

출생 시 발생한 특발성 치은섬유종증

이호설 · 최형준 · 최병재 · 손흥규 · 이제호

연세대학교 치과대학 소아치과학교실 및 구강과학연구소

국문초록

치은섬유종증(Gingival fibromaosis)은 치은조직의 섬유성 증식을 나타내는 드문 구강질환이다. 원인은 명확히 규명되지 않았으나 상염색체 우성 또는 열성의 유전성이거나 특발성일 수 있다. 주로 영구치 맹출 시기에 나타나기 시작하나, 드물게 유치열기나 출생시부터 이환되는 경우도 있다. 치은은 서서히 증식하여 치아의 해부학적 치관부위를 덮거나 구개 변이를 일으켜 혀 운동장애를 야기하거나 입술 폐쇄를 방해하기도 한다.

이 증례의 환아는 14개월 된 여아로 출생 시부터 계속된 치은증식을 주소로 내원하였다. 특별한 가족력이나 의학적 병력은 없었고, 임상 유전검사 결과 알려진 어떤 증후군으로 진단되지 않았으나, 신체발달이 지연되어 있었다. 편치 생검을 하였으며, 조직검사명은 치은섬유종증이었다. 가족력이 없어 특발성 치은섬유종증으로 진단하였다. 환아의 연령 및 전신 상태를 고려해 치은 절제술 등의 외과적 치료는 연기하기로 하였다.

주요어 : 치은섬유종증, 치은비대, 특발성, 선천성

I. 서 론

치은비대(Gingival enlargement)는 결합조직의 축적과 증식을 특징으로 하는 치은의 과증식이며, 염증과 백혈병, 약물, 유전 등의 원인에 의해 발생할 수 있다^{1,2)}. 가장 흔한 형태는 전신적인 약물 투여에 의한 것이며, 항경련제인 Phenytoin과 면역억제제인 Cyclosporine, calcium channel-blocker인 Nifedifine 등이 치은비대를 야기하는 약물로 알려져 있다³⁾.

유전에 의해 나타나는 경우 유전성 치은섬유종증이라고 한다²⁾. 유전성 치은섬유종증은 상악과 하악 치은의 점진적인 증식을 특징으로 하는 비염증성, 비출혈성 양성병소로, 1856년 Gross에 의해 최초로 보고되었다^{4,5)}. 치은에만 영향을 주는 독립적인 질환으로 나타나거나 증후군이나 염색체 이상의 한 증상으로 나타나며, 상염색체 우성 또는 열성의 유전성이거나 특발성일 수 있으며, 남녀간 성차는 없다^{6,7)}. 치은섬유종증은 다모증, 간질이나 감각 신경성 청각 소실, 과잉치나 여러 종류의 증후군을 동반하여 나타날 수 있다^{2,8,9)}.

증식된 치은은 대개 분홍색이고 단단한 질감을 보이며 전반적이거나 국소적인 형태로 나타날 수 있다. 국소적인 치은섬유

종증은 대개 상악 결절이나 하악 대구치 주위의 순측 치은에 나타나고, 치은증식의 정도와 범위는 매우 다양하며, 증식된 치은이 교합면을 덮을 수도 있다⁷⁾. 치은비대가 직접 치조골에 영향을 주는 것은 아니지만 치은증식이 세균 치태 침착을 증가시키고, 구강 위생관리를 어렵게 해서 가성 치주낭과 치주질환, 골 흡수, 구취를 유발할 수 있다²⁾.

치조골 내에서 치아의 맹출은 정상적이지만, 증식이 치아 맹출 이전에 진행되면 치밀한 섬유성 조직이 맹출지연이나 치아의 변위 등을 일으킬 수 있다⁷⁾. 치은 병소와 관련된 가장 흔한 부작용은 정중 이개와 치아의 변위, 유치의 만기 잔존, 영구치의 맹출지연, 교차교합, 개방교합, 튀어나오거나 개방된 입술이다. 일반적으로 구치의 교합면을 덮어 저작 시 외상을 받기 전까지 동통은 없다¹⁰⁾.

치은증식은 대개 영구치의 맹출과 함께 시작하지만 유치의 맹출과 함께 발생하거나 드물게 출생 시에 존재할 수도 있다³⁾. 치은증식은 유치와 영구치의 맹출 동안 매우 빠르게 진행하며 맹출이 완료되면 감소한다⁴⁾. 성호르몬의 영향으로 사춘기에 치은증식이 빠르게 일어나나 이에 대한 기전은 알려져 있지 않다^{11,12)}.

교신저자 : 이 제 호

서울시 서대문구 신촌동 134 / 연세대학교 치과대학 소아치과학교실 / 02-2228-3173 / leejh@yumc.yonsei.ac.kr

원고접수일: 2008년 5월 29일 / 원고최종수정일: 2008년 9월 11일 / 원고채택일: 2008년 9월 20일

조직학적 특징은 적은 수의 섬유모세포와 여러 방향으로 뻗은 과량의 교원질 다발을 가지는 결합조직, 결합조직 사이로 길어진 상피돌기(reta peg)를 가지는 상피이다^{4,13)}. 조직 반응은 보통 약물과 관련된 것을 포함하는 다른 형태의 치은섬유증증과 구별되지 않고 비특이적이어서, 치은섬유증증의 확진은 가족력과 의과 및 치과 병력, 임상 증상에 의한다.

치료법은 다양한데 증식이 최소이면 구강 위생 술식만으로도 관리할 수 있지만, 심한 경우에는 생리적 치은 형태의 형성을 동반한 수술적인 절제가 필요하다. 병소의 범위가 넓은 경우에는 4-5개월 간격으로 2-3차례 치료해야 한다. 재발은 매우 다양하며, 성인보다 소아 청소년에서 호발한다고 알려져 있다⁹⁾.

이 증례는 특별한 의학적 병력이나 가족력 없이 나타난 선천적인 특발성 치은섬유증증이기에 이를 보고하는 바이다.

II. 증례 보고

14개월 여아가 치아 맹출 시기가 되었는데 나지 않고 치은이 많이 부었다는 주소로 내원하였다. 환아는 출생 시부터 입천장 쪽 치은이 부어있는 형태를 띄고 있었으며, K 대학병원에서 구개열로 진단 받았었다. 구개열의 수술을 위해 본원 성형외과에 내원하였으나, 성형외과에서는 구개열이 아닌 치은 과증식으로 진단을 내려 지켜보기로 하였으며, 소아치과 및 임상유전과로 의뢰하였다.

구강 외 검사에서 안면 변형은 나타나지 않았으나, 심각하게 증식된 치은 조직으로 인해 완전한 입술 폐쇄가 이루어지지 않

았다. 구강 내 검사에서는 상악과 하악에 걸쳐 전반적으로 증식된 치은 조직이 보였으며, 특히 구개측의 증식이 심해 깊은 열구를 보이고 있었다(Fig. 1). 증식된 조직은 분홍색이고 단단한 질감이었으며 하악 전치의 치관침만 맹출한 상태였다.

환아의 체중과 신장은 각각 8kg과 72.6cm으로 한국 아동 표준 성장곡선에서 3 percentile 이하였다. 환아의 활동성은 정상이었으나, 현재 잡고 서는 정도로 동일연령에 비해 지연된 운동능력을 보였다. 옅은 색상의 모발과 굵고 짧은 목이 특징적이었다. 복부 방사선 사진 검사 상 특별한 장기비대는 없었다. 염색체 검사 결과는 정상(46, XX, normal female karyotype)이었으며 알려진 어떤 증후군과의 연관성은 발견할 수 없었다.

환아의 임상 증상에 기초하여 특발성 치은섬유증증으로 가진 하에 펀치 생검(punch biopsy)을 이용해 순면의 치은을 절개 생검하였다. 조직 검사 결과에서 조직 시편은 과각화되고 길며 불규칙한 상피 돌기를 보이는 상피(Fig. 2)와 조밀한 섬유성의 결합조직(Fig. 3)의 증식을 보였으며, 치은섬유증증의 특징적인 조직 소견과 동일하였다.

치은섬유증증의 치료는 철저한 구강위생관리와 수술적 절제이다. 그러나, 환아의 연령과 전신 상태를 고려하여, 전반적인 외과적 술식은 연기하기로 결정하였다. 거즈 및 손가락 칫솔을 이용하여 칫솔질을 하도록 하였다. 향후 주기적인 검진 및 철저한 구강 위생관리를 시행하다가 치은 절제술을 시행할 예정이다. 치은 절제술의 시기는 유치열이 완성되는 만 3세 경으로 예상하고 있지만, 환아의 섭식장애가 심각한 경우, 조기에 시술하는 것도 고려하고 있다.



Fig. 1. Gingival enlargement on both arch and deformed palate.

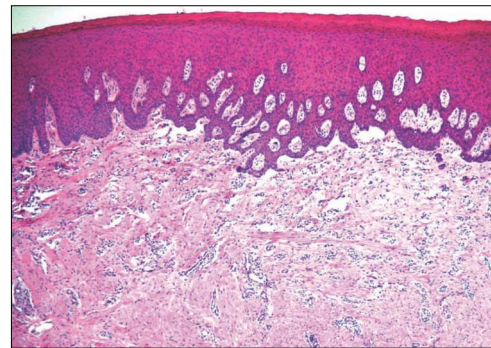


Fig. 2. Hyperkeratinized epithelium and elongated rete peg. (H-E stain, x 100)

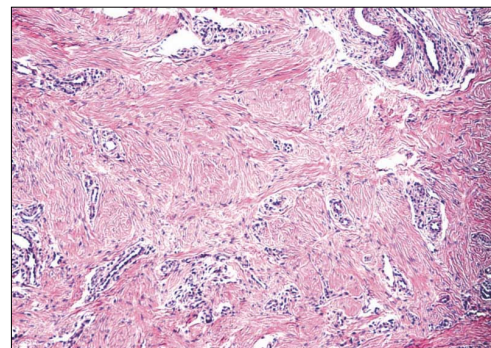


Fig. 3. Dense collagen bundle. (H-E stain, x100)

Ⅲ. 총괄 및 고찰

치은섬유종증은 질환의 특징적인 형태에 의해 congenital hypertrophy of gingiva와 elephantiasis gingivae, fibromatosis gingivae, gigantism of gingiva, symmetric fibroma of palate, congenital microgingivae로 불렸고¹⁾, 현재까지 이 질환을 나타내는 정확한 용어는 정립되지 않고 있다⁴⁾. 상염색체 우성 또는 열성의 유전성이나 특발성으로 나타날 수 있으나, 대개 가족력을 가지는 유전성이기 때문에 통상적으로 유전성 치은섬유종증이라고 한다. 그러나, Colletta와 Graner²⁾는 가족력 없이 새로운 돌연변이에 의해 생긴 경우 특발성 치은섬유종증이라고 정의하였다. 이 증례의 환아도 가족력이 없었기 때문에 특발성 치은섬유종증으로 진단하였다.

치은섬유종증은 치은비대만 독립적으로 나타나기도 하지만 다모증이나 정신지체, 간질, 청력상실, 성장지체, 두개 안면 기형 등과 같은 다른 임상증상과 연관된 증후군의 한 증상으로 발생할 수 있다. Wynne 등¹⁴⁾은 과잉치 및 청력상실과 연관되어 치은섬유종증이 발생한 증례를 보고하였다.

치은섬유종증과 감별이 필요한 질환으로는 구강과 악골의 연조직에 발생하는 진성 섬유종증이다. Sapp 등⁷⁾은 진성 섬유종증은 양성 섬유성 종양으로 분류되며, 젊은 환자의 두경부 연조직내에서 일어나는 섬유모세포와 성숙교원질의 양성 산재성 침윤성증식으로 신체 어디에서나 일어날 수 있으나 손바닥과 목의 측부에서 많이 발생하는 질환으로 정의하였다. 섬유종증의 병리조직 소견은 교원섬유를 동반하는 섬유모세포의 과세포성 증식이 특징이며, 세포과다가 현저하고 교원질 산물의 합성이 비교적 적게 나타난다. 반면, 치은섬유종증은 조직학적으로 미성숙 교원섬유를 동반하는 상대적으로 적은 수의 섬유모세포와 과도한 결합조직이 특징이다⁷⁾. 두 질환을 구분하는 데는 임상 검사 및 조직 검사가 필요하다.

치은이 비대되어 임상치관을 덮는 환자에게는 치은절제술이 적응증이다. 비록 조직이 창백하고 단단해 보일 지라도 외과적 술식은 과도한 출혈을 야기할 수 있어 사분악 치료가 추천된다¹¹⁾. 과거에는 재발성에 초점을 두어 모든 치아를 발거하고 치조골을 삭제하였으나, 점점 환자의 심미적이고 기능적, 심리적인 면이 중요시 되면서 치은에 국한된 보존적인 방법으로 치료한다. 1993년 이 등¹⁵⁾은 치은 절제술 후 전악 발치 후 총의치를 장착한 증례를 발표하였으나, 2003년 Clocheret 등¹⁶⁾은 15세 남환에서 치은 절제술 및 교정치료를 시행한 증례를 보고하였다.

치은을 절제하는 방법은 치은 성형술을 동반한 외사면 및 내사면 치은절제술이나 치근단 변위 판막술, 전기소작법, 이산화탄소 레이저 등이 있다. Mason과 Hopper¹⁷⁾는 이산화탄소 레이저를 이용해 사분악을 모두 한 번에 치료하였다. 이 술식은 시술 부위에 출혈 및 술 후 부종이 적고 시간이 단축되는 장점이 있다.

치은섬유종증의 재발은 예측하기 어렵지만, 성인들보다 어린 이와 심대에서 더 잘 일어나며, 치태침착이 있는 부위에서 더

빠르다. 생리적인 변연 치은의 외형을 형성하는 것이 재발을 방지하는 데 중요하다. 전문가 관리와 구강 위생 교육에 의해 양호한 구강위생이 유지될 때, 재발을 막거나 지연시킬 수 있다²⁾.

치은섬유종증 환자의 치료 방법에 대해서는 대부분 일치를 이루었지만, 치료 시기에 대해서는 논란이 있다. 치아가 맹출하는 동안은 재발 위험성이 높기 때문에 영구치가 모두 맹출한 다음이 최적기라고 하였으나, Gregory 등¹⁸⁾은 수술 시기의 결정에 있어서 환아의 심미적이고 심리적인 만족이 재발보다 더 중요하다고 언급하였다.

치은섬유종증의 정확한 병인은 알려져 있지 않다³⁾. 회귀성 때문에 임상 및 조직학적 관찰과 가계도 연구에 국한되어 왔다. 그러나, 1998년 Hart 등¹⁹⁾은 유전자 band 2p21에서 치은섬유종증 표현형에 대한 최초의 polymorphic marker를 밝혀내었다.

치은비대는 아동에서 유병율이 높은 질환이며, 환자의 정확한 진단과 치료를 위해 소아치과 의사와 치주과 의사가 중요한 역할을 한다. 연관된 질환을 배제하면, 대부분의 치은섬유종증은 단독으로 나타나며, 정상적인 생활이 가능하지만, 심미적인 치과관련 변이가 환자의 삶의 질을 심각하게 저하시킬 수 있고, 심리적인 장애를 초래할 수 있다. 치은섬유종증의 조기 진단은 적절한 치은 건강을 유지하고 영구치 맹출을 관찰하며 구강 기능과 심미성을 향상시키고 심리적인 영향을 줄이는 데 필요하다. 예측할 수 없는 재발의 위험 때문에 유전성 치은섬유종증이 있는 환자는 장기간의 추적 검사가 필요하다.

Ⅳ. 요 약

치은섬유종증은 치은조직의 섬유성 증식을 나타내는 드문 구강질환이다. 원인은 명확히 규명되지 않았으나 상염색체 우성 또는 열성의 유전성이거나 특발성일 수 있다. 주로 영구치 맹출 시기에 나타나기 시작하나, 드물게 유치열기나 출생 시부터 이환되는 경우도 있다. 치은은 서서히 증식하여 치아의 해부학적 치관부위를 덮거나 구개 변이를 일으켜 혀 운동장애를 야기하거나 입술 폐쇄를 방해하기도 한다.

이 증례의 환아는 14개월 된 여아로 출생 시부터 계속된 치은증식을 주소로 내원하였다. 특별한 가족력이나 의학적 병력은 없었고, 임상 유전검사 결과 알려진 어떤 증후군으로 진단되지 않았으나, 신체 발달이 지연되어 있었다. 편치 생검을 하였으며, 조직검사명은 치은섬유종증이었다. 가족력이 없어 특발성 치은섬유종증으로 진단하였다. 환아의 연령 및 전신 상태를 고려해 치은 절제술 등의 외과적 치료는 연기하기로 하였다.

참고문헌

1. Takagi M, Yamamoto H, Mege H, et al. : Heterogeneity in the gingival fibromatoses. *Cancer*, 68:2202-2212, 1991.
2. Colletta RD, Graner E : Hereditary gingival fibro-

- matosis: A systemic Review. *J Periodontol*, 77: 753-764, 2006.
3. Dongari-Bagtzoglow A : Drug-associated gingival enlargement. *J Periodontol*, 75: 1424-1431, 2004.
 4. Bozzo L, Machado MA, de Ameidá OP, et al. : Hereditary gingival fibromatosis: report of three cases. *J Clin Pediatr Dent*, 25: 41-46, 2000.
 5. Gross SD : Case of hypertrophy of gums. Louisville review, 1232, 1856.
 6. Kelekis-Cholakís A, Wilishire WA, Birek C : Treatment and long-term follow-up of a patient with hereditary gingival fibromatosis: a case report. *J CanDent Assoc*, 68: 290-294, 2002.
 7. Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP : 최신구강악안면 병리학 2nd. 대한 구강악안면 병리학회 역, 서울, 대한나래출판사, 304-307, 2005.
 8. Gorlin RJ, Cohen MM, Levin LS : Syndromes of the head and neck, 3rd ed. Oxford, Oxford University Press; 1992.
 9. Hartsfield JK, Bixler D, Hazen RH : Gingival fibromatosis with sensorineural hearing loss : an autosomal dominant trait. *Am J Med Genet*, 22: 623-627, 1985.
 10. McDonald, Avery, Dean : Dentistry for the child and adolescent 8th ed. Mosby, st. Louis, Missouri, 426, 2004.
 11. Genovese WJ, Cerri A, Bordini PJ, et al. : Idiopathic gingival fibromatosis. Report of a case(in Portuguese). *Rev Odontol Univ Sao Paulo*, 1:56-60, 1987.
 12. Soory M : Hormone mediation of immune responses in the progression of diabetes, rheumatoid arthritis and periodontal diseases. *J Clin Periodontol*, 30: 556-561, 2003.
 13. Araujo CS, Graner E, Almeida OP, et al. : Histomorphometric characteristics and expression of epidermal growth factor and its receptor by epithelial cells of normal gingival and hereditary gingival fibromatosis. *J Periodontol Res*, 38: 237-241, 2003.
 14. Wynne SE, Aldred MJ, Bartold PM: Hereditary gingival fibromatosis associated with hearing loss and supernumerary teeth a new syndrome. *J Periodontol*, 66 : 75-79, 1995.
 15. 이용호, 문선혜, 서혜경 등 : 치은섬유증의 치험 1례. *대한구강악안면학회지*, 19: 37-43, 1993.
 16. Clocheret K, Degeyser C, Carels C, et al. : Idiopathic gingival hyperplasia and orthodontic treatment: a case report. *J Orthod*, 30: 13-19, 2003.
 17. Mason C, Hopper C : The use of CO₂ laser in the treatment of gingival fibromatosis: a case report. *Int J Paediatr Dent*, 4: 105-109, 1994.
 18. Gregory MH, Jon GF, Bruce FB, et al. : Gingival fibromatosis with hypertrichosis. *J Periodontol*, 56: 344-347, 1985.
 19. Hart TC, Pallos D, Bowden DW, et al. : Genetic linkage of hereditary gingival fibromatosis to chromosome 2p21. *Am J Hum Genet*, 62: 876-883, 1998.
 20. 한효정, 최병재, 김진 등 : 혼합 치열기 어린이의 치은섬유증. *대한소아치과학회지*, 31: 696-700, 2004.
 21. 백병주 : Gingival hyperplasia(enlargement, overgrowth). *대한소아치과학회지*, 33: 329-335, 2006.
 22. Fletcher J : Gingival abnormalities of genetic origin: A preliminary communication with special reference to hereditary generalized gingival fibromatosis. *J Dent Res*, 45: 597-612, 1966.

Abstract

IDIOPATHIC GINGIVAL FIBROMATOSIS AT BIRTH

Hyo-Seol Lee, Hyung-Jun Choi, Byung-Jai Choi, Hyung-Kyu Sohn, Jae-Ho Lee

Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry and Oral Science Research Center, Yonsei University

Gingival fibromatosis is a rare condition characterized by varying degrees of gingival hyperplasia. Gingival fibromatosis usually occurs as an isolated disorder or can be associated with a variety of other syndromes. It usually appears at the time of eruption of permanent dentition but, can develop at the time of eruption of the primary dentition and rarely at birth. It may deform palatal contour and subsequently restrict the tongue movement, resulting in interference during speech and mastication. In addition, it incapacitates maintenance of normal lip closure.

A 14-month-old girl visited the department of pediatric dentistry, Yonsei University Dental Hospital, for the congenital gingival overgrowth. There was no one in the family, who showed similar pattern of gingival growth. The intraoral clinical examination revealed generalized severe gingival enlargement throughout the maxillary and the mandibular arches. Enlarged gingival tissue was pink and had firm consistency. She was referred for chromosomal analysis, which confirmed absence of any known syndrome. Under local anesthesia, "Punch-biopsy" was performed on the labial area, and the specimen was histologically diagnosed as gingival fibromatosis. For she did not have any medical problem nor familiar history, she was diagnosed as having idiopathic gingival fibromatosis. Regarding her age and behavior, close follow-up was decided.

Key words : Gingival fibromatosis, Gingival enlargement, Idiopathic, Congenital