

## 혀에서 발생한 골성 분리종

부산가톨릭의료원 메리놀병원 이비인후과,<sup>1</sup> 인제대학교 의과대학 해운대백병원 이비인후과학교실<sup>2</sup>

한정욱<sup>1</sup> · 임준식<sup>1</sup> · 김용완<sup>2</sup> · 백무진<sup>2</sup>

### Osseous Choristoma on Tongue Base

Jung-Uk Han, MD<sup>1</sup>, Jun-Sick Im, MD<sup>1</sup>, Yong-Wan Kim, MD<sup>2</sup> and Moo-Jin Baek, MD<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Maryknoll Medical Center, Busan; and

<sup>2</sup>Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Inje University College of Medicine, Haeundae Paik Hospital, Busan, Korea

#### — ABSTRACT —

Osseous choristoma is an extremely rare lesion of the oral cavity. It occurs usually in the tongue and exclusively in the flat bones of the skull. It is asymptomatic and only present when there is a disruption in the function of the organ due to its large size as it grows. A 61-year-old female was referred From neurologic department to ENT clinic because of tongue mass found accidentally. We tried surgical excision and the histopathologic report was osseous choristoma. So We report a case of osseous choriostoma with review of the literature. (J Clinical Otolaryngol 2014;25:244-246)

KEY WORDS : Choristoma · Tongue.

## 서 론

분리종은 정상적인 발생 과정 중에는 일반적으로 잘 존재하지 않게 되는 기관에 위치하게 되는 정상 조직을 말하며 이는 발생과정에서 정상세포의 과도한 성장으로 발생하는 과오종(harmartoma)과는 다르다.<sup>1)</sup> 골성 분리종은 피부와 같은 연부조직이나 구강 점막에서 정상적인 뼈의 종말이 발생하는 것을 말한다.<sup>2)</sup> 전세계적으로 혀에 발생한 골성 분리종은 수십례 정도만 보고되며 국내에서는 설기저부에 발생한 골성 분리종을 보고한 예는 소수에 불과하다.<sup>3,4)</sup>

과하다.<sup>3,4)</sup>

저자들은 우연히 혀에서 발생한 골성 분리종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

61세 여자 환자로 신경과에서 두통을 주소로 시행한 경동맥 컴퓨터단층촬영을 시행하였으며 우연히 설기저부 우측 후방으로 1 cm 이하의 원형의 경계가 분명한 석회화 소견이 있어 이비인후과로 협진 의뢰가 되었다.

이학적 소견상 혀의 맹공 앞쪽 우측 부위에 1 cm 이하의 구형의 단단한 종괴가 돌출되었으며 점막은 정상이었다(Fig. 1). 종괴 주위에 염증은 없었으며 동통 및 이물감이나 연하장애도 없었으며 내시경상 인두 및 후두는 정상이었다.

과거력, 가족력 및 다른 특이 소견은 없었으며 술전 갑상선 기능검사 및 초음파 검사에서도 정상이었다.

논문접수일 : 2014년 5월 30일

논문수정일 : 2014년 6월 16일

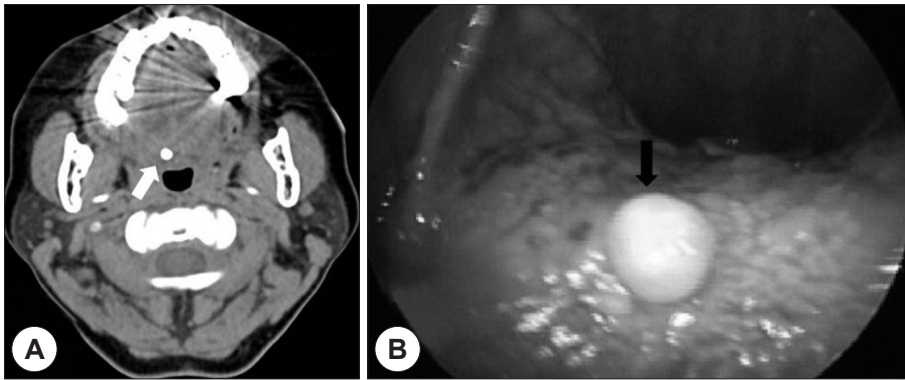
심사완료일 : 2014년 8월 21일

교신저자 : 백무진, 612-896 부산광역시 해운대구 해운대로

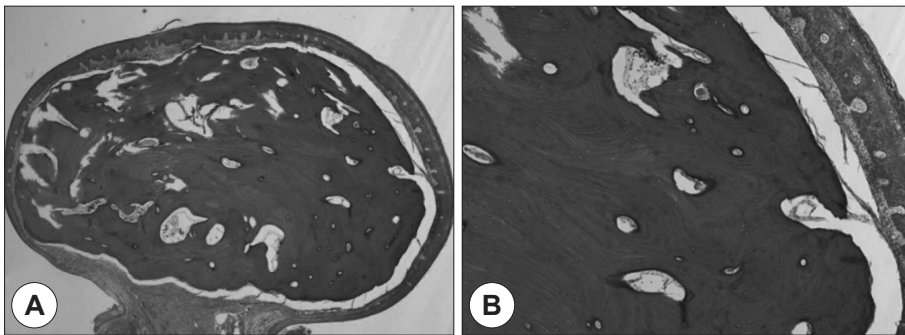
875 인제대학교 의과대학 해운대백병원 이비인후과학교실

전화 : (051) 797-1609 · 전송 : (051) 797-2290

E-mail : mjbaek@inje.ac.kr



**Fig. 1.** A : Preoperative CT scan shows a well circumscribed round calcified lesion (white arrow). B : Preoperative endoscopic finding shows a lingual osseous choristoma in close proximity to the foramen cecum (black arrow).



**Fig. 2.** Histopathology of specimen shows mature lamellar bone under stratified squamous epithelium cell (A : H-E  $\times$  40, B : H-E  $\times$  100).

병변 제거 및 조직학적 진단을 위하여 전신마취하에 수술을 시행하였으며 구강을 통하여 설기저부 점막을 박리한 후 종괴를 완전 적출하였다. 종괴는 주위조직과의 유착 없이 잘 박리되었으며 병리 조직학적 검사상 종괴의 표면은 중층 편평상피로 둘러 쌓여 있고 뚜렷하게 구분되며 내부는 성숙된 골조직이 있어 골성 분리종으로 확진받고 6개월째 합병증이 없이 외래 경과 관찰중이다(Fig. 2).

## 고 찰

분리종이란 정상적인 세포들이 종양처럼 덩어리를 형성하여 조직학적으로 신생물의 성격을 띄지는 않으나, 정상적으로는 그 부위에서 발견될 수 없는조직으로 이루어진 일종의 양성 종양이다.<sup>2)</sup>

분리종은 그 위치에 따라 침샘, 연골성, 골성, 설갑상선, 위점막 분리종으로 분류 될 수 있으며 두경부 영역에

서 발생하는 경우는 드물다.<sup>5)</sup>

Kroll 등이 처음으로 구강내 골성 분리종을 소개하였으며 대부분 혀의 맹공이나 유곽유두 근처에서 발견되며 드물게 혈점막, 이하부, 저작근, 악하부에서 발견된다.<sup>6)</sup>

구강내 발생한 39명의 골성 분리종을 분석한 결과 94%에서 유곽유두나 설맹공 근처에서 발견되었으며 6%에서 하악골의 치조돌기(alveolar process)나 상협전정(buccal vestibule)에서 발견되었다.<sup>7)</sup>

보고에 따라 차이가 있지만 여성이 남성에 비해서 3~4배 더 많이 발생하며 절반 이상이 20~30대에 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>2,8)</sup>

크기는 4 mm에서 가장 크게는 25 mm까지 다양하다.<sup>2)</sup>

혀에 생긴 골성 분리종은 대부분 무증상이며 목에 덩어리 느낌, 연하곤란, 헛구역질, 오심, 목 작열감, 코골이 등의 증상이 있기도 한다.<sup>1,2)</sup> 하지만 반드시 크기와 증상과는 상관관계가 있는 것은 아니며 가장 큰 2.5 cm을 가

진 환자는 무증상이지만 0.7 cm의 크기를 가진 환자는 목에 덩어리 느낌을 호소하기도 한다.<sup>1)</sup>

발생원인은 명확하지는 않지만 크게 발달 과정 이론과 외상 후 이론이 있다.<sup>2,9)</sup>

혀는 발생학적으로 매우 복잡한 구조로 앞쪽 2/3에서는 제 1새궁에서 기원하며 뒤쪽 1/3은 제 3새궁에서 기원하여 맹공 주위에서 결합이 일어난다. 각각의 새궁은 중이내 이소골이나 설골처럼 정상 골성 구조를 만드는데 이 새궁에서 다분화성 세포가 골성 분리종을 만드는데 기원이 되는 것으로 생각된다.<sup>2)</sup>

또한 발달 과정중 맹공이 하강하여 갑상선이 되는데 사춘기나 청소년기때 하강하지 못한 갑상선 조직이 골성 분리종을 만들기도 한다.<sup>2)</sup>

한편 혀의 후방 1/3은 연하운동 및 발음운동 같은 다양한 혀 움직임으로 인해 끊임없이 자극을 받으며 빈번한 외상 및 국소 염증으로 인해 칼슘 침착이나 조직의 비대가 나타나며 이로 인해 골화성 근염(myositis ossificans)으로 불리는 근골격계 변화가 나타나며 그 결과 골성 분리종이 생성될 수 있다.<sup>2,10)</sup>

진단은 컴퓨터단층촬영을 통해 가능하며 경계가 명확한 등근 방사선 비투과성 석회화 병변이 관찰되면 가능하다.

확진은 조직학적 검사를 통해 정상 혀 점막과 유사한 중층편평상피로 싸이고 주위 조직과 구분이 잘되는 Haversian 관이 발달된 성숙한 망상 골부가 있으면 가능하고 골아세포(osteoblastic cell)나 파골세포(osteoclastic cell)은 없다.<sup>1)</sup>

감별진단으로 갑상선관 낭종, 타액선 종양, 섬유종, 지방종, 신경성 종양, 거대세포 종양, 석회화된 림프절 등이 있으며 조직검사를 통해 감별이 가능하다.<sup>1)</sup>

특히 병변이 맹공주위에 있을 때 혀에 발생한 이소성 갑상선일 가능성이 있기 때문에 수술전에 갑상선 기능 검사 및 갑상선 스캔을 해야하며 이소성 설 갑상선은 설 골성 분리종보다는 약간 후방에 즉 맹공과 후두덮개 사이에 위치하며 붉은 색 형태를 보이는데 차이가 있다. 병변이 혀의 앞쪽 가쪽에 위치하고 있으면 섬유종, 육아종, 신경종 등과 감별이 필요하며, 혀의 복측(ventral side)에 생겼다면 타액선 종양, 지방종, 신경종 등과 감별이 필요하며 유경성 사마귀 모양이라면 유두종과 감별이 필요하다.<sup>11)</sup>

치료는 외과적 절제를 통한 완전 절제를 시행하며 재발이 된 경우와 다른 부위로 전이된 적은 없으므로 완전히 적출 후 장기간의 추적관찰은 필요 없다.<sup>2)</sup>

## 결론

우연히 발견된 무증상의 설기저부 골성 분종은 아주 드문 질환이지만 다른 질환과 감별이 필요하므로 반드시 외과적으로 완전 절제를 통해 조직검사를 시행하였고 병리조직결과 골성 분리종으로 진단되었기에 문헌 고찰과 함께 보고하였다.

중심 단어 : 분리종 · 혀.

## REFERENCES

- 1) Supiyaphun P, Sampatanakul P, Kerekhanjanarong V, Chawakitchareon P, Sastarasadhit V. *Lingual osseous choristoma: a study of eight cases and review of the literature. Ear Nose Throat J* 1998;77(4):316-25.
- 2) Benamer MH, Elmangoush AM. *Lingual osseous choristoma case report and review of literature. Libyan J Med* 2007;2(1):46-8.
- 3) Kim YH, Kim DY, Kim WS, Hong WP. *A case of choristoma of tongue base. Koeran J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1997;40(9):1357-60.
- 4) Kim YS, Park MK, Park CK. *A case of lingual osseous choristoma. Koeran J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1999;42(2):255-7.
- 5) Kamburoglu K, Ozen T, Sençimen M, Ortakoglu K, Günhan O. *Osseous choristoma of the submandibular region: case report. Dentomaxillofac Radiol* 2009;38(7):489-92.
- 6) Krolls SO, Jacoway JR, Alexander WN. *Osseous choristomas (osteomas) of intraoral soft tissues. Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1971;32(4):588-95.
- 7) Chou LS, Hansen LS, Daniels TE. *Choristomas of the oral cavity: a review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991;72(5):584-93.
- 8) Lin CC, Chen CH, Chen YK, Shen YH, Lin LM. *Osseous choristoma of oral cavity--report of two cases and review of the literature. Kaohsiung J Med Sci* 1998;14(11):727-33.
- 9) Naik VR, Wan Faiziah WA, Musa MY. *Choristoma of the base of the tongue. Indian J Pathol Microbiol* 2009;52(1):86-7.
- 10) Kim HJ, Hong JE, Heo JH, Yoo CK. *A case of osteoma of the tongue. J Clinical Otolaryngol* 2009;20(1):110-4.
- 11) 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):E627-32.