

◆ 증례

자폐 환자의 자해로 인한 구강 내 손상 : 증례 보고

지은혜 · 이효설 · 최형준 · 김성오 · 최병재 · 손흥규 · 이제호

연세대학교 치과대학 소아치과학교실

Abstract

SELF-INJURIOUS BEHAVIOR IN A PATIENT WITH AUTISM : A CASE REPORT

Eunhye Ji, Hyo-seol Lee, Hyung-Jun Choi, Seong-Oh Kim,
Byung-Jai Choi, Heung-Kyu Son, Jae-Ho Lee

Department of Pediatric Dentistry, College of Dentistry, Yonsei University

Self-injurious behavior (SIB) has been defined as the deliberate destruction or alteration of body tissue without conscious suicidal intent. It occurs in conjunction with a variety of psychiatric disorders as well as various developmental disabilities and some syndromes. The behavior is destructive and causes concern and distress to all involved in the care and treatment of the affected individual.

A 13-year-old girl with autism, mental retardation and delayed development was referred from her pediatrician because of severe and painful lower lip biting. An intraoral examination revealed a diffuse swelling of lower lip. It was covered with necrotic slough and the ulcer and scarring of the lower lip was observed. We chose to use an oral removable prosthesis for conservative treatment. It was decided to use a soft silicone mouthguard in the maxillary arch. Initially, she could not tolerate the appliance inside her mouth but soon adapted with the appliance. After one month, she lost the mouth guard and started lip biting. So we made mouth guard again.

There are no standard methods for preventing self-injurious behavior in a patient who is developmentally disabled. Appropriate preventive methods must be developed for each individual patient based on close observation and clinical findings. Behavior modification techniques, pharmacological treatment, extraction of teeth, orthognathic surgery and intra/extra oral appliances can be performed for adjust self-injurious behavior. A suitable oral guard could be tried initially before employing more invasive approaches.

Key words : Autism, self-injurious behavior(SIB), mouthguard

I. 서론

자해행위는 자살의 의도는 없이 자신의 신체 일부를 무의식적이거나 고의로 손상시키는 것¹⁾으로 미세한 손상에서부터, 불구를 유발할 수 있는 손상까지 다양하게 나타난다. 흔히 자해 행위는 머리 및 몸 때리기, 피부 절단 혹은 손가락 깨물기 등의 형태로 나타나며 눈, 성기 및 구강 내 자해 행

교신저자: **이 제 호**
120-752 서울특별시 서대문구 신촌동 134
연세대학교 치과대학 소아치과학교실
Tel: 02-2228-3173 Fax: 02-392-7420
E-mail: leejh@yuhs.ac

원고접수일: 2012.05.01 / 원고최종수정일: 2012.05.22 / 원고채택일: 2012.06.05

위가 포함된다.

자해 행위의 유병율에 관해 정확히 알려진 바는 없으나 여성에서 좀 더 호발하며 일반인의 경우 100,000명중 750명 정도의 비율로 추정되고 정신 지체가 있는 환자의 경우 7.7%에서 22.8%의 비율로 나타나며 심한 정신 지체가 있는 환자의 경우 40%까지 그 빈도가 증가하는 것으로 알려져 있다^{2,3)}.

자해의 원인은 명확히 밝혀져 있지 않고 매우 복잡한 것으로 생각되고 있는데 추정되는 원인으로는 Cornelia de Lange 증후군^{4,5)}, Gilles de La Tourettes 증후군⁶⁾, Lesch-Nyhan 증후군⁴⁾ 같은 유전 질환이 있는 경우, 선천적으로 통증을 느끼지 못하는 감각 신경병⁴⁾을 앓는 경우, 뇌염 같은 감염성 질환^{4,7)}에 걸린 경우, 자폐^{2,8,9)}나 정신 지체⁵⁾가 있는 경우에 발생하는 것으로 알려져 있다. 이와 같이 자해 증상은 발육 장애나 여러 증후군과 관련하여 다양한 정신 질환과 연관되어 나타난다. 이러한 자해 행위는 대부분 통증을 느끼면서도 지속적으로 스스로의 신체에 손상을 가하기 때문에 이를 막기 위한 적극적인 개입이 필요하고 다양한 분야에서의 접근이 필요하다.

본 증례에서는 정신 지체를 동반한 자폐증 환아로서 자해로 인한 하순의 심각한 손상을 입었으나 soft mouthguard를 이용하여 증상의 악화를 막을 수 있었고 양호한 하순의 치유과정을 보였다.

Ⅱ. 증 례

13세 9개월 된 여아로 입술을 계속 깨무는 증상이 나타나지 않는다는 주소로 내원하였으며 전신 병력 상 자폐, 정신 지체, 발육 지연 등을 보이고 있었고 이로 인해 소아 정신과에서 계속 치료를 받고 있는 상태였다. 본 환아는 이전에도

가족 등 주변 사람에게 폭력을 행사하거나 자해행위로 인하여 수 차례 입원 병력이 있었고 본원 소아치과에 내원 전에도 입술을 깨무는 증상으로 인해 소아청소년과에서 약처방을 받고 2주간 소독 처치를 받았으나 증상이 나아지지 않고 더 심해지는 양상을 보였다 고 하였다. 구강 내 검사 시 하순의 전반적인 부종이 있었으며 괴사성 조직으로 덮혀 있고 궤양이 형성되어 있는 것을 볼 수 있었다(Fig. 1). 자해로 인한 하순 손상의 방지를 위한 보존적 처치로 상악에 soft silicone mouthguard를 계획하고 인상 채득을 시행하였다. 인상 채득 시 환아의 협조를 구할 수 없어 환아를 unit chair에 누운 상태로 강제 속박을 하고 개구기를 이용하여 강제로 입을 벌린 후 인상 채득을 하였다. 다음날 mouthguard를 제작하여 장착하였고 mouthguard의 삼김을 방지하기 위해 치실을 묶어 주었다. Mouthguard 장착 시 처음에는 환아가 거부 하였으나 주변으로 관심을 돌리자 곧 적응하였고 보호자에 따르면 장치를 잘 사용하였다고 하였다. 1개월 검진 시 장치를 분실하고 다시 입술을 깨무는 증상이 나타나 장치를 재제작 하였고 현재까지 잘 사용하고 있다.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

자폐성 장애는 1934년 Kanner에 의해 최초로 소개된 질환으로 자폐 증상의 발현 시기는 36개월 이전이며 사회적 대인 관계 영역의 문제에서 감정표현의 장애, 대인관계에서의 무관심, 부적절한 고착 등을 나타내며 기이한 이상 행동 영역에서 과도한 불안, 자기 파괴적 행동, 이상 언어행동 등을 보인다. 또한 주변환경에 과도하게 저항하면서 공격적인 행동이나 다른 부적응 행동을 보이기도 하는 것으로 알려져 있다. 이러한 자폐 환자는 10,000명 중 1.3~16명의 비율로 발생하고 자폐 환자의 70%가 자해를 하는 것으로 보고



Fig. 1. Ulcer, necrotic tissue from the lower lip at the initial examination.



Fig. 2. Soft silicone mouthguard with dental floss.



Fig. 3. Follow-up after 1 month. Almost wound healing following appliance therapy but starting biting lower lip after lost the appliance.

되고 있다^{10,11}. 자폐 환자의 경우 의사소통의 어려움과 통증 인지의 변화로 자해 행위를 차단하기가 어렵다. 본 환자의 경우 정신 지체를 동반한 자폐로 진단을 받았고 약물요법을 위해 소아 정신과에서 약처방을 계속 받고 있는 상태였으나 자해 증상이 개선되지 않아 추가적인 다른 처치가 필요할 것으로 생각되었다.

자해 행위의 치료 방법으로는 약물을 이용한 치료 방법, 행동 조절을 통한 조절 방법, 물리적 억제 방법 등이 사용될 수 있고 구강 내 손상을 예방하기 위해 구강 내 또는 구강 외 장치를 사용하거나 악교정 수술, 관련 치아의 발거 등이 제안되고 있다.

약물을 이용한 치료의 경우 주로 dopaminergic, opiate, serotonin system에 대한 연구가 많으나 도파민 수용체나 세로토닌 수용체에만 관여하는 약제의 경우 한계가 존재한다. 세로토닌-도파민 길항제들은 다른 항정신병 약물에 비해 비교적 일관된 효과들이 보고되고 있다¹².

자해 행위를 대체할 만한 적절한 행동을 유도하거나 각 개인에 맞는 강화인자를 부여하는 등의 긍정적 강화와 같은 행동 조절을 이용한 방법이 이용될 수 있으나 이는 증상이 경미한 자해 증상을 보이는 경우에는 가능하다. 그러나 자폐 환자의 경우 의사 소통의 어려움이 있고 개인에 맞는 적절한 강화인자를 찾는 것이 어렵다². 긍정적 강화를 통한 행동 개선을 시도할 경우 적절한 행동을 했을 때 30분 간격으로 칭찬을 하고 보상인자를 주는 것이 필요하고 보호자의 시간 투자와 인내심이 필요하다.

물리적 속박이 필요할 경우 최소한의 억제를 하는 동시에 효율적인 보호를 하는 것이 중요한데 억제 정도는 자해의 심각성 정도에 따라 결정되어야 한다². 팔이나 머리에 자해를 가하는 경우 헬멧이나 arm-board, 속박용 의복 등을 이

용한 신체적 속박을 사용할 수 있으나 이 역시 자해행위가 심한 경우에는 큰 효과가 없는 것으로 보고되고 있다¹³.

구강 내 장치나 구강 외 장치의 경우 bite block을 이용하여 전치부 개방 교합을 유도하거나 facemask, chin-cup 같은 장치와 함께 구내,외 탄성 고무를 이용한 장치, 교정용 band 나 기성 금속관에 soldering한 lip bumper, 혀와 입술을 보호할 수 있는 다양한 형태의 shield 등을 사용할 수 있다¹⁴. 또한 가장 흔하게 사용할 수 있는 구강 내 장치로 soft mouthguard를 사용할 수 있는데 mouthguard의 경우 제작이 간편하고 환자 혹은 보호자가 장치를 제거하는 것이 용이하다. 또한 장치의 청소와 구강 위생에도 유리하며 장치의 파손으로 인한 2차적인 구강 내 손상의 염려가 없어 안전하다는 장점이 있다¹⁵. 그러나 심한 치주 질환이 있는 경우 사용이 어렵고 장치의 표면이 쉽게 마모되어 재제작이 필요할 수 있으며 치열이 계속 변화하는 어린이의 경우 재제작이 계속 필요하다는 단점이 있다. 또한 제작 과정 중 환자의 큰 교합력으로 인해 인상채득이 어려울 수 있고 유지력과 견고성이 떨어져 효과적인 자해 예방에 한계가 있을 수 있다¹⁶.

다른 자해 예방 방법으로 보존적인 술식들이 실패하는 경우 손상을 야기하는 해당 치아를 모두 발거하는 방법⁴이 사용될 수 있는데 Rashid 와 Yusuf¹⁷에 따르면 전 치아의 발거가 극단적이기는 하나 완전하게 자해행위를 차단할 수 있는 방법이라고 하였고 보존적인 방법들은 연령증가와 함께 증상이 심해질수록 성공률이 낮아져 해당 치아의 발거가 필요하다는 주장¹²도 있다.

또한 상,하악골의 악교정 수술을 이용하여 인위적으로 개방교합을 형성시켜주는 방법을 사용할 수 있는데 Macpherson¹⁸ 등은 악교정 수술을 이용하여 만족스러운

결과를 얻었다고 보고 하기도 하였다.

본 증례의 환자는 우선 가장 보존적인 방법이라고 생각되는 mouthguard의 제작에 대해 보호자에게 설명하였고 이 장치가 실패할 경우 다른 종류의 가철성 장치 제작을 고려해 보기로 하였다. 보호자에게 mouthguard의 탈착법 및 관리에 대해 설명을 하고 환자의 공격적인 행동으로 인해 mouthguard의 유지가 어렵거나 환아 스스로 장치를 제거할 경우 다시 내원할 것을 설명드렸으나 검진 날짜에는 내원을 하지 않았고 1개월 뒤 장치 분실로 인해 재내원 시 하순의 상처는 치유가 된 상태였고 환아의 거부 반응도 미약하여 장치를 잘 사용 했음을 확인 할 수 있었다. 환자의 병력 상 자해나 폭력으로 인한 수 차례의 입원 경험이 있고 증상의 완화와 악화가 반복될 수 있어 장기적인 관찰이 필요하며 장치뿐 아니라 약물 치료가 계속 병행되어야 할 것으로 생각된다.

자해 행위를 방지하기 위한 표준화된 방법은 아직 정해져 있지 않으나 각 환자의 자해 양상 및 정도에 따라 적절한 접근이 필요하다. 가능한 약물 치료와 행동 조절, 교상 방지 장치 등을 이용한 보존적인 방법이 시행된 후 효과가 없을 경우 치아 발거나 악교정 수술 등의 방법이 고려될 수 있을 것이다. 유전 질환이나 정신 지체, 자폐 등으로 인한 자해 환자 들에 대한 관심이 높아지면서 이러한 환자들에게 치과 의사로서의 역할 또한 증가하고 있다. 따라서 치과 의사로서 구강 영역의 자해 행위에 대한 원인 및 손상의 원인을 정확히 파악하고 적절한 치료법을 찾으려는 노력이 필요할 것으로 생각된다.

Ⅳ. 요 약

자폐증 및 정신 지체가 있는 환자의 입술 깨물기 증상을 mouthguard를 사용하여 성공적으로 조절하였다. 치과적으로 접근 가능한 구강 내 자해 증상의 치료는 가철성 혹은 고정성 장치를 이용하거나 관련 치아의 발치, 악교정 수술 등을 시도할 수 있으며 각 환자에 맞는 적절한 치료법을 선택하는 것이 중요하다. 자해 행동이 일시적으로 개선되었다 해도 재발의 가능성이 높으므로 장기적인 관리와 소아정신과와의 협진 하에 정신심리학적 환경 개선 및 약물 치료가 병행되어야 할 것이다.

참고문헌

1. Lucavechi T, Barberia E, Maroto M, et al.: Self-injurious behavior in a patient with mental retardation: review of the literature and a case report. Quintessence Int, 38:e393-398, 2007.
2. Medina AC, Sogbe R, Gomez-Rey AM, et al.:

- Factitial oral lesions in an autistic paediatric patient. Int J Paediatr Dent, 13:130-137, 2003.
3. Saemundsson SR, Roberts MW: Oral self-injurious behavior in the developmentally disabled: review and a case. ASDC J Dent Child, 64:205-209, 228, 1997.
4. Fardi K, Topouzelis N, Kotsanos N: Lesch-Nyhan syndrome: a preventive approach to self-mutilation. Int J Paediatr Dent, 13:51-56, 2003.
5. Cauwels RG, Martens LC: Self-mutilation behaviour in Lesch-Nyhan syndrome. J Oral Pathol Med, 34:573-575, 2005.
6. Shimoyama T, Horie N, Kato T, et al.: Tourette's syndrome with rapid deterioration by self-mutilation of the upper lip. J Clin Pediatr Dent, 27:177-180, 2003.
7. Chen LR, Liu JF: Successful treatment of self-inflicted oral mutilation using an acrylic splint retained by a head gear. Pediatr Dent, 18:408-410, 1996.
8. Johnson CD, Matt MK, Dennison D, et al.: Preventing factitious gingival injury in an autistic patient. J Am Dent Assoc, 127:244-247, 1996.
9. Mobily PR, Herr KA, Kelley LS: Cognitive-behavioral techniques to reduce pain: a validation study. Int J Nurs Stud, 30:537-548, 1993.
10. Wing L: The definition and prevalence of autism: A review. Eur Child Adolesc Psychiatry, 2:61-74, 1993.
11. Howlin P: Behavioural techniques to reduce self-injurious behaviour in children with autism. Acta Paedopsychiatr, 56:75-84, 1993.
12. 김지희, 최병재, 김성오, 최형준, 손홍규, 이제호: Lesch-Nyhan 증후군 환아의 자해에 의한 혀의 외상. 대한소아치과학회지, 35:532-537, 2008.
13. Eguchi S, Tokioka T, Motoyoshi A, et al.: A self-controllable mask with helmet to prevent self finger-mutilation in the Lesch-Nyhan syndrome. Arch Phys Med Rehabil, 75:709-710, 1994.
14. Jeong TS, Lee JH, Kim S, et al.: A preventive approach to oral self-mutilation in Lesch-Nyhan syndrome: a case report. Pediatr Dent, 28:341-344, 2006.
15. Finger ST, Duperon DF: The management of self-inflicted oral trauma secondary to encephalitis: a clinical report. ASDC J Dent Child, 58:60-

- 63, 1991.
16. Kumar P, Bhojraj N: Successful prevention of oral self-mutilation using a lip guard: a case report. *Spec Care Dentist*, 31:114-118, 2011.
17. Rashid N, Yusuf H: Oral self-mutilation by a 17-month-old child with Lesch-Nyhan syndrome. *Int J Paediatr Dent*, 7:115-117, 1997.
18. Macpherson DW, Wolford LM, Kortebein MJ: Orthognathic surgery for the treatment of chronic self-mutilation of the lips. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 21:133-136, 1992.