

괴사성 타액선화생 1증례 : 발병원인, 골변화, 발병율에 대한 고찰

전남대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
이재서 · 강병철

A case of necrotizing sialomataplasia : consideration on cause, bone change, and incidence

Jae-Seo Lee, Byung-Cheol Kang

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Chonnam National University

ABSTRACT

Necrotizing sialometaplasia (NS) is a rare, benign, self-limiting lesion, but it mimics carcinoma both clinically and histologically. Authors present a case of NS on the right posterior hard palate in a 16-year-old boy. This case showed underlying erosive bone change on CT images. We supposed this lesion resulted from the local anesthesia for dental treatment. Presented NS is the only one case from approximately 1,500 oral and maxillofacial biopsies (0.07%) at Chonnam National University Hospital during the period from 1999 to 2004. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2005; 35 : 175-8)

KEY WORDS : Necrotizing Sialometaplasia; Local Anesthesia

괴사성 타액선화생 (necrotizing sialometaplasia)은 타액선 조직에서 발병하며, 국소적으로 조직을 파괴하는 염증성 질환이다.¹ 괴사성 타액선화생은 발병 후 4-10주 내에 자연 치유된다.² 그러나 임상적, 조직학적으로 악성종양과 유사하여 불필요하게 광범위한 수술을 할 수도 있으므로 감별 진단이 요구된다.¹⁻¹⁰

Brannon 등¹¹은 69증례를 임상병리학적으로 분석한 결과, 1.5세에서 75세 사이에서 발생하였고, 남성에게서 호발하였으며, 69.6%가 경구개에, 10.1%가 주타액선에, 그 외 하순, 하악 구치 후방, 은협이행부, 비강, 상악동, 후두 등에서도 발생하였다고 보고하였다. 특히 경구개에 발생한 괴사성 타액선화생의 2/3는 편측성으로 나타났지만, 양측성 또는 정중부에 발생한 경우도 있다고 하였다. 임상적으로 괴사성 타액선화생은 심부 궤양형태로 나타나며,^{1-5,8-10,12-18} 어떤 경우는 비궤양성 종창이나 종괴로 보이기도 한다.^{3,7,9,12,13,17,19}

Mesa 등²⁰은 10년간 10,414개의 구강악안면영역의 조직

생체검사 결과를 다시 조사하여 3증례를 괴사성 타액선화생으로 진단하고, 괴사성 타액선화생의 발병율을 0.03%라고 보고하였다.

저자들은 전남대학교병원 치과진료처에서 1999-2004년 동안 괴사성 타액선화생으로 진단된 1증례를 보고하고자 한다.

증례 보고

16세의 소년이 우측 경구개면 후방부에 1.5×2 cm 종창을 주소로 전남대학교병원 치과에 내원하였다. 임상 검사상 촉진시 약간의 탄력이 있고 색깔은 탁한 푸른색에 붉은 빛이 흩어져 있고, 표면은 평활하며 압통이 없었다(Fig. 1). 환자의 과거 병력의 특이소견은 없었고, 환자는 내원 3일 전에 치과 의원에서 치과 치료를 위해 상악 구개부에 국소마취를 한 후에 종창이 발생되었다고 하였다.

상악 교합방사선사진 및 파노라마방사선사진에서는 구개부 종창과 관련된 특이한 소견을 발견할 수 없었으며, 구개부에 발생한 다형선종(pleomorphic adenoma) 혹은 국소마취에 의한 염증성 종창으로 임시진단하였다. 보다 정확한 진단을 위해 절개생검 (incisional biopsy)과 전산화 단

접수일 : 2005년 3월 14일; 심사일 : 2005년 3월 15일; 채택일 : 2005년 6월 22일
Correspondence to : Dr. Jae-Seo Lee
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Chonnam National University, Dongku Hak 1, Gwangju, 501-757, Korea
Tel) 82-62-220-5426, Fax) 82-62-228-2924, E-mail) jsyi16@hanmail.net

층촬영을 시행하였다. 전산화 단층촬영사진에서 직경 2cm 정도의 병소 내부에 낭성 또는 괴사성 소견이 보였다. 연조직 병소 하방 우측 경구개부위에 골 침식이 나타났으나,

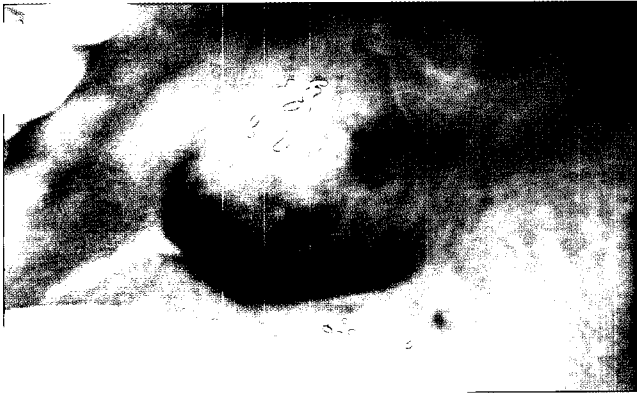


Fig. 1. Intraoral photograph showing a nonulcerated, bluish-colored swelling on the right posterior hard palate.

병소의 경계는 상당히 명확하여 양성 종양으로 진단되었다(Fig. 2). 생검 결과는 섬유종이었다. 1차 절제생검 후 2주 후에 다시 절제생검(excisional biopsy)을 시행하였다. 조직 생검 결과 점막하 조직에 만성 염증세포의 침윤을 갖는 국소적 괴사와 함께 편평 화생(squamous metaplasia)의 소견을 보이는 소타액선이 관찰되어 괴사성 타액선화생으로 진단하였다(Fig. 3).

그 후 특별한 처치 없이 병소는 치유되었고, 절제 생검 후 6년이 지난 현재까지 재발되지 않고 있다.

고찰

괴사성 타액선화생은 1973년 Abrams가 조직학적 양상이 점액표피양암종과 유사한 양성 염증성 질환으로 처음 기술 하였다.¹ 소타액선에 주로 발생하는 이 질환은 혈류 장애(ischemia)에 의해 조직이 괴사되어 발생하는 것으로 추정되며, 주로 외상, 동맥경화 및 국소적 혈관염으로 발생

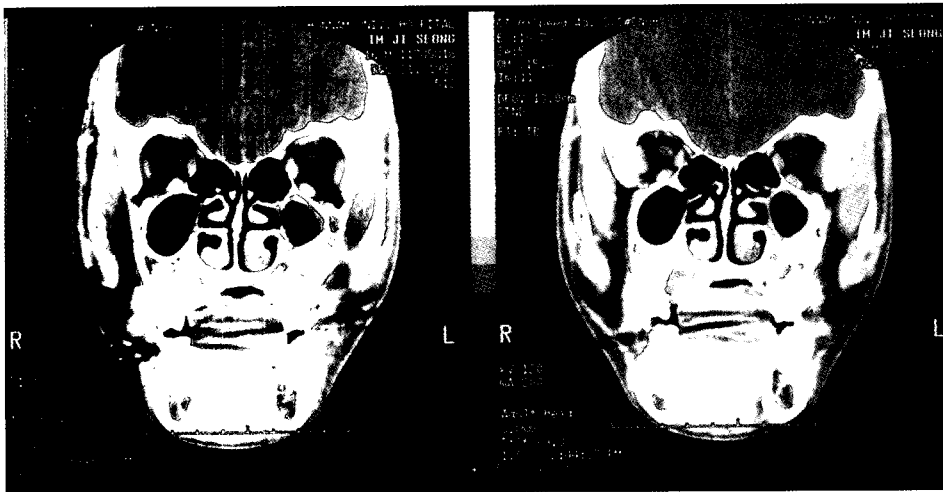


Fig. 2. CT scans showing 2 cm sized and well-demarcated soft tissue mass with underlying palatal bony erosion. The mass has cystic or necrotic areas within it.

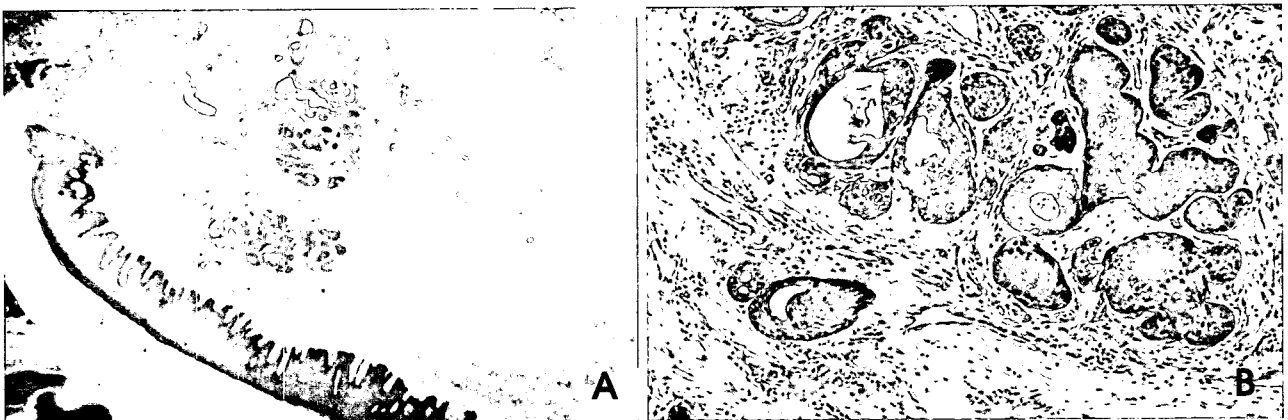


Fig. 3. Histopathologic photographs showing necrotic mucous acini and adjacent ductal squamous metaplasia. A: (HE, original magnification $\times 40$), B: (HE, original magnification $\times 100$).

원인으로 생각되고 있다.^{4,9,11-13,21}

악성 종양의 외과적 수술,²² 구강 내 국소 마취 주사,^{11,13,15} 잘 맞지 않은 보철물¹⁷ 등이 국소적으로 혈류 장애, 허혈성 괴사, 경색을 유발하여 괴사성 타액선화생을 발생시킬 수 있다.³ 그 외에도 혈관염이 동반된 자가면역 질환,¹² 겸상 적혈구증¹⁴ 등의 전신적인 질환에 의한 혈액 공급의 장애로 괴사성 타액선화생이 발생할 수 있다. 그러나 어떤 환자들에게서는 외상의 병력 없이 발생하는 경우도 있었다.²⁴

괴사성 타액선화생이 경구개에 나타난 경우 초기에 정상적인 점막으로 덮인 종창의 형태로 나타나기도 하는데, 종창의 지속기간은 대개 2주 정도이다.¹² 임상증상은 다양하지만 통증이 있는 경우가 없는 경우보다 두 배 이상이다.¹¹ 지각이상과 지각마비가 나타나는 경우도 있으므로 이런 경우는 특히 악성 종양과 감별 진단이 필요하다.¹⁸

본 증례는 구개부를 국소마취한 후에 구개부 연조직 종창과 하방 경구개의 골 침식을 보이는 예로, 저자들은 이 증례의 발생원인을 구개부 국소 마취에 의하여 생긴 괴사성 타액선화생으로 판단하고 있다.

Shigematsu 등²¹은 쥐를 대상으로 한 실험에서 지속적인 국소마취가 경구개 소타액선에 괴사성 타액선화생과 유사한 조직변화를 야기할 수 있음을 증명하였다. 또한 구개부 국소마취 후에 괴사성 타액선화생이 발생한 것으로 추정되는 증례 보고들이 있었다.^{11,13,15}

본 증례에서 골의 침범 양상을 교합방사선사진과 파노라마방사선사진에서는 관찰할 수 없었으나, 전산화 단층촬영을 한 결과 연조직 부종 하방의 경구개의 골 침식을 관찰할 수 있었다. 일반적으로 괴사성 타액선화생은 골을 침범하지 않지만 드물게 연조직 하방에 골 침식을 나타내는 경우도 있다.¹¹ 많은 증례 보고들이 구개부에 발생한 괴사성 타액선화생을 보고 하였으나, 어떤 일반 방사선사진을 촬영하였는지는 명확하지 않았고, 전산화단층촬영을 하였는지의 여부도 알 수가 없었다.^{2-10,12-19} 그러므로 전산화 단층사진을 촬영하여 구개골의 단층면을 관찰할 수 있었다면 괴사성 타액선화생 증례에서 골 변화 여부에 대한 정확한 자료를 얻을 수도 있었을 것이다.

임상 관찰에서 후방 경구개 부위에 궤양 없이 어느 정도 단단하고, 반구형이며, 무통성의 부종이 비염증성이라고 판단되면, 대개 구개부위 소타액선에서 기인한 질환일 가능성을 생각해야 한다.²³ 통계적으로 이 부위에 발생한 병변은 양성보다는 악성일 가능성이 더 높으며,²⁴ 양성 혼합종양 (benign mixed tumor), 선양낭성암종 (adenoid cystic carcinoma)이나 괴사성 타액선 화생의 가능성을 고려하여야 한다.²³

괴사성 타액선화생은 조직의 형태가 선조직으로 침윤한 표면상피 기원의 편평상피암종 또는 구강 점막상피로 이행된 선조직 기원의 점액표피양암종과 유사하다.^{1,16-17} 그러

나 본 증례에서는 최초 절개생검에서는 섬유종으로 진단되었고, 절개생검에서 괴사성 타액선화생으로 진단되었다.

최초 생검에서 섬유종으로 진단된 것은 아마도 병변의 특징적인 형태를 보여줄 만한 절개 생검이 이루어지지 않았기 때문으로 추정된다. 그러므로 불필요한 수술을 받지 않도록 병변의 특징적인 형태를 보여줄 만큼 충분한 절개 생검을 시행하여 정확한 진단을 내리도록 하는 것이 중요하다.¹⁰

괴사성 타액선화생은 만여 개의 구강악안면 조직검사에서 3증례²⁰가 보고되었고, 본 증례 보고에서도 6년간 1,500여 개의 구강악안면 조직검사에서 단 1증례만을 찾을 수 있었다. 구개부 국소마취 후에 구개부 종창을 나타냈고, 전산화 단층 촬영사진에서 경구개의 골침식이 관찰되었으며, 2회에 걸친 조직 검사 후 괴사성 타액선화생으로 진단할 수 있었다. 괴사성 타액선화생은 임상적으로나 조직학적으로 악성으로 진단되어 광범위한 외과 치료가 수행될 수도 있으므로,^{3,5-8,10} 비록 발생빈도가 낮더라도 치과의사들은 괴사성 타액선화생의 병력, 임상조건, 방사선 사진 양상, 조직양상을 숙지하고 진단해야 한다.

참 고 문 헌

1. Abrams AM, Melrose RJ, Howell FV. Necrotizing sialometaplasia: a disease simulating malignancy. *Cancer* 1973; 32 : 130-5.
2. Imbery TA, Edwards PA. Necrotizing sialometaplasia: literature review and case reports. *J Am Dent Assoc* 1996; 127 : 1087-92.
3. Arguelles MY, Vilorio TB, Talens MC, McCrory TP. Necrotizing sialometaplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976; 42 : 86-90.
4. Dunlap CL, Barker BF. Necrotizing sialometaplasia: report of five additional cases. *J Oral Surg* 1974; 37 : 722-7.
5. Fechner RE. Necrotizing sialometaplasia: a source of confusion with carcinoma of the palate. *Am J Clin Pathol* 1977; 67 : 315-7.
6. Maisel RH, Johnston WH. Necrotizing sialometaplasia involving the nasal cavity: report of 2 cases. *Laryngoscope* 1977; 87 : 429-34.
7. Marciani R, Sabes WR. Necrotizing sialometaplasia: report of three cases. *J Oral Surg* 1976; 34 : 722-6.
8. Myers EN, Bankaci M, Barnes EL. Necrotizing sialometaplasia. report of a case. *Arch Otolaryngol* 1975; 101 : 628-9.
9. Murphy J, Ginuta J, Meyer I, Robinson K. Necrotizing sialometaplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1977; 44 : 419-24.
10. Willams RF. Necrotizing sialometaplasia after bronchoscopy. *J Oral Surg* 1979; 37 : 816-8.
11. Brannon RB, Fowler CB, Hartman KS. Necrotizing sialometaplasia. a clinicopathologic study of sixty-nine cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72 : 317-25.
12. Anneroth G, Hansen LS. Necrotizing sialometaplasia. the relationship of its pathogenesis to its clinical characteristics. *Int J Oral Surg* 1982; 11 : 283-91.
13. Grillon GL, Lally ET. Necrotizing sialometaplasia: literature review and presentation of five cases. *J Oral Surg* 1981; 39 : 747-53.
14. Mandel L, Kaynar A, Dechiara S. Necrotizing sialometaplasia in a patient with sickle-cell anemia. *J Oral Maxillofac Surg* 1991; 49 : 757-9.
15. Sandmier D, Bouzourene H. Necrotizing sialometaplasia: a potential

- diagnostic pitfall. *Histopathology* 2002; 40 : 200-1.
16. Schönig H, Emshoff R, Kreczy A. Necrotizing sialometaplasia in two patients with bulimia and chronic vomiting. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1998; 27 : 463-5.
 17. Van der Wal JE. Necrotizing sialometaplasia: report of 12 new cases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1990; 28 : 326-8.
 18. Lamey PJ, Lewis MAO, Crawford DJ, Macdonal DG. Necrotizing sialometaplasia presenting as greater palatine nerve anaesthesia. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1989; 18 : 70-2.
 19. Birkholz Howard, Minton GA, Yuen Y. Necrotizing sialometaplasia: review of the literature and report of nonulcerative case. *J Oral Surg* 1979; 37 : 588-92.
 20. Mesa ML, Gertler RS, Schneider LC. Necrotizing sialometaplasia: frequency of histologic misdiagnosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984; 57 : 71-3.
 21. Shigematsu H, Shigematsu Y, Noguchi Y, Fujika K. Experimental study on necrotizing sialometaplasia of the palate in rats. role of local anesthetic injections. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1996; 25 : 239-41.
 22. Matsumoto T, Kuwabara N, Shiotsu H, Fukuda Y, Yanai A, Ginichiro I. Necrotizing sialometaplasia in the mouth floor to reconstructive surgery for tongue carcinoma. *Acta Pathol Jpn* 1991; 41 : 689-92.
 23. Correll RW, Wescott WB, Pierce GL. Asymptomatic, nonulcerated swelling of the posterior hard palate. *J Am Dent Assoc* 1982; 105 : 512-3.
 24. Spiro RH, Koss LG, Hajdu SI, Strong EW. Tumors of minor salivary organ: a clinicopathologic study of 492 cases. *Cancer* 1973; 31 : 117-29.