

# A Case of Parotid Gland Salivary Fistula Treated by Tympanic Neurectomy

Kyeong-Ah Lee, Shi-Nae Park, Jae-Hong Lee and Dong-Il Sun

Department of Otolaryngology-HNS, The Catholic University of Korea College of Medicine, Seoul, Korea

## 고실신경절제술로 치료한 이하선 타액선루 1예

이경아 · 박시내 · 이재홍 · 선동일

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received November 20, 2011

Revised February 21, 2012

Accepted March 6, 2012

Address for correspondence

Dong-Il Sun, MD, PhD

Department of Otolaryngology-HNS,

The Catholic University of Korea

College of Medicine,

222 Banpo-daero, Seocho-gu,

Seoul 137-701, Korea

Tel +82-2-2258-6212

Fax +82-2-2258-1354

E-mail hnsdi@catholic.ac.kr

The parotid gland salivary fistula is one of the complications following parotidectomy and can result in patient discomfort and wound infection. Various methods have been used for resolution of salivary gland fistula including non surgical and surgical management. Non-surgical managements such as pressure dressing, radiation therapy and pharmacotherapy are simple and safe but mostly require a relatively long period for healing. Surgical managements are recommended if conservative therapy and pharmacological intervention fail. Surgical options for parotid gland salivary fistula include total parotidectomy, salivary duct ligation, delayed primary repair of duct, and tympanic neurectomy. However, there is no uniform consensus regarding the surgical option of choice for parotid gland salivary fistula. Recently, we experienced a patient with a persistent parotid gland salivary fistula after parotidectomy, which was successfully treated by tympanic neurectomy. We found that the effect of tympanic neurectomy was not strong enough to be recommended as a method of choice for the clinical inactivation of persistent parotid gland salivary fistula. Therefore, we report this case for the first time in our country with the review of literatures.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2012;55:304-7

**Key Words** Parotid gland · Salivary gland fistula · Tympanic neurectomy.

## 서론

이하선 종양에 대한 치료로 흔히 시행하는 이하선 전엽 절제술 이후 여러 가지 합병증이 발생할 수 있다. 조기 합병증으로는 안면 신경 마비, 출혈 또는 혈종, 감염, 피관 괴사, 개구 장애, 타액루 또는 타액선루, 장액종이 발생할 수 있고, 후기 합병증으로는 Frey 증후군, 주위 피부의 지각감퇴, 종양의 재발, 미용적 변형, 대이개 신경의 신경종 등이 발생할 수 있는 것으로 알려져 있다.<sup>1)</sup> 이 중 가장 위중한 합병증은 안면신경 마비로 약 20~60%에서는 일시적으로, 약 2~5%에서는 영구적으로 발생한다. 타액선루는 수술 후 비교적 자주 발생하나, 압박드레싱과 국소 치료를 통해 대부분은 자연적으로 치유되며 만성적인 누공 발생은 드문 것으로 알려져 있다.<sup>1)</sup>

저자들은 최근 이하선 전엽 절제술 후 발생한 이하선 타액선루에 대해 압박드레싱을 포함한 국소 처치를 시행하였으나 치유되지 않아 고실신경절제술을 시행한 이후 완치된 환자를 경험하였기에 국내 문헌에서는 보고된 바 없는 본 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증례

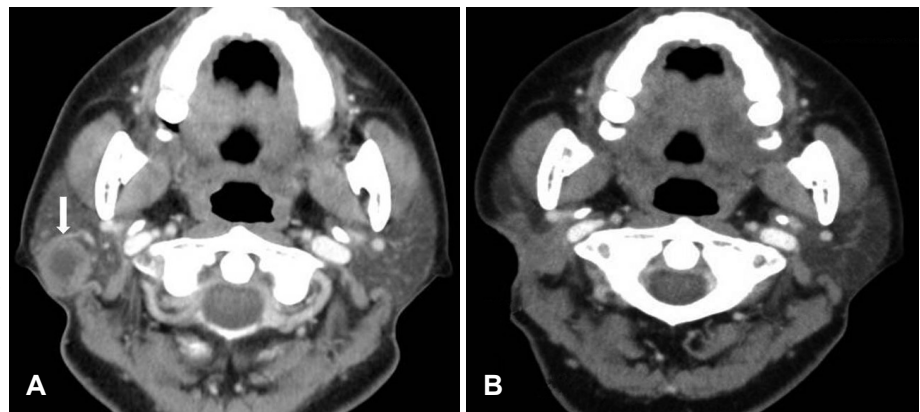
45세 여자 환자가 우측 이개하 부위의 종물을 주소로 내원하였다. 경부 컴퓨터단층촬영에서 우측 이하선에 22×20 mm 크기의 종물이 관찰되었으며 중앙부위를 제외하고 주변은 조영증강 되는 양상이었다(Fig. 1A). 세침흡인검사에서 다형성 선종이 의심되어 modified Blair incision 하에 우측 이하선 전

엽 절제술을 시행하였다. 술 후 이틀째부터 환자는 식사 후에 피부 절개선의 우측 이개 후하부위에서 흘러나오는 침 분비 증상을 호소하였다(Fig. 2A). 이하선 절제술 이후 발생한 이하선 타액선루로 판단하여 압박 드레싱하며 경과 관찰하였으나 3개월간 증상의 호전은 없었다. 추가적인 보존적 치료로 보톡스(*Clostridium botulinum* A toxin, Allergan, Irvine, CA, USA) 주입술을 3차례 12일 간격으로 시행하였다. 침이 분비되는 이개 후하부의 피부 절개선 부위와 그 주변부에 주입하였으며, 처음에는 10 unit을 사용, 이후 같은 방법으로 반복하면서 20, 30 unit 주입하여 총 3차례 시행하였다. 또한 항콜린제(*paroma tab* 5 mg, 염산프로싸이클리딘 5 mg, 서울, 초당약품공업)를 7일간 경구 복용하였으나 증상은 개선되지 않았다. 경부 컴퓨터단층촬영을 재시행한 결과 우측 이하선 천엽 절제 상태로 술 후 종물 제거 부위 주위의 섬유화 소견 외에 특이 소견은 없었다(Fig. 1B).

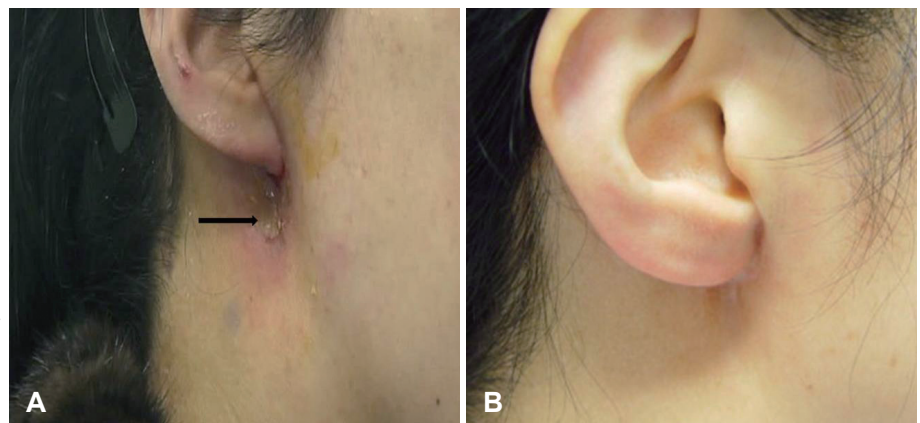
6개월 이상의 보존적 치료에 증상 호전을 보이지 않아 이하선 전 절제술, 이하선관 결찰, 고실신경절제술 등과 같은 수술적 치료를 고려하게 되었고, 이 중 가장 덜 침습적인 것으로 판단한 고실신경절제술을 시행하게 되었다. 술 전 시행한 환자의 청력은 양측 모두 정상이었었고, 외이도 및 고막도 정상소견을

보였으며, 술 전 측두골 컴퓨터단층촬영상에서도 특이 소견은 없었다. 이에 전신 마취 하에 우측 고실신경절제술 및 이개 하부 피부절개선에 위치한 타액선루에 대한 일차 봉합을 시행하였다. 고실신경절제술은 후이개 접근법으로 시도하였다. 고막외이도 피판을 들어올리고 고실갑각 부위를 노출시킨 후 고실 갑각부위 점막을 일부 제거하여 고막 신경 분지(Jacobson's nerve)를 비롯한 고실신경총을 확인하였고 미세 겸자와 1~1.5 mm 다이아몬드 버르(Burr)를 이용하여 갑각 부위의 모든 고실신경총을 완전히 제거하였다. 이때 와우 손상을 최소화하기 위해 갑각 골부는 0.5 mm 이하의 깊이로 얇게 드릴링하였다. 이후 고막외이도 피판은 내려놓고 외이도 패킹 후 타액선루의 일차 봉합을 후이개 절개선 봉합에 연장하여 시행하고 수술을 마쳤다. 수술 직후 환자의 타액선루에서 침 분비 증상은 완전 소실되었다. 수술 후 압박 드레싱을 2일간 유지하였고 환자는 안면신경 마비, 수술 부위 삼출물 분비, 청력 감소 등의 합병증 없이 술 후 6병일째 퇴원하였다. 환자의 외이도 패킹을 3주째 제거한 후 시행한 청력의 변화는 없었으며 식사 후 이개하부가 붓거나 침 분비물이 나오는 현상은 완전 소실된 상태로 16개월이 지난 현재까지 외래로 추적 관찰 중이다(Fig. 2B).

**Fig. 1.** Preoperative enhanced neck CT scan shows a 22×20 mm sized enhancing mass with central non-enhancing portion (white arrow) at right parotid gland (A). Postoperative enhanced neck CT scan shows dense soft tissue density at resection site. There is no evidence of residual mass (B). CT: computed tomography.



**Fig. 2.** Photograph after right superficial parotidectomy. Salivary secretion (black arrow) was observed at the infra-auricular scar for 5 months after operation (A). Photograph after tympanic neurectomy. There was no more salivary secretion for 14 months after tympanic neurectomy (B).



## 고 찰

만성 이하선 타액선루는 주로 이하선의 관통상, 이하선 천엽 절제술 후 합병증, 만성 재발성 이하선염 등에 의해 발생하며 이의 치료로 다양한 방법이 제시되고 있지만 현재까지 정립된 방법은 없다.<sup>2)</sup> 이하선 타액선루의 치료 방법은 크게 타액 분비의 전환과 타액 분비의 감소 두 가지로 나눌 수 있다. 타액 분비 전환을 위한 방법으로는 정맥혈관을 이용한 타액관의 재건술, 점막이식술 등의 다양한 방법의 재건술, 내타액선관을 다시 만드는 방법, 이하선 절제술 등이 알려져 있고, 타액선 분비 감소를 위해서는 수술적 방법으로 타액관의 결찰, 고실신경절제술 등이 있고, 보존적인 방법으로는 압박 드레싱, 타액 분비 억제제 복용, 보톡스 주입술, 방사선치료 등이 있다.<sup>3)</sup>

본 증례에서는 압박 드레싱으로 호전되지 않는 만성 이하선 타액선루에 대하여 보톡스 주입술과 타액 분비 억제제 복용의 보존적 방법을 시도해 보았으나 호전되지 않았다. 이 방법들은 만성 타액선루 뿐만 아니라 만성 타액선염, 이하선 천엽 절제술 후의 이개측두신경 증후군(Frey's syndrome) 또는 타액선루(sialoceles), 파킨슨병 또는 뇌성마비 환자의 지속적인 침흘림 등의 경우에도 적용될 수 있다. 보톡스 주입은 침샘의 부교감 활성도를 감소시켜 침 분비를 감소시킨다. Bomeli 등<sup>4)</sup>에 의하면 보고된 증례에서 사용된 보톡스의 용량이 10 unit부터 650 unit까지 다양하고, 일시적으로는 침 분비가 줄어들지만, 7~9주 사이에 이전 양만큼 침분비가 증가하거나,<sup>5)</sup> 첫 주입 이후 11개월 동안 반복 주입이 필요했다는 보고가 있다.<sup>6)</sup> 또한 보톡스 주입술의 합병증으로 안면신경 또는 저작 근육의 마비가 발생할 가능성이 있어 각각의 상황에 따라 치료적 사용 용량 및 주입 횟수, 주입 방법에 대한 연구가 필요할 것이라고 밝히고 있다.<sup>4)</sup> 본 증례에서는 보톡스를 3차례에 걸쳐 총 60 unit을 주입하였다. 추가적인 주입술을 고려해 보았으나, 환자의 증상에 변화가 없었고, 보톡스 주입의 용량과 횟수가 현재까지 정립되어 있지 않으며, 안면신경 마비 등의 합병증 발생의 가능성을 고려하여 보톡스 주입을 지속하지 않기로 하였다.

항콜린계 약물로 많이 사용하는 글리코피롤레이트(glycopyrrolate)는 당시 본원에서 처방이 불가능하여 같은 항콜린계 약물인 염산프로사이클리딘(procyclidine HCl)을 사용하게 되었다. 항콜린계 약물은 부작용으로 변비, 구갈, 배뇨장애, 시야 혼탁, 착란증 등이 발생할 수 있으며 이러한 부작용은 약물의 효과보다 먼저 발생하는 경우 환자가 약물 복용을 중단하게 되는 원인이 되기도 한다.<sup>4)</sup> 본원에서 처방한 염산프로사이클리딘(procyclidine HCl)은 위의 부작용 뿐만 아

니라 특히 노인 환자에서 정신 착란, 환각 등의 정신병성 증상이 함께 발생할 수 있어 주의하여 사용해야 되는 약물로 장기간 복용할 수는 없었다.

본 증례에서처럼 보존적인 방법으로 호전되지 않는 타액선루에 대해 시행할 수 있는 고실신경절제술의 이론적 배경은 이하선의 해부학적 정보를 바탕으로 이해할 수 있다(Fig. 3).<sup>3,7)</sup> 즉, 이하선의 분비운동은 복잡한 신경 반사궁에 의해 조절되는데 이하선을 지배하는 부교감신경의 분비 운동 섬유는 연수의 하침샘 핵에서 시작하며 두개내에서 설인두 신경으로 주행하다가 고막 신경 분지(Jacobson's nerve)로 분리된다. 이후 고막 신경절에서 소추체 신경(lesser petrosal nerve)을 통해 연결되고 이신경절(otic ganglion)에서 이하선까지 이개측두 신경으로 연결된다. 교감신경 섬유는 척수 신경의 흉부 신경 제1과 2 신경에서부터 시작되어 상부 경부 신경절(superior cervical ganglion)로 연결된 후 시냅스 후 교감신경 섬유는 내경동맥을 따라 주행하다가 이신경절(otic ganglion)을 지나 이개측두 신경을 만나 함께 이하선에 분포하게 된다.<sup>1)</sup>

고실신경절제술은 고막 신경 분지(Jacobson's nerve) 즉, 설인 신경의 고막 신경 가지의 주행 중 감각을 지나는 부위의 부교감신경섬유를 포함한 고실신경총을 절제함으로써 이하선의 침분비를 억제하는 수술이다. 고실신경총은 고실감각을 지나면서 앞 분지는 유스타키오관으로, 뒤 분지는 감각의 앞쪽에서 정원창와까지 수직으로 주행하는 경로를 가지며, 수술 중에 고실신경총을 감각부에서 완전히 절제함으로써 이하선 타액선루의 치료 효과를 기대할 수 있다. 고실신경총은 주로 중이 점막에 덮여 있으나 20%에서는 뼈로 둘러싸여있기도 한 것으로 알려져 있는데,<sup>1)</sup> 본 증례에서도 노출된 고막 신경 분지(Jacobson's nerve) 주변의 분지들을 점막 제거 후 관찰할 수 있었고 일부 뼈에 싸여 있는 부분을 관찰할 수 있었기에

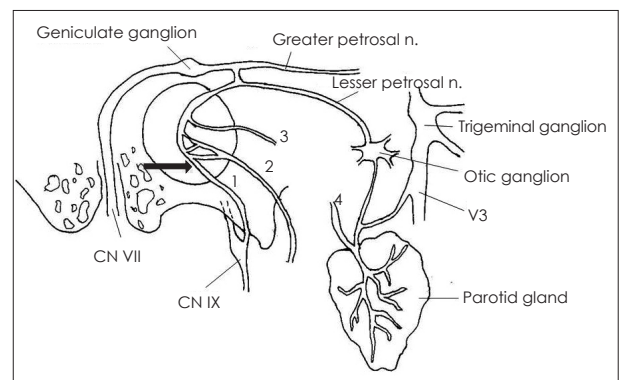


Fig. 3. Tympanic plexus and innervation of the parotid gland. 1: tympanic nerve of Jacobson, 2: branch to carotid body and sinus, 3: branch to E-tube, 4: auriculotemporal nerve. The parasympathetic nerve supply of the parotid gland is interrupted by dissecting the tympanic nerve (black arrow) on the promontory of the middle ear.

완전 절제를 위한 갑각부 드릴링을 시행하였다.

고실신경절제술의 치료 효과에 대한 보고로 Sinha<sup>3)</sup>는 외상으로 발생한 이하선 타액선루 2예에서 보존적인 치료에 호전이 없어 고실신경절제술을 시행하였으며 수술 후 1예에서는 3년 반, 또 다른 1예에서는 2년 반의 추적관찰에서 재발이나 합병증이 없었다고 2008년 보고하였다. 1977년 Davis 등<sup>7)</sup>은 이하선 천엽 절제술 후 발생한 만성 이하선 타액선루에 대하여 고실신경절제술을 시행한 4예를 보고한 바 있다. 그는 전통적 치료 방법으로 이하선관의 결찰 또는 절제와 항콜린성 약물 복용, 압박 드레싱, 일주일 동안의 금식 등의 부가적인 치료법이 있으나 장기간의 보존적 치료로 호전이 없는 경우 수술적 치료로 고실신경절제술을 제시하였다. 고실신경절제술은 이하선 타액선루의 원인이 이하선 관 혹은 이하선 자체일 때 두 경우 모두 이하선의 침 분비를 억제하므로 누공에 대한 치료 효과가 동일하며 특별한 합병증 없이 그 효과가 유지된다고 하였다. 1977년 Mandour 등<sup>8)</sup>도 양측 만성 재발성 이하선염 환자 5명, 일측 지속성 이하선 타액선루 환자 10명을 대상으로 고실신경절제술 이후 이하선의 조직병리학적, 조직화학적 그리고 임상적 변화를 연구한 바 있는데, 고실신경절제술 6개월 후, 조직병리학적으로 이하선의 실질이 세포수가 감소하여 다양한 정도로 위축되어 있음을 보고하였다. 선방세포는 위축되어 세포핵과 세포질이 축소, 변성되고 선방세포 간 결체조직은 지방의 침습과 동반하여 증가되는 양상을 보인다. 부분적으로 이하선 조직이 지방세포로 대체되었고 이하선관과 혈관의 수 또한 감소하였다. 조직화학적으로는 선방세포와 관내의 숙신산 탈수소효소(succinic dehydrogenase) 활성의 상당한 감소 소견을 보였고, 모세혈관의 내피 내의 알칼리성 인산가수분해효소(alkaline phosphatase) 활성도 감소한다고 하였다. 또한 임상적으로는 고실신경절제술 이후 첫 2주 후에 이하선의 크기가 확연히 줄어드는 것을 관찰할 수 있었으며 수술 후 4~6개월에 걸쳐서 지속적으로 이하선의 크기가 감소하였고 이하선 누공으로 인한 증상은 모두 호전되었다고 보고하였다. 저자들도 수술 직후 환자의 지속되던 누공에서의 침분비 증상이 완전 소실됨을 관찰할 수 있었고 그 효과가 16

개월 이상 경과된 현재까지 잘 유지되고 있으며, 환자의 만족도도 매우 높음을 알 수 있었다. 이하선의 부교감신경은 설인신경의 고막 신경 분지(Jacobson's nerve)에서 주로 지배를 받으나 안면신경의 고삭 신경 분지로부터의 문합에 의해서 신경 지배를 받는 경우도 있으므로 고실신경절제술과 고삭신경절제술을 함께 시행하는 경우 더 나은 결과를 얻을 수 있다는 견해도 있으며<sup>4,9)</sup> Parisier 등<sup>10)</sup>은 고실신경절제술의 성공률이 41%라고 발표하기도 하였다. 그러나 고실신경절제술은 보존적 치료에 반응이 없는 만성 이하선 타액선루에 대해 그 외 수술적 방법과 비교하여 효과적이고 안전하며 수술 후 합병증의 발생하지 않는다.<sup>3)</sup> 이에 국내에서는 보고된 바 없는 고실신경절제술로 완치한 이하선 절제술 후 발생한 만성 이하선 타액선루 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) Marchese-Ragona R, De Filippis C, Marioni G, Staffieri A. Treatment of complications of parotid gland surgery. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2005;25(3):174-8.
- 2) Cavanaugh K, Park A. Postparotidectomy fistula: a different treatment for an old problem. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1999;47(3):265-8.
- 3) Sinha P. Successful treatment of parotid fistula with tympanic neurectomy. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;60(3):227-30.
- 4) Bomeli SR, Desai SC, Johnson JT, Walvekar RR. Management of salivary flow in head and neck cancer patients--a systematic review. *Oral Oncol* 2008;44(11):1000-8.
- 5) Guntinas-Lichius O, Eckel HE. Temporary reduction of salivation in laryngectomy patients with pharyngocutaneous fistulas by botulinum toxin A injection. *Laryngoscope* 2002;112(1):187-9.
- 6) Guntinas-Lichius O, Sittel C. Treatment of postparotidectomy salivary fistula with botulinum toxin. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2001;110(12):1162-4.
- 7) Davis WE, Holt GR, Templer JW. Parotid fistula and tympanic neurectomy. *Am J Surg* 1977;133(5):587-9.
- 8) Mandour MA, Helmi AM, El-Sheikh MM, El-Garem F, El-Ghazawi E. Effect of tympanic neurectomy on human parotid salivary gland. *Histopathologic, Histochemical, and Clinical Study. Arch Otolaryngol* 1977;103(6):338-41.
- 9) Chilla R, de Paula Lima FJ, Droese M, Arglebe C. The effects of tympanic neurectomy and chorda tympanectomy on experimentally induced parotid duct fistulae in rabbits. *Arch Otorhinolaryngol* 1985;241(3):295-301.
- 10) Parisier SC, Blitzer A, Binder WJ, Friedman WF, Marovitz WF. Tympanic neurectomy and chorda tympanectomy for the control of drooling. *Arch Otolaryngol* 1978;104(5):273-7.