

# 다발성 치아경조직 결손을 동반한 구강 건조증에서 Sjögren syndrome으로 진단한 증례

연세대학교 치과대학 보존학 교실<sup>1</sup>, 구강병리학 교실<sup>2</sup>  
서덕규<sup>1</sup>, 김 진<sup>2</sup>, 이찬영<sup>1</sup>, 박성호<sup>1\*</sup>

## ABSTRACT

### Diagnosis of Sjögren Syndrome from a Xerostomia with Multiple Dental Hard Tissue Loss (Case Report)

Department of Conservative Dentistry<sup>1</sup>, Oral Pathology<sup>2</sup>, College of Dentistry, Yonsei University  
Deog-Gyu Seo<sup>1</sup>, Jin Kim<sup>2</sup>, Chan-Young Lee<sup>1</sup>, Sung-Ho Park<sup>1\*</sup>

Sjögren syndrome is a chronic systemic autoimmune disorder that chiefly involves the salivary gland and the lacrimal gland, resulting in xerostomia and xerophthalmia. Although the exact cause of the disease is not lucidated, its early diagnosis, treatment and observation must be emphasized because of its poor prognosis, such as the high occurrence of malignant lymphoma and other autoimmune disease that may be accompanied. In the present case, a twenty-year-old woman whose chief complaint was multiple dental hard tissue loss and xerostomia, which was misdiagnosed as iron deficiency anemia at first, but through re-evaluation and differential diagnosis it was identified as Sjögren syndrome. The diagnostic approach was discussed in this report, suggesting that Sjögren syndrome should be considered as a differential diagnosis in a patient with xerostomia.

Key words : Sjögren syndrome, Xerostomia, Dental hard tissue loss, Erosion, Iron deficiency anemia

## I. 서론

Sjögren syndrome은 타액선과 눈물샘을 주로 침범하여 구강 건조증과 안구 건조증을 유발하는 만성, 전신 자가면역성 질환이다.<sup>1,2,3</sup> 이는 외분비선에

림프구가 특징적으로 침윤하여 기관을 서서히 파괴시켜 발생하게 된다.<sup>1,4</sup> 19세기 후반 처음으로 문헌에 언급된 이후에, 1933년 스웨덴의 안과학자 Henrik Sjögren의 학문적 연구에 기초하여 현재와 같은 이름이 붙여지게 되었다.<sup>5</sup>



Fig. 1. Facial view

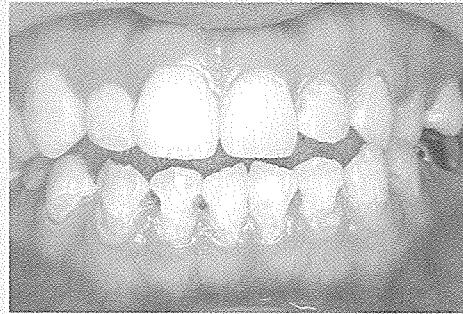


Fig. 2. Intra-oral front view showing multiple hard tissue loss



Fig. 3. Magnified intra-oral view showing multiple hard tissue loss in mandibular teeth

이후 임상적 증상에 따라 여러 명명이나 분류가 달리 사용되었으나 현재에는 다른 결합조직 질환을 동반하는 경우 secondary Sjögren syndrome, 그렇지 않은 경우를 primary Sjögren syndrome이라고 부르고 있다.<sup>2,3,5</sup>

발생율에 대해서는 정확히 알려져 있지 않으나 약 1% 내외로 추정하고 있으며, 대개 90% 정도가 50세 이상의 중년 여성에 호발하는 것으로 보고되고 있다.<sup>1,3,5,6</sup>

이 질환에 대한 명확한 발생 원인은 아직 밝혀져 있지 않으나 그 예후가 불량하여 악성 림프종이 정상인에 비해 40배의 발생율을 나타내며, 레이노 현상(Raynaud's phenomenon), 일차 담즙성 간경변(primary biliary cirrhosis), 미만성 간질성 폐질환(diffuse interstitial lung disease), 간질성 신염(interstitial nephritis), 만성 위축성 위염(chronic atrophic gastritis), 말초성 신경변증(peripheral neuropathies)등의 다른 질환들이 동반될 수 있다.<sup>1,5</sup>

본 저자들은 다발성 치아경조직 결손과 구강건조증을 주소로 내원하여 이에 대한 원인 요소의 분석 중 Sjögren syndrome을 진단한 증례를 보고하고, 주소의 해결을 위한 적절한 진단적 접근의 중요성에 대해 논의해 보고자 한다.

## II. 증례 보고

환자는 20세 여자 환자로 하악 전치부의 다발성 치아경조직 결손으로 개인 치과에서 연세대학교 치과대학병원 치과 보존과에 대진 의뢰되었다. 2002년 8월 내원하였으며 몇 달 전부터 아래 앞니가 많이 시리고, 침이 자주 마른다는 주소를 호소하였다.

환자는 과거력상 전신 질환 및 가족력에 특이한 사항이 없었으며, 안모의 비대칭이나 부종등의 외양상에 특별한 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 1). 환자는 약 3년전 #36,46 치아의 수복물 치료를 받은 치과 병력이 있었다. 환자의 구강 상태는 #21~23, #31~34, #41~44, #46의 여러 치아에 걸친 치아 침식증 및 #16,26 치아에 중등도의 치

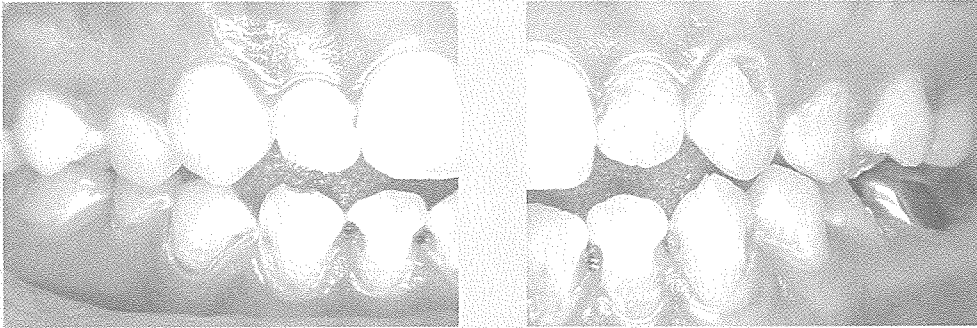


Fig. 4. Magnified intra-oral side view showing multiple hard tissue loss

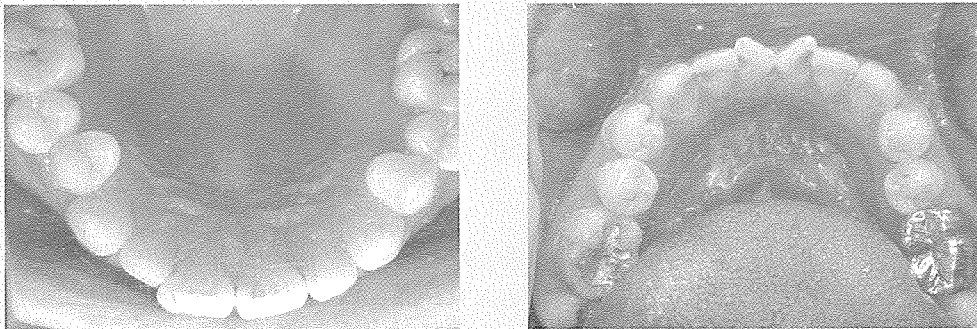


Fig. 5. Occlusal views of the maxillary(left) and mandibular teeth(right)



Fig. 6. Radiographic view of the mandibular anterior teeth

아 우식증을 보이고 있었다(Fig. 2,3,4,5,6). 임상 검사상 하악전치부, 소구치부의 냉검사시 중등도의 민감도를 보이고 있었고 침의 분비가 매우 감소한 양상을 나타내었다. 이에 구강 건조증으로 가진하고 이를 동반한 다발성 치아경조직 결손으로 진단하였다.

본과에서 레진 수복과 치료 완료 후 불소도포 및 연 4회이상의 정기적인 검진을 하기로 치료계획을 세웠고, 구강 건조증 진단을 위한 타액 분비율 시험(saliva flow test)과 곰팡이 도말 시험(fungus smear test)를 위해 구강내과에 협진 의뢰하였다. 이후 구강내과검사에서는 비자극시 0.03ml/min

Table 1. Cause of xerostomia

Cause of Xerostomia
Medication
Radiation therapy
Primary biliary cirrhosis
Chronic active hepatitis
HIV
AIDS
Bone marrow transplantation
Graft vs host disease
Renal dialysis
Anxiety & depression
Diabetes type 1 or 2
Primary Sjögren syndrome
Secondary Sjögren syndrome

Table 2. The examinations required for xerostomia

Examination	Contents
History taking & past Medical and dental history	R/O) medication, radiation therapy, bone marrow transplantation, graft vs host disease
Saliva flow test	R/O) objective diagnosis of xerostomia (unstimulation 0.3-0.5ml/min; xerostomia<0.1)
Bacterial activity test in the oral cavity	Ex) RD test, Schneider test
Fungus smear test	Fungi like candida
Blood test	General check up R/O) primary biliary cirrhosis, chronic active hepatitis, anemia
Immune serum test	Diagnosis of autoimmune disease R/O) Sjögren syndrome(female 90%)
Biochemistry test	T3, T4, glucose, ferritin, iron, Vit B12, folate R/O) D.M, hypothyroidism, megaloblastic anemia
Urine test	General check up
Salivary scan	Fuction test of salivary gland
Sialograpy	Observation of the duct and substantial tissue on salivary gland

(normal 0.3-0.5ml/min), 자극시 0.1ml/min(normal 1-3ml/min)로 타액 분비율(saliva flow)이 측정되었다. 이는 정상인의 약 1/10에 해당하는 것으로 매우 심한 정도로, 구강 건조증으로 진단하였다.

또한 캔디다가 곰팡이 도말 시험에서 검출되었다. 이에 구강 내과에서는 인공 타액 처방 및 정기적

Table 3. Blood test(2002.08.26)

Examination	Result	Reference	Decision
Hemoglobin	9.7	12-16g/dl	Iron deficiency anemia
Hct	30.2	36-46%	
Neutrophil(%)	59	40-74%	Normal
Lymphocyte(%)	29.6	19-48%	
PLT count	287	150-450*1000/ul	Iron deficiency anemia
MCV	66.7	81-99fl	
MCH	21.4	27-33pg	
MCHC	32.0	33-37g/dL	

Table 4. Biochemistry test(2002.09.12)

Examination	Result	Reference	Decision
Ferritin	26.7	10-130ng/ml	Normal
Glucose	78	70-110mg/dl	
V.B12	1139.7	160-970pg/ml	
Folate	8.50	>1.5ng/ml	
T3	122.69	80-220ng/dl	
T4	11.69	5-13ug/dl	

Table 5. Blood test & biochemistry test(2003.04.05)

Examination	Result	Reference	Decision
Hemoglobin	13.7	12-16g/dl	Normal
Hct	40.5	36-46%	
PLT count	259	150-450*1000/ul	
MCV	84.5	81-99fl	
MCH	28.5	27-33pg	
MCHC	33.7	33-37g/dL	Normal
Iron	100	40-158ug/dl	
TIBC	359	271-435ug/dl	

Table 6. Immune serum test(2003.05.10)

Examination	Result	Reference	Decision
Anti-SS-A/Ro	Positive(143.0)	<20units AU	H
Anti-SS-B/La	Negative	<20units AU	
Reumatoid factor IgM	575	<20 U/ml	H
Reumatoid factor IgA	602.57	<20 U/ml	H
Reumatoid factor IgG	28.51	<70 U/ml	

검진을 계획하였다.

따라서 본과에서는 환자가 구강 건조증임을 확진

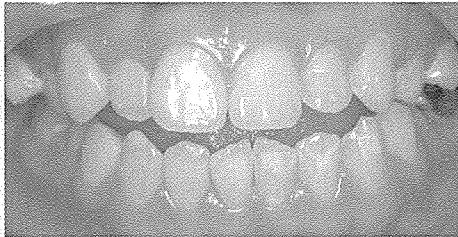


Fig. 7. Intra-oral front view after restorative treatment with composite resin

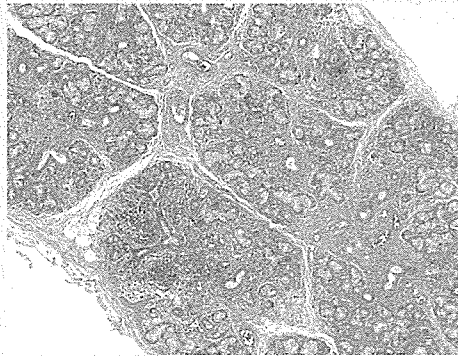


Fig. 8. Histopathologic view of lower lip biopsy( $\times 60$ )

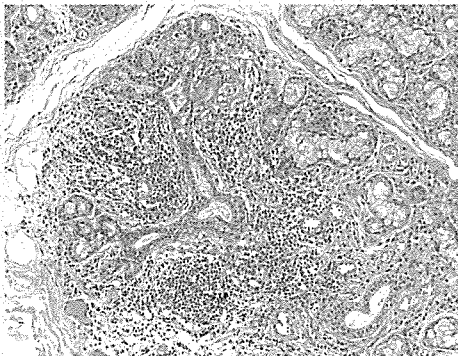


Fig. 9. Histopathologic view of lower lip biopsy( $\times 100$ )



Fig. 10. Sialography of the right parotid gland

할 수 있었으며, 이에 대한 원인을 밝히기 위하여 혈액 내과에 일반 혈액 검사, 요화학 검사를 의뢰하였다(Table. 1,2). 검사 결과 대부분의 수치가 정상이었으나 헤모글로빈 관련 수치가 현저하게 낮게 검출되었으며 이에 철 결핍성 빈혈(iron deficiency anemia)로 진단하였다(Table. 3,4).

이와 같은 검사와 감별 진단을 통해 구강 건조증을 유발하게 된 원인이 빈혈 중 철 결핍성 빈혈에 있었음을 추정하고 혈액 내과에서 경구 철분 투여

약제 치료를 하였으며 본과에서 광범위한 다발성 치아 경조직 결손에 대한 레진 수복 치료를 시행하였다.

또한 환자는 치과 보존과에서 구강내의 세균의 수를 레사슬린이라는 지시액의 색변화에 의해 짧은 시간(15분간 배양) 알아보는 disc test인 RD test 측정 을 통해 세균 활성화도 및 충치 발생을 알아보았으며 다홍색을 나타내어 고도의 위험률을 보였다. 이에 현증의 개선을 위해 이 환자는 인공타액 사용

과 함께 청정음식 및 다량의 수분섭취를 교육받았다. 이후 이가 시리다는 주소는 해소되었다(Fig. 7). 그러나 약 6개월에 걸친 혈액내과 치료 후 빈혈 관련 수치는 정상으로 회복되었고(Table. 5), 환자는 주관적 느낌으로 구강 건조증이 완화되었다고 하였으나 본과에서 다시 시행한 타액 분비율 시험에서 첫 내원시와 동일한 수치를 보였다.

따라서 구강 건조증의 원인이 철 결핍성 빈혈이 아님을 확인하게 되었으며 관련된 주요한 특징이 보이지 않았기에 이에 구강 건조증의 원인으로서는 진단과정에서 크게 고려하지 않았던 Sjögren syndrome에 대한 감별 진단이 필요하다고 판단하였다(Table. 1,2).

Sjögren syndrome을 감별하기 위한 면역 혈청학 검사 결과, 자가면역 질환 환자에게 비정상적으로 나타날 수 있는 자가 항체 anti-SS-A/Ro, reumatoid factor IgM, reumatoid factor IgA가 매우 높은 수치로 나타났다(Table. 6). Sjögren syndrome에 대한 확진을 위해서 입술 조직 검사를 시행하였다. 저배율 사진에서 소타액선에 임파구 침윤을 관찰할 수 있었다(Fig. 8).

고배율 사진에서는 4mm<sup>2</sup>당 림프구의 침윤 개수가 50개 이상이 되는 focus가 2곳 이상으로 기준에 따라 focus score 2.1로 판정이 되어 grade 4가 나왔기 때문에 Sjögren syndrome에 합당하다고 진단하였다(Fig. 9). 이하선의 도관조직 관찰을 위해 촬영한 타액선 조영술 사진에서는 동글동글한 모양이 구상 선포 확장을 보이는 이 질환의 특징적 양상을 보여주었다(Fig. 10).

### III. 고 찰

본 환자의 경우 구강 건조증과 다발성 치아경조직 결손이 비교적 단기간 내에 발생하였다는 점이 주목할 만한 것이었다.<sup>8,9,10,11</sup> 약 3년 전 치과치료를 받았고 그 당시 특별한 처치가 없었던 것으로 보아 최근 2년내에 질환이 시작되었음을 추정할 수

있었다.

또한 이 환자는 특이한 병력이 없었으며 비교적 치과 IQ가 높고 구강 관리가 비교적 양호한 건강한 20대 여성이었기 때문에, 환자가 보이는 현증에 보다 진중한 진단적 접근을 시도하게 되었다.

이러한 이유로, 환자가 호소하는 입이 마르다는 주소에 대해 간과하지 않고 타액 분비율 검사를 통해 구강 건조증을 객관적으로 진단할 수 있었다. 정상인의 1/10에 불과한 매우 심한 타액 분비 감소는 타액의 흐름성, 조성, 완충능력, 산성도, 획득 피막에 대한 영향을 주게되고 이것이 치아 경조직 결손에 주요한 원인 인자가 될 것이라 추정할 수 있었다.<sup>8,9</sup>

그러나 이렇듯 심한 구강 건조증을 유발하게 된 원인이 불분명 하였고, 위에서 언급한 바와 같이 건강한 사람의 급격한 질환의 발병때문에 이를 유발할 수 있는 질환에 대한 검사가 필요하다고 판단하였다. 구강 건조증을 유발할 수 있는 일반적인 원인으로, 관련된 특별한 약물의 복용이나 당뇨, 방사선 치료 혹은 Sjögren syndrome 등을 의심할 수 있다<sup>10,12</sup>. 그러나 본 환자의 경우 과거력을 조사해본 결과 특별한 약물이나 방사선 치료는 나타나지 않았다.

그리고 Sjögren syndrome의 경우에는 일반적으로 50세 이상의 중년 여성에 호발하며 혀 유두 위축이나 소실, 구각증, 이하선 부종 및 안구 건조증을 동반하고 secondary Sjögren syndrome에 있어서는 다른 결합조직의 자가 면역 질환을 동반하게 되는데, 본 환자의 경우 이 질환을 의심할만한 양상을 보이지 않았다.

따라서 당뇨나 그 외의 전신 질환을 의심하고 일반혈액 검사와 요화학 검사 및 생화학 검사를 시행하여 구강 건조증의 원인을 감별 하고자 하였다. 검사 결과의 대부분의 수치가 정상으로 나오고 철 결핍성 빈혈이 진단되었고 이것이 구강 건조증을 유발했을 것이라고 판단하였다.<sup>13,14,15</sup> 철 결핍성 빈혈은 20대 여성에 있어 20%정도 호발하는 질환으로

이것만으로 구강 건조증을 의심하기에는 부족한 점이 있어 보였지만, 여러 검사에서 다른 특별한 이상 소견이 나타나지 않았기 때문에 이와 같이 추정하고 혈액 내과에서 경구 철분 투여 약제 치료를 하였으며 본과에서 광범위한 다발성 치아 경조직 결손에 대한 레진 수복 치료를 시행하였다.

그러나, 빈혈에 타액 분비가 감소한다는 보고와 특히 철 결핍성 빈혈에 있어서 철이 관여하는 세포 대사와 구강 점막이 영향을 받아 구강 건조증이 발생할 수 있다는 여러 문헌의 언급에도 불구하고<sup>13,14,15</sup> 본 환자에 있어서는 검사상의 이상소견이었던 철 결핍성 빈혈이 해소된 이후에도 구강 건조증 증상이 완화되지 않았다.

따라서 구강 건조증의 원인을 규명하기 위해 다시 처음부터 문제 중심의 감별 진단을 숙고해야만 했다. 진단하는 과정에서 의심할 만한 소견이 거의 없었기 때문에 객관적 검사 없이 배제하였던 Sjögren syndrome을 의심하게 되었다. 따라서 이에 대한 감별을 하고자 시도하였다.

질환의 양상이 다양하여 Sjögren syndrome의 감별에는 여러 논의가 있다. 이중 면역 혈청 검사를 통한 비정상적인 자가 항체 검출로 진단에 도움을 얻을 수 있으며<sup>2,5,16,17</sup>, 입술 조직 검사나 이하선 조직 검사가 가장 확진에 도움이 된다고 할 수 있다.<sup>4,16</sup> 본 환자의 경우 검사한 면역 혈청 검사에서 anti-SS-A/Ro, reumatoid factor IgM, reumatoid factor IgA의 자가 항체가 높은 수치로 검출되었다. 이중 anti-SS-A의 SS는 Sjögren syndrome의 약자로 이 질환에서만 특이적으로 나타나는 자가 항체이기 때문에<sup>16,17</sup> 이에 대한 확진을 위해 정확도가 높고 부작용이 상대적으로 적은 입술 조직 검사를 시행하였다.

이 경우, 소타액선에 침윤한 림프구 수가 4mm<sup>2</sup> 당 50개 이상인 곳의 개수에 따라 grade를 나누게 된다. 본 환자는 생검된 조직에서 소타액선의 면적 5.7mm<sup>2</sup>에서 3개의 focus가 관찰되었기 때문에

4mm<sup>2</sup>당 focus score 2.1로 grade4에 해당이 된다. Grade 4의 경우, 이전의 조직학적인 연구에 의해 Sjögren syndrome의 가장 명확한 진단의 근거가 될 수 있으므로 본 환자에 있어 Sjögren syndrome을 확진할 수 있었다.<sup>4</sup>

Sjögren syndrome은 만성 자가면역 질환의 일종으로 분비샘의 파괴를 특징으로하여 안구 건조증외에 구강 증세를 호소하게 되는데 만성 구강 건조증과 재발성 치아 우식증, 구강 점막 홍반, 혀 유두 소실, 캔디다증과 구각증등을 나타내게 된다.

또한 50%에 있어서 이하선의 부종을 나타내며 류마티스성 관절염(rheumatoid arthritis)와 같은 다른 자가면역 질환을 보인다고 한다. Sjögren syndrome에 대한 치료는 보조적 치료(supportive therapy)를 시행하게 되며, 정도가 심화될 경우에 면역 억제제나 steroid, pylocarpine등의 약제를 사용하게 된다.<sup>5,13</sup> 예후에 있어 악성 림프종으로 이행되거나 다른 자가 면역 질환의 발생으로 치명적이 될 수 있다.<sup>1,2,3,5</sup>

따라서 이 질환을 초기에 인지하고 류마티스 내과등에서 지속적인 검진 및 평가를 받게 되었다는 것이 중요한 의의라 할 수 있다.

본 환자와 같이 단기간의 급격한 구강 건조증 환자의 경우, 원인에 대한 체계적이고 종합적인 접근이 필요하며 전신 질환을 의심하는 것이 필요하다.<sup>15,16</sup> 또한 우리는 본 증례를 통해 환자의 구강 환경은 인체내 다른 기관 보다 질환을 초기에 발현하고, 술자가 관찰하기에 비교적 쉬운 곳이므로 구강 내 소견은 매우 중요하다는 점을 다시 한번 깨달을 수 있었다.

그러므로, 진료실에서 항상 구강 환경을 접하는 치과의사는 질병을 초기에 발견하여 진단, 치료할 수 있다는 점에서 무엇보다 중요한 위치에 서 있음을 잊지 말아야 하겠다.

참 고 문 헌

1. Neville BW, Damm DD et al. Oral & Maxillofacial Pathology 1995;332-334
2. 구강내과학회. 구강내과학 제5판 209-210
3. Moutsopoulos HM. Harrison's 15th Principles of internal medicine 1947-1949
4. Greenspan JS, Daniels TE et al. The histopathology of Sjögren's syndrome in labial salivary gland biopsies. Oral Surg 1974;217-228
5. Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR. Surgical pathology of the salivary glands. W.B. SAUNDERS COMPANY. vol.25 in the series Major problems in pathology 83-106
6. Dafni UG et al. Prevalence of Sjögren syndrome in a closed rural community. Ann Rheum Dis 1997;56:521
7. 대한구강악안면방사선학회 저. 구강악안면방사선학 제2판 444-454
8. Lussi A, Jaeggi T, Schaffner M. Diet and Dental Erosion. Nutrition and Oral Health 2002;18:780-781
9. Gandara BK, Truelove EL. Diagnosis and management of dental erosion. J Contemporary Dental Practice 1999;1;1:1-17
10. Guggenheimer J, Moore PA. Xerostomia Etiology, recognition and treatment. JADA 2003;134:61-69
11. Edgar WM, O' Mullane DM. Saliva and dental health. British Dental Journal 1990;1st edition;89-96
12. Brennan MT, Shariff G etc. Treatment of xerostomia: a systematic review of therapeutic trials. Dent Clin N Am 2002;46:847-856
13. Mishra OP, Agarwal KN, Agarwal RMD. Salivary iron status in children with iron deficiency and iron overload. J Tropical Pediatrics 1992;38:64-67
14. Mukherji S, Naik SR, Srivastava PN et al. Salivary secretions in iron deficiency anemia. J Oral Medicine 1982;37;4:130-132
15. Johansson I, Fagernas C. Effect of iron-deficiency anemia on saliva secretion rate and composition in the rat. Archs Oral Biol 1994;39;1:51-56
16. Soto-Rojas AE, Kraus A. The oral side of Sjögren syndrome. Diagnosis and treatment. Archives of Medical Research 2002;33:95-106
17. Mariette X. Current and potential treatments for primary Sjögren's syndrome. Joint Bone Spine 2002;69;363-6

다비타 치아경조직 결손 증상을 동반한 구강 건조증에서 Sjögren syndrome으로 진단된 사례