

원발성 결핵성 이하선염 1례

고신대학교 의과대학 이비인후과학교실
이봉희·서민식

= Abstract =

Primary Tuberculosis of the Parotid Gland

Bong Hee Lee, M.D., Min Sik Seo, M.D.

Department of Otolaryngology, Kosin Medical College, Pusan, Korea

Primary tuberculosis of the parotid gland is rare and was first reported by Depaoli in 1893. Tuberculosis of the parotid gland usually presents as slow growing firm to hard, nodular mass with variable degree of fixation to superficial and deep structures. The lesion is usually unilateral and clinically indistinguishable from other parotid swelling, in particular, pleomorphic adenoma. The definitive diagnosis is made by the microscopic examination, and the treatment of early lesion is medical treatment and that of late lesion is excision with antituberculous chemotherapy for 1 to 2 years.

The authors experienced a case of primary tuberculosis of the parotid gland in 53 years old female who had treated by surgical excision and antituberculous chemotherapy, and reports this case with a brief literatures review.

KEY WORDS : Tuberculosis · Parotid gland.

· 서 론

이하선의 원발성 결핵은 매우 드문 질환으로 1893년 Depaoli¹⁾가 처음으로 보고하였다. 크게 원발성과 속발성으로 나눌 수 있으며 그 밖에도 증상 및 임상소견에 따라서 급성형과 만성형으로 나눌 수도 있다. 이전에는 대개 타액선 결핵이 폐결핵에 병발되었는데 최근에는 폐결핵과 타액선 결핵이 병발되는 빈도는 감소되고 있는 반면 비전형적인 결핵균 감염에 의해 타액선과 주위 임파절이 침범되는 빈도가 증가하고 있다.

저자들은 최근 원발성 결핵성 이하선염 1례

를 경험하였기에 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 이○원, 여자, 53세.
초진일 : 1994년 5월 12일.
주 소 : 우측 이하선 부위의 무통성 종물.
가족력 : 본인이나 가족의 결핵의 기왕력은 없었다.

현병력 및 초진소견 : 환자는 내원 5개월전 부터 우측 이하선 부위에 서서히 자라는 무통

성의 종물이 촉진되어 본원에 내원하였다. 우측 이하선에 1.5×1.5cm 크기의 단단하고 고정된 무통성의 종물이 촉진되었으나, 안면신경마비 또는 흉쇄유돌근 주위에서 입파절은 촉진되지 않았다.

검사소견: 혈액, 뇨, 흉부 X-선 검사는 정상 범위였고 전산화단층촬영상 우측 이하선 천엽 부위에 1×1cm과 0.5×0.5cm 크기의 분엽성 소결절이 2개 보였다(Fig. 1). 수술후 7일째 시행한 결핵피부반응검사에서는 음성을 나타냈으며 객담도말검사 및 배양검사에서도 결핵균은 검출되지 않았다.

수술소견: 1994년 6월 10일 전신 마취하에서 이하선 천엽 적출술을 시행하였다. 수술시 안면신경의 손상을 방지하기 위해 신경자극계를 사용하였고 안면신경 6개 분지를 노출시키면서 천엽과 종물을 함께 제거하였으며 이하선 주위에서 발견된 입파절도 제거하였다. 종물의 육안적 소견은 표면이 비교적 불규칙하였으며 주위 조직과의 유착상태는 심하였다(Fig. 2).

병리조직학적 소견: 이하선 종물에서 육아종 형성과 건락성 피사 및 그 주위로 상피성 세포들이 관찰되는 만성 육아종성 염증소견을 보였으며 AFB 염색에서 acid-fast bacilli가 발견되었다(Fig. 3, 4, 5).

치료 경과: 수술후 우측 입술에 경미한 운동장애가 인지되어 수술시의 견인에 의한 것으로 추측하여 steroid 요법을 시행하였으며 술후 3주경 거의 기능이 회복되었다. 조직학적 검사상 결핵으로 진단되었으며 술후 7일째 시행한 피부반응검사 및 객담도말검사에서는 모두 음성으로 나왔다. 술후 10일째부터 INH 300mg/day, RIF 500mg/day, EMB 800mg/day, PZA 1500mg/day를 투여하고 있으며 현재까지 재발 증세없이 경과 관찰 중에 있다.

고 찰

결핵은 어느 장기에서나 발생할 수 있지만 tubercle bacillus는 PO₂가 높은 폐조직에서 잘

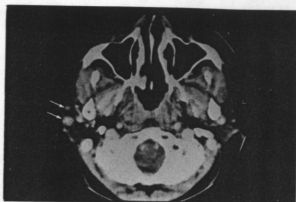


Fig. 1. Two well-defined round nodules with highly homogenous contrast enhancement at the superficial lobe of right parotid gland, measuring about 1×1cm, 0.5×0.5cm in size, respectively.

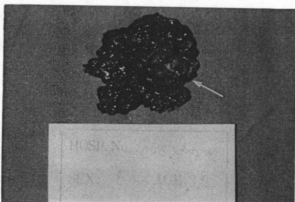


Fig. 2. Surgical specimen: gray to yellow soft tissue, measuring 2×1×0.5cm in dimensions.

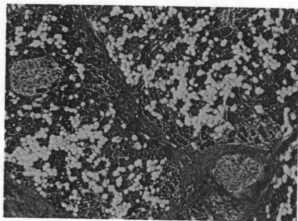


Fig. 3. Note well formed tubercle in lobule and interlobular septum of parotid gland(H-E stain, ×100).

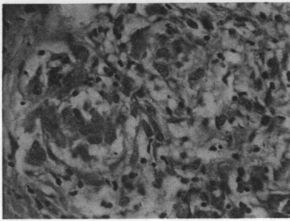


Fig. 4. Tubercle reveals aggregation of epithelioid cells and admixed with lymphocytes(H-E stain, ×400).

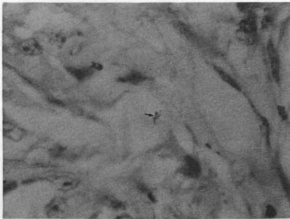


Fig. 5. In AFB stain, acid-fast bacillus is noted(Magnification, ×1000, oil emersion).

자라므로 주로 폐결핵 형태로 나타나며 폐의 결핵의 주호발 부위는 입과관, 흉막, 골 및 관절, 비뇨생식계, 뇌척수막, 복막의 순이며 비교적 PO_2 가 낮은 타액선은 매우 드문 장소로 알려져 있다.^{8,11,21} 특히 비결핵성 mycobacteria는 주로 경부 임파절을 침범한다¹⁷. 타액선 결핵은 1893년 Depaoli가 이하선에 생긴 원발성 결핵을 처음으로 보고하였으며¹¹, Stanley 등²⁰은 10년간 303례의 타액선 적출후 병리학적 진단에서 결핵성 이하선염이 4례, 결핵성 악하선염이 1례이었고, 1981년 Eichel 등¹⁰은 타액선 장애를 가진 232명의 분석에서 이하선 결핵이 1례이었고 악하선 결핵은 없었다고 보고하였다.

1971년에 Lewelyn와 Dorman¹⁰이 처음으로 mycobacteria 감염의 변화 추세를 보고한 이래로 세계적으로 폐결핵의 이환율이 현저히 감소하는 반면에 폐외결핵의 이환율은 결핵 환자의 약 15% 정도로 변화가 없다. 활동성 폐결핵이 전체 인구의 2.5%를 차지하는 우리나라의 경우 이러한 타액선 결핵의 발생 빈도가 서구에 비해서 높을 것으로 생각되나, 국내에서는 고¹⁾의 이하선 결핵 2례, 김 등²⁾의 이하선 결핵 2례, 엄 등³⁾의 악하선 1례, 안 등³⁾의 이하선 1례, 그리고 표 등⁵⁾에 의한 악하선 1례가 보고되고 있을 뿐이다.

타액선과 경부임파절을 포함한 폐외 결핵의 감염경로는 두가지 가능성이 있는데, 첫째는 편도선이나 치은구(gingival sulcus)의 결핵균 병소가 관(duct)을 통해서 타액선으로 상행하여 lymphatic drainage를 통해 경부임파절을 지나는 것과⁷⁾, 둘째는 폐로부터 혈행성 또는 임파성 파급인데 이는 폐결핵이 일차 감염시 90% 이상에서 치유된 뒤에 살아남는 병원균이 과감작반응에 의해 피막에 싸여 반흔조직과 임파결절들내에 있다가 수년 후 폐의 결핵으로 활성화될 수 있다고 하였다^{9,20}. 이하선 결핵의 감염경로²⁾는 이하선관계, 임파선, 혈행 또는 안면신경 등이 있는데 Donohue와 Bolden¹¹ 그리고 Berman과 Fein⁸은 관계(canalculi)나 임파선을 통한 경우가 많다고 하였으며 Batsakis⁷⁾는 원발성의 경우 주로 편도선이나 인접 치아에 병소가 있다고 하였다.

결핵감염에 있어서 병원균은 대부분 결핵성 mycobacteria에 의한 것이었으나 근래에는 비결핵성 mycobacteria에 의한 감염이 증가하고 있으며¹³, Rieu 등¹⁵⁾과 Runyon¹⁶⁾은 색소 생성 능력과 성장의 특성에 따라 비결핵성 mycobacteria를 (1) photochromogens-*M. kansasii*, *M. marinum*; (2) scotochromogens-*M. scrofulaceum*; (3) non-photochromogens-*M. avium*, *M. intracellulare*; (4) rapid growers-*M. chelonae*, *M. fortuitum*과 같이 4 group으로 분류하였다. 이중 가장 흔한 병원체는 *M. avium-intracellulare*와 *M. scrofulaceum*이다. 성인은 결핵성 mycobacteria 감염이 많은데 비해 소아는

비결핵성 *mycobacteria*의 감염이 많으며 특히 1세에서 3세사이에 호발한다고 하였다¹⁵⁾. App-ling과 Miller⁶⁾는 결핵성 경부임파선염의 경우 인구 10만명당 결핵성 *mycobacteria*의 감염은 0.04명이고 비결핵성 *mycobacteria*의 감염은 0.37명으로 비결핵성 *mycobacteria*에 의한 감염의 빈도가 높다고 보고하였다.

타액선 결핵은 크게 신체 다른 부위의 결핵성 감염으로 인해서 2차적으로 발생하는 속발성 감염과 폐 등 다른 부위 감염의 병소를 찾을 수 없는 원발성 결핵으로 대별할 수 있다. Donohue와 Bolden¹¹⁾은 타액선 결핵에 대한 종합적 고찰에서 그 발생 빈도가 원발성인 경우는 이하선이 가장 많고 악하선, 설하선 순이라 하였고, 속발성인 경우는 악하선과 설하선이 발생 빈도가 높다고 하였다. 남녀의 발생 비율은 대개 비슷하며 환자의 약 1/5이 10~20세로 젊은 층에 생기게 되며, 이 중 75%에서 가족력이나 과거력상 결핵 감염이 없는 것으로 알려져 있다¹¹⁾. 이하선 결핵의 증상은 부종 또는 종괴의 형태로 나타나며 경도는 다양하다. 동통은 말기에 나타나고 안면신경마비, 누공 및 경부 임파선 침범은 드물며 전신 증상은 대개 없다. 그러나 원발성 이하선 결핵은 그 증상이 특이하지 않고 가족력 및 과거력도 거의 없어 진단에 아주 어려움을 겪게 된다. 실제로 Donohue와 Bolden¹¹⁾의 보고에 의하면 79례중 7례만이 수술전에 결핵으로 진단하였고 나머지 72례는 대개 양성혼합종양(benign mixed tumor)으로 진단되었다. 그 외 매독, actinomycosis, 열증, 악성 종물로 진단하기도 하였다. 따라서 술전 결핵성 타액선염으로의 진단은 쉽지 않으므로 정밀한 이학적 검사와 흉부 X-선검사, 타액로 X-선검사, 객담도말검사 및 배양검사를 시행하는 것이 바람직하다¹⁵⁾. 흉부 X-선소견은 대개 정상이며, 비결핵성 *mycobacteria* 감염과 감별하기 위해서는 조직배양검사로 균주를 확인하는 방법이 가장 적합하다. 양성 피부반응과 결핵균 감염과 일치하는 병리 조직소견을 나타내는 환자중 Ziehl-Nielsen stain은 20~50%에서 양성을 보이며²⁰⁾ 배양검사는 10~69%에서 양성을 나타낸다⁹⁾. 대개의 경우 조직학적으로 조

직내 결핵균이 보이면 확진되지만 객담도말 검사나 배양상 안나오는 경우가 많다¹⁶⁾. 이와 같이 진단이 용이하지 않으므로 Cantrell 등⁹⁾은 1) 경부종양 2) 양성 피부반응 3) 병리조직 검사상 건락성 육아종 4) 적출물의 특수염색상 acid-fast bacilli의 존재 5) 적출물에서 *M.tuberculosis*의 배양 6) 항결핵 약물요법에 확실히 반응할 때등, 이들중 3가지 이상의 소견이 부합할때 결핵성이라 진단하였다. 저자의 경우 객담도말검사 및 배양검사에서 결핵균은 검출되지 않았고 피부반응검사에서도 음성이었으나 조직의 현미경 소견상 육아종 형성과 건락성 피사 및 그 주위로 상피세포들이 함께 관찰 되었으며 Ziehl-Nielsen 염색에서 acid-fast bacilli가 보여 결핵성 이하선염으로 진단하였다.

치료는 크게 수술요법과 약물 요법으로 나눌 수 있는데 Donohue와 Bolden¹¹⁾은 대개 일차적 치료로서 수술요법을 사용하였는데 그 이유는 결핵성 이하선염이 드문 질환이어서 절제술에 의한 생검으로 진단이 가능하였기 때문이라 하였으며, 그 외 자외선요법, 적외선요법, duct를 통해 무균성 oil주사 등의 방법을 사용했다는 보고도 하였다. 그러나 초기 병변에는 약물 요법으로 후기 병변에는 수술 및 약물 요법의 병용이 좋은 것으로 생각된다고 하였다. 절개생검이나 타액선과 임파선의 불완전 적출시는 누공을 형성할 수 있으므로 부가적인 수술을 요하는데^{6,14)} 재발율은 수술만 시행하였을 경우 33%이며, 수술 요법과 항결핵 약물 요법을 병행하였을 경우 11%이라 하였다²⁰⁾. 이밖에도 Oslon¹⁵⁾은 비정형적 결핵균 감염시는 일반적인 항결핵제는 별 효과가 없으며 소파술만으로도 좋은 결과를 얻었다 하였다. 예후는 양호하며 합병증 및 휴유증도 드물다⁸⁾. 안면신경장애는 대개 완전 회복이 된다고 하였다.

요 약

저자들은 최근 임상적 병리학적으로 진단된 원발성 결핵성 이하선염 1례를 외과적 절제술

및 약물요법을 시행하고 현재 경과 관찰 중이며 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) 고의경 : 이하선 종양의 임상적 고찰. 임상이비 1(2) : 92~100, 1990
- 2) 김영명 · 홍원표 · 오혜경 등 : 원발성 결핵성 이하선염의 2례. 한이인지 26 : 163~167, 1983
- 3) 안창수 · 이동혁 · 장용기 등 : 원발성 결핵성 이하선염 1례. 한이인지 33 : 1246~1248, 1990
- 4) 염동훈 · 장경희 · 채세용 등 : 원발성 결핵성 악하선염 1례. 한이인지 28 : 97~100, 1985
- 5) 표호수 · 백승대 · 임재선 등 : 원발성 결핵성 악하선염 1례. 한이인지 34 : 193~197, 1991
- 6) Appling D, Miller RH : *Mycobacterial cervical lymphadenopathy*. Laryngoscope 91 : 1259~1266, 1981
- 7) Batsakis JG : Tumors of the Head and Neck Clinical and Pathological considerations, 2nd Ed. pp101-103, Baltimore, Williams and Wilkins, 1979
- 8) Berman H, Fein MJ : Primary tuberculosis of the parotid gland. Ann Surg 95 : 52~57, 1932
- 9) Cantrell RW, Jensen JH, Reid D : Diagnosis and management of tuberculous cervical adenitis. Arch Otol 101 : 53~57, 1975
- 10) Depaoli C : Cited from Cantrell RW, Jensen JH, Reid D, 1975
- 11) Donohue WB, Bolden TE : Tuberculosis of the salivary glands : A collective review. Oral Surg 14 : 576~588, 1961
- 12) Eichel BS, Bray DA, Kaplan HJ : The overall management of salivary gland disorders. Laryngoscope 91 : 504~511, 1981
- 13) Lewelyn DM, Dorman D : *Mycobacterial lymphadenitis*. Aust Paed J 7 : 97~102, 1971
- 14) Mair IW, Elverlard HH : Cervical *mycobacterial* infection. J Laryngol Otol 89 : 933~939, 1975
- 15) Oslon NR : *Nontuberculous mycobacterial* infections of the face and neck practical considerations. Laryngoscope 91 : 1714~1726, 1981
- 16) Paparella MM, Shumrick DA : Otolaryngology, vol 1, 2nd Ed, WB Saunders Company, pp1002, 1980
- 17) Pransky SM, Reisman BK, Kearns DB et al : Cervical *mycobacterial* adenitis in children : Endemic to San Diego? Laryngoscope 100 : 920~925, 1990
- 18) Rieu PNMA, Broek PVD, Pruszczynski M et al : Atypical mycobacterial infection of the parotid gland. J of Pediatric Surgery 25 : 483~486, 1990
- 19) Runyon EH : Anonymous *mycobacteria* in pulmonary disease. Med Clin North Am 43 : 273~290, 1959
- 20) Stanley RB, Fernandez JA, Peppard SB : Cervicofacial *mycobacterial* infections presenting as major salivary gland disease. Laryngoscope 93 : 1271~1275, 1983
- 21) Strome M : Non neoplastic salivary gland diseases in children. Otol Clin North Am 10 : 391~398, 1977
- 22) Travis LW, Hecht DW : Acute and chronic inflammatory diseases of the salivary glands diagnosis and management. Otol Clin North Am 10 : 329~338, 1977