

이하선에 발생한 타액선도관낭종의 치험례 : 증례보고

정진원 · 양병은 · 김성곤

한림대학교 의과대학 한림대학교성심병원 구강악안면외과학교실

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2008;34:495-497)

A CASE REPORT OF THE SALIVARY DUCT CYST AND REVIEW OF LITERATURES

Jin-Won Jung, Byoung-Eun Yang, Seong-Gon Kim

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Hallym Univ. Medical Center

The salivary duct cyst is a rare disease and usually found in the parotid gland. A 55-years-old man presented swelling in the left buccal area and pathological diagnosis was a salivary duct cyst. Though its recurrence has been reported rare, the presented case showed recurrent swelling after enucleation. The recurrent lesion was successfully treated by incision and drain insertion.

Key words: Salivary duct cyst, Parotid gland, Salivary gland disease

I. 서 론

이하선에 자주 발생하는 것으로 알려진 종양 및 질병에는 타액선염(sialoadenitis), 쇼그렌 증후군(Sjögren's syndrome), 다형성 선종(pleomorphic adenoma), 선립프종(Warthin's tumor) 등이 있다. 타액선염은 바이러스나 세균 등의 다양한 원인에 의해 발생 가능하고 이환된 타액선의 종창, 동통, 외부 피부의 홍반, 미열, 개구장애, 화농성의 분비물의 증상을 보일 수 있다^{1,2}. 쇼그렌 증후군은 만성자가면역질환으로 구강건조증과 안구건조증을 동반하는 것으로 알려져 있다³. 다형성 선종은 이하선의 천부에 흔하며 임상적으로 하악각 전방부 귀밑에 잘 나타나며 작고 무통성으로 천천히 자라며 드물게 안면신경을 침범할 수 있다⁴. 선립프종은 이하선에서 발생한 경우 하악각 후방에 주로 나타나며 무증상의 서서히 자라는 결절성 종괴로 나타난다⁵.

본 증례는 좌측 상악 구치부 협점막의 종창 및 안면부의 부종으로 양성종양진단하에 수술한 증례로 이하선에서 흔히 발생하는 여러질환과 발생위치 및 임상양상이 다르게 나타났고, 또한 조직검사결과 타액선도관낭종으로 진단되었다. 타액선

도관낭종은 주로 이하선에 발생한다고 알려져 있지만 이와 관련하여 증례보고가 거의 없는 희귀질환이므로 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증례보고

본 증례는 55세 남자환자로 좌측 안면부의 부종 및 상악구치부 협점막의 종창으로 인한 개,폐구 운동 및 저작 불편을 주소로 2007년 1월8일 내원하였다. 안면부의 부종 및 협점막의 종창은 내원 3일전부터 무통성으로 크기가 증가하였으며 증상 발현 전 특별한 치과치료 및 병원치료는 받지 않았다고 진술하였다.

임상검사상 좌측전이개부의 종창 및 좌측 상악구치부의 협점막에 무통성의 경결감이 있는 종물을 촉진할 수 있었으며, 촉진시 통증이나 Stensen's duct로 고름(pus)의 배출 등의 증상은 보이지 않았다. 종물은 비교적 잘 고정되어 있었고, 점막은 주위에 비해서 약간 백색의 색조변화를 보였으나 궤사 및 궤양성의 변화는 관찰되지 않았다. 특별한 개구제한 및 폐구제한을 보이지 않았고 감각의 이상 소견도 보이지 않았다. 생징후(vital sign)에서도 특별한 소견은 보이지 않았다.

방사선학적 소견은 자기공명영상에서 좌측 상악구치부와 하악지 사이에 0.8×2×1 cm 크기의 주위조직과 경계가 확실한 대롱모양의 종물을 확인 할 수 있었다. 주위의 연조직 등은 특별한 병적소견은 보이지 않았으며 타액선의 종창 및 림프절의 비대와 같은 이상소견도 보이지 않았다(Fig. 1. A, B). 별도의 특수촬영은 실시하지 않았다.

양 병 은

431-070 경기도 안양시 동안구 평안동 896
한림대학교성심병원 치과진료센터 구강악안면외과학교실
Byoung-Eun Yang
Dep. of OMFS, Hallym Univ. Sacred Heart Hospital,
Pyeonan-dong, Dongan-gu. Anyang-si, Gyeonggi-do, 431-070, South Korea
Tel: 82-31-380-3874
E-mail: omsyang@gmail.com

상기환자는 전신병력상 대장계실(diverticulum) 및 간농양, 중이염으로 인해 입원 및 수술경험이 있었으며, 내과적으로 변이협심증, 고혈압, 고지혈증으로 인해 투약중이었다. 흉부방사선 검사, 심전도 검사, 이화학적 검사에서서는 특이할 만한 이상소견은 보이지 않았다.

상기환자의 진술 및 임상, 방사선학적 소견을 종합하여 양성종양으로 가진하고 2007년 1월16일 경구삼관 및 전신마취하에 구내로 병소부위에 접근하기 위하여 좌측상악구치부의 협점막을 2.5cm 정도 절개하였다. 절개후 주변조직을 박리하면서 병소부위로 접근 중 병소부위의 파열이 일어나며 황색의 낭종액이 배출되었다. 낭종액의 배출 후 경결감을 보이던 협점막의 종물이 시진 및 촉진상 사라진 것을 볼 수 있었다. 병소부위

는 비교적 주위조직과 경계가 분명한 것을 알 수 있었고 주의 깊게 주변조직과 박리하여 종물을 적출하였다. 종물을 제거한 후 드레인(drain)을 삽입하고 층별봉합을 시행한 후 압박드레싱을 시행하였다. 환자는 수술 6개월 후 수술부위의 종창을 주소로 재내원하였고 절개 및 배농관 삽관을 통하여 치료하였다. 현재 재발 및 특이한 이상소견없이, 기능적으로 양호한 상태를 보이고 있다.

제거된 조직에 대해 H&E 염색 후 본 소견에서 파괴되고 있는 타액선하방의 섬유결체조직안에 상피로 이장된 낭성 병소가 보이고 있으며 상피는 증식하는 양상을 보이고 있다(Fig. 2. A). 상피층은 이중층 혹은 다중층의 구조로 되어있고 내강으로 증식하는 양상을 보이고 있지만 섬유결체조직으로는 침습

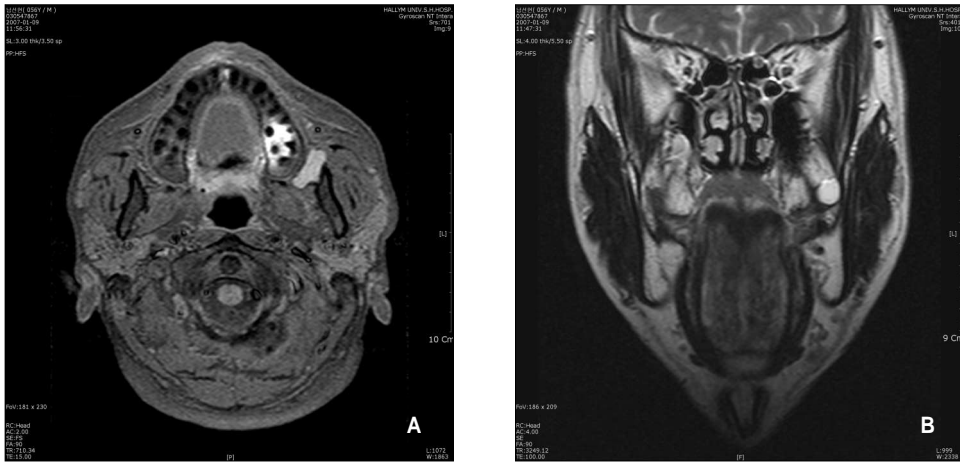


Fig. 1. MRI on initial presentation. MRI showed cylinder & oval shpae lesion on Lt. maxillary posterior area(A, B).

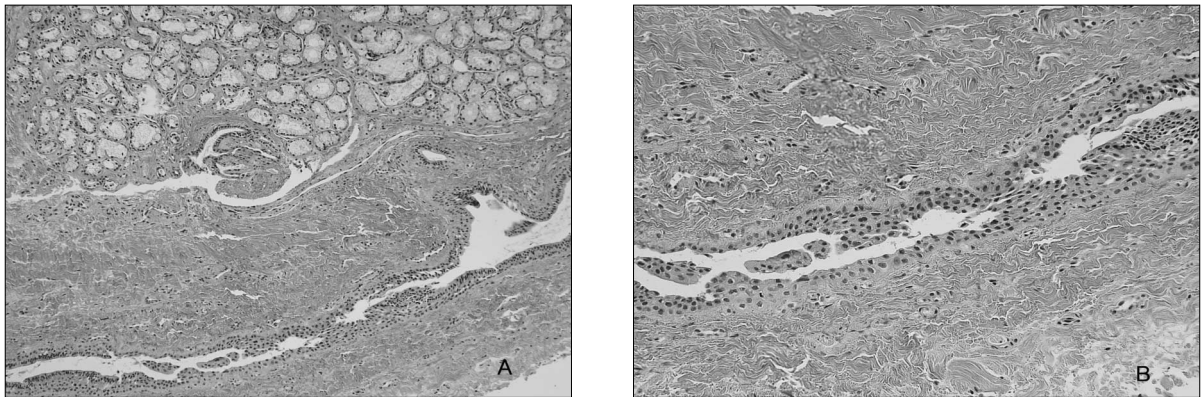


Fig. 2. (A) Histopathological examination showing epithelium-lined cavity in connective tissue. (Hematoxylin-eosin stain; original magnification ×100). (B) Some lining epithelium in cystic cavity showing Bi-layered or multi-layered epithelial cell was observed. Proliferation of epithelial lining was observed in cystic cavity(Hematoxylin-eosin stain; original magnification ×200).

하는 양상은 보이지 않고 있다. 핵의 형태, 핵과 세포질의 비율, 비정상적인 세포분열의 유무 등을 보았을 때 종양성의 변성은 보이지 않고 있다(Fig. 2. B).

Ⅲ. 고 찰

타액선도관낭종은 내강이 타액선 조직에서 기원한 상피로 이장되고 낭성 변성이 보이는 양성종양으로 그 원인으로서는 타석, 점액성의 플러그, 수술 후 혹은 염증 후 도관의 폐쇄 등의 타액선 도관폐쇄에 의해 발생할 수 있다고 보고되고 있다¹⁶⁾. 본 증례의 경우 병소의 위치가 이하선부위와 떨어져 존재하므로 이하선이 아닌 다른 소타액선에서 기원한 낭종으로 생각할 수 있다. 하지만 발병 후 증상이 진행되면서 낭종 내 타액이 저류되면서 위치가 편위될 수 있으므로 이하선 혹은 이하선 도관의 정상적 주행방향과는 다를 수 있다. 또한 본 증례는 발병 후 전이개부 즉 이하선 부위에 반복적인 종창이 존재하였으므로 주위의 소타액선에서 기원한 낭종이라고는 볼 수 없다.

일부학자들은 타액선도관낭종의 임상적인 양상이 점액류와 흡사하므로 일종의 점액류로 포함시키기도 한다. 하지만 임상적으로 점액류는 타액선도관의 파열로 인한 점액의 유출로 발생하는 것이고 타액선도관낭종은 점액의 저류에 의해 발생한다. 또한 조직학적으로도 점액류와는 달리 타액선도관낭종은 이장상피가 존재하므로 진성낭이므로 두 질환은 구별되어야 할 것이다.

타액선도관낭종은 두경부 영역의 타액선에서 발생하는 낭종의 약 10%를 차지한다고 Seifert는 보고하였다^{7,8)}. 하지만 Takeda 등은 586개의 타액선 낭종 중 오직 3개(0.5%)가 타액선도관낭종이었다고 보고하고 있다⁹⁾. 또한 한국에서도 아직까지 타액선도관낭종에 대한 사례가 많이 보고되지 않고 있다. 점액저류낭과 하마종의 발생율에 대해서도 Seifert와 Takeda는 다른 조사결과를 보이고 있었는데, Seifert는 점액저류낭과 하마종이 각각 10-12%, 3-5%로 보고하였지만 Takeda는 점액저류낭이 0.5%, 하마종이 19%로 보고하였다⁹⁾. 이렇게 조사결과간에 차이를 보이는 것에 대해서는 뚜렷한 원인을 찾아낼 수는 없지만 인종간의 차이, 음식성분, 습관 등의 다양한 요인이 복합적으로 이루어진 것이라고 생각될 수 있으므로 좀 더 많은 연구가 필요할 것이다.

Jensen은 166례의 타액선도관낭종 152례가 이하선에 발생하였고, 13례는 악하선, 1례는 설하선에서 발생하였음을 말하며 이하선에서의 호발을 보고하였다¹⁰⁾. 타액선도관낭종은 성별에 대한 호발유무는 존재하지 않는 것으로 알려져 있으며 주로 30-40세 이상의 환자에서 호발한다고 알려져있다⁹⁾. 또한 편측성의 무통성의 종창, 대다수가 1-3cm정도의 크기를 갖는다고 알려져있다¹⁶⁾. 본 증례에서도 장년층의 나이, 이하선에 위치한 병소, 편측성의 무통성의 종창, 병소의 크기도 0.8×2×1 cm로 비슷한 양상을 보이고 있었다.

타액선낭종과 연관된 타액선종양에 대한 증례는 아직까지 많이 보고되고 있지는 않으며, 현재까지 5례로 매우 드물었다:

설하선에서 타액선도관낭종과 연관된 선양낭성암종⁹⁾, 이하선에서 타액선도관낭종과 연관된 점액표피양암종⁷⁾, 이하선에 림프상피성 낭종과 연관된 기저세포선종⁶⁾, 소타액선에서 점액저류낭종과 연관된 2례의 점액표피양암종⁴⁾, 이하선에서 타액선도관낭종과 연관된 선암⁶⁾. Seifert는 타액선낭종중에서 특이한 형태가 타액선종양을 유발시킬 수 있다는 가설을 제시하며, 특히 이하선의 타액선도관낭종과 소타액선의 점액저류낭종에서 상피의 화생이 보이며 국소적인 상피의 증식을 보고하였다⁷⁾. 본 증례에서는 단방성의 구조에 이중 혹은 다중층의 상피층으로 구성되어 상피의 증식이 보이지만 종양으로 볼 수 있는 소견은 보이지 않았다. 따라서 타액선도관낭종을 종양을 유발시킬 수 있는 가능성은 희박하다 할 수 있지만 아직은 더 많은 연구가 필요할 것으로 생각된다.

두경부에 발생한 타액선도관낭종은 임상검사 및 타액선 조영술, 전산화 단층촬영, 자기공명영상 등을 이용한 방사선학적 검사에 의해 진단될 수 있다. 타액선 조영술은 타액선의 도관계와 선실질의 상태를 보여주고, 전산화단층촬영 및 자기공명영상은 밀도가 유사한 연조직간에도 높은 대조도 및 해상도를 제공하므로 두경부에 발생한 타액선도관낭종의 진단에 도움이 된다^{13,4)}.

대부분의 타액선 도관 낭종은 보존적인 외과적 절제가 추천되며 재발은 거의 일어나지 않는 것으로 보고되고 있다. 하지만 대타액선의 낭은 경우 타액선의 부분 혹은 전부를 절제해 내야할 경우도 있다¹²⁾.

본 증례는 1차 수술을 시행하고 6개월 경과 후 다시 수술부위의 종창을 주소로 환자가 내원하였고 절개 및 배농관 삽관을 시행하고 다시 내원하였을 때에는 상기 증상이 사라져 있었다. 하지만 반복적인 종창이 관찰된다면 타액선의 부분절제를 고려해야 할 것으로 사료된다.

참고문헌

1. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE: Oral and Maxillofacial Pathology 2nd. W.B.Saunders company. 2002.
2. 대한구강악안면외과학교과서 1판. 의치학사. 1998.
3. 구강악안면 방사선학 3판. 나래출판사. 2001.
4. 이상래, 최순철, 고광준, 황의환, 최용석: Atlas of oral and maxillofacial radiology 1판. 군자출판사. 2006.
5. Batsakis JG, Raymond AK: Sialocyst of the parotid glands. Ann Otol Rhinol Laryngol 1998;98:487-489.
6. Takeda Y, Yamamoto H: Salivary duct cyst: its frequency in a certain japanese population group, with special reference to adenomatous proliferation of the epithelial lining. J Oral Sci, 2001;43:9-13.
7. Seifert G: Mucoepidermoid carcinoma in a salivary duct cyst of the parotid gland. Path Res Pract 1996;192:1211-1217.
8. Seifert G, Miehleke A, Haubrich J, Chilla R: Diseases of the salivary glands. George Thieme Verlag, Stuttgart, 91-100.
9. Ogawa Y, Kishino M: Adenoid cystic carcinoma associated with salivary duct cyst in the sublingual gland. J Oral Pathol Med 2004;33:311-313.
10. Harrison JD, Garrett JR: Mucocoele formation in cats by glandular duct ligation. Archs Oral Biol 1972;17:1403-1414.