

혀 기저부의 골성 분리종 2예

이건호 · 원호륜 · 구본석 · 장재원*

충남대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Two cases of osseous choristoma on tongue base

Geonho Lee, MD, Ho-Ryun Won, MD, Bon-Seok Koo, MD, PhD, Jae Won Chang, MD, PhD*

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine,
Chungnam National University, Daejeon, Korea

= Abstract =

Osseous choristoma is a rare, benign proliferative osseous lesion, which is defined as the growth of normal tissue in an abnormal location. The etiopathogenesis for its formation is unknown, but various hypotheses have been proposed. Treatment of choice is en-bloc resection, and no recurrence has been reported. Here, we report the two cases of osseous choristoma, presented with a mass on the base of the tongue with/without globus symptom and were treated with surgical excision.

Key Words : Choristoma, Osteoma, Tongue

서론

분리종(choristoma)은 신생물의 성격을 띄지는 않으나 정상적으로는 발생할 수 없는 위치에서 정상 구조를 보이는 조직의 성장으로 정의된다.¹⁾ 구강 내에서 발견되는 분리종은 뼈, 연골, 위장관 점막, 아교 세포(glial tissue) 등 다양한 조직으로 구성될 수 있다.²⁾ 이 중 골성 분리종(osseous choristoma)은 정상 형태를 보이는 성숙한 골성 조직의 성장으로, 골이나 연골 조직이 없는 혀에서 발견되는 경우는 극히 드물다고 알려져 있으며,^{2,5)} 대부분 혀에서 발견되는 경우가 많지만 협점막(buccal mucosa), 치조점막(alveolar mucosa)의 골성 분리종도 보고되었다.^{5,6)} 저자들은 설 기저부에서 발생한 종물을 주소로 내원한

두 명의 환자에서 골성 분리종으로 진단된 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례 1

21세 남자가 수 년 전 발견된 우측 설 기저부의 종물을 주소로 내원하였다. 특별한 증상이 없어서 지켜보던 중에 수 개월전부터 종물의 크기가 증가했다고 하였으며, 구강 검사에서 약 1x0.6 cm 크기의 주변 조직과 경계를 잘 이루고 있는 단단한 무통성 가동성 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 구강 및 인후두의 신체 검사에서 양측 편도비대 외에 다른 이상은 없었으며, 다른 질환의 기왕력은 없었다. 전신마취하에 단극전기소작으로 종물을 절제하였으며, 병변을 제거한 부위에 덱사메타손(dexamethasone) 주입술을 시행했다. 제거한 종물은 단단하였고 주변으로의 침윤은 없었다. 수술 후 병리조직학적 검사에서 정상적인 혀의 점막으로 덮여 있고, 산재된 골모세포(osteoblast)와 함께 하버시안 계통(haversian systems)을 가지고 있는 성숙한 뼈층판(lamella bone)으로 구성된 골성 분리종으로 진단되었다(Fig. 2B & C). 수술 다음날 퇴원하였고, 현재

Received : May 10, 2019

Accepted : May 15, 2019

*Corresponding author: Jae Won Chang, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
School of Medicine, Chungnam National University, 282
Munhwa-ro, Jung-gu, Daejeon 35015, Korea
Tel: +82-42-280-8228, Fax: +82-42-253-4059
E-mail: strive1005@cnuh.co.kr



Fig. 1. Preoperative intraoral finding of case 1. The lesion was about 1x0.6 cm sized round mass on the base of the tongue.

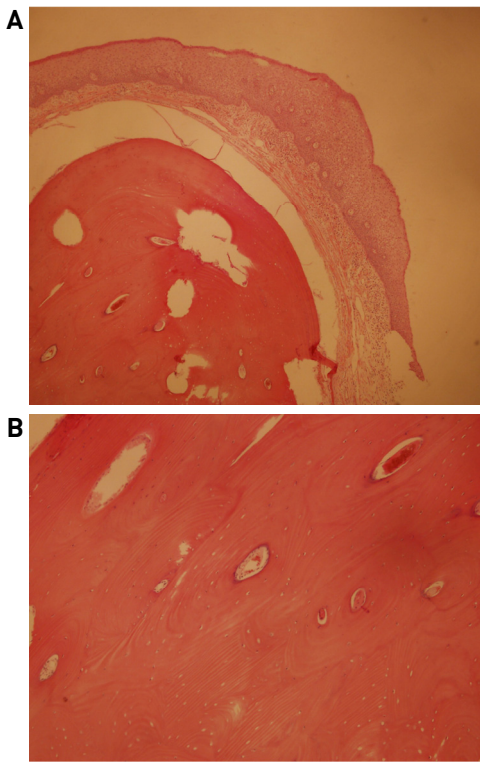


Fig. 2. Postoperative pathologic findings of case 1. The lesion was covered by normal stratified squamous epithelium. (H&E staining, x40)(A) High magnification view demonstrates mature lamellar bone with harvesian systems. (H&E staining, x100)(B). H&E: hematoxylin-eosin.

수술 후 2년째로 재발의 증거는 관찰되지 않고 있다.

증례 2

19세 여자가 3년 전 발견된 우측 설 기저부의 종물을 주소로 내원하였다. 종물로 인한 이물감 외에 다른 증상의 호소는 없었으며, 크기는 서서히 증가했다고 하였다. 구강 검사에서 약 1.5x1.0 cm 크기의 단단한 무통성 고정성 종물이 관찰되었고 주변 조직과는 경계를 잘 이루고

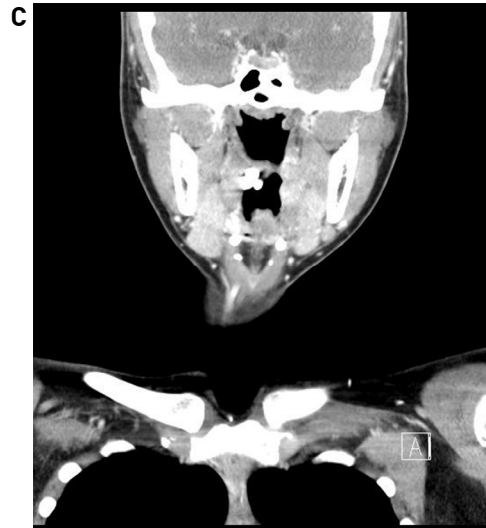
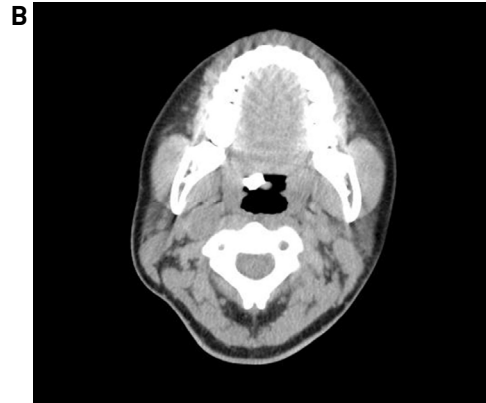


Fig. 3. Preoperative intraoral finding of case 2. The lesion was about 1.5x1.0 cm sized round mass on the base of the tongue (A). Preoperative neck CT findings of case 2. Round shaped, well defined exophytic bony lesion on the right base of the tongue, Axial view (B). Coronal view (C).

있었다(Fig. 3A). 구강 및 인후두의 신체 검사에서 다른 이상은 없었으며, 다른 질환의 기왕력은 없었다. 경부 CT에서 우측 설 기저부에 1.6x1.0 cm 크기의 골음영을 보이는 종물이 관찰되었고, 주변 조직으로의 침윤은 보이지 않았다(Fig. 3B & C). 전신마취하에 단극전기소작으로 종물을 절제하였고, 주변 조직으로의 침윤은 관찰되지 않았다. 수술 후 병리조직학적 검사에서 골성 분리종으로 진단되었다. 수술 다음날 퇴원하였고, 현재 수술 후 2년 3개월째로 재발의 증거는 관찰되지 않고 있다.

고찰

혀에서 발견된 골성 병변은 Monserrat 등⁷⁾에 의해 혀의 골종(lingual osteoma)으로 처음으로 기술되었으나, 이후 Krolls 등¹⁾이 병변의 위치, 기원 및 병리조직학적 특성을 고려하여 골성 분리종(osseous choristoma)으로 부르는게 타당하다고 주장하였다. 하지만, 아직까지도 혀의 골성 병변에 대해 골종, 골성 분리종으로 혼재되어 명명되고 있으며 임상적, 조직학적 특징 및 병인에 대한 가설 등에 일관된 견해가 없고, 일부 병변은 분리종이 아닌 신생물의 형태를 띠기도 한다는 점에서 분리종으로 부르기에 적절하지 않다는 견해도 있어서 이 범주의 질환에 대해 혀의 골성 중앙성 병변으로 기술하자는 주장도 있다.⁸⁾

골성 분리종은 현재까지도 매우 드문 질환으로 정확한 발생률은 아직까지 잘 알려져 있지 않다. 발병 연령은 5 - 73세까지 다양하지만 환자들의 평균 나이는 20 - 30대로 알려져 있으며 (평균 나이: 28.7세) 여자에서 더 흔한 것으로 알려져 있다(M:F=1:3).^{3,5)} 발생 부위는 대부분 막구멍(foramen cecum)과 성곽 유두(circumvallate papilla) 근처의 뒤쪽 1/3부위로 보고되지만 외측 경계 및 중간 1/3부위에서도 발견되는 경우가 보고된다.^{3,5)} 임상 양상은 병변의 크기 및 발생 부위에 따라 다르지만 무증상의 종물로 발견되는 경우(46%)가 가장 흔하며, 삼킴곤란, 통증, 구역, 구토, 질식감 등의 증상을 호소하는 경우도 있다.^{3,5,9-12)} 본 증례의 경우에는 비슷한 크기의 종물이 같은 위치에서 발생하였으나 첫 번째 증례의 환자는 증상이 없었으며, 두 번째 증례의 환자는 이물감을 호소하였다는 점에서 종물의 크기와 증상이 항상 연관되어 있지는 않은 것으로 생각해 볼 수 있다. 현재까지 3 - 50mm의 다양한 크기가 보고되고 있으며, 무경성(sessile) 혹은 경성(pedunculated)의 정상 점막으로 덮여있는 단단한 종괴의 형태로 나타난다.^{2,4)} 병리조직학적으로는 종종 편평상피와 치밀한 섬유 결합조직으로 둘러 쌓여있고 경계가 명확하며 하버시안 계통을 갖춘 잘 조직된 뼈층판으로 구성되어 있으며, 골세포(osteocyte)와 골모세포(osteoblast)도 관찰되나 골모세포의 세포 활성(cellular activity)은 뚜렷하지 않은 것으로 보고된다.^{2,5)}

병인에 대해서는 잘 알려져 있지 않으며 몇 가지 가설이 존재하지만 아직까지 일치된 견해는 없다. 첫 번째 가설은 발생학적 기형 이론으로, 혀의 앞 2/3는 제 1새궁에서, 뒤 1/3은 제 3새궁에서 기원하는데 발달 과정에서 다능성(pluripotential) 중배엽 세포로부터 정상 골조직이 분화되는 과정 중에서 고립된 조직으로부터 분리종이 발생한다는 가설이며, 제 1새궁과 제 3새궁의 결합 부위

인 맹공과 설 분계구(sulcus terminalis)에서 분리종이 많이 발견되는 것으로 뒷받침 할 수 있다.^{5,8,13,14)} 두 번째 가설은 갑상선 조직의 발달과 관련된 이론으로, 맹공에서 발생한 갑상선의 원기(primordium)가 발달 과정에서 경부로 하강하지 못하고 잔류된 조직으로부터 골성 증식성 병변으로 발생한다는 가설이지만 분리종이 중앙부가 아닌 외측 경계에서 발생하는 경우도 보고되고 있어서 이 이론만으로 병인을 설명하기에는 충분하지 않은 것으로 생각된다.^{3,5,8)} 세 번째 가설은 외상에 의해 발생한다는 가설로 연하, 저작 과정 동안 발생하는 외상성 자극으로 인해 국소적인 염증이 반복되어 외상성 골화중심(ossification center)을 형성한다는 이론으로, 다른 부위의 근육에서 외상에 의해 발생하는 골화근육염(myositis ossificans)과 같은 기전 혹은 협점막이나 혀의 앞부분에서 외상성 골화중심을 형성하는 기전을 생각해 볼 수 있겠으나, 분리종의 병리조직에서 잘 조직된 하버시안 계통 및 뼈층판이 관찰되는 것으로 보아 단순히 골화에 의한 병변이라고 설명하기에는 충분하지 않은 것으로 생각된다.^{2,5,8)}

감별해야 할 질환은 발생 부위에 따라서 구분하여 생각해 볼 수 있다. 설 배부에서 발생할 경우 혈관종, 림프관종, 기형종, 과오종, 평활근종 등의 양성 종양 및 갑상선관낭종, 혀 갑상선, 점액낭종, 화농 육아종 등에 대한 감별이 필요하다.¹⁵⁾ 혀 갑상선은 대개 맹공과 후두개 근처에서 발생하며 정중앙에 위치한 적색의 구형 종물로 나타나며, 대부분의 혀의 골성 병변보다 뒤쪽에서 발견된다. 혀 갑상선이 환자가 갖고 있는 유일한 갑상선 조직인데 부주의하게 제거가 되었을 경우에는 갑상선 기능저하증을 유발할 수 있으므로 환자의 갑상선 조직에 대한 평가가 필요하다.⁵⁾ 혀의 경계에 위치할 경우 신경종, 신경섬유종, 신경초종, 섬유종 등의 신경, 연조직 기원의 종양에 대한 감별이 필요하고, 혀의 앞쪽에서 발생할 경우 화농 육아종, 점액낭종, 연골성 분리종 등에 대한 감별을 필요로 하며 최종 진단은 조직학적으로 이루어지게 된다.^{3,5)} 치료는 수술적 절제를 통해 이뤄지며, 재발이나 악성 변화는 보고되지 않고 있다. 본 증례의 환자들 또한 수술적 절제 이후 증상이 호전되어 재발없이 양호한 경과를 보였다. 이에 저자들은 젊은 나이에 인두이물감을 호소하며 종괴가 관찰될 경우 감별진단으로 골성분리종을 고려해야 한다는 점을 상기하기 위해 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) Krolls SO, Jacoway JR, Alexander WN. *Osseous choristomas*

- (osteomas) of intraoral soft tissues. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1971;32(4):588-595.
- 2) Chou LS, Hansen LS, Daniels TE. *Choristomas of the oral cavity: A review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1991;72(5):584-593.
 - 3) Gorini E, Mullace M, Migliorini L, Mevio E. *Osseous choristoma of the tongue: A review of etiopathogenesis. Case Rep Otolaryngol.* 2014;2014:373104.
 - 4) Heinz MJ, Peters SM, Caruana SM, Yoon AJ. *Lingual osseous choristoma of the tongue base: Unusual presentation of a rare entity. Case Rep Otolaryngol.* 2017;2017:3234086.
 - 5) Andressakis DD, Pavlakis AG, Chrysomali E, Rapidis AD. *Infected lingual osseous choristoma. Report of a case and review of the literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2008;13(10):E627-632.
 - 6) Gaitan-Cepeda LA, Quezada-Rivera D, Ruiz-Rodriguez R. *Osseous choristoma of the oral soft tissue. Case report. Med Oral.* 2003;8(3):220-223.
 - 7) Monserrat M. *Osteome de la langue. Bul Soc Annat.* 1913;88:282-283.
 - 8) Vered M, Lustig JP, Buchner A. *Lingual osteoma: A debatable entity. J Oral Maxillofac Surg.* 1998;56(1):9-13.
 - 9) Turan S, Pinarbasli MO, Acikalin M, Kaya E, Ozudogru E. *Lingual osseous choristoma. Turk Arch Otorhinolaryngol* 2016; 54(2):86-88.
 - 10) Yamamoto M, Migita M, Ogane S, Narita M, Yamamoto N, Takaki T, et al. *Osseous choristoma in child with strong vomiting reflex. Bull Tokyo Dent Coll.* 2014;55(4):207-215.
 - 11) Maqbool M, Ahmad R, Ahmad R. *Osteoma of the tongue: A rare cause of upper airway obstruction. Indian Pediatr.* 1992;29(11):1429-1431.
 - 12) Supiyaphun P, Sampatanakul P, Kerekhanjanarong V, Chawakitchareon P, Sastarasadhith V. *Lingual osseous choristoma: A study of eight cases and review of the literature. Ear Nose Throat J.* 1998;77(4):316-318, 320, 325.
 - 13) Begel H, Wilson H, Stratigos G, Zambito RF. *Osteoma of the tongue: Report of case. J Oral Surg.* 1968;26(10):662-664.
 - 14) Engel P, Cherrick HM. *Extraosseous osteomas of the tongue. J Oral Med.* 1976;31(4):99-103.
 - 15) Adhikari BR, Sato J, Morikawa T, Obara-Itoh J, Utsunomiya M, Harada F, et al. *Osseous choristoma of the tongue: Two case reports. J Med Case Rep.* 2016;10:59.