

A Case of Multiple Sialoliths in Sublingual Gland Misdiagnosed as Sialoliths in Submandibular Gland

Jae Hoon Lee, Young Hyeon No, Young Woo Cha and Sung Won Kim

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kosin University College of Medicine, Busan, Korea

악하선 타석으로 오인된 다발성 설하선 타석증 1예

이재훈 · 노용현 · 차용우 · 김성원

고신대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received August 6, 2010

Revised November 5, 2010

Accepted November 12, 2010

Address for correspondence

Sung Won Kim, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kosin University College of Medicine,

34 Amnam-dong, Seo-gu,

Busan 602-702, Korea

Tel +82-051-990-6248

Fax +82-051-245-8539

E-mail swforyou@gmail.com

Sialolithiasis is a major cause of salivary gland dysfunction. The majority of sialolithiasis or salivary stones are found in the submandibular glands or in its duct. As such, the sublingual gland is a very rare site for stone formation. We described a 30-year-old woman with multiple sialoliths in the sublingual gland. These sialoliths were removed by transoral sublingual sialadenectomy. A total of 11 calculi were found.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:81-4

Key Words Salivary duct calculi · Sublingual gland.

서 론

타석증은 비교적 흔한 질환이며, 타석이 생기는 침샘은 악하선이 80~90%로 가장 흔하고, 이하선이 5~10%이며, 설하선 및 소타액선은 0.5%로 매우 드물다.¹⁾ 타석의 개수는 단일 타석이 70~80%, 두 개인 경우는 20%이고, 세 개 혹은 그 이상의 타석이 생기는 경우는 5% 정도로 드물다.²⁾ 설하선 타석은 대부분 다발성으로 최대 22개까지 보고되어 있으며, 악하선관에 발생하는 길쭉한 모양의 타석과는 달리 그 모양이 원형 혹은 타원형이다.^{2,3)} 진단은 식사를 한 후에 침샘이 있는 부위가 붓는다는 특징적인 병력, 시진, 양손 촉진 그리고 초음파 및 컴퓨터단층촬영 등의 방사선 검사로 이루어지며, 최근에는 광학기술이 발달하여 침샘관을 통한 내시경술로 침샘관과 일부 침샘 내의 타석을 진단하고 제거가 가능하게 되었다.⁴⁾ 타석증의 치료는 침샘을 보존하고 타석만을 제거하려고 시도를 하지만 침샘에 염증이 반복되고 타석증이 재발성으로 생기거나 침샘관의 협착이 있는 일부 경우는

원인이 되는 침샘을 절제하는 치료를 시행하게 된다. 저자들은 설하선에서 발생한 다발성 타석증을 경험하였고 이는 매우 드문 경우로 판단되어 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

30세 여자 환자가 내원 1개월 전부터 좌측 구강저의 점막에 부종 및 압통이 발생하여 내원하였다. 환자는 식후 구강저의 통증이 악화되는 양상이었고, 개구장애나 연하곤란, 농배출의 소견은 보이지 않았다. 양손 촉진법을 시행해보니 좌측 구강저 2~3번째 대구치 내측에서 비교적 단단하고 압통을 동반한 점막 부종이 촉진되었다. 식후에 심해진다는 일반적인 타석증의 특징을 고려하여 면밀히 촉진하였으나 저명한 타석은 만져지지 않았다. 경부 전산화단층촬영에는 좌측 악하선에서 악하선관으로 이행하는 부위에서 최대 3 mm 크기의 석회화 물질이 2~3개 정도가 관찰되었으며, 경부 림프절 비대 소견은 찾을 수 없었다(Fig. 1). 이상의 소견을 종합

하여 판단한 결과 악하선관 타석에 합당한 소견으로 생각하였다. 전신마취하에 구강내 접근법으로 타석을 제거하기로 계획하고, 먼저 타액선 내시경을 시도하였다. 악하선관의 이분갈림 및 삼분갈림까지 접근하였으나, 타석을 확인할 수 없었다(Fig. 2). 저자들은 악하선의 실질 내 타석으로 생각하여 경부 절개를 통한 좌측 악하선 절제술을 시행하였다. 절제된 악하선을 주의 깊게 관찰하였지만 타석으로 여겨지는 소견이 없어 술 중 타석이 이동하여 빠진 것으로 생각하고 수술을 마쳤다.

이 후 환자는 퇴원하여 외래에서 관찰하였는데, 술 후 2개월 후부터 수술 전과 동일한 증상을 호소하였다. 경부 전산 화단층촬영을 다시 시행해 보니 술 전과 동일한 부위에서 석회화 물질을 발견되었다(Fig. 3). 좌측 설하선 타석으로 진단하여 설하선과 함께 타석을 제거하는 수술을 계획하였다. 전신마취 후에 구강저의 점막을 절개하고 설신경을 주의 깊게 보존하면서 설하선과 함께 타석을 제거하였다. 타석은 표

면이 매끈하고 둥근 모양으로 모두 11개를 발견하였고, 가장 큰 것은 3 mm이었다(Fig. 4). 수술 이후 환자는 퇴원하여 특이 소견 없이 외래 경과 관찰 중이다.

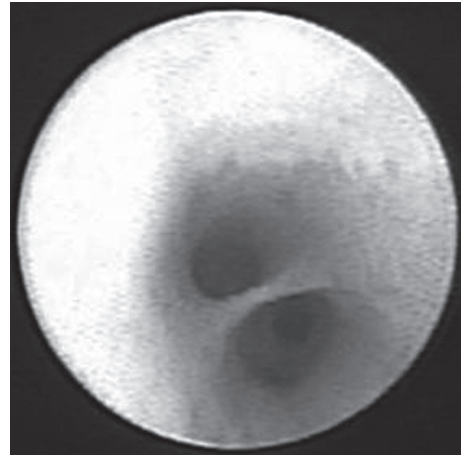


Fig. 2. Endoscopic findings shows normal-appearing main duct, primary branch.

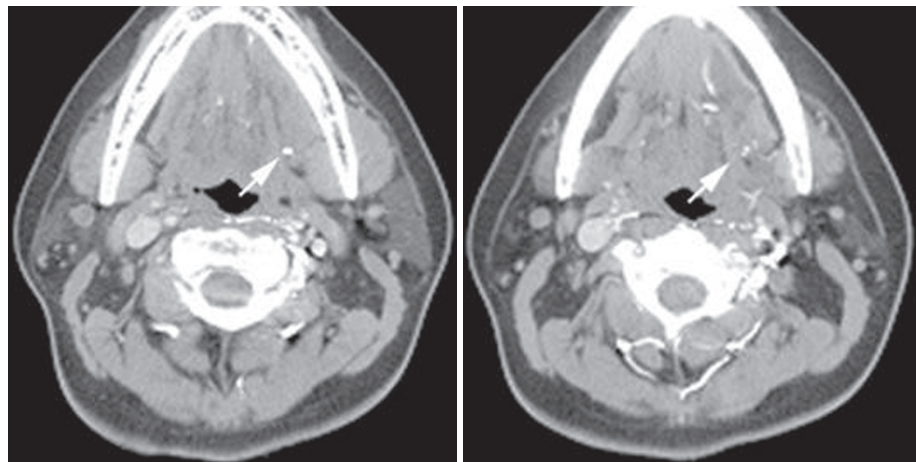


Fig. 1. Axial view of neck CT scan before resection of the left submandibular gland. There were stones in the left mouth floor.

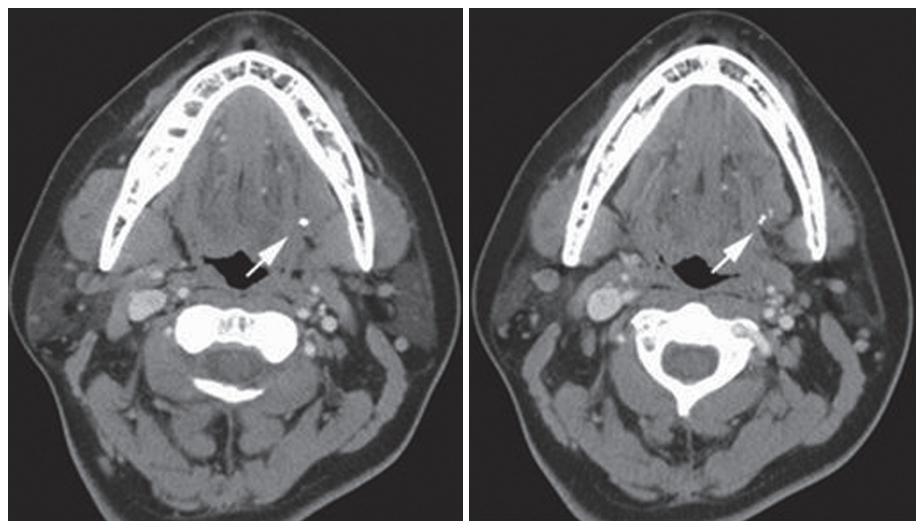


Fig. 3. Axial view of neck CT scan 2 months later after resection of the left submandibular gland. There were stones in the left mouth floor.

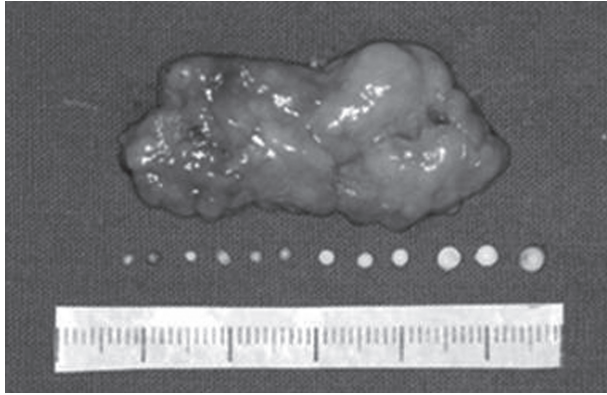


Fig. 4. Resected specimen of the left sublingual gland and multiple sialoliths.

고찰

설하선은 구강 저부의 점막 하에 위치하며 악하선관과 설신경이 주행하는 주변에서 전후로 길게 놓여져 있고, 약 8~20개의 작은관(duct of Rivinus)이 설하선의 상방에서 나와 구강 저부의 주름이나 설하주름을 따라서 구강 내에 개구하고⁵⁾ 때로는 여러 개의 관이 합쳐져 주설하관(Bartholin's duct)을 형성하여 악하선관으로 배출되기도 한다.⁶⁾ 설하선의 기능은 점액 성분의 타액을 생성하는 것으로 알려져 있다.

타석증은 비교적 흔한 질환이지만 대부분 악하선에서 생기고, 식후 압통이 있는 부종양상의 종물이 발생하는 특징적인 병력이 있다. 타석증의 진단 방법으로 전산화단층촬영 등의 방사선학적 방법이 많이 사용된다. 타석증의 치료는 크기나 위치에 따라 보존적인 치료를 하거나 타석 혹은 타액선을 수술적으로 제거한다.

설하선에서 생기는 타석증은 매우 드물며 악하선 타석과 저명한 감별점을 찾기 어려운 점이 있다. 구강저의 종창과 통증외에 악하선이나 악하선관의 타석을 의심할만한 악하부의 종창이 없는 것이 설하선 타석의 병력청취 및 신체검사상 특징이 될 수 있다. 경부 전산화단층촬영에서 설하선 타석은 악하선의 주행경로와 무관하게 위치하는 점 역시 감별점이 될 수 있다.

본 증례는 타석의 크기가 작고 신체가 비만하여 양수검사를 하여도 타석을 확인하거나 위치를 정확하게 파악하기 힘들었다. 일반적으로 타석증이 악하선에서 잘 생기고 경부 전산화단층촬영에서도 악하선의 문(hilum)으로 생각되는 부위에 타석이 위치할 것이라고 판단되었기 때문에 설하선의 타석은 간과된 점이 있었다.

타석증을 진단하는 방법은 여러 가지가 있는데, 초음파검사는 비침습적이긴 하지만 단독으로 시행할 때는 진단율이

낮아 타액선 조영술 등과 동시에 시행하는 경우가 많다. 컴퓨터단층촬영은 석회화된 타석과 같이 명확한 원인의 폐쇄성 타액선염이 있는 경우에 크기 및 위치에 대한 유용한 정보를 제공한다. 초음파 및 컴퓨터단층촬영보다 타액선관 내의 미세한 해부학적인 구조를 더 잘 알 수 있는 가장 좋은 방법으로 타액선 조영술이 있다.⁷⁾ 하지만 컴퓨터단층촬영과 함께 방사선 노출의 문제점과 조영제 사용의 단점이 있다.⁸⁾ 최근에는 타액선관 내시경술이 소개되면서 직접 타액선관 내를 관찰할 수 있고 타액선관에 존재하는 폐쇄성 질환을 진단 및 치료할 수 있게 되었다.⁸⁾

본 증례의 경우에는 술 전에 촬영한 컴퓨터단층촬영에서 악하선의 문에 타석이 위치한 것으로 판단하여 먼저 진단 목적으로 내시경술을 시행하였는데, 악하선관의 역방향으로 2번 분지가 된 지점까지 확인을 했지만 타석은 발견되지 않았다. 그래서 악하선 실질 내에 타석이 존재하거나, 다발성 타석은 재발 가능성이 있을 것으로 판단하여 악하선 제거 수술을 하였다. 하지만 최종조직 검사에서 타석은 발견되지 않았고, 조직은 정상 악하선 조직으로 확인되었다. 이후에 술 후에도 증상이 개선되지 않았고 추가 촬영한 컴퓨터단층촬영에서 구강저의 타석이 확인되었다. 악하선관 내시경술에 타석이 보이지 않아 설하선 타석증을 진단하였다. 경구강 접근법으로 좌측 설하선을 완전 절제하였고, 11개의 구형 모양의 타석을 확인하였다. 표면은 매끄러웠고 크기는 1.5 mm에서 최대 3 mm까지였는데, 일반적인 악하선에서 발견되는 타석의 모양인 표면이 거칠고 불규칙한 양상과는 차이가 있었다. 이렇게 설하선의 타석증은 악하선 타석증으로 오진될 가능성이 있으므로 술 전 주의 깊은 병력청취와 관찰이 필요하다.

설하선은 해부학적으로 악하선관과 설신경의 주행경로와 유사하게 전후로 길게 놓여져 있는데, 경부 전산화단층촬영에서 그 위치가 유사하여 설하선 타석을 컴퓨터단층촬영만으로 악하선 타석과 정확히 감별하기 힘들다. 대부분의 타석이 악하선관에서 발생하고 설하선에서 발생할 가능성이 낮지만, 술 전에 초음파 및 타액선 조영술 등으로 타석의 정확한 해부학적인 위치를 인지하여야 하며, 컴퓨터단층촬영에서 보이지 않던 타석이 악하선관 내시경술에서 내강(lumen)에 타석이 보이지 않을 때, 설하선 타석을 의심해 보아야 하겠다.

REFERENCES

- 1) Bodner L. Salivary gland calculi: Diagnostic imaging and surgical management. *Compendium* 1993;14(5):572, 574-6, 578 passim; quiz 568.
- 2) Park HS, Yoon HJ, Choi WH. Multiple sialolithiasis; report of two cases. *J Korean Assoc Maxillofac Plast Reconstr Surg* 1992;14:169-73.

- 3) Hong KH, Yang YS. Sialolithiasis in the sublingual gland. *J Laryngol Otol* 2003;117(11):905-7.
- 4) Nahlieli O, Neder A, Brruchin AM. Salivary gland endoscopy: a new technique for diagnosis and treatment of sialolithiasis. *J Oral Maxillofac Surg* 1994;52(12):1240-2.
- 5) Johns ME. The salivary glands: anatomy and embryology. In: Work WP, Johns ME, editors. *The otolaryngologic Clinics of North America*. Philadelphia: WB Saunders com;1977. p.261-72.
- 6) Kontis TC, Johns ME. Anatomy and physiology of the salivary glands. In: Bailey BJ, Calhoun KH, Deskin RW, editors. *Head & Neck Surgery-Otolaryngology*, 2nd ed. Philadelphia: Lippincort-Raven; 1998. p.531-9.
- 7) Kim JW, Jung YG, Kim CH, Kim BM, Lee DY, Oh YS, et al. Usefulness of sialendoscopy in unusual obstructive salivary ductal diseases. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2008;51(10): 903-7.
- 8) Becker M, Marchal F, Becker CD, Dulguerov P, Georgakopoulos G, Lehmann W, et al. Sialolithiasis and salivary ductal stenosis: Diagnostic accuracy of MR sialography with a three-dimensional extended phase conjugate symmetry rapid spin-echo swquence. *Radiology* 2000;217(2):347-58.