

A Case of Drooling during Sleep Treated with Wharton's Duct Relocation

Ji Yong Joo, Sung Ha Kim, Bon Seok Koo and Yeo-Hoon Yoon

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Chungnam National University School of Medicine, Daejeon, Korea

악하선관 전위술로 치료한 수면 중 침흘림 1예

주지용 · 김성하 · 구본석 · 윤여훈

충남대학교 의학전문대학원 이비인후-두경부외과학교실

Received July 2, 2012

Revised September 3, 2012

Accepted September 7, 2012

Address for correspondence

Yeo-Hoon Yoon, MD

Department of Otolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Chungnam National University

School of Medicine,

282 Munhwa-ro, Jung-gu,

Daejeon 301-721, Korea

Tel +82-42-280-8375

Fax +82-42-253-4059

E-mail yyh9635@cnuh.co.kr

Sialorrhea, or drooling, is defined as excessive salivary spillage from the mouth. The exact pathophysiology of drooling is unknown but appears to be a defect in the oral phase of swallowing. The most common cause of drooling is cerebral palsy in children and Parkinson disease in adults. Drooling can cause various medical and psychosocial problems. Various treatment modalities include physical therapy, anticholinergic medications, botulinum toxin injection into salivary glands, and surgical procedures. We report a case of 22-year-old woman with excessive drooling during sleep, which was treated with Wharton's duct relocation.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2013;56:102-4

Key Words Drooling · Wharton's duct.

서 론

타액은 하루에 약 1.5 L 정도 생성되며 대부분이 주타액선에서 만들어진다. 연하기전의 조절장애로 타액이 구강 내에 과도하게 저류되거나 입 밖으로 흘러넘치는 것을 타액루(sialorrhea) 혹은 침흘림(drooling)이라 정의한다.¹⁾ 침흘림은 타액 분비량이 많아서 생기는 것이 아니라 구강 및 안면 근육의 운동 부조화로 인한 연하장애로 발생한다.^{2,3)} 소아의 경우 뇌성마비, 성인에서는 파킨슨병과 같은 신경근육계 장애가 침흘림의 주된 원인이 된다.⁴⁾ 침흘림은 미용적인 면에서도 좋지 않으며 저작과 발성을 방해하고 구강 주위의 위생을 불량하게 한다. 침흘림의 치료에는 운동치료, 약물요법, 방사선 조사, 보툴리눔 독소 주사, 수술 등 다양한 방법이 이용된다.^{2,4,5)} 저자들은 신경근육계 질환이 없는 젊은 여성에서 수면 중 발생하는 과도한 침흘림을 악하선관 전위술로 치료한 경험을 보고하고자 한다.

증 례

22세 여자가 수면 중에만 발생하는 침흘림을 주소로 내원하였다. 약 1년 전부터 발생하였고 수면 시간 이외에는 이상이 없었다고 하였다. 바로 누워서 자다 보면 침이 입안에 가득 고이고 타액이 흡인되어 발작적인 기침, 호흡곤란으로 잠에서 자주 깨게 되며, 옆으로 누워서 자는 경우에는 침을 많이 흘려 당혹스럽다고 하였다. 이로 인해 기숙사 생활과 단체 여행 등 학교 생활에 불편함이 많다고 하였다. 환자는 정상 체중이었으며 코골이, 무호흡 등의 증상은 없었다. 환자는 2년 전 반복되는 편도염으로 양측 편도절제술을 받은 과거력이 있었고, 1개월 전에 타병원에서 상기 증상으로 항콜린제를 처방 받아 복용하였으나 효과는 없었다고 하였다. 두경부 신체검사서 이상 소견은 없었으며 부정 교합 등 치과적 문제도 없었다. 경부 전산화단층촬영에서도 타액선의 구조적 이상은 관찰되지 않았다.

약물 치료는 효과가 없었기 때문에 보툴리눔 독소를 타액

선에 주사하였다. 초음파 유도하에 양측 이하선에 각각 보톡스(Botox) 15단위를, 악하선에는 각각 10단위를 주사하여 타액선에 총 50단위를 주사하였다. 보톡스 주사 후 타액의 분비가 감소하여 입이 마르는 증상이 나타났지만 수면 중 침흘림은 개선되지 않았다. 비수술적 치료에 반응을 보이지 않아 타액이 구강 내에 저류 되는 것을 해결하기 위해 악하선관 전위

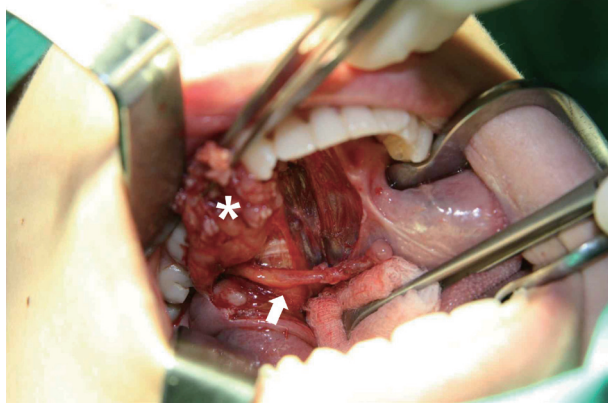


Fig. 1. Photograph showing the dissected Wharton's duct (arrow) and sublingual gland (asterisk).



Fig. 2. Photograph showing the submucosal tunnel for relocation of dissected Wharton's duct.



Fig. 3. Photograph showing the relocated Wharton's duct orifice (arrow) just anterior to circumvallate papillae in lateral tongue.

술을 시행하였다.

비기관 삼관으로 전신마취를 한 후 구강저를 절개하여 악하선관을 박리하였다. 이때 설신경이 손상되지 않도록 주의하였고, 설하선은 술 후 발생할 수 있는 의인성 하마종을 예방하기 위해 절제하였다. 악하선관 개구부 주위의 점막을 일부 보존하여 봉합에 용이하도록 하였다(Fig. 1). 겹자를 이용하여 구강설의 후측방으로 점막하 터널을 박리하였다(Fig. 2). 미리 박리해 둔 악하선관을 점막하 터널을 통해 전위시킨 후 개구부를 구강설 후측부에 봉합해 주었다(Fig. 3). 반대쪽 악하선관에 대해서도 동일한 술식을 적용하였다. 술 후 2일째부터 부드러운 식사를 하였고 5일간 항생제를 처방하였다. 환자의 증상은 수술 후 바로 호전되었으며 술 후 3개월째 외래 방문시 수면 중 침흘림은 관찰되지 않았고 전위된 악하선관 개구부를 통해 타액의 유출을 확인할 수 있었다. 환자는 치료 결과에 매우 만족해 하였다.

고 찰

2세 이하의 유아가 침을 흘리는 것은 정상적인 현상이며, 4~6세의 소아에서 치아 맹출시 일시적으로 나타나는 침흘림은 이상 소견이 아니다. 하지만 구강 및 안면 근육의 운동과 연하 과정이 성숙되는 6세 이후에도 침흘림이 지속된다면 병적 상태로 간주된다.⁵⁾ 소아에서는 뇌성마비, 정신지체 등이 침흘림의 주된 원인 질환이고 뇌성마비를 앓고 있는 환자의 1/3에서 중증도 이상의 침흘림이 나타나는 것으로 보고된다.⁶⁾ 성인의 경우 파킨슨병, 근위축측상경화증(amyotrophic lateral sclerosis), 뇌졸중 등 신경근육계 질환이 원인인 경우가 많다.^{2,4)} 또한 안면신경마비, 입술의 감각저하, 치과적인 문제 등이 침흘림의 원인이 되기도 한다.^{1,2)} 이와 같은 질환에 이환될 경우 연하 과정의 구강기(oral phase) 장애로 타액이 구강의 앞쪽에 비정상적으로 저류되고 입 밖으로 흘러 넘치게 된다. 일반적으로 침흘림은 타액의 생성이 많아서 발생하는 증상이 아니고 정상적으로 생성된 타액을 제대로 처리하지 못해 생기는 현상이다. 침흘림은 미용적인 면에서도 보기 좋지 않으며 저작과 발성을 방해하고 구강 주위의 위생을 불량하게 한다. 또한 본 증례의 환자에서처럼 자존심의 손상, 심리적 위축 등 정신 건강학적 측면에서도 부정적인 영향을 줄 수 있다.

침흘림의 일반적인 치료 원칙은 다음과 같다.^{1,2)} 먼저 침흘림의 악화인자 혹은 치료 가능한 원인 질환을 교정한다. 다음으로 구강운동치료(oral motor therapy), 생체되먹임을 이용한 행동교정, 구강안면 조절치료(orofacial regulation therapy) 등과 같은 운동 치료를 시행한다. 이와 같은 방법이 불가능하거나 반응하지 않을 때 약물 치료를 시행하게 된다. 약물 치료의 효

과가 없을 때는 타액선에 보툴리눔 독소를 주사해 보고 수술은 마지막으로 고려한다. 또한 치료 후 타액의 감소로 인한 충치 등의 부작용이 발생할 수 있으므로 정기적인 치과 진료가 필요하다.²⁾

운동 치료는 구강 근육과 턱 관절의 기능을 향상시켜 침흘림을 교정하는 방법으로 일부 뇌성마비 환자에서 좋은 치료 결과를 보였다.⁷⁾ 항콜린제는 아세틸콜린의 분비를 억제하여 타액의 생성을 줄여주지만 구강건조, 변비, 요저류, 시력이 흐려지는 부작용으로 장기간 사용하기에는 문제가 있다.⁸⁾ 타액선내 보툴리눔 독소 주사 역시 부교감신경 말단에서 아세틸콜린의 분비를 억제하여 타액의 분비를 감소시킨다. 주사하는 용량과 방법에는 저자들 간에 차이가 있지만 중대한 부작용 없이 좋은 치료 결과를 보이고 있다.⁹⁻¹¹⁾

다양한 방법의 수술이 침흘림의 치료에 이용된다. 이들 수술법들은 이하선관 혹은 악하선관을 절찰하거나 개구부의 위치를 구강 뒤쪽으로 전위시켜 타액이 중력에 의해 쉽게 넘어가도록 고안된 방법들이다. 혹은 주타액선을 절제하는 방법도 사용된다.^{1,2,5)} 이와 같은 수술의 전체적인 성공률은 약 80%로 보고되고 있으며 주로 뇌성마비와 같은 신경계 질환이 원인인 경우에 시행되었다.¹⁾

본 증례의 환자에게 적용한 악하선관 전위술은 구강내 접근을 통해 악하선관의 개구부를 설기저부 즉 후방으로 전위시켜 타액이 구강 앞쪽에 저류되는 것을 개선시키는 수술법이다.^{12,13)} 이 수술법은 목에 수술 반흔을 남기지 않고, 합병증이 적은 가역적 술식으로 설기저부로 분비되는 타액에 의해 연하반사가 유발된다는 생리적 측면의 장점이 있다.²⁾ Crysdale 등^{14,15)}은 이 술식의 치료 성공률을 약 80% 정도로 보고하였고, 수술 중 설하선을 제거함으로써 약 4%에서 발생할 수 있는 하마종의 형성을 예방할 수 있었다고 보고하였다.

악하선관 전위술 이외에도 악하선 절제와 양측 이하선관 전위술을 동시에 시행하는 방법, 악하선을 절제하면서 이하선관을 절찰하는 방법, 이하선관과 악하선관을 모두 절찰하는 방법 등이 침흘림의 치료에 이용되며, 이들 술식의 성공률은 각각 87%, 85%, 64%로 보고되었다.¹⁾

본 증례의 환자에서 악하선관 전위술을 선택한 이유는 다음과 같다. 먼저 환자의 증상이 수면 중에만 발생했다는 점이다. 음식 등에 의한 자극이 없는 상태에서 악하선은 전체 타액

의 약 70%를 분비하고 이하선이 25%, 설하선이 4% 정도의 타액을 분비하게 된다. 즉 이하선보다 악하선의 타액에 의해 환자의 증상이 유발되었다고 판단되었다. 또한 젊은 여성에서 목에 수술 반흔을 남기지 않기 위해서였다. 본 증례의 환자에서 수면 중 과도한 침흘림이 발생한 정확한 기전은 모르지만 악하선관 전위술을 이용하여 부작용 없이 술 후 만족할 만한 결과를 얻을 수 있었다.

REFERENCES

- 1) Reed J, Mans CK, Brietzke SE. Surgical management of drooling: a meta-analysis. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2009;135(9):924-31.
- 2) Meningaud JP, Pitak-Arnnp P, Chikhani L, Bertrand JC. Drooling of saliva: a review of the etiology and management options. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2006;101(1):48-57.
- 3) Tahmassebi JF, Curzon ME. The cause of drooling in children with cerebral palsy -- hypersalivation or swallowing defect? Int J Paediatr Dent 2003;13(2):106-11.
- 4) Hockstein NG, Samadi DS, Gendron K, Handler SD. Sialorrhea: a management challenge. Am Fam Physician 2004;69(11):2628-34.
- 5) Lal D, Hotaling AJ. Drooling. Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg 2006;14(6):381-6.
- 6) Tahmassebi JF, Curzon ME. Prevalence of drooling in children with cerebral palsy attending special schools. Dev Med Child Neurol 2003;45(9):613-7.
- 7) Harris MM, Dignam PF. A non-surgical method of reducing drooling in cerebral-palsied children. Dev Med Child Neurol 1980;22(3):293-9.
- 8) Sennhauser FH, Schwarz HP. Toxic psychosis from transdermal scopolamine in a child. Lancet 1986;2(8514):1033.
- 9) Jongerius PH, Rottevel JJ, van Limbeek J, Gabreëls FJ, van Hulst K, van den Hoogen FJ. Botulinum toxin effect on salivary flow rate in children with cerebral palsy. Neurology 2004;63(8):1371-5.
- 10) Ondo WG, Hunter C, Moore W. A double-blind placebo-controlled trial of botulinum toxin B for sialorrhea in Parkinson's disease. Neurology 2004;62(1):37-40.
- 11) Hassin-Baer S, Scheuer E, Buchman AS, Jacobson I, Ben-Zeev B. Botulinum toxin injections for children with excessive drooling. J Child Neurol 2005;20(2):120-3.
- 12) Ekedahl C. Surgical treatment of drooling. Acta Otolaryngol 1974;77(3):215-20.
- 13) Greensmith AL, Johnstone BR, Reid SM, Hazard CJ, Johnson HM, Reddihough DS. Prospective analysis of the outcome of surgical management of drooling in the pediatric population: a 10-year experience. Plast Reconstr Surg 2005;116(5):1233-42.
- 14) Crysdale WS. The management of drooling. In: Bluestone CD, Stool SE, Alper CM, Arjmand EM, Casselbrant ML, Dohar JE, Yellon RF, editors. Pediatric otolaryngology, 4th ed. Philadelphia: Saunders; 2002. p.1138-48.
- 15) Crysdale WS, Raveh E, McCann C, Roske L, Kotler A. Management of drooling in individuals with neurodisability: a surgical experience. Dev Med Child Neurol 2001;43(6):379-83.