

악골에 발생한 Florid Osseous Dysplasia의 치험례

지방공사 강남병원 구강악안면외과

장현석

FLORID OSSEOUS DYSPLASIA : A CASE REPORT

Hyun-Seok Jang

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Kangnam General Hospital, Public Corporation

This is case report of florid osseous dysplasia occurred in the entire maxilla and mandible of 47-year-old female.

Florid osseous dysplasia is an expansile, exuberant asymptomatic form of benign fibro-osseous disease of the periodontal ligament, often associated with jaw cysts and to be though as an abnormal reaction of bone to irritation or stimulation.

The treatment was performed with removal of the necrotic bone, bone curettage and hyperbaric oxygen therapy.

The patient did not well postoperatively and has shown sign of persistant infection with pus discharge.

I. 서 론

Florid osseous dysplasia(FOD)는 다발성으로 악골내, 특히 하악골에 호발하는 양성 섬유골성병변(fibro-osseous disease)의 일종으로 1976년 Melrose등에 의하여¹⁾ 처음으로 사용되기 시작하였고 치주인대로부터 발생하는 것으로 생각되고 있으며 가족력은 나타내지는 않고 대부분 중년의 흑인 여성에서 호발되며 동시에 악골내 낭종을 수반하는 경우가 상당히 많다^{1,2)}. 약 50%의 경우에는 특별한 증상을 나타내지

않지만 동통, 누공 형성 및 배농, 부골 형성 등을 보이는 경우도 있으며 치조골의 팽창을 자주 관찰할 수 있으나 안모 자체의 변형을 나타내는 경우는 거의 없다. 악골에 발생하는 섬유골성 병소의 분류는 과거로부터 수 많은 논란이 있어 왔는데 FOD 역시 multiple cemento-ossifying fibroma, diffuse chronic sclerosing osteomyelitis, sclerotic cemental mass, gigantiform cementoma등으로 불리워져 왔으나 최근에 와서야 조직병리학적 소견, 방사선 사진 소견, 임상적 관찰 및 수술 시의 소견을

종합하여 독립된 하나의 질병으로 분류하고 있다¹⁾.

본 증례는 내원 2년전 부터 계속된 상악 좌측 견치 및 소구치 부위의 골성 종창 및 배농, 동통을 주소로 내원하여 고압산소 치료 및 부골 적출을 시행한 후 증세의 호전을 보였으나 4년 후 재발의 양상을 보여 다시 상악 구치 부위에 대한 부골 적출술을 시행한 뒤 현재까지 관찰 중인 47세 여자 환자에 대한 증례보고이다.

II. 증례보고

47세 여자환자로 1992년 2월초 지방공사 강남병원 구강악안면외과에 고압산소 치료를 위해 의뢰되어 처음 내원할 당시 2년전 부터 상악 좌측 소구치 및 대구치 부위에 골성 종창, 동통 및 배농을 보여 타병원에서 항생제 투여를 비롯한 보존적 처치를 시행하였으나 증세의 호전을 보이지 않아 내원 당시 좌측 안면부의 경미한 종창, 간헐적인 좌측 안면부 동통 및 대구치 부위에서 지속적인 배농을 보이고 있었고 상악 좌측 제2소구치, 제1대구치 및 제2대구치의 결손 및 결손부에 골성 종창을 보이고 있었다.

전신적 소견상 입원 당시 심전도, 흉부 방사선 검사 등은 정상소견을 보이고 있었으나 FBS/PP₂가 240/309로 당뇨의 소견을 보이고 있었으며 serum calcium, phosphate, alkaline phosphatase는 정상범주 이었다.

방사선 소견상 상악골과 하악골 모두 양측

성으로 경계가 불규칙한 lobule 형태의 광범위한 병소의 침윤을 관찰할 수 있었다. 병소의 경화도가 심하였으며 상악에서는 주위조직과의 경계가 불투명하였으나 하악에서는 병소와 주위 정상조직 사이에 방사선 불투과성의 띠를 관찰할 수 있었다. 부분적인 치아결손이 있었으나 유치와 부위에서는 치근부에 병소가 부착되어 있는 것을 관찰할 수 있었으며 부분적으로 부골이 형성되어 있었다(Fig. 1).

임상적 증상 및 방사선 소견을 종합하여 섬유골성 병변의 일종인 FOD로 진단을 내리고 수술전 고압산소 치료와 이의 결과를 지켜보며 부골적출을 시행하기로 치료계획을 수립한 후 1992년 2월 중순부터 40회의 고압산소 치료를 시행하였다. 고압산소 치료로 상당한 증세의 호전을 보여 동통 및 종창의 감소, 배농 중단 등의 효과를 보였으나 환자의 사정으로 내원이 중단되었다가 동년 10월 증상이 재발되어 11월

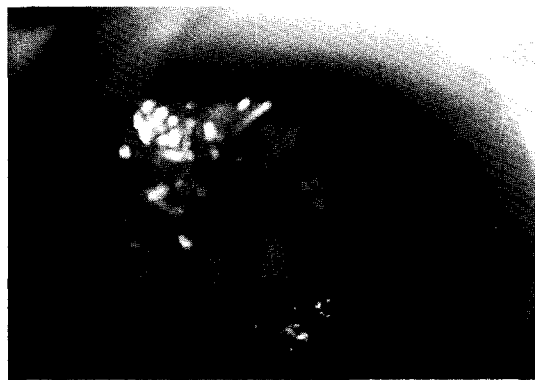


Fig. 2. Intraoral finding

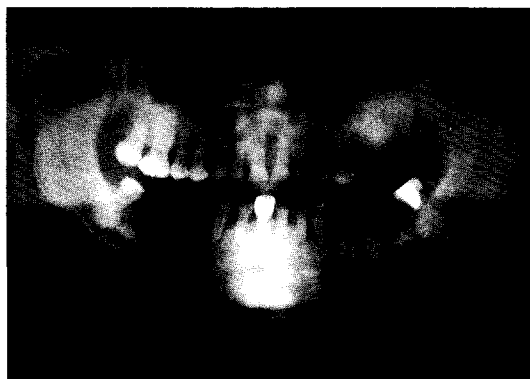


Fig. 1. Orthopantomogram

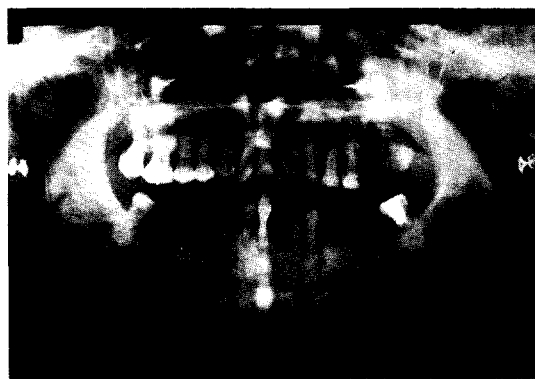


Fig. 3. Orthopantomogram

4일 통법대로 비기관 삽입에 의한 전신마취를 시행한 다음 상악구치부 치조골 정상부에 절개선을 가한 뒤 부골적출 및 누공 제거 후 치조골 성형술을 시행하고 일차 봉합을 시행하였다. 수술 2주전 부터 당뇨에 대한 적극적인 insulin 치료를 시행하여 혈당치를 정상으로 한 뒤 수술을 시행하였다. 술후 7일 만에 퇴원하였으며 수술 경과는 양호하였으나 다시 환자의 내원이 중단되었다가 1996년 2월 재내원하였을 당시 상악 좌측 구치부에 2cm×1.5cm×1.0cm 크기의 부골이 구강 점막 외부로 노출되어 치조능선 상에 위치하고 있었고 상악 좌측 측절치 근단부 점막부에 누공이 형성되어 배농이 되고 있었다(Fig. 2,3). 1996년 3월 5일 국소마취 아래 부골제거 및 상악좌측 측절치발치와 누공 절제술을 시행하였으나 부골적출부의 치유가 순조롭지 못하여 현재 항생제 투여를 비롯한 보존적 치료를 진행중이다.

병리조직학적 소견상 절제된 부골은 육안으로 보아 황색을 띠는 경조직 절편들과 그 일부에 부착되어 있는 작은 회백색 연조직으로 구성되어 있었으며(Fig. 4) 현미경 소견상 비교적 일정한 두께의 골주가 치밀하게 배열되어 있었고 그 사이로 결체조직의 증식을 관찰할 수 있었으며 acellular type의 cementum과 유사한 경조직 사이에 골수와 유사한 공간을 보이고 있었으며 그 내부에는 염증세포의 침윤과 약간의 섬유조직을 관찰할 수 있었다(Fig. 5,6).

이상의 임상적 관찰 및 방사선학적 소견, 조직병리학적 소견을 종합하여 FOD로 진단할

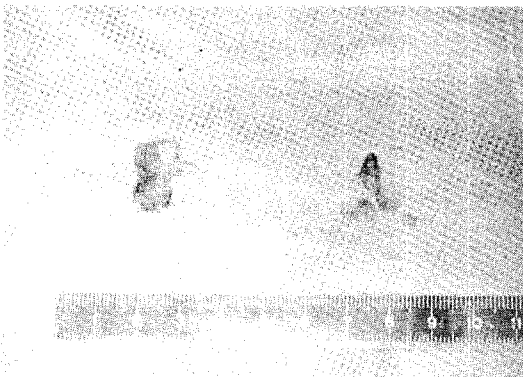


Fig. 4. 적출된 mass

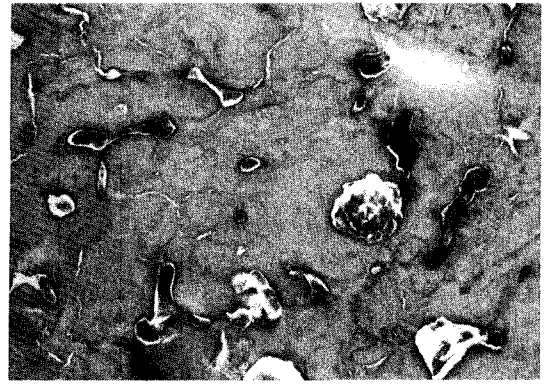


Fig. 5. Histopathologic finding.



Fig. 6. Histopathologic finding.

수 있었다.

III. 총괄 및 고찰

악골에 발생하는 섬유골성 병변은 오랫동안 그 분류 및 치료 방법의 선택에 있어서 많은 논란이 있어왔으나 최근에 와서 방사선학적 소견 및 조직병리학적 소견을 종합하여 reactive type과 neoplastic type으로 분류하고 있다¹⁾. 그러나 현실적으로는 여기에 임상소견 및 수술소견등을 추가하여 종합해야만 정확한 진단이 가능하다.

모든 섬유골성 병변은 정상 골조직이 다양한 양의 mineralized tissue, collagen, fibroblast등으로 대체되어 있다는 공통점을 지니고 있지만²⁾ Table 1.의 Waldron의 분류에서 볼 수 있듯이 많은 종류의 병변을 포함하고 있다.

FOD는 1976년 Melrose에 의하여¹⁾ 처음으로

Table 1. Fibro-osseous and Related Lesions of the Jaws

- I. Fibrous dysplasia
 - a. polyostotic
 - b. monostotic
- II. Fibro-osseous lesions arising from the periodontal ligament
 - a. ossifying and cementifying fibroma
 - b. juvenile ossifying fibroma
 - c. localized or reactive osteitis
(fibro-osseous or cemental in nature)
 - d. florid cemental or osseous dysplasia
(chronic sclerosing osteomyelitis)
 - e. periapical cemental dysplasia
- III. Fibro-osseous neoplasms possibly related to those arising in the periodontal ligament
 - a. cementoblastoma or osteoblastoma
 - b. juvenile active ossifying fibroma, etc.

분류되어 사용되기 시작한 만성적인 진행성 병변으로 다양한 임상적, 방사선학적, 조직병리학적 소견을 보이고 있으며 상하악골에 흔히 양측성으로 발생된다. 발생환자의 70-90%가 흑인여성이며^{4,5,12)} 30-50세에서 호발하고 치근막에 유래하는 다른 섬유골성 병변들과 마찬가지로 하악 소구치부와 대구치부에 호발하며⁴⁾ 방사선사진 소견상 방사선 불투과성의 cementum과 유사한 병소가 다발성으로 전체 악골에 걸쳐 분포되어 있는 상태로 발생되며 1년에 인구 10만명 당 0.01명씩의 발생빈도를 보여 전체 cemental lesion의 약 11% 정도를 차지한다⁶⁾. 치조골의 피질골 팽창을 보이기도 하며 다발성의 악골내 낭종의 발생이 수반되기도 한다⁷⁾. 흔하지는 않지만 한 가족의 여러 명에서 동시에 발병된 보고도 있다^{8,17,18)}.

발병시 증상으로는 동통, 종창, 누공형성, 부골형성등을 들수있는데 Melrose에의하면 전체발생 환자의 반 정도는 특별한 증상을 보이지 않는것으로 알려지고 있다¹⁾. 부골은 황색이나

백색을 띠게되는데 간혹 잔존치아나 치근등으로 오인될 정도의 형태를 갖추고 있는 경우가 있으며 주위의 점막은 염증반을 보이고 부골과 주위점막 사이로 배농을 보이는 경우가 흔하다. Schneider등은⁹⁾ FOD의 진단에 필요한 5가지 조건을 제시하고 있는데 대부분 치조골 부위에 방사선 불투과성의 lobulated mass가 있어야하고 2 이상의 quadrant에 발생되어야 하며 이는 대부분 하악골에 양측성으로 발병하지만 상악골에도 발병할 수 있고 대부분 흑인 여성에 호발하며 mass 자체가 구강내로 노출되지 않는 이상 염증소견을 발견할 수 없다는 조건이다.

FOD의 원인은 알려져 있지 않지만 인종적 차이, 성별, 가족적 차이에 따른 이환율의 변화를 보고한 경우도 있다⁹⁾. 국소적인 자극이 FOD의 발병과 연관이 있는지는 밝혀지지 않았지만 이런 자극이 기존에 발생되어 있는 FOD에 골수염을 이야기할 수 있는 것으로 알려지고 있어¹⁰⁾ FOD 환자의 경우에 근관치료시 예방적인 항생제의 투여를 고려해야 한다⁹⁾.

방사선 소견상 방사선 불투과성이 lobule을 형성한 채 불규칙한 경계를 가지며 다발성으로 악골 전체에서 관찰되는데 이는 치아를 둘러싸고 있는 치조골 부위에서만 관찰될뿐 하악의 하치조신경 하방부위나 상행지부위에서는 발생되지 않는다. 치아부위에서는 몇개의 방사선 불투과성 mass가 치근단 부위를 둘러싸고 있으며 치아는 hypercementosis와 치근단의 clubbing를 보이기도 하고 가끔은 mass가 치근에 부착되어있는 경우도 관찰할 수 있다. mass의 경화도는 다양하며 내부에서 골주의 분포는 관찰할 수 없다. 전반적으로 병소의 크기는 일정하지 않고 병소의 진행에 따른 방사선 소견의 변화에 따라 early, intermediate, late stages로 분류하기도 한다⁴⁾. 동통과 부골형성, 누공형성이 있는 부위의 방사선 소견은 대부분 mass 주위에 방사선 투과성의 경계가 명확하게 형성되어 있는 것을 관찰할 수 있으며¹⁹⁾ 악골을 제외한 다른 두경부에 대한 발생은 보고된 바 없다. Melrose등은 FOD와 동시에 낭종과 유사한 병소가 악골에 발생되어 있는 경우를 보

고하고 있다¹¹⁾.

조직병리학적 소견상 비교적 혈관 분포가 미약한 불규칙한 lobule 형태의 basophilic mass가 심하게 경화된 형태로 나타나며 이 조직은 acellular type의 cementum과 유사하게⁹⁾ reversal line과 resting line이 뚜렷하고 많은 빈 골소와가 있고 이 경화된 mass내에 전반적으로 골소와 유사한 공간이 있어 이 내부는 대부분 비어있지만 간혹 섬유조직이 미세하게 있는 경우도 있으나 부골이 형성되어 있는 경우에는 이 공간이 피사물질로 채워져 있다. 형성된 부골은 이 병소자체가 상당히 진행되어 있을 때 관찰할 수 있는데 Jacobsson과 Heyden은 이 병소를 진행경과에 따라 granulation tissue에서부터 sclerotic bone까지의 4단계로 분류하고 있는데 임상적인 진행상태와 유사한 진행을 나타내고 있다^{11, 15, 16)}. 가끔은 치아의 치근과 mass 자체가 결합되어 있는 경우도 있다. 이학적 검사 소견상 특별한 이상은 발견되지 않는 것으로 알려지고 있어 alkaline phosphatase의 증가를 수반하는 Paget's disease와 감별이 가능하다^{13, 14)}.

FOD의 치료에 대해서는 많은 논란이 있어 왔는데 일반적으로 항생제의 장기적인 투여가 필요하지만 그 치료효과는 의문시 된다. 이환 부위에 대한 예방적인 골의 제거가 동통을 감소시키는 효과가 있지만 현재 대부분의 경우에 임상적으로나 방사선 소견상 명확하게 부골이 형성되었을 때 부골을 제거해주는 것이 바람직한 것으로 알려져 있다²⁰⁾. 국소마취 아래 부골을 제거해주고 형성된 누공과 염증조직을 제거하면서 일차적으로 봉합해주는 것이 바람직하며 항생제와 소염진통제를 단기간 투여하는 대증요법이 널리 사용되고 있으며 양성이나 악성 종양으로의 전환은 없는 것으로 알려지고 있다³⁾.

^{11, 15)}

참 고 문 헌

1. Melrose RJ, Abrams AM, Mills RG : Florid osseous dysplasia. Oral Surg 41 : 62, 1976.
2. Hamner JE, Ketcham AS, Swerdlow H : Cemento-ossifying fibroma of the maxilla Oral Surg 26 : 579, 1968.
3. Stern M, Ruggiero SL : Fibro-ossous lesions of the facial bones, Selected Readings in Oral and Maxillofacial Surgery Vol. 3, No.1.
4. Laband PF, Leacock AG : Sclerosing osteitis of the jaws. J Oral Surg 25 : 23, 1967.
5. Ellis GL, Lewis DM, Carleton AS : Multile osteosclerotic masses of the jaw. JADA 114 : 678, 1987.
6. Loh Fc, Yeo Jf : Florid osseous dysplasia. Oral Surg 68 : 748, 1989.
7. Kaugars GE, Cale AE, Richmond Va : Traumatic bone cyst. Oral Surg 63 : 318, 1987.
8. Musella AE, Slater LJ : Familial florid osseous dysplasia. J Oral maxillofac Surg 47 : 636, 1989.
9. Schneider LC, Mesa ML, Brickman JH : Complications of endodontic therapy in florid osseous dysplasia. Oral Surg, 64 : 114, 1987.
10. Waldron CA : Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 43 : 249, 1985.
11. Jacobsson S, Heyden G : Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible. Oral Surg 43 : 357, 1979.
12. Zegarelli JE et al : The cementoma : A study of 230 patients with 435 cementomas. Oral Surg 17 : 219, 1964.
13. Gorlin RJ, Pindborg JJ, Cohen MM : Syndromes of the head and neck, 2nd ed. New York : McGraw-Hill Book pp.269, 1976.
14. Shafer WG, Hine MK, Levy BM : A textbook of oral pathology. 4th ed. Philadelphia : WB Saunders, 1983.
15. Bell WH : Sclerosing osteomyelitis of the mandible and maxilla. Oral Surg 12 : 391, 1950.
16. Shafer WG : Chronic sclerosing osteomy-

- elitis. J Oral Surg 15 : 138, 1957.
17. Cannon JS, Keller EE, Dahlin DC : Gigantiform cementoma : Report of two cases (mother and son). J Oral Surg 38 : 65, 1980.
 18. Sedand HO, Kuba R, Gorlin RJ : Autosomal dominant cemento-dysplasia. Oral Surg 54 : 642, 1982.
 19. Waldron CA, Giansanti JS, Browand BC : Sclerotic cemental masses of the jaws (so-called chronic sclerosing osteomyelitis, multiple enostosis, and gigantiform cementoma). Oral Surg 39 : 509, 1975.
 20. El-Mofty S : Chronic diffuse sclerosing osteomyelitis. Oral Surg 36 : 898, 1973.