



양측성 구순구개열 신생아의 치료

김수정, 강승구, 이영준, 박영국
경희대학교 치과대학 교정학교실

ABSTRACT

Treatment of the infant with bilateral cleft lip and palate

Su Jung Kim, Seung Goo Kang, Young Jun Lee, Young Guk Park

Department of Orthodontics, Kyung Hee University

The case unveils an early orthodontic intervention on 3-week old infant innately with bilateral cleft lip and palate. Presurgical Nasoalveolar Molding(PNAM) procedures were carried out for 2 months for the sake to diminish the anticipated strain of postsurgical scar by means of the retraction of protruded premaxilla and the extension of collapsed columella. The gap on the alveolar cleft decreased by 2.5 mm, and the columella manifested 1.5 mm increase of its length, which yielded the consequent downward and backward movement of premaxilla, and expected to bring down the technical complexity of primary lip surgery.

PNAM with sophisticated technical procedures at an optimal timing disclosed the passive molding of the alveolar segments and the formation of nasolabial soft tissue integuments and permitted one-time primary lip surgery.

Key Word: Presurgical Nasoalveolar Molding(PNAM), bilateral cleft lip and palate

I. 서론

구순 구개열은 악안면의 골격계, 근신경계, 치아

및 교합계 등을 포함하는 악구강계(stomatognathic system)의 기형으로, 출생 시부터 성장이 끝나는 시기까지 기능적, 심미적, 심리적 장애와 같은 복합적

문제들이 수반된다.

Obturator

출생 직후 당면하게 되는 1차적인 기능 장애로 수유 장애의 해결을 위해서 생후 1~2주 이내에 Obturator 장착이 요구된다. Obturator는 false palate로서 구강과 비강을 분리하여 수유를 가능하게 할 뿐만 아니라 환자의 초기 rehabilitation을 통해 부모의 심리적 안정감 및 부모와 아이 사이의 유대감을 증가시켜 줄 수 있으며, 지속적인 장착 시 치조 분절의 passive molding을 유도할 수 있다. 또한 혀가 파열 부위 사이로 들어가 움직이는 것을 차단하여 파열부 확장을 방지함과 동시에 혀의 전방 위치를 유도할 수 있으며, 파열부 내로 음식물이 침착하는 것을 막아 비인후 감염을 감소시키고, 입술 폐쇄 수술 후 반흔 조직의 압력에 대해 cross arch stability를 제공해주는 기능들이 있다. 그러나 이러한 false palate 장치는 심미적인 조직 개선의 측면에서 한계를 갖는다.

양측성 구순구개열의 신생아에서 가장 핵심적인 심미적 문제는 돌출된 premaxilla와 짧은 columella이다. 생후 10주경 1차 수술을 통해 파열된 입술과 치조 분절을 폐쇄시킬 때 조직의 tension을 줄이고 반흔 형성을 최소화 하기 위해서, 파열부 간격을 줄이기 위한 수술 전 처치가 필요하다는 것을 인식하게 되었고, 이에 따라 여러 가지 방법들이 시도되어 왔다. 16~18C에 주로 사용되었던 외과적 방법으로서 vomer, nasal septum, premaxilla 일부를 절제하는 술식¹⁾ 결과적으로 입술의 지지를 불량하게 하여 중안면부 함몰, 상악궁 협착 및 골격성 3급 부정교합을 더욱 심화시키는 심각한 부작용을 초래하였고, lip adhesion²⁾ 후 passive molding을 유도하는 방법 역시 수술 부위의 흉터 및 열개 발생 가능성이 크며 비조

절성 힘에 의존한다는 등의 문제점을 갖게 되었다. 19C에 이르러 이상적인 입술의 회복을 위해 premaxilla을 보존하면서 후방으로 견인시키는 방식으로 초점이 모아지게 되었으며, 이로써 발전하게 된 방법이 Presurgical Infant Orthopedics이다.

Presurgical Infant Orthopedics

Presurgical Infant Orthopedics 치료의 목적은 premaxilla와 alveolar segments의 해부학적인 관계를 향상시킴으로써 폐쇄 수술 후 반흔 조직의 strain을 감소시켜 차후 상악 성장 억제 요인을 최소화하고자 하는 것이었다. 장치는 Head cap(1561 Franco, 1686 Hoffman) 을 시초로 bandage(1768 Louis, 1776 Chaussier, 1790 Desault), lip taping(1844 Hüllihen) 등 다양하게 사용되어 왔으며, 1950년 McNeil³⁾과 burstone이 passive appliance로 현대적 개념을 정립한 이후, 1975년 Georgiade와 Latham⁴⁾ 은 active appliance(Pinned coaxial screw appliance)를 고안하여 controlled force의 중요성을 부각시켰다.

Presurgical Nasoalveolar Molding(PNAM)

이러한 Presurgical Infant Orthopedics의 개념에 비연골의 active molding 및 columella lengthening 까지 포함하여 1993년 Grayson, Cutting, Wood⁵⁾에 의해 새롭게 변형된 방법이 Presurgical Nasoalveolar Molding(PNAM)이다. 그 생물학적 기전은 생후 첫 6주 동안 높은 수준의 에스트로젠이 세포간 기질의 일종인 hyaluronic acid 레벨을 증가시켜 신생아의 연골이 낮은 탄성(Elasticity)과 높은 가소성(Plasticity)을 갖게 됨으로써 가능하다는 원리에 기초하며, 그 효과는 생후 1~2개월 동안 최상점을 보이다가 3개월 이

후부터 크게 감소한다고 하였다.⁶⁾

PNAM 치료는 2 단계로 이루어진다. 첫번째 단계에서는 molding plate와 탄성 tape를 이용하여 alveolar molding을 시도함과 동시에 돌출된 premaxilla는 후퇴시키고 측방 변위된 premaxilla는 대칭성을 확립해 준다. 두번째 단계는 plate에 nasal stent를 추가하여 columella를 신장시키고 비첨부를 전상방으로 거상시킴으로써, 조직의 controlled movement를 통해 차후 연조직 수술의 범위를 줄여 주고 조직 tension을 최소화 하고자 시행되는 과정이다.

임상 증례: 양측성 구순구개열의 신생아

환자는 완전 양측성 구순구개열(complete bilateral cleft lip & palate)로 경희의료원 신생아 중환자실에서 2주간 care 받은 후 성형외과로 의뢰되었다가, Obturation 및 Presurgical Nasoalveolar Molding 치료를 위해서 생후 3주에 경희의료원 교정과로 재의뢰된 여아였다. 가족력은 없었으며, 본과 의뢰 시 수유 문제를 제외하고는 전신 상태 양호하였다.

1. Presurgical Nasoalveolar molding plate 제작(Fig. 2)

① 열가소성 컴파운드를 연화시켜 상악궁의 형태에 맞게 만든 후 검지와 중지를 tray로 사용하여 예비인상을 채득하였다.

② 석고 모형을 제작하고 외곽선을 표시하였다.

③ 모형상의 파열부를 wax로 block out하여 정상아의 구개 형태와 유사하게 만든 후, individual tray를 제작하였다.

④ 알지네이트(fast setting)를 혼합하여 individual tray에 loading하고 구강 내에 위치시킨 후, 코의 외형과 코구멍 내부까지 인기될 수 있도록 여분의 알지네이트를 페인팅하였다. 이 때 연조직에 불필요한 압박이 가해지지 않도록 주의해야 하나, Prolabium을 덮는 부위는 가압 인상을 얻는 것이 유리하다. 인상체의 흡입을 막기 위해서 환자는 직립자세가 유리하며, 인상체가 굳는 동안 개구 상태를 유지하고 호흡이 가능하도록 하기 위해서 아기를 올려야 한다.

⑤ 조직의 undercut이 심하기 때문에 인상체와 tray가 분리되지 않도록 특히 주의하면서 제거하였다. 인상체의 내면과 border를 검사하면서 특히 코구

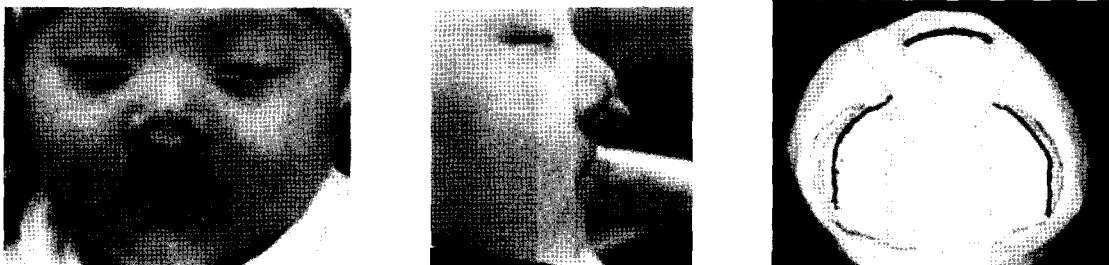


Fig. 1 Initial photograph(3 weeks after birth) of face and model

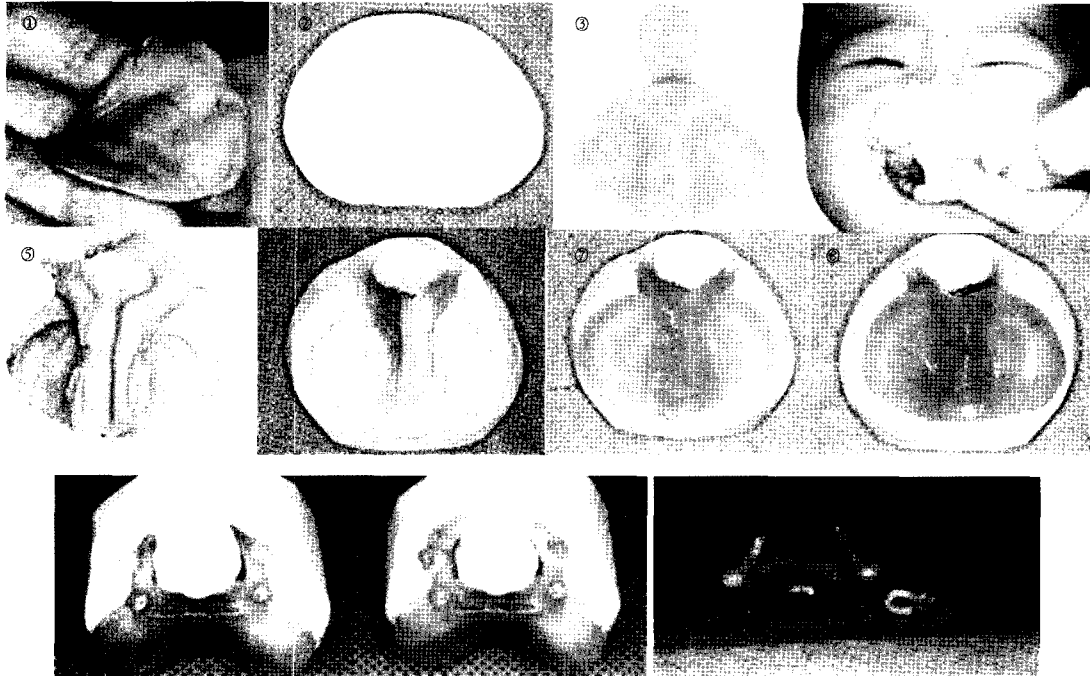


Fig. 2 Fabrication of Presurgical Nasoalveolar molding plate

명 내부가 잘 재현되어 있는지 확인해야 하며, 코구멍 상방의 apex 부분에 연필이나 수성펜으로 표시를 해 두는 것이 좋다.

⑥ 인상체에 stone을 부어 작업 모형을 만들고, 파열 부위를 block out 하되 장치의 유지력을 위한 undercut은 남아 있도록 하였다. 모형상에 연필로 외곽선을 그리고 분리재를 도포하였다.

⑦ Sprinkle 방법을 사용하여 연성 자가중합 레진 (Lang Dental Manufacturing Co. USA) 을 도포하고 중합시켰다. 파열 부위를 채워 정상적인 구개 형태를 재현하도록 하고, 외측으로는 1mm 정도 두께로 치조정을 넘어가도록 하되 mucobuccal fold까지 연장할 필요는 없다.

⑧ 연성 레진 중합 후 그 위에 경성 레진을 균일한

두께로 도포하고 중합시켰다. 모형에서 제거하고 trimming 하면 1차적으로 molding plate가 완성된다. 이때 장치의 경계 설정에 유의한다.

· 장치의 방경계 - 경구개와 연구개의 경계로 추정되는 부위

· 측방경계 - mucobuccal fold

· 전방경계 - premaxilla 후연에 닿지 않도록 공간 부여

⑨ plate에 tape 부착을 위한 버튼과 nasal stent를 첨가하였다. Nasal stent는 plate의 anterior flange로부터 연장되어 alar cartilage의 apex 하방에서 코 안으로 들어갈 수 있게 한다. Stent의 tip은 두개의 lobes로 형성하는데, 상방의 lobe는 코구멍 속으로 들어가 alar cartilage의 dome 후방에 있는 nasal lining을 전상방으로 밀어내도록 하며, 하방의 lobe는

nostril aperture의 apex 하방에 위치시켜 soft triangle 을 지지하도록 한다.

⑩ 양측 nasal stents 순면에 버튼을 형성하고 여기에 착탈식 horizontal prolabial bar(band)를 제작하였다. 이 bar의 조직면 역시 연성레진을 이용해야 한다.

2. PNAM의 임상적 적용

1) 1단계

① 생후 3주, 수유를 목적으로 Obturator(Hotz type)를 장착하였다. 첫날에는 장치의 유지력이 적절 한지 확인하고, 장치를 장착한 상태에서 환자가 편안 하게 우유를 먹는지 직접 관찰한 후, 장치를 24시간 지속적으로 장착시킬 것과 장치의 작용에 대해 부모 에게 설명하였다.

② 이후 3주간 1주 간격으로 내원시켜 과도한 압박 부위를 삭제하고 유지력을 조절해 주었다.

2) 2단계

① 생후 3개월, 새로 인상을 채득하여 nasolabial

molding plate로 교환 하였다. 환자의 연조직과 코구 명 침부는 모형에서와 동일할 수 없기 때문에, 진료실에서 추가적인 레진 작업을 통해 nasal stents의 길이 및 위치 조절이 필요하였다. nasal stents는 lateral alar cartilage를 nasal tip 방향으로 거상시키는 작용 을 하며, columellar skin을 신장시킨다.

② Plate를 장착한 상태에서, skin tape 한 쪽 끝을 prolabium에 붙이고 다른 쪽 끝은 plate의 구개면을 향해 당기듯이 붙여준 다음, 그 위에 prolabial bar를 장착하여 부가적인 압박을 가하였다. 이는 prolabium과 premaxilla를 후하방으로 견인함과 동시에 columella에 인장력을 가하면서 philtrum과 columella base 연결부에서 nasolabial angle을 보호 하는 역할을 한다.

③ plate 순측의 버튼에 tape의 한 쪽 끝을 걸고 tape을 후상방으로 당기면서 환자의 볼에 부착하였다(Fig. 3). 여기서 발휘되는 힘은 장치의 유지력을 증가시킬 뿐 아니라 nasal stents의 nasal tip elevation 작용을 촉진하고 치조 분절의 passive molding을 가 능하게 한다. 적용 후 nose tip 부위가 blanching될

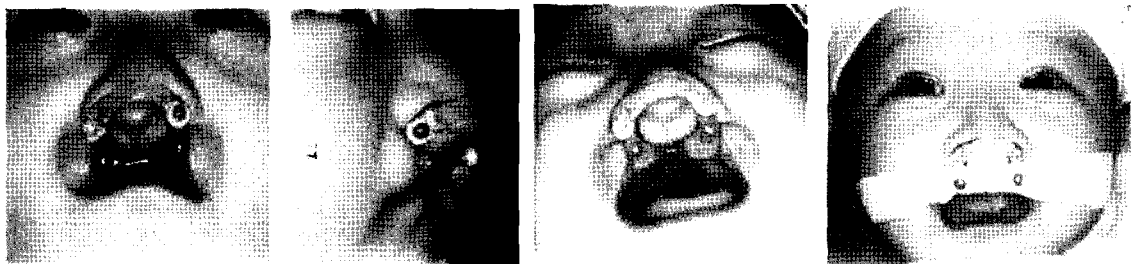


Fig. 3 Photographs of clinical application of PNAM appliance.

In these photographs, nostril support of nasal stents is insufficient. Accordingly the lengthening of nasal stents and more upward taping was required.



Fig. 4 Selective grinding and adding of soft resin on plate for passive alveolar molding

정도로 힘이 전달되는지 확인해야 한다.

④ 장치의 장착과 taping 방법을 부모에게 교육하고 24시간 장착하도록 하였다.

3) 주기적인 장치 조절

① 3주 간격으로 내원시켜 경희의료원 교정과와 성형외과 주치의가 공동 체크하였다.

② (Fig. 4)와 같이 plate 내면 연성 레진의 선택적 첨가 및 삭제를 통해 점진적인 alveolar molding을 진행하였다.

③ 비첨부 지지를 증가시키기 위해 stent tip에 연성 레진을 첨가하였다.

④ Premaxilla가 후방이동함에 따라 느슨해진 prolabial bar의 내면에 연성 레진을 첨가하였다.

⑤ Premaxilla가 후방이동 하는데 방해되지 않도록 plate의 anterior flange를 추가적으로 삭제하였다.

3. Surgery & Postsurgical Maxillary Orthopedics

생후 5개월, 경희의료원 성형외과에서 Primary lip closure 및 Gingivoperiosteoplasty 를 시행하였고, 수

술 2주 후 molding plate를 새로 제작하였다. 생후 1년경 구개 폐쇄 수술을 시행할 때까지 Obturation을 지속하면서, plate 내면의 선택적 삭제와 입술의 힘을 이용한 치조 분절의 passive molding을 지속하였다. 악궁의 성장으로 인해 6~8주 간격으로 장치의 relining 및 재 제작이 요구되었다.

II. 치료 효과 및 고찰

Alveolar Molding : PNAM을 이용한 passive molding 의 기간(2개월) 동안 돌출되었던 전방 치조 분절은 2.5mm(치조정 기준) 후방이동 되었고, 양측 후방 치조 분절 근심단 간의 폭경은 3mm 증가하였다(성장량 포함)(Fig. 5a). 1차 수술 후 우측 파열부는 근접되었으나, 좌측 파열부는 조직의 tension으로 인해 4mm 간격이 남아 있는 상태였다(Fig. 5b). 수술 후 입술의 힘을 이용한 passive molding을 지속한 결과 1개월 만에 간격은 2.5mm로 줄었고(Fig. 5c), 생후 10개월에는 양측 파열부 모두 근접되어, 악궁의 대칭성 및 연속성이 상당히 개선되었다(Fig. 5d). 그러나 이 시기의 아기는 장치를 장착하려 하지 않고

스스로 빼버리기 시작했으며 고형 음식물까지 장치 없이 섭취하게 되면서 우측 파열부의 간격이 다시 넓어지는 문제가 발생하였다. 구개 수술 시기까지 치료 효과를 유지하기 위해서 지속적인 장치 장착을 가능하게 하는 방법의 모색이 절실하게 요구되고 있다.

Nasal Molding : 본 환자에서 columella 길이는 1.5mm증가하여 수술 직전 2.5mm였다. 정상아에서 columella 의 평균 길이는 3.2mm이며, 선학들의 연구⁷⁾에서 molding plate에 의한 평균 신장량은 4~7mm 로 overcorrection 까지 가능하다고 했던 것에 비하면 작은 양이었다. 또한 Nasal tip 의 높이나

alar rim의 형태에 거의 변화가 없었다. 환자가 폐렴으로 입원치료를 받게 되면서 nasopalveolar molding 시작 시기가 생후 3개월 이후로 지연되었던 점, 당시 nasal stent tip의 정확한 위치 설정 및 조절이 미숙했던 점, 장치의 장착 및 taping을 부모에게 의존해야 하는 점, taping의 방향이 너무 수평적이었던 점 등이 비연골 재형성의 실패를 초래했을 것으로 추정된다. 특히 nasal molding의 효과는 생후 1~2개월에 최대이며, 파열부 간격이 크지 않을 경우에는(6mm 이하) 생후 2주부터 조기 시작하는 것이 유리하다고 하였으나⁸⁾, 본 증례에서는 효과가 급속히 감소한다는 생후 3~5개월에 시행하였다. 치조 분절 재배열이 생후



Fig. 5 Passive alveolar molding : Improved continuity of alveolar segments

- a. initial(3 weeks after birth)
- b. 2 weeks after primary surgery(6 months after birth)
- c. 7 months after birth
- d. 10 months after birth

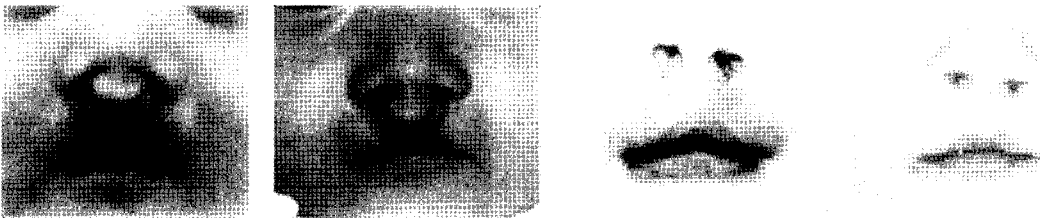


Fig. 6 Facial photograph

- a. initial
- b. During PNAM
- c. 2 weeks after primary surgery
- d. 10 months after birth

10개월까지도 가능했던 것에 비할 때 연골 조직의 재형성은 시기적인 측면에서 그 한계가 더욱 크기 때문에 치료 시작 시기의 선택에 신중을 기해야 할 것이다.

Ross⁹⁾는 PNAM 치료군과 대조군 사이에 안면 성장의 차이가 없다고 보고했던 대표적인 반론자이며, McNamara¹⁰⁾은 PNAM 치료군에서 입술 수술의 범위가 감소되고 보다 정밀한 수복이 가능하다는 점은 인정하였으나 차후 성장함에 따라 입술과 코의 심미성에 지속적인 영향을 미치지 않는다고 설명하였다. 반면에 Robertson¹¹⁾은 10년에 걸친 종적인 연구에서 PNAM을 받은 환자에서 대조군 보다 더 바람직한 안면 성장이 일어났음을 보고하였고, Wood¹²⁾은 PNAM 치료군에서 상악골 성장 장애가 감소되었다고 주장하였다. 이와 같이 PNAM이 상악골 성장에 미치는 영향에 대해서는 아직 논란의 여지가 많으며, 또한 구순구개열 환자에서의 상악골 성장 장애에는 구개 폐쇄 수술 후 구개 반흔조직의 영향을 배제할 수 없으므로, 보다 체계적인 연구가 필요할 것이다.

반면, Santiago⁷⁾의 연구 결과 PNAM과 1차 gingivoperiosteoplasty 수술을 받은 구순구개열 환자의 60%에서 2차 치조골 이식술을 받을 필요가 없었다고 했으며, 2002년 Pfeifer⁸⁾ 역시 PNAM과 1차 gingivoperiosteoplasty는 2차 수술의 필요성을 감소 시킴으로써 심미적인 면에서 뿐만 아니라 경제적인 면에서도 이득이었다고 보고하였다. 본 증례에서도 PNAM을 통한 premaxilla retraction과 collumella lengthening, 그리고 alveolar segment approximation은 1차 수술 시 수술 범위를 축소하고 조직의 tension을 감소시켜 수술 난이도를 낮추는데 그 효과가 인정되었다. PNAM에서는 원하는 방향으로 조직을 이동시키는 조절성 힘의 적용이 연조직과 연골조직에 까지 확장되어 발휘됨으로써 수술 전 처치로서 바람직

하다고 하였다. 저자의 경험상 적절한 시기에 숙련된 기술로써 접근한다면 치조 돌기 및 연조직 측면에서의 효과는 본 증례에서보다 더 충분한 가치를 발휘할 수 있을 것이라고 본다.

III. 결론

구순구개열 환자에 수반되는 문제점들은 기능적 장애, 심미적 장애, 심리적 장애로 대별된다. 기능적 장애는 obturator에 의해서, 심미적 장애는 Presurgical Nasoalveolar Molding에 의해서 개선될 수 있으며, 기능 및 심미적 문제의 해결을 통해 심리적 장애의 치료도 가능해진다. 이 중 PNAM은 여러 가지 논쟁의 여지에도 불구하고 다음의 목적으로 사용되고 있다.

1. premaxillary retraction과 alveolar approximation: 치조 파열부 간격의 축소로 1차 입술 폐쇄 수술 시 gingivoperiosteoplasty 까지 시행 용이해지며, 이는 치열궁 협착에 대한 저항성을 증가시키고 2차 치조골 이식 수술의 필요성을 감소시킨다.
2. alar cartilage molding: 비연골의 재형성을 통해 1차 코 성형술의 범위가 감소하여 반흔조직 형성이 최소화되며, 수술 후 결과의 지속성도 증가한다.
3. collumellar lengthening : 비외과적 columella 길이 신장으로 lip-columella 경계부의 반흔형성을 방지할 수 있다.

PNAM을 이용한 교정과에서의 수술 전 처치와 외과에서의 1차 수술이 협진을 통해 유기적으로 이루어 진다면, 한번의 초기 외과적 시술로도 lip-nose-alveolus complex 기형이 개선될 가능성이 커짐으로써, 심미적으로 유리한 결과 뿐만 아니라 이후 안면

성장 및 교합 관계 형성, 그리고 발음의 발육에도 기여할 수 있을 것이다.

참고문헌

1. J. Aston, R.W. Beasley, C.H.M. Thorne. Grabb and Smith's Plastic Surgery, Fifth edition, Lippincott-Raven publishers, Philadelphia, 1997.
2. Johanson, B. and Ohlsson, A. Bone grafting and dental orthopedics in primary and secondary cases of cleft lip and palate. Acta Chir Scand 1961;122:112.
3. McNeil, C.K. Orthodontic procedures in the treatment of congenital cleft palate. Dent Record 1950;70:126-132.
4. Georgiade, N.G., Latham R.A. Maxillary arch alignment in the bilateral cleft lip and palate infant, using the pinned coaxial screw appliance. Plast Reconstr Surg 1975;56:52-60.
5. Grayson, B.H., Cutting, C.B., and Wood, R. Preoperative columella lengthening in bilateral cleft lip and palate. Plast Reconstr Surg 1993;92:1422.
6. Matsuo, K., Hirose, T., and Tonomo, T. Nonsurgical correction of congenital auricular deformities in the early neonate: A preliminary report. Plast Reconstr Surg 1984;73:38.
7. Santiago, P.E. Reduced need for alveolar bone grafting by presurgical orthopedics and primary gingivoperiosteoplasty. Cleft Palate Craniofac J 1998;35(1):77-80.
8. Pfeifer, T.M. Nasoalveolar molding and gingivoperiosteoplasty versus alveolar bone graft: An outcome analysis of costs in the treatment of unilateral cleft alveolus. Cleft Palate Craniofac J 2002;39(1):26-9.
9. Ross, R.B. Treatment variables affecting facial growth in complete unilateral cleft lip and palate. Part II. Presurgical Orthopaedics. Cleft Palate Craniofac J 1987;24:24.
10. Ross, R.B., and McNamara, M.C. Effect of presurgical infant orthopedics on facial esthetics in complete bilateral cleft lip and palate. Cleft Palate Craniofac J 1994;68-73.
11. Robertson, N.R.E. Facial form of patients with cleft lip and palate. The long term influence of presurgical oral orthopaedics. Br Dent J 1983;155:59.
12. Wood, R., Grayson, B.H., and Cutting, C.B. Gingivoperiosteoplasty and growth of the midface. Surg Forum 1993;16:229.

교신 저자

경희대학교 치과대학 교정학교실 박영국

서울 동대문구 회기동 산 1 우편번호) 130-702 / 전화: 02-958-9395 / E-mail: ygpark@khu.ac.kr