



혀에 발생한 이소성 구강 위장관 낭종: 증례보고

김소미 · 길태준 · 함태훈 · 김현실^{1,2} · 이충국 · 차인호^{1,2}

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, ¹구강병리학교실, ²구강종양연구소

Abstract

Heterotopic Gastrointestinal Cyst of the Tongue: Case Report

Somi Kim, Tae-Joon Kil, Tae-Hoon Hahm, Hyun-Sil Kim^{1,2}, Choong-Kook Yi, In-Ho Cha^{1,2}

Departments of Oral and Maxillofacial Surgery, ¹Oral and Maxillofacial Pathology, ²Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University

Gastrointestinal cyst found within the oral cavity has been reported as a rare occurrence with less than 40 cases. The tongue is the preferred site with almost 60% of cysts occurring within oral cavity. The cyst usually shows an asymptomatic swelling in the floor of the mouth, about 30% of affected individuals have symptoms related to difficulties with feeding, swallowing and respiration. The histopathologic features of the cyst vary with respect to the type of epithelium lining; gastric, squamous, intestinal and respiratory epithelium. The pathogenesis is not known, but it may be related to entrapment of undifferentiated endoderm within oral cavity during early fetal development. In this article, we report a case of a gastrointestinal cyst of the tongue in a 16-month-old girl.

Key words: Choristoma, Oral cavity, Tongue

서 론

이소성 위장관 낭종(heterotopic gastrointestinal cyst)이란 위장점막(gastrointestinal mucosa)이 이소 위치하여 병소를 만드는 경우로 구강에서 직장에 이르는 전체 위장관의 어느 곳이나 발생 가능하며 위장관 이외의 부위에서도 발견되기도 한다[1]. 이소성 위장관 낭종이 구강 내 발생한 경우는 1985년 Foderl[2]이 처음 보고한 이후로 40증례 이하가 보고되었을 정도로 드물며, 대부분 혀, 특히 전방부에 발생한 경우가 많다. 병소는 보통 무중

상으로 영·유아에서 그 크기가 증가함에 따라 발견되며, 연하나 섭식의 곤란, 호흡과 발음의 곤란 등의 증상이 나타날 수 있다. 저자 등은 16개월인 여아의 혀에 발생한 이소성 위장관 낭종을 경험하여 이의 임상적, 조직병리학적 소견을 보고하는 바이다.

증례보고

16개월된 여자 환자로 혀의 전방부 증양에 치유되지 않는 열구(fissure) 형태의 병소를 주소로 내원하였다. 환자의 전신상태는

원고 접수일 2010년 9월 20일, 게재 확정일 2010년 10월 5일

책임저자 차인호

(120-752) 서울시 서대문구 성산로 250, 연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실
Tel: 02-2228-3140, Fax: 02-364-0992, E-mail: cha8764@yuhs.ac

RECEIVED September 20, 2010, ACCEPTED October 5, 2010

Correspondence to In-Ho Cha

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Yonsei University
250, Seongsan-ro, Sedaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
Tel: 82-2-2228-3140, Fax: 82-2-364-0992, E-mail: cha8764@yuhs.ac

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.



Fig. 1. Intraoral view showing fistulous track on dorsal surface of tongue.

양호하였으며 이화학적 검사소견에 이상은 없었다. 병소는 생후 1주일경에 처음으로 발견하였으며 처음에는 혀의 배면 중앙에 빨간 반점 양상이었고 핏빛의 삼출물이 약간씩 배출되었다고 하였다. 그 이후 반점이 사라지면서 그 후방부위에 열구 형태의 더 깊은 병소가 나타나면서 삼출물의 배출이 지속되었다. 생후 8개월 경 ○○의료원 소아외과에 내원하여 임상검사 및 방사선학적 검사(전산화 단층촬영)를 시행하였으나 혀의 심부에 특이할 만한 이상소견은 발견되지 않았으나 전신마취하에 병소의 조직 생검 및 외과적 제거술을 시행받았다. 당시의 진료 기록에서 수술은 혀의 배면에 존재하는 열구 부위를 절제하여 일차 봉합하였으며 조직 생검의 결과는 만성 염증성 육아조직이었다. 그러나 수술 후 3일째 봉합했던 상처가 벌어지면서 다시 삼출물이 나왔으며 그 이후 열구 형태의 상처가 낫지 않는 상태가 지속되어 본과에 의뢰되었다. 본과에 내원하였을 때의 임상 검사상 혀 배면의 전방부 중앙에 움푹하게 패인 열구형태의 병소가 관찰되었으나 혀의 비정상적인 크기증가 소견은 없었다(Fig. 1). 열구 부분에서 간헐적으로 투명한 핏빛의 삼출물이 배출되었으나 연하나 섭식장애는 없었다. 과거 전산화 단층촬영 시에도 혀의 심부의 특이할 만한 소견이 없었기 때문에 진단을 위한 추가적인 방사선학적 검사는 시행하지 않았으며 전신마취 하에 병소의 외과적 탐침 및 절제술을 시행하기로 하였다.

환자의 협조도 부족으로 외래에서는 병소의 임상적 검사에 어려움이 있었으며, 수술실에서 전신마취된 상태에서 관찰한 병소는 열구의 가장 후방부위에 명확한 누공을 가지고 있었다. 누도 탐색자(lacrimal probe)를 이용하여 누공을 탐침하였을 때 혀의 후하방 방향으로 30 mm의 깊이까지 탐침되었다. 누공의 입구부분을 포함하여 췌기 형태로 절개선을 만들어 탐침의 방향을 따라 병소의 심부로 절개를 이어갔다. 병소의 중심부는 혀의 후방의 심부에 위치해 있었으며 지름 20 mm 정도의 유백색의 질긴 섬유성 벽을 가진 낭성 종물이 절제되었다(Fig. 2). 주위 연조직과



Fig. 2. Specimen of cystic lesion.

의 경계는 비교적 명확하였으나 혀의 근육층이 종물의 외벽에 일부 단단하게 부착되어 있는 양상도 보였다. 술 후 일시적인 부종이 관찰되었으나 다른 합병증은 없었다.

조직학적 소견으로 병소는 낭종벽과 이상상피로 구성된 전형적인 낭성 구조를 이루고 있었다. 낭종은 전체가 위장관 상피로 이장되어 있었으며, 낭종 상피가 구강 점막으로 이행되는 부위가 관찰되었다(Fig. 3).

고 찰

구강 내 이소성 위장관 낭종은 1895년 Foderl[2]에 의해 최초로 보고된 이후에 약 40증례 이하가 보고되고 있을 정도로 드문 질환이다. 그 명명법에는 아직 논란이 있으며 gastric mucosal choristoma, oral cyst with heterotopic gastrointestinal mucosa, gastrointestinal duplication cyst, heterotopic gastrointestinal cyst 등이 동의어로 사용되고 있다[3]. 문헌에 보고된 병소의 발견 나이는 신생아부터 유아기까지이며 드물게 성인에서도 발견된 바 있으나 유아기에 발견된 병소의 불완전한 적출술로 인해 잔존한 병소인 경우였다. 여자보다 남자에서 호발하며, 보통 무통성의 종창이 병소부위에 나타나며 약 30%의 경우에서 타액분비의 증가, 발음의 변화, 섭식과 연하 호흡의 장애 등이 나타나기도 한다[4].

구강저, 인두, 목의 전방부, 입술, 턱밑샘 등에 발생할 수 있으며, 혀의 전방부는 가장 흔한 호발 부위로 낭종의 전체가 혀의 체부안에 함입되어 있기도 하며, 때로는 혀의 표면과 연결되어 있기도 하다[5,6]. 그 발병 부위나 임상적인 양상이나 방사선학적인 특징을 고려해 볼 때 유포파낭종, 허미종, 갑상선관낭종, 기형종, 타액선 종양, 그밖의 유아기에 발생할 수 있는 악성종양과 감별 진단이 필요하다. 이 병소는 외과적 절제술이 치료법이며,

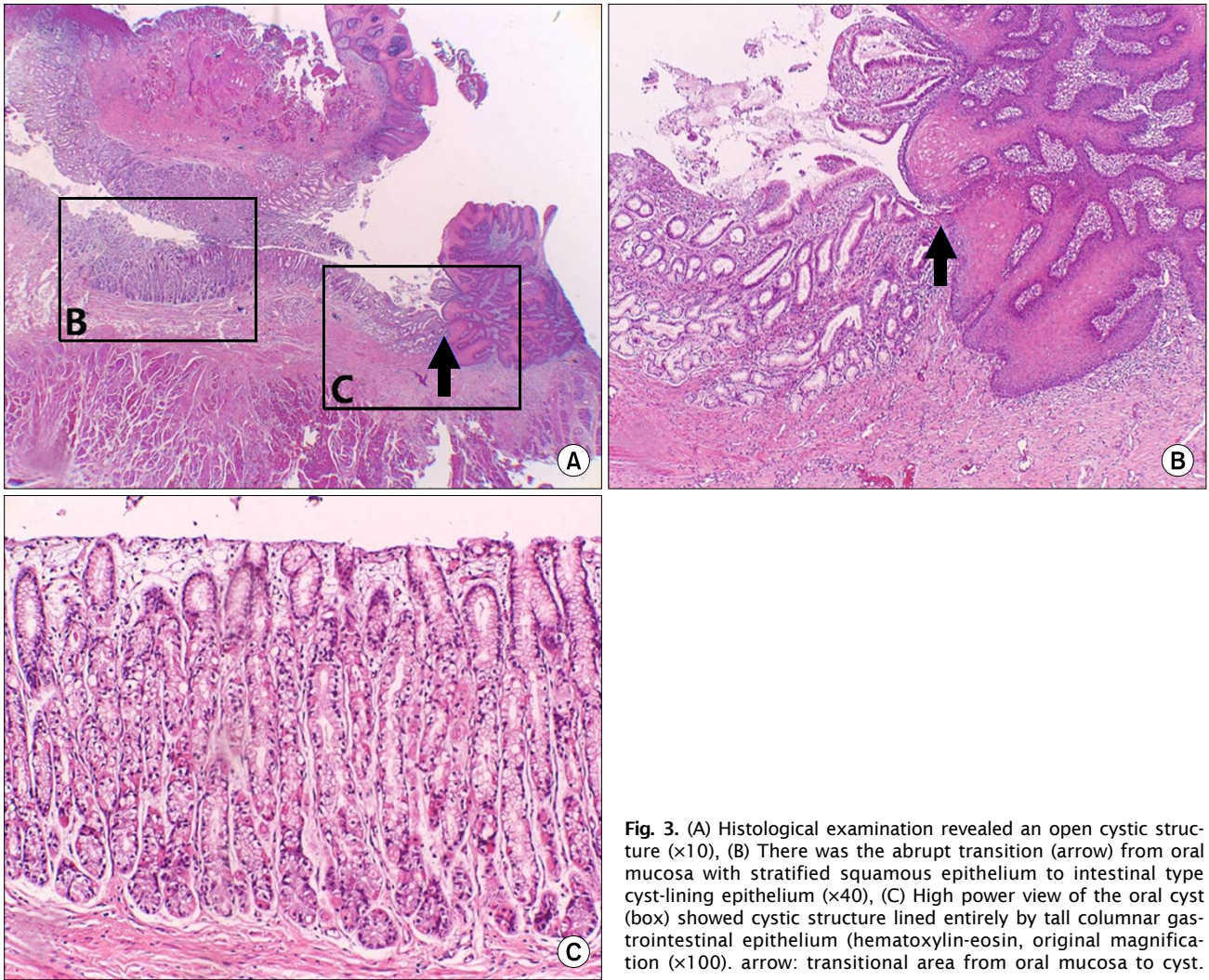


Fig. 3. (A) Histological examination revealed an open cystic structure (×10), (B) There was the abrupt transition (arrow) from oral mucosa with stratified squamous epithelium to intestinal type cyst-lining epithelium (×40), (C) High power view of the oral cyst (box) showed cystic structure lined entirely by tall columnar gastrointestinal epithelium (hematoxylin-eosin, original magnification (×100). arrow: transitional area from oral mucosa to cyst.

보통 재발은 되지 않는다[3].

낭종을 이루는 상피의 종류에 따라 그 조직병리학적 특징이 달라진다. 1996년 Morgan 등[3]이 그 동안의 증례들의 조직학적 특징을 정리한 바에 의하면 낭종을 이루는 상피는 크게 4종류 (gastric, squamous, intestinal, respiratory)로 구분할 수 있으며, 각각의 종류가 단독으로 나타나거나 서로 조합하여 나타나기도 한다. 가장 흔한 상피의 종류는 위(gastric) 상피 형태이며 (42%), 위 상피와 편평(squamous) 상피 형태가 혼재된 경우가 그 다음으로 흔하고(19%), 장(intestinal) 상피(16%), 위 상피와 장 상피가 혼재된 경우(10%) 순이었다. 그 밖에 섬모(ciliated) 상피나 호흡(respiratory) 상피가 발견되는 경우도 보고되고 있다[7,8]. 낭종의 벽은 부분적으로 상피의 연속성이 없는 부분도 존재하며 평활근이나 위의 선조직이 관찰되기도 한다.

구강의 이소성 위장관 낭종의 발병원인은 불명확하며 여러 가설이 발표되어 왔다. Willis[6]는 초기 태아의 발육과정에서 잘못 위치된(misplacement) 배아조직의 잔재로 인해 발생했을

것이라고 했다. 태생 4주경 원시 위(primitive stomach)는 혀의 원기(anlage)에 가까운 목 부위에 위치하게 되며 이런 원시 위의 미분화된 내배엽성 위장점막이 기쪽 혀우기의 융합 시 혀의 중앙에 함입되게 되어 병소가 발생하게 된다고 하였다. Daley 등이 역시 미분화된 내배엽성 위장점막은 여러 형태로 분화할 수 있는 능력이 있기 때문에 고도로 분화된 여러 형태의 위장 상피로 분화할 수 있으며 호흡 상피로도 분화할 수 있다고 하였다. 그러나 이 가설로는 구강저나 혀의 전방 2/3에 발병한 병소는 설명이 되지만 턱밑샘이나 혀의 측면부에 생긴 병소는 설명하기 어려우며 병소에서 위와 장의 선조직이 발견되는 점도 설명하기 어렵다. Lipsett 등[10]은 발육이 끝난 혀의 실질 내에 함입된 상피로 인해 발생한다고 하였으나 이 역시 장의 선조직의 존재에 대해서는 설명하기 어렵다. Gruskin과 Landolf[11]는 혀 안에 함입된 타액선 조직에서 점액종처럼 병소가 발생하게 되었을 것이라고 하였으며 이러한 타액선 조직이 위장관 조직으로 분화하였을 것이라고 했다. 하지만 이 가설에 따르면 타액선 조직이 탈분화

(de-differentiate)하였다가 다시 재분화(re-differentiate)되어 야 하는데 그 과정을 설명하기가 어렵다. 그 밖에 구강의 이소성 위장관 낭종의 발생과정을 설명하기 위한 여러 가설들이 있으며 어떠한 가설도 완벽하게 입증되지는 않았지만, Woolgar와 Smith[12]가 낭종 내에 mucin이 galactose, acetyl galactosamine, galactosamine를 포함하고 있음을 확인하였고, 이는 처음에 언급하였던 미분화 내배엽성 위장점막이 여러 방향으로 분화하여 고분화된 낭종이 생겼다는 가설을 뒷받침하는 내용이라고 할 수 있다. 저자 등이 경험한 증례는 혀의 전방 2/3이면서 중앙에 발생한 것을 볼 때 Willis와 Daley의 가설을 뒷받침하는 것으로 생각된다. 그러나 이러한 낭종의 발생과정에 중요한 역할을 하는 미분화 내배엽성 위장점막이 어디에서 기원했는지에 대해서는 아직 밝혀진 바가 없어 연구가 필요한 부분이다.

Acknowledgements

이 논문은 2010년도 교육과학기술부 재원으로 한국연구재단의 대학중점연구소 지원사업으로 수행된 연구임(과제번호:2010-0029704).

References

1. Wetmore RF, Bartlett SP, Papsin B, Todd NW. Heterotopic gastric mucosa of the oral cavity: a rare entity. *Int J Pediatr*

- Otorhinolaryngol 2002;66:139-42.
2. Foderl O. Uber einen fall von congenitaler ranula glandulae nuhni. *Archiv fur Klinische Chirurgie* 1895;49:530-40.
3. Morgan WE, Jones JK, Flaitz CM, Hicks MJ. Congenital heterotopic gastrointestinal cyst of the oral cavity in a neonate: case report and review of literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1996;36:69-77.
4. Barnes L. *Surgical pathology of the head and neck*. New York: Marcel Decker; 1985. p.1278-95.
5. Quinn JH, Robinson WC. Multiple congenital cysts of the floor of the mouth in a newborn infant. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1965;20:1-5.
6. Willis RA. Some unusual heterotopies. *Br Med J* 1968;3: 267-72.
7. Batsakis JG, el-Naggar AK, Hicks MJ. Epithelial choristomas and teratomas of the tongue. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993;102:567-9.
8. Bite U, Cramer HM. Mixed heterotopic gastrointestinal and respiratory cyst of the lip: case report and review of the literature. *Plast Reconstr Surg* 1992;90:1068-72.
9. Daley TD, Wysocki GP, Lovas GL, Smout MS. Heterotopic gastric cyst of the oral cavity. *Head Neck Surg* 1984;7: 168-71.
10. Lipsett J, Spamon AL, Byard RW. Embryogenesis of enterocystomas-enteric duplication cysts of the tongue. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993;75:626-30.
11. Gruskin P, Landolfe FR. Heterotopic gastric mucosa of the tongue. *Arch Pathol* 1972;94:184-6.
12. Woolgar JA, Smith AJ. Heterotopic gastrointestinal cyst of oral cavity: a developmental lesion? *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988;66:223-5.