

Clinical study of keratocystic odontogenic tumors

Nobuyoshi Tomomatsu¹, Narikazu Uzawa¹, Yasuyuki Michi¹,
Kazuto Kurohara¹, Norihiko Okada², Teruo Amagasa¹

¹Maxillofacial Surgery, Maxillofacial Reconstruction and Function, Division of Maxillofacial and Neck Reconstruction,
²Diagnostic Oral Pathology, Oral Restitution, Oral Health Sciences, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University

Abstract (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012;38:55-63)

The odontogenic keratocyst (OKC) was originally classified as a developmental cyst, and OKCs were histologically divided into orthokeratotic (O-OKCs) and parakeratotic (P-OKCs) types. Clinical features differ between O-OKCs and P-OKCs with P-OKCs having a tendency to recur after surgical treatment. According to the revised histopathological classification of odontogenic tumors by the World Health Organization (2005), the term keratocystic odontogenic tumor (KCOT) has been adopted to describe P-OKCs. In this retrospective study, we examined 186 KCOTs treated at the Maxillofacial Surgery Department of the Tokyo Medical and Dental University Hospital from 1981 through 2005. The patients ranged in age from 7 to 85 years (mean, 32.7) and consisted of 93 males and 93 females. The most frequently treated areas were the mandibular molar region and ramus. The majority of KCOTs in the maxillary region were treated by enucleation and primary closure. The majority of KCOTs in the mandibular region were enucleated, and the wound was left open. Marginal resection was performed in the 4 patients with large lesions arising in the mandible. In patients who were followed for more than a year, recurrences were observed in 19 of 120 lesions (15.8%). The recurrences were found at the margins of the primary lesion in contact with the roots of the teeth or at the upper margins of the mandibular ramus. Clinicians should consider aggressive treatment for KCOTs because the recurrence rate of P-OKCs is higher than that of other cyst types such as O-OKCs, dentigerous cysts, primordial cysts that were non-keratinized, and slightly keratinized stratified squamous epithelium. Although more aggressive treatment is needed for KCOTs as compared to other cystic lesions, it is difficult to make a precise diagnosis preoperatively on the basis of clinical features and X-ray imaging. Therefore, preoperative biopsy is necessary for selecting the appropriate treatment for patients with cystic lesions.

Key words: Keratocystic odontogenic tumor, Odontogenic benign tumor, Odontogenic keratocyst, Odontogenic orthokeratocyst

I. 제 언

2005년에 치성종양 World Health Organization (WHO) 조직 분류¹가 개정되어, 종래의 치성각화낭종(odontogenic keratocyst)은 낭종상피가 착각화를 보이는 것을 각화낭성 치성종양(keratocystic odontogenic tumor)으로 분류하여 양성종양의 하나로 다루게 되었다. 치성각화낭종은 1956년 Philipsen²에 의해 보고된 이래, 높은 재발률과 침윤성 등 종양으로서의 성격이 다수 보고되었다³⁻⁶. 종양으로 분류된 이유는 본 병변의 발현에 암역제 유전자의 하나인 patched

유전자의 관여가 인정되는 점, 진행성 및 재발성의 성격을 보유하고 있는 점, 기저세포모반증후군을 동반하여 다발성으로 발생하는 경우가 있는 점⁷, 치질골을 파괴하여 주위 연조직에 파급되는 점, 기저세포층 직상의 세포증식활성이 높은 점, 그리고 상피이형성을 볼 수 있다는 점 등을 들 수 있다¹. 지금까지 다수의 치성각화낭종의 재발에 관한 임상적 검토가 진행되어 그 원인에 대해서도 여러 견해가 보고되었다. 재발률은 12.0%부터 62.5%로 폭넓게 보고되고 있으며^{4,8-17}, 그 원인으로 낭낭포(daughter cyst), 상피섬(epithelial island)의 존재, 낭종벽 표피세포의 활발한 증식 능 등이 거론되고 있지만, 얇은 낭종벽 때문에 적출 시 발생하는 상피조직의 잔존이 원인이라는 지적도 다수 보고되고 있다^{12,17-19}.

이에 본 연구는 과거 25년간 본 과에서 진단하고 치료한 단발성의 악골낭종을 새로운 WHO 분류에 준하여 재분류한 후, 각화낭성치성종양으로 분류된 것을 대상으로 임상적 검토를 실시하였다.

Nobuyoshi Tomomatsu

Maxillofacial Surgery, Maxillofacial Reconstruction and Function, Division of Maxillofacial and Neck Reconstruction, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University, 1-5-45 Yushima Bunkyo-ku, Tokyo 113-8549, Japan
TEL: +81-3-5803-5500 FAX: +81-3-5803-0198
E-mail: tomomatsu.mfs@tmd.ac.jp

© This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>), which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

*Some points of this article was reported at the 51th Japanese Meeting of Oral and Maxillofacial Surgery in Oct, 2006.

*This article was published in Japanese Journal of Oral and Maxillofacial Surgery and secondary publication was permitted each other between Korea and Japan.

II. 연구 대상 및 방법

1981년부터 2005년까지 25년간 동경의과치과대학 치학부 부속병원 악안면외과 외래(구 제1구강외과)의 임상, 병리 조직학적 진료를 통해 각화낭성치성종양으로 진단된 단발 186증례를 대상으로 하였다. 다발성 증례에 관해서는 이번 해석에서 제외하였다.

그러나 각화낭성치성종양의 진단기준에 관해서는 신·구 분류법에 애매한 부분이 있어 일정한 진단기준을 적용할

필요가 있었다. 즉, 각화낭성치성종양은 2005년의 분류 개정에 의해 양성 종양으로서 다뤄지게 되었지만, 이는 단지 명칭이 바뀐 것만이 아니라 진단기준에도 다소 변경된 부분이 있다. 각화 양식이 정각화인 편평상피로부터 이뤄지는 것은 이 범주에 포함하지 않으며, 정각화를 띠는 악골내 낭종을 치성정각화낭종(odontogenic orthokeratocyst)으로 분류하고, 각화낭성치성종양은 각화 양식이 착각화를 띠는 것에 한정시켰다. 이러한 두 가지 각화 양식의 차이에 따라 임상증상은 달라져, 착각화를 띠는 것은 정각화보다 재발

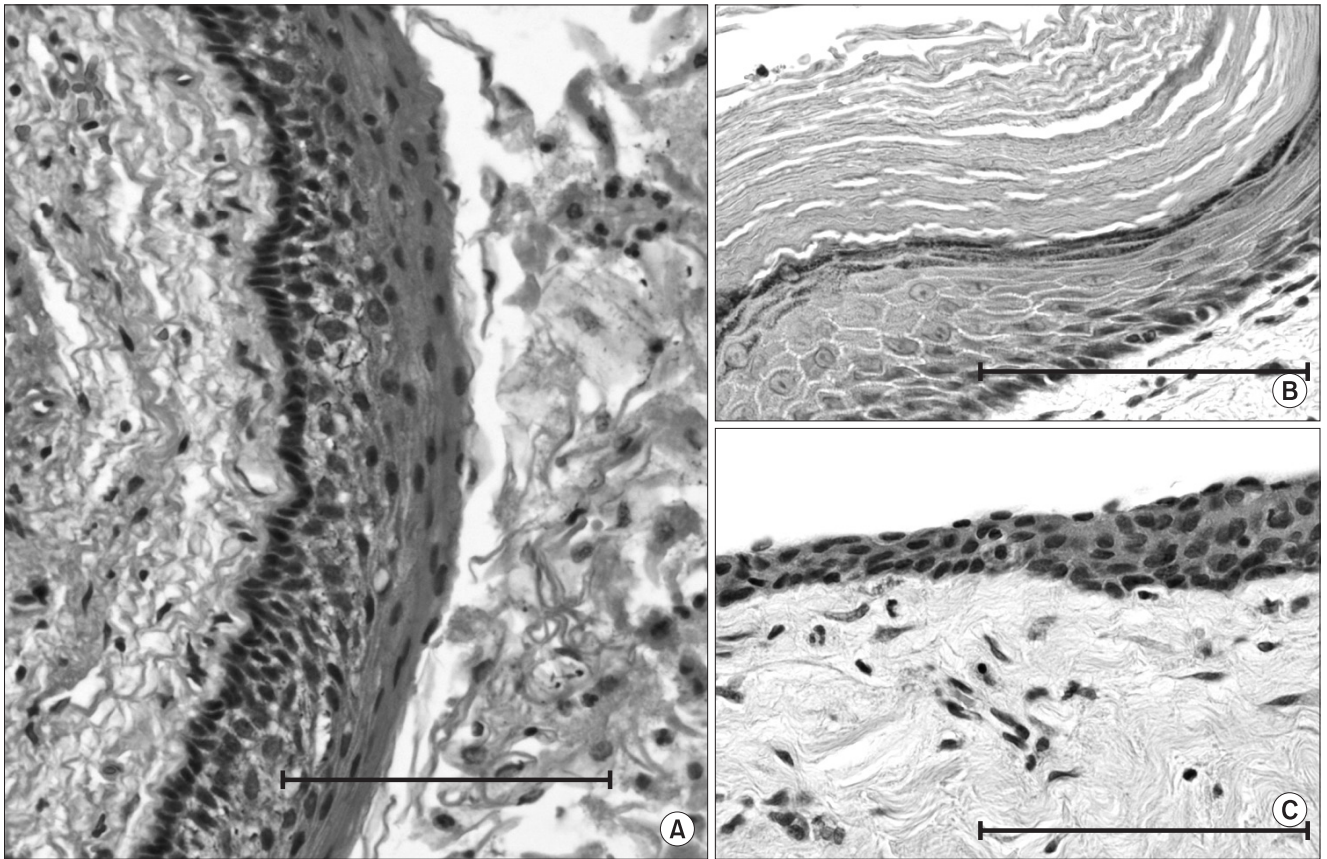
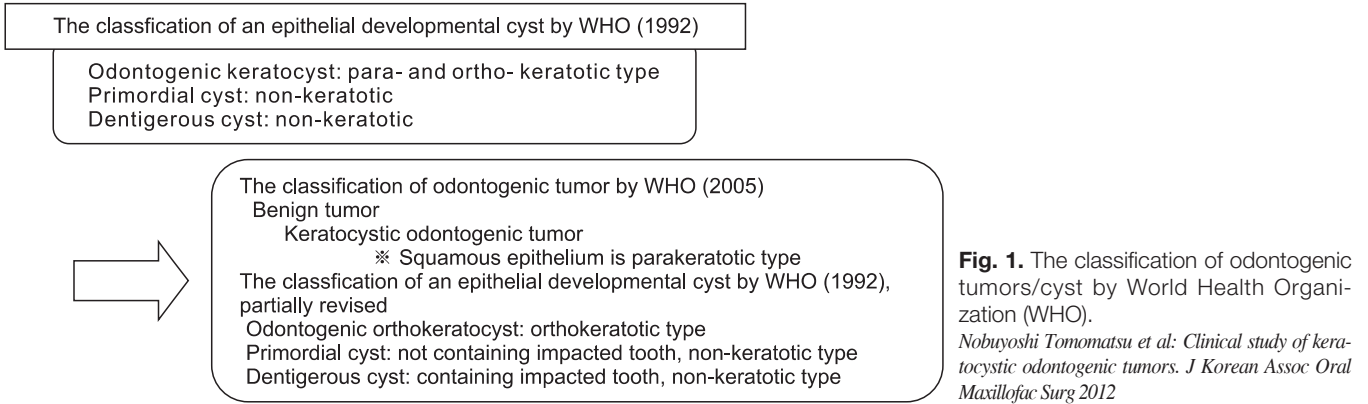


Fig. 2. The histopathological classifications of odontogenic tumors. A. Parakeratotic type. B. Orthokeratotic type. C. Non-keratotic type (×200, scale bar:100 μm).

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

을 초래하는 경우가 많았다²⁰. 그런데 이번 새로운 분류에는 치성상피성낭종의 조직 분류에 관한 언급은 없기 때문에 새로운 견해가 도출될 때까지 이전 1992년의 조직 분류를 적용기로 한다²¹. 애매한 종래의 치성각화낭종과 원시성낭종, 함치성낭종의 진단기준 분류에 이번 새로운 분류까지 더할 경우, 낭종상피가 착각화를 띠는 것은 각화낭성치성종양으로 분류되지만 그 외 정각화를 띠는 낭종과 단발성으로 각화 경향이 매우 경미한 낭종의 분류는 불분명해진다. 이에 본 연구에서는 아래의 기준에 준하여 분류하였다^{1,21}. (Figs. 1, 2) 치성각화낭종, 원시성낭종, 함치성낭종 중 착각화를 띠는 경우 각화낭성치성종양으로, 정각화인 경우는 치성정각화낭종으로, 단발성으로 각화 경향이 매우 경미하며 매복치를 포함하지 않는 경우는 원시성낭종, 매복치를 포함하는 것은 함치성낭종으로 분류하였다. 또한 착각화를 띠더라도 각화 경향이 경미한 경우는 원시성낭종, 함치성낭종으로 분류하였다. 각화 양식이 혼재하는 경우에는 보다 명확하게 나타나는 양식에 준하여 분류하였다.

치료 성적 및 재발에 대해서는 1년 이상 경과 관찰이 가능했던 120증례에 대해 검토하였다. 또한 같은 기간 내에 본 과에서 진단, 치료를 실시한 치성정각화낭종 17증례, 원시성낭종 230증례, 함치성낭종 523증례, 에나멜상피종 151증례의 대소비에 대해서도 일부 비교, 검토를 실시하였다. 전치부에서는 최대 지름이 4치아 이상, 구치부에서는 3치

아 이상의 병변을 대병변으로, 그보다 작은 병변을 소병변으로 분류하여 각 병변의 대소비(대병변/소병변)를 비교하였다. 통계학적 분석은 2 검정(Yates의 보정) 및 Fisher의 직접확률 검정을 이용하여 $P < 0.05$ 를 유의한 것으로 보았다.

III. 결 과

1. 발생빈도 (연령 · 성비 · 발생부위)

186증례의 초진 시 연령은 7세부터 85세까지 분포하고 있었고 평균연령은 32.7세였다. 연령별로는 20대 64증례(34.4%), 10대 35증례(18.8%), 30대 31증례(16.7%)의 순으로 나타났다. 성별은 남성이 93증례, 여성이 93증례로 차이가 없었다.(Table 1) 발생 부위는 상악 41증례, 하악 145증례로 하악 구치부로부터 하악지에 걸쳐 발생한 것이 111증례(59.7%)로 가장 많았다.(Table 2) 상악의 발생 부위는 대구치부가 많았다.

2. 임상소견 (증상 · X선 소견)

증상으로는 종창이 70증례(37.6%)로 가장 많았고, 동통 36증례(19.4%), 배농 18증례(9.7%), 위화감 8증례(4.3%), 개구장애 7증례(3.8%), 치아의 동요 1증례(0.5%)의 순서였다. 한편 무증상으로 X선 사진에서 발견된 것은 46증례(24.7%)였다.(Table 3) X선 소견은 단방성이 107증례

Table 1. The distribution of sex and age

Age	Sex		Total (%)
	Male	Female	
0-9	2	2	4 (2.2)
10-19	16	19	35 (18.8)
20-29	26	38	64 (34.4)
30-39	18	13	31 (16.7)
40-49	13	7	20 (10.8)
50-59	7	9	16 (8.6)
60-69	6	2	8 (4.3)
70-79	4	2	6 (3.2)
80-	1	1	2 (1.1)
Total	93	93	186 (100)

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

Table 3. Presenting symptoms

Symptom	Number (%)
Swelling	70 (37.6)
Pain	36 (19.4)
Drainage	18 (9.7)
Feeling of wrongness	8 (4.3)
Trismus	7 (3.8)
Tooth mobility	1 (0.5)
Asymptomatic (found incidentally by x-ray examination)	46 (24.7)
Total	186 (100)

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

Table 2. The distribution of location

	Molar~sinus	Premolar	Incisor and canine	Others (the range of lesion is more than two area)	Total
Maxilla	20 (10.8%)	6 (3.2%)	7 (3.8%)	8 (4.3%)	41 (22.0%)
Mandible	111 (59.7%)	8 (4.3%)	4 (2.2%)	22 (11.8%) Extending over both sides 8 (4.3%)	145 (78.0%)

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

(57.5%), 다방성이 62증례(33.3%)였다. 병변과 관련된 매복치의 존재 유무는 매복치가 있는 경우가 102증례(54.8%), 매복치가 없는 경우가 82증례(44.1%)였다.(Table 4)

3. 치료법과 치료성적

본 과에서 수술을 실시한 후, 1년 이상 경과 관찰을 실시한 120증례의 치료법, 치료 성적의 결과를 Table 5에 나타내었다. 상악의 경우 30증례 모두 적출 후 일차 폐쇄하였고,

Table 4. Radiographic findings

Tumor variant	Unilocular	Multilocular	Unknown	Total
Number	107 (57.5%)	62 (33.3%)	17 (9.1%)	186 (100%)
Impacted tooth	Containing	Non	Unknown	Total
Number	102 (54.8%)	82 (44.1%)	2 (1.1%)	186 (100%)

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

Table 5. Treatment results (recurrence/number)

	Maxilla	Mandible	Total
Enucleation with marsupialization	0/0 (0%)	14/83 (5/35) (16.9%)	14/83 (16.9%)
Enucleation (close)	4/30 [2/19] (13.3%)	1/3 (33.3%)	5/33 (15.2%)
Marginal ostectomy	-	0/4 (0%)	0/4 (0%)
Total	4/30 (13.3%)	15/90 (16.7%)	19/120 (15.8%)

Upper section- []: with radical operation of maxillary sinus, (): enucleation after marsupialization. Under section- recurrence rate.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

그중 19증례는 상악동 근치수술을 병행하였다. 하악은 90증례 중 83증례에 대해 적출 후 개방창의 술식을 사용하였다. 이러한 83증례 중 병변이 컸던 35증례에 대해서는 개창요법을 시행한 후에 적출하였다.(Fig. 3) 나머지 7증례 중 3증례는 적출 후 폐쇄창, 4증례는 악골변연 절제술을 시행하였다. 매복치의 경우, 맹출 가능한 것으로 판단되는 영구치는 보존을 원칙으로 하였고, 지치는 모두 발치하였다. 개창요법의 35증례 중 22증례(62.9%)에서 축소가 확인되었고, 13증례에서는 크기 변화를 볼 수 없었다.(Table 6)

상악 증례에서는 30증례 중 4증례에서 재발이 인정되었고, 하악 증례에서는 적출 후 개방창 술식의 경우 83증례 중 14증례(16.9%)에서, 적출 후 폐쇄창 술식의 경우 3증례 중 1증례에서 재발이 인정되었다. 변연 절제를 실시한 4증례에서는 재발이 인정되지 않았다. 전체 증례의 재발률은 120증례 중 19증례(15.8%)였다. 또한 개창요법과 재발과의 관계를 살펴본 결과, 개창요법을 시행한 35증례 중 5증례(14.3%)에서, 개창요법을 시행하지 않고 적출방법을 시행한 48증례 중 9증례(18.8%)에서 재발이 인정되었다. 개창요법의 실행이 적은 재발 경향을 보였지만, 통계학적으로 유의차는 인정되지 않았다($P=0.811$).

Table 6. The effect of marsupialization

	Number	Recurrence	Recurrence rate (%)
Enucleation after marsupialization	35	5	14.3
Effective*	22	3	13.6
Non-effective	13	2	15.4
Only enucleation	48	9	18.8
Total	83	14	16.9

*Effective case: after the marsupialization, lesion reduced.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

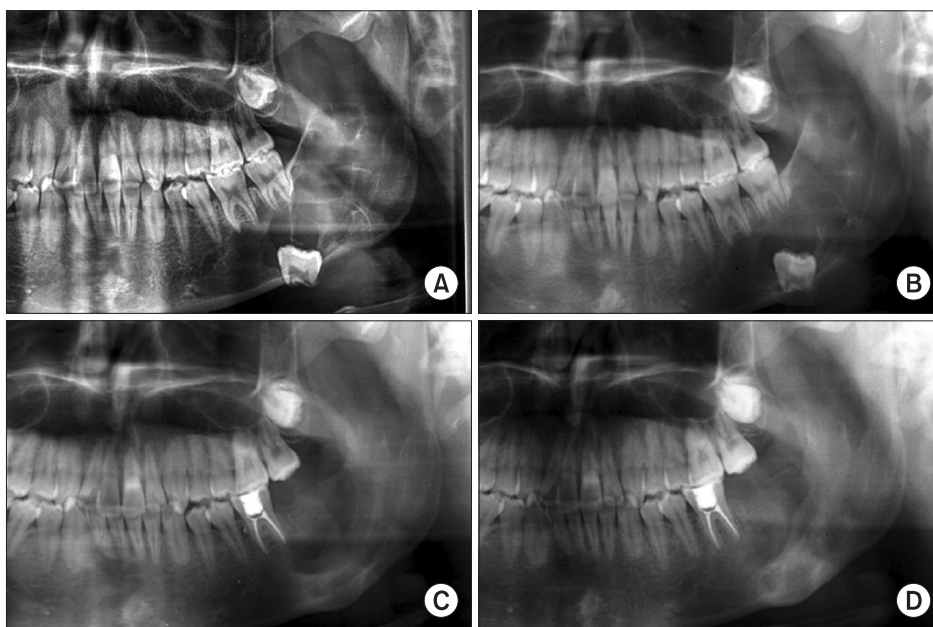


Fig. 3. A case that treated by enucleation after the marsupialization. A. First examination. B. 3 months after the marsupialization (before the enucleation). C. 6 months after the enucleation. D. 1 year after the enucleation.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

4. 재발 시의 증상 및 X선 소견 · 매복치 · 크기와 치료 성적

수술 후의 경과 관찰기간과 재발과의 관계를 Table 7에 나타내었다. 경과 관찰기간은 1년부터 17년까지로, 평균 3년 2개월이었다. 또한 재발까지의 기간은 1년 4개월부터 12년 11개월까지로, 평균 6년 5개월이었다. 재발 시 증상은

Table 7. The correlation between the follow-up period of 120 cases and recurrence

Follow-up period	Recurrence	Non-recurrence
~2 year	4	38
~3 year	3	24
~5 year	3	14
~8 year	5	18
~10 year	1	2
~15 year	3	4
15 year~		1
Total	19	101

120 cases: follow-up periods is more than 1 year.
Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

Table 8. Symptoms at the recurrence

Symptom	Number	Location of recurrence	Number
Swelling	4	In the jaw bone	18
Pain	2	Around the root tip The upper of ramus Other (in the bone)	7
Feeling of wrongness	2		4
Asymptomatic (found incidentally by x-ray examination)	11		7
		Soft tissue	1
Total	19	Total	19

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

종창 4증례, 동통 2증례, 위화감 2증례, 기타 11증례에 대해서는 증상 없이 경과 관찰 중에 X선 사진에서 발견된 것이 대부분이었다.(Table 8) 재발 부위는 19증례 중 18증례가 악골에서 재발하였으며, 그중 7증례가 낭종에 인접한 잔존치의 치근부에서(Fig. 4), 4증례가 하악지 상부에서 재발하였다.(Fig. 5) 연조직의 재발도 1증례 인정되었다.

X선 소견과 재발과의 관련에 대해 Table 9에 제시하였다. X선 소견에서 다방성을 띠는 증례에서는 43증례 중 11증례(25.6%)에서, 단방성의 경우 59증례 중 8증례(13.6%)에 재발이 인정되어 다방성 증례는 단방성 증례에 비해 재발의 예가 약간 많았지만 통계학적으로 차이는 인정되지 못했다($P=0.200$). 매복치와 재발과의 관계는 불분명한 2증례를 제외한 나머지를 검토하였다. 병변과 관계가 있는 매복치를 동반한 52증례에서는 7증례(13.5%)에서, 그 외 동반하지 않는 66증례에서는 12증례(18.2%)에서 재발이 인정

Table 9. The correlation between radiographic finding and recurrence

		Number	Recurrence	Recurrence rate (%)
Tumor variant ($P=0.200$)	Unilocular	59	8	13.6
	Multilocular	43	11	25.6
	Unknown	18	0	
Impacted tooth ($P=0.660$)	Containing	52	7	13.5
	No	66	12	18.2
	Known	2	0	
Size ($P=0.137$)	Large	69	14	20.3
	Small	51	5	9.8

Size: large size is more than 4 tooth in anterior area, or more than 3 tooth in posterior area.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

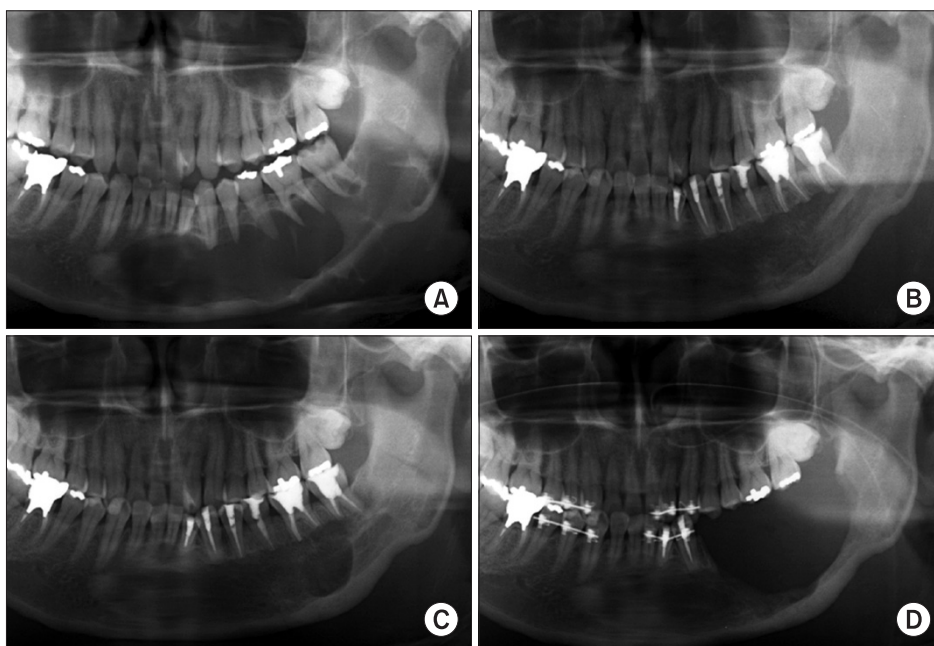


Fig. 4. The recurrence case 1 (the recurrence location is root tip of the tooth). A. First examination. B. After the enucleation. C. Recurrence (3 years and 8 months after the enucleation). D. Marginal osteotomy.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

되었지만, 매복치와 재발과의 관련은 통계학적으로 명확하지 않았다($P=0.660$). 또한 병변이 큰 증례(전치부에서는 4치 이상, 구치부에서는 3치 이상)와 그보다 작은 증례를 비

교한 결과, 큰 증례 69증례 중 14증례(20.3%)에서, 작은 증례 51증례 중 5증례(9.8%)에서 재발이 인정되어 통계학적 차이가 없기는 했지만 큰 증례에 재발이 많은 경향을 보였다($P=0.137$).

Table 10. The correlation between cystic tumor/cyst and size of lesion (25 years: 1981-2005)

	Number	Large	Small	Ratio
a: keratocystic odontogenic tumor	186	117	69	1.70
b: odontogenic orthokeratocyst	17	6	11	0.55
c: primordial cyst	230	77	153	0.50
d: dentigerous cyst	523	107	416	0.26
e: ameloblastoma	151	103	48	2.15

Ratio: large/small.

P-value: a-b: 0.049, a-c: 0.000, a-d: 0.000, b-e: 0.015, c-e: 0.000, d-e: 0.000.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

5. 각화낭성치성종양과 유사병변과의 비교

과거 25년간 본 과에서 진단, 치료를 실시한 각화낭성치성종양은 186증례, 치성정각화낭종은 17증례, 원시성낭종은 230증례, 함치성낭종은 523증례, 에나멜 상피종은 151증례로 그 대소비(대병변/소병변)를 비교하였다.(Table 10) 각화낭성치성종양의 대소비는 1.70, 치성정각화낭종은 0.55, 원시성낭종은 0.50, 함치성낭종은 0.26, 에나멜상피종은 2.15였다. 각화낭성치성종양과 에나멜상피종의 대소비는 치성정각화낭종, 원시성낭종, 함치성낭종의 대소비와

Table 11. The correlation between keratocystic odontogenic tumor and odontogenic orthokeratocyst

	Keratocystic odontogenic tumor (186)	Odontogenic orthokeratocyst (17)
Age/sex ($P=0.513, 0.418$)	Male : female=1 : 1 Average age: 32.7 peak: 10-30	Male : female=10 : 7 Average age: 36.5 peak: 20-30
Location ($P=0.347$)	Maxilla (22.0%), mandible (78.0%) molar~ramus (59.7%)	Maxilla (35.3%), mandible (64.7%)
Size ($P=0.049$)	Large : small=117 : 69	Large : small=6 : 11
Symptom ($P=0.137$)	Swelling (37.6%), pain (19.4%) Found incidentally by x-ray (24.7%)	Swelling (17.6%), pain (17.6%) Found incidentally by x-ray (41.2%)
Radiographic finding ($P=0.151, 0.053$)	Unilocular (57.5%), multilocular (33.3%) Impacted tooth (54.8%)	Unilocular (82.3%), multilocular (17.6%) Impacted tooth (70.6%)
Treatment	Maxilla: nucleation (close) Mandible: nucleation with marsupialization	Maxilla: nucleation (close) Mandible: nucleation with marsupialization
Recurrence rate ($P=0.164$)	19/120: 15.8%	0/17: 0%

P-value: between keratocystic odontogenic tumor and odontogenic orthokeratocyst.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

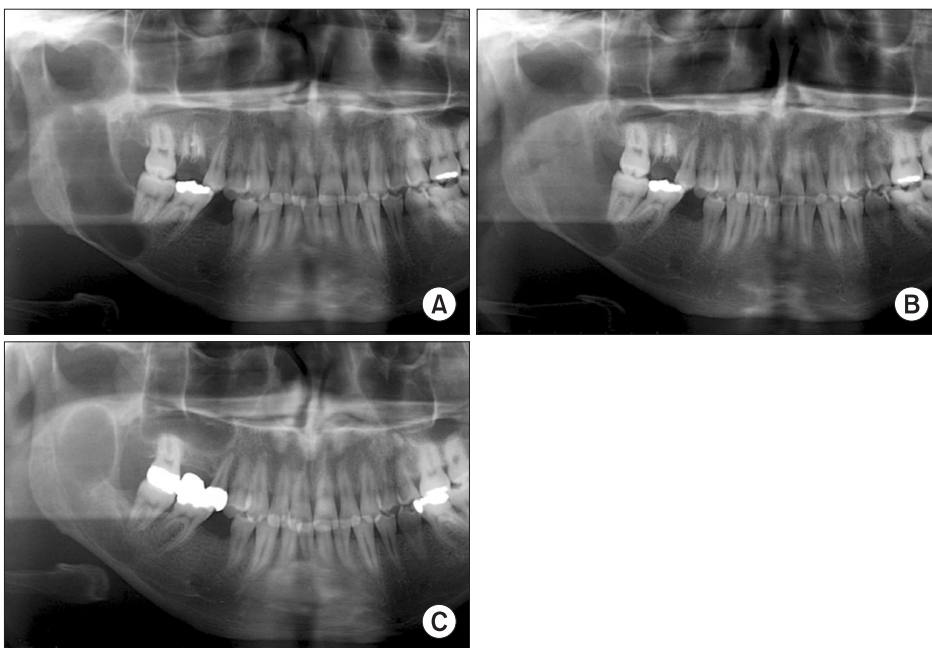


Fig. 5. The recurrence case 2 (the recurrence location is the upper of the ramous). A. First examination. B. 8 months after marsupialization, before the enucleation. C. Reccurence (3 years and 8 months after the enucleation).

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

비교 시 통계학적으로 의미가 있어 본 종양과 에나멜상피 종은 발견 시 치성정각화낭종, 원시성낭종, 함치성낭종에 비해 큰 병변이 많은 것을 알 수 있었다($P<0.05$).

또한 이번 분류를 통해 종래의 치성각화낭종은 각화낭성 치성종양과 치성정각화낭종으로 재분류되었다. 임상적 차이에 대해 검토한 결과를 Table 11에 제시하였다. 통계학적 검토 결과, P 값은 각각 성별 0.513, 연령 0.418, 발생 부위 0.347, X선 소견의 단방성의 비율 0.151, 매복치의 유무 0.053으로 통계학적 의미는 없었지만, 초진 시의 병변 크기에 대해서는 0.049로 유의하여 본 종양이 치성정각화낭종에 비해 발견 시 큰 증례가 많은 것을 알 수 있었다. 또한 재발률에 관해서는 P 값이 0.164로 의미가 없었다. 이는 각화낭성치성종양(120증례)과 비교 시 치성정각화낭종의 증례수가 17증례로 대단히 적기 때문에 통계학적 차이를 인정받지 못한 것으로 생각한다.

IV. 고 찰

2005년에 치성종양에 관한 WHO 조직 분류가 개정되어 종래의 치성각화낭종은 낭종외상상피가 착각화를 띠는 것은 각화낭성치성종양으로 분류되어 양성 종양의 하나로 다루지게 되었다¹. 지금까지 치성각화낭종의 재발에 관한 통계학적 검토는 다수 보고된 바 있고, 그 원인에 대해서도 다수의 견해가 피력되었다^{11,13,19,22}. 그러나 상피가 착각화를 띠는 각화낭성치성종양만을 다룬 연구보고는 그다지 많지 않다. 이러한 까닭에 과거 25년간 본 과에서 진단, 치료를 실시한 단발 증례의 낭종성 병변을 재검토하여 새로운 분류 기준에 준한 각화낭성치성종양에 대해 검토하였다.

1. 성차 · 연령

각화낭성치성종양을 포함한 종래의 치성각화낭종에 대한 보고를 살펴보면, 성차를 인정하지 않는 것²²⁻²⁴, 남성에게 약간 많다는 것^{3,4,13,18,22,23} 등이 있지만 각화낭성치성종양의 자체 실험증례에서는 전혀 성차가 인정되지 않았다. 연령의 경우, 종래의 치성각화낭종에서는 일반적으로 10-30대에 많은 것으로 알려져 있다. 자체 실험증례에서 연령 분포는 7세부터 85세까지 폭넓게 분포하여 다른 보고와 마찬가지로

지로 10-30대가 많았으며, 평균 32.7세였다.

2. 부위

지금까지 치성각화낭종은 하악, 특히 지치부에 호발하는 것으로 보고되었다^{3,11,18,19,22}. 각화낭성치성종양에 한정시킨 자체 실험증례에서도 186증례 중 145증례(78.0%)가 하악에서 발생하였고, 그중에서도 하악 대구치부로부터 하악 지부에 많았다. 상악 증례에서는 대구치부로부터 상악동에 걸친 부위가 많았다.

3. 임상증상

지금까지 치성각화낭종의 임상증상에는 감염 등으로 인한 이차적 증상도 포함되어 종창, 동통, 배농, 개구장애의 순으로 다수 인정된다고 보고된 반면, 무증상으로 증대하여 X선 검사에서 우연히 발견되는 증례도 적지 않다는 보고도 있다^{3,14,22}. 각화낭성치성종양에 한정시킨 자체 실험증례에서도 종창, 동통을 증상으로 하는 증례가 많았지만(합계 57.0%), 무증상으로 X선 검사를 통해 우연히 발견된 증례도 24.7%를 차지하였다.

4. X선 소견

지금까지 치성각화낭종의 X선 화상은 단방성이 비교적 많은 것으로 알려졌다(63-80%)^{11,18,19,22,23}. 각화낭성치성종양의 자체 실험증례에서도 단방성(57.5%)은 다방성(33.3%)에 비해 약간 많아 종래의 보고와 같은 경향을 보였다. 병변에 인접한 매복치는 종래의 치성각화낭종에서 49.5-56.3%가 인정되었다는 보고^{3,11,19,22,24}가 있었으며, 자체 실험증례에서도 54.8%로 종래의 치성각화낭종의 보고와 거의 일치하였다.

5. 재발

재발에 관해서는 이전부터 많은 보고가 있었다. 그러나 상피의 착각화 혹은 정각화의 구분없이 치성각화낭종으로 보고된 다수의 자료 중 각화낭성치성종양의 진단기준에

Table 12. The comparison of the treatment result of keratocystic odontogenic tumor

Report year	Reporter	Number	Recurrence	Recurrence rate (%)	Follow-up period
1988	Harada, et al.	11	5	45.5	-
1988	Hatake, et al.	9	3	33.3	More than 6 months
2000	Matuki, et al.	21	3	14.3	More than 6 months
2001	Hoon, et al.	132	77	58.3	More than 1 year
2007	This report	120	19	15.8	More than 1 year

The other reports were the treatment result of odontogenic keratocyst, but the author calculated as keratocystic odontogenic tumor.

Nobuyoshi Tomomatsu et al: Clinical study of keratocystic odontogenic tumors. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2012

합치되는 것만을 발췌하여 Table 12에 제시하였다^{4,8-17}. 자체 실험증례에서의 재발률은 15.8%로, 종래의 보고(14.3-58.3%)^{3,14,15,19}와 비교할 때 관찰기간이 상이하다는 전제하에 자체 실험증례의 재발률은 반드시 높은 수치는 아니었다. 또한, 치성정각화낭종 17증례에서 재발은 인정되지 않았다. 정각화를 띠는 치성정각화낭종의 재발은 0-2.2%라는 보고^{9,12,20}가 있으며, 자체 실험증례에서도 동일하였다.

재발 원인에 대해 이전의 보고에서는 병변의 일과 적출 곤란에 따른 상피조직의 잔존이 주된 재발의 요인으로 여겨져 왔다^{11,18,19}. 재발 부위는 鵜澤 등¹³이 보고한 것(치성정각화낭종)처럼 낭종에 인접한 잔존치의 치근부가 많았으며, 이번 검토에서도 19증례 중 7증례가 이에 해당되었다. 이로 인해 병변에 인접한 치아의 처리가 문제로 대두된다. 재발을 방지하는 관점에서 인접치를 발치해야 한다는 보고도 있지만, 새로운 논의를 필요로 한다²⁵. 또한 하악 구치부로부터 하악지 상부, 근돌기에 이르는 큰 병변의 경우 하악지 상부에 재발한 경우가 4증례 있었으며, 이는 적출하기 어려운 부위에 기인하는 것으로 생각한다.

X선 소견과 재발과의 관련에 대해 横林 등¹¹의 보고에 의하면 크기 그 자체에 차이는 없다고 한다. 그러나 자체 실험증례에서는 작은 병변의 증례(병변의 최대지름이 구치부에서는 3cm 미만, 전치부에서는 4cm 미만)의 재발이 9.8%인 것에 비해, 큰 병변의 증례에서는 20.3%의 재발률을 보였다. Forssell 등²⁶은 재발 증례의 70%가 X선 검사에서 최대지름 4cm 이상으로, 큰 병변이 재발률이 높다고 보고하였으며 자체 실험증례도 같은 결과였다. 또한, 매복치의 존재에 차이가 없다는 보고^{22,27}나 포함하지 않는 쪽이 재발률이 높은 경향이라는 보고²⁴도 있다. 자체 실험증례에서는 매복치를 포함하지 않는 쪽에 약간 많은 재발이 인정되었지만, 통계학적으로 유의차는 볼 수 없었다.

재발까지의 기간은 수술 후 5년 이내라는 보고^{3,11,24}가 많지만, 자체 실험증례에서는 재발 19증례 중 10증례는 5년 이내, 9증례는 5년을 넘겨 재발하였다. Brannon⁹의 보고와 마찬가지로 자체 실험증례에서도 8년을 넘겨 재발한 증례가 4증례 있어, 수술 후의 경과 관찰기간은 10년 이상이 바람직한 것으로 여겨진다.

본 과에서는 상악의 경우 적출 후 폐쇄창, 하악은 적출 후 개방창으로 치료하는 경우가 대부분으로, 적출 후 치료법에 따른 재발률의 차이는 인정되지 않았다. 큰 병변에 대한 개창요법의 35증례 중 축소 효과가 인정된 것은 22증례(62.9%)로, 하악하연이나 하악관 보존이 가능한 점에서 개창요법의 유용성에 대해서는 이후 상세한 검토가 필요할 것으로 생각한다. 또한, 하악골 구역절제술 및 하악골 변연절제술은 침습이 크지만 자체 실험증례에서도 대단히 낮은 재발 빈도를 보임으로써 큰 재발 병변의 경우에 적극적으로 적용할 만하다 하겠다.

6. 각화낭성치성종양과 유사병변과의 비교

X선 소견, 임상소견만으로 본 질환을 진단하는 것은 곤란하다. 이에 본 질환과 기타 낭종성질환, 에나멜상피종의 X선 사진상에서의 대소비를 조사한 결과, 각화낭성치성종양과 에나멜상피종은 병변의 최대지름이 큰 증례가 치성정각화낭종, 원시성낭종, 합치성낭종과 비교 시 유의차를 갖는 다수인 점을 확인하였다. 이 조건은 진단의 스크리닝으로서 유용할 것으로 생각한다.

본 검토에서 치성정각화낭종은 17증례로 소수이지만 재발 증례는 인정되지 않았으며, 원시성낭종과 합치성낭종을 합친 재발률은 0.3%로 대단히 낮았다. 이와 비교 시 각화낭성치성종양의 재발률은 15.8%로 확연히 높았다. 치료 전 생검을 통해 확정진단을 받을 것을 원하는 보고도 있어^{15,18,28}, 본 연구에서도 수술 전 생검을 거쳐 확정진단을 받은 각화낭성치성종양의 경우는 재발률이 높았기 때문에 근치성의 높은 치료를 실시할 필요가 있다. 즉, 병변에 근접한 치아의 발치, 보다 큰 개창의 실시, 병변 적출 후의 주위골 삭제 등을 적극적으로 시행하는 쪽이 바람직한 것으로 생각한다. 또한 에나멜상피종의 개창반복요법처럼 첫 번째 수술은 가급적 적출 후 개방창으로 하여 뼈의 회복을 기다린 다음 두 번째 수술에서 주위골과 함께 병변을 절제하는 술식도 검토할 필요가 있다고 여겨진다. 또한 술 후의 경과 관찰기간에 관해서도 재발률의 정도, 재발 시기의 관점에서 10년 이상의 경과 관찰은 필요하다고 하겠다.

한편 수술 전 생검을 통해 비각화성의 합치성낭종과 원시성낭종, 정각화성의 치성정각화낭종의 경우 인접치의 처리에서도 보다 보존가능한 방향으로 진행시켜 악골·치아를 가능한 한 온존시키는 치료로 충분히 치유될 가능성이 높으며, 이와 동시에 수술 후의 경과 관찰기간도 단축 가능할 것으로 생각하지만, 향후 증례수를 늘려 검토해 나갈 필요가 있다.

V. 결 어

과거 25년간 각화낭성치성종양으로 진단된 단발 증례 186증례에 대해 임상적 검토와 함께 유사 악골 병변과 비교한 결과 이하의 결론을 얻게 되었다.

1. 각화낭성치성종양에 대하여

- 1) 발생 빈도에 성차는 없었으며, 초진 시 연령은 10-30대가 많았다.
- 2) 부위는 상악 41증례, 하악 145증례였으며, 상악에서는 대구치부로부터 상악동에 걸쳐서, 하악에서는 대구치부로부터 하악지부가 많았다.

- 3) 증상으로는 종창(37.6%), 동통(19.4%) 등이 많았고, 무증상(X선 검사를 통해 우연히 발견하는 경우: 24.7%) 도 적지 않았다.
- 4) X선 소견으로는 단방성이 다방성에 비해 약간 많았다. 병변과 관련이 있는 매복치는 54.8%에서 인정되었다.
- 5) 치료법으로는 상악에서는 적출 후 폐쇄창, 하악에서는 적출 후 개방창으로 한 증례가 많았지만 치료 성적에 명확한 차이는 없었다.
- 6) 재발과 X선 소견으로서의 단방성·다방성, 매복치아의 유무, 크기에 관해서는 통계학적으로는 차이를 인정받지 못했다.
- 7) 수술 후 1년 이상의 관찰기간을 갖는 120증례에 대해 검토한 결과, 재발률은 15.8%였다. 재발까지의 기간은 1년 4개월로부터 12년 11개월로, 10년 이상의 경과관찰이 바람직하다고 생각한다.

2. 각화낭성치성종양과 유사병변과의 비교

- 1) X선 사진상에서의 대소비 비교에서 각화낭성치성종양과 에나멜상피종은 치성정각화낭포, 원시성낭종, 함치성낭종과 비교 시 큰 병변이 차지하는 비율이 의미있게 많았다.
- 2) 각화낭성치성종양(재발률: 15.8%)과 치성정각화낭종(재발률: 0.0%)의 재발률에 통계학적으로 의미있는 차이는 없었다. 이는 치성정각화낭종의 증례수가 적기 때문에 생각되며(17증례), 이후 증례수를 늘려 검토해 갈 필요가 있다.
- 3) 큰 낭종성병변의 경우, 생검에서 확정진단으로 표피가 착각화를 나타내는 각화낭성치성종양은 보다 근치성의 높은 수술방식을 택하는 것이 바람직하다고 생각한다.

References

1. Barnes L, Eveson JW, Reichart P. World Health Organization classification of tumours, pathology and genetics of tumours of the head and neck. Lyon: International Agency for Research on Cancer; 2005:306-7.
2. Philipsen HP. Keratocysts in the jaws. Tandlaegeblader 1956;60:963-80.
3. 原田昌和, 山元 学. 当科における過去18年間の歯原性角化嚢胞症例の検討. 日口外誌 1988;34:657-63.
4. Ahlfors E, Larsson A, Sjögren S. The odontogenic keratocyst: a benign cystic tumor? J Oral Maxillofac Surg 1984;42:10-9.
5. 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;38:219-26.
6. Shear M. The aggressive nature of the odontogenic keratocyst: is it a benign cystic neoplasm? Part 2. Proliferation and genetic studies. Oral Oncol 2002;38:323-31.
7. Gorlin RJ, Goltz RW. Multiple nevoid basal-cell epithelioma, jaw cysts and bifid rib. A syndrome. N Engl J Med 1960;262:908-12.
8. Pindborg JJ, Hansen J. Studies on odontogenic cyst epithelium. 2. clinical and roentgenologic aspects of odontogenic keratocysts. Acta Pathol Microbiol Scand 1963;58:283-94.
9. Brannon RB. The odontogenic keratocyst. A clinicopathologic study of 312 cases. Part I. Clinical features. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1976;42:54-72.
10. Brannon RB. The odontogenic keratocyst. A clinicopathologic study of 312 cases. Part II. Histologic features. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1977;43:233-55.
11. 横林敏夫, 横林康夫. 歯原性角化嚢胞の再発に関する検討. 日口外誌 1984;30:1338-47.
12. 岩淵博史, 矢郷 香. 歯原性角化嚢胞の角化のタイプによる臨床病理学的相違. 日口外誌 1996;42:170-5.
13. 鶴澤成一, 喜代崎郁子. 歯原性角化嚢胞に関する臨床的研究—再発に関する因子について—. 日口外誌 2003;49:93-8.
14. 松木謙直, 市原秀記. 歯原性角化嚢胞 29 症例の臨床病理学的検討. 日口外誌 2000;46:232-4.
15. 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 Oral Radiol Endod 2001;91:328-33.
16. Morgan TA, Burton CC, Qian F. A retrospective review of treatment of the odontogenic keratocyst. J Oral Maxillofac Surg 2005;63:635-9.
17. Chirapathomsakul D, Sastravaha P, Jansisanont P. A review of odontogenic keratocysts and the behavior of recurrences. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2006;101:5-9.
18. 飯野光喜, 松田耕策. 歯原性角化嚢胞 24 症例の臨床ならびに病理組織学的検討. 日口外誌 1989;35:964-73.
19. 畑毅, 細田 超. 歯原性角化嚢胞の臨床病理組織学的検討. 日口外誌 1988;34:470-84.
20. Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC. Odontogenic keratocysts: a clinical and histologic comparison of the parakeratin and orthokeratin variants. J Oral Maxillofac Surg 1992;50:22-6.
21. 武田泰典, 高田 隆. WHO による歯原性腫瘍の新たな組織分類とそれに関連する上皮性嚢胞について. 日口外誌 2006;52:54-61.
22. 重松久夫, 鈴木正二. 歯原性角化嚢胞の治療とその再発に関する臨床病理学的検討. 日口外誌 1998;44:303-10.
23. 永峰浩一郎, 江場光芳. 当講座における過去 11 年間の歯原性角化嚢胞症例の検討. 日口外誌 1991;37:1853-61.
24. Browne RM. The odontogenic keratocyst. Clinical aspects. Br Dent J 1970;128:225-31.
25. 榎本昭二, 岩佐俊昭. 原始性嚢胞 (Primordialcysts) の臨床的研究. 日口外誌 1977;23:121-8.
26. Forssell K, Sorvari TE, Oksala E. An analysis of the recurrence of odontogenic keratocysts. Proc Finn Dent Soc 1974;70:135-40.
27. Bataineh AB, al Qudah M. Treatment of mandibular odontogenic keratocysts. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1998;86:42-7.
28. Brøndum N, Jensen VJ. Recurrence of keratocysts and decompression treatment. A long-term follow-up of forty-four cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1991;72:265-9.