

◆ 증례

# 저산소성 허혈성 뇌병변 환아에서 혀내밀기에 의해 발생한 혀 궤양의 치료: 증례 보고

오미희 · 김소정 · 최성철 · 김광철 · 박재홍

경희대학교 치과대학 소아치과학교실 및 구강생물학연구소

**Abstract**

## TREATMENT OF LINGUAL ULCERS CAUSED BY TONGUE THRUST WITH HYPOXIC-ISCHEMIC ENCEPHALOPATHY

Mee Hee Oh, So Jung Kim, Sung Chul Choi, Kwang-Chul Kim, Jae Hong Park

*Department of Pediatric Dentistry and Institute of Oral Biology, School of Dentistry, Kyung Hee University, Seoul, Korea*

Hypoxic ischemic encephalopathy(HIE) is a condition that occurs when the entire brain is deprived of an adequate oxygen supply and associated in most cases with oxygen deprivation in the neonate due to birth asphyxia. Children with HIE develop problems such as cerebral palsy, mental retardation, learning difficulties, and other disabilities. We hereby report the case of treating a child patient with HIE whose chief complaint of severe lingual ulceration.

A 12-month-old boy referred to our hospital to treat ulcers of ventral surface of tongue. He has been suffering from lingual ulceration due to persistent tongue thrusting. He has bitten his own tongue involuntary. The ulceration was apparently seemed to be not healed because of the constant irritation by lower incisors. So we designed tongue protector to prevent lingual ulcers. The appliance was proved to be effective to reduce tongue trauma by lower incisors and periodic follow-up is needed.

**Key words :** Riga-Fede disease, Traumatic sublingual ulceration, Tongue protector

### I. 서론

Riga-Fede disease는 흔하지 않은 양성의 점막 병소로 하악 유전치 위로 지속적인 혀의 전후방적 운동에 의한 외상으로 나타나는 혀 배면의 궤양을 의미한다. 이 병소는 1881년 Antonio Riga에 의해 언급된 바 있으며 1890년 Fede는 이 병소에 대한 조직학적 연구를 시행하고 추가적

으로 증례를 보고한 바 있다<sup>1)</sup>. 이는 유아의 설하 증식(sublingual growth in infants), 외상성 혀 궤양, 외상성 위축성 설염, 혀의 외상성 육아종, 설하 섬유육아종 등 다양한 이름으로도 불리운다<sup>1)</sup>. 궤양은 하악 유전치에 의한 지속적인 외상에 의해 야기되며 다른 악성 혹은 양성의 질환과 감별진단을 요한다<sup>2-4)</sup>. 보통 Riga-Fede disease는 선천치 혹은 신생치와 연관되나 하악 유전치 맹출 후에도 나타날 수 있으며 이러한 병소는 Lesch-Nyhan syndrome이나 familial dysautonomia와 같은 의학적 문제의 또다른 표현이라고 할 수 있다<sup>2)</sup>. 이 병소는 혀 배면의 궤양으로 나타나며 반복되는 외상에 의해 비대된 섬유성 종물로 궤양성 육아종의 형태로 나타날 수 있다<sup>5)</sup>. 치료는 보존적으로 시행해

교신저자: **박재홍**  
130-701 서울특별시 동대문구 회기동 1번지  
경희대학교 치과대학 소아치과학교실  
Tel: 02-958-9379, Fax: 02-965-7247  
E-Mail: pedojh@khu.ac.kr

원고접수일: 2012.05.21 / 원고최종수정일: 2012.06.08 / 원고채택일: 2012.06.14

야 하며 외상의 원인을 제거하는 데에 초점을 맞추어야 한다. 만약 적절한 진단과 치료가 이루어지지 않는다면 탈수와 부적절한 영양공급 및 의학적 문제를 야기할 수 있다<sup>6)</sup>. 이번 연구에서는 Riga-Fede disease로 알려져 있는 광범위한 외상성 혀궤양을 주소로 내원한 저산소성 허혈성 뇌병변 환자의 치료증례를 보고하고자 한다.

## II. 증 례

저산소성 허혈성 뇌병변을 가진 12개월의 남자 환자가 광범위하고 잘 낫지 않는 혀의 궤양을 주소로 경희대학교 소아치과에 내원하였다. 2주 전에 어머니가 손가락으로 분유를 먹이던 중 손가락이 혀에 끼인 채 입을 다물어 하악 유전치에 물리면서 상처가 발생하였으며 그 후에도 지속적인 혀내밀기로 인한 하악 유전치의 자극으로 상처가 낫지 못하고 궤양으로 발전한 상태였다. 임상검사 결과 상·하악 유전치가 맹출 중이었으며 혀 배면에 심한 궤양이 관찰되었다(Fig. 1). 또한 안정(rest) 시에 혀를 내밀고 있는 상태로 지속적으로 천천히 혀내미는 것을 반복하는 것으로 보아 환자의 혀내밀기 습관이 관찰된다(Fig. 2). 환아는 출생 시 태줄에 목이 감겨 발생한 산소부족에 의해 저산소성 허혈성 뇌병변으로 진단받았으며 현재 발달지연과 간질로 한양대

구리병원 소아과 및 재활의학과에 정기적으로 내원 중이다. 항경련제를 복용하고 있으며 젓병을 제대로 빨 수 있는 혀운동이 이루어지지 않아 손가락으로 분유 및 이유식을 먹고 있다.

이러한 광범위한 혀의 궤양은 하악 유전치의 지속적 자극으로 인한 Riga-Fede disease로 진단할 수 있다. 혀 궤양을 치료하기 위해 tongue protector를 계획하였으며 첫 내원 시 인상을 채득한 후 Mouth guard재료인 DrufoSoft (Dreve corp., Unna, Germany)를 이용하여 tongue protector를 제작하였다(Fig. 3). 다음 내원 시 장치를 장착하였으며 장착 후 환아는 큰 불편감을 호소하지 않았다(Fig. 4). 장치 장착 3주 후 재 내원 시 아직 남아있긴 하지만 혀 배면의 궤양이 많이 사라졌으며 아이의 혀내밀기 습관도 개선되었다(Fig. 5). 또한 혀 궤양이 치료되면서 통증도 감소되어 적절한 영양공급이 이루어졌다. 치료 후 관찰되는 별다른 부작용은 없었으며, 주기적인 관찰을 시행하기로 하였다. 장치 장착 3개월 후 재내원 시 하악 4전치의 맹출로 인해 장치가 탈락된다고 하여 내면 삭제제를 시행하였고 궤양의 크기는 많이 감소하였다(Fig. 6). 6개월 후 정상적인 유치의 발육이 이루어지고 있으며 혀 배면의 궤양은 완전히 사라진 것을 알 수 있다(Fig. 7). 향후 주기적인 정기검진을 계획 중이다.



Fig. 1. The ventral surface of tongue was severely ulcerated and it was painful for this patient.



Fig. 2. Tongue thrusting habit was observed during resting period.



Fig. 3. Tongue protector.



Fig. 4. Delivery of tongue protector.



Fig. 5. Three-week follow-up after tongue protector delivery.



Fig. 6. Three-month follow-up.



Fig. 7. Six-month follow-up.

### Ⅲ. 총괄 및 고찰

저산소성 허혈성 뇌병변은 뇌로 가는 적절한 산소공급이 이루어지지 않는 경우 나타나는 것으로 대부분의 경우 출생 시 신생아에서의 산소부족과 연관된다. 출생 시의 질식은 신생아 사망 원인 중 23%에 해당하며 생존한 100만 명 이상의 어린이에서 뇌성마비, 지적장애, 학습장애 등 그 외 많은 장애를 동반한다<sup>7,8)</sup>. 또한 저산소성 허혈성 뇌병변은 신생아 발작의 가장 흔한 원인으로 발작이 일어날 경우 무호흡, 강직성 안구편위, 지속적인 눈뜨기, 느리고 율동적인 혀내밀기 증상을 나타낸다<sup>9)</sup>. 발작의 경우 뿐만 아니라 뇌손상에 의한 지속적 혀내밀기는 치과적 문제를 야기할 수 있다.

Riga-Fede disease는 생후 6개월 안에 나타나는 선천치나 신생치와 연관된 “precocious Riga-Fede disease”와 6-8개월 이후 신경학적 장애와 관련되어 하악 유전치에 의해 발생하는 “late Riga-Fede disease”로 분류될 수 있다<sup>10)</sup>. 본 증례는 저산소성 허혈성 뇌병변 환아에서 뇌손상으로 인

한 무의식적인 혀내밀기로 인해 하악 유전치의 맹출 후에 혀의 외상이 발생한 것으로 late Riga-Fede disease(전신 질환과 연관된 Riga-Fede disease, 외상성 혀궤양)로 진단할 수 있다. 외상성 혀궤양의 치료로는 하악 유전치의 날카로운 부분을 갈아주는 것, 절단면의 복합레진 수복, 최후의 수단으로 발치 등을 고려할 수 있다<sup>11)</sup>. 협조가 잘 되는 환아에서는 이러한 방법들을 시행할 수 있으나 그렇지 않은 경우 이는 치과 치료 중 아이에게 감염이나 외상의 위험이 수반할 수 있다. 따라서 우리는 대안으로 tongue protector를 계획하였다. Tongue protector는 치료 시간이 짧고 앞선 3가지 방법에 비해 안전하며 가철성 장치로서 치료가 가역적이라는 장점이 있다. 환아에게 tongue protector를 장착하였을 때 특별한 불편감을 호소하지 않았으며 혀의 궤양의 치료에 효과적임과 동시에 혀내밀기 습관도 개선된 것을 알 수 있다. 주기적인 관찰 결과, tongue protector는 낮에는 거의 탈락하지 않으나 밤에 가끔 빠져 아이가 혀를 깨무는 일이 발생한다고 하였다. 이는 아직 하악 유전치가 맹출 중

으로 장치 제작 시 맹출 공간을 고려하여 그 부위를 relief 해주어 장치의 유지력 감소로 인해 발생하는 것으로 생각되며 하악 유전치가 완전히 맹출 한 후, 새로 장치를 제작하게 되면 이러한 문제는 개선될 것이다. 현재의 문제를 해결하기 위해 장치의 cementation도 고려해보았으나 구강 위생상의 문제와 치아가 맹출 중인 점을 고려하여 시행하지 않았다.

Tongue protector는 기존의 외상성 혀궤양에서 사용하지 않은 장치로 궤양의 치료는 물론 혀내밀기 습관 개선의 가능성이 있다는 점에서 매우 유용한 것으로 생각된다. 향후 계속적인 주기적 관찰이 필요하며 환아가 성장함에 따라 tongue protector 역시 주기적으로 교체해 주어야 할 것이다.

#### IV. 요약

1. 저산소성 허혈성 뇌병변 환자에서 뇌손상으로 인한 혀내밀기 습관에 의해 외상성 혀궤양이 발생할 수 있으며 Riga-Fede disease로 진단할 수 있다.
2. Riga-Fede disease의 종래의 치료 방법은 하악 유전치의 날카로운 부분을 갈아주는 것, 절단면의 복합레진 수복, 발치 등이 있으며 이번 보고에서는 보존적이며 가역적인 방법인 tongue protector를 제안하였고 혀궤양의 치료 및 혀내밀기습관 개선에 효과적인 것으로 나타났다.

#### 참고문헌

1. Aaenglein AL, Chang MW, Meehan SA et al. Extensive Riga-Fede disease of the lip and tongue. J Am Acad Dermatol 2002; 47: 445-7.
2. Baghdadadi ZD. Riga-Fede disease: report of a case and review. Journal of clinical Pediatric Dentistry 2001; 25: 209-213.
3. Elzay RP. Traumatic ulcerative granuloma with

stromal eosinophilia(Riga-Fede disease) and traumatic eosinophilic granuloma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1983; 55:497-506.

4. Baroni A, Capristo C., Rossiello L et al. Lingual traumatic ulceration(Riga-Fede disease),Int J Dermatol 2006; 45: 1096-7.
5. Baghdadadi ZD. Riga-Fede disease: association with microcephaly. International Journal of Pediatric Dentistry 2002; 12: 442-445.
6. Slayton RL. Treatment alternatives for sublingual traumatic ulceration(Riga-Fede disease). Pediatric Dentistry 2000; 22: 413-414.
7. Bryce J, Boschi-Pinto C, Shibuya K, Black RE. WHO estimates of the causes of death in children. Lancet. Mar 26-Apr 1 2005; 365(9465): 1147-52.
8. Lawn J, Shibuya K, Stein C. No cry at birth: global estimates of intrapartum stillbirths and intrapartum-related neonatal deaths. Bull World Health Organ. Jun 2005; 83(6): 409-17.
9. Santina A Zanelli, MD; Chief Editor: Ted Rosenkrantz, MD, Hypoxic-Ischemic Encephalopathy Clinical Presentation, Medscape reference 2009.
10. Domingues-Cruz J, Herrera A, Fernandez-Crehuet P, Garcia-Bravo B, Camacho F., Riga-Fede disease associated with postanoxic encephalopathy and trisomy 21: a proposed classification, Pediatr Dermatol. 2007 Nov-Dec; 24(6): 663-5.
11. Katsuyuki K, Mariko O, Nagasaka N, New tongue protector to prevent decubital lingual ulcers caused by tongue thrust with myoclonus.