

Case Report

면역억제제 복용 환자에서의 임플란트 식립후 발생한 진행성 반안면 위축증: 증례 보고

김대훈¹, 김학진², 전국진³, 허종기^{4*}¹연세대학교 치과대학 구강악안면외과학 교실(강남세브란스 병원) 임상강사²연세올바른치과의원 임상의³연세대학교 치과대학 영상치의학과학 교실 임상부교수⁴연세대학교 치과대학 구강악안면외과학 교실(강남세브란스 병원) 교수

Progressive Hemifacial Atrophy After Implant Placement in Patients Taking Immunosuppressive Agents: Case Report

Dae-Hoon Kim, DDS¹, Hak-Jin Kim, DDS, PhD², Kug-Jin Jeon, DDS, PhD³, Jong-Ki Huh, DDS, PhD^{4*}¹Clinical Instructor, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University College of Dentistry, Seoul, Korea²Clinician, Yonsei Allbareun Dental Clinic, Yongin-si, Korea³Clinical Associate Professor, Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Yonsei University College of Dentistry, Seoul, Korea⁴Professor, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University College of Dentistry, Seoul, Korea OPEN ACCESS

pISSN 1229-5418

eISSN 2671-6623

Implantology 2019; 23(4): 214-219

<https://doi.org/10.32542/implantology.2019018>

*Corresponding author: Jong-Ki Huh, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gangnam Severance Hospital, Yonsei University College of Dentistry 211 Eonju-ro, Gangnam-gu, Seoul 06273, Korea. Tel: +82-2-2019-4560. Fax: +82-2-3463-4052. E-mail: omshuh@yuhs.ac

Received: October 26, 2019

Revised: December 23, 2019

Accepted: December 24, 2019

ORCID

Jong-Ki Huh

<https://orcid.org/0000-0002-7381-3972>

Dae-Hoon Kim

<https://orcid.org/0000-0001-8778-4095>

Hak-Jin Kim

<https://orcid.org/0000-0001-6063-3406>

Kug-Jin Jeon

<https://orcid.org/0000-0002-5862-2975>

Copyright © 2019. The Korean Academy of Oral & Maxillofacial Implantology



This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution

Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Abstract

Progressive hemifacial atrophy (PHA) is a rare disorder characterized by acquired unilateral facial atrophy. This disease mainly affects the skin and the craniofacial tissue below forehead. It also involves dermatomes of the fifth cranial nerve. Atrophy of subcutaneous tissue, fat, muscle and osseocartilaginous structures were seen. It resulted in a sunken hemifacial appearance. Although epidermal cutaneous tissue was minimally involved, the tongue, gingiva, teeth, and palate may also be affected. The purpose of this study is to report a case of progressive hemifacial atrophy in a patient taking immunosuppressive drugs after implant and sinus graft surgery.

Keywords: Dental implant, Hemifacial atrophy, Immunosuppressive agents, Maxillary sinus floor augmentation

I. 서론

진행성 반안면 위축증 (progressive hemifacial atrophy, PHA) 은 원인 미상의 후천성 편측 안모의 위축을 말하며, 주로 전두부 하방으로 5번 뇌신경인 삼차신경의 지배를 받는 부분에서 발생하며, 결체조직, 지방, 근육 및 연골골성 조직까지 영향을 미쳐 편측으로 위축된 안모를 보이게 된다.¹

Parry, Romberg 등에 의해 처음으로 보고되어 Parry-Romberg syndrome (PRS)이라고도 불리며, 이후 Progressive hemifacial atrophy (PHA), Idiopathic hemifacial atrophy, Progressive facial hemiatrophy, Romberg's syndrome 등의 다양한 명칭으로도 지칭되었다.²

상기 질환에 대하여 외상, 자가면역, 감염 등 다양한 요인들이 원인으로 제시되나, 아직까지는 진단을 위한 표준화된 기준이 부족한 상태이다.¹

저자들은 면역억제제를 복용하는 환자에서 상악동 골이식술 및 임플란트 시술 후 발생한 진행성 반안면 위축증 증례를 경험하여 이를 보고한다.

II. 증례보고

당뇨 및 본과 내원 2년 전 본원 외과에서 신장이식술 시행 받은 병력이 있는 43세 여환으로 #24, 25=27 4분 계속가공의치의 동요도를 주소로 내원하였다. 상악 좌측 치조골의 소실 소견 및 상악동의 함기화가 관찰되었으며 (Fig. 1), 만성치주염 진단 하 상악 좌측 구치부의 발거 및 상악동 골이식, 임플란트 식립을 계획하였다.



Fig. 1. Panoramic view (first visit).

이에 발치 시행 3개월 후 측방 접근법을 이용한 상악 좌측 상악동 골이식을 시행하였으며 골이식 4개월 후 #24, 25, 26, 27부위에 임플란트 식립 및 식립 4개월 후 보철물을 체결하였다 (Fig. 2).

임플란트 식립 후 5개월 경 환자는 좌측 안면부의 위축을 주소로 내원하였으며, 환자는 그 사이 장염으로 체중 감소가 있었다고 하였다. 구강 내 임상사진 상 협측 구강 전정부위에 반흔이 일부 보이기는 하나 심한 장력은 가해지지 않는 것으로 사료되었다 (Fig. 3).

이후 6개월간 위축은 더 진행되었다 (Fig. 4). 임플란트 식립 후 6개월째 촬영한 전산화 단층촬영 측방향(axial view) 영상에서 좌우 측 제1대구치 부위에서 연조직의 두께 차를 확인할 수 있었으며, 주로 협부 지방 (buccal fat pad)의 좌우 차이가 두드러져 보였다 (Fig. 5A). 임플란트 식립 전 촬영한 콘빔전산화단층촬영 영상과 비교 시에도 좌측 부위의 연조직의 두께의 감소를 확인할 수 있었다 (Figs. 2B, 5B). 측방향 영상에서 교근 및 협근은 좌측이 우측에 비해 두꺼워 보이거나 (Fig. 5A), 전체적인 측방향 영상과 관상영상에서 좌우 근육과 골조직은 유사해 보였다 (Figs. 5B and C, 6). 좌측 안면부 통증은

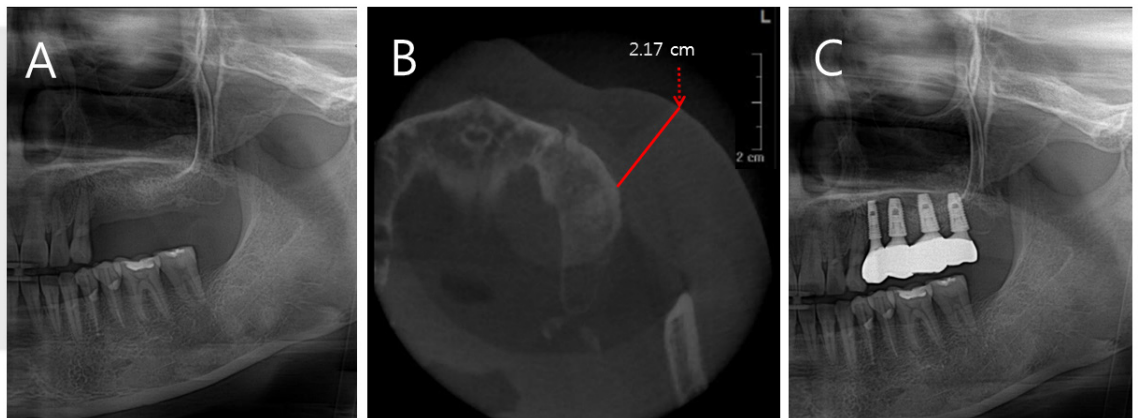


Fig. 2. (A) Panoramic view (3 months after left maxillary sinus bone graft), (B) CBCT axial view (4 months after left maxillary sinus bone graft), (C) Panoramic view (implant prosthesis final delivery).

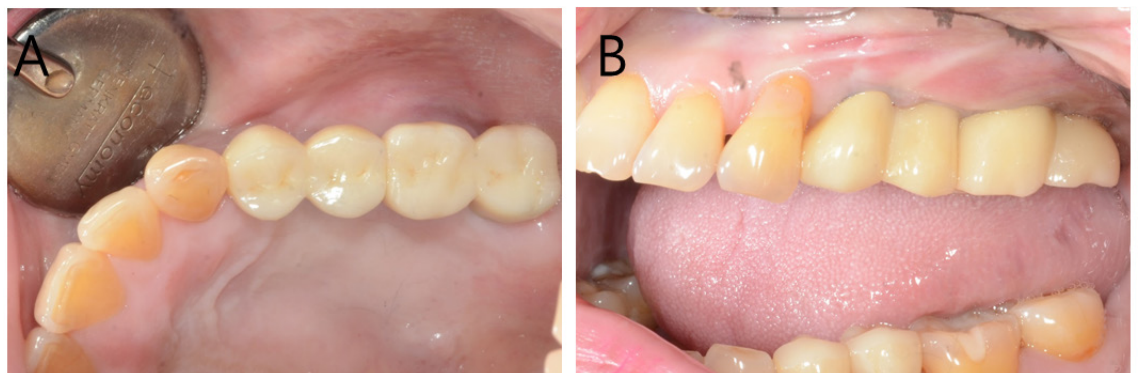


Fig. 3. Intraoral photo: (A) occlusal view, (B) lateral view.

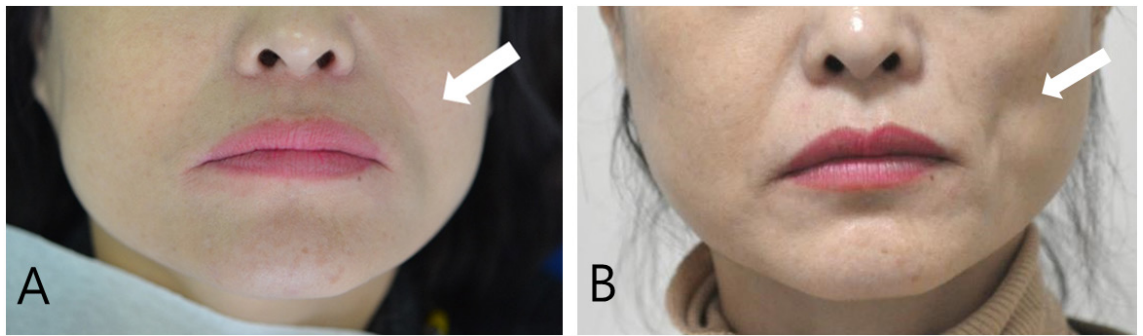


Fig. 4. Left cheek depression: (A) 6 months, (B) 12 months, after implant surgery on #24, 25, 26, 27.

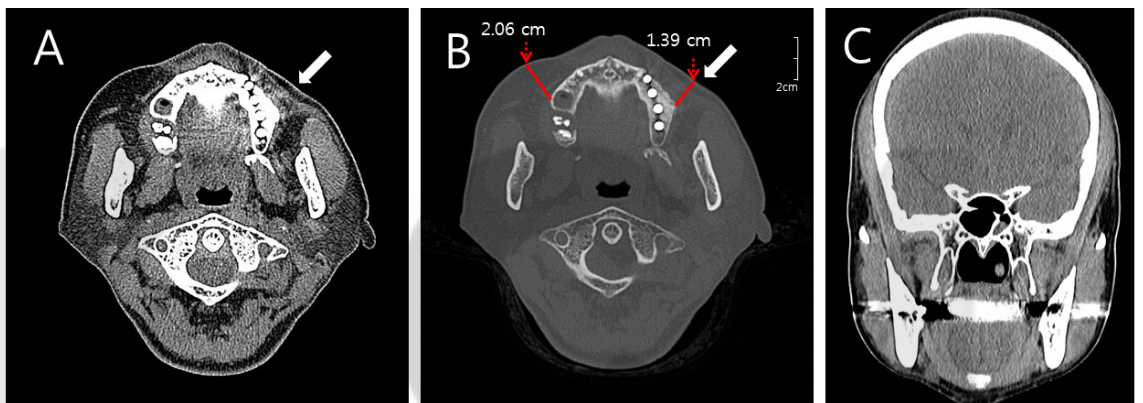


Fig. 5. Computed tomography (axial view): (A) soft tissue setting, (B) bone setting, coronal view, (C) soft tissue setting. Compared with the right side, a significant decrease of buccal fat pad was observed on the left side (white arrows).

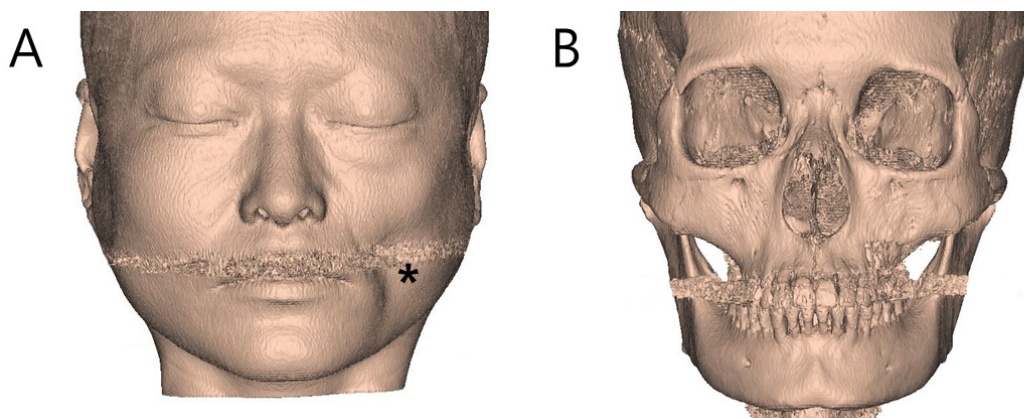


Fig. 6. Computed tomography (three-dimensional reconstruction view: (A) soft tissue setting, (B) bone setting) Compared with the right side a significant decrease of soft tissue was observed on the left side (asterisk). Otherwise, bone morphology does not differ from left to right.

없었으며, 위축이 더 진행되지 않고 안정된 상태인지를 경과 관찰 후 자가 지방이식이나 필러 주입을 계획 중이다.

III. 고찰

진행성 반안면 위축증 (progressive hemifacial atrophy, PHA)은 1825년 처음 보고되었으며 Parry-Romberg syndrome, Idiopathic hemifacial atrophy, Progressive facial hemiatrophy, Romberg's syndrome 등으로도 명칭 된다.² 주로 여성에서 3:1의 비율로 더 많은 발생 빈도를 보이고 있으며, 원인 미상의 후천성 편측 안모의 위축을 말한다. 선천적으로 안면부에 발생하는 반안면 왜소증 (hemifacial microsomia)과 구분되며 주로 20세 전후에서 발병하나 중장년기 이후에도 발생이 보고되고 있다.²

PHA는 주로 전두부 하방으로 5번 뇌신경인 삼차신경의 지배를 받는 부분에서 발생하는 것으로 알려져 있으며,² 결합조직, 지방, 근육 및 연골골성 조직까지 영향을 미치며 통증을 동반하는 경우도 보고되었다.³ 본 증례에서는 지방조직에서 제한된 위축을 보였으나, 증례에 따라서는 뼈, 혀, 잇몸, 입천장의 위축 또한 보고되고 있다.⁴

PHA에 대하여 외상, 자가면역, 감염 등 다양한 요인들이 원인으로 제시되나, 아직까지는 원인 및 진단이 명확히 밝혀지지 않았다.¹ 상악 우측 제1대구치 신경치료 과정 중 차아염소산나트륨 (sodium hypochlorite, NaOCl) 사용 후 발생한 반안면 위축이 보고된 바 있으며,⁵ 대구치 발치 후 반안면 위축이 발생한 증례도 보고되었다.⁶ 이에 치과치료 중 발생할 수 있는 외상에 대한 고려와 약제의 신중한 적용이 필요하리라 사료된다.

Rapamycin, cyclosporin, Tacrolimus 같은 면역억제제의 복용이 지방분해 (lipolysis)를 촉진하고, 지방축적 및 지방조직 (adipose tissue)에서 지방 형성 유전자의 발현 (lipogenic gene expression)을 저해한다고 보고되었다.⁷ Woolfenden 등은 편마비 편두통 (hemiplegic migraine)이 있고 면역억제제를 복용 중인 35세 남자 환자에서 발생한 PHA를 보고하였고,⁸ Ruhin, Kayanuma 등은 자가면역질환 있는 환자에게서 발생한 PHA를 보고한 바 있다.^{9,10} 본 증례의 환자는 당뇨 기저질환이 있고, 신장이식 후 면역억제제인 Tacrolimus를 복용 중이었던 분으로 임플란트 식립 수술 후 6개월 후 나타난 반안면 위축증은 면역억제제 복용과 관련한 면역학적 원인에 기인한 것으로 추정되며, 반안면위축증이 아닌 다른 질환일 가능성도 배제할 수 없을 것으로 사료된다.

반안면위축증의 치료법으로 자가 지방이식술이 보고된 바 있으며,¹¹ 본 증례의 환자의 경우 편측 위축이 더 진행되지 않는 상태를 확인 후 자가 지방이식술 혹은 필러 주입을 계획하였다.

IV. 결론

반안면 위축증의 원인은 명확히 알 수 없는 상태이며, 특히 면역억제제를 복용하는 환자에게는 임플란트 식립 뿐만 아니라 발치나 신경치료 등의 치과치료를 시행하기 전 상기 질환에 대한 발생 가능성에 대해 주지시키는 것이 필요하리라 사료된다.

References

1. El-Kehdy J, Abbas O, Rubeiz N. A review of Parry-Romberg syndrome. *J Am Acad Dermatol* 2012;67:769-84.
2. Tolkachjov SN, Patel NG, Tollefson MM. Progressive hemifacial atrophy: a review. *Orphanet J Rare Dis* 2015;10:39.
3. Viana M, Glastonbury CM, Sprenger T, Goadsby PJ. Trigeminal neuropathic pain in a patient with progressive facial hemiatrophy (parry-romberg syndrome). *Arch Neurol* 2011;68:938-43.
4. Paprocka J, Jamroz E, Adamek D, Marszal E, Manderka M. Difficulties in differentiation of Parry-Romberg syndrome, unilateral facial scleroderma, and Rasmussen syndrome. *Childs Nerv Syst* 2006;22:409-15.
5. Markose G, Cotter CJ, Hislop WS. Facial atrophy following accidental subcutaneous extrusion of sodium hypochlorite. *BDJ* 2009;206:263-4.
6. Ayhan M, Senen D, Görgü M, Genaaga S, Erdoğan B. Multiple atrophies following tooth extraction. *Aesthetic Plast Surg* 2001;25:457-9.
7. Pereira MJ, Palming J, Rizell M, Aureliano M, Carvalho E, Svensson MK, et al. The immunosuppressive agents rapamycin, cyclosporin A and tacrolimus increase lipolysis, inhibit lipid storage and alter expression of genes involved in lipid metabolism in human adipose tissue. *Mol Cell Endocrinol* 2013;365:260-9.
8. Woolfenden AR, Tong DC, Norbash AM, Gregory W.A. Progressive facial hemiatrophy: abnormality of intracranial vasculature. *Neurology* 1998;50:1915-7.
9. Kayanuma K, Oguchi K. A case of progressive hemifacial atrophy associated with immunological abnormalities. *Rinsho Shinkeigaku* 1994;34:1058-60.
10. Ruhin B, Bennaceur S, Verecke F, Louafi S, Seddiki B, Ferri J. Progressive hemifacial atrophy in the young patient: physiopathologic hypotheses, diagnosis and therapy. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2000;101:287-97.
11. Kumar NG, Thapliyal G. Free dermal fat graft for restoration of soft tissue defects in maxillofacial surgery. *J Maxillofac Oral Surg* 2012;11:319-22.