

부이하선에서 발생한 선천성 침샘 누공 1예

계명대학교 의과대학 이비인후과학교실
구본민 · 김지룡 · 한순용 · 여창기

Congenital Fistula Originated from Accessory Parotid Gland

Bon Min Koo, MD, Ji Ryong Kim, MD, Soon Yong Han, MD and Chang Ki Yeo, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology, School of Medicine, Keimyung University, Daegu, Korea

— ABSTRACT —

We experienced a case of congenital fistula originated from accessory parotid gland of a 2 year-old-male patient. The patient underwent fistulectomy with accessory parotidectomy through middle cheek incision. Histologic examination revealed the salivary gland with fistulous duct. To the best of our knowledge, only 3 previous cases of congenital accessory parotid gland fistula have been reported in Korean literature. Therefore we report this case with a literature review. (J Clinical Otolaryngol 2016;27:388-391)

KEY WORDS : Fistula · Congenital · Accessory parotid.

서 론

부이하선은 이하선 전방에 존재하면서 분리되어 있는 침샘 조직을 말한다.¹⁾ 부이하선은 전 인구의 21%에서 발생하며,²⁾ 보통은 주이하선과 함께 구강 내로 배액 되기에 해부학적인 변이가 있는 것을 발견하기 힘들다.¹⁾ 이하선에서 독립된 침샘관이 형성되어 피부로 누공이 생기는 경우는 보통 수술이나 외상으로 인한 것이 대부분이며, 선천성 이하선 누공은 드물게 보고된다. 부이하선에서 피부로 누공을 형성하는 것은 아주 드물다.³⁾

본 증례에서는 우측 협부의 누공을 주소로 내원한 환아에서 영상학적 검사로 부이하선을 발견 한 뒤 수술적

치료로 부이하선과 누공을 제거하여 완치하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

2세 남아가 태어날 때부터 있었던 우측 협부의 누공을 주소로 내원하였다. 주로 신 음식을 먹을 때 누공을 통해 타액이 나왔으며, 타액의 성상은 깨끗한 장액성이었다. 협부에 부종이나 발적 및 특이 병력은 없었다. 외상 병력은 없으며, 수술력도 없었다.

신체 검진에서 누공이 우측 입술에서 3 cm 외측 방향으로 있었고, 동측 협부를 압박할 시 깨끗한 장액성 타액이 나왔다. 우측 이개 앞부분에 피부 연성 섬유종(skin tag)도 동반되어 있었다. 그 이외에 만져지는 종물은 없었다.

진단을 위해 시행한 자기 공명 영상에서 우측 주이하선은 좌측에 비해 위축되어 있었으며, 우측 저작근 공간에 부이하선으로 보이는 조영 증강 되는 결절성 종물이 발견되었다. 이 종물에서부터 피부 사이에는 결손이 있었다.

논문접수일 : 2016년 8월 23일
논문수정일 : 2016년 9월 27일
심사완료일 : 2016년 10월 28일
교신저자 : 여창기, 41931 대구광역시 중구 달성로 56
계명대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (053) 250-7715 · 전송 : (053) 256-0325
E-mail : ckyeo@dsmc.or.kr

위축된 우측 이하선에 비해 좌측 이하선은 비교적 정상 크기였다(Fig. 1). 영상학적 소견을 바탕으로 우측 부이하선 및 침샘누공 진단하여 수술적 절제를 하기로 하였다.

전신 마취 하에 누공에 메틸렌 블루 용액을 주입하였다. 출혈을 줄이기 위해 1 : 100,000 에피네프린 용액을 누공 주위에 주입한 뒤 누공을 포함하여 피부에 타원형으로 절개를 넣었다. 누공을 확인하여 박리하면서 부이하선을 확인한 뒤 부이하선을 함께 절제하였다. 술 후 1일째 수술로 인한 합병증 없이 수술 부위 깨끗한 상태로 퇴원하였으며, 최종 병리조직 검사 결과는 누공관으로 확

인되었다(Fig. 2, 3).

고 찰

인체의 타액선은 주타액선과 부타액선이 있다. 주타액선은 이하선, 악하선, 설하선이 있고, 부타액선은 상부 호흡계에 수백만개가 존재하고 있다.³⁾ 이하선은 주타액선 중 가장 먼저 발생하며 태생 6주 초에 나타나서 18주 경에는 분비를 시작한다. 이하선은 구각(mouth angle) 근처에 있는 인두 외배엽에서 발생하여 상피세포아(bud)가

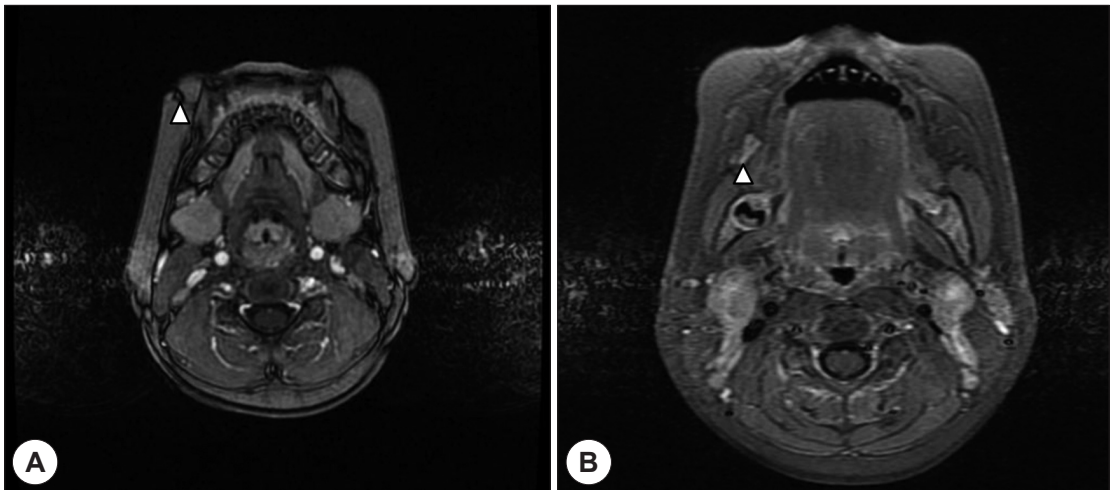


Fig. 1. A : Axial MRI image. MRI shows fistulous tract from Rt. accessory parotid gland. B : Axial MRI image. MRI shows Rt. accessory parotid gland.

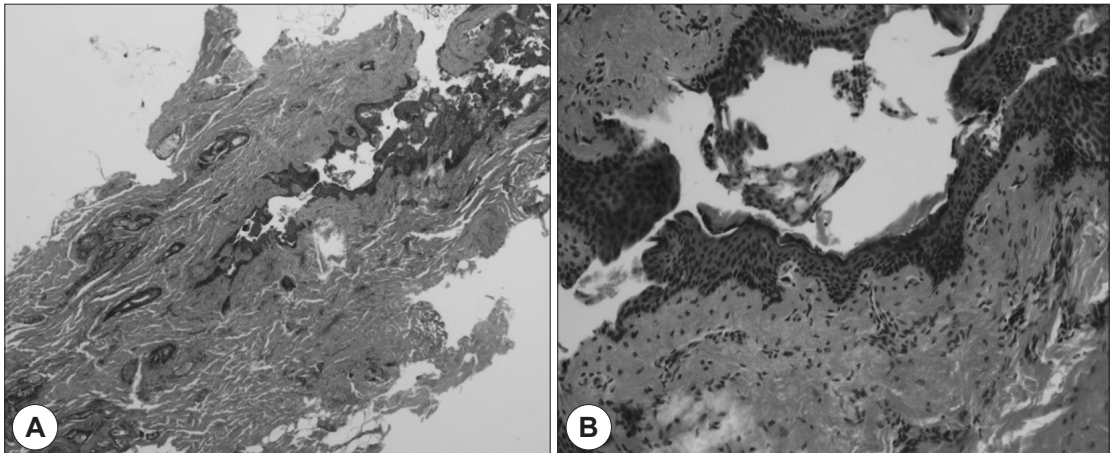


Fig. 2. A : Histopathologic findings. Salivary glands and fistula duct (H&E, $\times 40$). B : Histopathologic findings. Fistula duct covered with squamous cells (H&E, $\times 200$).

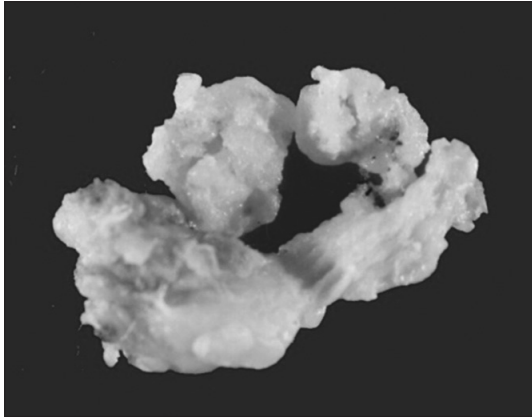


Fig. 3. Gross photo. Accessory parotid gland with fistula tract.

만들어짐으로 시작하고, 둥근 끈모양으로 후방 하악쪽으로 성장해 들어가서 상피 끈의 끝부분은 침샘으로 발달하고, 상피 끈의 내부가 빈관이 되어 침샘관 역할을 한다.⁴⁾ 이하선은 하악 후면과 유양돌기 사이에 존재하며 교근(masseter muscle)위에 부착되어 있으며, 부이하선은 보통 교근 전방, 안면신경과 광대뼈(zygomatic bone) 사이에 위치한다. 부이하선의 빈도는 높은 편이다. Frommer 등³⁾에 의하면 사체 해부 96례 중 20례(21%)에서 부이하선을 확인하였고, 모두 부이하선에서 이하선관으로 연결되어 있었다. 하지만 본 증례처럼 부이하선에서 이하선관으로 배액되지 않고, 피부로 누공이 생기는 경우는 드물다.⁵⁾

부이하선과 부이하선 침샘누공의 발생가설은 아직 명확하지 않다. 부이하선은 조직학적으로 장액성 침샘 조직과 점액성 침샘 조직을 동시에 가지고 있기에 장액성 침샘 조직만 가진 주이하선 조직과는 차이가 있다.²⁾ 부이하선의 발생 역시 외배엽 상피 세포가 자라 들어가서 생긴 것으로 추정하지만,³⁾ 주이하선과 조직학적 차이가 있는 것으로 보아 다른 발생 기전이 있을 수 있다. SUN 등⁶⁾은 부이하선은 주이하선에서 발생하여 앞쪽으로 분리된 뒤 주이하선과 부이하선 사이에 통로가 되던 침샘관이 사라지게 되어 분리된 부이하선이 생기게 된다고 주장하였으나, Yadav 등⁷⁾은 이하선 발생과정에서 외배엽 상피세포가 두 개의 관으로 각각 자라 들어가서 주이하선과 부이하선이 된다고 주장하였다. 그리고 상악돌기와 하악돌기가 융합되는 과정에서 주이하선은 피부 쪽이 단

혀서 구강 내로만 관을 내지만, 부이하선은 피부쪽으로 누공을 내어서 부이하선 누공이 발생했을 가능성을 제시하였다. Rhee 등³⁾은 부이하선 누공 발생에 대해 설명하면서, 부이하선이 주이하선과 별개로 외배엽이 합입 되어 피부 쪽 누공이 발생했을 수도 있고, 부이하선이 주이하선의 일부로 있다가 주이하선 관과의 연결이 끊어 진 후 피부쪽으로 누공을 내었을 수도 있음을 제시하였다.

부이하선 피부누공은 이개부위에 피부 연성섬유종이 동반되어 있는 경우가 많다.⁸⁾ 본 증례에서도 피부 연성섬유종이 동반되어 있었다. 이개는 제1, 2쇄궁에서 발생한 6개의 이개용기에서 발생한다. 전이개 부위에 생기는 피부 연성 섬유종은 이개용기의 부산물이다.⁹⁾ Yadav 등⁷⁾은 부이하선과 침샘 누공이 함께 발생하는 것이 제 1쇄궁의 이형성 때문일 수 있음을 제시하였다.

부이하선에서 기원한 침샘관은 증례가 많지 않기에 치료법이 정립되어 있지 않다.

Yamasaki 등⁵⁾은 Delore법으로 침샘관을 구강 내로 치완시키는 방법을 보고하였고, Hah 등¹⁰⁾은 TCA용액을 이용하여 화학적 소작술을 시행하여 침샘관을 막고, 보툴리눔 독신으로 부이하선을 퇴화시키는 방법을 보고하였다. 이 방법은 최소 침습적이며, 흉터를 최소화 할 수 있는 장점이 있으나, 부이하선을 제거하지 않아 부이하선이 감염병소가 될수 있으며, 침샘관이 재발할 위험성이 있다.

SUN 등⁶⁾은 경구강 접근법과 피부 절개를 동시에 시행하여 침샘누공 주위 피부는 최소 절개로 수술하였음을 보고하였다.

본 증례에서는 기존의 증례와는 달리 피부에 절개를 넣고 침샘관을 박리한 뒤 부이하선까지 도달하여 침샘관과 부이하선을 완전 절제하였다. 이 수술 방법은 부이하선과 침샘누공을 완전 절제할 수 있는 장점이 있지만 부이하선이 안면 신경과 광대뼈 사이에 있기에, 수술 중 안면 신경의 볼 가지(buccal branch)가 다치지 않도록 주의해야 한다. 침샘 누공이 부이하선을 찾는 경계표가 되기에 침샘 누공을 따라 신중하게 박리하여 안면 신경이 손상되지 않도록 해야 한다. 그리고 본 증례에서는 수술 중 안면신경 자극기를 사용하여서 마비 없이 수술을 진행할 수 있었다.

어떤 치료 방법이 최선일지는 좀 더 많은 증례가 보고되고, 장기간 경과 관찰이 된 후 논의가 필요할 것으로

보인다.

중심 단어 : 누공 · 선천성 · 부이하선.

REFERENCES

- 1) Stenner M. *Accessory parotid gland lesions: case report and review of literature. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2008; 265:1135-8.
- 2) Frommer J. *The human accessory parotid gland: its incidence, nature, and significance. Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1977;43(5):671-6.
- 3) Rhee CS, Byun SW, Jinn TH, Sung MW. *A case of congenital salivary fistula arising from accessory parotid gland. Korean J Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery* 1995;38(10):1626-9.
- 4) Carlson GW. *The salivary glands. Embryology, anatomy, and surgical applications. Surg Clin North Am* 2000;80(1): 261-73.
- 5) Yamasaki H, Tashiro H, Watanabe T. *Congenital parotid gland fistula. Int J Oral Maxillofac Surg* 1986;15(4):492-4.
- 6) Sun Z, Sun L, Zhang Z, Ma X. *Congenital salivary fistula of an accessory parotid gland in Goldenhar syndrome. J Laryngol Otol* 2012;126(1):103-7.
- 7) Yadav G.D, Yadav A, Soni J, Chaudhary G. *Accessory parotid gland with ectopic fistulous duct-surgical view: A case report and review of current literature. National J Maxillofacial Surg* 2014;5(2):236-9.
- 8) Moon WK, Han MH, Kim IO, Sung MW, Chang KH, Choo SW, et al. *Congenital fistula from ectopic accessory parotid gland: diagnosis with CT sialography and CT fistulography. Am J Neuroradiol* 1995;16(4):997-9.
- 9) Wright CG. *Development of the human external ear. J Am Acad Audiol* 1997;8(6):379-82.
- 10) Hah JH, Kim BJ, Sung MW, Kim KH. *Chemocauterization of congenital fistula from the accessory parotid gland. Clin Exp Otorhinolaryngol* 2008;1(2):113-5.