

## 협부 종물로 나타난 원인 불명의 다발성 이하선관 확장증 1예

중앙보훈병원 이비인후과,<sup>1</sup> 영상의학과<sup>2</sup>  
백문승<sup>1</sup> · 문성규<sup>1</sup> · 김인중<sup>2</sup> · 김승우<sup>1</sup>

### A Case of Idiopathic Multiple Sialectasis in Stensen's Duct Presenting as Cheek Mass

Moon Seung Beag, MD<sup>1</sup>, Seong Kyu Moon, MD<sup>1</sup>, In Joong Kim MD<sup>2</sup> and Seung Woo Kim, MD<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery; and <sup>2</sup>Radiology, Veterans Health Service Medical Center, Seoul, Korea

#### – ABSTRACT –

Sialectasis can occur as a consequence of stone, inflammation, autoimmune diseases, trauma, surgery and radioactive iodine treatment etc. The clinical features and symptoms are various depending on the location and size of the dilated salivary duct. The dilated distal Stensen's duct may appear as a cheek mass. The idiopathic multiple sialectasis is relative rare and few cases are reported so far. A 83-year-old male who visited our clinic with cheek mass and finally diagnosed as multiple sialectasis in Stensen's duct. We report an interesting and didactic case with a review of relevant literature. (J Clinical Otolaryngol 2021;32:153-157)

**KEY WORDS:** Ectasia; Salivary duct; Cheek.

#### 서 론

타액선관 확장증(sialectasis)은 타석증, 만성 염증, 자가면역 질환, 외상, 수술 및 요요드 동위원소 치료 후에 발생할 수 있으며, 명확한 원인 없이 발생하기도 한다.<sup>1-3</sup> 임상 양상은 확장된 침샘관의 위치와 크기에 따라 다르며, 이하선관의 원위부에 확장이 있는 경우는 협부 종물로 나타날 수 있다.<sup>3</sup> 협부 종물양상으로 나타난 이하선관 확장증은 영문검색에서 11예가 보고되어 있으며, 국내 보고는 1예가 있다.<sup>1-6</sup> 저자들은 협부 종물로 내원한 83세 남환에서 다발성 이하선관 확장증으로 진단된 교훈적인 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

#### 증 례

83세 남환이 내원 2년 전부터 지속되고, 최근 3개월 동안 서서히 크기가 증가하는 우측 협부 종물을 주소로 내원하였다. 종물은 무통성의 2.5×2.1 cm의 크기로 약간의 가동성을 가지는, 경계가 명확한 구형 양상이었다 (Fig. 1A). 경부의 다른 곳에 비 정상적으로 촉지되는 종물은 없었으며, 신경 증상도 없었다. 과거력에서는 고혈압과 심근경색으로 관상동맥 우회술을 시행 받았으며, 안면부 외상 및 수술 등의 이력은 없었다. 협부의 양성 종물 또는 부이하선 종물 등을 의심하고, 영상 검사를 시행하였다.

Received: June 28, 2021 / Revised: July 15, 2021 / Accepted: July 26, 2021

Corresponding author: Seung Woo Kim, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Veterans Health Service Medical Center, Seoul 05368, Korea

Tel: +82-2-2225-1384 · Fax: +82-2-2225-1385 · E-mail: entzzang1020@daum.net

경부 초음파 소견에서 우측 침샘관이 전체적으로 확장되고, 확장부 사이에는 협착부가 존재하였고(Fig. 2A and 2B), 전산화 단층촬영에서도 초음파와 유사한 양상이 확인되었다(Fig. 2C and 2D). 이러한 소견 등을 확인한 이후 손가락으로 종물의 표면에 압력을 가하자, 이하선관의 구강 개구부에서 타액으로 보이는 액체가 다량 분출되었고, 바로 종물의 크기는 확연히 감소하였다(Fig. 1B and 1C). 환자는 평소 식후의 저명한 동통, 협부 부종 및 종물의 크기 증가 등은 없었다고 하며, 안면부 외상, 종양, 수술 및 타석증 진단 등에 대해서도 부인하였다. 일반혈액 검사, C-반응 단백질 및 적혈구 침강 속도 검사 등은 모두 정상 범위였다. 이하선관 확장증 또는 타액류 등을 의심하고, 이하선관의 내부 상태 및 침샘관 성형술(sialodochoplasty)의 시행 가능 여부 등을 평가하기 위하여 자기공명 타액선 조영술(magnetic resonance sialography)을 시행하였다(Fig. 3). 이 검사에서는 이하선관이 전체적으로 확장되고, 관벽은 비후 및 조영 증강되는 소견을 보였으며, 확장부의 중간에 여러 협착부가 존재하였다.

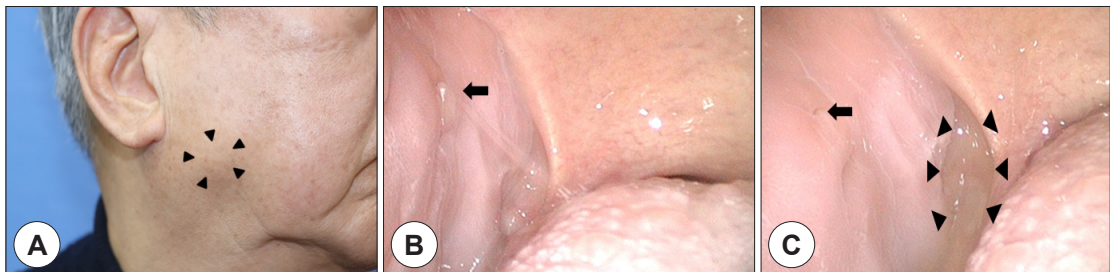
이하선관 내부의 상태를 평가하기 위하여 타액선 내시경을 계획하였으나, 고령 및 심혈관 질환으로 전신마취의 고 위험군이라는 평가에 환자분이 검사를 완강히 거부하여 시행할 수 없었다. 이상의 소견들을 종합해서 이하선관의 특발성 다발성 확장증으로 진단하고, 우선 확장된 침샘관 내부의 타액을 초음파 유도 하에 최대한 흡인하고, 압박 치료를 3회 시행하였으나, 병변이 재발하였다. 병변이 원위부 및 근위부 모두에 존재하여, 소

식자 확장법(bougination), 풍선 확장술 및 구강 내에서 접근 가능한 원위부 병변 만을 절제하는 침샘관 성형술로는 효과가 제한적일 것으로 판단되었다. 또한 환자분도 연령 및 악성 종물이 아니라는 이유 등으로 추가적 치료보다는 경과관찰을 강하게 원하였다. 초진 이후 9개월 경과한 현재까지 종물 이외에 특이 증상 없이 추적 관찰 중이다.

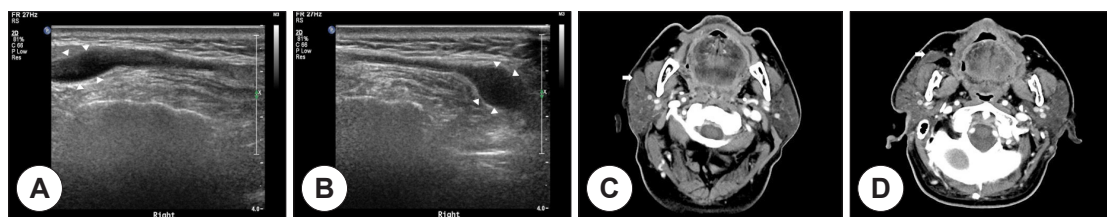
## 고찰

폐쇄성 타액선 질환(obstructive salivary gland diseases, OSGD)은 타석증, 협착, 점액전(mucous plug), 유두종 및 외상 등에 의해 발생할 수 있으며, 협착은 자가면역질환, 면역 글로불린G4 관련 질환, 쇼그렌 증후군, 만성 이하선 염증 및 요요드 동위원소 치료 후에 발생할 수 있다.<sup>7)</sup> 타액선관 확장증(sialectasis)은 타액선관의 만성 폐쇄에 의한 반복적인 팽창으로 관 벽의 약화와 비가역적 팽창이 주된 병인이다.<sup>3)</sup> 폐쇄의 원인은 타석이 가장 흔하고, 타액관 협착 및 점액전 등의 순이며, 드물게 선천적 이상 및 특발성 등의 경우도 있다.<sup>3,6)</sup>

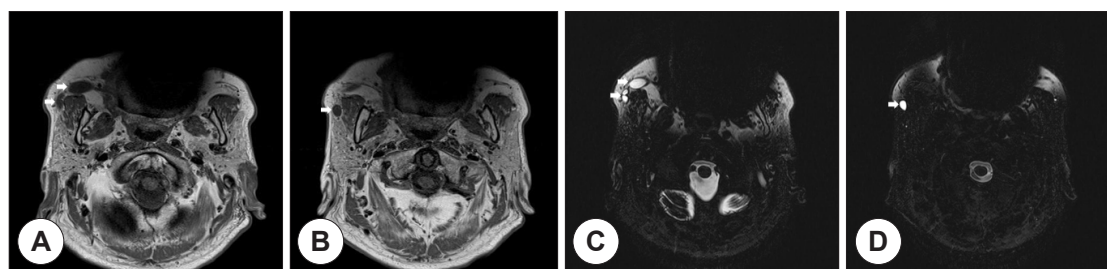
협부 종물로 나타난 타액선관 확장증의 보고는 저자들의 검색으로는 국내 보고로 1례가 있으며,<sup>1)</sup> 영문 보고로 11례가 있다.<sup>2-6)</sup> 대부분은 중간에 협착 부위가 없는 확장된 부위가 단일 관의 형태였으며, 본 증례처럼 다발성인 경우는 영문으로 2례가 있다.<sup>2,4)</sup> 임상증상은 이하선관 확장 범위가 큰 경우는 구강 내 또는 협부의 무통성 종물로 나타날 수 있으며, 타액선염이 동반된 경우는



**Fig. 1.** Facial photograph and intraoral endoscopic findings. It shows a 2.5×2.1 cm sized well-margined ovoid mass on right mid-cheek area (arrowheads)(A). When the mass is compressed by finger, sudden gush out saliva-like fluid from intraoral opening of Stensen's duct (arrow)(B). It shows an accumulation of saliva in the retromolar trigone(arrowheads)and inflated parotid papilla is also observed (arrow)(C).



**Fig. 2.** Radiologic findings. Transverse scan of neck ultrasonography reveals 1.3 cm sized diameter dilatation on right middle Stensen's duct with a maximum diameter 1 cm (arrows)(A). Transverse scan of neck ultrasonography reveals 1.5 cm sized diameter dilatation on right distal Stensen's duct (arrowheads)(B). The enhanced neck CT scan shows 1.1 cm sized diameter dilatation on right proximal Stensen's duct (arrow)(C). The enhanced neck CT scan shows 1.0 cm sized diameter dilatation on right distal Stensen's duct (arrow)(D).



**Fig. 3.** Salivary MR sialography findings. An axial T1-weighted image shows multi-focal dilated lesions on right distal Stensen's duct with a maximum diameter 1 cm (arrows)(A). Right middle Stensen's duct shows the diameter is expanded up to 0.8 cm (arrow)(B). The image shows multi-focal stenosis and dilation with a maximum diameter 0.9 cm in right distal Stensen's duct (arrows)(C). It shows the right middle Stensen's duct that the diameter is expanded to 0.7 cm (arrow)(D).

압통 및 종창 등이 나타날 수 있다.<sup>4)</sup> 무통성의 협부 종물인 경우 감별 질환으로는 타액류, 림프절 병증, 지방종, 표피낭종, 타석증, 이하선 기종, 신경인성 종양 및 섬유종 등이 있다.<sup>8)</sup> 타액류(sialocele)는 타액선관 주변에 타액이 모여 낭종의 형태를 이룬 것으로 주로 수술 및 외상 등에 의해 타액선관이 손상을 받아 발생한다.<sup>9)</sup> 지방종은 촉진 시 더 견고하고, 병변이 서서히 증가하며, 이하선 기종은 이하선관을 따라 부종과 유사한 형태로 나타나며, 촉진 시 염발음(crepitis)이 특징이다. 본 증례는 영상검사에서 타액류 또는 타액선관 확장증 등을 의심하였고, 안면부 외상 및 수술 등의 이력이 없어 후자로 진단하였다.

타액선관 확장증이 의심되면 종물 부위를 압박해서 이하선 개구부에서 타액이 나오는 것을 확인하면 강하게 의심할 수 있다. 수지 압박에도 구강 내로 배액이 안 되는 근위부의 확장에는 경피적 초음파 유도 하 흡인으로 진단할 수 있다.<sup>3)</sup> 타액선을 평가하는 영상검사로는 초음파, 타액선관 조영술(sialography), 타액선 심광조

영술(salivary scintigraphy), 전산화단층촬영, 자기공명 촬영, 자기공명 타액선 조영술 및 타액선 내시경 등이 있으며, 이 중 타액선 내시경이 민감도 및 특이도가 가장 우수하다.<sup>10)</sup> 침샘조영술은 침샘적 검사로 통증 유발 및 조영제 부작용 등이 발생할 수 있으며, 타액선 내시경은 시술 이후에 10%~12%에서 타액선 부종 및 타액류 등의 합병증이 발생할 수 있다.<sup>3,11)</sup> 컴퓨터 단층촬영은 타석의 크기와 위치 등에 유용한 정보를 제공하지만, 방사선 투과성의 잠재 타석의 가능성을 배제할 수 없다.<sup>12)</sup> 자기공명 타액선 조영술은 타액선관의 전반적인 해부학적 형태를 평가하는데, 타액선관 조영술 및 초음파보다 유용하며, 타액선 내 실질과 타액선관을 동시에 평가할 수 있다.<sup>11)</sup> 이러한 장점으로 최근에는 자기공명 타액선 조영술이 폐쇄성 타액선 질환의 진단에 타액선관 조영술을 대체하는 중요한 검사로 인정받고 있다.<sup>13)</sup> 본 검사의 단점은 치아 보철물 또는 안면부 금속물질 등에 의해 병변의 왜곡이 발생할 수 있다.<sup>13)</sup>

치료에는 증상이 경미하고 반복적 염증이나 통증을

동반하지 않은 경우, 반복적 흡인, 압박, 조대술, 소식자법 및 풍선 확장술 등을 시행할 수 있으며,<sup>3)</sup> 이런 치료에 반응이 없거나 재발하는 경우에는 수술의 적응증이 된다. 타액선 내시경으로 명확히 협착부가 확인되거나, 타석이 있는 경우는 풍선 확장술 또는 기구를 이용해서 바로 타석을 제거할 수 있다.<sup>1)</sup> 구강 내 접근법을 이용한 수술로 이하선관의 확장된 부분과 협착부 등을 절제하고, 관의 정상 부위를 협착 점막에 연결하고, 여기에 스텐트를 삽입하여 좋은 결과를 보고한 경우도 있다.<sup>4,6)</sup> 본 증례는 협착 부위가 원위부 및 근위부 등에 다발성으로 존재하고, 환자가 고령으로 수술적 치료를 완강히 거부하여, 더 이상의 적극적인 치료는 할 수 없었다. 치료 없이 단순 경과관찰만을 시행한 타액선관 확장증의 경우, 무증상 지속, 타액관염, 타액류 및 타석의 발생 등의 다양한 경과를 보일 수 있으므로, 확장된 부위가 넓고, 증상이 있으면 적극적인 치료를 하는 것이 권고된다.<sup>3)</sup> 근위부 및 원위부 모두에 병변이 위치해 있는 경우는 이하선 문부의 결찰 또는 이하선 전절제술 등을 시도해 볼 수 있지만, 술 후 반흔 및 안면 신경 손상 등의 합병증 발생의 가능성이 있다.<sup>1)</sup> 타액류 및 타액선관 확장증 등에 보툴리눔 독소를 이하선 실질에 주사하여 치료한 보고가 있으나, 아직 치료효과가 명확하지 않다.<sup>5,14)</sup>

본 증례의 제한점으로는 타액선 내시경을 시행하였다면 방사선 투과성 결석, 매우 작은 결석 및 종양 등이 발견될 가능성을 배제할 수 없으며, 이전에 존재하고 있던 타석이 배출된 후에 영상검사가 시행되었을 가능성도 있다. 저자들은 협부 종물로 나타난 타액관 확장증을 경험하였으며, 협부 종물의 감별 진단법으로 종물의 수지 압박 후 구강 내로 타액흐름을 관찰하는 간단한 이학적 검사로 타액관 협착증의 진단이 가능하다는 교훈을 얻었다. 유사한 증례를 더욱 채집해서, 표준화된 진단, 평가 및 치료법 등에 관한 전향적인 연구가 필요할 것으로 사료된다.

중심 단어: 확장증, 타액관, 볼.

### Acknowledgements

Not applicable.

### Funding Information

Not applicable.

### Conflicts of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

### ORCID

Moon Seung Beag, <https://orcid.org/0000-0003-1008-8168>  
 Seong Kyu Moon, <https://orcid.org/0000-0001-6690-2769>  
 In Joong Kim, <https://orcid.org/0000-0003-3824-7706>  
 Seung Woo Kim, <https://orcid.org/0000-0002-7931-6977>

### Author Contribution

Conceptualization: Kim SW.  
 Data curation: Beag MS.  
 Formal analysis: Beag MS.  
 Methodology: Kim IJ.  
 Software: Beag MS, Kim IJ.  
 Validation: Kim IJ, Kim SW.  
 Investigation: Beag MS.  
 Writing - original draft: Kim SW.  
 Writing - review & editing: Beag MS, Moon SK, Kim IJ, Kim SW.

### Ethics Approval

This article does not require IRB/IACUC approval because there are no human and animal participants.

### References

- 1) Kim KS, Choi JS, Kim BS. A case of sialectasis of Stensen's duct. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2009; 52(10):842-4.
- 2) Shojaku H, Shimizu M, Seto H, Watanabe Y. MR sialographic evaluation of sialectasia of Stensen's duct: comparison with X-ray sialography and ultrasonography. Radiat Med 2000;18(2):143-5.
- 3) Lohia S, Joshi AS. Idiopathic sialectasis of the Stensen's duct treated with marsupialisation. BMJ Case Rep 2013;2013:bcr2013201548.
- 4) Baumash HD. Sialectasis of Stensen's duct with an extraoral swelling: a case report with surgical management. J Oral Maxillofac Surg 2007;65(1):140-3.
- 5) Le Roux MK, Graillon N, Hadj-Saïd M, Scemama U, Lutz JC, Chossegros C. Stensen duct dilation: case series of minimally invasive treatment. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2019;127(6):e114-7.
- 6) Yoon YH, Rha KS, Choi JW, Koo BS. Sialectasis of Stensen's duct: an unusual case of recurrent cheek swelling. Eur Arch Otorhinolaryngol 2009;266(4):573-6.
- 7) Koch M, Iro H. Salivary duct stenosis: diagnosis and treatment. Acta Otorhinolaryngol Ital 2017;37(2):132-41.
- 8) Beag MS, Koo BM, Lee MJ, Kim SW. A case of accessory parotid cyst treated with ultrasound-guided percutaneous eth-

- anol injection. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2020;63(6):282-5.
- 9) Hwang J, You YC, Burm JS. Treatment of intractable parotid sialoceles occurred after open reduction-fixation of mandibular subcondylar fracture. Arch Craniofac Surg 2018; 19(2):157-61.
  - 10) Pniak T, Štrympl P, Staníková L, Zeleník K, Matoušek P, Komínek P. Sialoendoscopy, sialography, and ultrasound: a comparison of diagnostic methods. Open Med 2016;11(1): 461-4.
  - 11) Song JW, Lee HS, Lee KD, Kim SW. A case of intraoral drainage of iatrogenic parotid sialoceles after sialendoscopy. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2015;58(8):572-5.
  - 12) Choi JS, Lim JY, Kim YM. Sialendoscopy. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2011;54(12):819-27.
  - 13) Hwang JH, Ahn HJ, Choi JS, Lee HY, Lim JY. Usefulness of magnetic resonance sialography for diagnosis of idiopathic chronic sialadenitis. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 2016;59(1):41-8.
  - 14) Maharaj S, Mungul S, Laher A. Botulinum toxin A is an effective therapeutic tool for the management of parotid sialoceles and fistula: a systematic review. Laryngoscope Investig Otolaryngol 2020;5(1):37-45.