

자가 유발성 이하선 기종 1예

경찰병원 이비인후과

이호일 · 정혜원 · 주준범 · 조주은

A Case of Self-Induced Pneumoparotid

Ho Il Lee, MD, Hye Won Jung, MD, Junbum Joo, MD and Ju Eun Cho, MD

Department of Otolaryngology, National Police Hospital, Seoul, Korea

—ABSTRACT—

The pneumoparotid is a rare parotid gland disease that occurs by the entrance of air through the parotid duct. It is thought to be caused by increased intraoral pressure. It can occur as an occupational hazard in wind instrument players or glass blowers, but cases of patients with psychotic problems seeking secondary gain have been reported, and it is sometimes self-induced. Chronic and recurrent cases may be accompanied by complications, such as parotitis, subcutaneous emphysema, pneumomediastinum, and pneumothorax and surgical treatment may be needed. In self-induced cases, behavior modification and conservative management is indicated. In this study, the authors report about a 20-year-old man who had the pneumoparotid caused by habitually inflating his cheeks. (J Clinical Otolaryngol 2009;20:272-276)

KEY WORDS : Parotid gland · Pneumoparotid.

서론

이하선기종(pneumoparotid)은 이하선내의 염증 유무에 상관없이 이하선 실질 내에 병적으로 공기가 유입된 상태를 말하며, 비정상적인 구강내압의 상승으로 인해 이하선관을 통해 공기가 유입되어 생기는 매우 드문 질환이다.¹⁾ 대부분 유리세공업자나 관악기 연주자처럼 직업적으로 구강내압이 상승되는 경우에 발생하지만, 이차적 이득을 노리는 정신과적 문제로 생기기도 하고,^{1,2)} 치과 치료

시 압축 공기를 이용하는 도구에 의해 생긴 경우, 폐기능 검사후 생긴 경우, 심한 기침을 억제하려고 할 때 생긴 경우 등이 보고되었다.³⁻⁵⁾ 재발성인 경우 세균감염에 의한 이차적인 이하선염을 일으킬 수도 있고, 선소포(acini)가 파열되면 피하기종, 기종격동, 기흉 등이 생길 수 있다.

저자들은 구강 내압 상승을 유발하는 직업력이 없고, 이차적 이득을 노리지는 않았지만, 무의식적으로 볼을 부풀리는 습관으로 인해 유발되었던 이하선 기종 1예를 치험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

21세 남자 환자가 약 6개월 전부터 반복되는 좌측 이하선 부위의 무통성의 종창을 주소로 내원하였다. 환자는 약 6개월 전 처음 증상을 인지하고 난 후로 습관적으로 볼을 부풀리는 경향이 있었으며, 볼을 부풀릴 때 좌측 이하

논문접수일 : 2009년 7월 2일
논문수정일 : 2009년 7월 28일
심사완료일 : 2009년 8월 31일
교신저자 : 조주은, 138-160 서울 송파구 가락본동 58번지
경찰병원 이비인후과
전화 : (02) 3400-1274 · 전송 : (02) 400-0287
E-mail : jechoent@nph.go.kr

선 부위의 종창이 유발되었지만 통증, 발열 등의 다른 증상을 보이지는 않았고, 시간이 지나면 저절로 호전되는 양상이었다고 하였다. 이학적 검사상 좌측 이하선 부위의 경미한 종창을 보였으나 발적은 없었고, 압통이나 발열은 없었다(Fig. 1). 좌측 이하선 부위의 촉진시 염발음을 확인할 수 있었고, 이하선 부위를 눌렀을때 구강내 이하선관 입구를 통해 미세한 공기 섞인 타액이 나오는 것을 관찰할 수 있었다(Fig. 2). 혈액 검사 및 혈중 amylase 농도는 정상 범위였으며, 경부 전산화 단층 촬영에서는 좌측 이하선관과 이하선 실질내에 공기 음영이 관찰되었다(Fig. 3). 환자의 불을 부풀리는 습관이 이하선관으로의 공기 유입을 유발한다고 생각되어, 환자에게 불을 부풀리는 습관 교정을 권유하였고, 이차적 감염을 예방하기 위한 경구 항생제와 항염증제, 충분한 수분 공급 등의 보존적 치료를 시행하였다. 그 후 12개월 동안의 외래 추적 관찰 중 한 차례 같은 증상으로 내원하였고 보존적 치료로 호전된 상태이다.

고 찰

공기 유입으로 인한 이하선의 종창은 과거 문헌들에

서 pneumoparotid, pneumoparotitis, pneumosialoadenitis, wind parotitis, pneumatocoele glandule parotis, parotid emphysema 등의 용어로 기술되었다.^{1,2,5)} 타액선으로의 공기 유입은 이하선에서 더 흔하기는 하지만 악하선에서도 드물게 일어날 수 있다고 알려져 있다.^{6,7)} 정상적으로는 이하선관을 통해 공기나 구강내 분비물의 역류가 일어나지 않는데, 그 이유는 다음과 같은 해부학적인 보호기능이 있기 때문이다. 이하선관은 입구부의 내경이 가장 좁고, 입구부가 틈새 모양으로 생겼으며, 구강내압

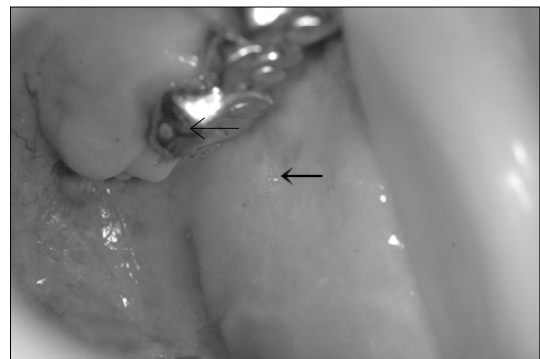


Fig. 2. Air bubbles seen at the orifice of the left Stensen's duct (arrow).

Fig. 1. 21-year-old man with mild swelling on left parotid area.

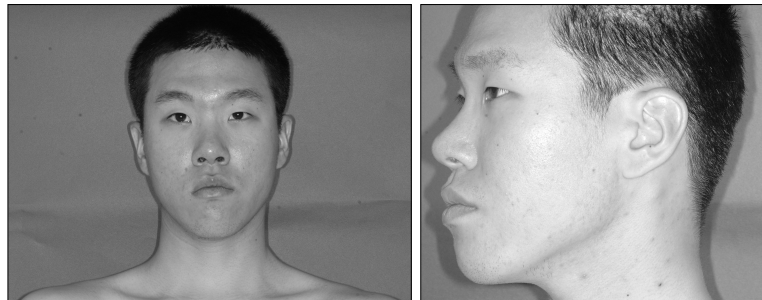


Fig. 3. Axial computerized tomography scans show air in left Stensen's duct (arrow) and left parotid gland.

이 상승할 경우 주위의 늘어진 점막에 의해 그 입구부가 막히게 된다. 또한, 입구부가 협근으로 둘러싸여 있기 때문에 협근의 수축 시 이하선관이 눌러서 막히고, 구강 내압 상승 시에는 이하선관의 각도가 더욱 꺾이게 되어 닫히게 된다.⁸⁾ Kang 등은 이하선이 협근을 통과하는 부위에 밸브와 유사한 구조물이 있음을 관찰하고, 이것이 타액의 흐름을 조절하고 역류를 방지하는 역할을 할 것이라고 추측하였다.⁹⁾

그러나 크고 급격한 구강내압의 상승은 이러한 보호 기능을 이기고 이하선관을 통한 공기와 타액의 역류를 유발할 수 있다고 알려져 있다. 정상 호흡시의 구강내압은 2~3 mmHg 정도 이지만, 유리세공업자나 관악기 연주자들에서는 140~150 mmHg까지 상승할 수 있다.¹⁰⁾ 그러나 구강내압의 증가는 이하선관을 닫히게 하는 작용을 함을 고려할 때, 구강내압의 증가만으로 역류를 설명하기에는 부족하며, 역류를 방어하는 기전을 약화시키는 다른 요인이 선행할 것으로 생각된다. Markowitz-Spence 등은 개방성 이하선관, 저긴장성 협근, 교근의 비대와 경련, 침샘 조영술과 같은 이하선관을 통한 침습적인 검사, 의도적인 이하선관의 물리적 손상, 타액 분비 감소와 이하선관 폐색, 이하선관 입구의 경련, 구도와 연관된 반사적 이하선관 경련 등에 의해 유발된 비정상적인 이하선관 또는 이하선관 입구의 확장이 먼저 온 상태에서 갑작스런 구강내압의 상승이 생기면 이하선관을 통해 공기가 유입된다고 설명하였다.^{11,12,14)} 악하선관은 이하선관에 비해 길이가 짧고 그 주행이 더 직선에 가까우나 공기의 역류가 잘 일어나지 않는데, 그 이유에 대해서는 알려져 있지 않다.⁴⁾

일시적으로 발병하는 경우는 치과 치료시에 압축 공기를 이용하는 도구에 의해 발생할 수 있고, 근 이완 상태에서 기도 삽관 제거시 양압의 인공호흡을 할 때, 폐 기능 검사, 코를 세게 풀거나 풍선을 세게 불 경우 생길 수 있다.^{3,4,10,15)} 만성적 혹은 재발성인 경우, 과거에는 주로 유리세공업자, 관악기 연주자, 잠수부 같은 직업력에 의한 경우가 많았는데, 최근에 보고된 대부분의 예들은 의식적 또는 무의식적인 습관에 의한 자발성 이하선 기종이었다.¹⁾ 아이들에서 주로 등교 및 체벌을 피하기 위해 고의적으로 증상을 유발하기도 하고, 또한 무의식적인 습관으로 Valsalva maneuver를 하거나, 수백 회까지 뺨을 부풀리는 습관을 가진 사

람에게서 보고되기도 하였다.¹⁰⁾ 또, 남성 섬유증, 만성 폐쇄성 폐질환, 심한 기관지염 등 만성 기침을 주 증상으로 하는 환자에서 심한 기침을 하거나 혹은 기침을 심하게 참으려 애쓰는 과정에서 이하선기종이 발생할 수 있다.⁷⁾

이하선 기종은 일측성으로 생기기도 하고 양측성으로 생기기도 하며, 급성으로 생길 수도 있지만, 대부분은 긴 시간동안 조금씩 점차적으로 진행되는 양상을 보인다. 초기 단계에서는 이하선관의 팽창만 생기지만, 점차로 소엽 내관(intralobular duct system)과 선실질(gland parenchyme)까지 영향을 받게 된다. 또, 초기에는 이와 같은 팽창을 유발하기 위해서 비교적 높은 압력이 필요하지만, 후기에는 약간의 압력 증가로도 팽창이 될 수 있고, 기침이나 재채기, 심지어는 말을 할 때도 종창을 유발할 수 있다.⁶⁾ 반복적인 공기의 역류로 이하선 조직이 파열되면 하악골 후연쪽의 이하선 피막이 약한 부위를 통해 공기가 부인두강, 후인두강으로 확산되어 피하기종, 기종격동, 기흉이 발생할 수 도 있다. 따라서 피하기종이 동반된 경우에는 단순 흉부 촬영을 시행하여 기종격동이나 기흉을 배제하여야 한다.^{10,13)} 또한 구강내압의 증가시 이관을 통해 중이내로 공기가 강제 유입되어 이통이 동반되기도 한다.¹²⁾ 반복적인 기종은 이하선관의 확장과 타액의 저류를 일으켜 세균 감염에 의한 이차적인 이하선염을 일으킬 수 있으며,¹¹⁾ 기이하선 농양(pyopneumoparotitis)이 되면 수술적인 배농이 필요할 수 있다.¹⁴⁾

진단은 우선 환자의 직업력과 이차적 이득 유무를 포함한 자세한 병력 청취가 필요하다. 이학적 소견으로 촉진시 염발음을 확인할 수 있고, 마사지를 통하여 이하선관으로 공기를 포함한 타액이 유출되는 것을 볼 수 있다. 그러나, 항상 염발음이 나타나지는 않으며, 특히, 이하선관 내에만 공기가 들어간 초기 단계에서는 종창과 염발음이 없을 수 있다.^{14,16)} 이하선내로의 반복적인 공기의 역류는 만성 염증을 일으키므로, 재발이 반복될수록 만성 이하선염의 증상이 동반되고, 무통성의 종창이 점차로 동통성, 지속성 종창으로 발전하게 되며, 타액의 화학적 검사에서도 만성 이하선염의 소견을 보이게 된다.¹⁷⁾ 동통과 압통, 발적이 심해지면 이차적인 감염을 의심해 볼 수 있다.¹⁰⁾ 방사선학적인 검사로는 전산화 단층 촬영으로 이하선 실질 내의 공기 음영과 교근의 외측면을 따라 주행하는 이하선관내의 공기음영을 확인하여 진단할 수 있으며,¹⁾ 하

악골 단순촬영이나 초음파 검사도 도움이 되지만 민감도와 특이도가 떨어지는 것으로 알려져 있다.¹⁵⁾

소아에서는 재발성 이하선염과의 감별이 필요한데, 재발성 이하선염은 평균 발병 연령이 4.8세이고, 1년에 평균 3.5회정도 발병하는 것에 비해, 이하선 기종은 더 자주 재발하고 지속시간이 짧으며, 발병 연령이 청소년기 정도로 더 늦고, 열이나 통증, 임파선 비대, 비정상적인 타액 분비 기능 등의 관련 증상이 없다.¹⁴⁾ 그러나 재발성 이하선염이 먼저 있는 후에 이하선 기종이 합병된 경우에는 진단이 늦어질 수 있다.¹⁰⁾

대부분의 경우 보존적 치료로 좋은 결과를 보인다. 치료 시 이하선 기종을 일으킨 원인의 교정에 가장 중점을 두어야 하며, 안정, 수액공급, 마사지, 항염증제 등의 보존적 치료 및 예방적 항생제를 사용할 수 있다. 불필요한 반복적 흡입 천자는 오히려 합병증의 위험을 증가시킬 수 있다.¹⁴⁾ 증상이 지속될 경우에는 환자 스스로가 증상을 유발시키는 것인지 반드시 확인하고, 직업적 원인이 의심될 경우에는 유발형태를 파악하여 교정시키는 것이 중요하다.

관악기 연주시에 불을 부풀리지 않고 불을 수축시킨 채로 부는 방법을 쓴 경우에는 이하선 기종이 거의 생기지 않았다고 알려져 있다.^{2,6)} 본 증례에서는 무의식적으로 불을 부풀리는 습관을 교정한 이후에도 한 차례 증상이 재발하였다. 이는, 큰 구강내압의 증가 없이도 공기의 역류가 쉽게 일어날 정도의 이하선관, 또는 이하선 실질의 확장성 손상이 이미 생긴 경우에는 습관의 교정 후에도 재발이 될 수 있음을 시사하는 것이라고 생각된다. 따라서 습관의 교정 후에도 재발할 수 있음을 염두에 두고 수술적 치료가 필요할 수 있음을 환자에게 설명해야 할 것으로 생각된다. 수술적 치료는 보존적 치료가 실패했을 경우 고려해 볼 수 있는데 이하선관 결찰, 이하선관 전위, 이하선 절제술 등을 시행할 수 있다.^{7,8)} 이하선관 결찰은 재발성 이하선 기종에서 우선적으로 시행해 볼 수 있는 방법으로, 선포세포(acinar cell)의 세포고사(apoptosis)를 통해 이하선 실질의 위축(atrophy)을 유도하는 것으로 알려져 있다.¹⁾ 이하선관 결찰은 비교적 비침습적인 방법이나 일시적으로 이하선 중창으로 인한 불편감이 생길 수 있다. 이하선관 전위는 이하선관의 입구를 편도와(tonsillar fossa) 부위로 옮겨주는 수술로, 이하선관의 협부 점막하 부위를 더 길게 해 줌으

로써 구강내압 증가시 협부 점막에 의한 효과적인 압박으로 공기유입을 방지하도록 하는 목적으로 시행한다. 이하선관 전위는 비교적 수술 방법이 간단하고 합병증이 적으며 이하선의 기능을 보존할 수 있는 장점이 있으므로 양측 이하선이 모두 수술이 필요한 경우에 권장된다.⁷⁾ 이하선 절제술은 재발성 이하선염 혹은 심각한 합병증이 유발되었을 경우, 또는 이하선관 결찰술로 치료가 안 된 경우에 시행할 수 있지만, 반복적인 염증으로 인한 조직의 변화로 이하선 양성 종양 보다 안면 신경 손상 위험이 2배 정도 더 높아지므로 시행에 신중을 기해야 할 것으로 사료된다.^{1,7)}

중심 단어 : 이하선 · 이하선 기종.

REFERENCES

- 1) Han S, Isaacson G. Recurrent pneumoparotid: cause and treatment. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004;131 (5):758-61.
- 2) Calcaterra TC, Lowe J. Pneumoparotitis. An unusual case of parotid swelling. *Arch Otolaryngol* 1973;97 (6):468-9.
- 3) Takenoshita Y, Kawano Y, Oka M. Pneumoparotitis, an unusual occurrence of parotid gland swelling during dental treatment. Report of a case with a review of the literature. *J Craniomaxillofac Surg* 1991;19 (8):362-5.
- 4) Kirsch CM, Shinn J, Porzio R, Trefelner E, Kagawa FT, Wehner JH, et al. Pneumoparotid due to spirometry. *Chest* 1999;116 (5):1475-8.
- 5) David ML, Kanga FJ. Pneumoparotid. *Clin Pediatr* 1988;27:506-7.
- 6) Greisen O. Pneumatocoele glandulae parotis. *J Laryngol Otol* 1968;82 (5):477-80.
- 7) Brodie HA, Chole RA. Recurrent pneumosialadenitis: a case presentation and new surgical intervention. *Otolaryngol Head and Neck Surg* 1988;98 (4):350-3.
- 8) Ferlito A, Andretta M, Baldan M, Candiani F. Non-occupational recurrent bilateral pneumoparotitis in an adolescent. *J Laryngol Otol* 1992;106 (6):558-60.
- 9) Kang HC, Kwak HH, Hu KS, Youn KH, Jin GC, Fontaine C, et al. An anatomical study of the buccinators muscle fibres that extend to the terminal portion of the parotid duct, and their functional roles in salivary secretion. *J Anat* 2006;208 (5):601-7.
- 10) Goguen LA, April MM, Karmody CS, Carter BL. Self-induced pneumoparotitis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1995;121 (12):1426-9.
- 11) Golz A, Joachims HZ, Netzer A, Westerman ST, Gilbert LM. Pneumoparotitis: diagnosis by computed tomography. *Am J Otolaryngol* 1999;20 (1):68-71.
- 12) Markowitz-Spence L, Brodsky L, Seidell G, Stanievich JF. Self-induced pneumoparotitis in an adolescent. Report of a case and review of the literature. *Int J Ped Otorhinolaryngol* 1987;14 (2-3):113-21.

- 13) Birzgalis AR, Curley JW, Camphor I. *Pneumoparotitis, subcutaneous emphysema and pleomorphic adenoma. J Laryngol Otol* 1993;107 (4):349-51.
- 14) Nassimbeni G, Ventura A, Boehm P, Guastalla P, Zocconi E. *Self-induced pneumoparotitis. Clin Pediatr (Phila)* 1995;34 (3):160-2.
- 15) Reilly DJ. *Benign transient swelling of the parotid glands following general anesthesia: "anesthesia mumps". Anest Analg* 1970;49 (4):560-3.
- 16) Huang PC, Schuster D, Misko G. *Pneumoparotid: a case report and review of its pathogenesis, diagnosis, and management. Ear Nose Throat J* 2000;79 (4):316-7.
- 17) Mandel L, Kaynar A, Wazen J. *Pneumoparotid: a case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991;72 (1):22-4.