

악하선에서 발생한 거대 타석증: 증례 보고

최우성 · 윤현중 · 이상화

가톨릭대학교 여의도 성모병원 구강악안면외과

Abstract (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2010;36:141-4)

Giant sialolithiasis of the submandibular gland: a case report

Woo-Sung Choi, Hyun-Joong Yoon, Sang-Hwa Lee

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yeouido St. Mary's Hospital, The Catholic University, Seoul, Korea

Sialolithiasis is the common pathology of salivary gland. The size of sialoliths vary from 1 mm to a few cm, but most of that are less than 10 mm. Large sialoliths (larger than 15 mm) are extremely rare. It is called Giant sialolithiasis or megalith. Symptom of the giant sialolithiasis is similar to that of regular sialolithiasis. First choice of treatment is removal of the stone. Many literatures reported various methods to remove the sialoliths. For this case report, we accidentally found the giant sialolith on the computed tomography taken for dental implant, and successfully removed the stone by minimal invasive surgical approach. Base on this result, we report this case with literature reviews.

Key words: Giant sialolithiasis, Megalith, Submandibular gland

(원고접수일 2010. 2. 22 / 1차수정일 2010. 3. 10 / 2차수정일 2010. 3. 25 / 게재확정일 2010. 4. 2)

I. 서 론

타액선의 폐쇄성 질환은 흔히 관찰되는 것으로 타액선 도관, 문(hilum), 타액선 자체에 석회화 또는 유기물에 의한 것이다. 그 중에서 석회화된 침전물이 존재하는 것을 타석증(sialolithiasis)이라 한다. 대다수의 타석증이 악하선에서 호발하며, 다음으로 이하선에서 발생되고 설하선에서는 매우 드물게 관찰되는 것으로 알려져 있다^{1,2}. 호발하는 성별은 남성, 연령대는 10대에서는 드문 것으로 보고되고 있다^{2,3}. 타석증을 감별하기 위한 검사로 임상적으로는 환자의 병력 청취, 증상, 촉진 등을 통해서, 방사선적으로는 표준방사선사진(하악 교합 촬영, 하악골 측사 촬영 등), computed tomography (CT) scan, 타액선 조영술 등을 통해서, 그 외에 magnetic resonance imaging (MRI), 초음파 촬영, 타액선 내시경(sialoendoscopy) 등을 통해서도 관찰할 수 있다.

타석증의 일반적인 임상 증상은 도관 폐쇄로 인한 해당

타액선의 부종, 통증 등으로 주로 식사시에 증가했다가 휴식기에 완화되는 특징이 있다. 이는 저작 시 타액선의 타액 분비가 증가됨에 따라 폐쇄된 도관의 압통으로 인한 것으로 알려져 있다^{1,4}.

타석증의 처치는 증상을 없애기 위하여 타석을 제거하는 것이 주된 초점이다. 타석이 매우 작거나 도관 입구부에 있는 경우 타액의 배출 촉진 및 해당 부위의 마사지를 통해서 타석의 제거를 유도하기도 하지만 증상이 있는 대다수의 경우 이러한 처치로 개선되지 않는 경우가 많다. 타석의 위치에 따라 외과적으로 타액선 내시경과 같은 기구를 이용 또는 동반한 단순한 제거나 도관부의 절개를 통해 제거가 가능한 경우가 있고, 부피가 크거나 위치가 도관의 근심부 또는 타액선 실질에 근접한 경우 타액선의 적출이나 쇄석술을 사용하는 경우도 있다⁵⁻¹².

관찰되는 타석의 성분은 유기물과 무기물의 혼합체로 발생기전에 대하여는 많은 논란이 있으나 일반적으로 타액이 저류되는 부분에서 오랜 기간 동안 핵이 되는 유기물 주변으로 칼슘과 인 등의 무기물이 침착되어 생성된다고 알려져 있다^{1,3,5}.

타석의 크기는 매우 다양하다. 대다수는 10 mm 이하의 길이를 가지며 15 mm 이상의 길이를 가지는 타석은 그 빈도가 매우 적다. 명확히 크기에 대하여 규정된 바는 없으나 일반적으로 15 mm 이상의 큰 타석이 관찰되는 경우 거대 타석증(megalith, giant sialolithiasis)으로 부르며 매우 드물

이상화

150-713 서울특별시 영등포구 여의도동 62
가톨릭대학교 여의도 성모병원 구강악안면외과

Sang-Hwa Lee
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yeouido St. Mary's Hospital,
The Catholic University of Korea
62 Yeouido-dong, Yeongdeungpo-gu, Seoul, 150-713, Korea
TEL: +82-2-3779-2014 FAX: +82-2-769-1689
E-mail: justina@catholic.ac.kr

게 보고되고 있다^{3,4,13-18}.

이에 본 증례 보고에서는 가톨릭대학교 여의도 성모병원 구강악안면외과를 내원한 거대 타석증 환자의 진단, 치료 및 경과에 대해 보고하고자 한다.

II. 증례 보고

2009년 3월 가톨릭대학교 여의도 성모병원 구강악안면외과로 53세 여자 환자가 내원하였다. 내원 당시 주소는 상악 좌측 구치부의 동통으로 파노라마 사진 촬영 후 주소부위의 만성 치주염으로 인한 발치를 시행하였다. 파노라마 촬영 당시 타석은 명확히 관찰되지 않았다. 발치 부위의 임플란트 식립을 위한 CT 촬영 시 좌측 설하부의 타석(22 mm × 5.5 mm)이 관찰되었으며 도관의 중간부위에 있는 것으로 추정하였다.(Figs. 1. A, B) 추가적인 환자 병력 청취를 시행한 결과 당시에는 특별한 증상을 호소하지는 않았지만, 과거 좌측 설하부의 부종을 경험한 적이 있었음을 확인할 수 있었다.(Fig. 2) 환자의 동의 하에 타석 제거술을 계획하였다.

2009년 6월 타석 제거술을 시행하였다. 수술 30분 전 예방적 항생제(amoxicillin+clavulanate)를 투여하였고 의식하진정마취(2% propofol continuous infusion & alfentanil 500 µg IV bolus injection) 및 국소마취제(2% lidocaine with

1:100,000 epinephrine)로 침윤마취, 설신경 전달마취 시행 하에 진행되었다. 구강외부로부터 악하 부위를 눌러 구강저에서 타석을 촉진할 수 있었다. 거대 타석이었으므로 타액선 실질 쪽으로의 변위 가능성성이 적어 도관 근심부측을 봉합사로 묶는 것 등은 시행하지 않았고 근심부로 이동 방지 및 타석의 도관 원심부로의 이동 촉진을 위해 근심부를 손가락으로 압박하였다. 이 때 구강저 점막으로 가장 근접하여 촉진되는 부위를 최소한으로 절개하여 타석을 노출시켰다. 근심부에서 원심부로 압박하면서 절개된 부위를 통해 타석을 제거하였다.(Fig. 3) 타석 제거 후 절개된 입구부는 따로 봉합하거나 catheter를 삽입하지 않고 개구된 상태를 유지하였다. 수술 당일 오후 지혈 및 창상 상태 확인 후 퇴원하였다. 수술 후 약 5일간 경구 항생제를 유지하였으며, 익일 구강 내 소독을 시행하였다. 술후 1주일부터 8개월(2010년 2월)까지 주기적 검사를 시행하였다.

타석 제거술을 진행 후 익일 및 1주일 뒤 내원 시 술후 부종은 확인되었으나 제거부위의 감염이나 배脓과 같은 문제는 관찰되지 않았다. 최종 8개월 뒤 재내원에서 수술한 부위에 일부분 반흔이 형성된 것을 관찰할 수 있었고 Wharton's 도관 입구부 및 수술 부위의 누공(약 1 mm 이하)을 통해 타액이 배출되는 것을 확인할 수 있었다.(Figs. 4. A, B) 그러나 환자의 개인적인 증상 또는 증후는 없었으며 타액 흐름에 큰 문제가 관찰되지 않았고 그 외 합병증도 관

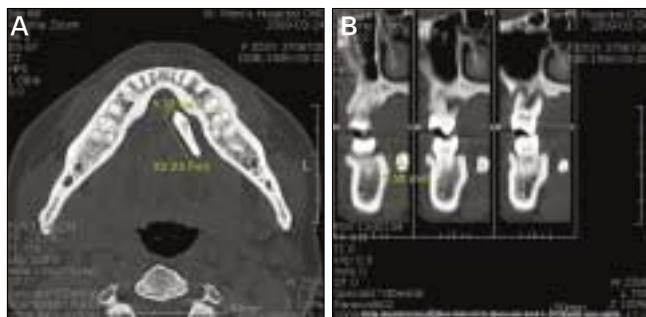


Fig. 1. A. Transverse view of CT scan, B. Para-axial view of CT scan. (CT: computed tomography)



Fig. 3. Macroscopic view of giant sialolith. It measured to be approximately 22 mm in length, 5.5 mm in wide.



Fig. 2. Pre-operative intraoperative view. A firm material was palpated. (arrow)



Fig. 4. A. Post-operative intraoperative anterior view (8 month), B. Left side view. (8 month) Scar was formed on operation site, but saliva was discharged to Wharton's duct & operation site. Patient had no clinical symptom. Salivary flow was normal. (Right arrow: Wharton's duct orifice, Left arrow: operation site fistula)

찰되지 않았다.

III. 고 칠

타석증은 타액선 폐쇄성 질환의 대부분을 차지하는 질환이다. Lustmann 등²에 의하면 가장 호발하는 부위는 악하선으로 알려져 있고(80-90%), 설하선과 소타액선 등에서 가장 빈도가 낮은 것으로 보고된 바 있다. 악하선에서 호발하는 이유로는 여러 가지가 언급되고 있는데, 악하선 타액이 이하선 등에 비해 보다 많은 점액질 성분을 가지고 있고, 상대적으로 높은 알칼리성을 가진다는 것이 한 가지 이유이다. 그 외로 해부학적 요인이 많이 언급되는데 상대적으로 다른 타액선에 비하여 상대적으로 길고 넓은 도관을 가지고 있으며 도관의 방향이 급격히 변하는 부분(comma area, hilum)에서의 저류 등이 그 원인으로 제시되고 있다. 성별의 차이로는 여성보다는 남성에서 다소 호발, 연령별 차이로는 10대 이하에서 드물고 30-60대가 대다수를 차지한다고 보고되고 있다. 본 증례 보고의 환자는 53세 여자 환자로 성별에서는 다소 차이가 있기는 하나 역시 악하선에서 거대 타석이 관찰되었다^{1,4}.

거대 타석증은 크기에 대해 명확히 규정된 바는 없지만 일반적으로 15 mm이상의 길이를 가지는 타석이 하나 또는 그 이상 존재하는 것으로 보고 있다. Ledesma-Montes 등의 문헌 고찰에 의하면, 거대 타석증은 1942년 Meyer 등에 의해 처음 보고된 이후 매우 드물지만 몇몇 논문들에서 보고되고 있는 것으로 알려져 있다^{3,4,13-18}. 보고된 바에 따르면 거대 타석증의 대다수는 악하선에서 발생되었던 것으로 나타나고 있으며, 이하선에서도 간혹 발견된다는 보고가 있다^{12,16,17}. 이는 앞에서 언급된 바와 같이 이는 통상의 타석 호발 부위와 유사한 것이다. Bodner 등은 정상 악하선의 약 80%, 정상 이하선의 약 10%에서 미세 타석(microcalculi)이 관찰되는 것이 이런 발생률과 잘 부합하는 것이라 하였다. 좀 더 세부적으로 발견되는 위치를 살펴보면 대부분이 도관이었고 타액선 실질에서 발견되는 경우도 있었으나 드물었다^{3,13}. 본 증례 보고에서도 악하선 도관에서 거대 타석이 관찰되었으며 그 크기는 길이 22 mm, 폭은 5.5 mm였다.

타석의 생성 원리에 대하여는 아직 명확히 밝혀진 바는 없다. Baurmash 등은 타석은 타액에서 유래한 초기 유기물핵에 무기물이 침착되어 형성된다고 하였으며, 타액내의 칼슘 농도가 자발적으로 석회화가 일어날 정도로 충분히 높지 않음에도 타석이 형성되는 것을 타액의 점도와 저류가 큰 역할을 한다고 하였다^{1,5}. 거대 타석의 경우도 명확한 생성 원리에 대해 밝힌 연구는 없었다. 일반적으로 생각되는 타석의 생성 기전에 앞에서 언급된 해부적 특이성이 겹쳐져 거대 타석이 발생하게 되는 것으로 생각된다.

타석증의 경우 가장 일반적으로 관찰되는 임상적 증상은 이환된 타액선 부위의 부종과 통증이다. 도관 입구부의 삼출물 또는 발적이 관찰되기도 한다. 이런 증상은 식사나 저

작 시에 증가되며 휴식기에 완화되는 양상을 보여주는 경우가 많은데, 타석에 의해 폐쇄된 도관으로 타액의 분비가 증가되면 이로 인해 증상이 발생되는 것으로 알려져 있다. 본 증례 보고에서의 환자는 특별한 주소는 호소하지 않았으나 이는 매우 드문 경우이며, 과거 병력 청취 시에 이환된 측의 설하부에 부종의 기왕력이 있었다는 것을 알 수 있었다^{1,4}.

타석증의 치료는 다양한 방법이 있다. 타석의 크기가 매우 작고, 도관 입구부에 있는 경우 신 음식물 섭취를 통해 타액 배출을 증가시키거나 이환부의 마사지를 통해서 타석의 배출을 유도하기도 한다. 하지만 거대 타석증과 같은 경우 이러한 접근은 한계가 있고 여러 방법을 통해 제거하는 경우가 대다수이다. 타석을 직접적으로 제거하는 것으로는 도관의 원위부나 도관 입구부에 타석이 있는 경우, 타석 절개술(sialolithotomy)을 통하여 제거하거나 타액선 내시경(sialendoscopy)을 이용해서 작은 견자(forcep) 등으로 제거하는 방법이 있다⁶⁻⁸.

도관의 근심부나 타액선 근처 또는 내부에 존재하는 타석의 경우 타액선 절제술(sialadenectomy)이 시행되기도 한다¹². 이 술식은 충분히 증상을 완화시킬 수 있지만, 여기에는 안면신경 손상, 흉터(구강 외접근시), 타액량의 감소 등의 여러 가지 합병증이 존재하고 있다. 최근의 외과적 술식의 추세는 가능한 비침습적이고 간단한 방향으로 진행되고 있어서 도관 근심부의 타석에 대하여는 여러 가지 제거 방법이 논의되고 있다⁶.

비침습적 방법의 하나가 체외충격파쇄석술(extracorporeal shock wave lithotripsy, ESWL)이다. 이는 강한 초음파로 타석을 분해시키는 방법으로 앞에서 언급한 외과적 술식의 합병증이 발생할 가능성이 적다. 그러나 Esquierd 등¹⁰은 이하선과 악하선에 체외 쇄석술을 사용한 경우 완전한 성공이 33%, 부분적인 성공(증상은 없으나 타석이 잔류함)을 35%로 보고 하였고, Siddiqui¹¹는 12 mm 이상의 큰 타석이 선조직에 있는 경우 쇄석술의 성공률이 20% 이하로 떨어진다고 언급하였다. 그 외에도 내시경을 이용한 쇄석술 시 도관에 적합한 직경의 기구의 필요성, 체외 쇄석술 사용 시 선조직의 손상 가능성 등의 문제점이 보고되고 있다⁹.

타석이 도관의 비교적 근심부에 있는 경우에도 타액선을 제거하지 않고 타석 절개술만으로 제거하는 등, 외과적 술식도 가능한 비침습적으로 진행하는 것이 최근의 경향이다.

본 증례 보고에서는 거대 타석에 대한 처치로써 도관을 절개하여 제거하는 방법을 택하였다. 통상의 절개술과는 달리 도관을 확인하기 위한 절개 및 박리를 시행하지 않고 타석의 위치를 정확하게 촉진하여 가장 가까운 부위의 도관과 구강저를 한 번에 최소한으로 절개하여 거대 타석을 제거할 수 있었다.

Combes 등⁶은 근심부 타석을 구내로 제거하는 방법으로 타석 제거 후 도관을 구강저 부위에 따로 봉합하지 않고 도

관이 재건되는 것을 유도하였다. Nahlieli 등⁷은 내시경을 통한 시야확보를 추가로 하여 도관 절개 및 타석 제거 후 catheter를 삽입한 후 봉합하는 것을 보고한 바 있다. 두 경우 모두 도관을 확인하기 위해 추가적으로 구강저의 박리를 시행한 것이 본 연구와는 차이가 있다. 본 증례 보고에서는 부가적인 박리를 하지 않음으로써 술후 부종 및 인접 구조물 손상을 방지할 수 있었고 이는 거대 타석이 구강 내에서 명확히 촉진되는 경우여서 가능하였다. 또한 catheter 와 같은 구강 내 장치를 사용하지 않음으로써 상대적으로 환자의 불편도를 많이 낮출 수 있었다. 술후 8개월 내원 시 Wharton's 도관의 입구와 유사한 크기의 누공이 수술 부위에 관찰되었으나, 타액 배출이 누공과 도관문 양측 모두를 통하여 되는 것을 확인할 수 있었다. 증상과 증후는 관찰된 바 없었고 기타 합병증도 없었다.

IV. 결 론

본 증례 보고에서는 거대 타석증 환자의 진단, 치료 및 결과에 대한 보고로써 파노라마 촬영 시 관찰하지 못했던 부분을 CT를 통해서 정확히 진단할 수 있었다. 이에 따라 구강 내로 가능한 비침습적으로 접근하여 최소한의 절개로 타석을 제거 후 봉합 없이 마무리하였다. 보고된 여러 술식에 비해 비교적 간단하게 진행되었으며, 술후 결과가 양호하여 이를 문현 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

1. Ord RA, Pazoki AE. Salivary Gland Disease and Tumors. In: Miloro M, ed. Peterson's principles of oral and maxillofacial surgery. 2nd ed. London: BC Decker Inc.; 2004;671-7.
2. Lustmann J, Regev E, Melamed Y. Sialolithiasis. A survey on 245 patients and a review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1990;19:135-8.
3. Bodner L. Giant salivary gland calculi: diagnostic imaging and surgical management. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:320-3.
4. Rai M, Burman R. Giant submandibular sialolith of remarkable size in the comma area of Wharton's duct: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;67:1329-32.
5. Baumash HD. Submandibular salivary stones: current management modalities. *J Oral Maxillofac Surg* 2004;62:369-78.
6. Combes J, Karavidas K, McGurk M. Intraoral removal of proximal submandibular stones - an alternative to sialadenectomy? *Int J Oral Maxillofac Surg* 2009;38:813-6.
7. Nahlieli O, Shacham R, Zagury A, Bar T, Yoffe B. The ductal stretching technique: an endoscopic-assisted technique for removal of submandibular stones. *Laryngoscope*, 2007;117:1031-5.
8. Ardekian L, Klain H, Peled M. Obstructive sialadenitis of submandibular gland due to foreign body successfully treated by sialoendoscopic intervention. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;67:1337-9.
9. Liu DG, Zhang ZY, Zhang Y, Zhang L, Yu GY. Diagnosis and management of sialolithiasis with a semirigid endoscope. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009;108:9-14.
10. Escudier MP, Brown JE, Drage NA, McGurk M. Extracorporeal shockwave lithotripsy in the management of salivary calculi. *Br J Surg* 2003;90:482-5.
11. Siddiqui SJ. Sialolithiasis : an unusually large submandibular salivary stone. *Br Dent J* 2002;193:89-91.
12. Chung IK, Kim JR, Kim UK, Shin SH, Kim YD, Byun JH, et al. A clinical study of submandibular gland excision. *J Kor Oral Maxillofac Surg* 2004;30:545-550.
13. Ledesma-Montes C, Garcés-Ortíz Salcido-García JF, Hernández-Flores F, Hernández-Guerrero JC. Giant sialolith : case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2007; 65:128-30.
14. Boffano P, Gallesio C. Surgical treatment of a giant sialolith of the Wharton duct. *J Craniofac Surg* 2010;21:134-5.
15. Soares EC, Costa FW, Pessoa RM, Bezerra TP. Giant salivary calculus of the submandibular gland. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;140:128-9.
16. Zakaria MA. Giant calculi of the submandibular salivary gland. *Br J Oral Surg* 1981;19:230-2.
17. Iqbal SM, Murthy JG, Sharma N. Giant parotid calculus-an unusual presentation. *J Laryngol Otol* 1992;106:446-7.
18. Kesse WK, Shehab ZP, Courtney-Harris R. A megalith of the parotid salivary gland. *J Laryngol Otol* 1998;112:784-5.