

담도폐쇄증 환자의 내인성 착색치아에 대한 증례보고

이창희 · 이상대 · 김영재 · 김정옥 · 한세현 · 이상훈

서울대학교 치과대학 소아치과학교실 및 치학연구소

국문초록

담도폐쇄증은 간장의 담관의 부분적이거나 완전한 파괴 또는 부재로 인한 담즙흐름의 완전한 폐쇄로 정의된다. 이 질환은 대략 10,000명당 1명 정도 비율로 발생하며 여성에서 약간 높은 빈도를 보인다. 원인인자는 명확히 밝혀지지 않았으며 증상은 과빌리루빈혈증과 함께 황달, 점토색변, 지방설사, 어두운 갈색뇨, 간비대 등을 보인다. 최근의 담도폐쇄증의 치료는 간문장문합술 단독 혹은 간이식술을 병행하는 경향이다.

본 증례의 환자에서는 다양한 정도의 치아변색을 보였으며 색상은 노란색에서부터 짙은 초록색까지 다양했다. 법랑질의 저형성증이 모든 치아에 나타났고 구강위생이 좋지 않았으며 다발성 우식증을 가지고 있었다.

주요어 : 담도폐쇄증, 치아변색, 법랑질 저형성증, 다발성 우식증

I. 서론

담도폐쇄증은 간장의 담관의 부분적이거나 완전한 파괴 또는 부재로 인한 담즙흐름의 완전한 폐쇄로 정의된다¹⁾. 이 질환은 1828년 Donop이 처음 보고하였으며 1891년 Thomson이 이를 특유한 질환으로 정의하였다¹⁾. 이 질환의 경우 간장의 담관은 관의 계속적인 파괴를 일으키는 염증의 여러 단계를 보인다. 만성적인 염증으로 반흔적 육아조직이 형성되어 관의 완전한 파괴를 보인다. 담즙분비정지, 간세포대의 뒤틀림, 거대세포의 변형, 간세포의 괴사, 소엽내의 섬유증 등이 발견된다. 1916년 Holmes가 담도폐쇄증을 수정형(correctable type)과 비수정형(uncorrectable type)으로 분류하였고 1928년 Ladd는 담도폐쇄증의 수정형의 수술치료를 시행했으며²⁾ 1959년 Kasai Suzuki는 담도폐쇄증의 비수정형의 수술치료인 간문장문합술을 시행했다^{2,3)}. 1963년 Starzl 등은 간이식술을 시행하였으며 최근의 담도폐쇄증은 간문장문합술과 간이식술의 병행을 최고의 치료로 보고 있다³⁾.

이 질환은 대략 10,000명당 1명 정도 비율로 발생하며 인종적 차이나 유전적 인자가 관계되지 않는 것으로 보인다. 여성에서 약간 높은 빈도를 보이며 다비증 증후군과 선천적 심장질환을 동반하는 경우가 많다. 원인인자는 명확하지 않으며 여러 가지 이론이 존재한다. 바이러스 감염, 혈액수여의 재난, 비정상적 담즙대사, pancreaticobiliary maljunction, ductal plate deformity 등이 원인으로 여겨진다³⁾.

일차적으로 나타나는 증상은 과빌리루빈혈증과 함께 황달, 점토색변, 지방설사, 어두운 갈색뇨 등이며 간비대가 진행되면 비장비대가 나타나기도 한다. 출생 후 몇 달은 정상성장과 발달을 보이거나 점차적으로 빈혈, 영양장애, 성장지연, 심혈관계 이상과 호흡기 이상을 보인다. 출혈질환체질과 소양감을 보이기도 한다³⁾. 예후는 극도로 좋지 않아 치료하지 않는 경우 3년에서 5년사이 생존하는 것으로 보고된다⁶⁾.

본 증례는 본과에 내원한 4명의 담도폐쇄증 환자에서 특별한 치과적 소견을 보이지 않으므로 이를 관찰하여 보고하는 바이다.

II. 증례보고

1. 증례 1

3세 5개월의 여자아이로 다발성 치아우식과 치아색 이상을 주소로 내원했다. 1세 7개월경 간이식술을 받았고 내원시 면역

교신저자 : 이상훈

서울특별시 종로구 연건동 28-1
서울대학교 치과대학 소아치과학교실
Tel : 02-760-3819
E-mail : musso@snu.ac.kr

억제제를 복용중이었다. 상악전치부와 구치부, 하악구치부에 전반적인 치아우식소견을 보였고 치근단 방사선상 상악 우측중절치 치근단 하방의 병적 소견을 보였다. 그리고 전반적으로 치아색이 푸른색 변색을 보였다(Fig. 1). 전치보다 견치와 구치부에, 절단면보다는 치경부와 교합면에 더 짙은 변색을 보였다. 방사선 사진에서 치수강과 치근관이 확대된 소견을 보였다(Fig. 2). 예방적 항생제를 복용시킨 후 보존치료를 시행하였으며 상악 우측중절치는 발치하였다. 발치한 치아의 치근은 2단계의 변색을 보였는데 치근단 부위는 정상 치아색을 보였고 중간부위는 옅은 초록색을, 치경부는 갈색빛을 띄었다(Fig. 3).

2. 증례 2

2세 1개월의 여자아이로 치아우식과 치아변색을 주소로 내원했다. 1세 3개월경에 간식술을 받았고 내원시 면역억제제를 복용중이었다. 상,하악 구치부의 우식소견과 전치부의 탈회소견을 보였다(Fig. 4). 치아는 치경부에 옅은 정도의 푸른색 변색을 보였다. 예방적 항생제를 복용시킨 후 진정요법하에 보존치료를 시행했다.

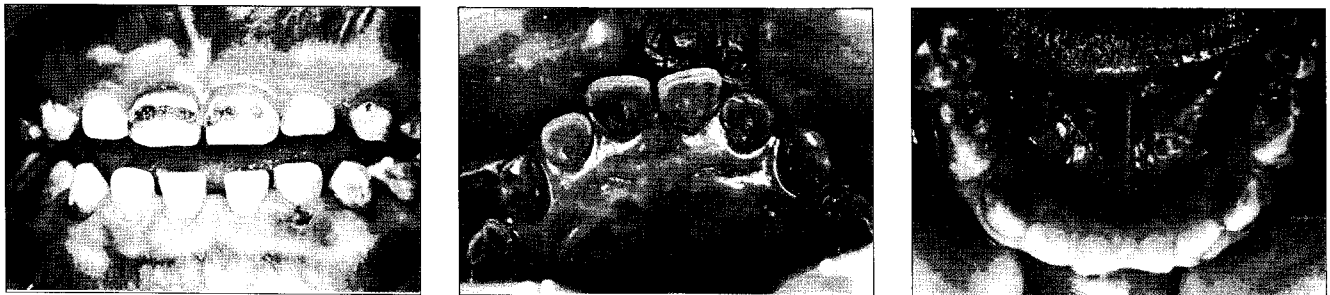


Fig. 1. Initial photographs of case 1.

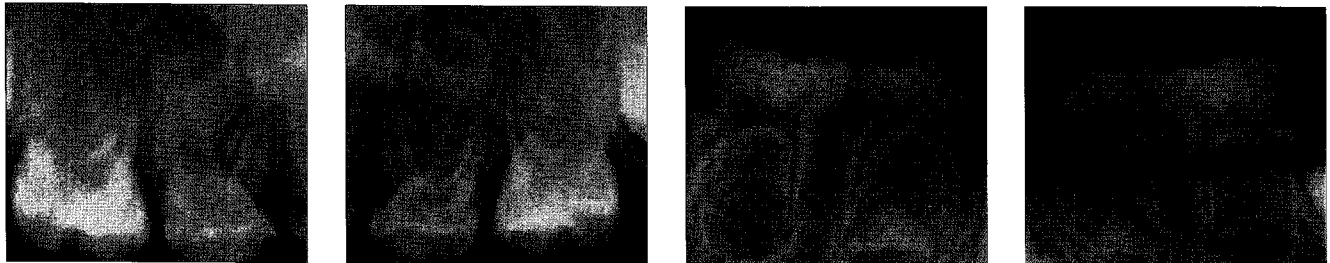


Fig. 2. Initial periapical views of case 1.

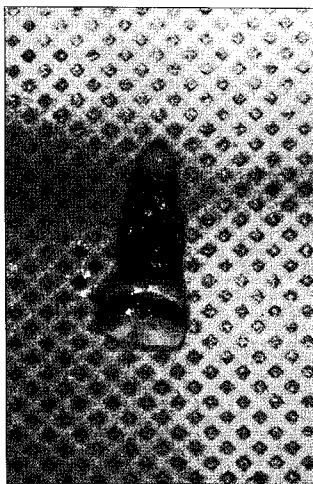


Fig. 3. Photograph of extracted tooth of case 1.

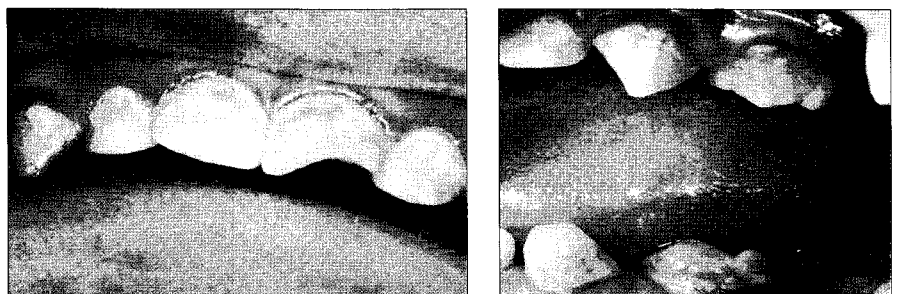


Fig. 4. Initial photographs of case 2.

3. 증례 3

2세 6개월 여자아이로 선천성 간염(congenital hepatitis)을 동반한 담도폐쇄증으로 2개월 후 간이식술 예정으로 구강검진을 위해 소아과에서 의뢰되었다. 미맹출한 제2유구치를 제외한 모든 치아가 우식소견을 보였으며 푸른색 치아변색도 보였다. 혈액수혈을 받고 전신마취하에 보존치료를 시행했고 상악 4전치와 상,하악 제1유구치는 수복이 가능하지 않아 모두 발치했다. 발치 후 지혈이 정상적으로 이루어지지 않아 surgical packing을 실시했다. 발치한 치아 모두 치근의 질은 푸른색을

보였다(Fig. 5). 후에 맹출한 제2유구치의 교합면도 푸른색 변색을 보였다(Fig. 6).

4. 증례 4

1세 10개월의 남자아이로 간이식술 예정으로 구강검진을 위해 소아과에서 의뢰되었다. 상하악 치아에 전반적인 우식소견과 푸른색 변색을 보였다. 예방적 항생제를 복용시킨 후에 보존치료를 시행하였다. 4세 6개월경 내원시 사진에서 치아의 치경부에 전반적인 옅은 푸른색을 보였다(Fig. 7).

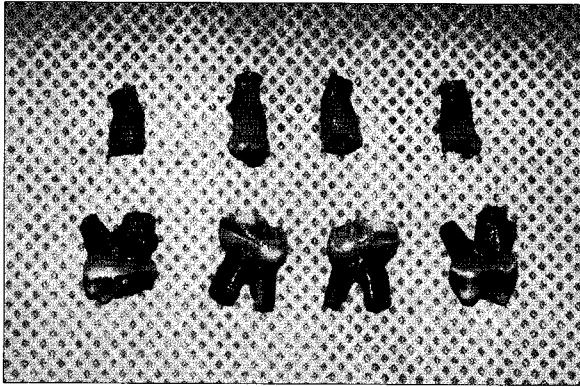


Fig. 5. Photograph of extracted teeth of case 3.

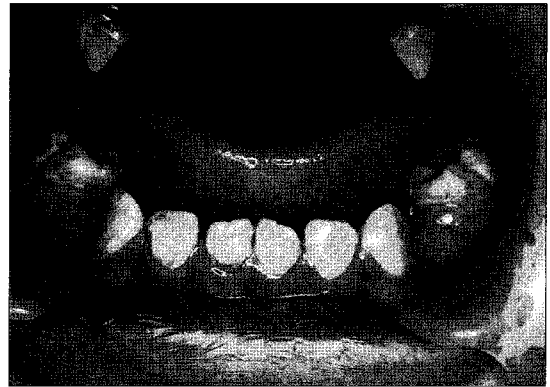


Fig. 6. Photograph 10 months after treatment of case 3.

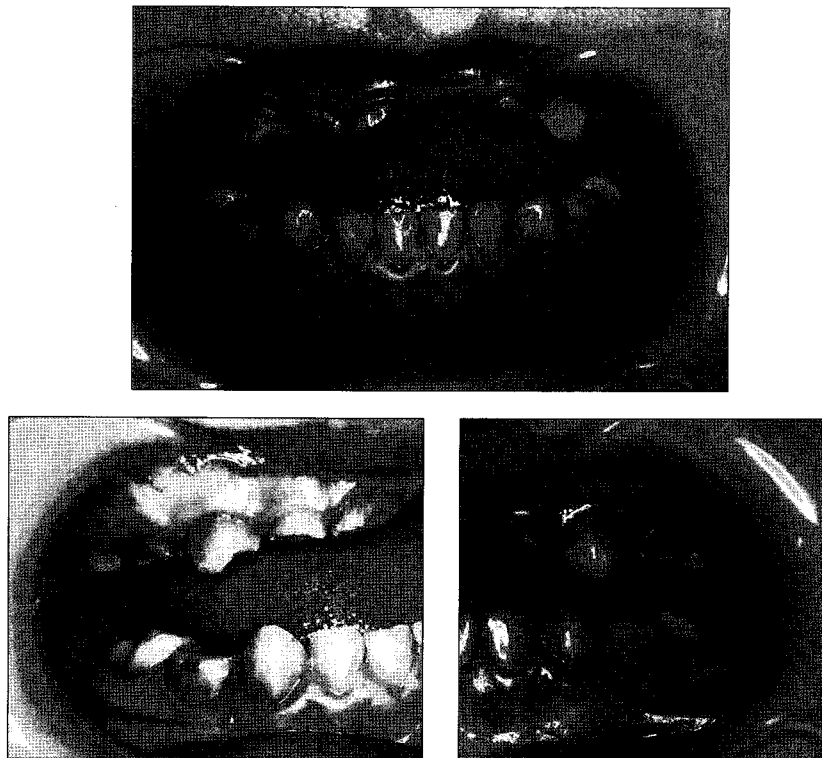


Fig. 7. Photograph 2 years 9 months after treatment of case 4.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

담도폐쇄증을 가진 4명의 환자에서 치아변색을 보였다. 변색은 과빌리루빈혈증의 기간과 관계있으며 대부분의 환자는 유치열에 국한되어 나타난다. 색상은 빌리루빈(bilirubin)의 분해산물인 빌리버딘(biliverdin)과 관계있으며 색상은 노란색에서부터 짙은 초록색까지 다양하다⁴⁻¹⁰. 과빌리루빈혈증의 치료 후에 형성된 치아구조의 색상은 정상이다. 치아는 빌리루빈의 수치가 정상일 때 형성된 치아의 정상색상 부분과 과빌리루빈혈증 기간동안 형성된 초록색 부위는 명확한 선으로 구분된다^{4-6,10}. 증례 1에서 발치한 치아에서 보면 치근단부의 정상

색상부위는 변색부위와 명확한 선으로 구분된다. 변색은 내재적이며 상아질에 빌리버딘이 침투한 결과 법랑질을 통해 초록색으로 보인다⁷. Shapiro 등⁷은 치아의 변색이 법랑질이나 상아질의 형성부전과는 관계없으며 상아질이 법랑질보다 빌리버딘으로 인한 변색에 더 민감하다는 보고를 했다^{7,8}. 유치열은 태아기동안 영향을 받는데 색소침착은 발달중인 치아와 빌리루빈이 풍부한 혈액공급의 상호작용의 결과로 일어난다. 색소침착의 정도는 빌리루빈의 혈장농도에 비례한다¹⁰.

Morisaki 등⁴의 연구에서는 치아의 변색의 정도와 병의 심각성의 상관관계를 나타냈으며 유치열과 영구치열 모두 다양한 정도의 변색을 나타냈다. 탈회된 절단면을 통한 조직학적 검사에서 담즙색소는 탈회된 절단면에서 명확하지 않았으며 과빌리루빈혈증에서 나타나는 구간상아질(Interglobular dentin)은 관찰되지 않았다⁴. Seow 등⁵의 연구에서 발치한 치아의 치근도 변색되었는데 간이식 후에 형성된 부위는 정상색상을 보였다. 조직학적 검사결과 탈회되지 않은 치아의 절단된 면에서 상아질내에 짙게 염색된 선(band)이 관찰되었다. 이 선은 간이식술 전과 후에 형성된 부위를 구분짓는 부분이다. 상아세관의 수와 분포도 변화를 보였는데 간이식술 전에 형성된 상아질은 상아세관의 수도 많고 불규칙하게 분포되어 있는 반면 간이식술 후에 형성된 것은 수도 적고 규칙적인 분포를 보였다⁹. 4명의 환자들에서 초록색 변색은 전치열에서 나타났으며 변색의 정도는 환자마다, 부위마다 차이를 보였다. 모든 환자에서 치경부가 가장 두드러진 변색을 보였으며 발치한 치아의 치근도 변색을 보였다. 그리고 1명의 환자에서 발치한 치아에서는 치근단만 정상색상을 보여서 간이식술 후에 형성된 부분으로 추정되었다.

법랑질 저형성증은 유치열에 전반적으로 나타나며 영구절치와 제 1대구치에 나타나기도 한다. 상아질 저형성증이 나타나기도 한다⁹. 이는 신생아기에 전신적 건강이나 영양문제의 병력을 가진 아동에서 나타난다⁴. 과빌리루빈혈증과 지용성 비타민 A와 D의 흡수장애의 대사이상에 의해서 발달하는 법랑질과 상아질의 유기기질의 변화에 의해 생긴 결함으로 여겨진다^{4,5,7}. 증례의 환자들에서도 전치열에 걸친 법랑질의 결함을 보인다. 방사선사진에서 확대된 치수강과 치근관을 보이기도 했다.

다발성 치아우식증은 대부분의 환자에서 나타난다⁴⁻¹⁰. 지용성비타민의 결핍으로 환자의 치아 경조직의 발달과 석회화가 영향을 받아 치아우식에 이환되기 쉬운 경향이 있다는 보고도 있으나 나쁜 구강위생 혹은 오랫동안 우유병 수유로 인한 것이다⁴. 본 증례의 4명 환자도 처음 내원시 모두 다발성 치아우식증을 가지고 있었으나 보존치료를 받은 후 지속적인 내원과 구강위생의 개선이 이루어진 후 우식은 발생하지 않거나 빈도가 낮아졌다.

성장과 발달의 지연으로 맹출지연이 관찰되기도 하나⁵ 증례의 환자들은 어렸을 때 간 이식술 치료를 받은 결과 치과적 발달의 지연을 보이지는 않았다. 변연치은염이 면역억제제 복용으로 자주 발생한다고 하였으나 증례의 환자들에서 간이식술 후 내원하거나 재내원 했을 때 면역억제제를 복용중임에도 치주상태는 양호한 편이었다. 이는 약제의 차이와 함께 변연치은염이 나쁜 구강위생의 결과로 발생하는 것으로 여겨진다.

이들 환자의 치과치료시 고려할 사항은 감염의 구강내 요소는 제거해야 한다. 면역계의 억제는 구강감염의 심각한 전신적 확산을 일으킬 가능성이 있다. 유치열의 치수치료는 만성적인 감염의 원인으로 간주되기 때문에 고려하지 않고 발치해야 한다^{5,7}. 발치가 불가능한 상황에서 formocresol을 사용한 치수절단술을 실시한 경우 임상적으로 성공률은 좋다. 하지만 formocresol의 여러 가지 잠재적인 문제는 동물실험에서 formocresol이 전신적으로 흡수되어 간과 다른 조직의 초기세포손상을 야기할 수 있다는 것이다. 치료된 치아는 불완전한 치근단공을 가지므로 사용된 formocresol이 치근단공을 통해 전신적으로 흡수될 가능성이 있다. Cyclosporine A를 복용중인 환아에서 formocresol이 사용될 경우 간조직을 더욱 악화시킬 가능성이 높다. 조직학적으로 formocresol은 치수에 만성적 염증반응, 병적인 변화를 일으킨다. 면역계가 억제된 환자에게는 생명을 위협하는 감염감수성을 높인다. 치수치료 후 기성금속관수복을 할 경우 관변연에 치태를 모을 가능성으로 치은염증을 증가시키며 구강위생이 나쁜 경우 더 악화된다¹⁰. 식이상당과 개선된 구강위생을 통한 새로운 질환의 예방과 치아우식증의 수복을 가능한 한 빨리 해야 한다. 고농도의 불소용액의 주기적인 사용은 추천되지 않는다. 치주질환의 예방은 좋은 구강위생과 전문적인 예방으로 이루어져야한다⁵.

감염에 대한 증가되는 감수성은 수술적 치과치료에 대한 예방적 항생제를 필요로 하게 된다⁵.

담도폐쇄증환자는 출혈성 체질을 가진다. 프로트롬빈과 응고인자, 비타민의 부적절한 수준으로 인한 것이며 혈소판수는 비기능향진증으로 감소된다. 국소마취는 주의를 기울여야 하며 전달마취는 출혈가능성으로 금기사항이다. 발치는 혈소판수와 PT(prothrombin time)가 정상일 때만 가능하며 발치시 출혈이 계속되면 도포성지혈제로 압력을 가해서 압박을 가한다. 치과수술시 신선냉동혈장과 비타민 K의 정맥투입이 필요한 경우도 있다⁷. 간에서 대사되는 약제는 금기이므로 전신마취시 흡입마취제는 Isoflurane이 추천된다.

간이식후 면역억제치료를 받는 환자에서 모든 치과 치료는 치성기원의 균혈증을 예방하고 조절하는데 초점을 둔다. 치과 치료는 예방적으로 확대하여 치료해야하며 의심스러운 혹은 연조직 구멍(soft tissue pocket)을 형성하는 잠재성 치아는 발치해야 한다¹⁰⁾.

증례의 3명의 환자들은 치과치료시 혈소판수와 지혈기능이 정상일 때 예방적 항생제 복용 후에 치료를 시행하였다. 간이식술 예정으로 내원한 3번째 증례의 환자에서는 지혈기능이상으로 혈액수혈을 받은 후 치료를 시행했다. 발치 후에도 지혈이 제대로 이루어지지 않았다. 가능한 치료는 콤포짓 레진을 이용한 보존치료와 발치를 시행했다. 한 명의 환자에서 발치가 불가능한 상황에서 감염원의 제거를 위해 formocresol을 사용한 치수절단술을 시행하였으나 3년 간의 지속적인 관찰 결과 임상적으로 성공적이었다.

내인성 변색치아의 치료는 콤포짓관을 씌우거나 라미네이트 광중합 충전레진으로 순면만 덮는 방법을 이용하거나 표백을 하는 방법이나 자외선을 투과시켜 빌리루빈산물의 파괴와 침전을 촉진하는 기대하는 방법이 있다⁸⁾. 하지만 이런 환자들에서 내인성 변색치아의 치료는 하지 않는 편이다.

Ⅳ. 요 약

본 증례를 통해 담도폐쇄증을 가진 환자는 다양한 정도의 치아변색을 보였으며 색상은 노란색에서부터 짙은 초록색까지 다양했다. 법랑질의 결함을 보였고 치수강과 치근관이 확대된 양상도 보였다. 모든 환자에서 나타나는 다발성 치아우식증은 치아구조의 결함보다는 나쁜 구강위생의 결과로 여겨진다. 담도폐쇄증 환자는 간이식술 후에는 정상적인 성장을 보이지만 면역억제제를 복용하므로 치과치료시 철저한 치료와 함께 지속적인 치태조절 프로그램을 통한 감염원 조절이 필요하다.

참고문헌

1. Stanley L, Robbins, Ramzi S, et al. : Robbins pathologic basis of disease. Saunders, Philadelphia, 883-890, 1999.
2. Agarwala S, Mitra DK : Biliary atresia-the current management. Indian J Pediatr, 63:719-24, 1996.
3. Nio M, Ohi R : Biliary atresia. Semin Pediatr Surg, 9:177-86, 2000.
4. Morisaki I, Abe K, Tong LS, et al. : Dental findings of children with biliary atresia: report of seven cases. ASDC J Dent Child, 57:220-3, 1990.
5. Seow WK, Shepherd RW, Ong TH : Oral changes associated with end-stage liver disease and liver transplantation: implications for dental management. ASDC J Dent Child, 58:474-80, 1991.
6. Zaia AA, Graner E, Almeida OP, et al. : Oral changes associated with biliary atresia and liver transplantation. J Clin Pediatr Dent, 18:38-42, 1993.
7. Shapiro BM, Gallagher FE, Needleman H : Dental management of the patient with biliary atresia. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 40:742-7, 1975.
8. Rosenthal P, Ramos A, Mungo R : Management of children with hyperbilirubinemia and green teeth. J Pediatr, 108:103-5, 1986.
9. Neville BW, Damm DD, Allen CM, et al. : Oral & Maxillofacial Pathology. Saunders, U.S.A., 56-7, 1995.
10. Majewski RF, Hess J, Kabani S, et al. : Dental findings in a patient with biliary atresia. J Clin Pediatr Dent, 18:32-7, 1993.
11. 백병주, 양연미, 이승익 등 : 담도폐쇄증 환자의 치과치료 : 증례보고. 대한소아치과학회지, 27:70-76, 2000.

Abstract

CASE REPORT OF THE INTRINSIC STAINED TEETH OF
PATIENTS WITH BILIARY ATRESIA

Chang-Hui Lee, Sang-Dae Lee, Young-Jae Kim,
Jung-Wook Kim, Se-Hyun Hahn, Sang-Hoon Lee

*Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry and Dental Research Institute,
Seoul National University*

Biliary atresia is defined as a complete obstruction of bile flow owing to destruction or absence of all or part of the extrahepatic bile ducts. This disease is occurring in approximately 1:10,000 live births and moderate predominance of female is noted. The etiology of biliary atresia remained unsolved. The signs and symptoms are hyperbilirubinemia, jaundice, clay-colored stools, steatorrhea, dark yellow urine and hepatomegaly. Currently biliary atresia is best managed by hepatic portoenterostomy with or without liver transplantation.

Biliary atresia patients with these cases showed staining of the teeth. The stains ranged in color from yellowish-brown to deep green. Enamel hypoplasia was all erupted teeth present. Patients had poor oral hygiene and rampant caries.

Key words : Biliary atresia, Tooth staining, Enamel hypoplasia, Rampant caries