

Bilateral Maxillary Dentigerous Cysts in a Non-Syndromic Patient

Joo Hyun Jung, Il Gyu Kang, Heung Eog Cha and Seon Tae Kim

Department of Otolaryngology-Head & Neck Surgery, Gil Medical Center, Gachon University of Medicine and Science, Incheon, Korea

증후군이 없는 환자에서 발생한 양측 상악동 함치성낭 1예

정주현 · 강일규 · 차흥억 · 김선태

가천의과대학교 길병원 이비인후과학교실

Received September 15, 2009

Revised December 11, 2009

Accepted December 15, 2009

Address for correspondence

Seon Tae Kim, MD
Department of Otolaryngology-
Head & Neck Surgery,
Gil Medical Center,
Gachon University of
Medicine and Science,
1198 Guwol-dong, Namdong-gu,
Incheon 405-760, Korea
Tel +82-32-460-3764
Fax +82-32-467-9044
E-mail rhinokim2002@hanmail.net

Dentigerous cysts are the most common type of developmental odontogenic cysts and the second most common odontogenic cyst of the jaw after radicular cysts. Dentigerous cysts are usually solitary, but can be multiple in patients with certain syndromes, such as mucopolysaccharidosis type IV. There are cases of multiple cysts occurring in non-syndromic patients as well. A fourteen-year-old girl presented to our department with painful swelling in the left cheek. Except for the bulging of the left nasal lateral wall, the physical examination was unremarkable and all routine laboratory test results were within normal limits. Computed tomography (CT) showed a well-defined soft tissue density obliterating both maxillary sinuses with a tooth in the medial wall. We removed the cyst and teeth with forceps via a large middle meatal antrostomy. The pathology revealed a non-keratinized squamous epithelial lined cyst associated with the teeth.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:57-9

Key Words Dentigerous cyst · Odontogenic cyst.

서 론

함치성낭(dentigerous cysts)은 발육성 치성낭종(developmental odontogenic cyst) 중 가장 흔하며 턱에 발생하는 치성낭종 중 치근낭(radicular cyst) 다음으로 두 번째로 흔한 치성낭종이다. 함치성낭은 턱에 발생하는 모든 낭종 중 10~14% 정도를 차지하며 보통 치아를 포함하고 있거나 미맹출치아와 관련이 있다.¹⁾ 가장 흔한 경우는 하악의 세 번째 대구치와 관련된 경우며 상악의 세 번째 대구치와 상악의 송곳니에서도 발생한다. 약 5% 정도는 과잉치(supernumerary teeth)에서 발생한다.²⁾ 함치성낭은 보통 한 개가 발생하며 뮤코다당증(mucopolysaccharidosis) IV형, 기저세포모반 증후군(basal cell nevus syndrome), 쇄골두개골 형성이상(cleidocranial dysplasia) 등의 증후군이 있는 환자에서는 다발성으로 발생하기도 하지만 별다른 증후군이 없는 환자에서 다발성 낭종이 발생한

에는 보고된 바가 매우 드물다.³⁾ 이에 저자들은 별다른 증후군이 없고 건강한 환자에서 발생한 양측성 상악동 함치성낭을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고자 한다.

증 례

14세 여자 환자가 좌측 뺨의 동통을 주소로 내원하였다. 신체검사상 좌측 비강의 외측벽이 내측으로 돌출되어 있는 것 이외에는 특이한 소견은 보이지 않았으며 시행한 혈액검사는 모두 정상 소견을 보였다. 부비동 컴퓨터 촬영(Paranasal sinus computed tomography, PNS CT)을 시행하였으며 경계가 분명하며 내부에 골조직과 같은 고음영의 부분을 포함하고 있는 종괴가 관찰되었으며, 이 팽창성 종괴에 의해 좌측 상악동의 내측벽이 돌출하여 비중격에 닿아 있고 외측벽은 얇아져 있거나 파괴된 소견을 보였다. 우측 상악동에서는 변연부로 고음영을 보이는 연부조직 내에 치

Fig. 1. Coronal CT image shows well defined lesions containing impacted teeth. Both maxillary sinuses are expended laterally and the lateral bony walls are destructed (A). The expansion is more marked in the left maxilla with displacement of the medial wall of the maxillary sinus (B).

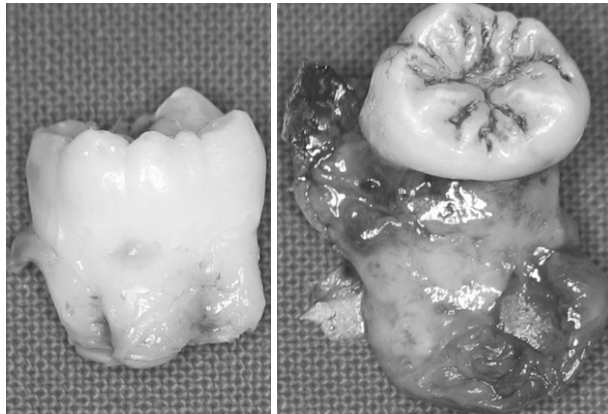
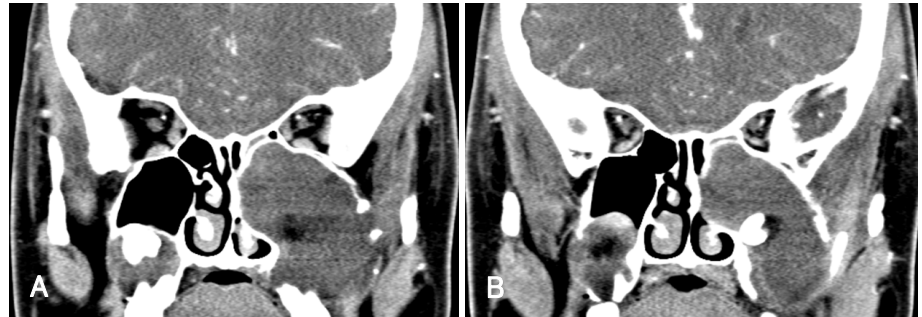


Fig. 2. Photograph of the specimen shows the retained molar and associated benign squamous epithelial cystic wall.

아가 관찰되었다(Fig. 1). 양측성 함치성낭종 의심하에 동반될 수 있는 중후군의 유무를 검사하였으나 소변검사, 신체검사, 신경학적 검사 등에서 이상 소견을 보이지 않았다. 전신마취하에 수술을 계획하였고 중비도 개창술(middle meatal antrostomy)을 크게 시행하였다. Heuwieser antrum grasping forcep을 이용하여 골성 낭종 벽을 제거한 후 양측 상악동 내에서 완전한 모양의 대구치가 관찰되었다. 대구치를 포함한 낭종을 모두 제거하였으며 중비도 개창술을 통한 입구가 충분히 큰 상태여서 Caldwell 접근 등의 추가적인 처치는 필요하지 않았다(Fig. 2). 병리학검사 결과 치아와 함께 발생한 비각질증층편평상피로 형성된 낭종으로 확진되었다(Fig. 3). 이후 환자는 11개월이 지난 현재까지 별다른 증상 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

함치성낭은 영구치의 치관 주변에서 발생하는 흔한 병변으로 이 낭종은 미맹출된 영구치, 매복 과잉치, 치아중 등을 포함하고 있다.^{4,5)} 이 낭종의 75% 정도가 하악골에 위치한다.¹⁾ 보통의 경우 증상이 없으나 안면부종, 지연된 치아맹출을 일으킬 수 있으며 뼈를 파괴하기도 하여 종종 병적 골절을 유발한다.⁶⁾

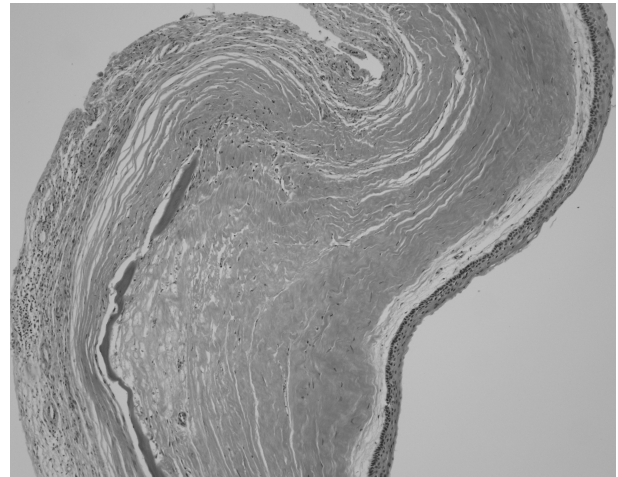


Fig. 3. Photomicrograph showing cyst wall composed of fibrous tissue and lined by nonkeratinised stratified squamous epithelium (H&E, $\times 100$).

함치성낭은 보통 단일 병변이지만 뮤코다당증 IV형, 기저세포모반 증후군, 쇄골두개골 형성이상 등의 증후군이 있는 환자에서는 양측성 또는 다발성 낭종이 발생하기도 한다. 뮤코다당증 IV형은 N-acetylgalactosamine 4-sulfatase이 부족하여 나타나는 유전성 질환으로 각막혼탁, 전농(deafness) 등의 증상이나 신경학적 이상 등을 나타내는 질환이며, 기저세포모반 증후군은 우성 유전 질환으로 피부, 눈, 골격계, 내분비계 이상을 초래하는 질환이다. 쇄골두개골 형성이상은 골격계를 침범하여 쇄골 무형성, 두개골의 골화 지연 등이 나타나는 질환이다.³⁾ 위의 세 가지 질환에서는 양측성 또는 다발성 함치성낭이 발생하기도 하지만 별다른 증후군이 없는 환자에서 발생한 양측성 함치성낭의 경우는 전세계적으로 20예 정도가 보고될 정도로 매우 드물며 특히 상악동에 발생한 양측성 함치성낭은 전세계적으로 3예가 보고될 정도로 드물다.⁷⁾

방사선학적 검사에서 함치성낭은 단실(unilocular)의 방사선 투과성의 병변으로 나타나며 주변에 경화된 경계로 둘러싸여 있다. 이 병변은 미맹출 치아나 매복치의 치관과 연관되어 있다. 병변의 직경이 5 mm를 넘는 것이 정상적

인 여포 공간과의 감별점이다.²⁾ 복합성의 낭종성 병변이나 광범위한 골침범이 있는 경우에는 전산화단층촬영을 반드시 시행해야 한다. 상악골에 발생한 함치성 낭종의 경우 골 파괴가 발생하기도 하며 상악동내로 확장되기도 하고 종종 비강과 안와내로 침범하기도 한다.¹⁾

함치성낭과 감별해야 할 질환으로 치근낭과 치성각화 낭종이 있다. 치근낭은 충치의 근단 주위 육아종에서 발생한다. 치성각화 낭종은 종종 다실(multilocular)이며 보통 하악골의 하악지(ramus)나 하악골의 몸체부(body)에 위치한다. 치성각화 낭종은 함치성낭에 비하여 임상 경과가 공격적이고 재발이 흔하기 때문에 주의를 기울여야 한다고 알려져 있다.^{1,8)}

함치성낭의 치료는 연관되어 있는 치아와 함께 낭종을 적출하는 것이 가장 보편적인 방법으로 본 증례에서도 양측 모두 치아와 함께 낭종을 적출하였다.⁵⁾ 병변이 큰 경우에는 수술적 배액과 조대술로 낭종에 의한 압박을 줄이기도 한다.⁹⁾ 병리조직학적 검사가 확진을 위해 필수적이다. 위의 경우와 비슷하게 상악동의 함치성 낭종은 상악동의 공동을 폐쇄하거나 밀어내기도 하며 낭종이 감염되는 경우도 있다.

하지만 함치성낭의 재발은 드문 것으로 알려져 있다.²⁾

REFERENCES

- 1) Weber AL. Imaging of the cysts and odontogenic tumors of the jaw. Definition and classification. Radiol Clin North Am 1993;31 (1):101-20.
- 2) Tournas AS, Tewfik MA, Chauvin PJ, Manonkian JJ. Multiple unilateral maxillary dentigerous cysts in a non-syndromic patient: A case report and review of the literature. International J of Ped Otolaryngol Extra 2006;1 (2):100-6.
- 3) Sands T, Tocchio C. Multiple dentigerous cysts in a child. Oral Health 1998;88 (5):27-9.
- 4) Miller CS, Bean LR. Pericoronal radiolucencies with and without radiopacities. Dental Clin North Am 1994;38 (1):51-61.
- 5) Di Pasquale P, Shermetaro C. Endoscopic removal of a dentigerous cyst producing unilateral maxillary sinus opacification on computed tomography. Ear Nose Throat J 2006;85 (11):747-8.
- 6) Motamedi MH, Talesh KT. Management of extensive dentigerous cysts. Br Dent J 2005;198 (4):203-6.
- 7) Ko KS, Dover DG, Jordan RC. Bilateral dentigerous cysts--report of an unusual case and review of the literature. J Can Dent Assoc 1999; 65 (1):49-51.
- 8) Silva GCC, Silva EC, Gomez RS, Vieira TC. Odontogenic keratocyst in the maxillary sinus: report of two cases. Oral Oncology Extra 2006; 42 (6):231-4.
- 9) Motamedi MH, Talesh KT. Management of extensive dentigerous cysts. Br Dent J 2005;26 (4):203-6.