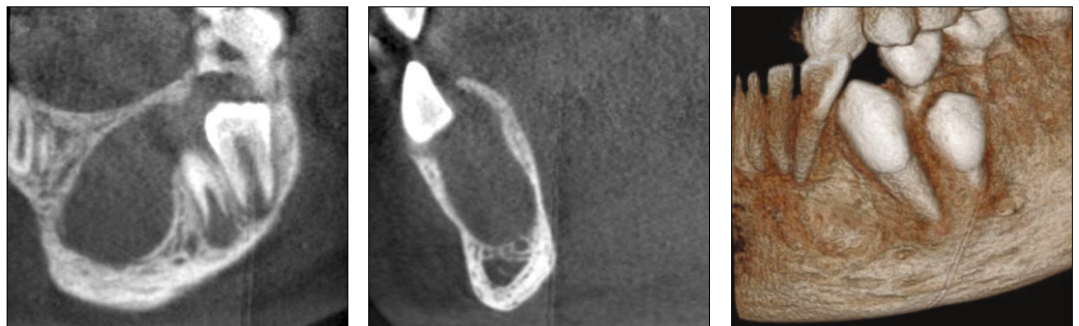


Fig. 7. CBCT. Labial and lingual cortical bone were thinned.

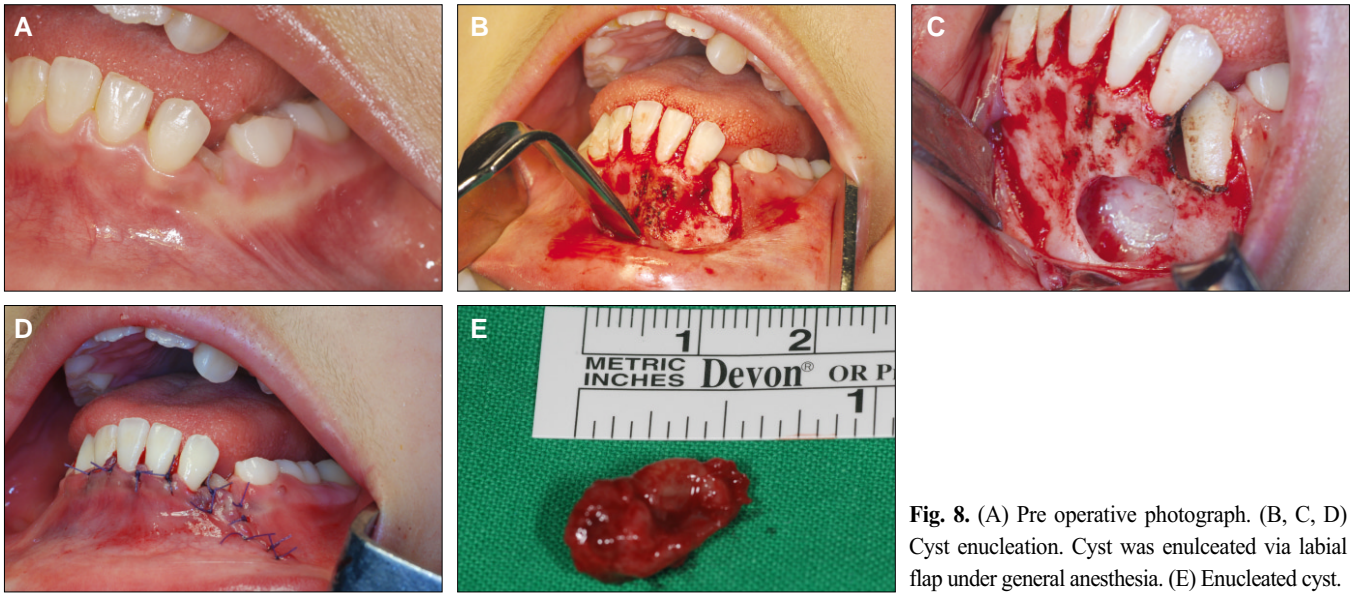


Fig. 8. (A) Pre operative photograph. (B, C, D) Cyst enucleation. Cyst was enucleated via labial flap under general anesthesia. (E) Enucleated cyst.

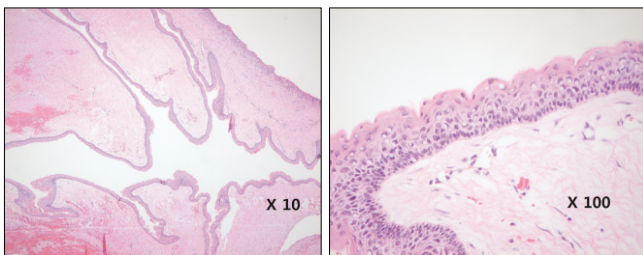


Fig. 9. Histological finding. The thin band-like cyst epithelium is parakeratotic and corrugated.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

각화낭성 치성종양은 악골에서 발생하는 모든 낭종 중 11% 가량을 차지한다⁸⁾. 이전에는 치관잔사에서 기원한 낭으로 분류 하였으나, 최근에 종양으로 분류가 개정되었다. 종양으로 분류 된 이유는 본 병변의 발현에 암억제 유전자의 하나인 patched 유전자의 관여가 인정되며, 진행성 및 재발성의 경향을 보이고, 내재된 성장 가능성이 있으며, 기저세포모반증후군을 동반하여 다발성으로 발생하는 경우가 있기 때문이다^{9,10)}. 또, 치조골을 파괴하여 주위 연조직에 파급되며, 기저세포층 직상의 세포증식활성이 높은 점, 상피 이형성을 볼 수 있다는 점 등을 들 수 있다¹¹⁾.

임상증상으로 악골의 팽윤, 둔통, 낭종 내용물의 구내 삼출 등이 나타나지만, 특별한 증상이 없거나 감각이상 등을 호소하는 경우도 있다¹²⁾. 방사선학적으로 단방성 혹은 다방성의 방사선 불투과성 병소가 조개껍질 모양(scalloped shape)이나 경계가 명확한 형태로 나타난다⁵⁾. 조직학적으로 각화낭성 치성종양

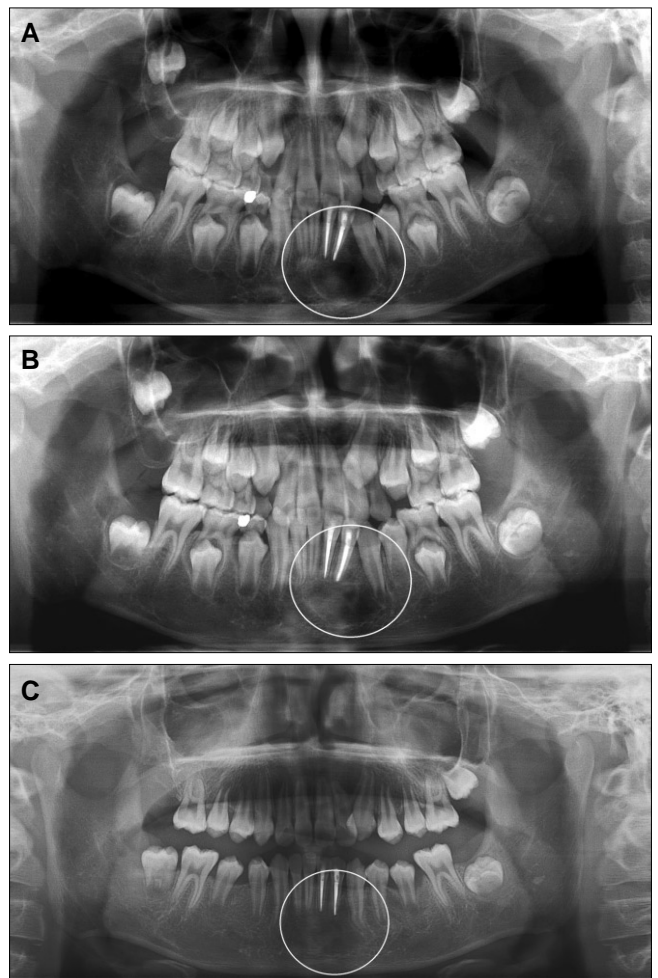


Fig. 10. Panoramic view after (A) 3 months, (B) 7 months, (C) 25 months, respectively. Bony healing was observed at the left anterior mandible.

은 일반적으로 얇은 결체조직벽과 각화된 4~8개의 세포층 두께의 얇은 편평 상피 이장을 갖고, 결체조직벽 내에 위성낭이 존재하기도 한다. 이러한 조직학적 특징 때문에 제거 후에도 높은 재발률을 보인다¹³⁾. 문헌에 따라 25%에서 60% 정도의 재발률을 보이며, 기저세포모반증후군(nevoid basal cell carcinoma syndrome or Gorlin-Goltz syndrome)과 연관된 경우에는 82%의 높은 재발률을 보인다⁹⁾.

각화낭성 치성종양의 치료는 크게 공격적인 치료와 보존적인 치료로 나뉜다. 공격적인 치료로 냉동요법, Carnoy 용액을 통한 고정, 또는 드물게 상악골 절제술이나 하악골 절제술을 시행할 수 있고, 보존적인 접근법으로 적출술, 소파술, 개창술과 감압술이 있다^{4,6)}. 또한 최근 몇 년간 분자 유전학의 발전에 따라, 기저세포모반 증후군과 각화낭성 종양이 발암 억제 유전자와 연관되어 있음이 밝혀져, 세포 신호를 억제하는 약물을 낭내부로 주입하는 방법이 시도되고 있다^{14,15)}.

Nicolautoe와 Kalarantza¹⁶⁾는 치성 각화 낭종의 경우 다른 낭종에 비해 높은 재발률을 보이며, 공격적이므로 세심한 적출술 및 주변골 절제가 치료의 원칙이라 하였다. Nakamura 등¹⁷⁾은 하악각과 하악지 부위에서 재발이 흔하고, 특히 다방성 병소일 때 재발이 많다고 하였다. 각화낭성 치성종양의 재발률에 관한 조사에서 공격적인 치료방법을 이용한 경우 재발률은 0~18%로 나타났다⁹⁾. Blanas 등¹⁸⁾과 Tolstunov와 Treasure¹⁹⁾는 공격적인 수술법으로 치료할 경우 치료율은 높지만 악골의 연속성 소실로 인한 악안면 형태의 결함을 가질 수 있어 공격적으로 침윤하는 병소나 재발 병소의 치료에 이용한다고 하였다. 적출술 후 액체 질소를 이용한 냉동요법을 사용하면 병리 세포를 괴사시켜 재발률을 낮출 수 있으나, 신경의 손상, 골절의 발생, 봉합부의 열개(dehiscence)와 같은 부작용이 발생할 수 있다²⁰⁾. 적출술 후 Carnoy 용액을 이용하는 경우는 광범위한 골 절제는 없으나 부식작용으로 인한 인접 조직과 신경에 손상을 일으킬 가능성이 있고²¹⁾, 장기간 또는 반복적인 노출시 간, 심장, 심장 등의 전신적인 손상을 일으킬 수도 있다²²⁾.

반면 Michele 등⁵⁾은 하악의 정중부, 하악체, 제3대구치 부위는 적출술과 소파술이 가장 일반적인 치료법이라고 하였다. 상악 후방부의 큰 병소 역시 치료가 까다로우나, 일부 연구자들은 적출술과 소파술에 앞서 병소의 크기를 줄이기 위한 조대술과 감압술을 성공적으로 이용했다고 보고하였다^{23,24)}. 이 등²³⁾은 소아의 경우에는 성인에 비해 골 재생 능력이 뛰어나고 미완성 치근단을 가진 경우에 맹출할 확률이 높아, 어른과 다소 다른 방법으로 접근이 필요하며, 더 좋은 예후를 가질 수 있다고 하였다. 보존적인 수술법은 치료기간이 길어지고, 주기적인 검사를 위한 재내원이 장기간 필요하여 환자의 협조가 없다면 시도하기 어려운 단점이 있다³⁾.

따라서 각화낭성 치성 종양의 치료 선택시에는 환자의 나이, 병소의 크기, 범위, 위치, 재발의 병력, 연조직의 포함여부, 조직학적 특성을 고려하여 수술 방법을 결정해야 한다^{12,17)}.

본 증례들은 미맹출 치아를 가지고 있는 어린이로서, 단방성 병소로 존재하였고, 기저세포 모반 증후군과의 연관성은 없었

다. 공격적인 치료시에는 골의 연속성 소실과 병소에 인접한 영구치를 상실할 수 있는 점을 고려하여, 보존적인 방법인 조대술과 적출술을 이용하여 골의 연속성과 영구치를 보존하였다. 외과적 치료 후 정기검진에서 병소의 재발 징후 없이 안정적인 골치유 상태를 보이고 있으며, 병소에 인접한 치아는 맹출하여 기능하고 있다. 이와 같이 소아 환자의 경우에는 적절한 증례에서 보존적 외과적 수술을 통해 심미성, 기능성, 환자의 삶의 질을 보존하여 치료할 수 있다.

각화낭성 치성 종양의 재발은 대부분 술 후 5년 이내에 발생하고 무증상인 경우가 많다³⁾. 따라서 보존적인 치료 후 5년간은 짧은 주기의 재내원이 필수적이며, 이후에도 재발 가능성을 염두에 두어 장기적인 재내원이 이루어져야 한다. 본 증례들의 보호자들에게도 향후 지속적인 관찰이 필요함을 인지시키고, 지속적인 검진을 통해 보존적인 수술 방법의 장기적인 성공 여부를 평가해야 할 것이다.

IV. 요 약

각화낭성 치성종양은 양성의 단방 혹은 다방성의, 치성 기원의 골내 종양이며, 부전각화된 중층의 편평상피와 공격적이고, 침윤하는 특징을 갖는 병소로, 재발의 경향이 높아 치료방법을 선택할 때에는 신중해야 한다. 본 증례들처럼 환자의 나이가 이리고, 기저세포 모반증후군과의 연관성이 없고, 재발 병소가 아니라면 보존적인 수술법으로 환자의 해부학적 구조를 보호하고 미맹출 치아 및 이환 부위에 맹출한 영구치를 보존할 수 있다. 보존적 수술법이 사용된 증례들은 지속적인 재내원을 통한 예후 관찰이 필요하다.

References

1. Philipsen HP : Om keratocyst(kelestertomer) i kaeberebene. *Tandlaegebladet*, 60:963-80, 1956.
2. Barnes L, Eveson JW, Sidransky D, et al. : World health organization classification of tumours : Pathology and genetics of tumours of the head and neck, IADR Press, Lyon, France, 306-307, 2005.
3. Poramate P, Andre C, Kittiping D, Jacques-Charles B, et al. : Management of odontogenic keratocysts of the jaws : A ten-year experience with 120 consecutive lesion. *J Cranioaxillofac Surg*, 38:358-364, 2010.
4. Smith IM, Havey N, Anderson PJ, et al. : Odontogenic keratocyst in a 5-year-old child: a rare cause of maxillary swelling in children. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*, 51:189-191, 2008.
5. Michele G, Giovanni B, Kathleen EH, et al. : Conservative management of a large odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg*, 65:308-316, 2006.

6. Meiselman F : Surgical management of the odontogenic keratocyst : Conservative approach. *J Oral Maxillofac Surg*, 52:960-963, 1994.
7. Williams T, Connor F : Surgical management of the odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg*, 52:964-946, 1994.
8. Maurette PE, Jorge J, De Moraes M : Conservative treatment protocol of odontogenic keratocyst: a preliminary study. *J Oral Maxillofac Surg*, 64 :379-383, 2006.
9. Jonathan M, Henry L : Keratocystic odontogenic tumour : Reclassification of the odontogenic keratocyst from cyst to tumour. *J Can Dent Assoc*, 74:165, 2008.
10. Gorlin R, Goltz R : Multiple nevoid basal cell epithelioma, jaw cysts and bifid rib. A syndrome. *N Eng J Med*, 58:283-94, 1960.
11. Nobuyoshi T, Narikazu U, Yasuyuki M, *et al.* : Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*, 38:55-63, 2012.
12. Kim JY, Kim YJ, Nam SH, *et al.* : Treatment of multiple jaw keratocystic odontogenic tumor in children's jaw bone : A case report. *J Korean Acad Pediatr Dent*, 36:489-497, 2009.
13. Heo SK, Choi NK, Yang KH, *et al.* : Nevoid basal cell carcinoma syndrome : A report of case : *J Korean Acad Pediatr Dent*, 35:725-730, 2008.
14. Taipale J, Chen JK, Copper MK, *et al.* : Effects of oncogenic mutation in Smoothed and Patched can be reversed by cyclopamine. *Nature*, 406:1005-1009, 2000.
15. Zhang L, Sun ZJ, Zhao YF, *et al.* : Inhibition of SHH signaling pathway : molecular treatment strategy of odontogenic keratocyst. *Med Hypotheses*, 67:1242-1244, 2006.
16. Nicolatou O, Kakarantza-Angelopoulou E : Odontogenic keratocyst: Clinicopathologic study of 87 cases. *J Oral Maxillofac Surg*, 48:593-599, 1990.
17. Nakamura N, Mitsuyasu T, Mitsuyasu Y, *et al.* : Marsupialization for odontogenic keratocysts : Long-term follow-up analysis of the effects and changes in growth characteristics. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 94:543, 2002.
18. Blanas N, Freund B, Furst IM, *et al.* : Systematic review of the treatment and prognosis of the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 90:553-558, 2000.
19. Tolstunov L, Treasure T : Surgical treatment algorithm for odontogenic keratocyst : combined treatment of odontogenic keratocyst and mandibular defect with marsupialization, enucleation, iliac crest bone graft, and dental implants. *J Oral Maxillofac Surg*, 66:1025-1036, 2008.
20. Leonardo T, Hedelson B, Manoel F : Enucleation and liquid nitrogen cryotherapy in the treatment of keratocystic odontogenic tumors: A case series. *J Oral Maxillofac Surg*, 69:112-117, 2011.
21. Zhao YF, Wei JX, Wang SP : Treatment of odontogenic keratocysts : a follow up of 255 Chinese patients. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 94:151-156, 2002.
22. Materials Safety Data Sheet 2007 : Carnoy's solution. Available from URL : <https://fscimage.fishersci.com/msds/45410.htm> (Assessed on April 29, 2013)
23. Pogrel MA, Jordan RCK : Marsupialization as a definitive treatment of the odontogenic keratocyst. *J Oral Maxillofac Surg*, 62:651-655, 2004.
24. Pogrel MA : Decompression and marsupialization as a treatment for the odontogenic keratocyst. *Oral Maxillofac Surg Clin N Am*, 15:415-427, 2003.
25. Lee JM, Park JH, Kim KC, *et al.* : Odontogenic keratocyst of a female child, a case report. *J Korean Acad Pediatr Dent*, 35:731-735, 2008.

국문초록

각화낭성 치성 종양의 보존적 외과적 치료 : 증례보고

신세영 · 양연미 · 김재곤 · 백병주

전북대학교 치의학전문대학원 소아치과학교실 및 구강생체과학연구소

각화낭성 치성종양은 국소적으로 공격적이고, 높은 재발률을 가지며 뚜렷한 조직학적 특성이 있는 낭성 병소로 다양한 치료 방법이 사용되고 있다. 몇몇 학자들은 공격적인 형태의 치료방법을 주장하지만, 또 다른 학자들은 보존적인 치료를 선호한다. 본 증례들은 미맹출 치아를 가진 소아 환자들에게 보존적 외과적 방법인 조대술과 낭종 적출술을 이용하여 각화낭성 치성종양을 치료하였고, 주기적인 검진을 시행중에 있다.

보존적 외과적 치료를 이용하여 각화낭성 치성종양을 치료하는 경우 치아와 해부학적 구조를 보호할 수 있어 소아 청소년 환자의 경우에게 좋은 치료 선택이 될 수 있다.

주요어: 각화낭성 치성종양, 보존적 외과적 치료, 조대술, 낭종 적출술